

UMA RARA APRESENTAÇÃO DE CISTO DE PARATIREOIDE

Recebido em: 25/04/2023

Aceito em: 22/05/2023

DOI: 10.25110/arqsaude.v27i5.2023-042

Martina Caroline de Moura Ferreira Gomes¹
Ligia Cristina Lopes de Farias²
Catia Sueli de Sousa Eufrazino Gondim³
Alana Abrantes Nogueira de Pontes⁴
Manuella Nery Dantas Crisanto⁵
Jamilly Veríssimo Meira Teixeira⁶
Lincoln Santos Souza⁷

RESUMO: O hiperparatireoidismo primário é caracterizado por hipercalcemia e secreção em excesso ou inadequadamente normal do paratormônio. Na maioria dos casos, a apresentação inicial é assintomática. Tem como etiologia principal adenoma de paratireoide; cisto de paratireoide é achado raro. Este, em geral, é não funcionante, mas o caso a seguir relata uma crise hipercalcêmica como apresentação inicial de cisto funcionante de paratireoide, cujo histopatológico evidenciou adenoma atípico de paratireoide. Após procedimento cirúrgico, a paciente apresentou normalização de cálcio e paratormônio séricos e consequente resolução dos sintomas inicialmente apresentados.

PALAVRAS-CHAVE: Hiperparatireoidismo; Cisto de Paratireoide; Adenoma Atípico de Paratireoide; Hipercalcemia.

A RARE PRESENTATION OF PARATHYROID CYST

ABSTRACT: Primary hyperparathyroidism is characterized by hypercalcemia and excess or inappropriately normal secretion of parathyroid hormone. In most cases, the initial presentation is asymptomatic. Its main etiology is parathyroid adenoma; parathyroid cyst is a rare finding. The latter is usually non-functioning, but the following case reports a hypercalcemic crisis as the initial presentation of a functioning parathyroid cyst, whose histopathology showed an atypical parathyroid adenoma. After surgical procedure, the patient presented normalization of serum calcium and parathyroid hormone and consequent resolution of the symptoms initially presented.

KEYWORDS: Hyperparathyroidism; Parathyroid Cyst; Atypical Parathyroid Adenoma; Hypercalcemia.

¹ Residente em Endocrinologia e Metabologia. Universidade Federal de Campina Grande (UFCG).

E-mail: martina13@hotmail.com

² Mestre em Ciências Aplicadas à Cirurgia e Oftalmologia pela Universidade Federal de Minas Gerais. Universidade Federal de Campina Grande (UFCG). E-mail: ligia_lopes@msn.com

³ Mestre em Tocoginecologia pela Universidade de Pernambuco (UPE). Universidade Federal de Campina Grande (UFCG). E-mail: catiasse@gmail.com

⁴ Doutora em Medicina e Saúde pela Universidade Federal da Bahia (UFBA). Universidade Federal de Campina Grande (UFCG). E-mail: alanaabrantess93@gmail.com

⁵ Residência em Endocrinologia e Metabologia pela Universidade Federal do Rio Grande do Norte (UFRN). Universidade Federal de Campina Grande (UFCG). E-mail: manuellanerydc@gmail.com

⁶ Mestre em Tecnologia e Saúde pela Universidade Estadual da Paraíba (UEPB). Universidade Federal de Campina Grande (UFCG). E-mail: jamillyteixeiraendocrino@gmail.com

⁷ Mestre em Ciências Médicas pela Universidade Estadual de Campinas (UNICAMP). Universidade Federal de Campina Grande (UFCG). E-mail: souزالin@uol.com.br

UNA RARA PRESENTACIÓN DE QUISTE PARATIROIDEO

RESUMEN: El hiperparatiroidismo primario se caracteriza por hipercalcemia y secreción excesiva o inadecuadamente normal de paratormio. En la mayoría de los casos, la presentación inicial es asintomática. La etiología principal es el adenoma paratiroideo; el quiste paratiroideo es un hallazgo raro. Este último suele ser no funcionante, pero el siguiente caso relata una crisis hipercalcémica como presentación inicial de un quiste paratiroideo funcionante, cuya histopatología mostró un adenoma paratiroideo atípico. Tras el procedimiento quirúrgico, la paciente presentó normalización del calcio sérico y de la hormona paratiroidea y consecuente resolución de los síntomas inicialmente presentados.

PALABRAS CLAVE: Hiperparatiroidismo; Quiste Paratiroideo; Adenoma Paratiroideo atípico; Hipercalcemia.

1. INTRODUÇÃO

O hiperparatiroidismo primário (HPTP) é uma doença endócrina comum caracterizada por hipercalcemia e secreção excessiva ou inadequadamente normal do hormônio da paratireoide (PTH), com um conjunto de manifestações clínicas variáveis. Atualmente, a maioria dos pacientes é diagnosticada casualmente após a realização de uma análise de rotina (TORRES, 2017). Em 80-85% dos casos, ocorre devido à presença de adenoma/doença de glândula única. Destes, o adenoma atípico de paratireoide é responsável por 1,2-1,3% dos casos, e o carcinoma por aproximadamente 1%. Já a doença de glândula múltipla ou hiperplasia é responsável por 10-15% dos casos (GALANI et al., 2021; GHADA et al., 2022).

Os cistos de paratireoide são lesões raras do pescoço ou mediastino, com pouco mais de 300 casos relatados na literatura (CAPPELLI et al., 2009). Podem ser funcionantes (se houver hiperparatiroidismo associado), ou não funcionantes (mais comum), com relatos de sintomas de compressão cervical (ARAUJO et al., 1998; SILVA et al., 2004). Faz diagnóstico diferencial com cisto da glândula tireoide, cisto branquial, adenoma da tireoide e carcinoma da paratireoide. A suspeição pré-operatória é de suma importância, na maioria das vezes, o diagnóstico é feito durante a cirurgia ou no exame anatomopatológico da peça cirúrgica (SILVA et al., 2020).

É descrita a seguir uma apresentação rara de cisto funcionante de paratireoide diagnosticado em mulher de meia idade na forma de hiperparatiroidismo primário e hipercalcemia aguda sintomática com anatomopatológico evidenciando adenoma atípico de paratireoide. Tem como objetivo reiterar esse diagnóstico diferencial e pouco comum

às possíveis etiologias do hiperparatireoidismo primário e assim contribuir para aumento de diagnósticos desta patologia.

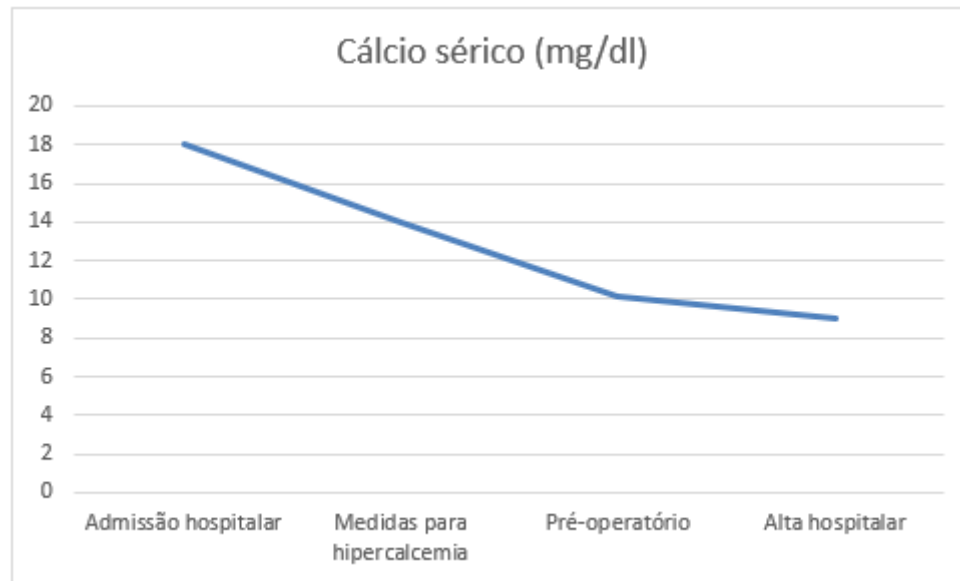
2. METODOLOGIA

Este trabalho é um estudo descritivo, com abordagem qualitativa, do tipo relato de caso clínico. O tema abrange uma paciente com cisto funcionante de paratireoide, atendida em ambulatório público especializado em Endocrinologia, na cidade de Campina Grande-PB, no ano de 2022, com manutenção de acompanhamento ambulatorial. O projeto foi encaminhado e submetido ao Comitê de Ética em Pesquisa (CEP) da Universidade Federal de Campina Grande (UFCG) e aprovado sob CAAE 64710522.2.0000.5182.

3. RELATO DE CASO

Mulher, 47 anos, sem comorbidades, admitida devido quadro de náuseas, vômitos, perda de 20 kg, anorexia, poliúria e constipação iniciados há 20 dias. Logo após admissão hospitalar, apresentou também disfonia súbita. Em exames laboratoriais, foram flagrados cálcio (corrigido pela albumina) de 18 mg/dl e PTH 558 pg/ml, confirmando-se hiperparatireoidismo primário. Após realização de hidratação endovenosa vigorosa e infusão de ácido zolendrônico 4mg houve redução da calcemia para 14mg/dl. A Ultrassonografia cervical demonstrou lesão cística em paratireoide inferior direita. Foi realizada Punção Aspirativa por Agulha Fina (PAAF) com dosagem de PTH (valor 150 pg/ml) e tireoglobulina (valor 0,16) – ambos no lavado da agulha. A tomografia cervical com contraste evidenciou compressão esofágica e de traqueia. A paciente foi então submetida à abordagem cirúrgica, que consistiu em lobectomia direita + istmectomia + paratireoidectomia inferior à direita com ressecção da musculatura acima + esvaziamento cervical radical modificado à direita (níveis II, III, IV e V). Apresentou boa evolução no pós-operatório e ausência de fome óssea, com redução da calcemia corrigida (para 9 mg/dl) – **gráfico 1** – e do PTH (para 25 pg/ml). Histopatológico revelou adenoma atípico de paratireoide com dimensões 5 x 4,5 x 4,5 cm; presença de degeneração cística, calcificação distrófica e áreas de necrose; índice mitótico de 0 mitoses/50 campos; ausência de atipias citológicas; ausência de invasão capsular, angiolinfática, perineural e de estruturas adjacentes, com margens cirúrgicas livres de neoplasia. A paciente recebeu alta e mantém acompanhamento ambulatorial, com estabilidade dos níveis de cálcio e PTH séricos.

Gráfico 1. Evolução dos níveis séricos de cálcio durante internamento hospitalar. O gráfico representa a queda dos níveis de cálcio após início de medidas de controle da hipercalcemia e resolução da mesma após procedimento cirúrgico.



4. DISCUSSÃO

Embora a apresentação clínica mais comum do HPTP seja a hipercalcemia assintomática com uma concentração de PTH elevada ou inadequadamente normal, pode se apresentar de forma atípica, variando de hipercalcemia grave sintomática (crise de paratireoide) a HPTP normocalcêmico. A etiologia do HPTP em ordem decrescente é adenoma, hiperplasia, adenoma atípico/carcinoma de paratireoide (GHADA et al., 2022; REIS et al., 2022).

Os cistos de paratireoide são lesões raras do pescoço ou mediastino, com pouco mais de 300 casos relatados na literatura (CAPPELLI et al., 2009). São mais comuns no sexo feminino, especialmente na quarta e quinta décadas de vida. A vasta maioria localiza-se nas paratireoides inferiores, sendo descritas do ângulo da mandíbula ao mediastino, com leve predominância à esquerda (SILVA et al., 2004).

Eles podem ser funcionantes (se associado a hiperparatireoidismo) e não-funcionantes. Os funcionantes (menos de 10% dos casos) são mais comuns no sexo masculino e geralmente resultam de degeneração de um verdadeiro adenoma de PTH (SILVA et al., 2004).

Sua maioria é assintomática, com principais sintomas provocados pelo efeito compressivo local da lesão quando atingem grandes dimensões (disfagia, rouquidão por paresia de corda vocal, dor, massa cervical ou dispneia por desvio da traqueia). Existem ainda os sintomas decorrentes do hiperparatireoidismo, com elevação do cálcio sérico e

repercussões ao nível dos sistemas nervoso central, neuromuscular, trato gastrointestinal, rins e aparelho cardiovascular (SILVA et al., 2004).

Nosso caso relatado teve apresentação atípica, pois tratou-se de paciente do sexo feminino, com cisto funcionante de paratireoide à direita. Além disso, quadro inicial foi bastante sintomático devido hipercalcemia aguda (náuseas, vômitos, poliúria, perda de peso e constipação) associados a sintomas de compressão local (disfonia) exercidos pela volumosa lesão cística.

Dentre os exames complementares, a utilidade da PAAF como exame de primeira linha na investigação de massas cervicais já é bem estabelecida no que diz respeito à facilidade técnica, baixo custo e mínima invasão dos tecidos (SILVA et al., 2004).

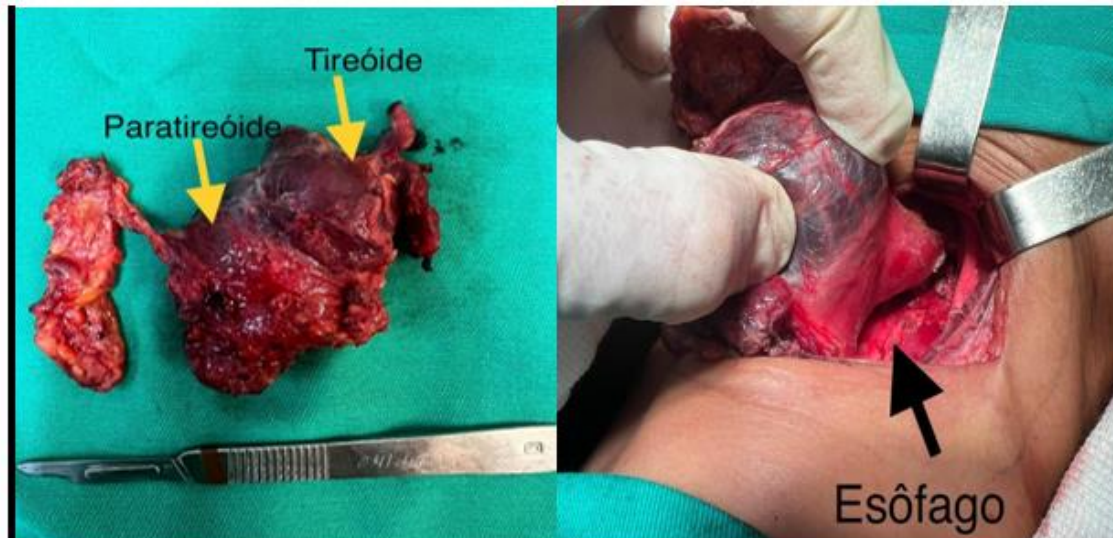
Tanto nas lesões funcionantes como nas não-funcionantes, a dosagem do PTH intracisto é maior que o sérico. Na série de Ketha et al., uma concentração de PTH ≥ 100 pg/ml teve 100% de especificidade e 82% de sensibilidade para identificar o tecido paratireoideo (KETHA et al., 2015). Nossa paciente foi submetida à PAAF com dosagem de PTH intracisto > 100 pg/ml e tireoglobulina negativa, configurando achado de cisto de paratireoide funcionante.

A sensibilidade dos exames de Sestamibi com 99m Tc para cistos funcionais da paratireoide é menor (29%) do que para adenomas não císticos da paratireoide (68-95%), por isso achados positivos são menos frequentes nos cistos paratireoidianos funcionais se comparado a adenomas paratireoidianos não císticos (UEHARA et al., 2020).

O tratamento indicado para o cisto funcionante é sempre cirúrgico. Nos casos de recorrência ou cisto complicado por sintomas compressivos, o tratamento também deve ser cirúrgico (SILVA et al., 2004). A suspeita clínica prévia de carcinoma paratireoide modifica a conduta cirúrgica, que passa a ser mais agressiva (MORIMITSU et al., 2001).

No caso relatado, devido tratar-se de cisto funcionante e com sinais de compressão, a paciente foi submetida a tratamento cirúrgico. Devido à alta suspeita de carcinoma de paratireoide (cálcio sérico muito elevado e no intraoperatório, presença de adesão importante da lesão cística ao esôfago e traqueia – **Figuras 1 e 2**), a conduta cirúrgica foi mais agressiva (inclusive com exérese de nervo laríngeo recorrente ipsilateral e musculatura adjacente à lesão).

Figuras 1 e 2. Achados intraoperatórios. É notável a presença de aderência da lesão cística ao esôfago.



Devido ao alto nível de cálcio sérico (inicialmente valor de 18mg/dl) era esperado o encontro de carcinoma de paratireoide à histopatologia, fato que não se confirmou. O achado foi de adenoma atípico de paratireoide com apresentação cística.

O adenoma atípico de paratireoide, também chamado de neoplasia de paratireoide de potencial maligno incerto, é uma entidade rara. O conceito designa os tumores que não possuem critérios absolutos para carcinoma, mas têm um ou dois dos seguintes atributos: presença de invasão vascular ou perineural, invasão de órgãos adjacentes e metástases regionais ou à distância (MACHADO, 2019).

Na ausência desses achados, o diagnóstico de carcinoma deve ser considerado quando três ou mais dos seguintes fatores estiverem presentes: invasão capsular, necrose tumoral coagulativa, atividade mitótica elevada ($> 5/50$ CGA; $ki67 > 5\%$), septos fibrosos espessos intratumorais, atipia celular difusa, macronúcleolos em células numerosas, padrão de crescimento difuso com alta relação núcleo/citoplasma (MACHADO, 2019).

O diagnóstico histopatológico de carcinoma é difícil e muitas vezes é realizado em revisões de lâmina, quando o paciente apresenta uma evolução clínica desfavorável (MORIMITSU et al., 2001). O caso apresentado só preenchia o critério histopatológico de presença de necrose tumoral, sendo por isso atribuído diagnóstico de adenoma atípico de paratireoide.

O seguimento destes adenomas tem demonstrado um resultado benigno na maioria, após a excisão local. Nossa paciente recebeu alta hospitalar e se encontra em acompanhamento ambulatorial, até o momento mantém assintomática e sem recidiva.

5. CONSIDERAÇÕES FINAIS

Os cistos de paratireoide são lesões raras, de diagnóstico diferencial difícil, que pode se apresentar como funcionante (caso da nossa paciente) ou não funcionante. O caso apresentado se tornou mais raro ainda devido cisto funcionante de paratireoide de localização incomum (à direita), gênero da paciente (feminino), por não ter sido degenerado de um adenoma verdadeiro de PTH (lesão cística) e anatomopatológico ter evidenciado adenoma atípico de paratireoide.

As principais limitações do nosso Relato, mas que não alteraram o tratamento nem evolução favorável da paciente, foram a indisponibilidade no nosso Serviço de Cintilografia com Sestamibi e dosagem do PTH sérico intraoperatório. A Cintilografia poderia confirmar a funcionalidade da lesão vista em exames de imagem antes da abordagem cirúrgica (apesar da baixa sensibilidade em lesões císticas de paratireoide se comparadas a adenomas); já a dosagem de PTH sérico intraoperatório poderia ter ajudado a corroborar a ressecção da lesão funcionante ainda durante o ato cirúrgico. Fatos estes confirmados posteriormente no pós-operatório através do anatomopatológico e resolução do hiperparatireoidismo primário.

REFERÊNCIAS

Araujo FVJ, Carlucci JD, de Castro IV, Barbosa JJG, Montag E, Ferraz AR. Cisto de paratireóide: relato de caso [Parathyroid cyst: case report]. *Rev Hosp Clin Fac Med São Paulo*. 1998.

Cappelli C, Rotondi M, Pirola I, De Martino E, Leporati P, Magri F, Rosei EA, Chiovato L, Castellano M. Prevalência de cistos de paratireoide por ultrassonografia cervical em pacientes não selecionados. *J Endocrinol Invest*. 2009 abr;32(4):357-9.

Galani A, Morandi R, Dimko M, Molfino S, Baronchelli C, Lai S, Gheza F, Cappelli C, Casella C. Atypical parathyroid adenoma: clinical and anatomical pathologic features. *World J Surg Oncol*. 2021 Jan 20;19(1):19. doi: 10.1186/s12957-021-02123-7. PMID: 33472651; PMCID: PMC7818751.

Ghada El-Hajj Fuleihan, MD, MPH; Andrew Arnold, MD. Pathogenesis and etiology of primary hyperparathyroidism. *UpToDate*. Abril 2022. Disponível em: https://www.uptodate.com/contents/pathogenesis-and-etiology-of-primaryhyperparathyroidism?search=hiperparatireoidismo&source=search_result&selectedTitle=5~150&usage_type=default&display_rank=5#H76602906

Ketha H, Lasho MA, Algeciras SA. Analytical and clinical validation of parathyroid hormone (PTH) measurement in fine needle aspiration biopsy (FNAB) washings. *Clin Biochem*. 2015. [Epub ahead of print].

Machado, SMS. Paratireoide – Neoplasias. Sociedade Brasileira de Patologia, 5ª edição, 2019.

Morimitsu, LK, Uyeno MNO, Goulart ML, Hauache OM, Vieira JGH, Alberti VN, Abrahão M, Cervantes O, Lazaretti-Castro M. Carcinoma de paratireoide: características clínicas e anatomo-patológicas de cinco casos. *Arquivos Brasileiros de Endocrinologia e Metabologia*, 2001.

Reis AHJ, Bonifácio FPS, Costa IM, Ribeiro LU, Barreto LF, Zacarias LCBM, Baraky MC, Dias SBNM. Hiperparatireoidismo primário: uma revisão da literatura. *Brazilian Journal of Development*. Curitiba, v.8, n.5, p.42281-42290, may., 2022.

Silva DA, Machado MC, Brito LL, Guimarães RA, Fava AS, Mamone MCAC. Cisto de paratireóide: aspectos diagnósticos e tratamento. *Rev Bras Otorrinolaringol*. V.70, n.6, 840-4, nov./dez. 2004

Silva R, Cavadas D, Vicente C, Coutinho J. Cisto de paratireoide: diagnóstico diferencial. *BMJ Case Reports*, 2020.

Torres, MM; Martin, AG. Primary hyperparathyroidism. *Revista Medicina Clínica*, Elsevier, 2017.

Uehara A, Suzuki T, Yamamoto Y, Hasegawa M, Koitabashi K, Yazawa M, Koike J, Shibagaki Y. A Functional Parathyroid Cyst from the Hemorrhagic Degeneration of a Parathyroid Adenoma. *Internal Medicine*, 2020.