

# 갑상선 내 갑상설관낭종 1례

경상대학교 의과대학 이비인후과교실<sup>1</sup>, 건강과학원<sup>2</sup>, 병리과교실<sup>3</sup>, 소아청소년과교실<sup>4</sup>

김대환<sup>1</sup>, 강민지<sup>1</sup>, 김진평<sup>1,2</sup>, 이종실<sup>3</sup>, 서지현<sup>4</sup>, 박정제<sup>1,2</sup>

## A Case of Intrathyroid Thyroglossal Duct Cyst

Dae Hwan Kim<sup>1</sup>, Min Ji Kang<sup>1</sup>, Jin Pyeong Kim<sup>1,2</sup>, Jong Sil Lee<sup>3</sup>, Ji Hyun Seo<sup>4</sup> and Jung Je Park<sup>1,2</sup>

Department of Otorhinolaryngology<sup>1</sup>, Institute of Health Sciences<sup>2</sup>, Departments of Pathology<sup>3</sup> and Pediatrics<sup>4</sup>, School of Medicine, Gyeongsang National University, Jinju, Korea

An intrathyroid thyroglossal duct cyst (TGDC) presented as an anterior neck mass in a 62-year-old male without history of prior thyroid disease or infection. This cyst was clinically indistinguishable from a thyroid nodule. In addition to that, fine needle aspiration cytology revealed normal-looking squamous cells. Diagnosis, work-up, management approach, and treatment of intrathyroid TGDC are discussed as well as distinguishing features between intrathyroid TGDC with tract and without tract. This is the very rare case of intrathyroid TGDC in Korean population and the possibility of intrathyroid TGDC should remain in the differential diagnosis of thyroid nodule.

**Key Words:** Thyroglossal duct cyst, Thyroid gland, Neck

### 서론

갑상설관은 태아기의 갑상선 발생에서 갑상선이 하강할 때 존재했다가 퇴화되는 구조물로, 성인의 약 7%에서 갑상설관이 잔존한다고 알려져 있다.<sup>1)</sup> 갑상설관낭종은 퇴화되지 않은 갑상설관 상피세포 잔유물에서 발생한다. 갑상설관낭종은 경부에서 발견되는 선천 기형으로, 선천 경부 종괴의 약 70%를 차지한다.<sup>2)</sup>

갑상설관낭종은 갑상설관이 존재했던 정중선인 설골 하부에서 발견되는 경우가 65%로 가장 많고, 설골상부 20%, 설골부에 15%로, 설골 주위 정중선에 있는 경부 낭종은 갑상설관낭종을 의심해야 한다. 갑상설관낭종의 10-29%는 정중선이 아닌 외측으로 치우친 곳에서도 발견되며, 드물게는 혀 속(2%), 흉골 직상부(10%)에서도 발견된다.<sup>3)</sup> 갑상선 내 갑상설관낭종은 매우 드물며, 국내에서는 단 1례가 병리학회지에 보고되어 있

고,<sup>4)</sup> 국외에서도 10례 가량 보고되었다.<sup>5-12)</sup> 갑상설관과 연결이 되어 있는 경우는 갑상선 내 갑상설관낭종을 의심할 수 있으나 갑상설관과 연결되어 있지 않은 경우는 갑상선 내 결절로 조직병리학적으로 확진을 하게 된다.<sup>10)</sup>

저자들은 좌측 갑상선 내 종물을 주소로 온 성인 남자에서 갑상설관과 연결이 없는 갑상선 내 갑상설관낭종을 수술적 제거 후 조직병리학적으로 진단하였기에 문헌 고찰과 함께 증례보고를 하고자 한다.

### 증례

62세 남자가 10일 전부터 점점 커지는 전경부종물을 주소로 왔다. 삼킴 시 이물감은 있으나 통증, 호흡곤란, 연하곤란, 연하동통, 또는 체중 감소는 없었다. 과거 병력에서 갑상선질환이나 갑상선 외상력은 없었고, 갑상선질환의 가족력도 없었다. 진찰에서 삼킴 시 위, 아래

Received August 9, 2018 / Revised October 26, 2018 / Accepted October 29, 2018

Correspondence: Jung Je Park, MD, PhD, Department of Otorhinolaryngology, Gyeongsang National University Hospital, 79 Gangnam-ro, Jinju 52727, Korea

Tel: 82-55-750-8698, Fax: 82-55-759-0613, E-mail: capetown@gnu.ac.kr

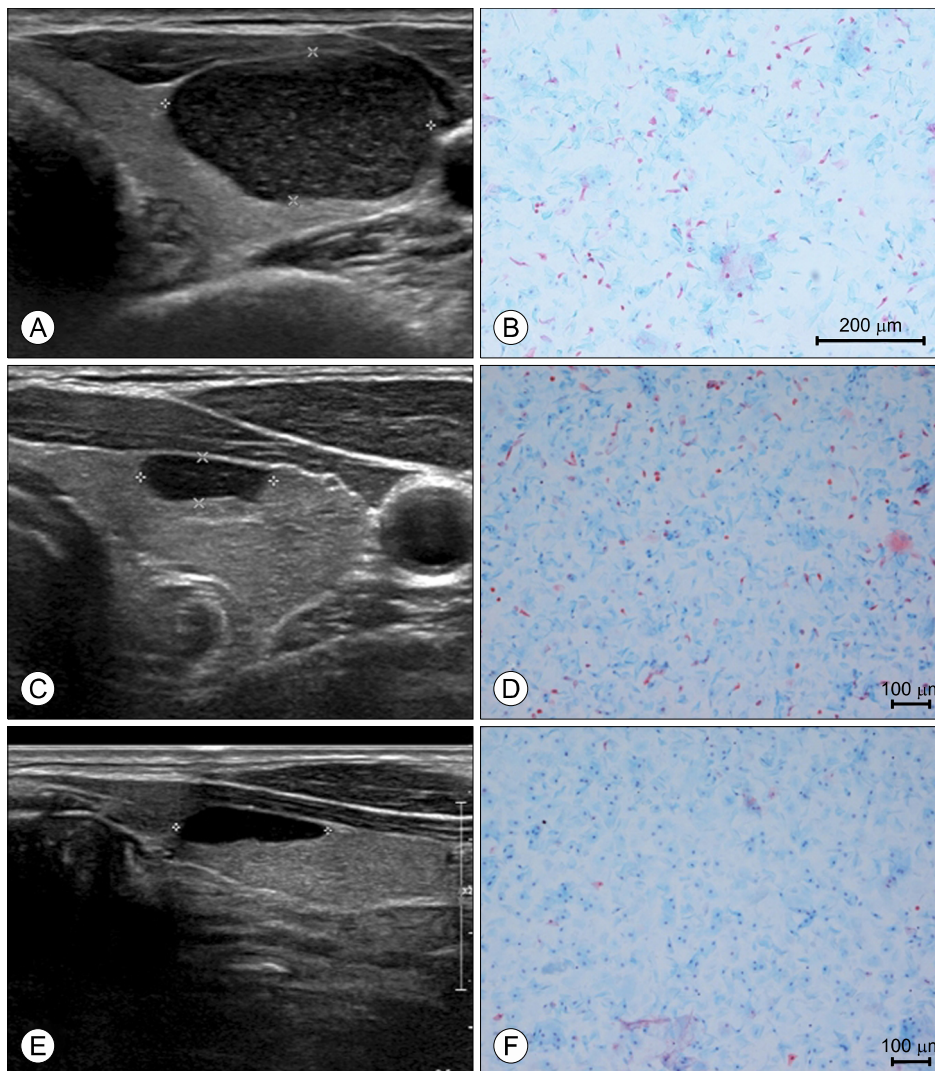
Copyright © 2018, the Korean Thyroid Association. All rights reserved.

© This is an open-access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/4.0/>), which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

로 움직이는 좌측 갑상선 옆 위치에 약 3 cm 크기 둥근 모양의 부드러운 종괴가 촉지되었다. 종괴 부위 피부의 발적은 관찰되지 않았고 촉지 시 변동(fluctuation)이나 압통은 없었다. 주위 경부림프절도 만져지지 않았다. 갑상선기능검사서 혈중 갑상선자극호르몬(thyroid stimulating hormone, TSH), free thyroxin, total T3, 전 T4 모두 정상이었다. 갑상선 초음파검사서 좌측 갑상선에 약 2.2×1.2×3.0 cm 크기의 낭종이 관찰되어 초음파유도하 세침흡인술을 시행하였다(Fig. 1A). 흡인 시에 끈적한 초콜릿색 흡인물을 4 cc 흡인하였고, 세포병리검사서 세포는 관찰되지 않았다(Fig. 1B). 낭종이 작아지고 삼킴 시 이물감과 종괴가 만져지지 않아 경과 관찰하기로 했다. 3개월 뒤에 시행한 갑상선 초음파검사서 이전보다 작아진 0.7×0.2×0.8 cm 크기의 낭종이 관찰되어 다시 초음파유도하 세침흡인술을 시행하였다. 세포병리검사서 not diagnostic, keratin

and a few reactive squamous cells 소견을 보여 1년에 한번씩 갑상선 초음파검사 필요성을 설명하고 주기적으로 외래에서 관찰하였다. 1년 뒤 시행한 갑상선초음파 검사서 0.9×0.3×1.8 cm로 낭종 크기가 증가하고 안쪽에 석회화 소견이 관찰되어(Fig. 1C) 다시 초음파유도하 세침흡인술을 시행하였고, 세포병리검사 결과는 not diagnostic, many benign-looking squamous cells only (Fig. 1D)였다. 다시 1년 뒤 시행한 갑상선 초음파검사서 0.9×0.3×1.6 cm 크기로 같은 위치에 석회화가 동반된 낭종이 관찰되었다(Fig. 1E). 다시 초음파유도하 세침흡인술을 시행하였고, 세포병리검사서 nondiagnostic, few follicular cells (Fig. 1F)로 진단되어 낭종의 완전 제거를 위해 좌측 갑상선 및 추체엽절제술을 계획하였다.

수술 전 시행한 경부 전산화단층촬영에서 좌측 갑상선 내 저음영의 1 cm 크기의 결절(Fig. 2A, B)이 관찰되



**Fig. 1.** Thyroid ultrasound images and ultrasound guided fine-needle aspiration (FNA) image of left thyroid gland. 2.2 × 1.2 × 3.0 cm sized predominantly cystic lesion (A). This FNA image is only liquid-based acellular specimen (B). After 1 year, 0.9 × 0.3 × 1.8 cm sized cystic lesion with calcified debris (C). Only visible many benign-looking squamous cells (D). After 2 years, 0.9 × 0.3 × 1.6 cm sized predominantly cystic lesion with calcified debris (E). This FNA image is visible few follicular cells (F).

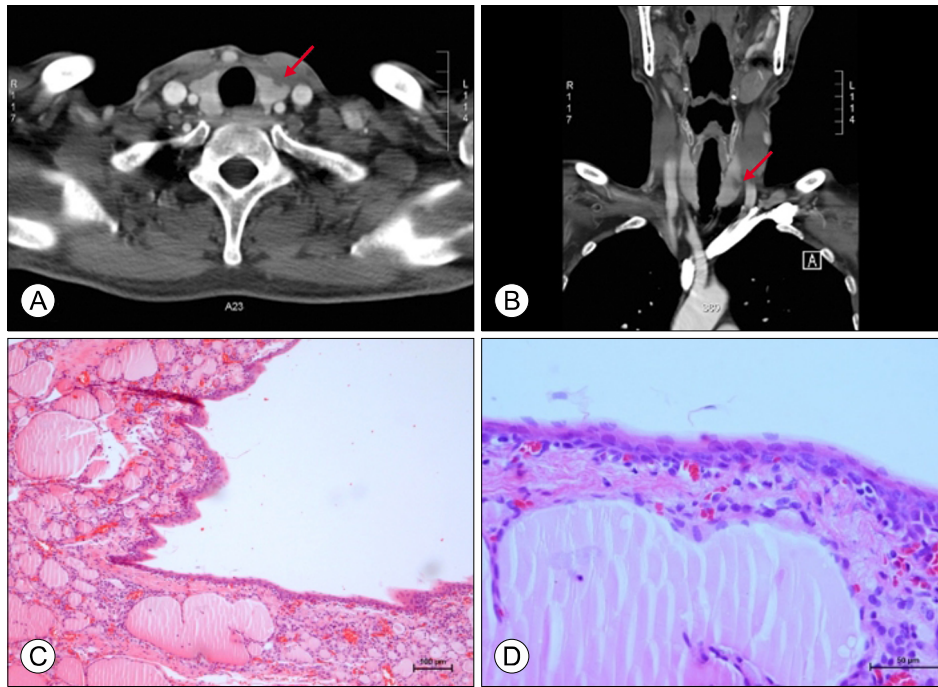


Fig. 2. Computed tomography and light microscopic image of pathologic specimen. The hypodense lesion (white arrows) is located in the left thyroid gland. (A) Axial view, (B) Coronal view. Histopathological examination, Hematoxylin-Eosin staining (H&E staining); the thyroid nodule showed the squamous epithelium lining and pseudo-stratified ciliated columnar cells with thyroid follicles in the surrounding colloid. (C) (x 100), (D) (x 400).

었다. 전신마취 하에 좌측 갑상선과 추체엽절제술을 시행하였고, 좌측 갑상선은 주변부에 유착이 없어 잘 박리되었다. 절제된 좌측 갑상선에서 1 cm 크기의 낭종이 관찰되어 동결절편검사를 시행했다. 동결절편검사에서 갑상선관낭종이 의심되는 낭종으로 초콜릿 색깔의 끈적한 액이 들어있음이 보고되었다. 절제된 추체엽 상부와 설골과의 연결(tract)이 없음을 확인하고 수술을 종료하였다.

병리조직학적 검사 결과에서 정상 갑상선 조직 내부에 콜로이드를 함유하고 있는 비각질 편평상피세포로 둘러싸인 1 cm 크기의 갑상선관낭종으로 확인되었다 (Fig. 2C, D). 환자는 수술 관련 합병증 없이 건강한 상태로 퇴원하였다. 수술 후 14개월까지 재발 및 특이소견 없이 경과관찰 중이다.

## 고 찰

본 증례에서는 좌측 갑상선 내 낭종을 주소로 갑상선결절을 의심하여 초음파검사 및 세포병리검사를 시행하였다. 그러나, 3회 연속으로 세포병리학적으로 진단이 확실하지 않고 병변의 크기는 잠시 작아졌으나 다시 커지는 소견을 보여 정확한 병리학적 진단 위해 수술을 시행하였다. 수술 후 시행한 병리학적 검사에서 갑상선 내 편평상피세포로 둘러싸인 갑상선관낭종으로 확인되었다.

갑상선관낭종의 치료는 낭, 관을 포함하여 설골의 중심부 1.5-2 cm 폭을 포함하여 일괄 절제하는 Sistrunk 술식이다. Sistrunk 술식을 시행하기 전에는 재발률이 50% 이상이였지만, Sistrunk 술식 이후로는 3-5%로 감소된 것으로 보고되고 있다.<sup>13)</sup>

갑상선 내 혹은 주변에 발생한 갑상선관낭종의 증례에서 McHenry 등<sup>5)</sup>의 보고에서는 좌측 갑상선 앞쪽에 붙어 있는 갑상선관낭종이 확인되어 갑상선절제 없이 Sistrunk 술식으로만 제거하였다. Sonnino 등<sup>6)</sup>은 갑상선결절로 오인한 갑상선 내 갑상선관낭종의 2례를 보고하였는데, 1례에서는 갑상선관이 확인되어 갑상선반절제술 시행 후 Sistrunk 술식도 같이 시행하였고, 다른 1례에서는 갑상선관이 확인되지 않아 단순 종물절제술만 시행하였다. Johnston 등<sup>7)</sup>의 증례에서도 갑상선관이 확인되지 않은 갑상선 내 갑상선관낭종으로 Sistrunk 술식 없이 갑상선반절제술만 시행하였다. 본 증례에서도 갑상선관낭종은 갑상선 내부에 국한되어 있었으며, 주변에 어떠한 흔적(tract)도 확인되지 않아서, Sistrunk 술식을 제외한 일측 갑상선절제술 및 추체엽절제술을 시행하였다.

갑상선 내 갑상선관낭종에 대한 문헌 검색(Pubmed)에서 intrathyroid thyroglossal duct cyst, intra thyroid thyroglossal duct cyst, atypical thyroglossal duct cyst로 검색하였고 총 8개의 논문, 11례가 확인되었다. 국내 학회지에는 1례가 보고되었다. 보고된 12례와 본 논문

Table 1. Summary of cases of intrathyroid TGDC

Case	Age/Sex (years)	Symptom	Preoperative fine needle aspiration cytology	Thyroglossal duct tract	Operation	Sistrunk procedure	Recurrence
1. <sup>4)</sup>	41/F	Ant. neck mass	Acellular specimen	-	Lt. hemithyroidectomy	-	?
2. <sup>5)</sup>	9/M	Lt. neck mass	Normal appearing squamous epithelial cells and keratinaceous material	+	Mass excision	+	?
3. <sup>6)</sup>	4/F	Rt. thyroid nodule		+	Rt. hemithyroidectomy	+	-
4. <sup>6)</sup>	9/F	Lt. thyroid nodule		-	Mass excision	-	-
5. <sup>7)</sup>	10/M	Ant. neck mass	Consistent with a TGDC	-	Lt. hemithyroidectomy, isthmusectomy	-	-
6. <sup>8)</sup>	45/F	Ant. neck mass		-	Lt. hemithyroidectomy	-	?
7. <sup>9)</sup>	50/F	Rt. neck mass	Normal-looking squamous cells	-	Rt. hemithyroidectomy	-	-
8. <sup>10)</sup>	11/M	Rt. neck mass	Cells suggestive of a TGDC	-	Rt. hemithyroidectomy	-	-
9. <sup>12)</sup>	2/M	Rt. neck mass		-	Enucleation	-	?
10. <sup>12)</sup>	10/M	Rt. neck mass	A squamous epithelium	-	Enucleation	-	?
This study	62/M	Ant. neck mass	Benign-looking squamous cells and follicular cells	-	Lt. hemithyroidectomy, isthmusectomy	-	-

Ant.: anterior, F: female, Lt.: left, M: male, Rt.: right, TGDC: thyroglossal duct cyst

에서 소개된 증례를 포함하여 검사 및 치료가 확인 가능한 11례에 대해 분석하였을 때 모든 증례에서 통증 없는 경부종물을 주소로 병원에 내원하였다. 11례 중 7례에서 수술 전 세침흡입검사를 시행하였고 4례에서는 정상 편평세포(squamous cell)가 관찰되었고 2례에서는 갑상선관낭종으로 진단되었으며 1례는 세포가 거의 관찰되지 않아 부적합 검체로 진단되었다. 2례에서는 갑상선관이 확인되어 갑상선반절제술 혹은 종괴절제술과 Sistrunk 술식을 같이 시행하였으며 9례에서는 갑상선관이 관찰되지 않아 Sistrunk 술식 없이 갑상선반절제술 혹은 종괴절제술만 시행하였다(Table 1).

갑상선관낭종은 다양한 장소에서 발생할 수 있으며, 본 증례처럼 갑상선의 낭성 결절이 갑상선관낭종으로 발생한 경우도 드물게 보고되고 있다. 갑상선결절이 있을 때, 세침흡입검사로 진단이 되지 않거나 정상적인 편평세포가 관찰되는 경우는 드물지만 갑상선 내 갑상선관낭종도 감별진단에 포함될 수 있다. 수술 시 냉동조직검사서에서 갑상선 내 갑상선관낭종의 의심이 되면 갑상선관낭종 주변으로 갑상선관 유무를 면밀히 확인해야 하고, Sistrunk 술식을 함께 시행해야 하는지 고려해야 할 것이다.

**중심 단어:** 갑상선관낭종, 갑상선, 경부.

## Acknowledgments

This work was supported by development fund foundation, Gyeongsang National University, 2015.

## References

- 1) Ellis PD, van Nostrand AW. *The applied anatomy of thyroglossal tract remnants. Laryngoscope* 1977;87(5 Pt 1): 765-70.
- 2) Persaud R, Short M, Kothari P, Robinson A. *Thyroglossal duct cyst masquerading as a haematoma. J Laryngol Otol* 2004; 118(3):240-1.
- 3) Athow AC, Fagg NL, Drake DP. *Management of thyroglossal cysts in children. Br J Surg* 1989;76(8):811-4.
- 4) Choi HJ, Jung JH, Yoo J, Kang SJ, Lee KY, Chun CS, et al. *Intra-thyroid thyroglossal duct cyst: A case report. Korean J Pathol* 2007;41(2):132-4.
- 5) McHenry CR, Danish R, Murphy T, Marty JJ. *Atypical thyroglossal duct cyst: a rare cause for a solitary cold thyroid nodule in childhood. Am Surg* 1993;59(4):223-8.
- 6) Sonnino RE, Spigland N, Laberge JM, Desjardins J, Guttman FM. *Unusual patterns of congenital neck masses in children. J Pediatr Surg* 1989;24(10):966-9.
- 7) Johnston R, Wei JL, Maddalozzo J. *Intra-thyroid thyroglossal duct cyst as a differential diagnosis of thyroid nodule. Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2003;67(9):1027-30.
- 8) Huang LD, Gao SQ, Dai RJ, Chen DD, He B, Shi HQ, et al. *Intra-thyroid thyroglossal duct cyst: a case report and review of literature. Int J Clin Exp Pathol* 2015;8(6):7229-33.
- 9) Hatada T, Ichii S, Sagayama K, Ishii H, Sugihara A, Terada

## A Case of Intrathyroid Thyroglossal Duct Cyst

- N, *et al.* *Intrathyroid thyroglossal duct cyst simulating a thyroid nodule.* *Tumori* 2000;86(3):250-2.
- 10) Perez-Martinez A, Bento-Bravo L, Martinez-Bermejo MA, Conde-Cortes J, de Miguel-Medina C. *An intra-thyroid thyroglossal duct cyst.* *Eur J Pediatr Surg* 2005;15(6):428-30.
  - 11) North JH Jr, Foley AM, Hamill RL. *Intrathyroid cysts of thyroglossal duct origin.* *Am Surg* 1998;64(9):886-8.
  - 12) Alvarez Garcia N, Burgues Prades P, Gonzalez Martinez-Pardo N, Simon Portero S, Fernandez Atuan R. *The intra-thyroid thyroglossal cyst in the differential diagnosis of the solitary thyroid nodule: A presentation of 2 cases.* *An Pediatr (Barc)* 2015;82(5):360-1.
  - 13) Pelausa ME, Forte V. *Sistrunk revisited: a 10-year review of revision thyroglossal duct surgery at Toronto's Hospital for Sick Children.* *J Otolaryngol* 1989;18(7):325-33.