

# ADENOME PARATHYROÏDIEN ECTOPIQUE : CAUSE INHABITUELLE D'UNE TUMEFACTION SOUS DIGASTRIQUE

## ECTOPIC PARATHYROID ADENOMA : UNCOMMON CAUSE OF DIGASTRIC MASS

S. KALLEL <sup>1,2,\*</sup>, M. MNEJJA <sup>1,2</sup>, F. MAALEJ <sup>1,2</sup>, F. MASMOUDI <sup>1,2</sup>,  
I. CHARFEDDINE <sup>1,2</sup>, B. HAMMAMI <sup>1,2</sup>, A. GHORBEL <sup>1,2</sup>.

1 : Service ORL et chirurgie Cervico-faciale. Hôpital Habib Bourguiba , Sfax.

2 : Faculté de Médecine, Université de Sfax-Tunisie.

\*e-mail de l'auteur correspondant : souha.kallel@yahoo.fr

### Résumé

La localisation sous digastrique d'un adénome parathyroïdien ectopique est exceptionnelle. De ce fait, son diagnostic est particulièrement difficile. Nous rapportons le cas d'une patiente de 41 ans sans antécédents qui a consulté pour des douleurs osseuses diffuses d'aggravation progressive. L'examen clinique a objectivé une tuméfaction sous digastrique droite de 3cm. A la biologie, la calcémie était de 2,74 mmol/l et la parathormone (PTH) était de 309 ng/l. L'échographie cervicale a montré une formation sous digastrique de 32mm hétérogène comportant des zones liquidiennes avec une loge thyroïdienne indemne de lésion. La scintigraphie parathyroïdienne était sans anomalies. Une exploration chirurgicale a été décidée. Elle n'a pas montré de lésion évidente au niveau des quatre glandes parathyroïdes. Le geste opératoire s'est limité à la résection de la masse sous digastrique. L'examen anatomo-pathologique définitif a conclu à un adénome parathyroïdien nécrosé. Les suites opératoires étaient marquées par la normalisation des chiffres de calcémie et de PTH.

**Mots clés :** Parathyroïde ectopique ; Tuméfaction sous digastrique ; Imagerie ; Chirurgie

### Abstract

The digastric localization of an ectopic parathyroid adenoma is exceptional. Therefore, diagnosis is particularly difficult. We report the case of 41-year-old women with no history who consulted for diffuse bone pain with progressive worsening. Clinical examination showed a 3 cm sized right digastric tumefaction. Serum calcium level was 2.74 mmol/l and serum parathormone (PTH) level was 309 ng/l. Cervical ultrasound revealed a 32mm sized heterogeneous digastric formation with fluid zones, the thyroid area was normal. The parathyroid scintigraphy was normal, also. The patient underwent a surgical exploration. There was no lesion in any four parathyroid glands. Resection of right digastric mass was then performed. The final pathologic examination concluded to a parathyroid adenoma. The postoperative course was uneventful with the normalization of serum calcium and PTH.

**Key words :** Ectopic parathyroid; Digastric mass; Radiology; Surgery

### ملخص

يعتبر موقع تحت ذات البطنين خارج الرحم لورم الغدة الدرقية الحميد واحدة استثنائية في مجال الطب. لذلك فإن التشخيص صعب للغاية. نقدم لكم تقريرا عن حالة مريضة تبلغ العمر 41 سنة وليس لها سوابق مرضية و التي عرضت نفسها لحصول أوجاع بالعظام بصفة منتشرة و متدهورة تدريجيا.

و جسد الفحص السريري وجود تورم تحت ذات البطنين الحق بسمك 3 صم. و أبرزت البيولوجية أن نسبة الكالسيوم في الدم تساوي 2.74 مليمول / لتر وكان هرمون الغدة الدرقية يساوي 309 نانو غرام / لتر. وأظهرت الموجات فوق الصوتية بمستوى عنق الرحم وجود تشكيل متجانس تحت ذات البطنين يساوي سمكه 32 مم بما في ذلك المناطق الرخوية مع ملاحظة غدة درقية عادية. كان التصوير الومضاني للغدة الدرقية دون تشوهات تذكر. وقد قرر و حصل استكشاف جراحي للغدة الدرقية ولم يظهر أي ضرر واضح في الغدد الجار درقية الأربع. تمثلت العملية الجراحية في استئصال كتلة تحت ذات الطنين. وخلص فحص التشريح المرضي المجهرية النهائي لنخر غدي من نوع الغدة الدرقية بمستوى هته الكتلة الورمية. و قد تميز تطور المرض بعد العملية الجراحية إلى رجوع نسبة الكالسيوم و مصل هرمون الغدة الدرقية إلى مستوياتها الطبيعية.

**الكلمات المفاتيح:** الغدة الدرقية خارج الرحم ; تورم تحت ذات البطنين ; التصوير ; الجراحة.

## INTRODUCTION

L'hyperparathyroïdie primitive est due dans 85 % des cas à l'existence d'un adénome parathyroïdien. Dans environ 10 % des cas, l'adénome est en situation ectopique en raison d'une migration embryologique aberrante des glandes parathyroïdes. La localisation ectopique sous digastrique est exceptionnelle. Nous rapportons un nouveau cas et nous nous proposons de discuter les modalités de rattacher une masse sous digastrique à son origine parathyroïdienne.

## CAS CLINIQUE

Patiente âgée de 41 ans, sans antécédents pathologiques particuliers (notamment d'insuffisance rénale chronique), a consulté pour des douleurs osseuses et articulaires diffuses d'aggravation progressive associées à une asthénie. Elle a noté aussi l'apparition récente d'une tuméfaction latéro cervicale haute droite sans signes de compression.

A l'examen cervical, la glande thyroïde était non palpable avec présence d'une tuméfaction sous digastrique droite de 3cm de grand axe, ferme, mobile et indolore. Il n'y avait pas d'autres tuméfactions cervicales. L'examen des voies aéro-digestives supérieures n'a pas révélé de lésion suspecte. L'examen général était normal.

A la biologie, la calcémie était de 2,74mmol/l, la phosphorémie de 1,8mmol/l, la PTH 1-84 de 309ng/l et la créatinémie de 65 µmol/l.

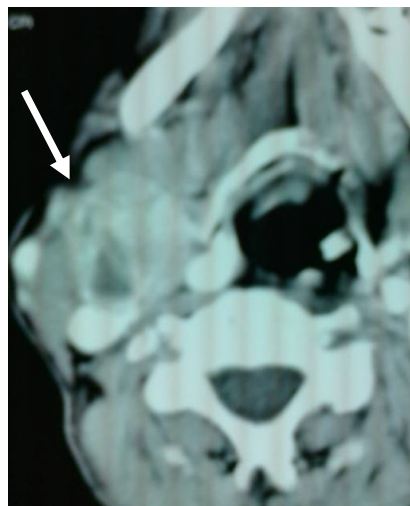
L'échographie cervicale a montré une formation sous digastrique de 32 mm d'échostructure hétérogène et contenant des zones liquidiennes (Figure 1). La glande thyroïde était d'aspect et de taille normale. La scintigraphie parathyroïdienne était sans anomalies alors que la scintigraphie osseuse était en faveur d'une ostéomalacie. Au scanner cervical, la masse sous digastrique était nécrosée au centre et prenant le contraste de façon hétérogène (Figure 2). L'orientation radiologique était vers une adénoptahie métastatique ou d'origine tuberculeuse.

La patiente a bénéficié d'une exploration chirurgicale cervicale. Les 4 glandes parathyroïdes étaient d'aspect et de taille normaux. D'où nous nous sommes contentés d'une ablation de la masse sous digastrique droite. L'examen histologique extemporané a conclu à un adénome parathyroïdien sous digastrique nécrosé. Ce diagnostic était également retenu à l'examen histologique définitif. Les suites opératoires ont été marquées par la

normalisation des chiffres de calcium et de PTH et l'amélioration nette des signes fonctionnels.



**Figure 1 :** Echographie cervicale : Formation sous digastrique droite ovale de 32mm de grand axe (étoile) et hétérogène avec des zones liquidiennes (flèche).



**Figure 2 :** TDM cervicale en coupe axiale avec injection de produit de contraste : formation tissulaire sous digastrique droite de 25mm de grand axe, nécrosée au centre et prenant le contraste de façon hétérogène

## DISCUSSION

Les glandes parathyroïdes sont au nombre de 4 : deux supérieures (P4) et deux inférieures (P3). Les P3 dérivent de la 3ème poche branchiale, ils ont un trajet descendant jusqu'à la face postérieure de la glande thyroïde, en arrière du pôle inférieur de la thyroïde. Les P4 dérivent de la 4ème poche branchiale puis ils ont un trajet ascendant jusqu'à la face postérieure de la glande thyroïde, à la jonction entre le nerf récurrent et l'artère thyroïdienne inférieure [1].

Cinq à quinze pourcents des glandes parathyroïdes sont en situation ectopique : 10 % dans le médiastin antérieur en situation intra-thoracique, 1 à 3 % en situation intra thyroïdienne, 1 % en situation rétro œsophagienne, et 3-5 % dans le médiastin postérieur.

La localisation sous digastrique est exceptionnelle (0,12%) [2]. Cinq cas seulement de glande pathologique en situation cervicale haute ont été rapportés dans la littérature [3, 4, 5, 6, 7]. L'origine de ce tissu parathyroïdien ectopique n'est pas encore bien expliquée, mais elle est vraisemblablement en rapport avec l'embryogenèse et défaut de migration de la parathyroïde issue de la troisième poche branchiale (P3). Les rapports étroits entre cette poche branchiale et l'axe vasculo-nerveux du cou plaident en faveur de cette hypothèse [8, 9].

L'hyperparathyroïdie primaire (HPT) peut se présenter par une symptomatologie diverse : des douleurs osseuses, des lithiases rénales récidivantes, une asthénie et des signes digestifs. Les formes asymptomatiques demeurent les plus fréquentes et le diagnostic d'HPT repose sur la biologie objectivant une hypercalcémie, une hypophosphorémie, et une élévation de la parathormone circulante [10, 11, 12]. L'imagerie a pour objectif de localiser l'adénome afin de guider et de faciliter le geste chirurgical. Les premiers examens d'imagerie à réaliser sont l'échographie cervicale et la scintigraphie au <sup>99m</sup>Tc sestaMIBI (méthoxy-isobutyl-isonitrile marqué au <sup>99m</sup>Tc). L'échographie cervicale est opérateur dépendant. Sa sensibilité varie entre 51 et 84 % alors que sa spécificité est médiocre (30% pour certains) [13]. L'apport de la scintigraphie au MIBI est important et repose sur la différence de clairance du traceur dans les tissus thyroïdiens et parathyroïdiens. La sensibilité de cet examen varie de 73 à 96 % selon les auteurs. Elle a pour avantage de pouvoir détecter les glandes parathyroïdes pathologiques de localisation ectopique [4]. La scintigraphie au MIBI était négative dans notre cas, ceci peut être expliqué par le caractère nécrosé de l'adénome parathyroïdien échappant à la captation du radio-isotope.

La localisation préopératoire précise des adénomes parathyroïdiens latéro-cervicaux est souvent difficile, mais peut être facilitée par la connaissance de cette localisation inhabituelle. Dans les cas rapportés dans la littérature, comme dans le nôtre, la lésion était palpable au niveau de la région latéro-cervicale haute seulement dans 2 cas [6, 7]. Dans les autres cas, c'était la

confrontation de plusieurs méthodes d'imagerie (échographie, scanner, IRM, scintigraphie, angiographie, dosages étagés de la PTH, échographie peropératoire) qui a permis un diagnostic précis préopératoire [3, 6, 7].

## CONCLUSION

A part les adénopathies cervicales et les kystes congénitaux du cou, un adénome parathyroïdien ectopique doit être évoqué comme une étiologie possible des tuméfactions sous digastriques. De même, devant un tableau d'hyperparathyroïdie primaire, la localisation latéro-cervicale haute doit être prise en compte dans la recherche d'un adénome parathyroïdien ectopique et une scintigraphie au MIBI négative n'exclut pas le diagnostic.

## REFERENCES

- [1] Wang C, Mahaffey JE, Axelrod L, Perlman JA. Hyperfunctioning supernumerary parathyroid glands. *Surg Gynecol Obstet* 1979; 148: 711-4.
- [2] Biennu M, Amar L, Vignaux O, Fulla Y, Bonnichon P, Richard B, et al. Diagnostic des adénomes parathyroïdiens ectopiques médiastinaux : apport de l'IRM cardiaque. *J radiol* 2003; 84: 1969-73.
- [3] Doppman JL, Shawker TH, Fraker DL, Alexander HR, Skarulis MC, Lack EE et al. Parathyroid adenoma within the vagus nerve. *AJR* 1994; 163: 943-5.
- [4] Reiling RB, Cady B, Clerkin EP. Aberrant parathyroid adenoma within the vagus nerve. *Lahey Clin Bull* 1972; 21: 158-62.
- [5] Buell JF, Fraker DL, Doppman JL, Shawker TH, Skarulis MC, Spiegel AM, et al. High cervical intravagal hypercellular parathyroid gland as the etiology of severe persistent primary hyperparathyroidism. *Am Surg* 1995; 61: 943-6.
- [6] Raffaelli M, Defechereux T, Lubrano D, Sadoul JL, Henry JF. L'ectopie parathyroïdienne intravagale. *Ann Chir* 2000; 125: 961-4.
- [7] Takimoto T, Okabe Y, Ito M, Umeda R. Intravagal parathyroid adenoma. *J Laryngol Otol* 1989; 103: 704-6.
- [8] Gilmour JR. Some developmental abnormalities of the thymus and parathyroids. *J Pathol Bacteriol* 1941; 52: 213-8.
- [9] Lack EE, Delay S, Linnoila RI. Ectopic parathyroid tissue within the vagus nerve : incidence and possible clinical significance. *Arch Pathol Lab Med* 1988; 112: 304-6.
- [10] Chen CC, Skarulis MC, Fraker DL, Alexander HR, Marx SJ, Spiegel AM. Technetium <sup>99m</sup>-sestamibi imaging before reoperation for primary hyperparathyroidism. *J Nucl Med* 1995; 36: 2186-91.
- [11] Bergenfelz A, Algotsson L, Roth B, Isksson A, Tibblin S. Side localization of parathyroid adenomas by simplified venous sampling for parathormones circulantes. *World J Surg* 1996; 20: 358-60.
- [12] Abboud B, Pitre J, Bonnichon Ph, Legmann P, Fulla Y, Richard B et al. Place du cathétérisme veineux étagé avec dosage de la parathormone 1-84 dans le traitement de l'hyperparathyroïdie persistante. *Ann Chir* 1997; 51: 130-5.
- [13] Belkacem S, Semrouni M. La performance échographique dans le diagnostic de l'hyperparathyroïdie primaire. *Rev Magh Endocri Diab et Rep* 2008; 12: 26-28.