

WOJCIECH PAWLAK¹, MAREK BOLANOWSKI², ANNA BOHDANOWICZ-PAWLAK², RAFAŁ NOWAK¹

Guz olbrzymiokomórkowy żuchwy jako pierwszy objaw pierwotnej nadczynności przytarczyc – opis przypadku

Giant Cell Tumour of the Mandible as the First Manifestation of Primary Hyperparathyroidism – Case Report

¹ Katedra i Klinika Chirurgii Szcękowo-Twarzowej AM we Wrocławiu

² Katedra i Klinika Endokrynologii, Diabetologii i Leczenia Izotopami AM we Wrocławiu

Streszczenie

Autorzy przedstawili przypadek 57-letniej kobiety, u której guz olbrzymiokomórkowy żuchwy był pierwszym objawem pierwotnej nadczynności przytarczyc. Badania laboratoryjne wykazały zwiększone stężenia wapnia (2,62 mmol/l) i hormonu przytarczyc (PTH) (159 pg/ml) w surowicy oraz zwiększone wydalanie wapnia z moczem (16,5 mEq/24 h). W scyntygrafii przytarczyc uwidoczniiono gruczolaka przytarczycy. Diagnostyka potwierdziła obecność gruczolaka przytarczyc jako pierwotnej przyczyny opisywanych zmian (**Dent. Med. Probl. 2005, 42, 3, 517–520**).

Słowa kluczowe: guz olbrzymiokomórkowy, żuchwa, pierwotna nadczynność przytarczyc.

Abstract

The authors present a case of 57-year-old woman with giant cell tumor of the mandible which appeared to be the first manifestation of primary hyperparathyroidism. Blood tests demonstrated elevated calcium (2.62 mmol/l) and parathyroid hormone (PTH) concentration (159 pg/ml) and hypercalciuria (16.5 mEq/24 h) was proven. Scintigraphic examination revealed the presence of parathyroid adenoma. Posterior exploration confirmed the existence of a parathyroid adenoma as the cause of the condition (**Dent. Med. Probl. 2005, 42, 3, 517–520**).

Key words: giant cell tumour, mandible, primary hyperparathyroidism.

Wiele wczesnych objawów chorób gruczolów wewnętrznego wydzielania jest możliwe do stwierdzenia przez lekarza stomatologa; przykładem mogą być poszerzone przestrzenie międzyzębowe, a następnie rozchwanie się i wypadanie zębów w akromegalii, obecność ektopowej tkanki tarczycowej na języku, czy też zmiany na błonie śluzowej w przebiegu cukrzycy lub niewydolności kory nadnerczy (choroba Addisona) [1–3]. Jednym z objawów tego typu, często niezauważanym, jest obecność guza olbrzymiokomórkowego (*epulis gigantocellularis*, *granuloma reparativum gigantocellulare*) wskazującego na możliwość pierwotnej nadczynności przytarczyc (p.n.p.) [4–7].

P.n.p. jest spowodowana nadmiernym wydzielaniem hormonu przytarczyc (parathormon, PTH) przez gruczolaka, raka lub przerost przytarczyc.

Choroba jest często bezobjawowa, występuje głównie u starszych kobiet. Następstwem nadmiernego, autonomicznego wydzielania PTH są hiperkalcemia, hipofosfatemia i hiperkalciuria. Wzmoczona resorpcja kostna jest przyczyną osteoporozy i zwiększonego zagrożenia złamaniami. Innymi objawami mogą być: włóknisto-torbielowe zapalenie kości, guzy brunatne, torbiele kostne, a z pozakostnych – kamica nerkowa, żółciowa, choroba wrzodowa, zapalenie trzustki, nadciśnienie tętnicze. Leczenie przyczynowe p.n.p. polega na operacyjnym usunięciu gruczolaka lub przerostów przytarczyc [8, 9].

Częsty, początkowo bezobjawowy, przebieg choroby i możliwość wczesnych objawów stomatologicznych zachęciły autorów do przedstawienia przypadku rozpoznania p.n.p. w następstwie usunięcia guza części zębodołowej żuchwy.

Opis przypadku

57-letnia kobieta D. J. (historia choroby nr 24/05) została przyjęta do Kliniki Chirurgii Szczękowo-Twarzowej AM we Wrocławiu w celu usunięcia nawrotu guza części zębodołowej żuchwy w obrębie zębów 43. i 44. W badaniu klinicznym stwierdzono rozrastający się egzofitycznie guz, wielkości 30×30 mm, związany z podłożem szeroką szypułką, zbudowany z kruchej, łatwo krwawiącej tkanki o zabarwieniu żywoczerwonym, wpuklający się w kierunku dna jamy ustnej (ryc. 1). W obrazie radiologicznym było widoczne rozsuniecie korzeni zębów 43. i 44., bez cech ich resorpcji (ryc. 2). W znieczuleniu ogólnym usunięto guz wraz z marginesem makroskopowo zdrowych tkanek i tkwiącymi w jego masie zębami 43. i 44. (ryc. 3). Badanie histopatologiczne (nr 280519 – ryc. 4) wykazało obecność guza olbrzymiokomórkowego.

Pacjentka od 15 lat choruje na bezobjawową kamice nerkową, w 50. r.ż. przeżyła menopauzę, nie stosuje hormonalnej terapii zastępczej. Pod-

czas hospitalizacji stwierdzono nadciśnienie tętnicze, które unormowano za pomocą dwóch leków hipotensyjnych.

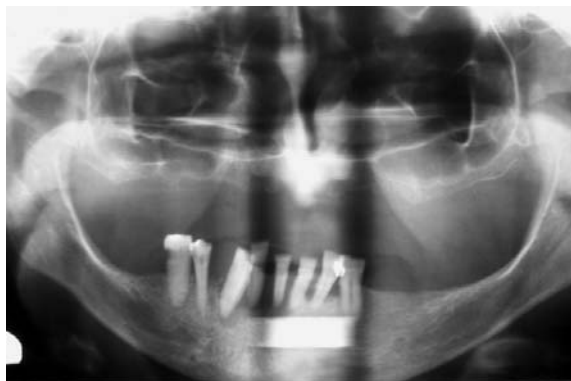
Biorąc pod uwagę całokształt obrazu klinicznego oraz wynik badania histopatologicznego, wysunięto przypuszczenie pierwotnej nadczynności przytarczyc. Wobec tego w Klinice Endokrynologii, Diabetologii i Leczenia Izotopami AM we Wrocławiu wykonano badania laboratoryjne, których wyniki potwierdziły wstępne rozpoznanie: stężenie PTH 159 pg/ml (norma 11–67), stężenie wapnia całkowitego 2,62 mmol/l (norma 2,02–2,55), stężenie fosforanów nieorganicznych 0,9 mmol/l (norma 0,81–1,61), wydalanie wapnia z moczem 16,5 mEq/24 godziny (norma 5–12), aktywność fosfatazy alkalicznej 281 U/l (norma 100–290). Czynność tarczycy i innych gruczołów wewnętrznego wydzielania była prawidłowa. Z odchyień od normy w badaniach laboratoryjnych stwierdzono hipercholesterolemię (212 mg%, norma 150–200) oraz hipertriglicydemię (591 mg%, norma 40–160).

Scyntygrafia przytarczyc z użyciem Tc-99m



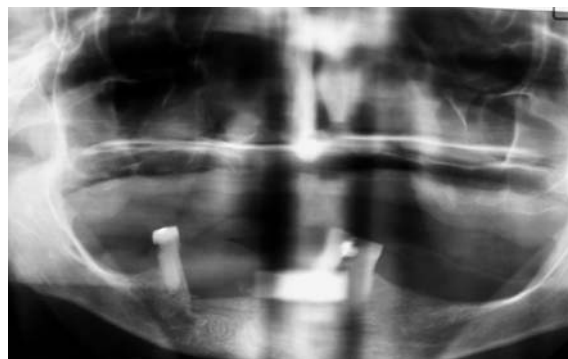
Ryc. 1. Guz żuchwy przed usunięciem

Fig. 1. Mandibular tumour before removal



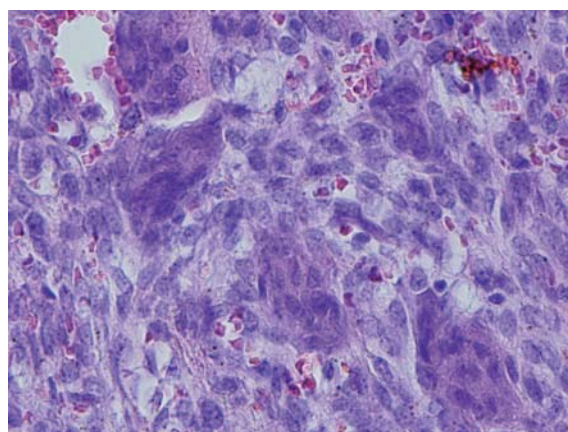
Ryc. 2. Zdjęcie panoramiczne – widoczny ubytek osteolityczny między rozsuniętymi zębami 34. i 44.

Fig. 2. Panoramic X-ray – osteolytic lesion visible between the dilated teeth 34 and 44



Ryc. 3. Zdjęcie panoramiczne – po usunięciu guza

Fig. 3. Panoramic X-ray – after tumour removal



Ryc. 4. Preparat histologiczny, powiększenie 40×, barwienie HE; widoczne komórki wielojądrowe olbrzymie

Fig. 4. Histological specimen, HE staining showed multinucleated giant cell; magnification $\times 40$

MIBI uwidoczniła w akwizycji opóźnionej obszar przetrwałej dużej aktywności w rzucie górnego bieguna lewego płata tarczycy, wskazując na możliwe umiejscowienie gruczolaka przytarczyc.

Badanie densytometryczne (metoda DXA, Lunar DPX-L) wykazało osteoporozę w obrębie kości korowej przedramienia (T-score – 3,21) a osteopenię w obrębie lędźwiowego odcinka kręgosłupa (T-score – 1,58), szyjki kości udowej (T-score – 1,78) i kości beleczkowej przedramienia (T-score – 1,62). Badanie ultradźwiękowe pięty (Achilles Plus, Lunar) wykazało prawidłowy wynik szybkości przechodzenia fali ultradźwiękowej i szeroko-pasmowego współczynnika rozproszenia ultradźwięków, wskazując na prawidłowe utkanie kości piętowej (kość beleczkowa).

Chorą skierowano do leczenia operacyjnego gruczolaka przytarczyc.

Omówienie

Opisano przypadek 57-letniej kobiety, u której w wyniku chirurgicznego leczenia guza nadziąsłowego rozpoznano p.n.p. W tym przypadku autorzy mieli do czynienia ze skąpoobjawową postacią p.n.p., chora nie podawała występowania choroby wrzodowej ani zapalenia trzustki, jedynie kamicę nerkową przebiegającą bezobjawowo. Wykazana w badaniu densytometrycznym osteoporoza ograniczona do kości korowej przedramienia nie była powikłana złamaniami. Naciśnienie tętnicze, stwierdzone podczas hospitalizacji, skutecznie leczono dwoma lekami hipotensyjnymi.

Właściwe postępowanie stomatologa umożliwiło wczesne rozpoznanie i leczenie nadczynności przytarczyc. Stwierdzono zwiększone wydzielanie PTH z hiperkalcemią i hiperkalciurią, stężenie fosforanów nieorganicznych było prawidłowe (dolna granica normy), podobnie jak aktywność fosfatazy zasadowej (górna granica normy). W opisywanym przypadku w celu potwierdzenia rozpoznania było wystarczające stwierdzenie wysokiego wydzielania PTH z typowymi zaburzeniami stężenia wapnia we krwi i w moczu. Z pewnością, gdyby badania laboratoryjne wykonano później, doszłoby także do nieprawidłowości w stężeniu fosforanów i aktywności fosfatazy alkalicznej.

W piśmiennictwie jest znany opis innego przypadku rozpoznania p.n.p. u 36-letniej kobiety na podstawie przypadkowego badania ultradźwiękowego paliczków i pięty potwierdzonego osteoporoza w badaniu DXA. Po usunięciu gruczolaka przytarczyc udokumentowano znaczny przyrost gęstości kości (BMD) oraz poprawę wskaźników

ultradźwiękowych kości pięty i paliczków ręki. Kilka lat wcześniej pacjentka przeżyła operację usunięcia ziarniniaka szczęki i gdyby wówczas dokonano diagnostyki czynności przytarczyc, być może nie doszłoby do kamicy nerkowej, silnych bólów kostnych towarzyszących zmianom niekształcąco-zwyrodnieniowym lędźwiowego odcinka kręgosłupa i do znacznego ubytku BMD [4].

Vikram et al. opisali przypadek 35-letniego mężczyzny, u którego guz olbrzymiokomórkowy części żębodołowej żuchwy był pierwszym objawem raka przytarczyc. U tego chorego wzrost guza był bardziej ekspansywny, stwierdzono resorpcję korzeni zębowych i kości żuchwy, a stężenia wapnia i PTH w surowicy były znacznie większe niż u chorej badanej przez autorów [7].

Ubytek BMD w p.n.p. początkowo dotyczy jedynie kości korowej (jak w obecnym opisie), z czasem obejmuje także kość beleczkową, prowadząc do zwiększonego zagrożenia złamaniami. Dlatego jest ważne wykonanie badania densytometrycznego, najlepiej metodą DXA, tych obszarów szkieletu, gdzie dominuje kość korowa (przedramię, bliższa nasada kości udowej), a także kość beleczkowa (lędźwiowy odcinek kręgosłupa).

Zmiany w jamie ustnej mogą towarzyszyć także innym chorobom. Autorzy opisali przypadek kobiety z towarzyszącym głębokim zatrzymaniem dolnych zębów mądrości, przemieszczeniem dopoliczkowym górnych zębów mądrości, wrodzonym brakiem pierwszego dolnego zęba trzonowego po stronie prawej i brakiem wędzidełka dolnej wargi w przebiegu zespołu Kallmanna [10]. Opisywano także ektopową obecność tarczycy na języku [2].

W przypadku nadczynności przytarczyc należy liczyć się z możliwością zespołu gruczolistości wielohormonalnej (MEN – *multiple endocrine neoplasia*), w postaci guza przysadki (najczęściej typu *prolactinoma*), guza chromochłonnego rdzenia nadnerczy (*feochromocytoma*), hormonalnie czynnego guza trzustki czy raka rdzeniastego tarczycy [1, 11]. W opisywanym przypadku anamneza, badanie przedmiotowe, wyniki badań hormonalnych i obrazowych pozwoliły na wykluczenie takiej zbieżności, ale jej możliwość należy zawsze brać pod uwagę.

Powyższy opis ukazuje możliwość wczesnego rozpoznania ogólnoustrojowej choroby, jaką jest pierwotna nadczynność przytarczyc, przez lekarza stomatologa na podstawie jednego z objawów klinicznych. Świadomość takiej możliwości i specjalistyczna wiedza mogą poprawić skuteczność opieki medycznej.

Piśmiennictwo

- [1] BOLANOWSKI M.: Choroby przysadki i podwzgórza. W: Endokrynologia na co dzień. Red.: Milewicz A., Akademia Medyczna, Wrocław 2003.
- [2] ELIDAN J., CHISIN R., GAY I.: Lingual thyroid, sensorineural hearing loss and mental retardation: a coincidental association? *J. Laryngol. Otol.* 1983, 97, 539–542.
- [3] Endocrinology 4th edition. Eds.: DeGroot L. J., Jameson J. L., WB Saunders Co., Philadelphia 2001.
- [4] BOLANOWSKI M., PLUSKIEWICZ W.: Quantitative ultrasound of the hand phalanges and calcaneus revealed skeletal abnormalities due to primary hyperparathyroidism: A case report. *Ultrasound Med. Biol.* 2002, 28, 265–269.
- [5] MARTINEZ-GAVIDIA E. M., BAGAN J. V., MILIAN-MASANET M. A., LLORIA DE MIGUEL E., PEREZ-VALLES A.: Highly aggressive brown tumor of the maxilla as first manifestation of primary hyperparathyroidism. *Int. J. Oral Maxillofac. Surg.* 2000, 29, 447–449.
- [6] SUAREZ-CUNQUEIRO M. M., SCHOEN R., KRSTEN A., KLISCH J., SCHMELZEISEN R.: Brown tumor of the mandible as first manifestation of atypical parathyroid adenoma. *J. Oral Maxillofac. Surg.* 2004, 62, 1024–1028.
- [7] VIKRAM H. R., PETITO A., BOWER B. F., GOLDBERG M. H.: Parathyroid carcinoma diagnosed on the basis of giant cell lesion of the maxilla. *J. Oral Maxillofac. Surg.* 2000, 58, 567–569.
- [8] HEATH H. III, HODGSON S. F., KENNEDY M. A.: Primary hyperparathyroidism: Incidence, morbidity and potential economic impact in the community. *N. Engl. J. Med.* 1980, 302, 189–193.
- [9] GRABIŃSKI M., BOLANOWSKI M.: Schemat postępowania diagnostycznego w przypadku podejrzenia pierwotnej nadczynności przysadczyc. *Pol. Tyg. Lek.* 1985, 40, 775–779.
- [10] BOLANOWSKI M., PAWLAK W., SPRING A.: Zmiany w jamie ustnej oraz nieprawidłowości budowy i czynności serca u 19-letniej kobiety z zespołem Kallmanna. Case report. *Clin. Pract. Rev.* 2001, 2, 108–111.
- [11] BRANDI M. L., GAGEL R. F., ANGELI A., BILEZIKIAN J. P., BECK-PECCOZ P., BORDI C., CONTE-DEVOLX B., FALCHETTI A., GHERI R. G., LIBROIA A., LIPS C. J., LOMBARDI G., MANNELLI M., PACINI F., PONDER B. A., RAUE F., SKOGSEID B., TAMBURRANO G., THAKKER R. V., THOMPSON N.W., TOMASSETTI P., TONELLI F., WELLS S. A. JR., MARX S. J.: Guidelines for diagnosis and therapy of MEN type 1 and type 2. *J. Clin. Endocrinol. Metab.* 2001, 86, 5658–5671.

Adres do korespondencji:

Wojciech Pawlak
Katedra i Klinika Chirurgii Szcękowo-Twarzowej AM
ul. Chałubińskiego 5
50-368 Wrocław
tel.: +4871 784 22 64
e-mail: wpawlak@mfs.am.wroc.pl

Praca wpłynęła do Redakcji: 1.08.2005 r.

Po recenzji: 31.08.2005 r.

Zaakceptowano do druku: 31.08.2005 r.

Received: 1.08.2005

Revised: 31.08.2005

Accepted: 31.08.2005