

Solitary Extramedullary Plasmacytoma of Thyroid in Hashimoto's Thyroiditis: Mimicking Benign Cystic Nodule on Ultrasonography¹양성 낭성 결절로 오인된 하시모토 갑상선염이 동반된 갑상선에 발생한
고립성 골수외 형질세포종¹Yohan Kwon, MD¹, Soo Jin Kim, MD¹, Joon Ho Hur, MD¹, Sung Hee Park, MD¹, Sun Jin Lee, MD¹,
Tae Jin Lee, MD²Departments of ¹Radiology, ²Pathology, Chung-Ang University Hospital, Chung-Ang University College of Medicine, Seoul, Korea

Solitary extramedullary plasmacytoma (SEP) of the thyroid is uncommon and mostly occur in patients with a Hashimoto's thyroiditis (82%). We present a case on SEP of thyroid in Hashimoto's thyroiditis, which mimics growing benign cystic masses on serial ultrasonography.

Index terms

Solitary Extramedullary Plasmacytoma
Hashimoto's Thyroiditis
Thyroid Cyst
Thyroid
Ultrasound

Received July 2, 2013; Accepted August 7, 2013

Corresponding author: Soo Jin Kim, MD
Department of Radiology, Chung-Ang University
Hospital, Chung-Ang University College of Medicine,
102 Heukseok-ro, Dongjak-gu, Seoul 156-755, Korea.
Tel. 82-2-6299-3220 Fax. 82-2-6263-1557
E-mail: ksj1567@hanmail.net

This is an Open Access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution Non-Commercial License (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc/3.0>) which permits unrestricted non-commercial use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

서론

갑상선의 고립성 골수외 형질세포종은 드문 질환이며, 하시모토 갑상선염과 동반되는 경우가 많다(82%)(1). 그 기전은 명확하지 않지만 하시모토 갑상선염의 자가면역성 진행과 동반된 림프구 침윤, 섬유화, 갑상선 여포의 파괴 및 악성도 증가에 기인한 것으로 여겨진다(2). 고립성 골수외 형질세포종 중 갑상선에 생긴 경우는 몇몇 증례가 보고되었지만 영상의학적 소견에 대한 고찰은 드물었다(3-5). 이에 저자들은 다발성 갑상선 결절을 동반한 하시모토 갑상선염으로 추적관찰 중 초음파상 크기가 증가하는 낭성 결절로 보이는 결절에서 진단된 고립성 골수외 형질세포종의 증례에 대해 보고하고자 한다.

증례 보고

2009년 건강검진에서 우연히 다발성 갑상선 결절이 발견되어, 이후 본원에서 정기적 추적검사를 받고 있는 56세 여자 환자가 내원하였다. 환자는 증상을 호소하지 않았으며 갑상선 기

능 검사상도 정상을 나타내었다. 갑상선 초음파 검사상 갑상선 실질과 동일 혹은 고에코의 다발성 결절들과 낭성 병변이 다수 관찰되었고 2010년까지 시행한 각 결절에 대한 세침흡인검사(총 2회 4개 결절)에서는 결절 과다 형성고 하시모토 갑상선염으로 진단되었다. 2011년의 검사에서는 각 결절들의 크기의 변화가 없어 1년 뒤 추적검사를 시행하였다(Fig. 1). 하지만 최근 내원하여 실시한 갑상선 초음파 검사상 다발성 결절은 별다른 변화를 보이지 않았으나 2009년부터 우엽에서 변화 없이 낭성 결절로 관찰되던 병변의 크기가 0.5 cm에서 1.3 cm로 증가한 소견이 발견되었다(Fig. 2A, B). 이 병변은 첫 초음파 당시 probably benign으로 간주되는 무에코의 양성 낭성 결절로 여겨져 이제껏 단 한 차례의 세침흡인검사도 시행한 적이 없었다. 최근 초음파소견상 비교적 경계가 분명한 타원형의 낭성 혹은 균질한 현저한 저에코성 병변이었으며 내부에 등에코의 격막이 일부 관찰되었다. 후방 에코 증강은 관찰되지 않았다. 색도플러 상에서도 뚜렷한 혈류는 보이지 않았다. 세침흡인검사를 시행하여 콜로이드성 물질이 흡인되었으나 병변이 줄거나 찌그러지는 않았다. 세포 검사상 비정형 핵을 가진 다수의 형질세포양

세포들이 나왔고, 면역조직학적 검사에서 leukocyte common antigen (이하 LCA)은 양성, cytokeratin (이하 CK), 갑상선 전사 인자-1(thyroid transcription factor-1; 이하 TTF-1)은 음



Fig. 1. Thyroid ultrasonography image of one year ago. There is 0.5 cm sized benign looking cystic lesion (arrow) in right lobe of thyroid gland. The background thyroid tissue shows multinodular hyperplasia.

성을 보여, 형질세포종이 의심된다고 보고되었다. 컴퓨터단층촬영 검사상 림프절의 종대는 없었고, 양측 갑상선에 걸쳐 다수의 저음영의 결절들이 관찰되었으며 양성으로 관찰되던 해당 병변은 다른 결절들에 비해 조영증강이 잘 되지 않았다(Fig. 2C).

환자는 전 갑상선절제술을 시행 받았다. 결절 과다형성과 하시모토 갑상선염을 나타내는 배후 실질에 1.2 × 1.0 cm 크기의 경계가 명확한 적갈색의 고형 결절이 관찰되었고 골수의 형질세포종으로 진단되었다(Fig. 3). 종양 세포들은 lambda 경쇄와 LCA, 그리고 CD79a에 양성을 나타내었고 CK, 갑상선글로블린, TTF-1, 칼시토닌, epithelial membrane antigen, CD20, 그리고 synaptophysin에는 음성을 나타내었다(Fig. 4). 수술 후 시행한 골수 검사와 혈청 및 소변 면역고정전기영동, 단백질전기영동 모두 정상범위를 나타내었다. 또한 고칼슘혈증이나 신장 기능의 이상, 빈혈, 흉추 및 요추와 두개골 그리고 골반 단순 촬영상 이상 소견이 관찰되지 않았다. 이에 환자는 갑상선에 발생한 고립성 골수의 형질세포종으로 최종 진단되었고, 현재 재

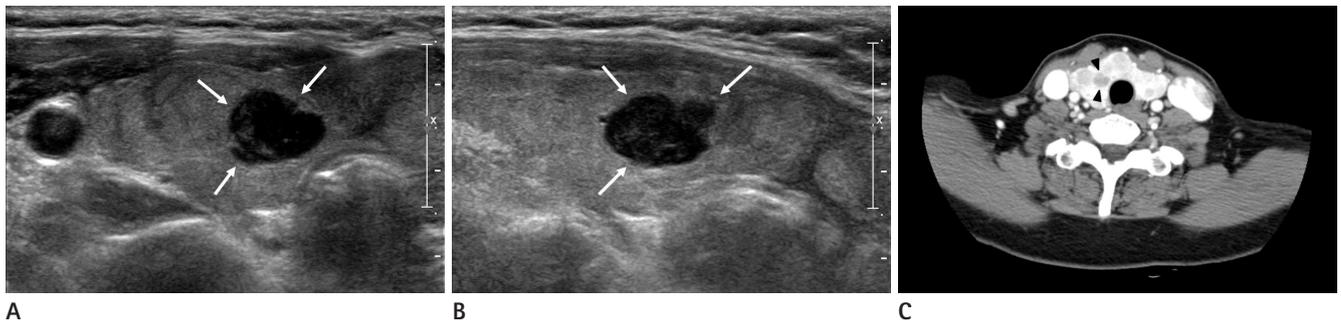


Fig. 2. Thyroid ultrasonography and enhanced neck CT images.

A, B. Transverse and longitudinal scan image of thyroid gland. There is an increase in cystic lesion (arrows) measured with 1.3 cm and the echogenicity of internal tissue has increased.

C. Axial CT image shows relatively low enhanced mass (arrowheads) in right thyroid lobe.

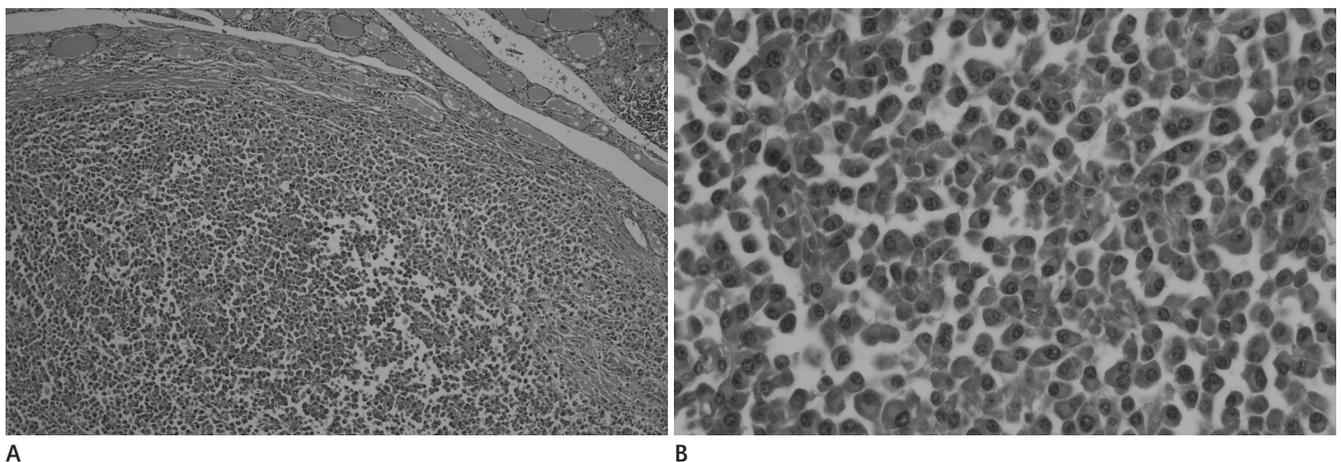


Fig. 3. Histopathologic findings of the nodule after total thyroidectomy.

A. The specimen shows demarcation of the tumor from the thyroid parenchyma (H&E, × 100).

B. This mass is composed of plasmacytoid cells. Histologic finding is consistent with plasmacytoma (H&E, × 400).

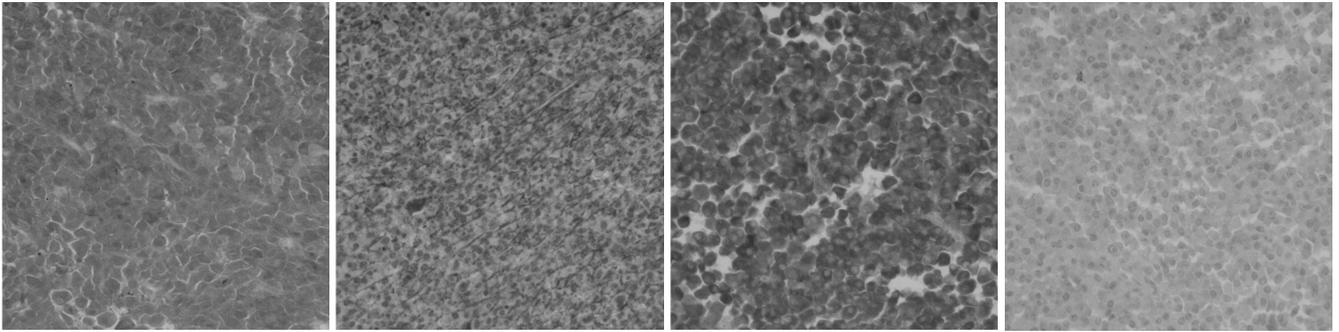


Fig. 4. Immunohistochemical stainings for lambda (A), CD138 (B), and CD79a (C) show positive immunoreactivity, however negative immunoreactivity in CD20 (D).

발 소견 없이 외래 경과 관찰 중이다.

고찰

고립성 골수외형질세포종은 생검으로 확인된 형질세포의 단일 병변과 정상 골수 및 척추, 그리고 종말 기관 손상의 증거가 없을 때 진단이 가능하다(6). 갑상선에 고립성 골수외형질세포종이 발생한 경우는 매우 드물며, 우리가 알기로 현재까지 76예의 보고가 있다. 무증상이 가장 흔하고 갑상선 결절 및 국소 압박 소견, 쉼 목소리 등의 증상이 발생 위치에 따라 다양하게 나타날 수 있다. 현재 문헌에 보고된 바로는 갑상선에 생긴 고립성 골수외형질세포종은 19세부터 82세까지에 나타났으며 여성이 남성에게 비해 더 많은 것으로 나타났다(3). 하시모토 갑상선염이 다양한 악성 병변과 관련되어 있음이 잘 알려져 있듯이, 갑상선에 생긴 고립성 골수외형질세포종 환자의 경우 약 82%에서 하시모토 갑상선염이 있었다(1). 하시모토 갑상선염과 골수외형질세포종 사이의 관련성에 대해서는 정확히 알려진 바는 없으나, 조직학적 소견상 동반된 하시모토 갑상선염의 양상으로 보아 종양에 대해 이차적으로 발생한 비특이적 염증 반응의 발현이라는 주장(7)이 있는가 하면, 만성 염증의 과정에서 보이는 IL-6의 성장촉진활성이 하시모토 갑상선염에서 형질세포의 클론성증식을 유발할 수 있어 골수외형질세포종이 하시모토 갑상선염뿐 아니라 다른 갑상선기능 이상과도 관련이 있다는 주장(8)도 있다.

골수외형질세포종의 영상의학적 소견은 대부분 비특이적이다. 초음파 소견은 증례에 따라 동일예코 혹은 저예코의 병변 등으로 소개되었다(3-5). 하지만 형질세포종이 B세포로부터 기원한 형질세포의 단일 클론 증식성 병변임을 생각해 보면 결절형 림프종과 비슷한 경계가 좋고 낮은 예코의 덩어리로 보일 수 있을 것이며 림프종에서 특징적으로 나타나는 후방 예코 증강 또한 가능할 것이다. 이 증례에서는 균질한 세포구성으로 인해 초음파소견에서 거의 무예코에 가까워 양성 병변으로 오인

되어 진단이 늦춰졌다는 점이 특이할 만한 소견이다. 그로 인해 세침흡인검사의 적응이 되지 않아 추적 관찰하던 중 우연히 크기가 커져서 세침흡인검사를 시행하여 진단이 가능하였다. 그러나 후방 예코 증강이 뚜렷하게 나타나지 않았던 점을 고려한다면 양성 병변이 아닌 저예코성 고형 병변의 가능성도 고려하여 빠른 진단을 기대할 수 있었는지 모른다. 하지만 림프종에서도 일부 후방 예코 증강이 나타나지 않을 수 있다는 점과 작은 양성 병변은 후방 예코 증강이 뚜렷하지 않다는 점을 고려해 볼 때 역시 초기 진단에는 어려움이 따를 수 있겠다. CT에서는 비교적 경계가 좋은 모양의 결절이 연부조직의 감쇠를 보이고, 자기공명영상(MRI)에서는 T1-강조영상에서는 저신호강도, T2-강조영상에서는 동등신호강도 또는 고신호강도를 보인다. 추가적으로 조영증강을 시행했을 경우 CT나 MRI 모두에서 불균질한 증강을 보인다(9).

형질세포종의 치료는 현재 수술적 치료와 국소 방사선 치료가 효과적인 것으로 알려져 있으며 단독치료보다 복합 치료가 생존율 및 재발률에서 더 나은 예후를 보여주고 있다(10). 국소 재발의 추적검사로는 갑상선 초음파가 주로 이용되며, 일부 고립성 골수외형질세포종이 다발성 골수종의 초기에서도 보일 수 있기 때문에 혈청 및 소변의 M 단백질 검사 혹은 골 단순촬영을 포함하는 다양한 추적검사가 이루어져야 할 것으로 생각된다(4).

본 증례는 하시모토 갑상선염이 동반된 갑상선에 발생한 크기가 증가한 양성 양성 결절로 보이는 고립성 골수외형질세포종에 대해 기술하였다. 갑상선초음파상 전형적인 양성 양성 결절처럼 보이지만, 특히 하시모토 갑상선염을 가지고 있는 환자에서, 그 크기와 모양의 변화가 있다면 세침흡인검사 혹은 조직검사를 통해 병리학적 확인이 필요할 것이다.

참고문헌

1. Kovacs CS, Mant MJ, Nguyen GK, Ginsberg J. Plasma cell le-

- sions of the thyroid: report of a case of solitary plasmacytoma and a review of the literature. *Thyroid* 1994;4:65-71
2. Chen RH, Chang CT, Chen WC, Tsai CH, Tsai FJ. Proinflammatory cytokine gene polymorphisms among Hashimoto's thyroiditis patients. *J Clin Lab Anal* 2006;20:260-265
 3. Patten DK, Fazel M, Dina R, Tolley N. Solitary extramedullary plasmacytoma of the thyroid involved by papillary carcinoma: a case report and review of the literature. *Endocr Pathol* 2011;22:155-158
 4. Avila A, Villalpando A, Montoya G, Luna MA. Clinical features and differential diagnoses of solitary extramedullary plasmacytoma of the thyroid: a case report. *Ann Diagn Pathol* 2009;13:119-123
 5. Yao CM, Erovic B, Higgins KM. Solitary extramedullary plasmacytomas of the thyroid in Hashimoto's thyroiditis. *Thyroid* 2012;22:861-862
 6. Kyle RA, Rajkumar SV. Criteria for diagnosis, staging, risk stratification and response assessment of multiple myeloma. *Leukemia* 2009;23:3-9
 7. Koh YS, Gaegal YJ, Yoon JH, Park JW, Nam JH, Lee MC. Primary Plasmacytoma of the Thyroid. *J Korean Surg Soc* 2002;63:252-255
 8. Hirano T. Interleukin 6 (IL-6) and its receptor: their role in plasma cell neoplasias. *Int J Cell Cloning* 1991;9:166-184
 9. Ooi GC, Chim JC, Au WY, Khong PL. Radiologic manifestations of primary solitary extramedullary and multiple solitary plasmacytomas. *AJR Am J Roentgenol* 2006;186:821-827
 10. Bachar G, Goldstein D, Brown D, Tsang R, Lockwood G, Perez-Ordóñez B, et al. Solitary extramedullary plasmacytoma of the head and neck--long-term outcome analysis of 68 cases. *Head Neck* 2008;30:1012-1019

양성 양성 결절로 오인된 하시모토 갑상선염이 동반된 갑상선에 발생한 고립성 골수외 형질세포종¹

권요한¹ · 김수진¹ · 허준호¹ · 박성희¹ · 이선진¹ · 이태진²

갑상선의 고립성 골수외 형질세포종은 드문 질환이며, 대부분(82%) 하시모토 갑상선염과 동반된다. 일련의 초음파 검사 상에서 양성 양성 결절로 오인되었던, 하시모토 갑상선염과 동반된 고립성 골수외 형질세포종을 보고하고자 한다.

중앙대학교 의과대학 중앙대학교병원 ¹영상의학과, ²병리과