

Presentación de caso

Hiperparatiroidismo primario asociado a carcinoma papilar de tiroides

Primary Hyperparathyroidism Associated with Papillary Thyroid Carcinoma

Ramón Filiberto González Fernández^{1*} <https://orcid.org/0000-0002-4059-008X>

Javier Colunga Dávalos¹ <https://orcid.org/0009-0006-1874-7518>

¹Hospital Clínico Quirúrgico Hermanos Ameijeiras. La Habana, Cuba.

*Autor para la correspondencia: rfglezfdez@gmail.com

RESUMEN

Introducción: El hiperparatiroidismo primario es debido a la secreción excesiva de hormona paratiroidea por una o más glándulas paratiroides. El adenoma paratiroideo solitario en aproximadamente en el 80 % de los pacientes su causa y las restantes se deben fundamentalmente a adenomas múltiples, hiperplasia y, raramente, a carcinomas.

Objetivo: Presentar el caso de un paciente masculino afectado por hiperparatiroidismo primario asociado a un carcinoma papilar de tiroides.

Presentación del caso: Se presenta el caso de un paciente masculino de 22 años de edad con niveles de calcio sérico elevados, así como de la hormona paratiroidea y de fósforo sérico disminuido, asociados a manifestaciones osteolíticas. Al tratarse de una combinación de entidades poco frecuente, se considera de interés científico publicar el caso para conocimiento de los profesionales dedicados al estudio y tratamiento de las afecciones quirúrgicas del cuello.

Conclusiones: La forma clásica y sintomática del hiperparatiroidismo en pacientes masculinos, jóvenes y concomitantes con un carcinoma papilar de tiroides es infrecuente. En estos casos, la asociación de las técnicas quirúrgicas de resección de ambas glándulas está justificada.

Palabras clave: hiperparatiroidismo primario, paratiroidectomía; cáncer papilar tiroideo.

ABSTRACT

Introduction: Primary hyperparathyroidism is caused by excessive secretion of parathyroid hormone by one or more parathyroid glands. Solitary parathyroid adenoma is the cause in approximately 80% of patients, with the remainder mainly due to multiple adenomas, hyperplasia, and, rarely, carcinomas.

Objective: To present the case of a male patient affected by primary hyperparathyroidism associated with papillary thyroid carcinoma.

Case presentation: We present the case of a 22-year-old male patient with elevated serum calcium and parathyroid hormone levels and decreased serum phosphorus, associated with osteolytic manifestations. As this is a rare combination of conditions, it is considered of scientific interest to publish the case for the benefit of professionals involved in the study and treatment of surgical conditions of the neck.

Conclusions: The classic and symptomatic form of hyperparathyroidism in young male patients with concomitant papillary thyroid carcinoma is uncommon. In these cases, the combination of surgical techniques for resection of both glands is justified.

Keywords: primary hyperparathyroidism, parathyroidectomy; papillary thyroid cancer.

Recibido: 23/11/2024

Aceptado: 20/12/2024

Introducción

Las glándulas paratiroides son esenciales para el mantenimiento homeostático del metabolismo del calcio. Pueden variar de su posición habitual y encontrarse ectópicamente (intratiroidea, retrofaríngea, prevertebrales, pericarotídeas, tímica, mediastino superior, entre otras). No guardan relación funcional con el tiroides.^(1,2) El hiperparatiroidismo primario (HPP) está dado por la secreción excesiva de hormona paratiroidea (HPT) por una o varias de las paratiroides, y es la tercera enfermedad endocrina más frecuente. Su prevalencia se estima entre el 0,1-2 % de la población mundial con un predominio del sexo femenino sobre el masculino, en una relación de 3 a 1.^(3,4)

El adenoma paratiroideo solitario causa HPT en aproximadamente el 80 % de los pacientes; y sus causas restantes se deben fundamentalmente a adenomas múltiples, hiperplasia y, raramente, carcinomas.^(5,6,7)

Presentación del caso

Se presenta un paciente masculino de 22 años de edad con antecedentes patológicos personales de hipertensión arterial esencial de tres años de evolución, en tratamiento con amlodipino de 10 mg. Inició con un cuadro clínico de tres meses de evolución dado por pérdida de peso (más de 10 kg), síntomas renales y fractura patológica de cadera derecha, lo que motivó el estudio de calcio sérico (3,8 mmol/l) y fósforo (1 mmol/l); así como tomografía computarizada de pelvis ósea, la que informa múltiples tumores pardos, y tumor óseo de aspecto maligno en el hueso iliaco derecho.

Con esta evidencia se sospecha hiperparatiroidismo y se ingresa para estudio.

Al examen físico:

- Fascie de emaciación crónica

- Palidez de mucosas y piel
- Tiroides no visible ni palpable
- A la palpación, se palpan bilateralmente ganglios de consistencia blanda en la región submandibular, así como ganglios blandos bilaterales en la región inguinocrural, no dolorosos y de aproximadamente 2 x 2 cm
- Deformidad a nivel de la cadera derecha, con miembro inferior derecho acortado y en rotación externa
- Tono muscular, trofismo muscular y fuerza disminuidos
- Motilidad mobiliaria afectada, y dificultad para la bipedestación y deambulación

Estudios complementarios

Estudios de laboratorio:

- Glucosa: 5.21 mmol/l
- TGP: 44.3 U/l
- TGO: 68.9 U/l
- FAL: 347 U/l
- Creatinina: 180.1 umol/l
- Colesterol: 3.17 mmol/l
- TG: 1.26 mmol/l
- PT: 67.4 g/l
- Albúmina: 39.1 g/l
- GGT: 82 U/l
- Fosforo: 0.25mmol/l

Estudios de imagen:

- Radiografías simples:

- Manos, con múltiples lesiones líticas a nivel de arcos costales que insuflan la cortical a nivel de las falanges del tercer dedo derecho, proximal del cuarto y distal del primer dedo derecho que rompe la cortical
Hueso ilíaco derecho y fémur proximal ipsilateral con fractura del cuello quirúrgico
- Ultrasonido renal:
 - Ambos riñones muestran parénquima engrosado y aumentados de ecogenicidad
 - Se encontraron innumerables micro cálculos que ocupaban todos los grupos caliciales de ambos riñones, que no producen dilatación de cavidades
 - Presencia de masa compleja de predominio sólido con múltiples calcificaciones en su interior, que parece depender del ala del coxal derecho y con gran crecimiento hacia la cavidad pélvica, hasta ponerse en contacto con la pared vesical vecina, que mide aproximadamente 8 x 7 cm, la que desplaza hacia adelante y engloba parcialmente al paquete vascular de la región
- Ultrasonido de cuello:
 - En el que se apreció masa compleja en mayoría quística, que mide 4 x 36 mm con pared gruesa de manera simétrica, de la que dependía de varias lesiones focales que mostraron crecimiento hacia la luz de la cavidad quística, muy vascularizadas al examen con Doppler. Esta lesión se proyecta a nivel del polo inferior del lóbulo derecho tiroideo, y a nivel del lóbulo izquierdo en su cara posterior medial, en la que existe una lesión sólida hipoecoica con relación al parénquima glandular vecino de contornos lobulados y bien definidos, muy vascularizada al Doppler, que mide 1,3x1,4 cm, la que, a pesar de su localización hasta que se demostró lo contrario, debía relacionar su presencia con paratiroides ectópicas intratiroides

- No se encontraron adenopatías cervicales
- Imagen osteolítica a nivel del segmento horizontal de la rama derecha de la mandíbula que insufla la cortical y la abomba, pero la respeta con presencia de calcificaciones en su interior que mide 10 x 9 mm
- Tomografía simple:
 - Imagen nodular de 3 cm por debajo del lóbulo derecho del tiroides, que comprime y desplaza a la tráquea. Se observa, además, otra imagen similar por encima del lóbulo izquierdo
- Resonancia magnética:
 - Gran masa heterogénea que mide 70 x 54 x 107 mm de contornos lobulados con intensidad de partes blandas que impresiona deformar y romper el hueso iliaco derecho en su totalidad, con zonas hipotensas marcadamente hipertensas en T2, se asocia a marcado edema de partes blandas perilesional y de músculos pélvicos adyacentes
 - Imágenes similares, pero de menor tamaño ocupando y expandiendo el hueso iliaco izquierdo, sacro y zona epifimetafisaria de ambos fémures, con pérdida de la continuidad de la cortical en algunos niveles del sacro e ilíaco izquierdo
 - Fractura patológica subtrocantérica de fémur derecho, con desplazamiento lateral de fragmento distal y diástasis asociada a sinovitis, edema óseo marcado y edema de músculos de la raíz del muslo

Estudios histopatológicos:

- Biopsia de pelvis ósea:
 - Tumor óseo constituido por la proliferación de células gigantes tipo osteoclasto-like, vasos, abundante pigmento de hemosiderina y fibroblastos. Estos hallazgos histológicos al ser correlacionados con los datos clínicos e imagenológicos del paciente son concluyentes de un tumor pardo del hiperparatiroidismo.

- Biopsia de paratiroides:
 - Hay células que impresionan ser de glándulas paratiroides:
 - o Glándula izquierda: presencia de células paratiroides en la muestra
 - o Glándula derecha: se observa formación papilar, no es concluyente de malignidad *Bethesda V*

Se decide tratamiento quirúrgico, en el que se realizó tiroidectomía total más exéresis de adenoma paratiroideo ectópico. Durante el acto quirúrgico se encontró un gran tumor quístico de 4-6 cm hacia el polo inferior del lóbulo derecho casi independiente (fig. 1), al cual se le realizó exéresis, junto con hemitiroidectomía derecha; y toda la pieza quirúrgica se envió a biopsia por congelación. Posteriormente se expuso el lóbulo izquierdo, y se encontró en su tercio medio un nódulo posterior intratiroideo. Se realizó apertura del lóbulo en su porción posterior y hizo la exéresis de un posible adenoma paratiroideo de 3 cm (fig. 2). Se recibe reporte de la biopsia por congelación, la que informó presencia de un carcinoma papilar en el lóbulo derecho, por lo que se completó la tiroidectomía total.



Fig. 1 - Gran tumor quístico de 4 a 6 cm hacia el polo inferior del lóbulo derecho.

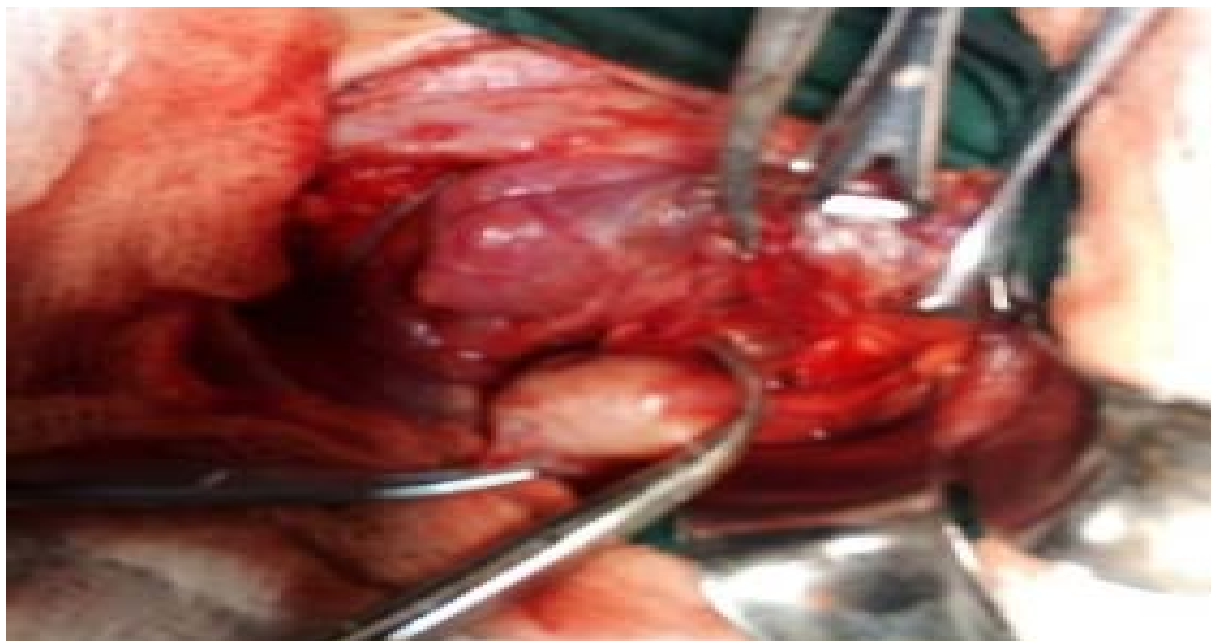


Fig. 2 - Posible adenoma paratiroideo de 3 cm.

Dentro del posoperatorio inmediato, el paciente presentó mejoría clínica y niveles de calcio en límites normales. No se realizó cuantificación de PTH por falta de reactivo en el laboratorio clínico. Los signos de *Trousseau* y *Chvostek*⁽⁴⁾ fueron negativos. Evolución posoperatoria mediata, toleró la vía oral sin problemas, herida quirúrgica limpia, bien afrontada y sin datos de infección. El paciente refirió que ya no hay dolor en los huesos, ni en la mandíbula. Debido a la mejoría clínica y de laboratorio, se decidió dar de alta y seguimiento por endocrinología, nefrología, traumatología y ortopedia.

Discusión

Las formas clínicas del HPP han variado en las últimas décadas. Las formas clásicas más graves han disminuido y, en la actualidad la mayoría de los casos son diagnosticados como hallazgos en estudios de rutina.⁽⁸⁾

El HPP es una entidad que predomina en el sexo femenino y en edades entre la quinta y sexta década de la vida, por lo que el caso que se presenta resulta atípico al afectar a un paciente masculino, joven y con una forma de presentación florida, la que resulta, en la actualidad poco frecuente.

La asociación del HPP con tumores del tiroides, ha sido descrita con frecuencia con el síndrome de neoplasia endocrina múltiple (NEM), en sus dos variantes. Siendo más prevalente en pacientes con NEM 1 en cerca del 100 % de los sujetos con esta afección. Sin embargo, en los pacientes afectados de la forma NEM 2A, solo el 20 % de los casos se asocia a HPP.⁽⁹⁾ En ambos casos la forma histológica de las neoplasias tiroideas es medular y no papilar, como en el caso descrito.

Por otra parte, se ha descrito el síndrome hiperparatiroidismo-tumor mandibular (HPT-TM) el cual se caracteriza por la aparición de tumores paratiroides que en su mayoría, son adenomas benignos y adenomas atípicos.⁽¹⁰⁾ Aunque alrededor de un 15 % de ellos pueden resultar ser malignos y asociarse a fibromas osificantes de la mandíbula y a tumores benignos y malignos de localización renal y uterina.^(11,12)

La identificación y ubicación preoperatoria de la o las glándulas afectadas puede realizarse mediante métodos de imagen. La Asociación Europea de Medicina Nuclear⁽¹³⁾ reconoce que la ecografía (US) y la gammagrafía con 99mTC-sestamibi son las técnicas de diagnóstico por imagen con mayor sensibilidad y especificidad, seguidas de la tomografía computarizada con contraste y la resonancia magnética. Es así que estudios recientes, como el publicado por *Abd Elhameed y Ali*⁽¹⁴⁾ han investigado las asociaciones de cómo el empleo combinado de las técnicas de imagen, incrementa la eficacia en la localización de las paratiroides (PT) afectadas y de la detección de entidades tiroideas asociadas. Estos autores⁽¹⁴⁾ han concluido que la combinación de técnicas de gammagrafía y US son muy eficaces para localizar una glándula paratiroides aumentada de tamaño, pues la probabilidad de no detectar una patología tiroidea concomitante es menor. Además, la combinación de ambas técnicas es muy recomendable, si el cirujano tiene previsto realizar una exploración unilateral del cuello o una cirugía mínimamente invasiva.

En el caso presentado, a pesar de no disponer de gammagrafía para el marcaje preoperatorio, pudo identificarse esta lesión única mediante US.

El tratamiento de elección para el HPP es la excéresis de la glándula, o de las glándulas hiperfuncionantes, no obstante haber descrito *Olguín* y otros⁽²⁾ patrones de recurrencia y persistencia en pacientes posoperados, debidos, en lo fundamental, a la presencia de hiperplasia y de tejido paratiroideo normal en las muestras enviadas a estudio histopatológico.

Hasta el momento, en el seguimiento de este paciente no se han reportado evidencias de recurrencia, pues la normalización de sus cifras de calcio y su mejoría clínica indican que no debe existir persistencia de lesiones paratiroides hiperfuncionantes, y manifiesta, además, el éxito del tratamiento quirúrgico.

La exploración bilateral del cuello (EBC) ha sido el estándar de oro del tratamiento, al ofrecer una alta tasa de curación.⁽¹⁵⁾ Sin embargo, con la evolución de las técnicas de localización,^(15,16) también surgieron abordajes menos invasivos y más específicos, que ofrecen tasas de curación comparables y con menos morbilidad.⁽¹⁷⁾ Sin embargo, en este paciente con diagnóstico histológico de lesión papilar del tiroides tipo *Bethesda V*⁽¹⁸⁾ se decidió asociar ambos procedimientos para la tiroidectomía y la paratiroidectomía.^(18,19,20,21)

Conclusiones

Las formas clásicas y sintomáticas del hiperparatiroidismo, en pacientes masculinos, jóvenes y concomitantes con carcinoma papilar de tiroides, son infrecuentes. En estos casos, la asociación de las técnicas quirúrgicas de resección de ambas glándulas está justificada, previa identificación de la glándula o las glándulas paratiroides afectadas, lo que garantiza el éxito del tratamiento quirúrgico y reduce el riesgo de recurrencias.

Referencias bibliográficas

1. Ortiz C. El último descubrimiento anatómico: las glándulas paratiroides o Glandulae parathyreoideae de Owen-Sandström-Gley. Cir Cir. 2022 [acceso 30/07/2024];90(1):140-9. Disponible en: https://www.cirugiaycirujanos.com/files/circir_22_90_1_140-149.pdf
2. Olguín JS, Arias A, Garzón A, Peretti E, Guzmán L, Ruggieri M. Risk factors for surgical failure in patients undergoing surgery for primary hyperparathyroidism. Cir Esp (English Edition). 2022 [acceso 30/07/2024];100(9):569-72. Disponible en: <https://app.dimensions.ai/details/publication/pub.1147505944>
3. Oner M, Hacim NA. Is confirmation of parathyroid tissue section superior to localization of solitary parathyroid adenoma using intraoperative gamma probe survey? A retrospective cohort study. Acta Endocrinol (Buchar). 2022 [acceso 30/07/2024];18(4):452-7. DOI: <http://doi.org/10.4183/aeb.2022.452>
4. Bollerslev J, Schalin JC, Rejnmark L, Siggelkow H, Morreau H, Thakker R, et al. Unmet therapeutic, educational and scientific needs in parathyroid disorders: Consensus Statement from the first European Society of Endocrinology Workshop (PARAT). Eur J Endocrinol. 2019 [acceso 30/07/2024];181(3):P1-19. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC6598862>
5. Amaral S, Rego T, Palha A, Carrilho N, Coutinho JM, Tavares P, et al. Preoperative Location Of Parathyroid Adenomas In Primary Hyperparathyroidism: The Role of Cervical Doppler Ultras. Acta Med Port. 2022 [acceso 30/07/2024];36(4):246-53. Disponible en: <https://actamedicaportuguesa.com/revista/index.php/amp/article/download/18735/14979>
6. Marx SJ. Hyperparathyroid and hypoparathyroid disorders. N Engl J Med. 2000 Dec [acceso 30/07/2024];343(25):1863-75. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/11117980>
7. Martínez RO, Cantú M, Marcos ER, Ceceñas LA, Treviño MA. Carcinoma paratiroideo tratado con paratiroidectomía más hemitiroidectomía. Cir Cir. 2020

- [acceso 30/07/2024];88(91):1-4. Disponible en:
https://www.cirugiaycirujanos.com/files/circir_20_88_supl_1_001-004.pdf
8. Montenegro I, Brochado AI, Branco I, Mateus S, Martins A. Rare Presentation of Primary Hyperparathyroidism in a Young Woman. *Acta Médica Portuguesa*. 2023 [acceso 30/07/2024];36(11):746-50. Disponible en:
<https://www.actamedicaportuguesa.com/revista/index.php/amp/article/download/19616/15185>
9. Rappoport D, Caballero MG, Cortés N, Cabané P, Gac P, Rodríguez F. Hiperparatiroidismo primario. *Rev Cir*. 2021;73(2):222-6. DOI:
<http://dx.doi.org/10.35687/s2452-45492021002910>
10. Jackson CE, Norum RA, Boyd SB, Talpos GB, Wilson SD, Taggart RT, et al. Hereditary hyperparathyroidism and multiple ossifying jaw fibromas: a clinically and genetically distinct syndrome. *Surgery*. 1990 [acceso 30/07/2024];108(6):1006-12. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/2123361>
11. Minisola S, Arnold A, Belaya Z, Brandi ML, Clarke BL, Hannan FM, et al. Epidemiology, Pathophysiology, and Genetics of Primary Hyperparathyroidism. *J Bone Miner Res*. 2022 [acceso 30/07/2024];37(11):2315-29. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC10092691>
12. Gheorghe AM, Sima OC, Florescu AF, Ciuche A, Nistor C, Sandru F, et al. Insights into Hyperparathyroidism-Jaw Tumour Syndrome: From Endocrine Acumen to the Spectrum of CDC73 Gene and Parafibromin-Deficient Tumours. *Int J Mol Sci*. 2024 [acceso 30/07/2024];25(4). Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/38396977>
13. Ovčariček PP, Giovanella L, Carrió GI, Hindié E, Huellner MW, Luster M, et al. The EANM practice guidelines for parathyroid imaging. *Eur J Nucl Med Mol Imaging*. 2021 [acceso 30/07/2024];48:2801-22. Disponible en: <https://link.springer.com/content/pdf/10.1007/s00259-021-05334-y>
14. Abd-Elhameed W, Ali RA. Efficacy of Scintigraphy, Ultrasound and Both Scintigraphy and Ultrasonography in Preoperative Detection and Localization of

- Primary Hyperparathyroidism. Cureus. 2019 [acceso 29/07/2024];11(6):e4960. Disponible en: https://assets.cureus.com/uploads/original_article/pdf/20453/1612428889-1612428884-20210204-18590-47zcux.pdf
15. Khokar AM, Kuchta KM, Moo-Young TA, Winchester DJ, Prinz RA. Increasing trend of bilateral neck exploration in primary hyperparathyroidism. Am J Surg. 2020 [acceso 28/07/2024];219(3):466-70. Disponible en: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/31630823>
16. Agirre L, de la Quintana A, Martínez G, Arana A, Servide MJ, Larrea J. Surgical results and the location of pathological glands in the treatment of primary sporadic hyperparathyroidism with negative preoperative 99mTc-sestamibi scintigraphy. Cir Esp. (English Edition). 2021 [acceso 30/07/2024];100(1):18-24. Disponible en: <https://app.dimensions.ai/details/publication/pub.1143651920>
17. Lanitis S, Chortis P, Sourtse G, Gkanis V, Lainas S, Tournis S, et al. Shifting from open to video-assisted parathyroidectomy: effect of the adjustment period on safety, clinical outcomes and cost. Ann R Coll Surg Engl. 2022;104(4):295-301. DOI: <https://doi.org/10.1308/rcsann.2021.0162>
18. González R F, Infante A, López MV, De Dios JM. Protocolo de diagnóstico y tratamiento del cáncer Tiroideo. Rev. Cubana Cir 2004 [acceso 17/02/2026];43(2). Disponible en: http://scielo.sld.cu/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0034-74932004000200001&lng=es
19. González R, Llapur A, Pérez D. Cirugía conservadora y tiroidectomía total en el cáncer tiroideo bien diferenciado. Rev. Cub. Cir. 2017 [acceso 02/11/2024];56(4). Disponible en: <https://revcirugia.sld.cu/index.php/cir/article/view/618>
20. González RF, Pavel I, Infante A, Domínguez C, López A. Cirugía Radioguiada en el tratamiento del hiperparatiroidismo primario. Rev. Cub. Cir. 2020 [acceso 02/11/2024];59(3). Disponible en: <https://revcirugia.sld.cu/index.php/cir/article/view/1008>
21. González RF, Radioguided minimally invasive surgery in the treatment of primary hyperparathyroidism. IV World Surgeons Webinar 2023. Sun Text Reviews LLC,

Arkansas 72712. United States; 2023 October 09-11 [acceso 07/02//2026].

Disponible en: <https://suntexmeetings.com/surgeons>

Conflicto de intereses

Los autores declaran que no existe conflicto de intereses.