Case Report
online © ML Comm
Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2010;53:716-8 / DOI 10.3342/kjorl-hns.2010.53.11.716
pISSN 2092-5859 / eISSN 2092-6529

A Case of Brown Tumor of the Mandible Caused by Hyperparathyroidism

Min-Su Kim, Doo Hee Han and Chul Hee Lee

Department of Otorhinolaryngology, Seoul National University College of Medicine, Seoul, Korea

부갑상선기능항진증으로 발생한 하악골 갈색종 1예

김민수 · 한두희 · 이철희

서울대학교 의과대학 이비인후과학교실

Received July 27, 2010
Revised September 14, 2010
Accepted September 27, 2010
Address for correspondence
Chul Hee Lee, MD
Department of Otorhinolaryngology,
Seoul National University
College of Medicine,
39 Boramae-gil, Dongjak-gu,
Seoul 156-707, Korea
Tel +82-2-2072-3646
Fax +82-2-745-2387
E-mail chulhee@snu.ac.kr

Brown tumors are erosive bony lesions caused by the chronic excessive secretion of parathyroid hormone. Since the introduction of routine calcium measurement, the diagnosis of hyperparathyroidism has usually been made in asymptomatic patients, and as a result, brown tumors are rarely observed as an initial manifestation of hyperparathyroidism. The authors report a case of a 32-year-old woman who presented with right cheek swelling. A CT scan showed erosive bone tumors of the mandible. These lesions were finally diagnosed as brown tumors associated with secondary hyperparathyroidism due to chronic renal failure. Brown tumor as a result of hyperparathyroidism is a relatively rare clinical finding in otorhinolaryngology, thus, the authors illustrate this case with a brief review of the literature.
Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2010;53:716-8

Key Words Brown · Neoplasm · Hyperparathyroidism · Mandible.

서 론

원발성 부갑상선기능항진증은 부갑상선호르몬의 과잉분비로 인해 칼슘, 인산 및 골 대사에 이상을 초래하는 질환이다. 최근 혈청 칼슘 측정이 보편화되면서 증상이 없는 상태에서 원발성 부갑상선기능항진증이 발견되는 경우가 대부분이다. 갈색종은 만성적인 부갑상선호르몬의 과다분비로 인해 파골세포가 활성화되고 골의 재흡수와 섬유화가 진행되어 발생하는 병변으로 진행된 부갑상선기능항진증에서 발생한다. 저자들은 우측 협부 종창 때문에 시행한 CT에서 하악골에 골용해성 병변이 발견되어 검사 후 만성신부전으로 인한 이차성 부갑상선기능항진증으로 진단받은 갈색종 1예를 경험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

32세 여자 환자가 내원 2개월 전부터 발생한 우측 협부종창으로 내원하였다. 우측 협부에 2~3 cm 크기의 종괴가 만져졌으며 구강내 소견에서 우측 윗잇몸이 부어있는 소견이 관찰되었다. 비강내 관찰소견에서는 특별한 이상소견이 관찰되지는 않았다. 내원 당시에 촬영한 CT에서 전반적인 골용해성 변화가 보였으며 우측 하악각 주위에 다낭성의 팽창성 병변이 관찰되었다(Fig. 1A).

환자는 만성신부전으로 15년 전부터 복막투석을 받고 있으며 8년 전에는 신세포암으로 우측 신적출술을 시행받은 병력이 있었다. 그동안 만성신부전으로 인한 이차성 부갑상선기능항진증이 있어 부갑상선 절제술을 권유했으나 환자가 거부하고 있는 상황이었다.

부갑상선기능항진증에 의한 갈색종을 의심하였고 추가적인 검사를 진행했다. 내원당시에 측정한 부갑상선호르몬(intact parathyroid hormone, intact PTH)는 2,146 pg/mL(참고치: 10~65), 알칼리인산분해효소(alkaline phosphatase)는 2,851 IU/L(참고치: 30~115)로 상승되어 있었다. 혈청 칼슘이 10.4 mg/dL(참고치: 8.8~10.5), 인산염은

 Copyright © 2010 Korean Society of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery

5.0 mg/dL(참고치: 2.5~4.5)이었다. ^{99m}Tc-sestamibi 부갑상선 스캔에서 좌측 갑상선의 상부에 지연성 섭취증가가 있어 부갑상선 과형성을 의심할 수 있었다(Fig. 2A and B). 갑상선초음파에서 좌측 갑상선의 상부에 1.2×0.7×1.9 cm의 부갑상선 과형성을 의심할 수 있는 병변이 있었고, 좌측 갑상선에는 상부에 1.5×1.2×1.6 cm, 중간부에 1.0×1.1 cm, 하부에 0.5×0.7 cm의 불확정적인 결절이 있었으나 세침흡인검사에서 양성으로 진단되었다. 갑상선 CT에서 초음파 및 이전 CT와 같은 소견을 보였으며 경부 림프절의 이상은 관찰되지 않았다.

상기 검사소견에 따라 이비인후과적으로는 우선 부갑상선 절제술을 시행 후 갈색종의 변화양상을 관찰하기로 결정했다. 내원 2개월 후에 부갑상선 및 좌측갑상선 절제술을 시행하였다. 좌측 갑상선절제 후 시행한 동결절편검사에서 갑상선종으로 진단되었다. 우측상부 부갑상선은 0.5 cm이고 절반만 절제하였으며, 우측하부 부갑상선은 0.5 cm, 좌측상부 부갑상선은 1.5 cm, 좌측하부 부갑상선은 0.8 cm이었고 모두 절제하였다. 수술 후 성대마비는 관찰되지 않았다.

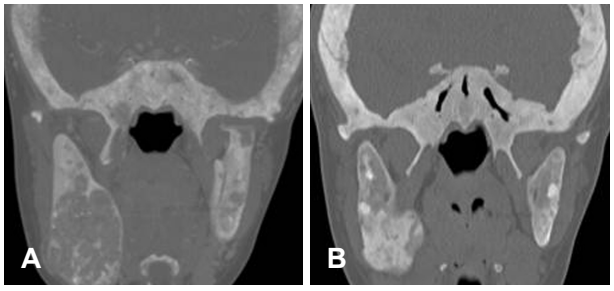

Fig. 1. Coronal CT scans shows that mass size was more decreased after parathyroidectomy. Preoperative (A) and postoperative (B) images.

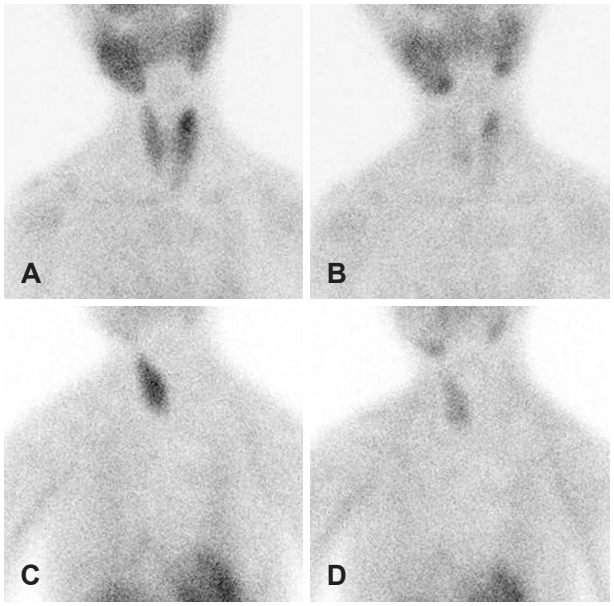

Fig. 2. Preoperative parathyroid scans with ^{99m}Tc-sestamibi show that a focal radioactive uptake (A) with delayed washout (B) at left upper portion of thyroid area. Postoperative parathyroid scans (C and D) with ^{99m}Tc-sestamibi show that radioactive uptake in preoperative scan disappears (A and C: early phase, B and D: delayed phase).

수술 직후에는 이온화칼슘은 0.91 mmol/L(참고치: 1.05~1.35)로 수술 후 발생한 골기아증후군(hungry bone syndrome)으로 인한 현상으로 생각되어 칼슘 및 비타민 D를 투여하였다. 수술 후 1일째 측정한 이온화칼슘은 1.08 mmol/L(참고치: 1.05~1.35)으로 교정이 되는 양상이었고, 부갑상선호르몬(intact PTH)는 78 pg/mL(참고치: 10~65), 혈청 칼슘이 9.1 mg/dL(참고치: 8.8~10.5), 인산염은 2.7 mg/dL(참고치: 2.5~4.5)이었다.

수술 3개월 후 촬영한 ^{99m}Tc-sestamibi 부갑상선 스캔에서 섭취증가 소견은 보이지 않았다(Fig. 2C and D). 또한 수술 6개월 후 촬영한 CT에서 갈색종 크기가 감소한 소견이 관찰되었다(Fig. 1B). 향후 갈색종 크기 변화에 대해 경과관찰하면서 추가적인 수술진행 여부를 결정할 예정이다.

고 찰

갈색종 즉, 낭성 섬유성 골염(oteitis fibrosa cystica)은 1891년 처음 기술된 후 현재는 부갑상선 기능 항진증에 의한 광범위한 골흡수 과정의 결과로 알려져 있다.[1] 종양의 특징적인 색깔은 hemosiderin이 파골세포에 침착되어 나타나는 것으로 갈색종이라는 명칭이 이로부터 유래하였다.

갈색종은 원발성 부갑상선기능항진증의 후기에 나타나는 고립성 혹은 다발성 골병변이다. 갈색종은 대부분 서서히 자라고 통증을 동반하는 종괴의 형태로 나타나며 본 증례의 경우에도 내원 두달 전부터 시작된 우측 협부종창으로 병원을 방문하였다. 갈색종은 안면골, 골반, 늑골, 대퇴골이 흔한 병소로 알려져 있다.[2] 그러나 이비인후과 영역에서는 보기 드문 질환으로 알려져 있다. 현재까지 국내에서는 경구개에 생긴 한 예가 보고될 정도로 드물다.[1] 갈색종이 고립성일 경우 동맥류, 골낭종 혹은 거대세포종으로 오인되기 쉽고,[3] 다발성인 경우에는 전이성 골병변과 감별이 필요하다.[4] 갈색종은 조직검사에서 거대세포가 관찰되며 부갑상선호르몬을 포함한 진단 검사가 거대세포종과 같은 거대세포 병변과의 감별에 도움을 주는 것으로 알려져 있다.[5] 본 증례의 경우 조직검사를 시행하지는 않았지만 부갑상선 기능항진증에서 경계가 명확한 팽창성 골용해 병변이 다발성으로 있을 경우 거대세포종보다는 갈색종양을 시사한다는 점에서 갈색종에 부합한다고 생각한다.[6]

부갑상선 절제술 후 갈색종의 치료방법에 대해서는 이견

이 있다. Scott 등[7]은 부갑상선 절제술 후 갈색종이 서서히 소실되지만 골 파괴를 동반한 광범위한 낭성 변화가 있는 갈색종의 경우는 수술이 필요하고, Daniel[5]은 갈색종의 자연 소실이 더디거나 크기가 커지거나 기능적 장애가 있는 경우에 외과적 적출을 해야 한다고 보고하였다. 반면 Knezević 등[8]은 부갑상선 절제술 후 환자의 나이와 골병변의 크기에 따라 골병변이 소실되는 시간에 차이가 있을 뿐 골병변에 대한 수술은 필요하지 않다고 하였다. 저자들의 경우에도 부갑상선 절제술만으로도 호전을 보이고 있음을 관찰하였다. 한편, 기존의 문헌보고에 의하면 골용해성 병변을 골종양으로 생각하고 검사 및 치료를 진행하다가 추후 부갑상선 기능항진증을 진단한 경우도 많았다.[9-12] 그러나 본 증례에서는 환자가 오래전부터 만성신부전으로 인한 이차성 부갑상선 기능항진증이 있어 진단적 접근이 쉽게 이루어진 편이었다. 부갑상선 절제술 후 협부종창의 크기가 상당히 줄어들고 있는 양상으로 향후 크기가 더 이상 줄어들지 않는다면 추가적인 골종양 절제술을 고려할 수 있으나 현재로서는 호전되는 양상으로 판단하며 CT 촬영 등을 통한 정기적 경과관찰을 계획하고 있다.

REFERENCES

1) Chun BJ, Lee MH, Noh HI, Park YJ. A case of brown tumor of the hard palate in association with primary hyperparathyroidism. Korean J Otorhinolaryngol-Head Neck Surg 2009;52(7):612-5.
2) Gonzalez-Martínez E, Santamarta-Gómez D, Varela-Rois P, García-Cosamalón J. Brown tumor of the orbital roof as an initial and isolated manifestation of secondary hyperparathyroidism. Orbit 2010;29(5):278-80.
3) Kaya RA, Cavuşoğlu H, Tanik C, Kahyaoğlu O, Dilbaz S, Tuncer C, et al. Spinal cord compression caused by a brown tumor at the cervicothoracic junction. Spine J 2007;7(6):728-32.
4) Jouan A, Zabraniecki L, Vincent V, Poix E, Fournié B. An unusual presentation of primary hyperparathyroidism: severe hypercalcemia and multiple brown tumors. Joint Bone Spine 2008;75(2):209-11.
5) Daniels JS. Primary hyperparathyroidism presenting as a palatal brown tumor. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 2004;98(4):409-13.
6) Blinder G, Hiller N, Gatt N, Matas M, Shilo S. Brown tumor in the cricoid cartilage: an unusual manifestation of primary hyperparathyroidism. Ann Otol Rhinol Laryngol 1997;106(3):252-3.
7) Scott SN, Graham SM, Sato Y, Robinson RA. Brown tumor of the palate in a patient with primary hyperparathyroidism. Ann Otol Rhinol Laryngol 1999;108(1):91-4.
8) Knezević G, Uglesić V, Kobler P, Svajhler T, Bagatin M. Primary hyperparathyroidism: evaluation of different treatments of jaw lesions based on case reports. Br J Oral Maxillofac Surg 1991;29(3):185-8.
9) Choi YW, Ok CS. Brown tumor of the spine with compression fracture: a case report. J Korean Radiol Soc 2006;54(1):33-7.
10) Chung DW, Han CS, Park JY, Jeong ST. A brown tumor in metacarpal bone accompanied with primary hyperparathyroidism- a case report-. J Korean Soc Surg Hand 2006;11(1):66-71.
11) Kao HL, Chang WC, Lee CH, Lee HS, Huang GS. Missed brown tumors in a young adult with decreased bone density. South Med J 2010;103(4):371-3.
12) Yamazaki H, Ota Y, Aoki T, Karakida K. Brown tumor of the maxilla and mandible: progressive mandibular brown tumor after removal of parathyroid adenoma. J Oral Maxillofac Surg 2003;61(6):719-22.