

식도를 따라 전이된 부갑상선암에 의한 지속성 부갑상선기능항진증 1예 보고

한양대학교 의과대학 외과학교실 및 ¹흉부외과학교실

정파종 · 박재정 · 남영수 · 정원상¹

A Case of Persistent Primary Hyperparathyroidism Caused by Parathyroid Carcinoma Recurred Along Esophagus

Pa Jong Jung, M.D., Jae Jeong Park, M.D., Young Soo Nam, M.D. and Won Sang Chung, M.D.¹

Primary hyperparathyroidism is most commonly caused by an adenoma but rarely by carcinoma of the parathyroid gland. The common clinical manifestations were bone pain, recurrent urinary stone and asymptomatic. Parathyroid carcinoma is different from the parathyroid adenoma in that the invasion to the surrounding tissue or metastasis to the regional lymph nodes and persistent hyperparathyroidism are common in parathyroid carcinoma. It is important that radical en-bloc resection of parathyroidal mass including the lobe of the thyroid that is on the same side and post op follow up is important as well. There is the need of radical surgery even in recurrence of metastatic parathyroid carcinoma for improving hypercalcemia. We experienced a 50-year-old man with primary hyperparathyroidism caused by a parathyroid carcinoma in the left lower parathyroid which was confirmed by histopathologic findings. He was cured by using en-bloc resection of the parathyroid including the left lobe of the thyroid and a left side modified radical neck dissection. But after 2 months hypercalcemia occurred again and therefore examination with computed tomography, endoscopic ultrasonography and esophagogram revealed a metastasis to the upper and mid esophagus. We opened the chest cavity and resected the surrounding mass of the esophagus. the mass was confirmed to be metastatic tissue from parathyroid carcinoma by histopathologic finding. therefore we report this case. (Korean J Endocrine Surg 2002;2:47-50)

Key Words: Parathyroid carcinoma, Paraesophageal recurrence, Persistent hyperparathyroidism, Hypercalcemia

중심 단어: 부갑상선암, 식도주위 재발, 지속성 부갑상선 기능항진증, 고칼슘혈증

Departments of Surgery and ¹Thoracic Surgery, College of Medicine, Hanyang University, Seoul, Korea

서론

외국과는 달리 우리나라에서는 원발성 부갑상선 기능항진증은 매우 드문 질환이다. 이의 원인 질환으로는 대부분이 부갑상선 선종과 과증식 등의 양성질환이나 부갑상선암은 원인질환 중 1% 내외를 차지할 정도로 매우 드물다. 이러한 부갑상선암의 진단도 병리조직학적 소견만으로는 어렵고, 주위조직의 침윤, 국소 림프절 전이 또는 타장기로의 전이 등과 같은 임상적 및 육안적 소견으로 진단할 수 있다.(1) 그러므로 부갑상선암은 첫 수술에서 불충분한 수술이 될 경우가 많고, 초기에 충분한 치료가 되었다더라도 병의 특징상 재발될 수 있으므로 수술 후 적극적인 추적관찰이 필요하다. 재발이 되면 이 질환의 사망 원인은 순수한 종양적 경과보다는 고칼슘혈증으로 인한 경우가 많으므로 가능한 한 재발된 종양을 재수술로 제거하여 혈청 칼슘치를 정상화시키는 것이 중요하다.(1,2)

이에 저자는 부갑상선암이 원발성 병소를 수술 후 식도를 따라 전이되어 지속성 부갑상선 항진증을 보였던 증례를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증례

환자는 내원 당시 50세 된 남자로서 식욕부진, 체중 감소 등을 주소로 한양대학교 구리병원 내과 외래에 내원하여 위내시경을 시행하여 위궤양으로 진단 받고 치료 중에 혈청 칼슘치가 증가되어 입원하게 되었다. 내원 당시 환자는 과거력에 충수절제술 및 사고로 인한 우측 대퇴부 골절

책임저자 : 정파종, 서울시 성동구 행당동 17번지
☎ 133-792, 한양대학교병원 외과
Tel: 02-2290-8452, Fax: 02-2281-0224
E-mail: pjjung@hanyang.ac.kr

게재승인일 : 2002년 6월 3일

이 있었으며 이학적 검사에서 특이소견은 없었다.

입원하여 시행한 혈액 검사 결과 혈청 칼슘은 16.3 mg/dl (정상치; 8.5~11 mg/dl), 혈청 인은 2.7 mg/dl (정상치; 2.5~

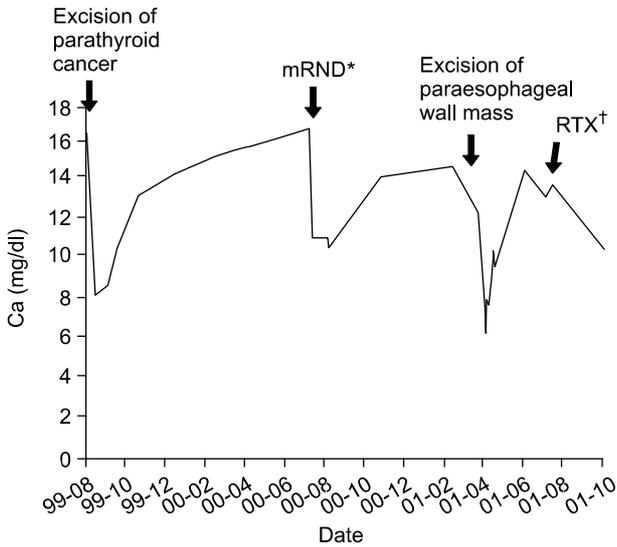


Fig. 1. Clinical and biochemical course of patient. *mRND = modified radical mastectomy; † RTX = radiotherapy.

4.5 mg/dl) 부갑상선 호르몬은 516 pg/mg (정상치; 10~65 pg/mg) 알칼리인산효소가 163 IU/L (정상치; 30~110 IU/L)로 증가하여 전형적인 원발성 부갑상선 기능항진증의 소견을 보였다. 국소 검사로 경부 초음파상 갑상선 좌엽의 하외측에 2.25 cm 가량의 종물이 관찰되었으며 Tc-99 m MIBI scan상 갑상선 좌엽의 하방에서 섭취 증가 소견을 보여 좌하 부갑상선 선종으로 인한 원발성 부갑상선 기능항진증이 의심되었다. 수술은 좌측 하방 부갑상선 절제술을 시행하였으며 수술 중 동결 절편 조직 검사상 증식된 부갑상선 조직이 확인되었다. 그러나 최종 병리조직검사항 수술 조직에서 우연히 함께 발견된 주위 림프절에서 부갑상선 조직의 전이를 보여 최종 부갑상선암으로 진단되었다.

수술직후에는 혈청 칼슘치의 감소를 보였으나 10개월 후 전신 무력을 동반한 혈청 칼슘의 재상승을 보였는데 (Fig. 1), 혈청 칼슘은 16.5 mg/dl, 인은 5.0 mg/dl, 부갑상선 호르몬은 592 pg, 알칼리인산효소가 124 IU/L로 증가되었다. 다시 시행한 초음파 검사에서 원발병소 주위에서 1.6 cm 크기의 종물이 발견되었으며, Tc-99 m MIBI scan상에서도 동일한 부위에서 섭취 증가 소견을 보였다. 수술은 좌측 갑상선을 포함한 좌측 변형 광범위 경부 광청술을 시행하였고 주변 조직 및 림프절에서 부갑상선 전이 소견이 확

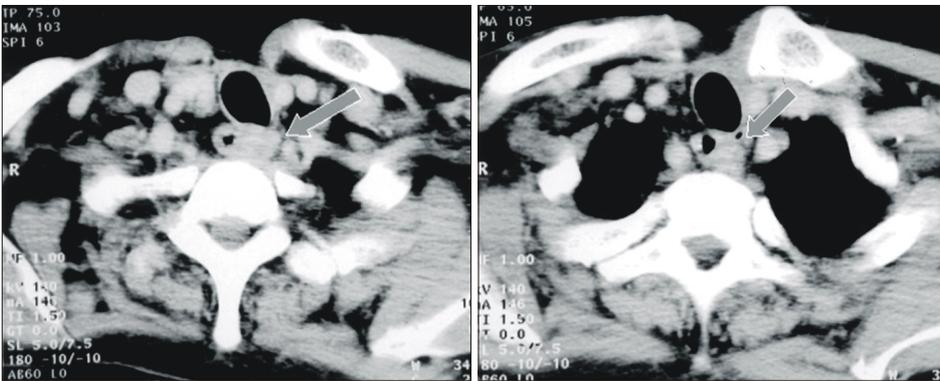


Fig. 2. CT findings shows nodular soft tissue attenuated lesion is noted along left paraesophageal area (T2 level) which seems to invade esophageal wall (arrow).

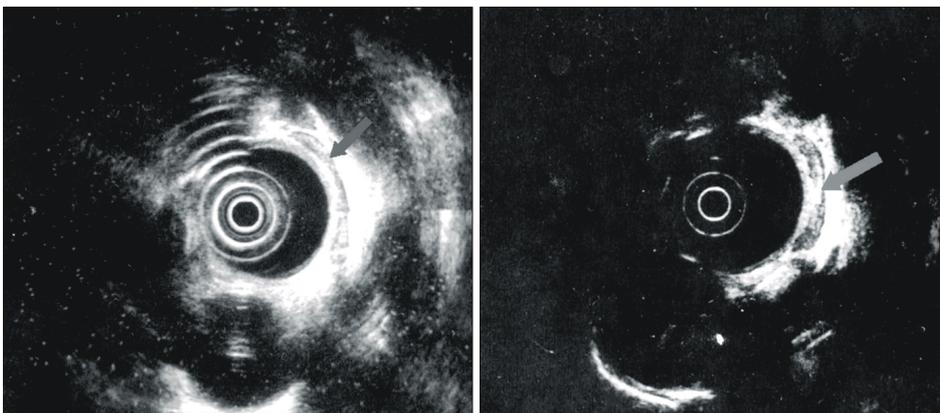


Fig. 3. Endoscopic ultrasonographic findings shows thickened and hypertrophied left esophageal wall which is located in 22~33 cm from incisor teeth (arrow).

인되었다.

그러나 수술 후 또 다시 혈청 칼슘 증가를 보여 한양대학교병원으로 전원되어 재수술을 계획하고 여러 수술 전 검사를 시행하였다. 컴퓨터 단층촬영에서는 갑상선 하부부터 제2흉추 위치까지 식도 벽을 따라 침윤 양상을 보이는 종괴가 관찰되었으며(Fig. 2), 내시경 초음파 검사 결과 incisor teeth에서 29~33 cm 부위 식도 벽의 비후 소견을 보였다(Fig. 3). 그리고 바륨 식도조영술상에서도 동일한 부위의 식도 내강이 좁아져 있었고(Fig. 4), Tc-99 m MIBI scan 상부 기관지 좌측 부위에 여전히 섭취 증가 소견을

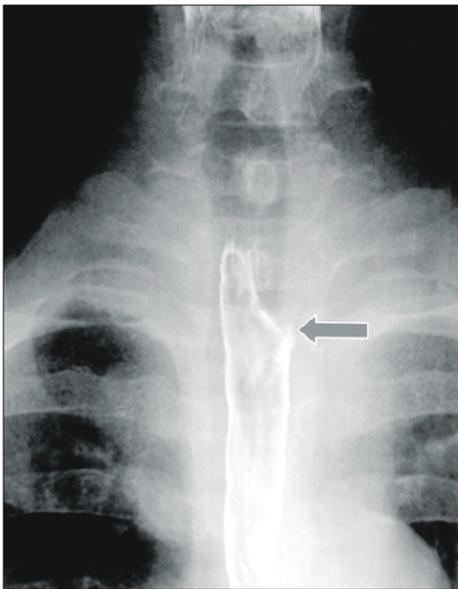


Fig. 4. Barium esophagogram shows luminal narrowing is noted in upper esophagus (arrow).

보였다. 경부 초음파 소견상 좌측 경동맥 후방에 1.2 cm의 종괴도 의심되었다. 다시 수술 시행하여 경부에서는 좌측 기관주변 및 재발 의심 부위를 가능한 한 제거하였으며 좌측 늑간으로 개흉술을 시행하여 식도 주변의 재발 종괴를 절제하였다. 조직병리 검사 소견상 이곳에서 부갑상선암 전이로 확진되었다(Fig. 5). 그러나 수술 소견상 식도 주위의 재발암 조직들이 침윤되어 식도에 매우 유착되어 있었으며, 주위 조직과의 유착도 심하고 해부학적 구조상 도달하기가 어려운 부위여서 종괴를 완전 절제하지는 못하였다. 그리고 환자의 전신상태도 불량하여 식도 절제술을 포함한 광범위 수술도 불가능하여 수술 후 2개월부터 다시 증상이 나타나 방사선치료를 시도하였고 현재 대증적으로 치료하고 있다.

고찰

원발성 부갑상선 기능항진증의 원인은 대부분 갑상선 선종이며, 부갑상선암이 원인인 경우는 전체 중 1% 이하로 매우 드문 질환이다.(3) 부갑상선 선종은 병소 절제술로 대부분 혈청칼슘치가 정상으로 되나, 부갑상선암은 수술 후 재발이 많으므로 광범위 수술을 요하는 경우가 많지만 두 질병은 조직병리학적으로 감별진단이 어려워 초기 치료가 부적절할 수 있다.

부갑상선 선종은 여자에 호발하나 부갑상선암은 성별에 관계없으며(3) 부갑상선 선종의 경우 대략 10%에서 종물이 이학적 검사에서 축진되는 것으로 보고되나 부갑상선암의 경우 32~69%까지로 높게 보고되고 있다.(4) 혈청칼슘치, 부갑상선 호르몬, 알칼리인산효소의 경우 선종보다 더욱 증가된 소견을 보이며 주변 조직과의 유착이 심하거나 주위 림프절에 전이가 있을 때 부갑상선암을 더욱

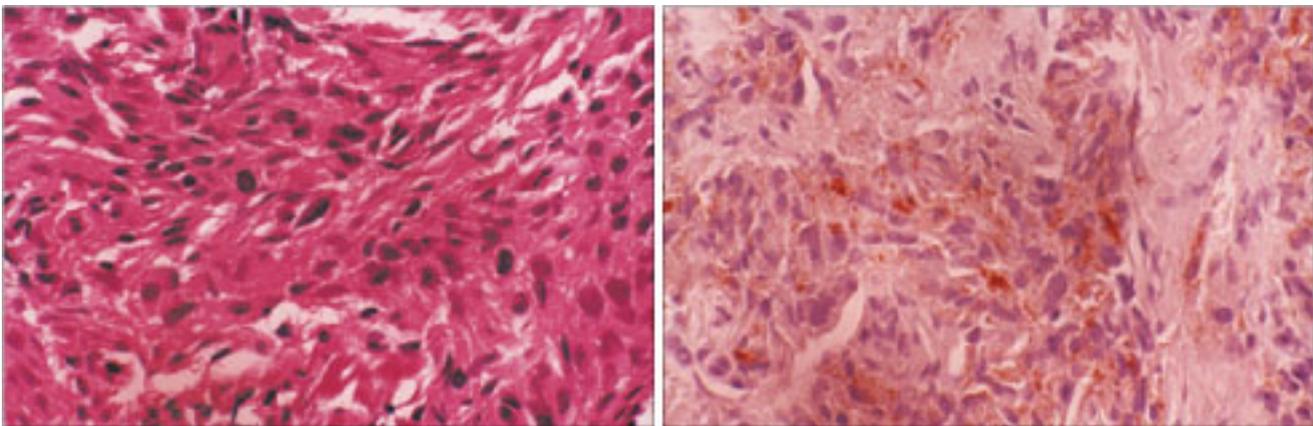


Fig. 5. Microscopic findings shows infiltrating tumor nests or individual tumor cells which show pleomorphic and hyperchromatic nuclei with prominent nucleoli and abundant eosinophilic cytoplasm. These cells are positive for chromogranin staining. In conjunction with clinical history, this specimen supposed to be recurrent parathyroid carcinoma.

의심할 수 있다.(5) 동결절편조직검사에서 두 질환의 감별 진단은 거의 불가능하며 부갑상선암은 조직학적으로 핵의 이형성 및 세포 분열양상, 섬유주 형태, 피막 및 혈관 침윤 등의 소견을 보이나, 일부 선종에서도 유사한 경우가 있어 확진하기 어렵다.(5) 간혹 선종으로 진단되었다가 추적관찰 중 국소 재발 및 원격 전이를 발견함으로써 부갑상선암으로 진단되는 경우도 있다.(6) 그러므로 임상 증상 및 수술 소견상 부갑상선암이 의심될 때 재발 방지를 위하여 종괴 및 주위조직의 en bloc 제거가 중요하며 림프절 전이가 있을 시에는 경부 림프절확청술이 필요하다.(1,2) 물론 부갑상선암의 침윤 정도에 따라 종괴만 절제할 수도 있으나 대부분 en bloc 절제 시 동측 갑상선 및 흉선일부 그리고 주변 근육 등이 포함되어야 하고 반회 후두신경 침범 시에도 함께 절제하여야 한다. 한편 예방적 광범위 경부확청술은 생존에 영향을 주지 못하므로 추천되지 않는다. 재발은 타암종과 마찬가지로 원격재발도 있을 수 있지만, 국소 재발의 빈도가 흔한데 식도를 따라 전이되는 예는 매우 드문 것으로 보고되고 있다. 식도 주위 재발이 발견되었을 때는 식도 절제술과 같은 광범위 절제술이 필요할 수도 있다.(6) 본 증례도 환자 상태, 해부학적 위치 및 유착 정도 등의 조건 때문에 식도절제술을 포함한 광범위 절제술을 하지 못하여 완전회복이 불가능하였던 경우였다.

부갑상선암은 수술 전 혹은 수술 중 진단이 어렵지만, 수술 전 임상적 양상이나 수술 중 소견 등으로 부갑상선암을 찾으려는 노력이 필요하고, 의심이 될 때에는 바로 종괴를 포함한 주위조직의 en bloc 절제술이 필요하다. 그

리고 부갑상선암은 비교적 서서히 진행할 뿐 아니라 재발 되면 부갑상선암 자체보다는 신부전, 심부정맥 및 췌장염 등의 혈청칼슘 증가로 인한 이차적인 문제로 사망하는 경우가 흔하므로 국소 재발 시 지속적인 절제를 통하여 혈청 칼슘을 정상화시키려는 노력이 생존율을 증가시키는데 중요한 역할을 한다.

REFERENCES

- 1) Sandelin K, Thompson NW, Bondeson L. Metastatic parathyroid carcinoma: dilemmas in management. *Surgery* 1999; 110:978-988.
- 2) Fraker DL, Travis WD, Merendino JJ Jr, Zimering MB, Streeten EA, Weinstein LS, et al. Locally recurrent parathyroid neoplasms as a cause for recurrent and persistent primary hyperparathyroidism. *Ann Surg* 1991;213:58-65.
- 3) Obara T, Fujimoto Y. Diagnosis and treatment of patients with parathyroid carcinoma: an update and review. *World J Surg* 1991;15:738-744.
- 4) Favia G, Lumachi F, Polistina F, D'Amico DF. Parathyroid carcinoma: sixteen new cases and suggestions for correct management. *World J Surg* 1998;22:1225-1230.
- 5) Sheehan JJ, Hill AD, Walsh MF, Crotty TB, McDermott EW, O'Higgins NJO. Parathyroid carcinoma: diagnosis and management. *Eur J Surg Oncol* 2001;27:321-324.
- 6) Dotzenrath C, Goretzki PE, Sarbia M, Cupisti K, Feldkamp J, Roher HD. Parathyroid carcinoma: problems in diagnosis and the need for radical surgery even in recurrent disease. *Eur J Surg Oncol* 2001;27:383-389.