

A Case of Spontaneous Extracapsular Hemorrhage of Intrathyroidal Parathyroid Adenoma

Ji Young Choi, Hwa Jong Yoo, Young Hak Park and Seoung Ho Cho

Department of Otolaryngology-Head and Neck Surgery, School of Medicine, The Catholic University of Korea, Seoul, Korea

갑상선내 부갑상선선종의 자연출혈 1예

최지영 · 유화중 · 박영학 · 조승호

가톨릭대학교 의과대학 이비인후과학교실

Received November 18, 2009

Revised January 18, 2010

Accepted February 3, 2010

Address for correspondence

Young Hak Park, MD
Department of Otolaryngology-
Head and Neck Surgery,
School of Medicine, The Catholic
University of Korea,
62 Yeouido-dong, Yeongdeungpo-gu,
Seoul 137-701, Korea
Tel +82-2-3779-1054
Fax +82-2-786-1149
E-mail yhpark7@catholic.ac.kr

Intrathyroidal parathyroid adenoma is an infrequent lesion which can be explained by abnormalities during embryonic migration of the parathyroid glands. Extracapsular hemorrhage from a intrathyroidal parathyroid adenoma is extremely rare, however, due to its location near upper airway, it might cause a life-threatening situation. Therefore, if patients presented with anterior neck painful swelling, skin ecchymosis associated with dysphagia and/or hoarseness, extracapsular hemorrhage from parathyroid adenoma should be considered as a possible diagnosis. Estimation of serum calcium level is essential as the presence of hypercalcemia can help to make the diagnosis pre-operatively. As rupture of a parathyroid adenoma and cyst may lead to local dissemination of tumor cells and an increased risk of recurrent hyperparathyroidism, careful long-term follow-up is required. We report an unusual case of spontaneous rupture of intrathyroidal parathyroid adenoma with a review of literature.

Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2010;53:245-7

Key Words Intrathyroidal parathyroid adenoma · Hemorrhage.

서 론

부갑상선 선종은 원발성 부갑상선 기능 항진증의 가장 흔한 원인으로 대부분은 고칼슘혈증과 연관된 임상 증상과 부갑상선 호르몬의 증가, 초음파검사 등을 통해 쉽게 진단이 가능하다. 태생기 부갑상선이 정상적인 발생학적 과정상 충분히 하강하지 못하는 경우에는 흉선, 갑상선내, 경동맥초 등에서 이소성 부갑상선 선종(ectopic parathyroid adenoma)이 발생할 수 있다.¹⁾ 부갑상선 선종은 남성 종물로 매우 드물게 피막 외 자연출혈을 일으켜 갑작스런 경부 종창과 피하 반상출혈(ecchymosis), 호흡곤란, 연하곤란, 음성 변화 등을 초래할 수 있으며 중격동까지 파급되는 경우에는 대동맥 박리(aortic dissection)로 오인될 수도 있다.²⁾

최근 저자들은 갑상선내 부갑상선 선종이 피막 외 자연출혈을 일으켜 후인두강 및 부인두강으로 파급되면서 심경부 감염으로 오인된 환자를 1예를 경험하였다.

증 례

53세 여자 환자가 3일 전부터 시작된 통증을 동반한 전 경부 종창과 호흡곤란을 주소로 응급실에 내원하였다. 연하곤란과 음성의 변화를 호소하였고 외상의 과거력은 없었다. 이학적 검사상 활력 징후는 정상 범위였으며 피부 발적을 동반한 경부 종창이 우측을 중심으로 전반적으로 관찰되었고 촉진시 통증을 심하게 호소하였다(Fig. 1A). 후두 내시경검사상 성대의 움직임은 정상이었으나 후두개(epiglottis)와 이상와(pyriform sinus) 등 후두 점막 전반에 걸쳐 광범위한 반상출혈(submucosal ecchymosis)이 관찰되었다(Fig. 1B). 혈액검사에서 백혈구 9,360/mm³, 혈소판 316,000/mm³, 헤모글로빈 10.0 g/dL이었으며 ESR, CRP는 정상 범위였다.

경부 전산화단층촬영에서 구강저에서 갑상선까지 농양으로 의심되는 저음영 병변이 후인두 및 부인두 공간으로 팽

Fig. 1. Preoperative patient's photograph shows right side dominant generalized neck swelling, but, no skin ecchymosis (A). Preoperative fiberoptic laryngoscopic finding reveals submucosal ecchymosis in epiglottis, arytenoid, false vocal folds and pyriform sinus due to extracapsular hemorrhage from the parathyroid adenoma (B).

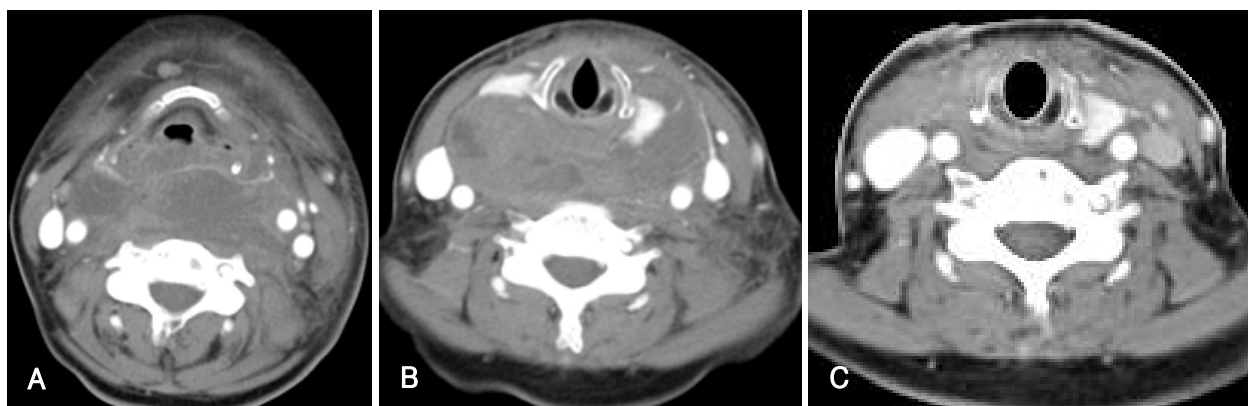
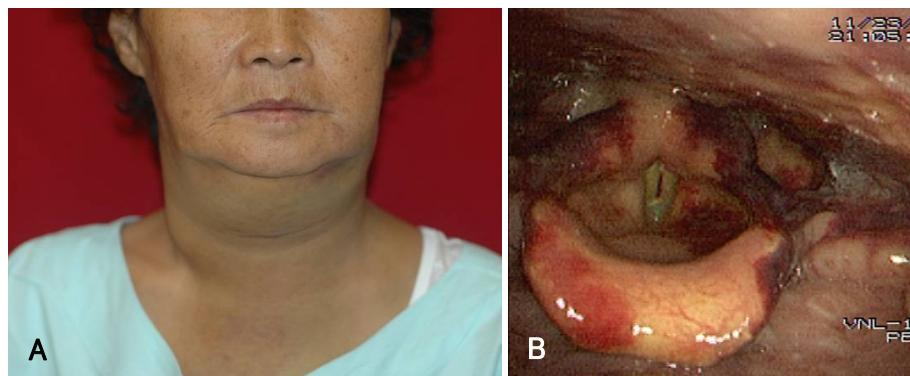


Fig. 2. Preoperative Neck CT with enhancement show extensive hypodense lesion in retropharyngeal space and parapharyngeal space. There are seen to a focal abscess like formation and heterogeneous enhancement and the lesion impress on the right thyroid lobe anteriorly (A and B). Postoperative Neck CT with enhancement show regression of the previous lesion in retropharyngeal and parapharyngeal space. Right thyroid lobotomy state (C).

범위하게 파급되어 있었다(Fig. 2A and B). 호흡곤란과 급성 병색을 보이는 심경부 감염을 진단으로 응급으로 전신마취하 기관절개술과 절개 배농을 계획하였다. 전경부 접근으로 수술을 진행하였는데 우측 갑상선엽이 비정상적으로 커져 있었으며 후인두강을 박리하자마자 탁한 검붉은색의 혈성 분비물이 배농되었고 갑상선 크기가 줄어들었다. 갑상선 내 낭성 종물이 파열된 것으로 생각되었고 반회후두신경을 보존하면서 우측 갑상선엽절제술을 시행하였다.

조직검사상 과다한 출혈성 주세포(Chief cell) 및 호산세포(Oxyphil cell)로 구성된 부갑상선 선종이 낭성 변성을 보이고 있었으며 정상 갑상선 조직내에 피막을 형성하고 위치하고 있어 갑상선내 부갑상선 선종(intrathyroidal parathyroid adenoma)으로 진단이 되었다(Fig. 3). 응급수술 전 칼슘 수치는 측정하지 못하였는데, 수술 후 칼슘 수치는 정상 소견을 보였다(calcium 8.0 mg/dL, phosphorus 3.17 mg/dL). 부갑상선호르몬(parathyroid hormone)의 수치도 정상이었으며, 다발성 부갑상선 선종을 감별하기 위해 시행한 Technecium(Tc)-99 m sestamibi scan에서도 잔존하는 부갑상선 선종은 발견되지 않았다.

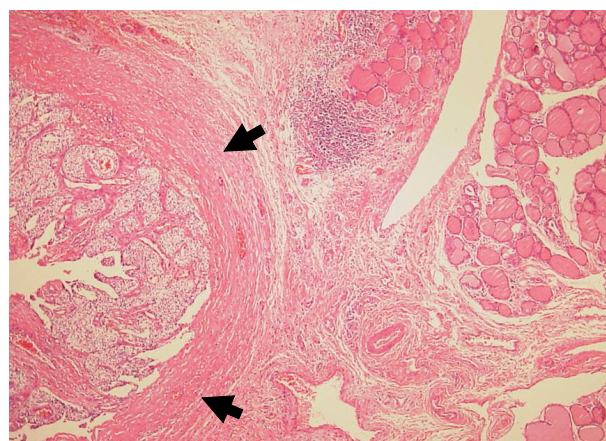


Fig. 3. Histopathologic findings of the right thyroid gland. Microscopic findings show well-encapsulated parathyroid adenoma inside the normal thyroid tissue (arrow). mixed chief and oxyphil cells (Hematoxylin-eosin stain, original magnification $\times 100$).

수술 후 8일째 경부 전산화단층촬영을 시행하였고 이전에 보이던 병변은 모두 사라진 상태였다(Fig. 2C). 현재 수술 후 20개월이 지난 상태로 칼슘 수치는 정상이며 부갑상선 선종의 재발 없이 외래 추적관찰 중이다.

고 찰

부갑상선 선종은 원발성 부갑상선 기능항진증 환자의 85%에서 발견되며 고칼슘혈증에 의한 낭성 섬유성 골염(osteitis fibrosa cystica), 신장 결석, 병적 골절(pathologic fracture), 신경근육병증, 소화성 궤양, 궤장염 등의 증상을 일으킨다.^{3,4)} 드물게 낭성 변성을 일으켜 자연 출혈이 일어나는 경우에는 전경부 종물, 주변 구조물의 압박으로 인한 호흡곤란, 음성의 변화, 연하곤란 등의 증상을 나타낼 수 있으며 종격동으로 파급되는 경우에는 어깨나 등으로의 방사통을 동반한 흉통을 느끼기 때문에 대동맥박리로 오인될 수 있다.^{2,5-7)} 1934년에 Caps는 부갑상선 선종의 자연 출혈로 인한 저혈량성 쇼크로 사망한 증례를 처음으로 보고한 이후 현재까지 28증례가 보고되어 있으며, 1989년에 Simcic 등은 급성 경부 종창, 고칼슘혈증, 경부 및 흉부 반상 출혈을 부갑상선 선종의 자연출혈을 임상적으로 진단할 수 있는 증상 3주징으로 정의하였다.^{7,8)} 부갑상선 선종의 자연출혈이 있을 경우 호흡곤란과 과다출혈 등 심각한 합병증을 유발할 수 있으므로 응급 수술을 시행하고 출혈 부위를 찾아 지혈을 하는 것이 중요하다.⁵⁻⁸⁾

본 증례는 조직검사 결과 부갑상선 선종이 정상적인 갑상선 조직내에 위치하고 있는 갑상선내 부갑상선 선종의 피막외 자연출혈로 최종 진단되었다. 일반적으로 상부 부갑상선은 갑상선의 후측방, 반회후두신경의 후상방에 비교적 일정한 위치로 존재하는 반면 하부 부갑상선은 발생학적 과정상 흉선과 함께 이동하면서 그 위치가 다양하게 나타나며 일부 이소성 부갑상선이 발생할 수 있다. 이소성 갑상선이 위치하는 가장 흔한 부위는 흉선, 종격동, 갑상선내부 순서이다.¹⁻¹⁰⁾ 부검을 통해 갑상선내 부갑상선 선종이 발생하는 경우는 약 1.4~3.2% 정도로 더 흔한 것으로 알려져 있다.^{1,3,10)} 이소성 부갑상선은 부갑상선 수술의 실패 원인이 될 수 있어 주의하여야 하며 수술 전 충분한 검사를 통해 위치를 파악하는 것이 중요하다. 위치를 찾는 가장 좋은 진단 방법은 Technecium(Tc)-99 m sestamibi scan이며 수술 전 초음파검사는 진단에 약 98%의 민감도를 보인다.^{1,2,4,9-14)} 그러나 충분한 검사에도 수술시야에서 부갑상선을 찾을 수 없다면 갑상선내 이소성 부갑상선을 염두에 두고 수술 중 일측 갑상선엽 절제술을 시행하여 미처 발견하지 못한 병변을 제거해야 한다.

부갑상선 선종 환자에서 혈중 칼슘 농도는 대부분 증가되어 있지만, 본 증례와 같이 부갑상선 선종의 자연 피막외 출혈로 혈성 경색이 초래될 경우에는 저칼슘혈증

에서 고칼슘혈증 등으로 다양하게 나타날 수 있다.^{5,15)} 부갑상선 선종의 치료는 수술적 완전 절제가 원칙이며 대부분은 경부 절개로 가능하다. 본 증례와 같이 갑상선내 이소성 부갑상선 선종이 존재할 경우에는 동측 갑상선엽 절제술을, 종격동에 위치하는 경우에는 추가로 흉골절개술(sternotomy)을 시행할 수 있다. 파열된 부갑상선 선종은 중앙 세포의 파급으로 인해 국소 재발이 나타나 재발성 부갑상선 기능항진증이 나타날 수 있기 때문에 부갑상선 호르몬 수치와 혈중 칼슘농도 측정 등 장기적인 추적관찰이 필요할 것이다.

REFERENCES

- 1) Jaskowiak N, Norton JA, Alexander HR, Doppman JL, Shawker T, Skarulis M, et al. A prospective trial evaluating a standard approach to reoperation for missed parathyroid adenoma. *Ann Surg* 1996;224(3):308-20; discussion 320-1.
- 2) Santos GH, Tseng CL, Frater RW. Ruptured intrathoracic parathyroid adenoma. *Chest* 1975;68(6):844-6.
- 3) Abboud B, Sleilaty G, Ayoub S, Hachem K, Smayra T, Ghorra C, et al. Intrathyroid parathyroid adenoma in primary hyperparathyroidism: can it be predicted preoperatively? *World J Surg* 2007;31(4):817-23.
- 4) Kaplan EL, Yashiro T, Salti G. Primary hyperparathyroidism in the 1990s. Choice of surgical procedures of this disease. *Ann Surg* 1992;215(4):300-17.
- 5) Taniguchi I, Maeda T, Morimoto K, Miyasaka S, Suda T, Yamaga T. Spontaneous retropharyngeal hematoma of a parathyroid cyst: report of a case. *Surg Today* 2003;33(5):354-7.
- 6) Ku P, Scott P, Kew J, van Hasselt A. Spontaneous retropharyngeal hematoma in a parathyroid adenoma. *Aust N Z J Surg* 1998;68(8):619-21.
- 7) Simcic KJ, McDermott MT, Crawford GJ, Marx WH, Ownbey JL, Kidd GS. Massive extracapsular hemorrhage from a parathyroid cyst. *Arch Surg* 1989;124(11):1347-50.
- 8) Merante-Boschin I, Fassan M, Pelizzo MR, Ide EC, Rugge M. Neck emergency due to parathyroid adenoma bleeding: a case report. *J Med Case Reports* 2009;3:7404.
- 9) Grimley RP, Davies H. Intrathyroid cystic parathyroid adenoma: a rare case of hyperparathyroidism. *Br J Surg* 1997;64(11):798-9.
- 10) Halenka M, Frysak Z, Koranda P, Kucerova L. Cystic parathyroid adenoma within multinodular goiter: a rare cause of primary hyperparathyroidism. *J Clin Ultrasound* 2008;36(4):243-6.
- 11) Feliciano DV. Parathyroid pathology in an intrathyroidal position. *Am J Surg* 1992;164(5):496-500.
- 12) Randel SB, Gooding GA, Clark OH, Stein RM, Winkler B. Parathyroid variants: US evaluation. *Radiology* 1987;165(1):191-4.
- 13) Kobayashi T, Man-I M, Shin E, Kikkawa N, Kawahara K, Kurata A, et al. Hyperfunctioning intrathyroid parathyroid adenoma: report of two cases. *Surg Today* 1999;29(8):766-8.
- 14) Ulanovski D, Feinmesser R, Cohen M, Sulkes J, Dudkiewicz M, Shpitiz T. Preoperative evaluation of patients with parathyroid adenoma: role of high-resolution ultrasonography. *Head Neck* 2002;24(1):1-5.
- 15) Locchi F, Tommasi M, Brandi ML, Tonelli F, Meldolesi U. A controversial problem: is there a relationship between parathyroid hormone level and a parathyroid size in primary hyperparathyroidism? *Int J Biol Markers* 1997;12(3):106-11.