

■ S-289 ■

A Case of Adult Onset Langerhans Cell Histiocytosis Presenting with Central Diabetes Insipidus

Department of Internal Medicine, Chungnam National University Hospital, Daejeon, Korea

*Min kyung Back, Sang hyun Ju, Min young Shin, Ji min Kim, Yea eun Kang, Ju hee Lee, Kyong hye Joung, Bon jeong Ku, Hyun jin Kim

Langerhans cell histiocytosis(LCH) is characterized by an abnormal proliferation and accumulation of pathological Langerhans cell in single or multiple organs. Central diabetes insipidus(CDI) is most common endocrine manifestation in about 25 percent of LCH. The incidence of LCH is very low and usually encountered children aged 1 to 3 years. In particular, adult onset LCH is even rarer and its incidence has been reported to be around 1 to 2 case per million people per year. We report a case of a 44-year-old woman diagnosed with multisystem LCH presenting with CDI. A 44-year-old woman was diagnosed with idiopathic CDI through water deprivation test and sellar MRI and was treated with desmopressin in other hospital. After treatment, polydipsia and polyuria were improved, but galactorrhea and irregular menstruation continued, so she visited our hospital. There is no abnormal symptom, sign and laboratory finding except prolactin and FSH level increased to 43.51 and 81 respectively. 2 months after first visit, she had lower back pain and then sacrum biopsy was performed in orthopedics which resulted benign. However, sustained galactorrhea made her to visit our hospital again and recheck the pituitary hormone. There was no abnormal findings on anterior pituitary stimulation test except the elevated basal level of prolactin. Sellar MRI revealed multiple metastasis in sellar, suprasella area, both side frontal lobes and pons. Additionally, PET-CT showed multiple metastasis in pituitary gland, T1-, T5-spine, sacrum, Rt. humerus head, and Rt. pelvic bone. We performed sellar mass biopsy for tissue diagnosis, which revealed aggregation of histiocytes with strong reactivity to anti-CD1a and anti-CD68 antibody on the immunohistochemistry. In the case of idiopathic CDI with pituitary stalk thickening, we should consider the possibility of LCH and perform follow-up MRI.

■ S-290 ■

Teriparatide사용 후 고칼슘혈증으로 진단된 원발성 부갑상선 기능항진증의 1예

Department of Internal Medicine, Sanggye Paik Hospital, Inje University College of Medicine, Seoul, Korea

*Da Hee Kim

서론: 원발성 부갑상선기능 항진증은 대부분 선종에 의하여 부갑상선 호르몬이 과다 분비되어 고칼슘혈증을 일으키는 질환이다. 그러나 증상이 있는 환자에서도 극심한 고칼슘혈증은 드물며 대개의 심한 고칼슘혈증은 각종의 악성종양에 의한 경우가 대부분이다. 원발성 부갑상선기능 항진증의 임상증상으로는 크게 증가된 부갑상선 호르몬에 의한 골대사이상과 고칼슘혈증의 증상이 있으며 원발성 부갑상선기능 항진증 환자에서 대사성 골질환으로 인한 골절 발생 비율이 증가하는 것으로 밝혀졌다. 본 증례에서는 골절을 동반한 심한 골다공증을 가지고 있는 폐경여성에서 약물치료로 부갑상선 호르몬 사용 후 진단된 심한 고칼슘혈증과 원발성 부갑상선기능 항진증에 대한 증례를 경험하였기에 보고하는 바이다. **증례:** 골다공증으로 인한 흉추 및 요추의 다발적 병적압박골절 병력 있는 환자가 내원 3개월전부터 골다공증 치료로 개인병원에서 Teriparatide 투약받았다. 이후 내원 3일전부터 식욕저하, 내원 전날부터 헛소리하고 기운없어하는 모습 보여 입원 하였다. 혈청 생화학 검사상 칼슘 14.3 mg/dL, 이온화 칼슘 1.76 mmol/L, 인 3.5 mg/dL, 요산 10.4 mg/dL, 총단백 6.4 g/dL, 알부민 3.8 g/dL, BUN 62.6 mg/dL, 크레아티닌 1.43 mg/dL, 뇨중 칼슘 및 크레아티닌의 단축비는 10 mg/dL, 11.86 mg/dL였다. 부갑상선 호르몬검사항 204.1 pg/mL였다. 경부 초음파상 좌우부 부갑상선 종괴(1.3 c × 1.0 × 4.8 cm)가 관찰되었다. Tc-99m MIBI 을 이용한 부갑상선 스캔상 갑상선 좌엽부위에서 조영증강 소견을 보였다. 입원 후 4-5L의 생리식염수와 함께 Pamidronate 90 mg, salcatonin 200 iu 투여하였고 입원 7일째 부갑상선 종괴에 대하여 일반외과에서 좌하엽 부갑상선 절개술을 시행하였다. **결론:** 골절을 동반한 심한 골다공증이 있는 폐경 후 여성에서 골다공증 치료제로 부갑상선 호르몬제(Teriparatide) 투여 이후 발견된 고칼슘혈증과 함께 원발성 부갑상선 기능 항진증을 발견하여 선종의 수술적 제거와 함께 약물치료로 호전된 예를 경험하였기에 보고하는 바이다.