급성 경부 혈종을 일으킨 부갑상선선종 1예

신태현 · 박성수 · 원청세 · 김미경 · 김민수*

차의과학대학교 분당차병원 이비인후과-두경부외과

Parathyroid Adenoma Causing Spontaneous Cervical Hematoma: A Case Report and Review of Literature

Tae-Hyun Shin, MD, Sung-Su Park, MD, Cheong-Se Won, MD, Mi Kyung Kim, MD, Min-Su Kim, MD*

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery, CHA Bundang Medical Center,
CHA University School of Medicine, Gyeonggi-do, Korea

= Abstract =

Parathyroid adenoma can cause extracapsular bleeding. In 1934, Capps first reported a case of massive hemorrhage secondary to rupture of a parathyroid adenoma. Recently, we experienced a 73-year-old female presented with pharyngeal discomfort and extensive ecchymosis over the neck without history of trauma. Endoscopic investigation revealed submucosal hemorrhage in the posterior wall of the hypopharynx. CT scan and ultrasonography demonstrated the presence of a mass below the left thyroid lobe. Serum calcium level was normal and PTH level was elevated. We underwent left thyroidectomy and parathyroidectomy 2 weeks later from first visit. During the operation, hypopharyngeal mucosa was teared and it was treated with pharyngostoma formation and L-tube feeding. We report a rare case of normocalcemic parathyroid adenoma with spontaneous hemorrhage and propose the proper management period with a literature review

Key Words : Parathyroid adenoma · Cervical hematoma · Pharyngocutaneous fistula

서론

부갑상선선종은 일차성 부갑상선기능항진증을 일으키는 가장 흔한 원인이다. 일반적으로 부갑상선선종 환자들은 특별한 증상 없이 검진상 혈중 칼슘 농도가 높아져 병원을 찾거나 과다한 부갑상선호르몬에 의한 만성 뼈의 재흡수로 변비, 요석, 골절과 같은 증상을 흔하게 나타내게 된다. 1934년에 Capps에 의해 처음으로 부갑상선기

원 종양의 파열로 인한 2차적 출혈이 보고된 바 있다.¹⁾ 이같은 피막외출혈은 통증을 동반한 경부부종, 반상출혈 뿐 아니라 인접한 기관지, 되돌이후두신경, 식도 등 중요 구조물에 대한 압박으로 인한 증상을 일으킬 수 있어 주의가 필요하다.²⁾ 저자들은 정상 혈청 칼슘 수치를 가진 부갑상선선종의 자발적인 파열로 인한 경부 출혈의 드문 증례를 경험하여 문헌고찰과 함께 보고한다.

증례

73세의 여성이 연하통, 연하곤란으로 외래를 방문하였다. 과거에 특별한 내과적 질환이나 외상의 이력은 없었지만 최근 영양보충의 목적으로 한약을 복용 중이었다고 하였다. 계통문진에서 손발저림이나 복부-골반부 통증 등은 없었다. 신체검진상 전경부의 작은 반상 출혈을 보이고 있었고, 인후두 내시경상 좌측 피열연골부위의 충

Received: May 30, 2019

Revised: August 28, 2019

Accepted: October 31, 2019

+Corresponding author: Min-Su Kim, MD

Department of Otorhinolaryngology-Head and Neck Surgery,
CHA Bundang Medical Center, CHA University School of
Medicine, 59, Yatap-ro, Bundang-gu, Seongnam-si, Gyeonggi-do,
Republic of Korea 13496

Tel: +82-31-780-6113, Fax: +82-31-780-3449

E-mail: abraxas7@cha.ac.kr

Fig. 1. CT scan demonstrated the presence of a mass below the left thyroid lobe (A, B). Thyroid ultra-sonogram showed large, regular complex cystic mass that upwardly deviates the left thyroid and laterally deviates the carotid space (C). Parathyroid scan showed abnormal uptake in the left upper and lower parathyroid gland (D).

혈 및 부종 소견이 있었다. 환자는 검사 및 상기도 폐색 가능성에 대한 면밀한 추적관찰을 위해 입원하였다.

하루가 지난 뒤 경부 통증, 출혈 및 부종이 좀 더 심해지는 양상이었다. 인후두 내시경에서 인두후벽 및 후두, 하인두에서 점막출혈이 관찰되었다. 경부전산화단층촬영에서 좌측 갑상선 아래 위치에 내부 액체단층을 보이며 주변 연부조직으로 전반적인 침윤을 보이고 있는 장경 6cm에 달하는 종괴가 확인되었다(Fig. 1A, B). 경부 초음파를 시행하였고 좌측 갑상선 후하방 경계부에서 갑상선과 경동맥을 전위시키고 주변에 염증성 변화를 동반한 비교적 균질적인 에코음영을 보이는 종물이 확인되었고(Fig. 1C), 세침흡인검사에서는 성숙한 림프구와 적혈구 세포가 확인되며 악성화는 보이지 않았다. 혈액 검사에서 환자의 혈청 칼슘 (9.5 mg/dl, reference range 8.6-10.2), 인산 (3.0 mg/dl, reference range 2.5-4.5 mg/dl) 농도 및 갑상선 기능검사 결과는 정상이었으나 부갑상선호르몬 (Intact parathyroidhormone, iPTH) 농도는 증가되어 있었다(90.9 pg/ml, reference range 10-60 pg/ml). 상부위

장관 내시경검사상 외부의 압박으로 인한 식도협착이 보였고 다른 소견은 관찰되지 않았다. 부갑상선 스캔을 시행하였고 좌측 상부와 하부에 각각 비정상적인 흡수를 보이는 부분이 확인되었다(Fig. 1D). 입원 이틀째부터 연하통 및 연하곤란 증상은 다소 나아지는 양상이었으나 경부 반상 출혈 및 인후두 내시경상 울혈은 좀 더 심해졌다(Fig. 2). 이 같은 소견을 종합하여 부갑상선 기원의 종양을 의심해 볼 수 있었다. 치료계획 수립을 위해 내분비내과와 협의하였고, 부갑상선 악성 종양의 가능성은 1% 이내이나 세침흡인검사로는 악성여부에 대한 감별진단에 필수적인 혈관침입, 피막침범 등의 소견을 확인할 수 없으므로 악성 가능성 감별을 위해 절제적 조직 검사를 권하였다. 다만 고칼슘혈증이 없어 응급 수술의 적응증은 아니라고 답하였다. 증상의 발생 2주 후, 환자의 주관적 불편감이 모두 호전되었고 경부 반상 출혈 및 인후두 내시경 소견도 거의 정상화 되어 병변의 수술적 제거를 계획하였다. 재원 15일째, 전신마취하에 좌측 갑상선 및 부갑상선 절제술을 시행하였다. 좌측 갑상선 뒤

Fig. 2. Cervical ecchymosis and larynx mucosal lesion on hospital day 3 (A, B)

Fig. 3. Hypopharyngeal leakage found on the third postoperative day (A), improved pharyngogram result after 2 months (B).

에 위치한 검붉은 낭성종괴가 확인되었고 인접조직과의 심한 유착이 관찰되었다. 박리를 시행하던 중 하인두 점막의 일부가 손상되었으며 일차적 봉합을 시행하고 수술을 마쳤다.

수술 후 경과관찰 중 수술부위에 국소적인 붓기와 발적 소견이 있어 수술 3일째 시행한 인두조영술상 하인두의 천공이 관찰되었다(Fig. 3A). 이후 비위관 식이 및 인위적 인두누공 (pharyngostoma) 형성을 통한 약 4주간의 보존적 치료로 하인두 천공은 완치되었다(Fig. 3B). 수술 후 좌측 성대마비가 있었으나 약 8주후 호전되었다. 최종 병리소견에서는 부갑상선선종으로 확인되었다. 환자의 혈청 iPTH 수치는 수술 후 3일째 시행한 검사에서 정상화 되었으며, 수술 후 1년째 특별한 주관적 호소 및 검사 결과 이상 없이 외래 추적관찰 중이다.

고찰

부갑상선 기원의 종양이 자발적 경부 출혈을 유발하는 경우는 드물며 비외상성 출혈의 병태생리는 아직까지 알려지지 않고 있다. 다만 내분비계 신생물에서 비교적 흔하게 보이는 졸증 (apoplexy)과 유사하게 세포 성장과 혈류 공급간의 불균형으로 인한 괴사성변화에 기인할 것으로 추정되고 있다.²⁾

부갑상선 종양의 가장 흔한 임상적 징후는 고칼슘 혈증이며, 일차성 부갑상선 기능 항진증 환자에 있어 부갑상선선암의 유병율은 2% 미만으로 매우 드물다고 알려져 있다.³⁾ Merante등은 경부 출혈을 동반한 부갑상선 종양의 사례를 보고하면서 지금까지 다른 기관에서 보고된 유사한 사례들을 모두 모아 계통적으로 분석하였다.²⁾ 총

34개의 증례들 중에서 부갑상선선암의 1례를 제외하고 나머지는 모두 양성 선종이나 단순 낭종으로 진단되었다.^{2,4,9)} 문헌상 확인된 부갑상선선종 피막외 출혈의 임상 양상은 갑자기 발생하는 목불편감, 연하곤란, 호흡곤란, 쉼 목소리 등과 함께 반상출혈을 동반한 경부 종물을 보이는 경우가 많았다. 악성이었던 1례에서도 다른 증례들과 비교하였을 때 고칼슘혈증이 심하거나 출혈로 인한 동반 증상이 심하지는 않았다.⁴⁾

원발 병변의 수술 시점은 문헌마다 차이가 있었으며 아직까지 출혈을 동반한 부갑상선 종양의 수술적 치료의 적절한 시기가 합의된 바는 없다. 다만 많은 연구에서 합병증 등을 고려하여 증상 발생 3개월 이후에 시행할 것을 권고하고 있었다.⁷⁻⁹⁾ 본 증례의 경우 환자의 점상 출혈이 흉부로도 진행되는 모습을 보이고 내분비내과에서 악성종양을 감별하기 위한 조직학적 확인을 권고하여 상대적으로 이른 시기에 외과적 절제술을 시행하였다. 그래서 수술시 주변 구조물로부터 병변을 제거할 때 경계가 명확하지 않고 유착이 심하여 박리에 어려움을 겪었다. 이는 아마도 혈종의 재흡수가 충분히 이뤄지지 않아 국소적인 염증반응을 야기했기 때문인 것으로 보인다. 따라서 상부 기도 압박으로 인한 호흡곤란과 같은 응급한 징후가 없는 경우에는 되돌이켜두신경, 하인두, 식도등을 포함한 인접 구조물의 손상 방지를 위해 다른 증례보고에도 나온 것처럼 최소 3개월 이상 외과적 개입을 지연하는 것이 바람직했다고 사료된다. 만약 상기도 폐쇄 증상이 있더라도 기관삽관, 기도절개술, 중환자실 치료등을 포함하는 급성기 관리를 우선적으로 한 뒤 충분한 검사를 하여 수술적 개입을 가능한 연기하는 것을 고려할 필요가 있다.

대부분의 부갑상선 선종은 혈중 칼슘 및 iPTH 농도가 증가되어 있으나 본 증례의 경우 칼슘 농도는 정상을 나타내었다. 한 연구에서는 이같이 부갑상선 선종이 비기능성을 나타내는 이유로 세가지 가능성을 제시하였다. 첫째로 낭포성 퇴화로 인한 2차적 조직 괴사증이 있을 수 있고, 둘째로는 부갑상선 자극호르몬의 분비 경로가 혈류 대신 낭포의 내강으로 바뀔 수 있다는 점, 셋째로는 혈종으로 인한 압력이 선종 주변의 혈류를 방해할 수 있다는 점을 가설로 제시하였다.⁵⁾ 본 증례에 해당하는 정상칼슘 부갑상선기능항진증 (Normocalcemic hyperparathyroidism, NHPT)의 적절한 치료 가이드라인은 아직까지 정립되지 않았다. 하지만 한 연구에 의하면 이런 환자군에게 부갑상선절제술을 시행하는 것이 고칼슘 부갑상선기능항진증의 경우만큼 안전하고 효과적이라는

연구결과가 보고된 바 있다.¹⁰⁾

결론적으로, 저자들은 부갑상선선종의 피막외출혈로 인한 경부 출혈은 드물지만 자발적 경부혈종의 감별진단으로 반드시 고려되어야 하고 악성 종양일 가능성은 매우 낮으므로 충분한 기간동안 보존적 치료를 하며 출혈이 흡수되어 호전되기를 기다린 뒤 외과적 처치를 고려해야한다는 교훈을 얻었다.

감사의 글

This work was supported by the National Research Foundation of Korea (Grant number, NRF-2017R1C1B1008842).

References

- 1) Capps RBJAJMS. *Multiple parathyroid tumors with massive mediastinal and subcutaneous hemorrhage: a case report.* 1934; 188:800-805.
- 2) Merante-Boschin I, Fassan M, Pelizzo MR, Ide EC, Rugge MJJomcr. *Neck emergency due to parathyroid adenoma bleeding: a case report.* 2009;3:7404.
- 3) Obara T, Fujimoto YJWjos. *Diagnosis and treatment of patients with parathyroid carcinoma: an update and review.* 1991; 15:738-744.
- 4) Erdas E, Licheri S, Lai M, Pisano G, Pomata M, Daniele GJCi. *Cervico-mediastinal hematoma secondary to extracapsular hemorrhage of parathyroid carcinoma. Clinical case and review of the literature.* 2003;55:425-434.
- 5) Shim WS, Kim IK, Yoo SD, Kim DH. *Non-functional parathyroid adenoma presenting as a massive cervical hematoma: A case report.* Clin Exp Otorhinolaryngol. 2008;1:46-48.
- 6) Yoshimura N, Mukaida H, Mimura T, Iwata K, Amioka A, Hirabayashi N, et al. *A case of an acute cervicomediastinal hematoma secondary to the spontaneous rupture of a parathyroid adenoma.* Ann Thorac Cardiovasc Surg. 2014;20 Suppl:816-820.
- 7) Shinomiya H, Otsuki N, Takahara S, Yasui R, Sawada N, Komatsu H, et al. *Parathyroid adenoma causing spontaneous cervical hematoma: two case reports.* BMC Res Notes. 2015;8:726.
- 8) van den Broek JJ, Poelman MM, Wiarda BM, Bonjer HJ, Houdijk AP. *Extensive cervicomediastinal hematoma due to spontaneous hemorrhage of a parathyroid adenoma: A case report.* J Surg Case Rep. 2015;5:1-3.
- 9) Chaffanjon PC, Chavanis N, Chabre O, Brichon PY. *Extracapsular hematoma of the parathyroid glands.* World J Surg. 2003; 27:14-17.
- 10) Traini E, Bellantone R, Tempera SE, Russo S, De Crea C, Lombardi CP, et al. *Is parathyroidectomy safe and effective in patients with normocalcemic primary hyperparathyroidism?* 2018;403:317-323.