

기능성 부갑상선 낭종

연세대학교 의과대학 외과학교실, ¹병리학교실

윤종호 · 장항석 · 정웅윤 · 김태승¹ · 박영년¹ · 박정수

Functional Parathyroid Cyst

Jong Ho Yoon, M.D., Hang-Seok Chang, M.D., Woung Youn Chung, M.D., Tae Seung Kim, M.D.¹, Young Nyun Park, M.D.¹ and Cheong Soo Park, M.D.

Parathyroid cysts are uncommon lesions of the neck and superior mediastinum, rarely large enough to be of clinical significance. They frequently present as a clinical diagnostic problem. They may mimic solitary thyroid nodule. They can be classified as either functioning or non-functioning depending on whether or not they are associated with hypercalcemia. Non-functioning or "true" cysts are those associated with normocalcemia (85%), whereas functioning or "pseudocysts" are those associated with hypercalcemia (15%). The presence of a high content of intact parathyroid hormone (iPTH) in the cystic fluid on fine-needle aspiration (FNA), in conjunction with elevated serum levels of calcium and iPTH is diagnostic of a functional parathyroid cyst, which usually requires surgical removal. We report herein two cases of such a functional parathyroid cyst and present a review of the literature. (*J Korean Surg Soc* 2004;66:243-247)

Key Words: Functional parathyroid cyst, Hypercalcemia, Parathyroid hormone

중심 단어: 기능성 부갑상선 낭종, 고칼슘혈증, 부갑상선 호르몬

Departments of Surgery and ¹Pathology, Yonsei University College of Medicine, Seoul, Korea

서 론

부갑상선 낭종은 경부 및 상종격동에서 발생하는 드문 질환으로 1880년 Sandstrom(I)이 부갑상선 낭종을 처음 보

책임저자 : 박정수, 서울시 서대문구 신촌동 134번지
☎ 120-752, 연세대학교 의과대학 외과학교실
Tel: 02-361-5546, Fax: 02-313-8289
E-mail: ysurg@yumc.yonsei.ac.kr
접수일 : 2003년 9월 18일, 게재승인일 : 2003년 11월 8일

고한 이래 1905년 Goris(2)가 부갑상선 낭종을 최초로 수술하였고, 1925년 De Quervain 등(3)이 종격동내 부갑상선 낭종을 보고하였으며 이후 전 세계적으로 약 240여가 보고되었다.(4) 이전에는 수술 전 부갑상선 낭종을 확인하고 수술하는 경우가 드물었으나 최근에는 경부 초음파 검사, ^{99m}Tc sestamibi scan 및 MRI 등 수술 전 부갑상선에 대한 중앙 위치 검사의 발달과 더불어 부갑상선 낭종에 대한 세침 흡인술을 통한 낭종 내용물의 정상 확인 및 낭종 내용물 내의 c-terminal 혹은 n-terminal PTH치를 측정함으로써 수술 전 부갑상선 낭종의 진단이 용이해져 수술 시 불필요한 수술 범위의 확대 및 갑상선엽 절제술을 피할 수 있게 되었다. 부갑상선 낭종의 대부분은 비기능성으로 문헌에 따라 차이는 있지만 전체 부갑상선 낭종의 약 10~15%만이 부갑상선 기능 항진증을 동반한 기능성으로 보고되고 있으며,(5,6) 1952년 Greene 등(7)이 최초로 기능성 부갑상선 낭종을 보고한 이래 현재까지 약 20여가 보고된 바 있다.(6) 저자들은 최근 부갑상선 기능항진증을 동반한 기능성 부갑상선 낭종 2예를 치험하였기에 이를 문헌고찰과 함께 보고하고자 한다.

증 례

증 례 1.

55세 여자 환자가 2개월 전부터 좌측 옆구리 동통을 주소로 좌측 요로 결석 진단하에 보존적 치료를 받던 중 혈액 검사상 우연히 고칼슘혈증 소견을 보였다. 과거력상 30년 전 폐결핵으로 1년간 항결핵제 복용 후 완치 판정을 받았으며, 11년 전 자궁 근종으로 자궁적출술을 시행 받은 병력이 있고, 1년 전부터 고혈압 진단하에 항고혈압 제제를 복용 중이다. 가족력상 특이 소견은 관찰되지 않았다. 내원 당시 문진상 전신 쇠약감, 피로감, 불면증, 오심 및 빈뇨 증세를 호소하였다. 신체검사상 환자는 만성 병색을 보였으며 우측 전 경부에 약 2 cm의 경계가 비교적 분명하고 부드러운 고경되어 있지 않은 약간의 압통을 동반한 종괴가 촉지되었다. 내원 당시 시행한 혈청학적 검사상 칼슘 및 인산치는 각각 11.6 mg/dl, 2.5 mg/dl로 고칼슘혈증 소견을 보였으며 알칼리성 인산염(alkaline phosphatase) 치는 101 IU/L로 정상 소견이었고 부갑상선 호르몬 (intact PTH) 치는 208.4 pg/ml (정상 범위: 10~65 pg/ml)로 증가되어 원발성 부갑상

선 기능 항진증에 합당한 검사 소견을 보였다. ^{99m}Tc sestamibi scan상 우측 갑상선엽의 중간 부위에 지연 방출되는 병소가 관찰되었으며(Fig. 1), 경부 초음파 검사상 우측 갑상선엽에 약 2.8×2.1×1.8 cm의 부분적으로 중격을 형성하며 고형 성분을 포함하고 있는 저 에코성 결절과 좌측 갑상선엽 중간 부위의 기저부에도 또 다른 결절 소견이 관찰되었다(Fig. 2). 우측 전경부에 축지되는 낭성 종괴에

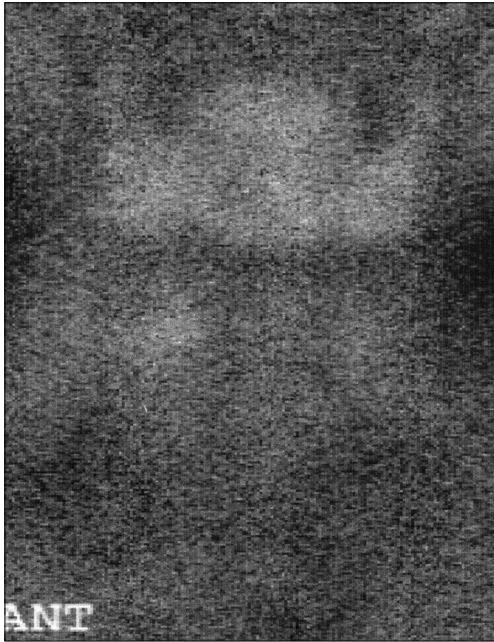


Fig. 1. ^{99m}Tc sestamibi scan showing a focus of delayed washout in the middle portion of the right thyroid gland.

대한 세침흡인술 시 내용물은 장액성 양상으로 진한 노란색을 띠었고 내용물에서 측정된 PTH 치는 821.86 pg/ml로 현저하게 증가되어 있는 소견을 보였다. 환자는 수술 전 시행한 부갑상선에 대한 국소화 검사인 경부 초음파 검사 및 ^{99m}Tc sestamibi scan의 소견이 일치하지 않아 고식적인 양측 경부 탐색술을 시행하였다. 수술 소견상 우측 갑상선엽 상부의 갑상선 실질 내에 약 1.5×1 cm의 피막이 형성되어 있으면서 부분적으로 낭성 성분과 고형 성분이 혼합되어 있는 종괴가 관찰되었으며 이는 동결절편 검사상 갑상선 실질내의 부갑상선 조직으로 보고되었고 반대편 부갑상선에는 이상 소견이 관찰되지 않았다. 수술은 부갑상선 낭종을 포함한 갑상선 우엽 절제술을 시행하였으며 수술 후 시행한 혈청학적 검사상 칼슘 및 부갑상선 호르몬 치는 각각 10.3 mg/dl, 2.05 pg/ml이었고, 병리 조직 검사 결과는 부갑상선 선종의 낭성 변화에 합당한 소견으로 보고되었다(Fig. 3). 환자는 수술 후 2일째 별다른 합병증 없이 퇴원하였으며, 수술 후 7일째 시행한 혈청 칼슘 및 부갑상선 호르몬 치는 각각 10.1 mg/dl, 15.52 pg/ml로 정상 소견을 보여 외래에서 추적 관찰 중이다.

증 례 2.

64세 여자 환자로 5년 전부터 하부 요통으로 강직성 척추염 및 골다공증 진단하에 보존적 치료를 받아 오던 중 외래 추적 관찰 시 시행한 혈액 검사상 우연히 고칼슘혈증 소견을 보였다. 과거력 및 가족력상 특이 소견은 없었으며, 내원 당시 문진상 하부 요통, 오심 및 복부 불편감 등의 증세를 호소하였다. 신체검사상 환자는 만성 병색을 보였으며 좌측 전 경부에 약 5 cm의 경계가 비교적 분명하고 부드러운

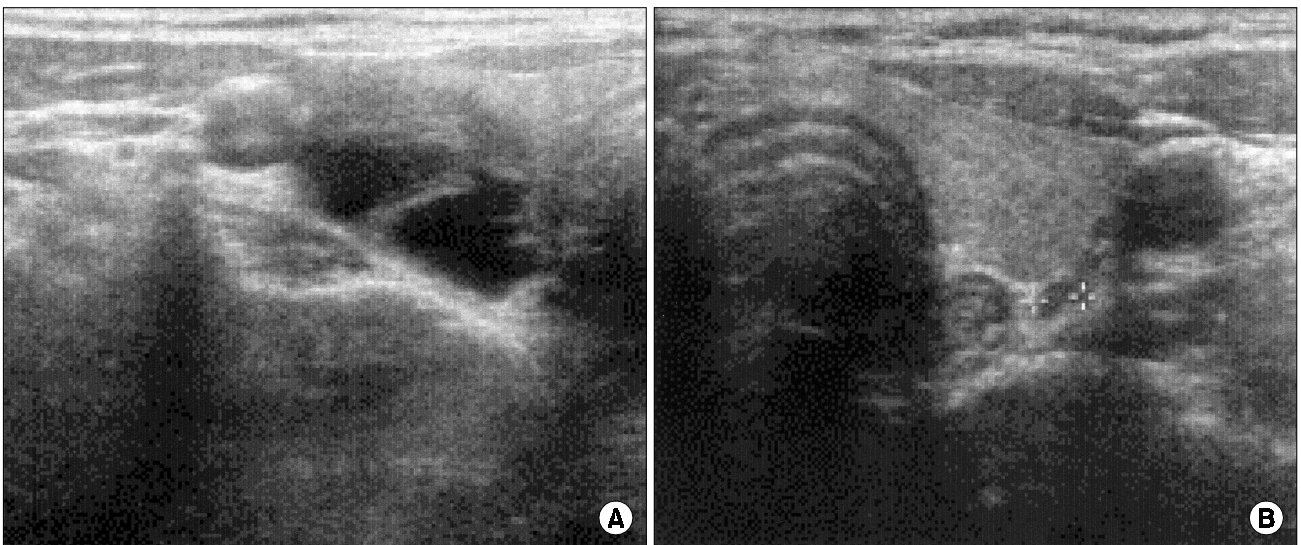


Fig. 2. Ultrasonography of the neck showing a 2.1×1.3×2.8 cm-sized septated hypoechoic nodule with internal echogenic portion in the right thyroid gland (A) and a nodule in the bed of the middle portion of the left thyroid gland (B).

며 고정되어 있지 않은 종괴가 축지되었다. ^{99m}Tc sesta-MIBI scan상 좌측 갑상선 하부에 저 섭취 결절이 관찰되었고 이 결절의 하부에서 지연 방출되는 병소가 관찰되었다 (Fig. 4). 경부 초음파 검사상 좌측 갑상선 하부에 약 5 cm 크기의 부분적으로 중격을 형성하며 고형 성분과 낭성 성분이 혼합된 양상의 저 에코성 결절이 관찰되었다(Fig. 5). 내원 당시 시행한 혈청학적 검사상 칼슘 및 인산 치는 각각 10.6 mg/dl, 1.8 mg/dl로 경미한 고칼슘혈증 소견을 보였으며 알칼리성 인산염(alkaline phosphatase) 및 부갑상선 호르몬(intact PTH) 치 역시 각각 236 IU/L, 403.61 pg/ml로 증가되

어 원발성 부갑상선 기능 항진증에 합당한 검사 소견을 보였다. 세침흡인술 시 내용물은 장액성 양상으로 진한 갈색을 띠었고 내용물에서 측정된 PTH 치는 1700 pg/ml 이상으로 현저하게 증가되어 있는 소견을 보였다. 수술은 좌측 하부 부갑상선에 대한 최소 침습 종양표적하 부갑상선 절제술을 시행하였으며, 수술 소견상 좌측 갑상선엽 하부의 후방에 약 10×5 cm의 피막이 형성되어 있으면서 부분적으로 낭성 성분과 고형 성분이 혼합되어 있는 종괴가 전상중격동까지 확장되어 있었으며 이는 동결절편 검사상 부갑상선 조직으로 보고되었다. 수술 후 시행한 혈청학적 검사상 칼

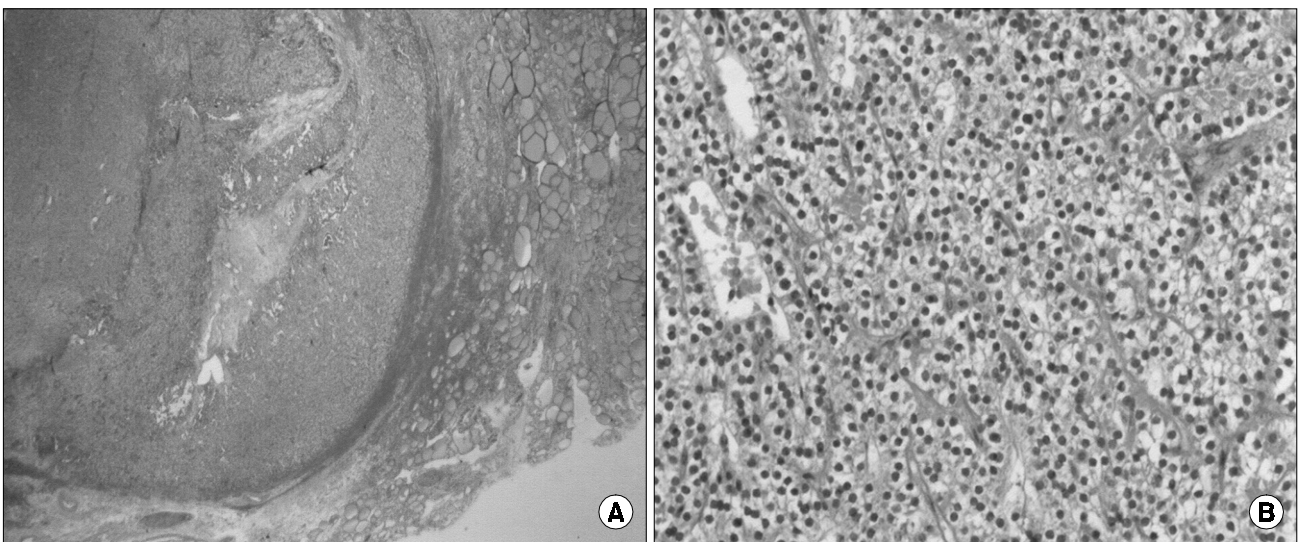


Fig. 3. Histopathologic findings. (A) The tumor is well-circumscribed and abuts on the surrounding thyroid tissue (HE, ×40). (B) The tumor cells have relatively small, uniform, dark nuclei, and are arranged within a delicate capillary network (HE, ×200).

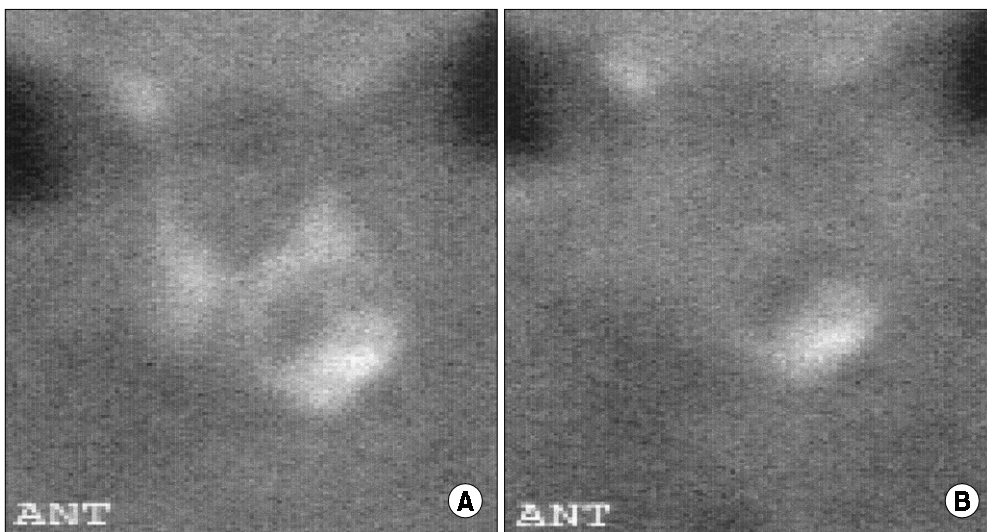


Fig. 4. ^{99m}Tc sesta-MIBI scan showing a cold nodule in the inferior pole of the left thyroid gland (A) and delayed washout in the inferior portion of the nodule (B).

숨 및 부갑상선 호르몬 치는 각각 9.9 mg/dl, 17.63 pg/ml로 정상화되었고 병리 조직 검사 결과는 양성 변화를 동반한 부갑상선 선종에 합당한 소견으로 보고되었다(Fig. 6). 환자는 수술 후 14일째 별다른 합병증 없이 퇴원하여 외래에서 추적 관찰 중이다.

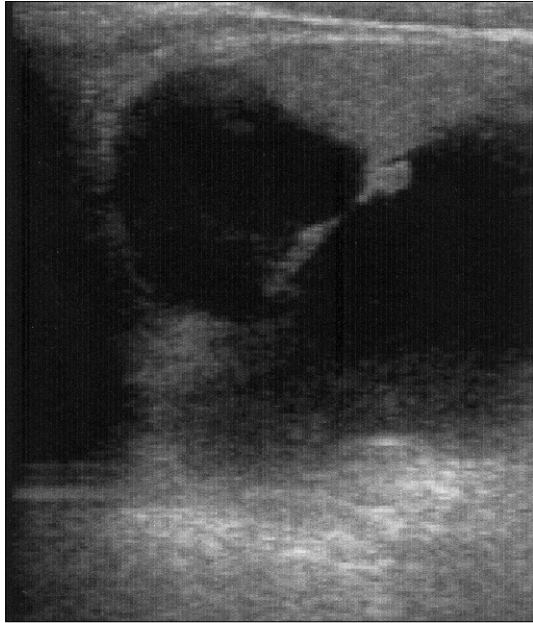


Fig. 5. Ultrasonography of the neck showing a 5×6 cm-sized septated hypoechoic nodule with internal echogenic portion adjacent to the inferior portion of the left thyroid gland.

고 찰

부갑상선 낭종은 부갑상선 기능항진증의 동반 여부에 따라 기능성 낭종 또는 비기능성 낭종으로 구분되는데, 일반적으로 비기능성 낭종은 여성에서 많은 빈도로 발생하고 30~40대에 호발하는 것으로 알려져 있는데 반해 기능성 낭종의 경우는 남성에서 약간 많은 발생 빈도를 보이는 것으로 보고되고 있다.(5,6,8-10)

부갑상선 낭종은 발생학적 부갑상선 이행 경로인 하악골 각부에서 종격동상에 위치하는 모든 부갑상선 조직에서 발생될 수 있지만 주로 하부갑상선에서 호발하며,(5,8,11-14) 종격동내의 발생 빈도는 매우 낮은 것으로 알려져 있다.(4,8,15)

부갑상선 낭종의 병인론에 대해 비기능성 낭종의 경우 Kursteiner's canal의 잔존, 제 3, 4 새열의 잔존, 부검 소견상 정상 성인의 40~50%에서 발견되는 미세 낭종 혹은 가성여포의 융합, 부갑상선 호르몬의 과잉 생산에 의한 미세 낭종의 저장성 낭종으로의 변환 등 여러 가지 가설이 제기되고 있는 반면,(5,16) 기능성 낭종의 경우에 Rogers 등(17)은 부갑상선 선종 혹은 과증식된 부갑상선 실질의 낭종성 변화에 기인한다고 설명하고 있다. 부갑상선 선종의 출혈성 낭종성 변화는 전체 부갑상선 선종의 3.8~9%에서 발생하는 것으로 알려져 있고,(17,18) 선종의 크기가 2~3 cm가 되는 경우 종양의 부분 경색으로 인하여 나타날 수 있고,(17,19) 이러한 경우 낭종 내부에는 선종성 혹은 과증식된 부갑상선 조직의 고형 성분이 특징적으로 존재하게 되며 흡인 내용물의 성상은 붉은 색 혹은 장액혈액성의 양상을 나타내게 된다.(8)

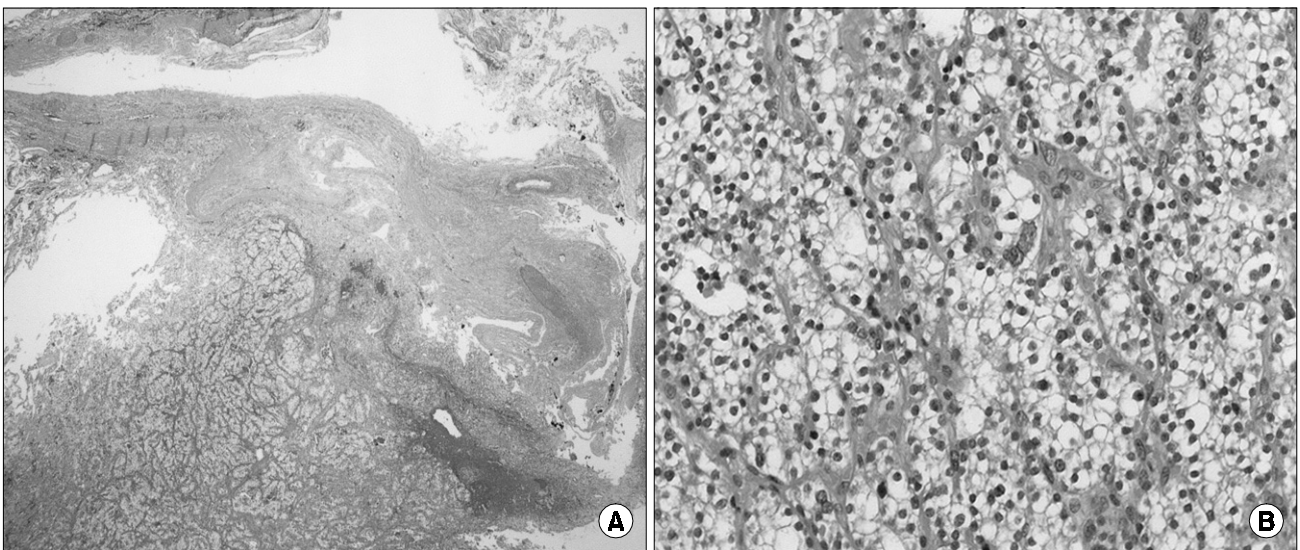


Fig. 6. Histopathologic findings of the parathyroid adenoma showing the cystic portion of the adenoma(HE, ×40) (A) and the tumor cells that have relatively small, uniform, dark nuclei, and are arranged within a delicate capillary network (HE, ×200) (B).

부갑상선 낭종은 갑상선 설관 낭종, 새열 낭종, 갑상선 낭종, 부갑상선 암과의 감별 진단을 요하며 이를 위해 경부 초음파, ^{99m}Tc sesta-MIBI scan 및 MRI 등의 검사법과 함께 세침 흡인술을 시행함으로써 부갑상선 낭종의 수술 전 진단이 용이해졌다.(5,6,8,11,15) 경부 초음파 검사의 경우 갑상선 기원과 부갑상선 기원을 감별하기는 곤란하나 경부 종괴가 낭종임을 확인할 수 있고 진단적 민감도가 높아 일차적 진단 방법으로 유용하며, ^{99m}Tc sesta-MIBI scan 역시 부갑상선 검사에 있어서 민감도가 높으며,(20) MRI는 종격 등 등에 위치한 이소성 부갑상선 조직을 탐색하는 데 유용한 검사법으로 알려져 있다. 특히, 원발성 부갑상선 기능항진증을 동반한 기능성 부갑상선 낭종의 경우에 있어서 경부 초음파 검사 및 ^{99m}Tc sesta-MIBI scan은 갑상선 결절, 림프절, 흉선종 등에서는 위양성을, 크기가 작은 경우, 과증식성 혹은 이소성 부갑상선, 투명 세포 선종에 있어서는 위양성을 나타낼 수 있으나 두 가지 검사법을 병행할 경우 진단적 민감도가 95%로 매우 높은 것으로 보고되고 있다.(21) 세침 흡인시 대부분의 비기능성 낭종의 경우 낭종 내용물의 성상이 맑고 투명한 양상을 보이는 데 반해 기능성 낭종의 경우에는 앞서서도 언급한 바와 같이 출혈성 혹은 장액 혈액성 양상을 보이는 경우가 많으며 부갑상선 기능 항진증의 동반 여부와 관계없이 낭종 내용물내의 PTH치가 증가되어 있는 것을 확인함으로써 부갑상선 낭종을 확인할 수 있다.(22,23) 만약 부갑상선 기능 항진증의 증상이 있고 혈청 칼슘 및 intact PTH 치가 증가되어 있으면서 세침 흡인액에서 c-terminal PTH가 단독으로 증가되어 있거나 n-terminal PTH가 동시에 증가되어 있다면 기능성 부갑상선 낭종으로 진단할 수 있다.(23,24)

기능성 부갑상선 낭종의 치료는 수술적 절제를 원칙으로 하며 수술 후 혈청 부갑상선 호르몬 치가 수술 전과 비교하여 50% 이상 감소된 경우에 있어서는 다른 부갑상선에 대한 수술적 탐색을 하지 않는 것이 최근 경향으로 되어 있다. (25) 비기능성 부갑상선 낭종의 경우 반복적인 세침 흡인술을 시도하거나 낭종 내에 Tetracycline과 같은 화학적 경화제를 주입하는 등의 치료 방법이 수술적 절제에 앞서 시행될 수 있으나 이 두 가지 방법에 의한 치료에도 재발된 경우나 세침 흡인 세포 검사상 악성이 의심되는 경우에는 수술적 절제를 시행하여야 한다.

REFERENCES

- Sandstrom I. Om en kortel hos menniskan och atskilliga doggsjus. Upsala Lakarfor Forhandl 1880;14:441-71.
- Goris D. Extirpation de trios lobules parathyroidens kystiques. Annales de la Societe Belge de Chirurgie 1905;5:394-5.
- De Quervain F. Chirurgische Demonstrationen. Schweiz Med Wochenschr 1925;55:1168-71.
- Linon DA, Schoretsanitis G, Carvounis E. Parathyroid cysts of the neck and mediastinum: A case report. Acta Chir Scand 1989;155:211-6.
- Fortson JK, Patel VG, Henderson VJ. Parathyroid cyst: A case report and review of the literature. Laryngoscope 2001;111:1726-28.
- Lydiatt DD, Byers RM, Khouri KG, Whitworth PW, Sellin RV. Functional parathyroid cyst and hypocalciuric hypercalcemia. ENT Journal 1995;74:713-6.
- Greene EI, Greene JM, Busch RC. Unusual manifestations after removal of parathyroid cyst. JAMA 1952;150:853-5.
- Clark OH. Parathyroid cysts. Am J Surg 1978;135:395-402.
- Page GV, Burke ML, Metzger WT. Parathyroid cysts. Am J Surg 1984;50:29-32.
- Rosenberg J, Orlando R, Ludwig M, Pyrttek LJ. Parathyroid cysts. Am J Surg 1982;143:473-80.
- Peter S, Todd D, Sofferman RA, Muriel Nathan, Nicholas J. Hardin. Parathyroid cyst: diagnosis and management. Laryngoscope 2001;111:1576-8.
- Ramos-Gahatin A, Young R, Schenk D. Parathyroid cysts: Medical diagnosis and therapy. South Med J 1982;75:1138-40.
- Jarnagin W, Clark OH. Mediastinal parathyroid cyst causing persistent hyperparathyroidism: Case report and review of the literature. Surgery 1998;123:709-11.
- Edis AJ, Purnell DC, VanHeerden JA. The undescended parathyroid. Ann Surg 1979;190:64-8.
- Mikami I, Koizumi K, Shimizu K, Kawamoto M, Hemmi S, Haraguchi S, et al. Functional mediastinal parathyroid cyst: Report of a case. Surg Today 2002;32:31-353.
- JS Choi, SK Lim, CS Park. Parathyroid cysts. J Kor Soc Endocrinol 1994;9:128-135.
- Rogers LA, Fetter BF, Peete WPI. Parathyroid cyst and cystic degeneration of parathyroid adenoma. Arch Pathol 1969;88:476-9.
- Randel SB, Gooding GA, Clark OH. Parathyroid variants: US evaluation. Radiology 1987;165:191-4.
- Wang C, Vickery AL, Maloof F. Large parathyroid cysts mimicking thyroid nodules. Ann Surg 1972;175:448-53.
- Yamazaki K, Obara T, Kusakabe K, Ito Y, Okamoto T, Tanaka R, et al. Usefulness and indication of ^{99m}Tc -methoxyisobutylisonitrile (MIBI) for preoperative localization in patients with primary hyperparathyroidism. Endocr Surg 1997;14:291-5.
- Miura D, Wada N, Arici C, Morita E, Duh QY, Clark OH. Does intraoperative quick parathyroid hormone assay improve the results of parathyroidectomy? World J Surg 2002;26(8):926-30.
- Layfield LJ. Fine needle aspiration cytology of cystic parathyroid lesion. Acta Cytology 1991;35:447-50.
- Katz AD, Dunkieman D. Needle aspiration of nonfunctional parathyroid cysts. Arch Surg 1984;119:307-8.
- Ramos-Gabatin A, Mallette LE, Bringham FR. Functional mediastinal parathyroid cyst, dynamics of parathyroid hormone secretion during cyst aspirations and surgery. Am J Med 1985;79:633-9.
- Irvin GL, Carneiro DM. Management changes in primary hyperparathyroidism. JAMA 2000;284:934-6.