気道閉塞をきたした副甲状腺腫の一症例

稲井 英樹・福島 英行

Parathyroid Adenoma with Airway Obstruction ;
A Case Report

Hideki Inai and Hideyuki Fukushima

(Shizuoka City Hospital)

Most parathyroid adenomas cause primary hyperparathyroidism with various clinical manifestations besides hypercalcemia, such as urolithiasis, pathological bones, peptic ulcer, etc. Consequently, they are usually found when still small. A 70-year-old female was admitted with dyspnea due to airway obstruction by tracheal compression and a cervical tumor. Biopsy after tracheostomy revealed probable benign parathyroid tumor. The tumor was removed. It weighed 98 grams and was a non-functioning oxyphil cell adenoma. A parathyroid adenoma of this size has rarely been reported in the world literature. The diagnosis and management are discussed, and the literature is reviewed.

Key words: parathyroid adenoma, air way obstruction, oxyphil cell adenoma

緒 言

副甲状腺腫の報告は、尿路結石症に代表される様々な臨床症状から発見されるホルモン活性腺腫の場合が多く、又、腺腫の重量も1 g前後の小さいものが大半を占めている。今回、我々は重量98 gという巨大なホルモン非活性の副甲状腺腫により呼吸困難を来した珍しい一症例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：70才、女性。

主訴：呼吸困難。

既往歴、家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：昭和59年12月初めごろより、前頸部に腫瘤を自覚したが、放置していた。同年12月28日、突然、呼吸困難を来したため当院内科に

緊急入院となった。

入院時所見並びに経過：入院後直ちに気管内挿管を施行された。挿管後のX線撮影では腫瘤により、挿管チューブが強く左に偏位している所見が認められた（図1）。前頸部腫瘤の大きさは左右9.6cm、上下4.8cm、弾性軟、可動性を軽度認めた（図2）。入院時の血液学並びに生化学的検査、動脈血ガス分析では異常を認めなかった。胸部X線撮影で間質性肺炎を疑わせる所見を認めたが、肺胞、動脈血の分圧較差（A-a DO₂）は正常域にあり、翌日の胸部X線撮影では間質性肺炎様陰影は消失していた。

12月29日、挿管チューブを抜去すると再び呼吸困難を来したため再挿管し、12月30日気管切開と同時に生検を行った。腫瘤が巨大であった

ことから、その上部で腫瘍を一部切断して気管切開を行ったため、通常長さの気管カニューレでは、腫瘍によってカニューレより下方で気管の圧迫が起こり狭窄によると思われる呼吸困難を来した。このため、挿管用チューブを腫瘍による狭窄部より下方に届く長さに切って気管切開口より挿入した。CTで、気管内に挿管チューブが挿入されているにも拘らず気管並びにチューブは左右の幅が狭小化し、腫瘍による強い圧迫を受けている所見を認めたため、呼吸困難をもたらした原因は腫瘍による気管閉塞或は狭窄と考えた(図3)。この時点で、腫瘍は甲状

腺腫瘍、特に未分化癌或は悪性リンパ腫の増大によるものが最も考えられたため、昭和60年1月4日、コバルト照射(200rads/day)を開始した。照射開始3日後、病理組織診断の結果、腫瘍は副甲状腺の過形成と判明したためコバルト照射を中止し、手術加療に方針を変更した。術前に施行されたテクネシウム($^{99m}\text{TcO}_4$)並びにタリウム(^{201}Tl)シンチでは、腫瘍に一致して、 ^{99m}Tc にて cold area, ^{201}Tl で hot area が認められた。又、血中カルシウム(Ca), リン(P), 副甲状腺ホルモン(PTH), カルシトニン, T3, T4, TSH は正常であり、副甲状腺並びに甲状腺の機能は正常と考えられた。

手術所見: 1月17日、当科に転科となり、1月24日全身麻酔下に手術を施行した。前頸筋群は腫瘍による圧迫で菲薄化しており胸骨甲状筋は腫瘍と癒着していた。左右の内頸動静脈は腫瘍によって圧排されていたが、癒着は認められず、剝離保存された。甲状腺は腫瘍により上方

図1 腫瘍により挿管チューブは左に偏位

図3 (→ ←): 挿管チューブ

図2 頸部腫瘍(←): 頭側

図4 左: ^{99m}Tc シンチ 右: ^{201}Tl シンチ

に圧排され両葉の上極を認めるのみであった。さらに、腫瘍との剥離が困難であったため左葉の上極の一部を残し右葉は腫瘍と共に摘出した(図5)。反回神経は両側とも確認保存された。腫瘍は一部胸郭内に入り込んでいたが、胸骨に操作を加える事なく摘出可能であった。気管は腫瘍による圧迫のため菲薄化しており、摘出時に腫瘍後面の気管壁は腫瘍と共に切除されたため、大きな気管前壁の欠損が生じた。又、腫瘍の圧迫により変色、変性した皮膚も同時に切除されたが、腫瘍摘出後、側頸部よりの **advanced flap** により、手術により拡大された気管切開口を残して、一期的に修復した。副甲状腺に関しては、甲状腺右葉の上極外側に副甲状腺を確認し、これを保存したが、左側の副甲状腺は確認しえなかった。気管の腫瘍による左方偏位と、甲状腺の右葉上極外側に副甲状腺を確認したことから、この腫瘍は甲状腺右側下部の副甲状腺由来のものと考えられた。摘出標本の重量は98

gであった(図6)。

病理組織学的所見：腫瘍は被膜につつまれ、コロイド濾胞のある正常の甲状腺組織と結合組織でかたく結びついていた(図7)。腫瘍細胞は、細胞質が比較的大きく、核の異形性のみられない、エオジン好性の好酸性細胞腺腫であった(図8)。

術後経過：術後、副甲状腺機能並びに甲状腺機能低下はなく、また、反回神経麻痺も認められなかった。3月14日、DP皮弁によって気管切開口を閉じ、4月9日、皮弁を切り離し4月18日退院となった。

考 按

1. 本症例の特徴について

本症例は重量が98gという巨大な副甲状腺腫であり、ホルモン非活性の **oxyphil cell adenoma** (好酸性細胞腺腫) であった。重量に関し

図5 (←)：頭側 (⇒)：腫瘍

図6

図7 ×10 ヘマトキシリン・エオジン染色
(⇒) 腺腫 (←) 甲状腺

図8 ×400 ヘマトキシリン・エオジン染色

ては、成書によれば、腺瘍の重量は100gにも達することがあるという。今回、我々が渉猟した範囲内、重量の記載のあるものでは、好酸性細胞腺腫単独では52g²⁾、半切された甲状腺を含めると153gが最大であった³⁾。副甲状腺腫は、一般に原発性副甲状腺機能亢進症症例で発見されることが多く、これらの場合はホルモン活性があり、重量も少ないものが多い。園田ら⁴⁾の詳細な、わが国副甲状腺腫瘍202例の統計分析を参照すれば、記載の明確な腺腫119例の90%以上が9.9g以下であり82例(70%)が2.9g以下の小腺腫であった。本症例のように、腺腫が巨大になり得たのは、ホルモン非活性であったために、高Ca血症による種々の症状、消化器症状、尿路結石症、骨病変といった臨床所見を呈さなかったことによると考えられる。

副甲状腺は中胚葉起源で、上副甲状腺は第3鰓嚢、下副甲状腺は第4鰓嚢由来とされている。したがって、副甲状腺の数は、上下左右の4腺が一般的とされており、Gilmourの428剖検例での検討でも4腺を持つ症例が87%と最も多く、このことを裏づけている⁵⁾。腺腫の発生部位に関しては、上述の園田ら⁴⁾によると、左右差は殆ど認められないが、上副甲状腺に比して、下副甲状腺の方が腺腫になる可能性が高いとされている。我々の症例は右下副甲状腺よりの発生と考えられた。

副甲状腺腺腫瘍の圧迫による気道閉塞例は、非常に珍しく、副甲状腺癌の気管浸潤により、癌がポリープ様に気管内に突出して気道閉塞をきたした症例が報告⁶⁾されているが、本症例のように副甲状腺の腺腫により気道閉塞がもたらされた報告例はなかった。先に述べた半切された甲状腺を含んで153gの重量に達した巨大な副甲状腺腺腫症例でも嚥下障害、気管の偏位は来したものの呼吸困難は認められなかった。我々の症例が気道閉塞を来した理由はCTに見られるように、通常、腺腫による気管圧迫が1方向から加わるのと異なり、腺腫が気管周囲を取り囲み、同時に多方向から圧迫が加わったためと考

えられる。

2. 副甲状腺腫の局在診断について

副甲状腺腺腫の術前局在診断は必ずしも容易ではない。本症例のように巨大化した腫瘍は別として、大多数は上述のごとく10g以下のホルモン活性腺腫で臨床症状や、血清中のCa、P、PTHよりその存在が推測されるものの、視診あるいは触診でその存在部位が確定される事は少ない。したがって、従来より種々の局在診断方法が用いられてきた。観血的方法として、血管造影法があり、信頼すべき方法と考えられるが、手技が必ずしも容易ではなく、侵襲も少なくない^{7)~9)}。選択的甲状腺静脈採血によるPTHの定量¹⁰⁾による診断も手技が煩雑である。非観血的方法としては、⁷⁵Se-selenomethionineによるシンチグラフィが用いられてきたが、false negative, false positiveの割合が高く、満足すべき方法とはいえなかった¹¹⁾¹²⁾。福永ら¹³⁾が1979年、²⁰¹Tl-chlorideによるシンチグラフィで副甲状腺腺腫の描出を初めて試み、有用であったことを報告して以来、主として原発性副甲状腺機能亢進症例で試みられてきた。中西ら¹⁴⁾は、⁷⁵Seとの比較を行い、²⁰¹Tlシンチでは10症例中0.9g以上の8症例において病巣の描出可能であったが、⁷⁵Seシンチでは10症例中、1症例の病巣が描出されたにすぎず、²⁰¹Tlシンチの有用性を報告している。大塚ら¹⁵⁾も、²⁰¹Tlシンチにて1.7gと1.8gの腺腫例が描出できたと報告している。最近では^{99m}Tcによる甲状腺像サブトラクションを付加すること(²⁰¹Tl-^{99m}Tcサブトラクションシンチグラフィ)により局在診断力はさらに向上し、腺腫、過形成合わせて70~90%、腺腫のみに限ると83~95%と報告されている^{16)~18)}。伊藤¹⁸⁾は、0.5g以下の小さな腫瘍におけるサブトラクションの必要性を強調しており、これにより0.1gの過形成病変の描出に成功している。²⁰¹Tlは血流よりの消失速度が早く、腎、心筋に次いで甲状腺に親和性が有り、腫瘍に対して強い集積を示すが、その集積は実質部に強

く、壊死化した部分あるいは液化した部分への集積は弱い¹⁹⁾。²⁰¹Tlの副甲状腺腫瘍への集積機序については、腫瘍への血流の増大によるものと考えられている¹³⁾¹⁴⁾。本症例も²⁰¹Tlによって描出されたが、本症例のように巨大な腫瘍の場合、シンチグラフィーの結果からは甲状腺の悪性腫瘍を最初に考えるのが妥当と思われる。他の非観血的局在診断法としては超音波断層法とCTスキャンがあげられる。超音波断層法に関しては描出力は腫瘍の大きさにあまり影響されないという利点があるものの、腫瘍の局在部位により、その描出能や読影が影響されるという欠点がある。例えば、気管、食道の裏面に存在する腫瘍の描出は困難であり、また部位によっては前頸筋と間違われる可能性がある。CTに関しては、福永ら²⁰⁾が原発性副甲状腺機能亢進症18例、続発性副甲状腺機能亢進症8例、多発性内分泌腺症Ⅰ型2例に対してCTによる検索を行い、46病変中38病変を見いだしており、しかも1g以下の病変を有する5例中4例の検出が可能であったとしている。CT値に関しては副甲状腺腫(過形成も含む)は甲状腺と筋肉との中間値を示し、甲状腺との鑑別が可能であるが、1g以下の病変の検出にはcontrast enhancementが必要であったとしている。また長崎ら²¹⁾はCTと²⁰¹Tlシンチを組み合わせて0.7gの腺腫を検出出来たと報告している。したがって、副甲状腺腫の局在診断は²⁰¹Tl-^{99m}TcサブトラクションシンチグラフィーとCTを組み合わせで行うのが、現時点では最も有用と考えられる。

3. 好酸性細胞腺腫について

副甲状腺は主細胞、好酸性細胞、水様透明細胞により構成されている。好酸性細胞は退行した活性の低い主細胞とされ、加齢と共に増加する傾向があり、特に老人においては、これが結節状に集まって見られることがある。副甲状腺における増殖性は、他の臓器と同様に機能とは無関係に発生した限局性過形成から、腺腫や腺腫様結節状過形成へと発展するものとみなされ

るが、その増殖巣が副甲状腺ホルモンを盛んに分泌する主細胞からなる場合には、やがて機能亢進状態を示し、好酸性細胞腺腫は原則として、ホルモン非活性で副甲状腺機能亢進症を示さないとされていた。しかし、Sommersら²²⁾は自験例6症例と25例の文献的考察から好酸性細胞腺腫であっても副甲状腺機能亢進症を示す症例があることを報告している。また、Bedetti²³⁾らによると160例の副甲状腺腫のうち、10例がホルモン活性の好酸性細胞腺腫であった。さらに、原爆被爆者に発生した好酸性細胞型の混合腺腫2症例においても機能亢進症状を伴っていた²⁴⁾。また、副甲状腺腫は他臓器の悪性腫瘍を合併することが多く、特に甲状腺は発生学的にも、解剖学的にも、近縁関係にあり、甲状腺癌の合併頻度が高いとされている。

Leo Kaplanらによると、166例の副甲状腺腫のうち43例が悪性腫瘍を合併し、そのうち9例が甲状腺癌であった²⁵⁾。今回の、我々の症例は、ホルモン非活性の好酸性細胞腺腫であり、他臓器の悪性腫瘍の合併はなかったと考えられる。

結 語

気道閉塞症状を来した重量98gの巨大副甲状腺好酸性細胞腺腫症例を経験したので、文献的考察と共に報告した。

本論文の要旨は第47回耳鼻咽喉科臨床学会総会にて発表した。

参考文献

- 1) 的場直矢：上皮小体腫瘍。外科 Mook 頸部腫瘍の臨床(草間 悟, 他編)。243～252頁, 金原出版, 東京, 1979.
- 2) Hadfield G and Rogers H: Two parathyroid tumor without osteitis fibrosa; one associated with acromegaly. J Path Bact 35: 259～263, 1932.
- 3) Janette N, et al: Large parathyroid adenoma in a normo calcemic patient. Pathology 15: 491～496, 1983.

- 4) 園田孝夫, 他: 副甲状腺腫瘍. わが国における原発性副甲状腺機能亢進症について. 日本臨床 30 : 124~133, 1972.
- 5) Gilmour JR : The gross anatomy of the parathyroid gland. J Path Bact 43 : 133~149, 1938.
- 6) Inoue H, et al : Parathyroid carcinoma with tracheal invasion and airway obstruction. Surgery 87 : 113~117, 1980.
- 7) Doppman JL : Arteriography and venous sampling. Radiologic Clinics of North America 14 : 163~188, 1972.
- 8) Kurtz CH and Goldsmith RE : Selective angiography of parathyroid adenoma. Radiology 102 : 21~28, 1972.
- 9) Seldinger SI : Localization of parathyroid adenoma by arteriography. Acta Radiol 42 : 353~366, 1954.
- 10) Reitz RE, et al : Localization of parathyroid adenomas by selective venous catheterization and radioimmunoassay. N Engl J Med 281 : 348~351, 1969.
- 11) Collea AC and Pigorini F : Experience with parathyroid scintigraphy. Am J Roentgenol 109 : 714~723, 1970.
- 12) Garrow JS and Smith R : The detection of parathyroid tumours by selenomethionine scanning. Brit J Radiol 41 : 307~311, 1968.
- 13) 福永仁夫, 藤田 透, 他 : ^{201}Tl -chlorideによる副甲状腺腫瘍の描出. 核医学 16 : 327~330, 1979.
- 14) 中西文子, 春日敏夫, 他 : 副甲状腺腫瘍局在診断に対する ^{201}Tl -chloride シンチグラフィの有用性. 核医学 18 : 309~314, 1981.
- 15) 大塚康吉, 浅野治子, 他 : ^{201}Tl -chloride シンチグラムで集積像を示した上皮小体腫の2例. 外科 45 : 859~862, 1983.
- 16) Young AE, Gaunt JI, et al : Location of parathyroid adenomas by thallium-201 and technetium-99m subtraction scanning. Brit M J 286 : 1384~1386, 1983.
- 17) Wheeler MH, Harrison BJ, et al : Preliminary results of thallium-201 and technetium-99m subtraction scanning of thyroid glands. Surgery 96 : 1078~1082, 1984.
- 18) 伊藤和男 : ^{201}Tl -99mTc サブラクシオンシンチグラフによる過機能副甲状腺の局在診断に関する研究. 北海道医誌 59 : 701~720, 1984.
- 19) 原田種一, 他 : ^{201}Tl スキャンによる結節性甲状腺腫の手術適応の決定. 外科 41 : 815~820, 1979.
- 20) 福永仁夫, 他 : スキャンによる副甲状腺腫瘍の局在診断. 臨床放射線 26 : 1015~1020, 1981.
- 21) 長崎正明, 他 : CT, ^{201}Tl -chloride シンチグラフィにて術前局在診断しえた副甲状腺腫瘍の1例. 内科 52 : 587~591, 1983.
- 22) Sommers SC and Young TL : Oxyphil parathyroid adenomas. Amer J Path 28 : 673~689, 1952.
- 23) Bedetti CD, Dekker A and Watson CG : Functioning oxyphil cell adenoma of ten patients with hyperparathyroidism. Hum Path 15 : 1121~1126, 1984.
- 24) 武市宣雄, 西田俊博, 他 : 原爆被爆者にみられた巨大機能性上皮小体腺腫の2例. 癌の臨床 29 : 851~854, 1983.
- 25) Leo Kaplan, et al : Malignant neoplasms and parathyroid adenoma. Cancer 28 : 401~406, 1971.

(原稿採択 : 昭和62年2月13日 急載)
別刷請求先 : 稲井英樹
〒420 静岡市追手町10-93
静岡市立静岡病院耳鼻咽喉科)