

El Yüzük Parmağının, İliak Kemiğin ve Kafatasının Brown Tümörü: Primer Hiperparatiroidizmin Alışlanmamış Tutulumu

BROWN TUMOR OF PHALANX, ILIAC WING AND SKULL: UNUSUALLY IN INVOLVEMENT OF PRIMARY HYPERPARATHYROIDISM

Dr. Haldun ORHUN, Dr. Cuma KILIÇKAP, Dr. Tuğrul BERKEL

Dr. Lütfi Kırdar Kartal Eğitim ve Araştırma Hastanesi 1. Ortopedi ve Travmatoloji Kliniği İstanbul

ÖZET

Elinde brown tümörü saptanan primer hiperparatiroidizmi olan bir olgu değerlendirilmiştir. Brown tümör adı kit- le içerisinde gelişmiş olan değişikliklere bağlı oluşan renkten dolayı verilmektedir. Bu renk ortamdaki zengin da- mar ağının olması ve hemosiderin pigmenti sonucudur. Brown tümör hiperparatiroidizmin patognomonik bir bul- gusu değildir. Hiperparatiroidizme bağlı gelişen bu tümörün en dikkat edilmesi gereken yanı soliter tümörlerden ayrılabilmesi için klinik ve radyolojik özelliklerine çok dikkat edilmesi gerektiğidir. Primer hiperparatiroidizmin is- kelet lezyonları geçicidir ve ancak paratiroid adenomlarının eksizyonu yada hiperplastik bezlerin çıkarılması ile iyileşebilir. Hastamızdaki parmak lezyonu cerrahi olarak çıkarılmış ve patolojik tanısı dev hücreli tümör olarak gelmiştir. Ancak hastalığın nekahat döneminde çekirtilen sintigrafik tetkikleri ile bulunan diğer kemik lezyonları ve laboratuvar sonuçları ile primer hiperparatiroidizm tanısı konmuş ve saptanmış olan paratiroid adenomu çıkara- rılmıştır. Post operatif dönemde diğer kemik lezyonları kademeli olarak kaybolmuştur. Bu analizlerin sonucu ek- size edilen tümörün brown tümör olduğu belirlenmiştir.

Anahtar Kelimeler: El, brown tümör, dev hücreli tümör, primer hiperparatiroidizm

SUMMARY

We present a case of brown tumor of the distal phalanx of 4th finger of the left hand in a 45 years old woman, who was misdiagnosed as giant cell tumor.

We have amputated of the distal phalanx of the 4th finger with tumor which histological diagnosed of the giant cell tumor, and after the operation she had skeletal scintigraphy for the distribution of the disease. There were two more lesions in the skull and the iliac wing. When we have found an adenoma of the parathyroid gland, we re- inspect of the preparation of the amputated part of the finger. It was the brown tumor with primary hyperparathy- roidism. The term "brown tumor" refers to the color of the tumefaction in the gross. The color is caused by rich vascularity with hemorrhages and hemosiderin pigment. The only careful attention to clinical and radiologic fea- tures is it possible to separate the brown tumor of hyperparathyroidism from that of solitary neoplasm. Skeletal lesions (brown tumor) in primary hyperparathyroidism are reversible and can be treated by excision of the parathy- roid adenomas or of three of the hyperplasic parathyroid.

Key words: Finger brown tumor, giant cell tumor, primary hyperparathyroidism.

GİRİŞ

Brown tümör hiperparatiroidizm sırasında çok nadir olarak gözlenen kemik doku içerisinde reaktif bir lezyondur. Hiperparatiroidizm, bez içerisindeki bir tümör ile yada bezin hiperplazisi ile orta- ya çıkan bir patolojidir. Semptomları genellikle re-

nal, iskelet sistemi yada hormonal nedenlere bağ- lı psikiatrik sorunlar olmaktadır. Hastalık erken saptanırsa iskelet sisteminde minimal deminerali- zasyon gözlenmektedir^(1,2).

Brown tümörü, kemiğin dev hücreli reparatif granülomu, enkondrom ve anevrizmal kemik tü- mörü birbirlerine çok benzemeleri nedeniyle ayı-

ricı tanıda çok dikkatli olunması gerekir. Dev hücreli tümör; içerisinde bağ dokusu, stromal hücreler ve dev hücreler içeren ağırsif ve lokal lezyonlardır. Genellikle kemiklerin metafizinde gözlenmekte ve çoğunlukla femur, tibia, radius ve humerus kemiklerinde yerleşim gösterirler^(1,3). Uzun kemiklerin dışında % 5 oranında elde lokalizedirler. Brown tümör adını lezyonun patolojik görünümünden almaktadır⁽¹⁾. Osteoklasttan zengin olan tümörler kahverengidir. Rengi veren içerdiği zengin damar ağı ve buna bağlı hemoraji ve hemosiderin pigmentidir⁽¹⁾. Tümör tek yada multi fokal yerleşim gösterebilmektedir ve hiperparatiroidizmin kemikte oluşturduğu patolojinin terminal dönemidir. Bu lezyonların gerçek dev hücreli tümörden ayrılması mümkün değildir. Serum kalsiyum seviyesi tek yardımcı laboratuvar bulgusudur. Bu lezyon radyolojik olarak "lucent ekspansil" özellikte görülmekte ve kemiğin enkondromuna yada anevrizmal kemik kistine benzemektedir⁽³⁾.

Primer hiperparatiroidizme bağlı gelişen bu tümöral yapılar paratiroid adenomlarının eksizyonu yada bezlerin çıkartılması ile iyileşebilen geri dönüşümlü patolojilerdir⁽¹⁾. Femur gibi yük taşıyan bölgelerde kemik patolojileri kırıklara yol açabilmektedir⁽²⁾. Bu komplikasyonları nedeniyle tümör cerrahi olarak tedavi edilmelidir. Brown tümörün dev hücreli reparatif granüloma ile karışması mümkündür. Bu tümör benign reaktif bir intraosseöz bir lezyondur. Genellikle kafatası kemiklerinde, mandibulada, elde, ayakta ve yüz kemiklerinde görülebilmektedir. Soliter, litik, genişleme eğiliminde ve çevre yumuşak dokuya invaze olabile-

cek özellikleri vardır. Histolojik olarak fibröz stroma içerisinde iğ şeklindeki fibroblast ve multinükleer dev hücreleri içeren bir yapıdadır. İnflamatuar hücrelerden monosit hakimiyeti vardır. Hemoraji genellikle vardır ve ağırsif tümörlerle bu morfolojik özellikleri nedeniyle karışmaktadır⁽²⁾.

Bu çalışmada elde ve diğer iki ayrı kemik bölgede brown tumor yerleşimi göstermiş olan primer hiperparatiroidizm olgusunu inceledik.

OLGU SUNUMU

Sağ eli dominant olan 65 yaşında bayan hastanın sol el 4. parmak zone-1'deki şişlik ve ağrı şikayeti mevcuttu. Elindeki şişlik nedeniyle cilt incelmış ve cilt altında tumor palpe edilebiliyordu. İki aydır aynı yerde ağrı şikayeti mevcuttu. Hastanın 10 yıllık şeker hastalığı ve 8 yıldır hipertansiyonu vardı.

Yapılan laboratuvar tetkiklerinde kan glüköz seviyesinin 243 mg/dl ve kan kalsiyum seviyesinin 13.81mg/dl olduğu saptandı ve diğer rutin kan tetkiklerinin normal sınırlarda olduğu belirlendi.

Radyolojik incelemede elin 4. parmağında distal falanksı tutmuş osteolitik kitle gözlemlendi (Şekil 1). Osteolitik alan ve osteolize olmuş kemik tek taraftan korteksi delerek dışarıya ekspansive olmuştu. Hastaya tüm vücut kemik sintigrafisi planlandı.

Hastanın ağrı şikayetinin aşırı olması ve kitlenin çok büyük ve distal falanksı tamamen dekstrükte etmesi nedeniyle eksizyonel biyopsi planlandı. Sintigrafi randevusu beklenilmeksizin cerrahi olarak distal interfalangeal eklemde amputasyo-

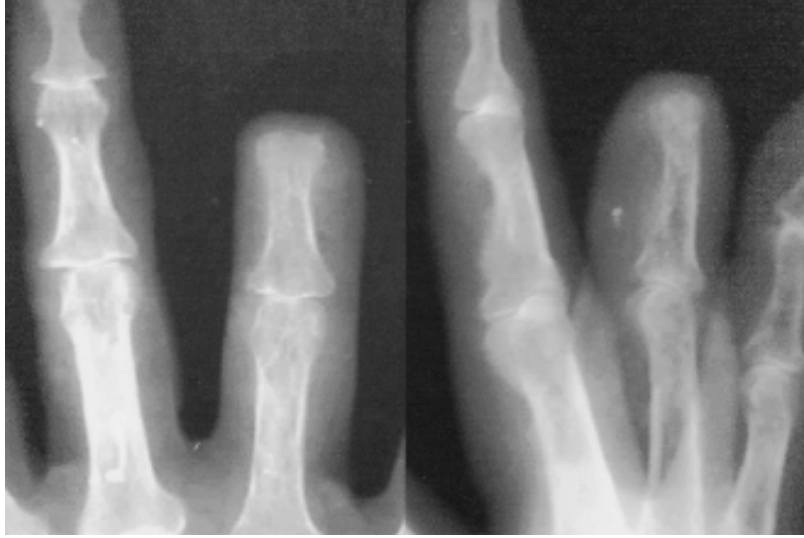


Şekil 1: Hiperparatiroidizm:Tümör benzeri lezyon. (A) (B) Elin 4. parmağının AP ve LAT grafisinde distal falanksda gözlenen tümör benzeri lezyon

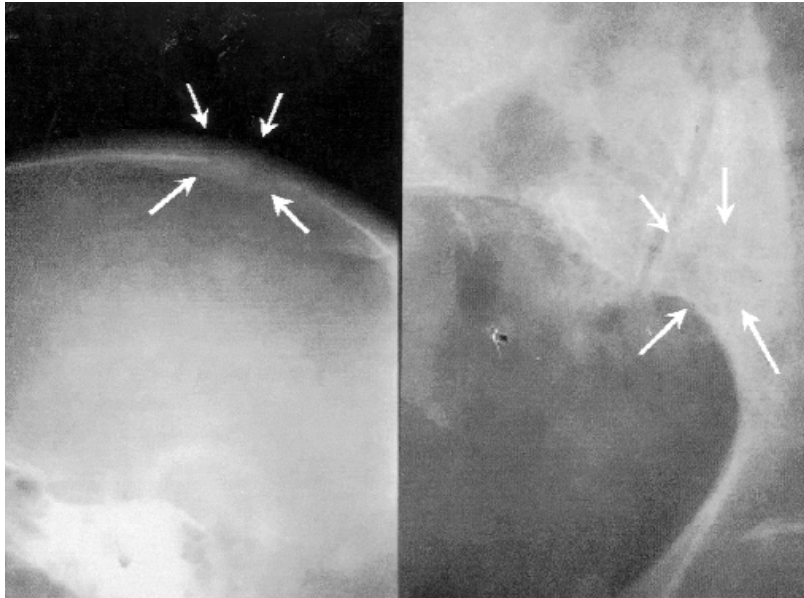
nu yapıldı. Cerrahi tanı kemiğin dev hücreli tümörü olarak kondu (Şekil 2). Bu tanıımız patoloji kliniği tarafından da onaylandı. Hastaya aynı zamanda farklı lokalizasyon olasılığı nedeniyle de preoperatif planlanmış olan tüm vücut kemik sintigrafisi (99mTc) postoperatif dönemde yapıldı. Sintigrafisi sonucunda kafatasında ve sol iliak kemikte infiltrasyon artışı gözlemlendi. Bu bölgelerdeki lezyonlar radyolojik olarak da desteklendi (Şekil 3).

Bu yeni odaklar ve laboratuvar bulguları primer

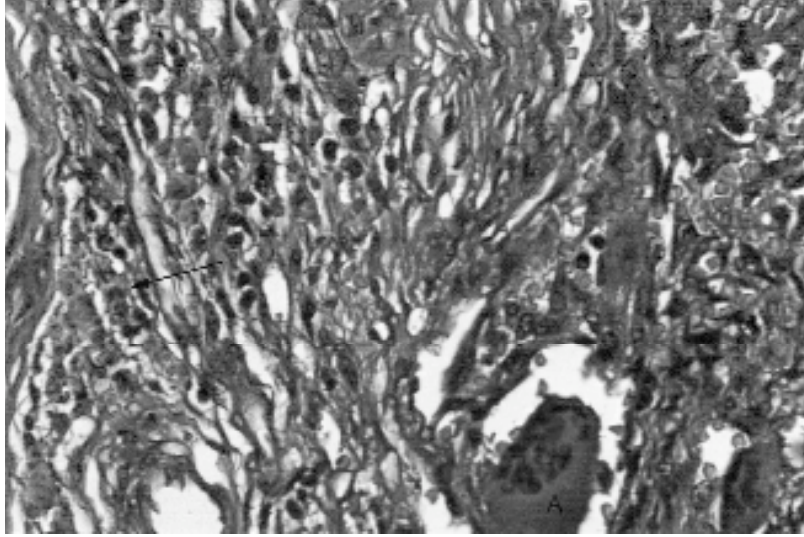
hiperparatiroidizm olasılığını gündeme getirerek yapılan paratiroid ultrasonografilerinde sağ paratiroid adenomu gösterildi ve parathormon seviyesinin yüksek olduğu saptandı (490 pg/ml-normal level is 10-72 pg/ml). Ultrasonografik olarak saptanan paratiroid adenomu cerrahi olarak çıkarıldı ve histolojik tanısı soliter adenoid karsinom olarak geldi. Bu bulguların sonrasında ampute olan distal falanks preparatları yeniden değerlendirildiğinde hemosiderin pigmentinin varlığı, küçük veya bü-



Şekil 2. 4. parmağın postoperatif cerrahi sonucu. (A) (B) 4. Parmağın AP ve LAT grafisi. Tümör benzeri kitle olan parmak distal eklem seviyasinden ampute edildi.



Şekil 3. Hiperparatiroidizm olgusunda çok bölgeli yerleşim gösteren lezyonlar. (A) Grafide sol iliak kanattaki kemik destrüksiyonu gözlenmektedir (ok işareti). (B) Grafide hastanın kafatasındaki destrukte alanı görülmektedir (ok işareti).



Şekil 4. Ampüte edilen parmağın histolojik analizini gösteren mikroskopik görünüm.

Doku içerisindeki hemosiderin pigmenti(ok işareti), küçük ve büyük gruplar halinde multinuclear dev hücreler (A) (H&E, X 40).

yük gruplar halinde multinükleer dev hücrelerin varlığı gösterildi (Şekil 4).

Bu sonuçların ve kliniğinin yeniden değerlendirilmesi sonucu dev hücreli tümör olarak belirlendiğimiz tanının yanlış olduğu ve bu lezyonların primer hiperparatiroidizme bağlı gelişmiş brown tümör olduğu kararına varıldı.

TARTIŞMA

Elde gelişen bir dev hücreli tümörü doğru olarak tanımlayabilmek için çok iyi klinik değerlendirme yapılmalıdır. Ayırıcı tanısında çok farklı patolojilerin olabileceği düşünülmeli ve histolojik kriterlerin yeterli olmadığı unutulmamalıdır.

Olgumuzun ilk cerrahi tanısı dev hücreli tümördü. Morano⁽⁵⁾ ve arkadaşları yazılarında iyileşme dönemindeki hastalarında primer hiperparatiroidizm tanısı konuncaya kadar tanılarının osteoklastoma olduğunu ifade etmişlerdir. Olgularındaki paratiroid adenomunu çıkarmışlar ve patolojik tanılarının brown tümör olduğunu saptamışlar.

Aoune⁽⁶⁾ ve arkadaşları maksilla kemiğinde tümör olan iki bayan olgu yayınlamışlardır. İlk tanılarını kemiğin dev hücreli tümörü iken iyileşme döneminde paratiroid adenomları gözlenmiş ve patolojinin brown tümör olduğu gerçeğini farketmişlerdir. Bu nedenle bu tür olgularda mutlaka paratiroid patolojisinin de araştırılması gerektiğini ifade etmişlerdir.

Cicconetti⁽⁷⁾ ve arkadaşları çalışmasında brown tümörün ayırıcı tanısının çok güç olduğunu

ve bunun nedeninin benzer radyolojik görüntülerin (kist benzeri radiolüsent) diğer patolojilerde de görülmesi olduğunu ifade etmişlerdir.

Olguların klinik olarak değerlendirilmesi, radyolojik ve biyomedikal olarak karşılaştırılması ile tanının konması mümkündür. Ancak brown tümör hiperparatiroidizm için patognomonik değildir. Paratiroid adenomu saptandığında çıkarılmalıdır. Çok lokalizasyonlu yerleşim gösteren brown tümörü bulunduğu yerde bırakmak mümkündür⁽³⁾. Adenomun çıkarılmasını takiben osteoklastik aktivite aniden durmaktadır ve kemik yıkımı yerine kemik iyileşmesi cevabı gözlenmektedir. Lezyonların adenomun çıkarılması ile zaman içinde kaybolduğu ifade edilmektedir^(5,6). Sakarya⁽⁸⁾ ve arkadaşları çalışmasında sol fibula distalinde saptadıkları Brown tümörü olgusunda, paratiroid bezindeki adenomun alınmasından sonra kliniğinin düzeldiğini ifade etmişlerdir. Tatari⁽⁹⁾ ve arkadaşları da pelvis, fibula ve ulna yerleşimli bir Brown tümör olgusunu incelemişler. Kaygusuz⁽¹⁰⁾ grubu ise paratiroid adenomuna bağlı gelişmiş bir pelvis, kot ve kafa kemiği yerleşimli Brown tümörü olgusunu yayınlamışlar.

Fokal lezyonun histolojik araştırılmasına göre kan biyokimyasal testlerinin daha önemli olduğu bilinmektedir ve serum kalsiyumu, fosforu, alkalin fosfatazi ve paratiroid hormonları primer hiperparatiroid patolojisinde daha değerlidir. Buna rağmen bazı mikroskopik özellikler dev hücreli tümör yerine primer hiperparatiroidizmi düşündürmektedir. Hiperparatiroidizmde; **(1)** dev hücreler daha

küçük özelliktedir ve nodüler görünümü mevcuttur ve özellikle yuvarlak kanama odakları vardır; (2) stroma hücreleri daha iğsi şekilde ve narindir; (3) stroma içinde kemik metaplazi önemlidir.

Lezyon çevresindeki kemik doku mutlaka incelenmelidir ve bu bölgelerde peritrabeküler fibrozis ile iyileşen osteoklastik ve osteoblastik aktivite gözlemlenmektedir.

SONUÇ

Brown tümör elde, oldukça nadir gözlenmekte olup ağrı ve şişlik bulguları ile beraber patolojik kırığa neden olabilmektedir. Bu olgularda vücudun diğer bölgelerinde de tutulum olabileceği düşüncesi ile tüm vücut kemik sintigrafisi çektirmek çok gerekli bir tetkiktir.

Paratiroid bezleri mutlaka kontrol edilmeli ve hasta hiperparatiroidizm yönünden klinik olarak da araştırılmalıdır. Bu patolojinin tedavisi paratiroid adenomunun çıkarılması ve özellikle elde oluşturduğu brown tümörün kitle ve ağrıya sebep verebilmesi nedeniyle gerektiğinde cerrahi olup, diğer bölgelerdeki lezyonların adenomun çıkarılmasını takiben kaybolacağı unutulmamalıdır.

KAYNAKLAR

1. Huvos AG. Giant-cell tumor of bone, Giant-cell tumor of the craniofacial bones, Giant-cell "reparative" granuloma of jaw bone; Cherubism. In: bone tumors diagnosis, treatment, and prognosis. (ed. Huvos Andrew

G.) Saunders, Philadelphia 1991; 429-80

2. Ishikawa S, Ozaki T, Kawai A, Inoue H, Doihara H. Hyperparathyroid crisis in a patient with a giant cell tumor of the iliac bone: Hiroshima J Med Sci 1998; 47(1): 27-30
3. Mirra JM, Campanacci M, Picci P. Brown tumor of hyperparathyroidism. In: Bone Tumors. (ed. Joseph M. Mirra) Lea & Febiger, 1989; 1785-1801
4. Peimer CA, Moy OJ, Dick HM. Tumors of bone and soft tissue. In Operative hand surgery. (ed. David P Green) Churchill Livingstone, New York 1992; (2): 2225-50
5. Morano S, Cipriani R, Gabriele A, Medici F, Pantellini F. Recurrent brown tumors as initial manifestation of primary hyperparathyroidism. An unusual presentation. Minerva Med 2000; 9 (5-6) :117-22
6. Aoune S, Khochtali H, Dahdouh C, Turki A, Mokni M, Bakir A. Giant cell lesions of the maxilla disclosing primary hyperparathyroidism. Rev Stomatol Chir Maxillofac 2000; 101(2): 86-9
7. Cicconetti A, Matteini C, Piro FR. Differential diagnosis in a case of brown tumor caused by primary hyperparathyroidism. Minerva Stomatol 1999; 48(11): 553-8
8. Sakarya ME, Arslan H, Bozkurt M, Er R. İntratiroid paratiroid adenomunda radyolojik bulgular. Van Tıp dergisi 1995;2(3-4):202-204
9. Tatari H, Baran Ö, Havıtcıoğlu H, Boya H, Canda MŞ. Birincil hiperparatiroidi-Brown Tümör PGU sunumu. Türkiye Ekopatoloji Dergisi 1997;3(3-4):109-112
10. Kaygusuz A, Cansunar Hİ, Bozkurt E, yağmur Y, İşler C. Brown tümörler arzedan intratiroidal paratiroid adenomu olgu sunumu. Çağdaş Cerrahi Dergisi 1996; 10(2): 120-121