

機能性上皮小体嚢腫の2例

古賀総合病院泌尿器科 (部長: 藤戸 章)

本郷 文弥*, 藤戸 章**

古賀総合病院内科

加藤 順也***, 長嶺 元久****, 栗林 忠信

古賀総合病院外科

古 賀 和 美

京都府立医科大学泌尿器科学教室 (主任: 渡辺 決教授)

内田 睦, 渡辺 決

TWO CASES OF FUNCTIONING PARATHYROID CYSTS

Fumiya HONGO and Akira FUJITO

From the Department of Urology, Koga General Hospital

Junya KATO, Motohisa NAGAMINE and Tadanobu KURIBAYASHI

From the Department of Internal Medicine, Koga General Hospital

Kazumi KOGA

From the Department of Surgery, Koga General Hospital

Mutsumi UCHIDA and Hiroki WATANABE

From the Department of Urology, Kyoto Prefectural University of Medicine

Two cases of functioning cysts are reported. The first patient was a 48-year-old man who underwent percutaneous cyst puncture for a palpable mass in the neck at another hospital. Hypercalcemic crisis brought the patient to Koga General Hospital. The second patient was a 69-year-old woman with the complaint of discomfort in the right neck of several years duration and with a palpable mass identified on physical examination at a local hospital. Both patients had high serum calcium and parathyroid hormone (PTH) levels and were diagnosed as having functioning parathyroid cysts by imaging studies including ultrasonography, computed tomographic scan, magnetic resonance imaging and scintigraphy. After parathyroidectomy, their serum calcium and PTH levels became normal, but calcium supplement was necessary in the first patient.

To our knowledge, these are the 40th and 41st cases reported in the Japanese literature.

(Acta Urol. Jpn. 44: 661-665, 1998)

Key words: Functioning parathyroid cyst, Primary hyperparathyroidism

緒 言

上皮小体嚢腫は機能性と非機能性とに分類され, 機能性は比較的稀とされている. 今回私たちは, 2例の機能性上皮小体嚢腫を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する.

症 例

症例 1 : 48歳, 男性

* 現: 京都府立医科大学泌尿器科学教室

** 現: 第二岡本総合病院泌尿器科

*** 現: 国立都城病院内科

**** 現: 長嶺内科クリニック

主訴: 右頸部の腫脹

家族歴・既往歴: 特記すべきことなし

現病歴: 1993年11月10日, 右頸部の腫脹を自覚した. 近医を受診し, 甲状腺嚢腫と診断され, 同月11日と15日に嚢腫穿刺を施行された. その後も, 右頸部腫脹は改善せず, 16日には悪心, 嘔吐, 上腹部痛が出現したため当院内科を受診し, 入院となった.

入院時臨床検査所見: Ca 16.6 mg/dl, P 2.7 mg/dl, intact-PTH 1,600 pg/ml, HS-PTH 48,000 pg/mlで, 高カルシウム血症クリーゼと診断された.

画像診断: 頸部超音波断層法にて, 甲状腺右葉背側に 70 mm 大の嚢胞性病変 (cystic lesion) を認め, 内部には多くの隔壁が存在し, 多房性を呈していた

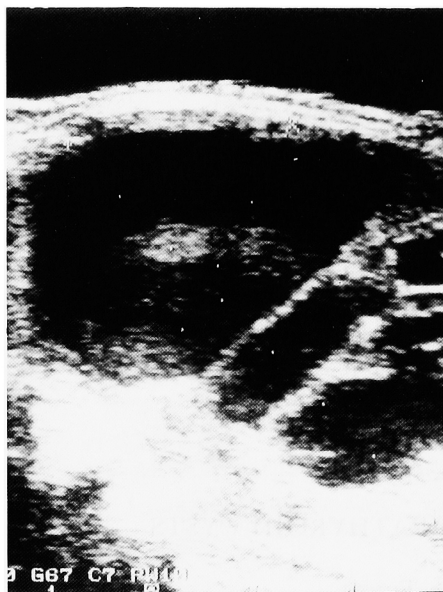


Fig 1A. Ultrasonography showed multilocular cystic lesion.

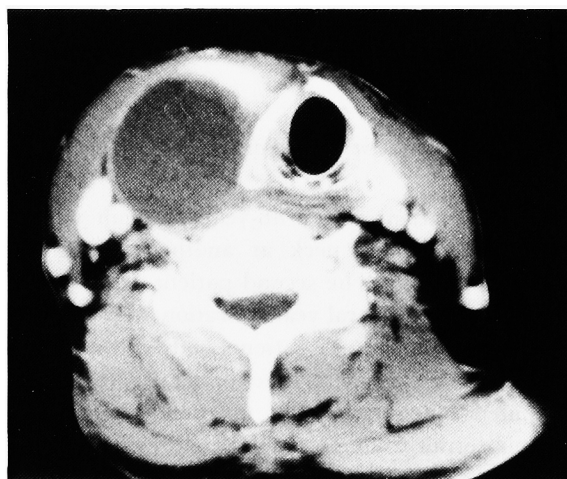


Fig 1B. Contrast-enhanced computed tomographic (CT) scan of the neck showed cystic mass lesion on the right side.

(Fig. 1A).

造影 CT にて、60 mm 大の甲状腺および気管を圧排する造影効果に乏しい腫瘤を認め、出血を伴った上皮小体嚢腫と考えられた (Fig. 1B)。

シンチグラフィーでは $^{99m}\text{TcO}_4^-$ にて欠損、 $^{201}\text{TlCl}$ にて集積を認めた (Fig. 1C)。

以上より、上皮小体機能亢進症を伴った上皮小体嚢腫と診断し、手術を施行した。また、高カルシウム血症クリーゼに対し、入院時より手術に至るまでの17日間にエルカトニンを計1,520単位投与した。その結果、症状は改善し、術前日の血中カルシウムは 13.7 mg/dl であった。

手術所見：甲状腺右葉背側に境界明瞭な腫瘤が認められた。術後摘出標本では 60×45×45 mm、重量

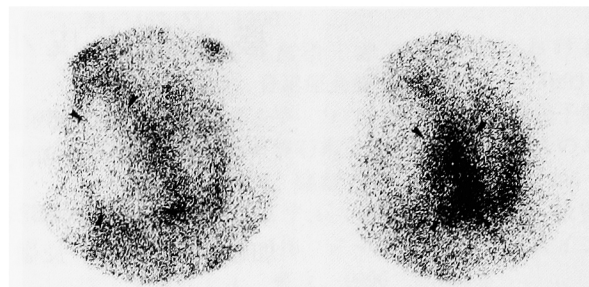


Fig 1C. $^{99m}\text{TcO}_4$ -scintigraphy (left side) showed the defect in the right lobe. $^{201}\text{TlCl}$ scintigraphy (right side) showed increased focal uptake area in the right lobe.

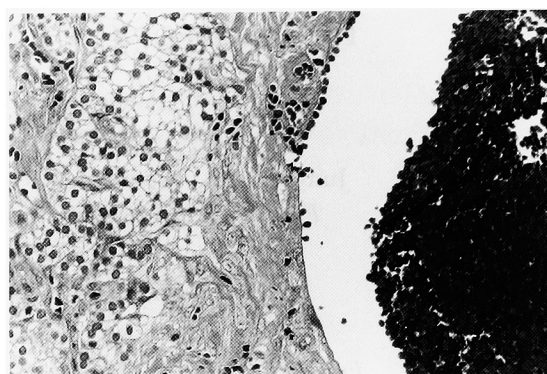


Fig 1D. Microscopic specimen showed parathyroid tissue consisting of clear cell-type cells in the cyst wall (H-E stain, ×400).

550 mg の被膜を伴う上皮小体嚢腫内に一部結節様変化を認めた。

嚢腫内容液：赤褐色、漿液性であった。嚢腫内容液の intact-PTH は 480 pg/ml、HS-PTH は 9.7×10^6 pg/ml と異常高値を呈していた。

病理組織学的所見：嚢腫壁には一様に淡明細胞を含む上皮小体組織が存在し、内部は出血および壊死組織が認められ、上皮小体嚢腫が二次的に出血壊死した機能性上皮小体嚢腫と診断された (Fig. 1D)。

術後10日間に3回テタニーを生じた。6カ月にわたりカルシウム製剤を投与し、その後順調に経過し、現在再発などは認めていない。

症例2：69歳、女性

主訴：右頸部違和感

現病歴：1992年1月ごろより易疲労感が出現し、1992年8月ごろから右頸部の違和感を自覚ようになった。1992年11月に健診にて右頸部の腫瘤を指摘され、同年12月に当院を受診し、1993年1月に精査加療目的にて、入院となった。

家族歴：特記すべきことなし

既往歴：55歳時、腰椎椎間板ヘルニアにて手術施

行. 62歳時, 胃潰瘍

臨床検査所見: 初診時 Ca 13.3 mg/ml, P 1.8 mg/ml, intact-PTH 540 pg/ml, HS-PTH 9,600 pg/ml と上皮小体機能亢進症が疑われた.

画像診断: 頸部超音波検査にて甲状腺右葉背側に 7 cm 大の均一な hypoechoic lesion を認め, 嚢腫性の

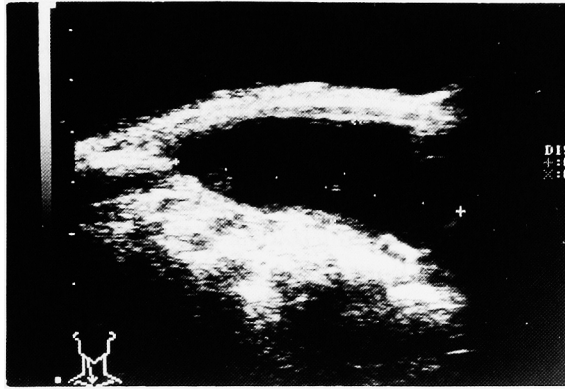


Fig 2A. Ultrasonography showed cystic mass lesion.



Fig 2B. Contrast-enhanced CT scan of the neck showed cystic mass lesion.

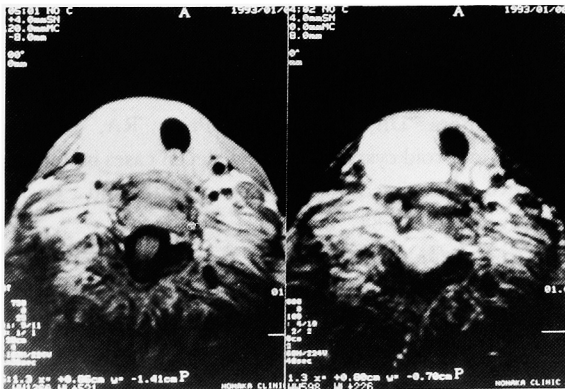


Fig 2C. Magnetic resonance imaging (MRI) showed slightly high intensity and homogeneous mass on T1-weighted sequences (left side) and very high intensity and homogeneous mass on T2-weighted sequences (right side).

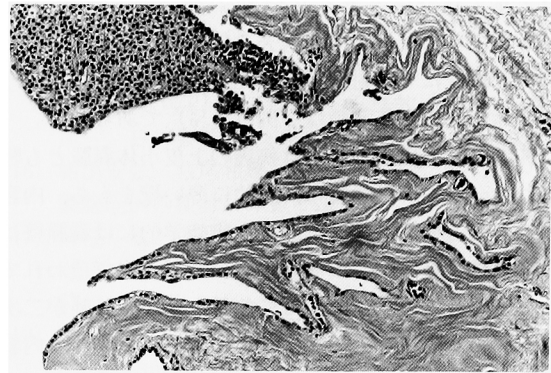


Fig 2D. Microscopic specimen showed cyst wall lined by a single layer of cuboidal cells (H-E stain, $\times 400$).

病変が疑われた (Fig. 2A).

CT にて甲状腺右葉背側に造影効果に乏しい low density area を認めた (Fig. 2B). MRI の T1 強調画像にて甲状腺よりやや high intensity, T2 強調画像にて非常に high intensity の mass を認めた (Fig. 2C). シンチグラフィーでは $^{99m}\text{TcO}_4^-$, $^{201}\text{TlCl}$ の両者にて欠損が認められ, 異常集積像は認められなかった.

シンチグラフィーでは陰性であったが血清 Ca と P 値, HS-PTH 値が高値であったことより, 上皮小体機能亢進症を伴った上皮小体嚢腫と診断し, 手術を施行した.

手術所見: 甲状腺右葉背側に $60 \times 55 \times 40$ mm の嚢腫, および嚢腫に接して下方外側に腺腫を認めた. 腺腫は $8 \times 5 \times 2$ mm, 重量は 78 mg であった. 周囲との癒着は認めなかった.

嚢腫内容液: 黄色透明, 漿液性であった. 嚢腫内容液の intact-PTH は 130 pg/ml, HS-PTH は 5.9×10^7 pg/ml であった.

病理組織学的所見: 嚢腫壁は 1 層の立方上皮で覆われており, 上皮小体腺腫内の一部の濾胞内溶液が貯留した機能性上皮小体嚢腫と診断された (Fig. 2D).

術後, テタニー等が生じることはなかった. カルシウム製剤を 7 カ月にわたり投与し, その後順調に経過し, 現在再発などは認めていない.

考 察

上皮小体嚢腫は藤本ら¹⁾によれば, 機能性・非機能性へと分類されている. 本邦における機能性上皮小体嚢腫は 39 例報告され²⁾, 本症例は 40 例目および 41 例目と比較的稀な疾患である. しかしながら, 腺腫および過形成などが二次的に嚢腫様変性をきたす症例が上皮小体腫瘍の 5~12%^{3,4)}におよぶとする報告や, 上皮小体疾患にて手術を施行された 325 例のうち上皮小体嚢腫は 11 例 (3.4%) であったとの報告があり⁵⁾, さ

ほど稀ではないとする説もある。古賀総合病院では1990年より1996年までの過去7年間のうちに上皮小体機能亢進症にて手術が行われた症例は25例で、そのうち機能性上皮小体嚢腫は2例(8%)であった。

非機能性上皮小体嚢腫は狭義の上皮小体嚢腫とも呼ばれ、一般的には嚢腫は肉眼的に薄い壁をもち、内容液は無色透明で漿液性である。組織学的には嚢腫壁は結合組織より成り、内面は一層の立方上皮で覆われている。一方、機能性嚢腫は機能性上皮小体腺腫が二次的に嚢腫を生じたものであり、嚢腫の壁は厚く、内容液は血性や赤褐色で、混濁したり粘稠であることが多い。組織学的には嚢腫の壁内や内側に上皮小体腺腫が見いだされるとされ、発生部位は一定ではなく、腺腫内出血による二次的なものや腺腫の退行性変性によるものとされている³⁾

しかし、機能性嚢腫においても内面が立方上皮に変わっていることもあり、非機能性嚢腫と細胞学的に鑑別できないこともあり、上皮小体腺腫内の濾胞の内容液が何らかの理由で貯留をきたし、異常なまでに濾胞構造が拡張したものが、機能性上皮小体嚢腫であるとする説⁶⁾もある。今回の2症例は、症例1は典型的な機能性嚢腫と考えられるが、症例2は腺腫は嚢腫に接していたことにより、上皮小体腺腫の濾胞が貯留をきたしたものだと思われる。

機能性上皮小体嚢腫の大きさについては井上らが過去に報告された31例をまとめ、長径が0.2~10 cmで平均3.44 cmと報告している⁷⁾。また、巨大なものでは上縦隔にまで進展し、気管閉塞にて発見された症例⁸⁾も報告されている。

また、杉本らは本邦における39例中局在診断の明らかな34例のうち17例(50%)が非機能性上皮小体嚢腫と同様に左下の上皮小体から発生していたと報告している²⁾

症状は、一般的には嚢腫による頸部の違和感、高カルシウム血症による悪心、嘔吐があげられるが、血液生化学検査における高カルシウム血症の発見がきっかけで診断がついた症例も多く見受けられる。

術前処置としては症例1のように高カルシウム血症クリーゼをきたしている場合は、カルシトニン製剤を用いて治療するのが一般的であるが、効果の持続は約2週間程度である。したがって、完全に血中カルシウム値を低下させてから手術するというより、手術により高カルシウム血症を治療するという考えが一般的である。

従来、上皮小体腺腫の局在診断はその腺腫が小さいことより局在診断は必ずしも容易でないとされていたが、US、CT、シンチグラフィー、MRIの4種の画像診断を相補的に駆使することにより良好な成績が得られるようになっている⁹⁾。また、今回の2症例には

施行されなかったが、最近では^{99m}Tc-methoxyisobutylisonitrile (^{99m}Tc-MIBI)による局在診断が従来の検査に比べ、高い正診率であると報告されており¹⁰⁻¹²⁾、今後期待させる。

上皮小体嚢腫の診断には、画像診断に加え、嚢腫を穿刺し、内容液の性状、およびサイログロブリンとPTH濃度などを測定すべきとする意見^{13,14)}がある。非機能性嚢腫の場合、穿刺吸引による治療^{15,16)}、エタノール注入¹⁷⁾あるいはテトライクリン注入¹⁸⁾による保存的治療も可能かと思われる。しかし、機能性上皮小体嚢腫の場合は今回のわれわれの症例1と同様に、穿刺により高カルシウム血症クリーゼが誘発された症例も報告されている¹⁹⁾。したがって安易に嚢腫穿刺は施行されるべきではなく、穿刺の施行前には血清カルシウム、血清リン、血清PTHなどの測定を行い、機能性上皮小体嚢腫が疑われる場合には嚢腫穿刺は禁忌であると考えられた。

結 語

機能性上皮小体嚢腫の2例を経験したので報告した。

症例1については第67回日本内分泌学会秋季学術大会(1994年11月広島)にて、症例2については第66回日本内分泌学会秋季学術大会(1993年10月青森)にて発表した。

文 献

- 1) 藤本吉秀, 岡 厚, 福光正行, ほか: 上皮小体嚢腫—狭義の嚢腫と機能性腺腫の嚢胞化したもの、それぞれの発生と病態について。日外会誌 **77**: 900-908, 1976
- 2) 杉本賢治, 梅川 徹, 栗田 孝: 機能性上皮小体嚢腫の1例。泌尿紀要 **43**: 903-906, 1997
- 3) Black BM and Watts CF: Cysts of parathyroid origin. report of two cases and study of incidence and pathogenesis of cysts in parathyroid glands. Surgery **25**: 941-949, 1949
- 4) Clerk OH: Parathyroid cysts. Am J Surg **135**: 395-402, 1978
- 5) Calandra DB, Shah KH, Prinz RA, et al.: Parathyroid cysts: a report of eleven cases including two associated with hyperparathyroid crisis. Surgery **94**: 887-892, 1984
- 6) 村上三郎, 小林 彰, 隈 寛二, ほか: 機能性上皮小体嚢腫の1例。臨外 **49**: 1643-1645, 1994
- 7) 井上 均, 若林賢彦, 小西 平, ほか: 腺腫と別腺に嚢腫を合併した原発性上皮小体機能亢進症の1例。泌尿紀要 **36**: 1197-1202, 1990
- 8) Guvendik L, Oo LK, Roy S, et al.: Management of a mediastinal cyst causing hyperparathyroidism and tracheal obstruction. Ann Thorac Surg **55**: 167-168, 1993
- 9) 沖原宏治, 斉藤雅人, 内田 睦, ほか: 原発性副

- 甲状腺機能亢進症の局在診断法—各種画像診断法の診断能—. 泌尿器外科 **7**: 143-147, 1994
- 10) Coakley AJ, Kettle AG, Wells CP, et al.: $^{99}\text{Tc}^{\text{m}}$ sestamibi - a new agents for parathyroid imaging. Nucl Med Commun **10**: 791-794, 1989
- 11) Taillefer R, Boucher Y, Potvin C, et al.: Detection and localization of parathyroid adenoma in patients procedure with technetium-99m-sestamibi (double-phase study). J Nucl Med **33**: 1801-1807, 1992
- 12) Casas AT, Burke GJ, Mansberger AR Jr, et al.: Impact of technetium-99m-sestamibi localization on operative time and success of operations for primary hyperparathyroidism. Am Surg **60**: 12-17, 1994
- 13) Pacini F, Antonelli A, Lari R, et al.: Unsuspected parathyroid cysts diagnosed by measurement of thyroidglobulin and parathyroid hormone concentration in fluid aspirates. Ann Intern Med **102**: 793-794, 1985
- 14) 東 雄三, 藤本泰久, 柳川憲一, ほか: 上皮小体嚢腫 4 例の臨床的検討—特にその発生について—. 内分泌外科 **8**: 433-437, 1991
- 15) 宮内 昭, 高井新一郎, 森本茂人, ほか: 頸部腫瘍の穿刺吸引鑑別診断—多角的診断技術の応用—. 日外会誌 **84**: 667-673, 1983
- 16) 榎山安弘, 八尾和雄, 高橋広臣, ほか: 上皮小体嚢胞症例の検討. 耳鼻と臨 **79**: 1297-1304, 1984
- 17) 岡村 健, 佐藤 薫, 池之上公, ほか: 非機能性上皮小体嚢胞における Sclerotherapy. 臨と研 **67**: 137-142, 1990
- 18) Sanches A and Carretto H: Treatment of tetracycline injection. Head Neck **15**: 263-265, 1993
- 19) Kobayashi A, Kuma K, Matsuzaka F, et al.: Exacerbation of hypercalcemia after needle biopsy of a parathyroid cyst. Ann Intern Med **110**: 326-327, 1989

(Received on November 25, 1997)

(Accepted on June 6, 1998)