

Brown tumor in primary hyperparathyroidism

Osteitis fibrosa cystica (OFC) เป็น uncommon clinical manifestation ของ primary hyperparathyroidism โดยการพบ OFC บ่งบอกถึงการดำเนินโรคที่รุนแรงและเป็นมาในระยะเวลาอันยาวนานแล้ว(1) โดยอุบัติการณ์ในประเทศที่มีการตรวจคัดกรองระดับแคลเซียม พบได้น้อยกว่าร้อยละ 5 ของผู้ป่วย primary hyperparathyroidism อาการแสดงของผู้ป่วยมักมาด้วยอาการปวดกระดูก ร่วมกับพบการเปลี่ยนแปลงของกระดูกจากภาพถ่ายทางรังสีที่มีลักษณะเฉพาะ เช่น increased subperiosteal bone resorption ที่ distal third of the radius and phalanges, distal clavicular thinning, “salt and pepper” skull, bone cysts, and brown tumors in long bones

Brown tumor เป็นการเปลี่ยนแปลงของกระดูกที่มีลักษณะจำเพาะ ในผู้ป่วย primary hyperparathyroidism ซึ่งเป็นผลจากการที่มี bone demineralization, osteoclast activation, microhemorrhage และ microfractures โดยมีลักษณะทาง histopathology ประกอบด้วย osteoclastic (giant cells) และ osteoblastic activity, cyst formation และ hemosiderin-laden macrophages จึงเป็นที่มาของชื่อ brown tumor ซึ่งมาจากสีที่เกิดจากการสะสมของ hemosiderin อย่างไรก็ตามลักษณะทาง histopathology นี้ไม่ได้เป็นลักษณะจำเพาะ ต้อง differential diagnosis กับ giant cell granuloma และ giant cell tumors อื่นๆ

อาการและอาการแสดง

ลักษณะทางคลินิกของ brown tumor สามารถพบเป็น uni-focal หรือ multi-focal bone lesion ได้ ส่วนใหญ่มักพบบริเวณกระดูกกราม, กะโหลกศีรษะ, กระดูกไหปลาร้า, ซี่โครง, กระดูกต้นขา หรือกระดูกสันหลัง ผู้ป่วยมักมาด้วยอาการปวด บวม คลำพบก้อน หรือ pathological fracture ตรวจเลือดมักพบมีค่าแคลเซียมสูง ร่วมกับมีระดับ PTH สูงผิดปกติหรืออยู่ในเกณฑ์ปกติ

การวินิจฉัย

การส่งตรวจ plain film หรือ CT พบว่าลักษณะ bone lesion จากภาพถ่ายทางรังสีของ brown tumor มักมีลักษณะ cyst like radiolucency ซึ่งอาจมีลักษณะคล้าย bone cyst, osteosarcoma, metastatic carcinoma หรือ giant cell tumor ได้ investigation ที่มีความไวในการตรวจพบ brown tumor คือการตรวจ bone scintigraphy แต่มีความจำเพาะต่ำ เนื่องจากตรวจพบ increased uptake ได้เช่นเดียวกับภาวะอื่นที่มีการเพิ่ม bone turnover เช่น trauma, infection, metastatic cancer และ multiple myeloma โดย findings ที่จะช่วยแยกโรคจาก bony metastasis จาก malignancy อื่นได้แก่ระดับ PTH ซึ่งไม่ต่ำใน primary hyperparathyroidism ตรงกันข้ามกับ hypercalcemia of malignancy ที่ต้องพบระดับ PTH มีค่าต่ำ(1, 2) ส่วน bone metastasis จาก parathyroid carcinoma เองพบได้น้อยมาก เนื่องจาก parathyroid carcinoma เป็นโรคที่พบน้อย มีความชุกน้อยกว่า 1% ของเนื้องอกที่พบที่ต่อม parathyroid ส่วนใหญ่พบเป็น local lymph node involvement ได้ถึง 60% มี distant metastasis ไปที่ lung liver หรือ bone ได้ 30-40%(3) โดยจาก case reports

พบว่ามี spines metastasis ได้ ซึ่งสามารถตรวจพบได้จาก Tc-99m MIBI scan และวินิจฉัยยืนยันได้จาก histopathology(4) แต่อย่างไรก็ตามไม่พบรายงานผู้ป่วย parathyroid carcinoma ที่มาด้วย multiple bone metastasis

การรักษา

การรักษาเฉพาะของภาวะ primary hyperparathyroidism ที่มี brown tumor ถือเป็นข้อบ่งชี้ของการรักษาโดยการผ่าตัด parathyroidectomy โดยจากการศึกษาพบว่า การผ่าตัด parathyroidectomy จะช่วยการ reversal of bone resorption และอาจทำให้มี complete regression ของ brown tumor ในผู้ป่วยบางรายได้ โดยจาก case report พบว่า complete regression ได้ในเวลา 10 เดือน – 2 ปี(5-7) อย่างไรก็ตามมีรายงานว่าผู้ป่วยบางรายอาจไม่มี tumor regression ซึ่งอาจต้องได้รับการผ่าตัด reconstruction ในภายหลังร่วมด้วยในบางกรณี(8)

Reference

1. Parra Ramirez PA, Lecumberri Santamaria B, Álvarez Escolá C, Pallardo Sánchez LF. Primary hyperparathyroidism with osteitis fibrosa cystica mimicking a malignant bone tumor. *Endocrinología y Nutrición (English Edition)*. 2013;60(2):96-8.
2. Misiorowski W, Czajka-Oraniec I, Kochman M, Zgliczynski W, Bilezikian JP. Osteitis fibrosa cystica-a forgotten radiological feature of primary hyperparathyroidism. *Endocrine*. 2017;58(2):380-5.
3. Shifrin A, LiVolsi V, Shifrin-Douglas S, Zheng M, Erler B, Matulewicz T, et al. Primary and metastatic parathyroid malignancies: a rare or underdiagnosed condition? *J Clin Endocrinol Metab*. 2015;100(3):E478-81.
4. Qiu ZL, Wu CG, Zhu RS, Xue YL, Luo QY. Unusual case of solitary functioning bone metastasis from a "parathyroid adenoma": imagiologic diagnosis and treatment with percutaneous vertebroplasty--case report and literature review. *J Clin Endocrinol Metab*. 2013;98(9):3555-61.
5. Maina AM, Kraus H. Successful treatment of osteitis fibrosa cystica from primary hyperparathyroidism. *Case Rep Orthop*. 2012;2012:145760.
6. Oliveira FM, Makimoto TE, Scalissi NM, Marone MM, Maeda SS. Regression of orbital brown tumor after surgical removal of parathyroid adenoma. *Arch Endocrinol Metab*. 2015;59(5):455-9.
7. Queiroz IV, Queiroz SP, Medeiros R, Jr., Ribeiro RB, Crusoe-Rebello IM, Leao JC. Brown tumor of secondary hyperparathyroidism: surgical approach and clinical outcome. *Oral Maxillofac Surg*. 2016;20(4):435-9.
8. Alvarado F, Waguespack SG, Campbell JH, Williams TP. Expansile intraosseous lesion of the mandible. *Journal of Oral and Maxillofacial Surgery*. 2003;61(11):1318-23.