A Case of Dual Ectopic Thyroid

Dong Hwan Oh, Young Chang Sim, Jae Hoon Lee, and Ha Min Jeong

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, Wonkwang University College of Medicine, Iksan, Korea

이중 이소성 갑상선 1예

오동환 · 심영창 · 이재훈 · 정하민

원광대학교 의과대학 이비인후과학교실

Received July 21, 2016

Revised September 28, 2016

Accepted October 10, 2016

Address for correspondence

Ha Min Jeong, MD

Department of Otorhinolaryngology-

Head and Neck Surgery,

Wonkwang University

College of Medicine,

895 Muwang-ro, Iksan 54538, Korea

Tel +82-63-859-2543

Fax +82-63-841-6566

E-mail haminj@hanmail.net

Ectopic thyroid is an uncommon status characterized by the presence of thyroid tissue in a site other than in its usual region. It is rare for dual ectopic thyroid to have two ectopic foci simultaneously. Three cases of dual ectopic thyroid have been reported in the Korean literature. Clinically, most cases in ectopic thyroid were noted at adolescence or postpartum due to increased physiologic hormonal demands. Clinical manifestation, thyroid function test, and radiologic imaging should be employed to make a diagnosis and therapeutic plan of this disease. We present a patient with dual ectopic thyroid tissue in the suprahyoid and infrahyoid area without thyroid tissue in its normal thyroid bed.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2018;61(3):148-50

Key Word Ectopic thyroid.

서론

이소성 갑상선은 1869년 Hickman에 의해 처음으로 소개된 선천성 질환으로 갑상선이 기관 앞의 정상위치에 존재하지 않는 경우를 총칭한다.¹⁻³⁾ 발생 부위에 따라 설근부(lingual), 설하부(sublingual), 설골상부, 설골하부로 분류되며 드물게 종격동, 심낭, 기관이나 식도에서도 발생한다.⁴⁾

이중 이소성 갑상선은 두 개의 이소성 갑상선이 서로 다른 곳에 존재하는 것으로 임상적으로 매우 드문 질환이며 해외에서는 37개의 증례가 보고된 바 있다. 국내에서는 15세 여아, 7세 여아, 19세 남아의 증례들이 보고되어 있다.^{2,5-7)}

최근 본 저자들은 3세 남자 환자에서 발생한 이중 이소성 갑상선을 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증례

3세 남자 환아가 3개월 전부터 서서히 커지는 양상의 무통성 전경부 종괴를 주소로 내원하였다. 외래에서 시행한 신체 검사에서 설골 상부 하악골 하부 정중선에 직경 약 1 cm 크기의 가동성의 부드러운 종물이 발견되었다. 그 외 경부의 다른 부분에서는 종물 및 특이소견이 관찰되지 않았으며 후두 내시경검사에서도 구강 및 인후두에서 특이소견은 보이지 않았다. 가족력과 과거력에서 특이사항은 없었다. 이상의 소견으로 저자들은 갑상설관낭종(thyroglossal duct cyst) 의심하에 경부 전산화단층촬영을 시행하였다. 시행한 경부 전산화단층촬영에서 정상적으로 갑상선이 관찰되어야 할 부위에 갑상선이 관찰되지 않으며 설골상부 정중부에 1×0.8 cm 크기의 주위와의 경계가 명확하며 조영증강이 되는 종물이 관찰되었으며 설골하부 부정중부에 2×1.2 cm 크기의 주위와의 경계가 명확하며 조영증강이 되는 종물이 관찰되었다(Fig. 1).

따라서 이소성 갑상선 의심하에 경부 초음파, 갑상선 기능 검사, 핵의학 갑상선 동위원소 검사를 시행하였다. 경부 초음

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.

Fig. 1. Axial view of neck CT scan shows 1×0.8 cm sized well circumscribed solid enhancing mass in suprahyoid area (arrow) (A), axial view of CT scan shows 2×1.2 cm sized well circumscribed solid enhancing mass in infrahyoid area (arrow) (B), coronal view of CT scan of neck shows 2 solid enhancing mass in suprahyoid, infrahyoid area (arrows) (C), thyroid gland does not show in the normal position (D).

Fig. 2. Ultrasonography shows 2 cm sized mass with isoechoogenicity as normal thyroid gland in infrahyoid area.

Fig. 3. Tc-99m pertechnetate thyroid scan shows 2 distinct areas of indeterminate uptake in suprahyoid and functional uptake in infrahyoid regions (arrows). Tc-99m: technetium-99m.

파상에서 전산화단층촬영 소견과 동일하게 설골하부 부정 중부에 2 cm 크기의 정상 갑상선과 동일하게 코 정도를 보이는 경계가 명확한 종물이 관찰되었다(Fig. 2). T3는 1.26 ng/dL(정상치: 0.58~1.59 ng/dL), free T4는 0.85 µg/dL(정상치: 0.70~1.48 µg/dL), 그리고 thyroid-stimulating hormone(TSH)는 6.684 µIU/mL(정상치: 0.35~4.94 µIU/mL)로 측정되어

정상 갑상선 기능을 보이지만 TSH의 경미한 상승이 동반되는 무증상 갑상선 기능 저하증(subclinical hypothyroidism)의 소견을 보였다. Technetium-99m(Tc-99m)을 사용한 갑상선 동위원소 검사상에서는 설골하부에서 functional activity를 보이는 섭취가 관찰되었으며 설골 상부에서는 indeterminate activity를 보이는 섭취가 관찰되었다(Fig. 3). 환자 보호자의 동의가 이루어지지 않아 세침 흡인 세포검사와 같은 침습적 검사는 시행하지 않았다.

이상의 소견으로 설골 상하부로 나뉘어 있는 이중 이소성 갑상선으로 진단되었으며, 현재 약물치료는 시행하지 않으며 외래에서 정기적으로 갑상선 기능검사를 추적관찰 중이다.

고 찰

이소성 갑상선은 1869년에 Hickman에 의해 처음 보고되었으며 첫 증례의 환자는 출생 16시간 만에 설근부 갑상선이 상부 기도 폐쇄를 일으켜 질식사했다. 이소성 갑상선의 유병률은 인구 100000~300000명당 한 명 정도이며, 90% 이상이 설근부에서 발생한다.^{3,5)} 일반적으로 여성에서 유병률이 더 높으며, 갑상선 호르몬 요구가 많아지는 청소년기와, 임신 시기에 발견되는 경우가 많다.²⁾ 이소성 갑상선 환자의 70% 이상이 갑상선 기능 저하증이 동반되며 10% 정도에서는 크레틴병이 발생하기도 한다. 본 증례의 환자 역시 갑상선 기능 저하증이 동반되었다. 하지만 갑상선 기능 항진증의 발생은 드물다고 보고되어 있다.⁸⁾

이소성 갑상선 환자들 중에서도 두 군데의 독립된 이소성 갑상선이 동시에 존재하는 경우는 매우 드물어 세계적으로도 보고된 바가 매우 드물다.⁹⁾ 특이적인 육안적 소견이 없기도 하며, 전정부 종괴의 형태로 발견될 수도 있다. 갑상선 기능 상태 또한 정상, 기능 저하증 등 다양한 형태로 나타나게 된다. 이소성 갑상선은 대부분 설근부와 설골의 상·하부에 발생하

며, 정상 위치에 갑상선이 존재하는 경우는 매우 드물다.¹⁰⁾

환자가 호소하게 되는 증상 또한 다양하게 나타난다. 무증상의 경우도 있을 수 있으며 발생 부위에 따라서 특이적 증상이 발생할 수도 있다. 설근부 갑상선의 형태로 나타날 경우에는 연하 곤란, 혀의 이물감, 발성 장애, 심한 경우에는 호흡 곤란까지도 호소할 수 있으며, 표면의 비대한 혈관으로 인하여 궤양이 발생할 수도 있다.¹¹⁾ 상기 증상 외에도 선종, 과다형성, 염증, 악성변화 등 정상 갑상선에서 발생하는 모든 질환이 이소성 갑상선에서 발생할 수 있다.

정상 갑상선과 비교하여 악성화 정도는 비슷하며 설근부 갑상선의 악성화 비율은 1% 정도로 보고 된다.¹¹⁾ 이소성 갑상선의 확진은 Tc-99m을 이용한 갑상선 스캔을 통하여 이루어지지만 초음파, 전산화단층촬영, 자기공명영상 또한 병변의 위치와 범위를 명확히 하는 데 도움이 된다. 세침 흡인 세포검사 또한 시행해 볼 수 있지만 혈관이 발달해 있는 경우 출혈의 위험이 크다는 단점이 있다. 증상이 없으며, 갑상선 기능이 정상인 환자들은 특별한 치료를 필요로 하지는 않지만, 병변에 대한 경과 관찰 및 갑상선 기능 검사 시행을 위하여 정기적인 추적관찰이 필요하다. TSH의 상승이 나타나며 병변의 비대가 동반된 환자들은 증상 억제를 위하여 갑상선 호르몬의 투여가 필요할 수 있으며, 단기적 추적관찰이 필요하다.⁸⁾

방사성 요오드를 이용한 치료는 병변의 섬유화 및 변성을 유발하여 크기를 감소시키는데 이는 인접 조직 손상 및 통증, 출혈 등의 합병증이 호발하기 때문에 고연령층이나 수술이 어려운 환자에서만 적응이 되고 있으며, 생식능력저하를 일으키는 경우도 있어 소아에서는 금기시된다.³⁾ 약물치료에 반응을 보이지 않으며 기도 폐쇄, 조절되지 않는 출혈이 동반되거나 악성소견이 의심될 때는 외과적 절제 또한 고려해야 한다.¹¹⁾

본 저자들은 전경부 종괴를 주소로 내원한 3세 남자 환자

를 신체 검사, 초음파, 전산화단층촬영, 갑상선 동위원소 검사법을 시행하여 이중 이소성 갑상선으로 진단한 증례를 문헌고찰과 함께 보고하는 바이며, 경부 및 설근부의 종괴를 주소로 내원한 환자를 진료할 때 비교적 흔한 갑상선관낭종 외에도, 이소성 갑상선의 가능성을 항상 염두에 둘 필요가 있다고 사료된다.

Acknowledgments

This paper was supported by Wonkwang University in 2017.

REFERENCES

- 1) Yun JB, Jang HK, Yoo YS. Two cases of lingual thyroid. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2000;43(9):1008-11.
- 2) Kim DY, Yang SH, Song SH, Park JS. Dual ectopic thyroid. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2001;44(10):1120-2.
- 3) Ibrahim NA, Fadeyibi IO. Ectopic thyroid: etiology, pathology and management. Hormones (Athens) 2011;10(4):261-9.
- 4) Kumar Choudhury B, Kaimal Saikia U, Sarma D, Saikia M, Dutta Choudhury S, Barua S, et al. Dual ectopic thyroid with normally located thyroid: a case report. J Thyroid Res 2011;2011:159703.
- 5) Choi JH, Kim DH, Kang HJ, Lee DJ, Lee HM. Dual ectopic thyroid: a case report. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2001;44(8):897-900.
- 6) Lee YW, Kim DH, Kim SG, Lee GH. A case of dual ectopic thyroid. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2009;52(3):276-8.
- 7) Meng Z, Lou S, Tan J, Jia Q, Zheng R, Liu G, et al. Scintigraphic detection of dual ectopic thyroid tissue: experience of a Chinese tertiary hospital. PLoS One 2014;9(4):e95686.
- 8) Sood A, Sood V, Sharma DR, Seam RK, Kumar R. Thyroid scintigraphy in detecting dual ectopic thyroid: a review. Eur J Nucl Med Mol Imaging 2008;35(4):843-6.
- 9) Santangelo G, Pellino G, De Falco N, Colella G, D'Amato S, Maglione MG, et al. Prevalence, diagnosis and management of ectopic thyroid glands. Int J Surg 2016;28 Suppl 1:S1-6.
- 10) Adelchi C, Mara P, Melissa L, De Stefano A, Cesare M. Ectopic thyroid tissue in the head and neck: a case series. BMC Res Notes 2014;7:790.
- 11) Sood A, Kumar R. The ectopic thyroid gland and the role of nuclear medicine techniques in its diagnosis and management. Hell J Nucl Med 2008;11(3):168-71.