

**Case report**

# Lomboradiculagie Révélatrice d'une Tumeur Brune Secondaire à une Hyperparathyroïdie Primaire : À Propos d'un Cas et Revue de la Littérature

## *Lomboradiculalgia revealed by a brown tumor secondary to primary hyperparathyroidism: a case report and literature review*

Andia A<sup>1,2</sup>, Inès M<sup>1</sup>, Mahamane Sani MA<sup>2</sup>, Brah S<sup>2</sup>, Sani B<sup>2</sup>, Daou M<sup>2</sup>, Adehossi E<sup>2</sup>, Zouari R<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Service de Rhumatologie d'Hôpital Charles Nicolle, Boulevard du 9 avril 1938 Bâb Saadoun 1007 Tunis, Tunisie. Tel : +21671578245. Fax, 71561 366

<sup>2</sup>Service de Médecine Interne de l'Hôpital National de Niamey, BP : 238 Niamey, Niger.

*Corresponding author:* Andia Abdoukader<sup>1</sup> Email: [abdoukader79@yahoo.fr](mailto:abdoukader79@yahoo.fr)

Tel +22790753095

**ABSTRACT**

Brown tumors are non-neoplastic and rare lesion caused by osteoclastic hyperactivity. The authors describe a case report about 55 years old woman with non-complicate lomboradiculalgia revealed a lumbar brown tumor by primary hyperparathyroidism. The patient presented chronic and mechanic lomboradiculalgia with loss weight associated with hypercalcemia, hypophosphoremia, hyperparathormonemia and hypodense, polylobe tumors breezed lumbar vertebral. The histology found geants granuloma cells confirm brown tumor. The cervical echography reveals two parathyroid adenoma. Clinical and paraclinical signs were resolute after parathyroidectomy. We described epidemiologic, diagnosis and therapeutics aspects of this case report through a literature review.

**KEYS-WORDS:** lomboradiculalgia, brown tumor, Primary hyperparathyroidism, Parathyroidectomy

**INTRODUCTION**

L'hyperparathyroïdie primaire est une pathologie endocrinienne qui affecte l'os de façon prédictive avec des tableaux cliniques et radiologiques diversifiés. Son diagnostic positif est fait en dosant la parathormone (PTH) sanguine. Les tumeurs brunes sont relativement rares (3%) et non néoplasiques, constituent les lésions les plus caractéristiques de l'hyperparathyroïdie sur le plan radiologique [1]. Généralement, les tumeurs brunes sont localisées au niveau des côtes, du bassin et des mandibules. La localisation vertébrale est rare et peut se compliquer

**RÉSUMÉ**

Les tumeurs brunes sont des lésions bénignes rares dues à l'hyperactivité ostéoclastique de cause primaire ou secondaire. Les auteurs rapportent le cas clinique d'une patiente âgée de 55 ans admise pour lomboradiculalgie commune ayant conclut au diagnostic d'une tumeur brune secondaire à une hyperparathyroïdie primaire. Il s'agit une patiente présentant une lomboradiculalgie chronique, mécanique associé à un amaigrissement chez laquelle le bilan biologique a révélé une hypercalcémie, hypophosphorémie, une hyperparathormonémie et le scanner a montré une hypodensité polylobée soufflant le rachis lombaire. L'histologie a mis en évidence des cellules géantes granulomateuses concluant au diagnostic de tumeur brune. L'échographie cervicale a révélée deux adénomes parathyroïdiens et l'évolution clinique et para clinique était favorable après parathyroïdectomie sans chirurgie du rachis. Nous discutons les caractéristiques épidémiologiques, diagnostics et thérapeutiques à travers une revue de la littérature.

**MOTS-CLÉS.** Lomboradiculalgie, tumeur brune, hyperparathyroïdie primaire, para thyroïdectomie

de compression médullaire rapportée dans l'hyperparathyroïdie secondaire avec hypercalcémie sévère. Nous rapportons un cas clinique d'une lomboradiculalgie révélant une tumeur brune secondaire à une hyperparathyroïdie primaire et nous discuterons ses particularités épidémiologiques, diagnostics et thérapeutiques à travers une revue de la littérature.

## OBSERVATION MEDICALE

Il s'agit de Madame JH, tunisienne âgée de 55 ans, hypertendue connue depuis 2 mois bien suivie. Elle a été hospitalisée pour l'exploration d'une lomboradiculgie droite d'origine mécanique, d'irradiation mal systématisée et d'intensité modérée avec amaigrissement non chiffré et asthénie physique évoluant depuis 6 mois. La patiente n'avait pas de notion de fièvre, ni d'anorexie.

L'examen physique a retrouvé des douleurs à la percussion des épineuses ainsi qu'à la mobilisation du rachis lombaires avec une radiation mal systématisée. Il n'y avait pas de signe de Lasègue, l'examen des sacro-iliaques était normal. Il n'y avait pas de déficit sensitivomoteur ou d'atteinte sphinctérienne. Le reste de l'examen physique était sans particularités.

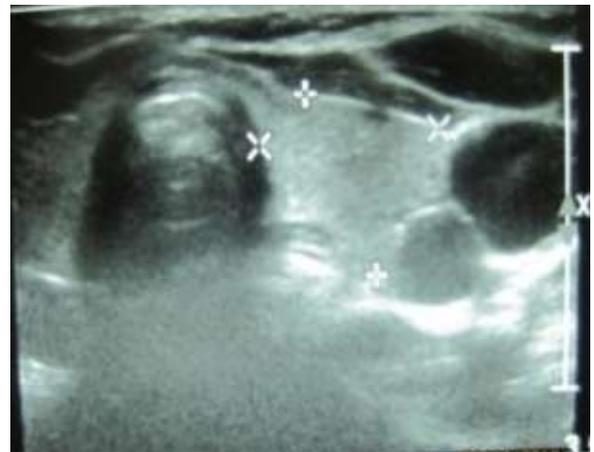
Le bilan biologique ne montrait pas de syndrome inflammatoire biologique, la Numération Formule Sanguine était normale ainsi que la fonction rénale et hépatique. Le bilan a cependant objectivé une hypercalcémie (2,78 mmol/l ; norme= 2-2,25mmol/l) à trois contrôles successifs ainsi qu'une hypophosphatémie (0,42 mmol/l ; norme= 0,8-2,1mmol/l). Les explorations radiologiques ont montré un aspect d'ostéopathie raréfiante diffuse du bassin et des lésions à la fois ostéolytiques et condensantes soufflant l'os au niveau des branches ilio-pubiennes et ischio-pubiennes. Le scanner lombaire a retrouvé une hypodensité du corps vertébral de la deuxième vertèbre lombaire (L2) latérale, systématisée, polylobée, soufflant l'os et comprimant les parties molles et le tronc nerveux (Figure 1). L'examen anatomo-pathologique a montré des cellules géantes granulomateuses confirmant le diagnostic de tumeur brune.

Le diagnostic d'hyperparathyroïdie primaire a été évoqué puis retenu après dosage de la PTH dans le sang à 25 fois la normale (1760,3 pg/ml ; norme=9 à 55 pg/ml). L'échographie cervicale antérieure (Figure 2) et la scintigraphie au Sestamibi ont retrouvé deux nodules parathyroïdiens homogènes inférieurs gauches mesurant : 40x15 mm et 50x25 mm. Les radiographies du crâne et des mains ont montré respectivement un aspect de résorption trabéculaire avec quelques images pseudo géodiques et une résorption des houpes phalangiennes avec une réaction périostée.

L'évolution à 6 mois a été marquée par une régression des douleurs avec normalisation du bilan phosphocalcique et de la PTH.



**Figure 1 :** Image hypodense du corps de L2 latérale systématisée, polylobée, soufflant l'os et comprimant les parties molles (flèche)



**Figure 2 :** Deux nodules parathyroïdiens homogènes inférieurs gauches (flèches)

## DISCUSSION

Les hyperparathyroïdies constituent la 3<sup>ème</sup> endocrinopathie après le diabète et les dysthyroïdies [2]. Les signes radiologiques d'hyperparathyroïdie fréquemment rencontrés sont la résorption osseuse sous périostée (houppes et diaphyses phalangiennes), sous chondrale (acromio-claviculaires) et l'ostéoporose granuleuse du crâne. Les tumeurs brunes sont des lésions bénignes rares dues à l'hyperactivité ostéoclastique. Il ya deux décennies, elles sont beaucoup plus rencontrées dans l'hyperparathyroïdie primaire (3%) que dans l'hyperparathyroïdie secondaire (1,5-1,7%) [3,4] mais ces dernières années on note une augmentation de l'incidence de l'hyperparathyroïdie secondaire (1 à 13%) [5-7] liée sans doute à l'augmentation de l'incidence de l'insuffisance rénale nécessitant une hémodialyse. Les tumeurs brunes peuvent être localisées sur l'ensemble du squelette surtout sur le pelvis, le sternum, les cotes, le fémur ou la mandibule [8,9] et leur présentation radiologique avec des

présentations radiologiques pouvant être trompeuse : lésions ostéolytiques ayant parfois des contours polycycliques, corticale amincies, effacées ou soufflée. Ces signes peuvent évoquer une ostéolyse maligne, une tumeur à cellules géantes multicentrique voir une dysplasie fibreuse [10]. L'ostéolyse des tumeurs brunes n'envahit jamais les tissus mous et n'entraînent pas de réaction périostée. L'aspect scintigraphique est une hyperfixation voire hypofixation en cas de processus lytique [11]. Exceptionnellement cette localisation est rachidienne. En effet, à notre connaissance depuis 1972 à nos jours, 15 cas de tumeurs brunes par hyperparathyroïdie primaire de localisation rachidienne ont été rapporté [12] y compris le nôtre. L'âge moyen des patients est de 49,4 ans [extrêmes : 23-69] avec une prédominance féminine (9 cas). Les caractéristiques topographiques, cliniques, thérapeutiques et évolutives des patients sont présentées dans le tableau I. Par ailleurs le taux de PTH chez notre patiente est très élevé (25 fois la normale) et la tumeur mesurant 12 mm x 5 mm sur le corps de la L2. Dans une localisation dorsale d'une tumeur brune rapporté par Haddad et al, le taux de PTH est similaire au notre [20]. Ces taux très élevés de PTH associés à ces lésions vertébrales montre probablement une corrélation hormono-pathologique. L'examen anatomopathologique de la tumeur retrouve des cellules géantes granulomateuses confirmant le diagnostic de tumeur brune. La parathyroïdectomie était réalisée avec des suites opératoires simples. L'évolution à 6 mois était marquée par la régression des signes cliniques et para cliniques de l'hyper parathormonémie en dehors d'une résection de la tumeur brune.

## CONCLUSION

La tumeur brune lombaire symptomatique est rare conduisant à la découverte d'une hyperparathyroïdie primaire. La parathyroïdectomie s'accompagne de la résolution complète des symptômes sans résection de la tumeur brune.

## REFERENCES

1. Chammakhi-Jemli C, Saddoud N, Zouaoui W, Ben Gamra O, Mzabi H, Sehili S, Elkhedim A, Daghfous MH. Quel est votre diagnostic ? J Radiol 2006; 8:977-9.
2. Younes NA, Shafagoj Y, Khatib F, Ababneh M. Laboratory screening for Hyperparathyroidism. Clin Chim Acta 2005; 353:1-12.
3. Azria A, Beaudreuil J, Juquel JP, Quillard A, Bardin T. Brown tumor of spine revealing secondary hyperparathyroidism. Report of case. Joint Bone Spine 2000; 67: 230-3.
4. Takeshita T, Tanaka H, Harasawa A, Kaminaga T, Imamura T, Furui S. Brown tumor of the sphenoid sinus in a patient with secondary hyperparathyroidism : CT and MR imaging findings. Radiat Med 2004; 22:265-8.
5. Fineman I, Johnson JP, Di-Patre P, Sandhu H: Chronic renal failure causing brown tumors and myelopathy. Case report and review of pathophysiology and treatment. J Neurosurg 1999; 90:242-246.
6. Griffiths HJ, Ennis JT, Bailey G: Skeletal changes following renal transplantation. Diagn Radiol 1974 ; 113 : 621-626.
7. Kaya RA, Cavusuoglu H, tanik C, Kahyaoglu O, Dilbaz S, Tuncer C, Aydin Y : Spinal cord compression caused by brown tumor at the cervicothoracic junction. Spine J 2007 ; 7:728-732.
8. Bullough PG: Neoplastic diseases of bone. In: Mills SE, ed. Sternberg's Diagnostic Surgical Pathology. 4th ed Philadelphia:Lippincott Williams et Wilkins 2004 ;245-264.
9. Keyser J, Postma G: Brown tumor of the mandible. Am J Otolaryngol 1996 ; 17 :407-410.
10. Resnick D, Kyriakos M, Greenway GD. Tumors and tumorlike lesions of bone: imaging and pathology of specific lesions. In: Resnick D, Niwayama G, eds. Diagnosis of bone and Joint disorders. 2<sup>nd</sup>ed, vol 6. Philadelphia: WB Saunders Company 1988; p 3616-3888.
11. Brown WT, Lyon KP, Winer RL. Changing manifestations of brown tumor on bone scan in renal osteodystrophy. J Nucl Med 1978 ; 19 : 1146-S
12. Kyle M. Fargen. Vertebral brown tumors world neurosurgery, DOI: 10.16/j.wneu. 02.022, 2010
13. Shaw MT, Davies M: Primary hyperparathyroidism presenting as spinal compression Br Med J 1968; 4: 230-231.
14. Sui K, Sundaram M, and Schultz C, Kirwan L: primary hyperparathyroidism presenting as spinal cord compression: report of a case. Aust N Z J Surg 1977 ; 47 : 668-672.
15. Sundaram M, Scholz C: Primary hyperparathyroidism presenting with acute paraplegia. AJR Am J Roentgenol 1977 ; 128 :674-676.
16. Ganesh A, Kurian S, John L: Complete recovery of spinal cord compression following parathyroidectomy. Postgrad Med J 1981 ; 57:652-653.
17. Yokota N, Kuribayashi T, Nagamine M, Tanaka M, Matsukura S, Watisaka S : paraplegia caused by brown tumor in primary hyperparathyroidism. J Neurosurg 1989 ; 71 :446-448.
18. Kashkari S, Kelly TR, Bethem D, Pepe RG: osteitis fibrosa cystica (brown tumor) of the spine with cord compression: report of case with needle aspiration biopsy findings. Diagn Cytopathol 1990 ; 6:349-353.
19. Sarda AK, Arunabh, Vijayaraghavan M, Kapur M: Paraplegia due to osteitis fibrosa secondary to primary hyperparathyroidism: report of case. Surg Today 1993 ; 23 :1003-1005.
20. Haddad FH, Malkawi OM, Sharbaji AA, Jbara IF, Rihana HR: Primary hyperparathyroidism. A rare cause of spinal cord compression. Saudi Med J 2007; 28: 783-786.
21. Shuangshoti S, Hongsaprabhas C, Chandraprasert S, Rajatapiti B: Parathyroid adenoma, brown tumor and cauda equine compression. J med Assoc Thai 1972; 55: 251-258.
22. Graziani N, Donnet A, Antipoff M, Gabori P, Hassoun, Grisoli F : Cervical Recklinghausen's osteitis fibrosa cystica revealing primary hyperparathyroidism. Neurochirurgie 1991; 37:394-397.

23. Hoshi M, Takami M, Kajikawa M, Teramura K, Okamoto T, Yanagida I, Matsumura A : A case of multiple skeletal lesions of brown tumors, mimicking carcinoma metastases. ArchOrthop Trama Surg 2008; 128:149-154.

**Tableau I :** Revue des cas cliniques de tumeurs brunes vertébrales secondaires aux hyperparathyroïdies primaires.

Auteurs	Age, Sexe	Tableau clinique	Siège	Traitement
Shaw and Davies, 1968 [13]	58, F	Para parésie et rétention urinaire	T10 pédicule	Résection de la lésion et de l'adénome parathyroïdien
Shuangshoti et al, 1972 [21]	32, M	Para parésie progressive et radiculagie	L4 postérieur éléments	Résection de la lésion et de l'adénome parathyroïdien
Sui et al, 1977 [14]	64, F	Paraplégie, niveau sensitif thoracique et rétention urinaire	T10	Résection de la lésion et de l'adénome parathyroïdien
Sundaram and Scholz, 1977 [15]	63, F	Paraplégie et rétention urinaire	T10 corps et pédicule	Résection de la lésion et de l'adénome parathyroïdien
Ganesh et al, 1981 [16]	40, M	Para parésie, T4 niveau sensitif partiel, radiculagie	T2 corps pédicules	Résection de l'adénome parathyroïdien seul
Yokota et al, 1989 [17]	58, F	Para parésie	T5 pédicule	Résection des lésions et du nodule parathyroïdien
Kashkari et al, 1990 [18]	51, F	Para parésie	T6 et T7 corps	Résection de la lésion et de l'adénome parathyroïdien
Graziani et al, 1991 [22]	64, F	Para parésie et douleur unilatéral du membre	Corps C6	Résection de la lésion et de l'adénome parathyroïdien
Sarda et al, 1993 [19]	23, F	Para parésie et radiculagie du membre inférieur	T3-T4	Résection de la lésion et de l'adénome parathyroïdien
Motateanu et al, 1994 [29]	57, M	Radiculagie du membre inférieur	L4-L5 facet	Résection de la lésion
Mustonen et al, 2004 [31]	28, M	Radiculagie du membre inférieur	L2 postérieur	Résection de l'adénome parathyroïdien seul
Haddad et al, 2007 [20]	62, F	Para parésie et niveau sensitif T4	T2 et T3 postérieur éléments, T4 corps	Résection de la lésion et de l'adénome parathyroïdien
Khalil et al, 2007 [23]	69, M	Radiculagie du membre inférieur	L2 corps et pédicule	Résection de la lésion
Hoshi et al, 2008 [23]	23, F	Radiculagie du membre inférieur	Sacrum	Résection de l'adénome parathyroïdien seul
Notre cas clinique, 2012	55, F	Radiculagie du membre inférieur	L2 corps	Résection de l'adénome parathyroïdien seul

F= féminin, M= masculin, L= lombaire= T= thoracique, C= cervicale