

甲状腺内副甲状腺腺腫による原発性副甲状腺機能亢進症の1例

¹東京女子医科大学卒業臨床研修センター²東京女子医科大学内分泌外科（指導：岡本高宏教授）イシモリ ノリコ カワマタアキコ ホリウチキヨミ イハラ マサトシ オカモト タカヒロ
石森 紀子¹・川真田明子²・堀内喜代美²・飯原 雅季²・岡本 高宏²

（受理 平成 23年 6月 13日）

A Case of Hyperparathyroidism due to Intrathyroidal Parathyroid Adenoma

Noriko ISHIMORI¹, Akiko KAWAMATA², Kiyomi HORIUCHI²,
Masatoshi IIHARA² and Takahiro OKAMOTO²¹Medical Training Center for Graduates, Tokyo Women's Medical University²Department of Endocrine Surgery, Tokyo Women's Medical University

Accurate preoperative localization of abnormal parathyroid glands is the key to successful surgical treatment of primary hyperparathyroidism (pHPT), although this is sometimes difficult for ectopic lesions. Here, we report a patient with primary hyperparathyroidism due to an intrathyroidal parathyroid adenoma.

A 58-year-old woman was referred to our hospital for further evaluation of pHPT. She was found to have hypercalcemia (11.6 mg/dl) and elevated serum intact parathyroid hormone (intact PTH) (105 pg/ml). Ultrasonography and computed tomography of the neck revealed a mass within the left thyroid lobe. 99m-Tl-Tc scintigraphy showed uptake of the radionuclide in the left thyroid lobe. The parathyroid hormone level in a fine-needle aspirate (FNA) from the tumor was 8,651 pg/ml, which was significantly high. These findings suggested that the patient's pHPT was due to an intrathyroidal parathyroid adenoma. Left thyroid lobectomy was performed successfully without any complications. The serum levels of calcium and intact PTH returned promptly to within the normal ranges. FNA of a parathyroid lesion is should be avoided because of the risk of tissue implantation of hyperplastic parathyroid tissue. However, ultrasound-guided FNA is necessary for patients in whom imaging results are unclear and other non-invasive localization techniques have failed. The histopathological diagnosis in this case was intrathyroidal parathyroid adenoma. Although measuring the level of PTH in a FNA from a parathyroid lesion is generally not recommended this procedure was useful in the present patient for definitive localization of the lesion.

Key Words: intrathyroidal parathyroid adenoma, hyperparathyroidism, fine-needle aspiration

緒 言

原発性副甲状腺機能亢進症に対しては副甲状腺ホルモン（PTH）を過剰に分泌する病変を摘除することが唯一の治療であり、成功のためには術前の局在診断が重要である。しかし副甲状腺は発生学的理由から稀に位置異常を示すことがある。原発性副甲状腺機能亢進症を来す副甲状腺腫瘍のうち異所性（縦隔、甲状腺内など）に存在するものは約5.7%と少ないが、なかでも甲状腺内副甲状腺腺腫は1.4%と非

常に稀である¹⁾。このような異所性の病変では術前の局在診断が困難な場合がある。本論文では通常の画像診断に加えて超音波ガイド下穿刺吸引液の intact PTH 測定が術前局在診断に有用であった原発性副甲状腺機能亢進症の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：58歳女性。

主訴：動悸、頸部と体幹の離解感、高カルシウム血症精査。

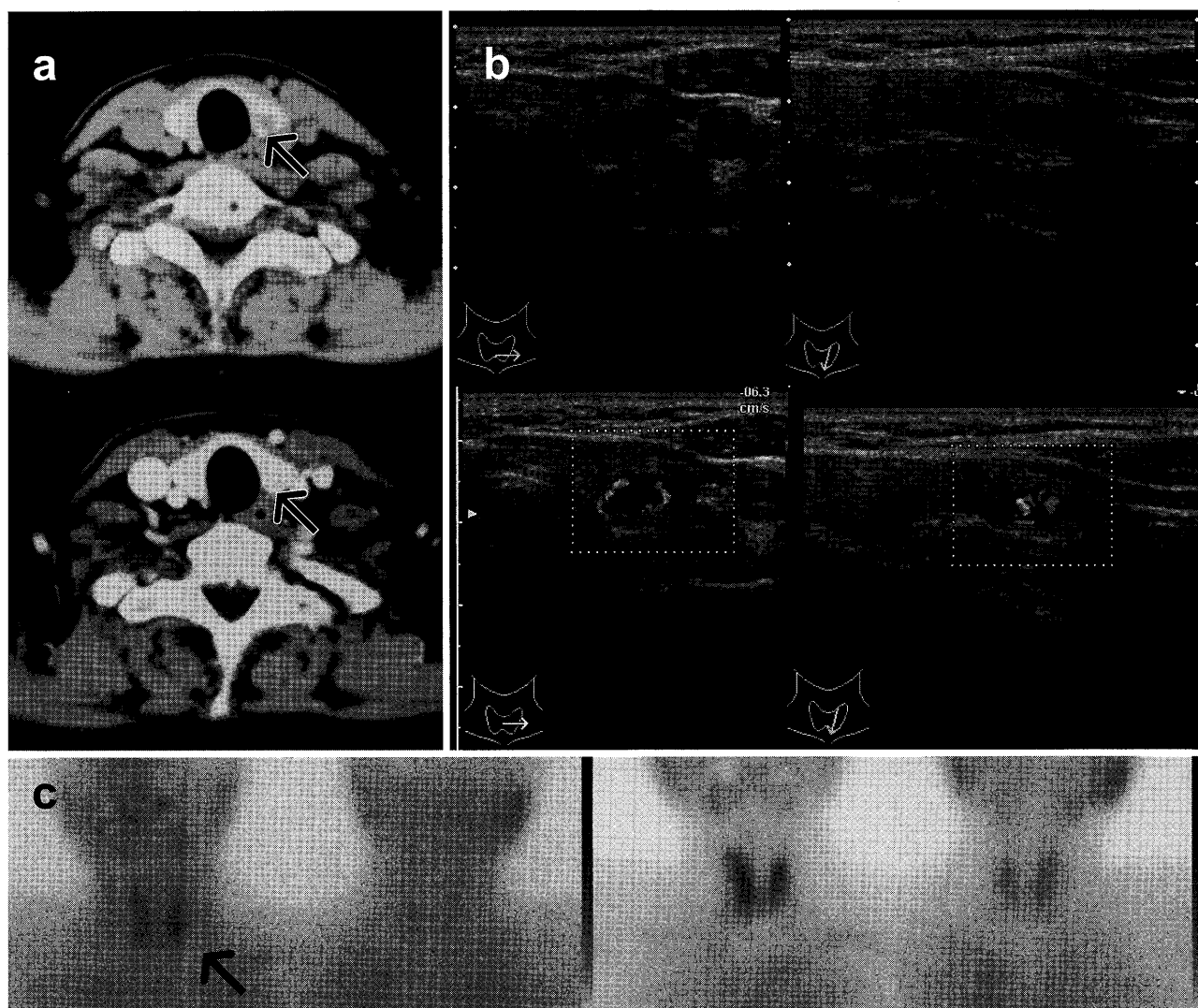


Fig. 1

- a) Cervical ultrasonography: A hypoechoic mass in the left lobe of thyroid was identified. The findings of blood flow at the margin of the mass suggested that the mass could be intrathyroidal parathyroid adenoma.
- b) Computed tomography: It identified intrathyroidal tumor in the left lobe of thyroid, which showed strong enhancement by contrast material-enhanced CT.
- c) $^{99m}\text{Tl-Tc}$ scintigraphy: The scintigrams showed uptake of intrathyroidal tumor but no uptake was observed in the other area including mediastinum.

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：虫垂切除術(13歳)，胆石に対し胆嚢摘出術(36歳)，子宮筋腫に対して腹式子宮全摘出術(48歳)。

現病歴：2年前より上室性期外収縮，心室性期外収縮にて近医通院中であった。今回，収縮期血圧200mmHg以上の高血圧と頭痛，嘔吐のため同院に入院した。入院時の採血で血清Ca 11.6mg/dlと高カルシウム血症があり，鑑別診断のために測定された血清intact PTH値は105pg/ml(基準値16~65pg/ml)と高値を示し原発性副甲状腺機能亢進症と診断され

た。局在診断を目的とした頸部超音波検査および頸部造影CT検査で甲状腺左葉内に腫瘤像が認められ，原発性副甲状腺機能亢進症および甲状腺左葉内腫瘤に対する精査治療を目的として当科へ紹介されて受診した。

入院時現症：体温36.4℃，脈拍51/分・整，血圧126/80mmHg，頸部に明らかな腫瘍やリンパ節を触知せず。心窩部から下腹部正中にかけて，および右下腹部に手術痕を認めた。

血液検査所見：WBC 4,130/ μl ，RBC 469×10^4 / μl ，Hb 14.0g/dl，Plt 17.9×10^4 / μl ，TP 6.3g/dl，Alb 4.1

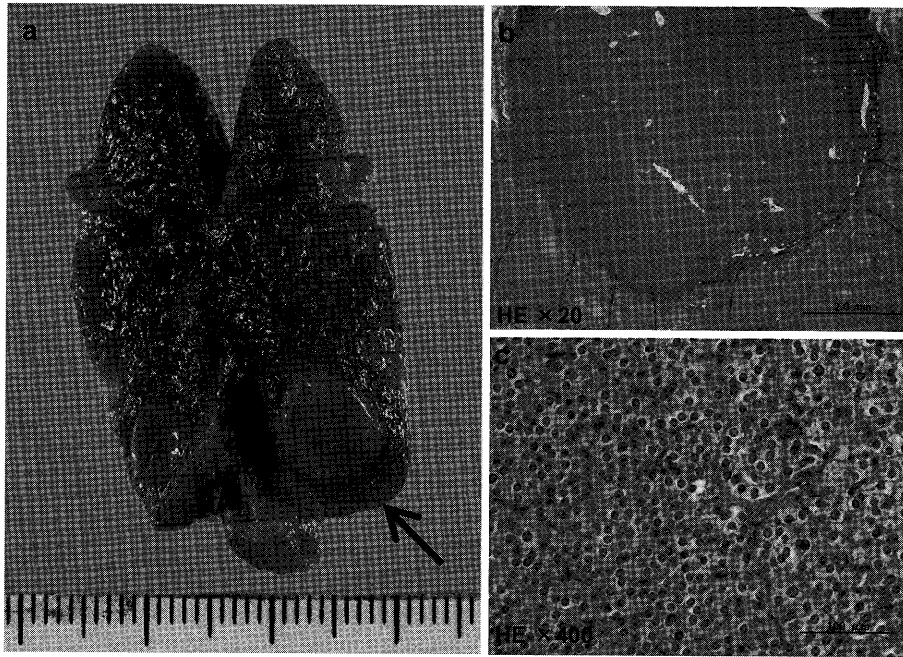


Fig. 2

- a) Surgical specimen: A yellow-tan colored, soft and homogeneous tumor with smooth surface was identified in the left thyroid.
- b) c) Histological findings: An encapsulated tumor that was compatible with parathyroid adenoma. (b Hematoxylineosine staining $\times 20$, c $\times 400$)

g/dl, T-bil 1.1mg/dl, AST 14U/l, ALT 14U/l, LD 114U/l, ALP 208U/l, CHE 276U/l, γ GTP 23U/l, BUN 12.2mg/dl, Cr 0.70mg/dl, UA 5.2mg/dl, Na 142mEq/l, K 4.7mEq/l, Cl 109mEq/l, Ca 11.0mg/dl, P 3.2mg/dl, intact PTH 126pg/ml, 尿中 Ca 排泄量 570mg/day.

前医頸部造影 CT 検査 (Fig. 1a) : 甲状腺左葉内に造影効果を伴う 8mm 大の低吸収域を認めた。その他に腫瘍性病変は認めなかった。

頸部超音波検査 (Fig. 1b) : 甲状腺左葉内に内部が均一で血流を伴う $9 \times 5 \times 8$ mm の低エコー腫瘤を認めた。そのほかに副甲状腺病変を疑う所見はなかった。

Tl-Tc 副甲状腺シンチグラフィ (Fig. 1c) : 甲状腺左葉内の腫瘤に一致して集積を認め、血清 Ca 値と intact PTH 値の高値、および尿中 Ca 排泄量の高値から原発性副甲状腺機能亢進症と診断した。

確定診断 : 画像所見から甲状腺内の副甲状腺腺腫を疑い、局在診断を確定するため同腫瘤を超音波ガイド下にて穿刺して intact PTH を測定した。吸引物洗浄液 intact PTH が 8,651pg/ml (生理食塩水 2ml で希釈) と極めて高値であったので甲状腺左葉内に生じた副甲状腺腺腫と診断を確定した。

術中経過 : 血清カルシウム値が正常上限より 1.0 mg/dl 以上高値であり手術適応であると判断し、甲状腺左葉切除術を施行した。術中の intact PTH 測定値は腫瘍摘除前 64pg/ml, 腫瘍摘除 15 分後 13pg/ml であった。

手術標本肉眼所見 (Fig. 2a) : 甲状腺左葉内に $12 \times 9 \times 6$ mm の境界明瞭、黄色調、充実性、内部均一な腫瘍を認め、肉眼的に副甲状腺腺腫の所見であった。

病理組織診断 (Fig. 2bc) : 類円形の核をもつ細胞の充実性増生を認めた。核分裂像や異型細胞、脈管侵襲なく、診断は甲状腺内副甲状腺腺腫であった。

術後経過 : 動悸などの自覚症状の改善を認め、術後 1 日目血清 Ca 8.2mEq/l, intact PTH 22pg/ml, 尿中 Ca 排泄量 140mg/day と速やかに正常化した。術後 6 ヶ月経過後も正常範囲内である。

考 察

副甲状腺は第 3 鰓嚢と第 4 鰓嚢の背側内皮より発生し下降する。上副甲状腺の約 80% は下甲状腺動脈と反回神経が交差する 1cm 頭側を中心に半径 1cm 以内の範囲にあり、下副甲状腺の 95% は甲状腺側葉下極を中心に半径 2cm の範囲にあるとされている²⁾。しかし下副甲状腺は第 3 鰓嚢から胸腺とともに

発生し甲状腺の側方を通り、甲状腺下極まで比較的長い距離を下降するため比較的異常位置異常を起こしやすい²⁾。このうち甲状腺内副甲状腺腺腫は原発性副甲状腺機能亢進症 426 例中 6 例 (1.4%) とされており非常に稀である¹⁾。

原発性副甲状腺機能亢進症に対する根治的治療は手術であり、その成功のためには術前に局在診断を確定することが非常に重要であるが、それが困難な場合もある。頸部超音波検査はほかの検査法に比べて低侵襲で安価、かつ簡便であることからまず行うべき検査であるが、その報告されている感度には 51~96% と幅がある³⁾。これは技術の進歩にもよるが、診断能が検査を担当する者の経験や技能にも強く依存するためである。さらに甲状腺結節の合併があると検出しづらくなる。また超音波検査では縦隔内病変は描出できない^{3,4)}。これに対してシンチグラフィは異所性副甲状腺腫の検索にも有用である。特に 2010 年 4 月より保険適応となった 99mTc-MIBI を用いた副甲状腺シンチグラフィの感度は 85~90% と報告され、現在最も検出能にすぐれた検査と考えられている^{5,6)}。本症例は同検査が保険適応とされる以前であったため Tl-Tc によるシンチグラフィを施行した。同検査は感度 50% 前後とやや低いものの、超音波検査で典型的な所見を得られない場合や、縦隔内病変の有無の確認には有用であると考えられる⁷⁾。

副甲状腺由来病変か否かの診断法には、画像検査のほかに、病変からの穿刺吸引液の intact PTH 測定がある。穿刺吸引液の intact PTH 測定は腫瘍が小さい場合には偽陰性となることがあるが、異常高値を示した場合は副甲状腺病変であることの確定診断をすることができ、感度 70%、特異度 100% と報告されている⁸⁾。しかし血腫形成や穿刺通路に副甲状腺組織を播種する可能性、あるいは穿刺による周囲への癒着などの問題点があるので⁹⁾、異所性病変が疑われる場合や再手術症例などに適応を限定することが望ましい。本症例は画像診断によって、稀な甲状腺内

副甲状腺腺腫が疑われたが、この診断を確定するために病変からの穿刺吸引液の intact PTH 測定を施行した。これによって術前に甲状腺内副甲状腺腺腫と確定診断し、確実な外科治療を行うことが可能であった。

結 語

穿刺吸引洗浄液の intact PTH 測定により診断された甲状腺内副甲状腺腺腫による原発性副甲状腺機能亢進症の 1 例を経験した。

文 献

- 1) Bahar G, Feinmesser R, Joshua BZ et al: Hyperfunctioning intrathyroid parathyroid gland: A potential cause of failure in parathyroidectomy. *Surgery* **139**: 821-826, 2006
- 2) 原 尚人: 副甲状腺解剖把握の Knack & Pitfalls. 「内分泌外科の要点と盲点 (Knack & Pitfalls) 第 2 版」(小原孝男編), pp202-206, 文光堂, 東京 (2007)
- 3) Mihai R, Simon D, Hellman P: Imaging for primary hyperparathyroidism-an evidence-based analysis. *Langenbecks Arch Surg* **394**: 765-784, 2009
- 4) 岡本高宏: 原発性副甲状腺機能亢進症の最新の診断と治療 部位診断法の最前線. *内分泌外科* **27**: 72-78, 2010
- 5) Russell CFJ, Dolan SJ, Laird JD: Randomized clinical trial comparing scan-directed unilateral versus bilateral cervical exploration for primary hyperparathyroidism due to solitary adenoma. *Br J Surg* **93**: 418-421, 2006
- 6) Denham DW, Norman J: Cost-effectiveness of preoperative sestamibi scan for primary hyperparathyroidism is dependent solely upon the surgeon's choice of operative procedure. *J Am Coll Surg* **186**: 293-305, 1998
- 7) 日下部きよ子, 牧 正子: 副甲状腺シンチグラム. 「内分泌外科の要点と盲点 (Knack & Pitfalls) 第 2 版」(小原孝男編), pp216-220, 文光堂, 東京 (2007)
- 8) Marcocci C, Mazzer S, Bruno-Bossio G et al: Preoperative localization of suspicious parathyroid adenomas by assay of parathyroid hormone in needle aspirates. *Eur J Endocrinol* **139**: 72-77, 1998
- 9) Sacks BA, Pallotta JA, Cole A et al: Diagnosis of parathyroid adenomas: Efficacy of measuring parathormone levels in needle aspirates of cervical masses. *AJR Am J Roentgenol* **163**: 1223-1226, 1994