

A Case of Minimal Invasive Follicular Carcinoma in Childhood

Seong Yong Ahn¹, Yeon Hee Joo¹, Jin Pyeong Kim^{1,2} and Seung Hoon Woo^{1,2}

¹Department of Otorhinolaryngology, ²Institute of Health Sciences, School of Medicine, Gyeongsang National University, Jinju, Korea

소아에서 발생한 미세 침습 여포상 암종 1예

안성용¹ · 주연희¹ · 김진평^{1,2} · 우승훈^{1,2}

경상대학교 의학전문대학원 이비인후과학교실,¹ 건강과학연구원²

Received May 18, 2010

Revised July 30, 2010

Accepted August 25, 2010

Address for correspondence

Seung Hoon Woo, MD
Department of Otorhinolaryngology,
Institute of Health Sciences, School
of Medicine, Gyeongsang National
University, 79 Gangnam-ro,
Jinju 660-702, Korea

Tel +82-55-750-8173

Fax +82-55-759-0613

E-mail lesaby@hanmail.net

Minimally invasive follicular carcinoma is exceedingly rare in children and should be included in the differential diagnosis of thyroid mass. A 2-year-old child visited the hospital with a left neck mass. Ultrasonography showed a 3.5 cm-sized well-defined hypoechoic mass in the left lobe of thyroid gland and fine needle aspiration cytology revealed multiple benign follicular cells and a cluster of giant cell. He underwent left lobectomy and the subsequent histopathologic diagnosis confirmed the minimally invasive follicular carcinoma. He has been followed up for 12 months without any evidence of recurrence.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2011;54:69-72

Key Words Thyroid gland · Follicular carcinoma · Low grade · Minimally invasive · Children.

서론

갑상선 암종 중 여포상 암종(follicular carcinoma)은 전체에서 5~15%를 차지하며, 수술 후 조직병리학적 소견으로 인접한 갑상선 실질 침범 유무에 따라 미세 침습 여포상 암종(minimally invasive follicular carcinoma, MIFC)과 광범위 침습 여포상 암종(widely invasive follicular carcinoma, WIFC)으로 나눌 수 있다.^{1,2)} 미세 침습 여포상 암종을 포함한 갑상선 여포상 암종은 대부분 성인에서 발견되고 소아에서 드물다고 보고되어 있다.³⁾

그러나 소아라도 갑상선 부위에 단독 종괴가 만져질 경우 갑상선 암종을 반드시 감별해야 한다. 하지만 소아의 갑상선 암종은 매우 드물어 15세 이하 악성 종양의 1.5%를 차지하며, 남아보다는 여아에서 2~3배 많이 발생하고 대부분 7세 이후에 발생한다.^{1,2,4-8)}

본 저자들은 2세 소아에서 최소 침습 갑상선 여포상 암종 1예를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

2세 남아가 좌측 전경부 종물을 주소로 내원하였다. 환아는 정상체중의 자연분만으로 출생하였으며 생후 2주에 폐렴으로 일주일 입원한 과거력 외에 특이 소견은 없었다. 신체검사에서 전신상태는 비교적 양호한 상태였으며 3 cm 크기의 단단하고 고정된 종물이 좌측 전경부에서 만져졌다. 압통은 없었고 경부촉진에서 림프절은 만져지지 않았다. 본원에서 시행한 경부 초음파에서 좌측 갑상선엽에 3.5 cm 크기의 저에코성 종물이 관찰되었고 그 외 특이 소견은 보이지 않았다. 세침흡인세포검사의 병리소견은 양성결절 소견에 합당한 다수의 여포세포(follicular cell)가 보였다(Bethesda category II).⁹⁾ 경부 전산화단층촬영에서 3.5 cm 크기의 종물이 갑상선 좌엽에서 관찰되었으며 기도가 우측으로 편위된 소견을 보였다(Fig. 1). 혈액검사는 Free T4 1.38 ng/dL(정상 범위, 0.93~1.70 ng/dL), T3 159.20 ng/dL(정상 범위 80~200 ng/dL), 갑상선 자극 호르몬(TSH) 2.43

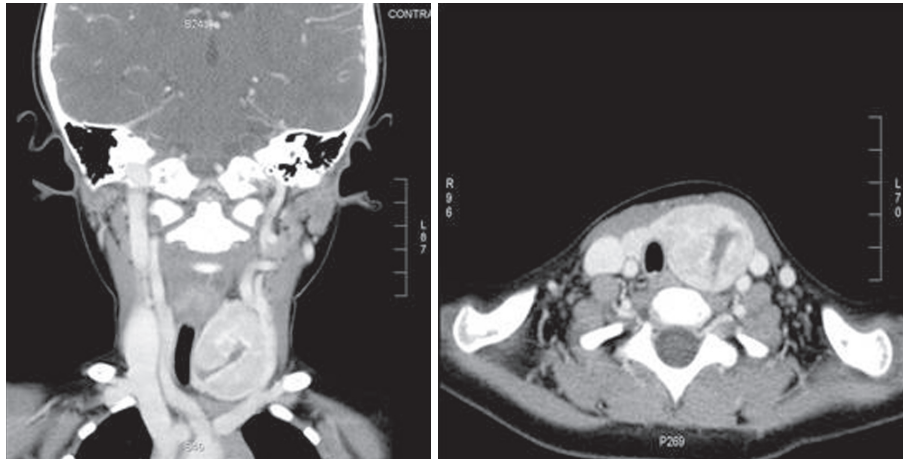


Fig. 1. Enhanced computed tomography show that a 3.0×3.0 cm sized mass in left thyroid and tracheal deviation to right.

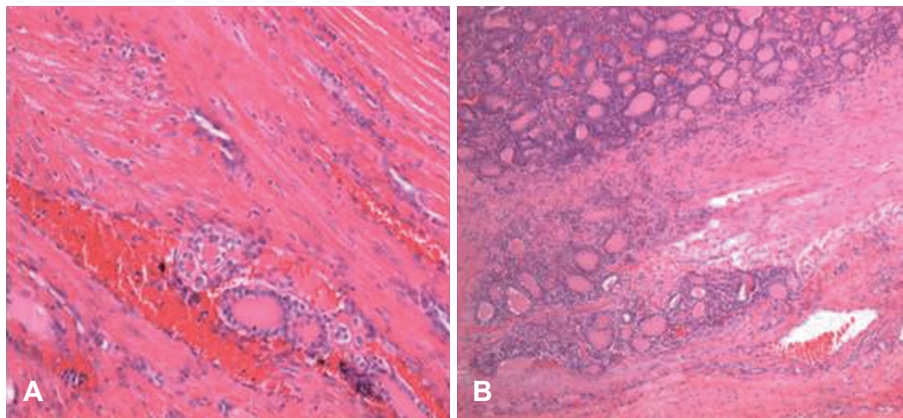


Fig. 2. Evidences of capsular and vascular invasion in a minimally invasive follicular carcinoma of the thyroid gland. Evidence of vascular invasion in a minimally invasive follicular carcinoma of the thyroid gland (H&E ×100)(A), evidence of capsular invasion in a minimally invasive follicular carcinoma of the thyroid gland (H&E ×40)(B).

mIU/L(정상 범위, 0.27~4.2 mIU/L)로 모두 정상 범위였다. 전신 마취 하 갑상선 일엽절제술을 계획하였다. 수술소견으로는 좌측 갑상선엽에 3.5 cm 크기의 가동성의 고형 종물이 관찰되었고, 주위 조직과 유착은 없었으며 쉽게 박리되었다. 수술 시 반회후두신경을 보존하였으나 부갑상선은 확인되지 않았다. 수술 당시 시행한 동결절편조직검사에서 여포선종(follicular adenoma)이라는 진단을 받아 더 이상을 수술은 진행하지 않았다.

술 후 병리조직검사에서 종양이 피막과 혈관을 미세하게 침입하는 소견이 관찰되었으나 갑상선 실질 또는 갑상선 외 조직으로의 침범은 보이지 않아 최소 침습 갑상선 여포상 암종으로 진단되었다(Fig. 2). 환자의 나이가 2세이며 병리 검사가 최소 침습 갑상선 여포상 암종이기에 반대측의 갑상선은 보존하기로 하였다. 환아는 특별한 합병증 없이 수술 후 7일째 퇴원하였으며 수술 후 12개월째 특이소견 없이 외래 경과관찰 중으로 갑상선 기능검사에서 T3 160.8 ng/dL, free T4 1.31 ng/dL, 갑상선 자극 호르몬(TSH) 1.50 mIU/L로 정상 갑상선 기능을 보이고 있다.

고 찰

갑상선 여포상 암종은 갑상선 암종에서 상대적으로 드물어, 전체 갑상선 암종의 2.4~9%를 차지하고, 50~60대의 여성에게서 가장 호발한다.⁴⁻⁷⁾ 소아에서는 발병률이 낮아 모든 소아에서 발생하는 암종의 0.3~1.3%를 차지하고 있으며 성별에 따른 차이는 없는 것으로 보고되고 있다.^{5,6)} 그 중 미세 침습 여포상 암종은 극히 드물어 소아에서 갑상선 여포상 암종으로 진단받은 국내 보고는 있으나 미세 침습 여포상 암종은 국내에 보고된 예가 없다.¹⁰⁻¹⁵⁾

소아 갑상선 암종의 가장 흔한 임상증상은 성인과 마찬가지로 목에서 만져지는 무증상의 단일 결절과 경부 림프선 종대이다. 특정한 원인이 밝혀져 있지 않으나 방사선 조사가 갑상선 암종을 유발한다고 알려져 있으며, 1986년 Chernobyl에서 발생한 원전 사고 이후 5년 내에 요오드 결핍지역에서 사는 소아들에서 갑상선 암종의 현격한 증가는 갑상선 암종과 특정 위험인자와의 관련성을 암시하는 좋은 예이다.⁸⁾ 추가로 여러 소아 종양의 방사선 치료나 화학요법이 발전함에 따라 소아암 환자의 생존율이 좋아지고 이로 인한 이차성 갑

상선 암종도 증가하고 있는 양상이다.⁸⁾ 따라서 경부 방사선 조사의 병력이 있거나 가족력이 있는 경우엔 전경부에 만져지는 단일 결절이 있다면 소아라 하더라도 갑상선 암종을 의심해야 한다. 그리고 병력상 갑상선 결절이 갑자기 커졌거나, 목소리가 쉬고, 연하곤란, 호흡곤란의 압박 증상이 있을 때, 진찰소견상 결절이 단단하고, 주위조직과 유착된 경우 및 림프절 종대가 같이 있는 경우에도 갑상선 암종을 의심해야 한다. 술 전 검사로 시행되는 세침흡인세포검사에서 여포상 암종의 경우, 암종과 선종이 서로 공통되는 세포학적 소견을 보이므로 세침흡인 세포검사로서는 진단이 불가능하고 병리조직 검사에서 피막의 침범이나 혈관의 침범이 확인되어야 확신이 가능하다. 이런 여포상 암종도 두 개의 아형으로 구별되는데 미세침습 여포상 암종(MICF)과 광범위 침습 여포상 암종(WIFC)이다.^{1,2)} 전자의 경우, 혈관이나 피막의 침습이 명백하나 피막에 싸여있는 것이 특징적이나 후자의 경우, 광범위한 혈관 침윤과 함께 인접한 갑상선 실질 내로 침습해있는 소견을 보인다.^{16,17)} 성인의 연구결과에 따르면, 미세침습 여포상 암종은 비교적 양호한 경과를 보이지만, 광범위 침습 여포상 암종은 악성화 경과를 나타낸다.^{16,18)}

분화된 갑상선 암종에 대한 최선책은 수술요법이나, 수술의 범위와 수술 후 보조 요법의 필요성에 대하여는 논란의 여지가 있다. 광범위 침습 여포상 암종과는 달리, 미세 침습 여포상 암종의 경우 성인에서 저위험군에 속하기 때문에 갑상선 일엽절제술이나 갑상선 아전절제술을 권고하고 있다.¹⁹⁾ 하지만, 몇몇 연구에서 미세 침습 여포상 암종이 광범위 침습 여포상 암종으로 변환한다는 보고가 있어 갑상선 전 절제술을 권유하기도 한다.^{20,21)} 그러나 최근의 발표된 다수의 연구에서 갑상선 유두상 암종은 종종 다발성으로 발생하는 반면, 여포상 암종을 분석한 결과 다발성의 빈도가 12% 이하로 현저히 떨어져 갑상선 전 절제술보다는 보다 보존적인 술식인 일엽절제술을 사용해도 될 것이라 주장하고 있다.^{17,22)} 또한, 미세 침습 여포상 암종의 경우 10년 생존율이 약 97.8%로 광범위 침습 여포상 암종의 80%보다 높다고 보고하고 있으며, 또 다른 연구에서 10년 생존율이 98.9%로 보고하는 등 미세 침습 여포상 암종은 좋은 예후를 가지는 것으로 알려져 있다.²³⁾ 따라서 대부분의 미세 침습 여포상 암종은 일엽절제술 후 추가로 갑상선 전 절제술을 필요로 하지 않으며 수술 이후 재발이나 전신전이를 발견할 수 있는 정기적인 경과 관찰만을 하게 된다. 또한 크기가 3 cm 미만인 여포상 암종에서 갑상선 아전절제술과 같은 보존적 치료를 받은 환자 군에서 전신전이가 발생한 경우가 9.5%였다는 연구와 크기에 상관없이 적극적인 갑상선 전 절제술을 받은 환자 군의 전신전이 발생률이 9.4%였다는 연구를 바탕으로 미세 침습

여포상 암종은 보존적인 치료와 정기적인 관찰만으로 충분하다고 할 수 있다.²⁴⁾ 본 증례의 경우 종양의 크기가 3.5 cm 가량 되었으나 환자의 나이가 2세에 불과하고 술 전 시행한 경부 전산화단층촬영과 초음파상 경부 림프절 전이는 발견되지 않았기 때문에 위에 언급한 연구결과를 바탕으로 보존적인 치료인 갑상선 일엽절제술만을 시행하였으며, 외래를 통해 경과관찰을 하고 있다.

본 증례는 2세 환아가 경부 종물을 주소로 내원하여 술 전 검사에서 양성결절이 의심되어 수술을 진행하였으며, 술 후 조직병리검사항 미세 침습 여포상 암종으로 진단되어 갑상선 일엽절제술을 시행한 경우로 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Segal K, Arad-Cohen A, Mechlis S, Lubin E, Feinmesser R. Cancer of the thyroid in children and adolescents. Clin Otolaryngol Allied Sci 1997;22(6):525-8.
- 2) Yip FW, Reeve TS, Poole AG, Delbridge L. Thyroid nodules in childhood and adolescence. Aust N Z J Surg 1994;64(10):676-8.
- 3) Zou CC, Zhao ZY, Liang L. Childhood minimally invasive follicular carcinoma: clinical features and immunohistochemistry analysis. J Paediatr Child Health 2010;46(4):166-70.
- 4) Grebe SK, Hay ID. Follicular thyroid cancer. Endocrinol Metab Clin North Am 1995;24(4):761-801.
- 5) Harness JK, Thompson NW, McLeod MK, Pasioka JL, Fukuuchi A. Differentiated thyroid carcinoma in children and adolescents. World J Surg 1992;16(4):547-53; discussion 53-4.
- 6) Jocham A, Joppich I, Hecker W, Knorr D, Schwarz HP. Thyroid carcinoma in childhood: management and follow up of 11 cases. Eur J Pediatr 1994;153(1):17-22.
- 7) Samuel AM, Sharma SM. Differentiated thyroid carcinomas in children and adolescents. Cancer 1991;67(8):2186-90.
- 8) Suh BK. Thyroid nodules and cancer in childhood. J Korean Soc Pediatr Endocrinol 1999;4(1):19-22.
- 9) Cibas ES, Ali SZ. The Bethesda System for Reporting Thyroid Cytopathology. Thyroid 2009;19(11):1159-65.
- 10) Chang SH, Joo M, Kim H. Fine Needle Aspiration Biopsy of Thyroid Nodules in Children and Adolescents. J Korean Med Sci 2006;21(3):469-73. 10.3346/jkms.2006.21.3.469 [doi].
- 11) Hong EK, Lee JD. A national study on biopsy-confirmed thyroid diseases among Koreans: an analysis of 7758 cases. J Korean Med Sci 1990;5(1):1-12.
- 12) Kim ES, Nam-Goong IS, Gong GY, Hong SJ, Kim WB, Shong YK. Postoperative Findings and Risk for Malignancy in Thyroid Nodules with Cytological Diagnosis of the so-called "Follicular Neoplasm". Korean J Intern Med 2003;18(2):94-7.
- 13) Oh HK, Kim HY, Park KW, Jung SE, Kim WK. The Surgical Management of Pediatric Thyroid Nodule. J Korean Assoc Pediatr Surg 2006;12(2):183-91.
- 14) Song MY, Suh BK, Kim HK, Lee BC. Two Cases of Thyroid Tumor after Radiation Therapy of Primary Malignancy. J Korean Soc Pediatr Endocrinol 1998;3(2):256-9.
- 15) Yoo KH, Choi BM, Hong YS, Lee JW, Kim SK, Choi JH, et al. A Study on Method for Screening of Hypercalciuria in Children. J Korean Soc Pediatr Nephrol 2000;4(1):11-6.
- 16) Hedinger CE, Williams ED, Sobin LH. Histological typing of thyroid tumours. In International histological classification of tumours. 2nd ed. Berlin; New York: Springer-Verlag;1988. p.xi, 7-68 p.

- 17) Thompson LD, Wieneke JA, Paal E, Frommelt RA, Adair CF, Hef-fess CS. A clinicopathologic study of minimally invasive follicular carcinoma of the thyroid gland with a review of the English literature. *Cancer* 2001;91(3):505-24.
- 18) Collini P, Sampietro G, Rosai J, Pilotti S. Minimally invasive (encap-sulated) follicular carcinoma of the thyroid gland is the low-risk counterpart of widely invasive follicular carcinoma but not of insu-lar carcinoma. *Virchows Arch* 2003;442(1):71-6.
- 19) Mo JA, Lee GH, Lee BC, Lee MC, Jung MS, Cho PS, et al. Clinical Manifestation and Analysis of Thyroid Follicular Carcinoma. *Ko-rean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg* 2010;53(1):30-6.
- 20) Ceccarelli C, Pacini F, Lippi F, Elisei R, Arganini M, Miccoli P, et al. Thyroid cancer in children and adolescents. *Surgery* 1988;104(6): 1143-8.
- 21) Jorda M, Gonzalez-Campora R, Mora J, Herrero-Zapatero A, Ota-l C, Galera H. Prognostic factors in follicular carcinoma of the thy-roid. *Arch Pathol Lab Med* 1993;117(6):631-5.
- 22) Brennan MD, Bergstralh EJ, van Heerden JA, McConahey WM. Follicular thyroid cancer treated at the Mayo Clinic, 1946 through 1970: initial manifestations, pathologic findings, therapy, and out-come. *Mayo Clin Proc* 1991;66(1):11-22.
- 23) Lo CY, Chan WF, Lam KY, Wan KY. Follicular thyroid carcinoma: the role of histology and staging systems in predicting survival. *Ann Surg* 2005;242(5):708-15.
- 24) Ito Y, Miyauchi A. Prognostic factors and therapeutic strategies for differentiated carcinomas of the thyroid. *Endocr J* 2009;56(2):177-92.