

## A Case of Transoral Excision Using CO<sub>2</sub> Laser in Management of Lingual Thyroid with Oral Bleeding

In Sun Ryu and Seung-Ho Choi

Department of Otolaryngology, Asan Medical Center, College of Medicine, University of Ulsan, Seoul, Korea

### 구강 출혈로 발견된 설갑상선에서 CO<sub>2</sub> 레이저를 이용한 경구강 절제술 1예

류 인 선 · 최 승 호

울산대학교 의과대학 서울아산병원 이비인후과학교실

Received August 27, 2009

Revised October 5, 2009

Accepted October 14, 2009

#### Address for correspondence

Seung-Ho Choi, MD

Department of Otolaryngology,  
Asan Medical Center, College of  
Medicine, University of Ulsan,  
388-1 Pungnap-dong, Songpa-gu,  
Seoul 138-736, Korea

Tel +82-2-3010-3710

Fax +82-2-489-2773

E-mail shchoi@amc.seoul.kr

Lingual thyroid is an uncommon developmental anomaly and is the result of failure of the thyroid to descend from the foramen cecum to its prelaryngeal site during embryogenesis. Massive bleeding from a lingual thyroid is an unusual symptom and occasionally fatal. Current surgical treatment options range from tumor extirpation or transposition to excision and reimplantation. The use of CO<sub>2</sub> laser for removal of lingual thyroid offers advantages over traditional surgical managements. We experienced a case of lingual thyroid which was successfully excised via transoral approach using CO<sub>2</sub> laser. We discussed rationale for the use of the CO<sub>2</sub> laser for this lesion.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2010;53:99-102

**Key Words** Lingual thyroid · Laser surgery.

## 서 론

설갑상선은 설맹공과 후두개 사이에서 발생하며 이소성 갑상선의 90%를 차지하나 대략 100,000명당 1명의 비율로 발생하는 비교적 드문 질환이다. 대부분 사춘기나 임신, 월경 등 갑상선 호르몬의 생리적 요구량이 증가되는 시기에 발견되며 여성에서 4~8배 정도로 호발한다.<sup>1,2)</sup> 증상은 주로 설갑상선의 크기에 좌우되며 인후 이물감, 연하장애, 발성장애, 호흡곤란, 심지어 출혈 등을 보일 수 있다.<sup>1)</sup> 설갑상선에서 과도한 출혈이 있는 경우는 소아에서 특히 드물며, 이는 치명적일 수 있다. 저자들은 갑자기 발생한 반복되는 과도한 구강 출혈을 주소로 내원하여 이학적 검사 및 경부 전산화단층촬영, 갑상선 주사검사상 설갑상선을 진단하고 경구강 접근법을 통해 CO<sub>2</sub> 레이저로 절제술을 시행한 설갑상선 1예를 경험하였기에 이에 대한 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

## 증 례

12세 여자 환자로 내원 2일 전부터 발생한 4차례의 구강 출혈을 주소로 방문한 타원 응급실에서 시행한 경부 전산화단층촬영과 갑상선 주사검사상 설갑상선 의심 소견으로 본원을 내원하였다. 전신 소견상 정도의 음성변화 외에 연하곤란, 호흡곤란 등의 증상은 없었다. 과거력 및 가족력상 특이 사항은 없었으며 신체검사상 내원시 활력 징후는 정상이었다. 이학적 검사상 경부 종물이나 정상 위치의 갑상선은 촉진되지 않았으며 구강 내 시진 및 후두경 소견에서 설근부에 점막 표면이 과혈관성을 띠는 3.5×3 cm의 무통성 종물이 관찰되었다(Fig. 1). 일반혈액검사상 헤모글로빈이 9.7 g/dL로 저하되어 있었으나 일반 생화학검사는 모두 정상 범위였으며 갑상선 기능검사상 T3는 121 ng/dL (정상치: 98~180 ng/dL), free T4는 1.1 ug/dL (정상치: 0.8~1.9 ug/dL)는 정상 범위이었으나 갑상선 자극호르몬(TSH)은 6.7 uU/m (정상치: 0.4~5.0 uU/mL), T3-up-take는 121% (정상치: 25~37%)로 증가되어 있었다. 경

부 전산화단층촬영상 정상 위치의 갑상선은 보이지 않았고 3.5×3 cm 크기의 조영 증강이 잘되는 설근부 종물이 관찰되었으며(Fig. 2) 외부 갑상선 주사검사에서 설골 상부에서 동위원소의 집적이 확인되었다. CO<sub>2</sub> 레이저를 이용한 경구강 절제술을 계획하였고 환자의 기도가 좁은 상태라고 판단되어 술 후 일시적으로 발생할 수 있는 호흡 곤란에 대비하기 위하여 비인두 기도 삽관을 시행하였다. 후두미세 현미경하에서 CO<sub>2</sub> 레이저를 이용하여 절개를 가하고 박리 후 피막화된 설갑상선을 완전 적출하였다(Fig. 3). 종괴는 4.2×3.5×3 cm, 30.5 gm 크기로(Fig. 4) 조직검사상 이소성 갑상선으로 확진되었다(Fig. 5).

환자는 술 후 3일째 퇴원하였고 이후 소아과에서 synthroid 150 mcg 투여 중이며 현재까지 합병증이나 설근부의 잔여 조직 소견 없이 28개월째 추적관찰 중에 있다(Fig. 6).

## 고 찰

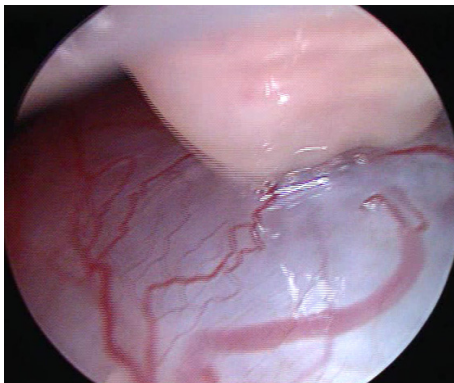
갑상선의 발생은 태생 3~4주에 제1인두구와 제2인두구 사이의 인두 전벽 정중앙에서 생긴 내배엽 개실이 인두벽에 함입된 후 갑상설관으로 연결되면서 이루어진다. 이후 전하부로 이주하여 태생 7주경 정상적인 갑상선의 위치에서 발달을 지속하고 태생 10~12주부터 갑상설관은 퇴화하기

시작한다.<sup>2)</sup> 이러한 과정 중 이상으로 인해 발생하는 이소성 갑상선의 병인론에 대해서는 아직 정확히 밝혀지지는 않았으나 갑상선 형성과 분화, 갑상선 배아의 비정상적 이주에 관여하는 유전인자 변이에 의한 유전적 원인이 보고되었으며, 이러한 유전인자들이 thyroglobulin 및 thyroid peroxidase 관련 유전자에 결합하여 갑상선 호르몬 생성에도 영향을 미치는 것으로 추정되고 있다.<sup>3)</sup>

설갑상선은 대부분 설맹공과 후두개 사이에서 나타나는



**Fig. 3.** Intraoperative findings. After exposure by laryngoscope, the lingual thyroid was excised using CO<sub>2</sub> laser.

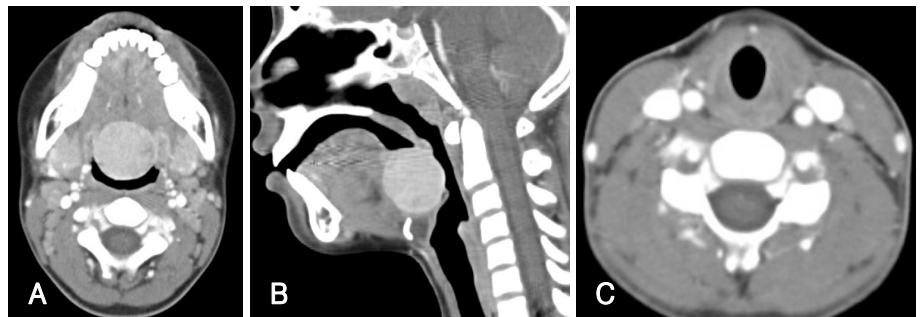


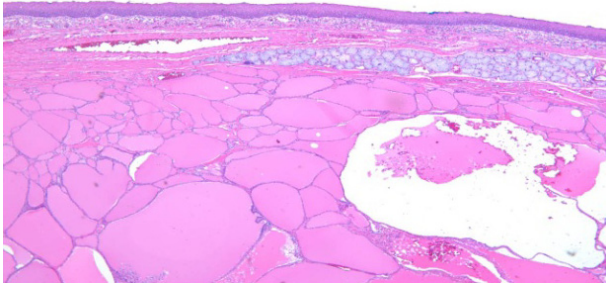
**Fig. 1.** Laryngoscopic finding. It shows 3.5×3 cm sized hyper-vascular mass occupying oropharynx.



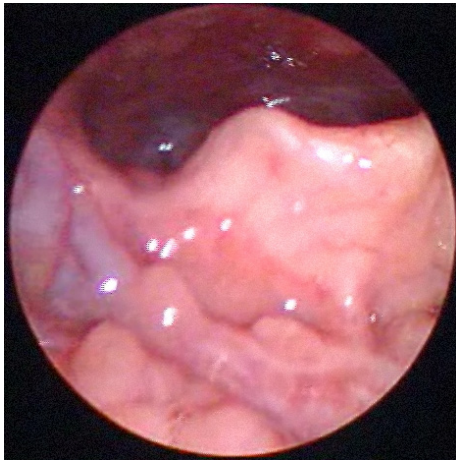
**Fig. 4.** Postoperative specimen. It shows about 4.2×3.5×3 cm sized mass with well developed capsule.

**Fig. 2.** CT scan of neck with contrast (A and C) axial view (B) sagittal view. It shows 3.5×3 cm sized a well-defined, homogeneous, hyperdense mass arising from base of tongue but reveals the absence of thyroid tissue in its normal location.





**Fig. 5.** Histopathologic finding (H&E stain, ×40). It shows numerous colloid-filled follicles with a wide variation in size. The follicles are lined by flattened to cuboidal epithelium and the overlying layer of follicles show minor salivary glands and skeletal muscle bundles.



**Fig. 6.** Laryngoscopic finding of postoperative 16<sup>th</sup> days. It shows clear base of tongue.

적색 종물로 경우에 따라 표재성 과다 혈관 분포가 동반되며 이로 인해 과도한 출혈이 있을 수 있다. 임상 증상이 나타나는 평균 나이는 40.5세이나 통계적으로 12세와 50세에서 주로 정점을 이룬다.<sup>4,5)</sup> 본 증례에서도 사춘기에 접어든 소녀가 갑작스런 출혈로 증상이 나타났었는데, 대부분 이처럼 무증상 상태로 있다가 시기적으로 갑상선 호르몬에 대한 요구량이 증가되면 갑상선 자극 호르몬 분비 증가로 설갑상선 비대 및 동시에 표재 혈관 발달을 초래하게 되고 호흡 곤란과 같은 압박증상과 2차적 궤양으로 인한 출혈, 통증이 동반될 수 있다.<sup>6)</sup> 진단은 Technetium 99 m이나 Iodine 123, Iodine 131 이용한 갑상선 주사검사를 시행하여 확진한다. 그 외 경부 전산화단층촬영으로 병변의 크기와 범위, 경부 자기공명영상으로 주위 연부조직과의 관계가 확인 가능하며<sup>7)</sup> 특히 시상면 영상이 병변의 위치 파악에 유용하다.<sup>8)</sup> 과거에는 설갑상선의 혈관분포 확인을 위해 혈관 조영술을 시행하기도 하였으나 현재는 거의 이용되지 않는다.<sup>9)</sup> 진단을 위한 조직검사는 영상학적 검사상 확인되지 않거나 악성이 의심되는 경우를 제외하고는 시행하지 않

며,<sup>4,5)</sup> 대부분의 환자에서 갑상선 기능이 정상이나 설갑상선의 약 70%가 정상갑상선 조직이 없는 유일 갑상선이므로<sup>1)</sup> 치료 결정 전 갑상선 기능검사 시행이 반드시 필요하다.<sup>7)</sup>

설갑상선의 치료는 환자의 나이, 병변의 크기, 증상 여부, 갑상선 기능 상태 등에 따라 결정된다. 무증상의 정상 갑상선 기능 환자인 경우 지속적인 경과 관찰로 충분하나 경미한 압박증상을 보이는 경우 갑상선을 호르몬 투여하여 갑상선 자극 호르몬에 의한 설갑상선 비대를 억제하는 치료를 일차적으로 고려할 수 있다.<sup>4)</sup> 그러나 이러한 억제요법은 종물의 크기 감소에 많은 시간이 소요되어 억제 요법에도 증상이 진행하거나 출혈이나 호흡곤란과 같이 즉각적인 처치가 필요한 경우에는 방사성 요오드 치료나 수술적 치료를 시행한다.<sup>7)</sup> 방사성 요오드 치료는 종물의 축소가 일정치 않고 치료시 출혈, 통증, 갑상선 기능저하, 악성 갑상선 조직으로의 변화 가능성 때문에 수술이 불가능한 고령자에서 시행되며 임신부, 소아에서는 금기에 해당한다.<sup>10,11)</sup> 수술적 치료는 다양한 방법이 시도되어 왔으나 상세술기에 대해서는 증례가 많지 않아 문헌상 정립되지 않은 상태이다. 접근 방법을 살펴보면 병변이 앞쪽인 경우 주로 시행되는 경구강 접근법은 Doyen mouth gag, 후두경 등을 사용하여 설근부를 노출시킨 후 술자에 따라 레이저, 전기 소작기로 종물을 절제하거나 고주파 침으로 종물의 퇴축을 시도할 수 있다. 이러한 접근법은 반흔을 남기지 않으며 경부 조직 박리를 시행하지 않아 술 후 감염 위험이 낮은 장점을 갖는다. 그러나 종괴가 크거나 후방 혹은 설근부 전체에 위치하는 경우에는 정중앙 설분리 혹은 하악골 분리술을 경구강 접근법과 같이 시행하거나 경부 접근법을 시행할 수 있고, 경부 접근시에는 외측 인두절개술이나 경설골 접근이 적용되며 이 경우 수술 시야 확보 및 지혈에 유리하지만 술 후 타액이 수술 부위로 누출시 인두경피누공의 위험이 있을 수 있다.<sup>12)</sup> 또한 갑상선 기능이 정상이고 설갑상선 조직의 변질이 없는 경우 적출한 갑상선 조직을 경부, 복벽 등 타 부위 근육층에 이식하는 자가이식수술을 시행할 수도 있으며,<sup>8,13)</sup> 외측인두절개술을 통한 설갑상선 전위술이 시도되기도 하나 일반적으로 수술적 절제가 선호된다.<sup>14)</sup> 자가이식 후에도 약 70%에서 호르몬 보조 요법이 필요한 경우가 대부분이고 소아의 경우 갑상선 기능저하는 성장지연으로 연결될 수 있어 술 후 갑상선 기능에 대한 엄격한 모니터링이 필요하다.<sup>2)</sup> 따라서 본 증례에서도 환자는 비교적 정상 갑상선 기능을 하였으나 성장하면서 갑상선 호르몬 요구량의 증가로 보조적 호르몬 요법의 지속을 피할 수 없을 것으로 판단하여 수술 중 자가이식을 시행하지 않았다.

1988년 Maddern 등<sup>15)</sup>이 생후 3개월 된 영아에서 기도

폐쇄를 야기한 설갑상선 치료에 CO<sub>2</sub> 레이저를 처음 시도하였다. 미세 후두 현미경하에 레이저를 이용하면 수술 시야가 비교적 넓어 설근부 미부 쪽으로 위치한 병변도 근치적 절제가 가능하며, 지혈에도 우수할뿐 아니라 술 후 위험률이나 재원 기간 단축에도 큰 장점을 갖는다. 내시경적 레이저 절제에 대한 정확한 적응증은 없으며, 보고자마다 차이는 있으나 대개 2.5~3 cm 정도의 설갑상선에 적용하였음이 보고되어 있고<sup>2,15,16)</sup> 본 증례에서도 이와 유사하게 3.5 cm의 종물을 안전하게 제거 가능하였다. 설갑상선 절제 후 대부분 영구적인 갑상선의 기능소실이 초래되므로 평생 동안 보조적인 호르몬 투여가 필수적이라 할 수 있겠으며 수술 후에도 환자에 대한 지속적인 추적관찰과 정상 갑상선 기능을 유지시켜 주는 것이 필요하다.<sup>7)</sup>

본 증례에서는 설갑상선 기능은 비교적 정상적이었으나 과다 출혈이 반복되어 수술적 치료가 반드시 필요한 경우였고 환자가 12세 여아임을 고려하여 경구강 접근법과 CO<sub>2</sub> 레이저를 사용하여 설갑상선을 완전하게 제거할 수 있었다. 현재까지 국내에는 CO<sub>2</sub> 레이저를 이용하여 설갑상선 절제술을 시행한 보고가 없어 본 증례에 대한 경험과 문헌고찰을 통해 크기가 작은 설갑상선에서 내시경적 레이저 경구강 절제술을 우선적으로 고려해 볼 수 있을 것으로 사료된다.

## REFERENCES

- 1) Kumar R, Sharma S, Marwah A, Moorthy D, Dhanwal D, Malhotra A. Ectopic goiter masquerading as submandibular gland swelling: a case report and review of the literature. Clin Nucl Med 2001;26 (4):306-9.
- 2) Rahbar R, Yoon MJ, Connolly LP, Robson CD, Vargas SO, McGill TJ, et al. Lingual thyroid in children: a rare clinical entity. Laryngoscope 2008;118 (7):1174-9.
- 3) Yoon JS, Won KC, Cho IH, Lee JT, Lee HW. Clinical characteristics of ectopic thyroid in Korea. Thyroid 2007;17(11):1117-21.
- 4) Kansal P, Sakati N, Rifai A, Woodhouse N. Lingual thyroid. Diagnosis and treatment. Arch Intern Med 1987;147(11):2046-8.
- 5) Sauk JJ Jr. Ectopic lingual thyroid. J Pathol 1970;102 (4):239-43.
- 6) Chiu TT, Su CY, Hwang CF, Chien CY, Eng HL. Massive bleeding from an ectopic lingual thyroid follicular adenoma during pregnancy. Am J Otolaryngol 2002;23 (3):185-8.
- 7) Chu HR, Yang SM, Park CH, Kim HU. A Case of Lingual Thyroid Treated by Surgical Excision through Transcervical Approach. Korean J Otolaryngol-Head Neck Surg 2002;45 (6):628-31.
- 8) Williams JD, Sclafani AP, Slupchinskij O, Douge C. Evaluation and management of the lingual thyroid gland. Ann Otol Rhinol Laryngol 1996;105 (4):312-6.
- 9) Banna M, Lasjaunias P. The arteries of the lingual thyroid: angiographic findings and anatomic variations. AJNR Am J Neuroradiol 1990; 11 (4):730-2.
- 10) Park HM, Gupta S, Skierczynski P. Radioiodine-131 therapy for lingual thyroid. Thyroid 2003;13 (6):607.
- 11) Kalan A, Tariq M. Lingual thyroid gland: clinical evaluation and comprehensive management. Ear Nose Throat J 1999;78 (5):340-1.
- 12) Prasad KC, Bhat V. Surgical management of lingual thyroid: a report of four cases. J Oral Maxillofac Surg 2000;58 (2):223-7.
- 13) Arancibia P, Veliz J, Barria M, Pineda G. Lingual thyroid: report of three cases. Thyroid 1998;8 (11):1055-7.
- 14) Rojananin S, Ungkanont K. Transposition of the lingual thyroid: a new alternative technique. Head Neck 1999;21 (5):480-3.
- 15) Maddern BR, Werkhaven J, McBride T. Lingual thyroid in a young infant presenting as airway obstruction: report of a case. Int J Pediatr Otorhinolaryngol 1988;16 (1):77-82.
- 16) Lin WN, Lee LA, Wang CC, Li HY. Obstructive sleep apnea syndrome in an adolescent girl with hypertrophic lingual thyroid. Pediatr Pulmonol 2009;44 (1):93-5.