



# Adenoma paratiroideo mediastinal e hiperparatiroidismo

## Mediastinal parathyroid adenoma and hyperparathyroidism

Edelberto Fuentes-Valdés,\* Kymani Pérez-García,† Ronald Néstor Fuentes-Valdés‡

\*Universidad de Ciencias Médicas de La Habana, Cuba; †Especialista en Cirugía General;

‡Especialista en Anestesiología y Reanimación.

**RESUMEN.** Las glándulas paratiroides ectópicas se presentan entre 6 y 16% de los pacientes con hiperparatiroidismo. **Objetivo:** Exponer dos casos de adenomas paratiroides hiperfuncionantes localizados en el anterior y superior (1) y en el mediastino posterior y superior (1). El estudio gammagráfico ( $^{99m}\text{Tc}$ -methoxyisobutylisonitrile [ $^{99m}\text{Tc}$ -MIBI]) demostró la presencia de glándulas ectópicas y definió su localización. **Presentación de los casos:** En el primer paciente (masculino) se comenzó la operación mediante una mediastinoscopia cervical, pero la fibrosis causada por una intervención previa obligó a convertir a una manubriotomía esternal. El adenoma extirpado se encontraba en íntimo contacto con el timo. A los 48 meses de operado el paciente se mostraba asintomático, con actividad física e intelectual normal. El adenoma del segundo enfermo (femenino) se ubicaba en el mediastino posterior y superior derecho. Se extirpó mediante cirugía torácica videoasistida (tres puertos), con anestesia orotraqueal y colapso del pulmón derecho. La evolución posoperatoria fue satisfactoria. A los 18 meses mantenía una vida normal con niveles de PTH normales. **Conclusiones:** Las glándulas paratiroides ectópicas en el mediastino no son frecuentes. Pueden presentarse en el mediastino anterior, asociadas al timo o en el mediastino posterior, localizadas, preferentemente, en el surco traqueoesofágico. Hasta donde sabemos, el segundo paciente es el primero tratado mediante cirugía torácica videoasistida en nuestro país.

**Palabras clave:** Glándulas paratiroides, adenoma, hiperparatiroidismo, mediastino, cirugía.

## INTRODUCCIÓN

De acuerdo con la literatura actual, las glándulas paratiroides ectópicas se presentan entre 6% y 16% de los enfermos con hiperparatiroidismo primario (HPTP).<sup>1</sup> Embriológicamente, las glándulas paratiroides derivan de la tercera y

**ABSTRACT.** Mediastinal ectopic parathyroid glands accounted for 6 to 16% of the patients with hyperparathyroidism. **Objective:** To present two cases of hyperfunctioning parathyroid glands located in the anterior and superior mediastinum (1) and in the posterior and superior mediastinum (1). Gammagraphic study ( $^{99m}\text{Tc}$ -methoxyisobutylisonitrile [ $^{99m}\text{Tc}$ -MIBI]) demonstrated the presence of ectopic glands and defined their location.

**Case presentation:** The first patient (masculine) the intervention began through a cervical mediastinoscopy, but fibrosis caused by a previous surgical operation obliged to convert to a partial sternotomy (manubrium). Removed adenoma was in contact with thymus. Forty eight months after operation then patient was asymptomatic. Forth eight months later, the patient was asymptomatic, with normal physical and intellectual activity. The second patient (female) had an upper and anterior mediastinal parathyroid adenoma. The tumor was removed through a videoassisted thoracic surgery (3 ports), with orotracheal anesthesia and the right lung collapsed. The patient had an uneventful postoperative recovery. Eighteen months later she enjoyed a normal life with normal PTH levels.

**Conclusions:** Mediastinal ectopic parathyroid glands are rare. They can present in the anterior mediastinum, associated to the thymus on in the posterior mediastinum, preferable in the tracheoesophageal groove. To the best of our knowledge, the second patient was the first treated by videoassisted thoracoscopic surgery in our country.

**Keywords:** Parathyroid glands, adenoma, hyperparathyroidism, mediastinum, surgery.

cuarta bolsa faríngea y descienden a lo largo de la glándula tiroides. Si ese proceso fracasa, se produce la localización anómala a lo largo de la línea media en el cuello y el tórax desde el ángulo de la mandíbula hasta el mediastino.<sup>2-5</sup>

Las glándulas paratiroides ectópicas representan una posible causa de fracaso del tratamiento quirúrgico; en particular, los adenomas de localización atípica en la profundidad del mediastino constituyen un gran desafío para los cirujanos.<sup>6</sup> De ahí la importancia de ubicar con exactitud estas glándulas, de manera tal que la operación cumpla sus objetivos. Entre las técnicas de detección resaltan la tomografía axial computarizada (TAC), la gammagrafía con  $^{99m}\text{Tc}$ <sup>7-9</sup> y la tomografía por emisión de un fotón simple, / tomografía axial computarizada (SPECT-TAC).

La localización en el mediastino posterior es rara y la resección se ha practicado, por lo regular, con accesos

### Correspondencia:

Dr. Edelberto Fuentes-Valdés

Universidad de Ciencias Médicas de La Habana, Cuba.

Correo electrónico: efuentes@infomed.sld.cu

Fecha de recibido: 09-VI-2020; aceptado: 12-VIII-2020.

**Citar como:** Fuentes-Valdés E, Pérez-García K, Fuentes-Valdés RN. Adenoma paratiroideo mediastinal e hiperparatiroidismo. Neumol Cir Torax. 2020; 79 (4): 256-260. <https://dx.doi.org/10.35366/97968>

amplios cervical o torácico.<sup>10</sup> En la actualidad, la cirugía de mínima invasión ha ganado espacio rápidamente en estos enfermos.

Nuestro artículo tiene el objetivo de presentar dos casos de adenomas paratiroideos ectópicos en el mediastino anterior (1) y en el posterior (1).

## PRESENTACIÓN DE LOS CASOS

Se estudiaron los síntomas preoperatorios, los resultados de la TAC contrastada, de la gammagrafía con <sup>99m</sup>Tc-methoxyisobutylisonitrile (<sup>99m</sup>Tc-MIBI), resultados preoperatorios y posoperatorios del calcio, fósforo y hormona paratiroidea (HPT) séricos, las complicaciones intraoperatorias o posoperatorias y la evolución clínica.

El primer paciente, masculino de 52 años e hipertenso, fue estudiado por dolores óseos que lo mantenían en cama la mayor parte del tiempo. Durante el estudio se encontró desmineralización ósea. El calcio sérico estaba en cifras de 3.27 mmol/L (valor normal 2.15-2.55), el fósforo en 0.72 mmol/L (valor normal 1.45-1.78 mmol/L) y la HPT en 305 pg/mmol (valor normal 15-65).

La gammagrafía con <sup>99m</sup>Tc demostró captación del radiofármaco, en la que se consideró se trataba de la glándula paratiroides inferior izquierda (*Figura 1A*). Tras el intento fallido de la exploración cervical fue remitido a nuestro equipo. En la revisión del estudio se concluyó que el adenoma tiroideo se localizaba en el mediastino superior y anterior. Se utilizó anestesia general mediante intubación orotraqueal. La reintervención comenzó mediante mediastinoscopia cervical, pero la glándula estaba muy cerca de la vena innominada y existía fibrosis significativa, secundaria a la exploración cervical previa. Ante la posibilidad de una lesión vascular y sangrado grave se realizó una manubriotomía que permitió detectar la glándula adenomatosa localizada en el timo. La resección transcurrió sin complicaciones (*Figura 1B*).

El hiperparatiroidismo (HPT) intraoperatorio disminuyó a 50% del valor inicial y la biopsia por congelación demostró que se trataba de un adenoma paratiroideo. La evolución posoperatoria inmediata fue satisfactoria sin complicaciones

locales o generales, aunque mantuvo síntomas durante algunos meses, pero con mejoría gradual. En el seguimiento a 48 meses el paciente recuperó su vida normal.

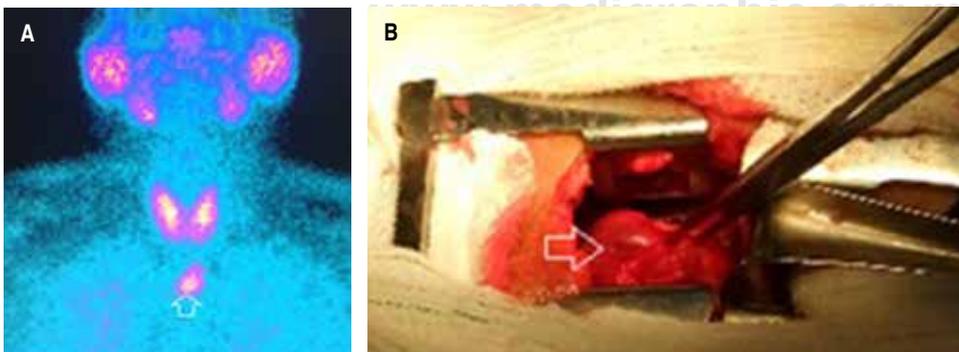
El segundo paciente, de 36 años de edad y sexo femenino, fue evaluado por litiasis renal recurrente. Durante el período de estudio se encontraron cifras de calcio 3.1 mmol/L, fósforo 0.65 mmol/L y de HPT de 407 mmol/L.

La ultrasonografía cervical fue negativa, pero la TAC de tórax demostró una lesión nodular, ovoidea en el mediastino posterior alto, a la derecha. La SPECT/TAC demostró que la lesión captaba el radiofármaco (<sup>99m</sup>Tc-MIBI). La anestesia general se practicó mediante un tubo de doble luz y colapso pulmonar derecho.

La operación comenzó con anestesia mediante intubación traqueal con tubo de doble luz y colapso del pulmón derecho, con diagnóstico de adenoma paratiroideo e hiperparatiroidismo, se realizó mediante cirugía torácica videoasistida (CTVA) en decúbito lateral izquierdo y tres puertos. La pleura que recubría el tumor fue seccionada con bisturí armónico. El vaso nutricio también fue seccionado por este método. El adenoma (*Figura 2*) se encontraba cercano a la cava superior de la cual se separó mediante disección roma. Hubo sangrado mínimo, alrededor de 60 mL. El tiempo quirúrgico fue de 51 minutos. No se produjeron accidentes. La biopsia por congelación informó un adenoma paratiroideo y la hormona paratiroidea (PTH, del inglés parathyroid hormone) posoperatoria inmediata cayó a 18.08 pg/mL. No presentó complicaciones posoperatorias. La sonda torácica se retiró a las 24 horas y la paciente fue dada de alta hospitalaria al cuarto día porque vive en una provincia alejada de la capital. Al cabo de 18 meses se mantenía asintomática.

## DISCUSIÓN

Es posible que las anomalías anatómicas de las glándulas paratiroides y sus adenomas sean más comunes que lo descrito en la literatura, e incluso que algunas no hayan sido descritas todavía. Estas variaciones anatómicas son factores de alto riesgo de sangrado torácico y lesión nerviosa.<sup>6</sup>



**Figura 1:**

**A)** Gammagrafía. La flecha indica el sitio del adenoma. **B)** El adenoma visto a través de la incisión transternal (flecha).



**Figura 2:** A y B) Se observa el tumor in situ. C) El tumor una vez extraído.

Los adenomas paratiroideos son la causa principal del HPTP y por lo tanto, su localización específica es de importancia capital para la decisión del acceso quirúrgico.<sup>11</sup> Sin embargo, debido a su embriología están predispuestos a localizaciones ectópicas a lo largo de la línea media del cuello y el esternón, desde el ángulo de la mandíbula hasta el mediastino como se explicó con anterioridad. Típicamente se detectan en el mediastino superior, dentro del timo y pueden ser resecados a través del cuello. Algo distinto son las glándulas ectópicas distales en el mediastino anterior o posterior, que representan un gran desafío para el cirujano.<sup>5</sup>

### Diagnóstico

Las glándulas paratiroides ectópicas pueden aparecer en una localización desafiante en la porción superior del mediastino posterior. Entre las técnicas diagnósticas para localizar las glándulas adenomatosas se encuentran: TAC, gammagrafía con <sup>99m</sup>Tc (MIBI) y tomografía por emisión de un fotón,<sup>9</sup> entre otras. A menudo se localizan en el mediastino anterior, en asociación con el timo y la glándula tiroides y constituyen una causa importante de hiperparatiroidismo persistente o recurrente.<sup>8</sup> En ocasiones pueden significar un acertijo diagnóstico y terapéutico.<sup>12</sup>

La evaluación imagenológica precisa para localizar un adenoma paratiroideo ectópico es una necesidad perentoria. Diferentes métodos imagenológicos tienen distintas ventajas y desventajas. Así, el US tiene dificultad para detectar lesiones retroesternales. Por otro lado, la sensibilidad de la RMN para lesiones de la porción superior del mediastino es de 82% y el de la gammagrafía con <sup>99m</sup>Tc (MIBI) de 88 a 100%. Los equipos imagenológicos híbridos pueden combinar la localización funcional y anatómica. Estos métodos incrementan la sensibilidad y proporcionan un diagnóstico más preciso. Así, es esencial el uso de varias técnicas imagenológicas para la orientación preoperatoria, sobre todo en casos de adenoma paratiroideo ectópico en el mediastino.<sup>13</sup> La PET/TAC con <sup>18</sup>F colina<sup>14</sup> también

produce resultado satisfactorio. Asimismo, la PET/TAC con <sup>11</sup>C-metionina<sup>15</sup> podría tener un valor significativo en el hiperparatiroidismo persistente.

La citología por aspiración transbronquial, con aguja guiada por ultrasonido (EBUS-TBNA, siglas inglesas de endobronchial ultrasound-transbronchial needle aspiration) facilita el diagnóstico de estas lesiones.<sup>16</sup>

Una de las preocupaciones de endocrinólogos y cirujanos es evitar sufrimientos y operaciones innecesarias a los pacientes con HPT. Este objetivo se logra mediante el estudio imagenológico acucioso antes de la exploración por adenomas paratiroideos.<sup>2</sup>

### Incidencia

El tejido paratiroideo ectópico en el mediastino se encuentra entre 6 y 16% de los pacientes con HPTP.<sup>17</sup> Lo más frecuente es que las glándulas inferiores ectópicas se localicen en el mediastino anterior, mientras que las superiores, por lo regular, asientan en el surco traqueoesofágico.<sup>16</sup>

### Tratamiento

La esternotomía y la toracotomía se han usado para resecar glándulas en localización mediastinal profunda o de gran volumen,<sup>17</sup> Martos-Martínez et al señalan que la vía cervical prevertebral, totalmente endoscópica es factible, segura, barata y menos agresiva que el acceso torácico para tratar adenomas paratiroideos del mediastino posterior. También han usado la mediastinoscopia videostistida,<sup>10</sup> la vía trans-cervical<sup>18</sup> y esternotomía media.<sup>8</sup>

En la actualidad, la CTVA es ampliamente utilizada por los cirujanos torácicos tanto para adenomas en mediastino anterior o posterior,<sup>12,19</sup> con robots<sup>9</sup> o sin robots.

En el primero de nuestros casos intentamos la resección mediante mediastinoscopia cervical, pero fue necesario realizar una esternotomía parcial debido a la fibrosis en el cuello y mediastino superior, secundaria a un intento fallido de extirpar el adenoma que producía el cuadro de HPTP.

La otra, localizada en el mediastino posterior se extirpó sin contratiempos mediante CTVA.

En la literatura reciente existe una cantidad significativa de informes de tratamiento quirúrgico mediante CTVA tanto en mediastino anterior como posterior.<sup>12</sup> En contraste con las vías de acceso tradicionales, la CTVA ofrece acceso y exposición excelentes del mediastino, con índices posoperatorios de complicaciones y morbilidad menores, estadía más corta e incisiones menores.<sup>20</sup>

Como pasos de avanzada se han publicado pacientes tratados en régimen ambulatorio;<sup>20</sup> y recientemente, la incisión única a través de acceso subxifoideo, sin participación de espacios intercostales, se considera un acceso útil debido a la baja frecuencia de dolor postoracotomía y a los resultados estéticos superiores, comparada con la toracotomía y la esternotomía media en el tratamiento quirúrgico de tumores mediastinales, incluido el adenoma paratiroideo.<sup>21</sup> No obstante, para algunos el acceso que se emplea con mayor frecuencia es la CTVA con puertos de entrada laterales en el tórax.

Por lo general, las complicaciones no son frecuentes. La hipercalcemia mantenida indica que la extirpación de las glándulas paratiroides no fue completa o, como en el primero de nuestros pacientes, no se encontró la glándula enferma. Un problema de importancia para el anestesiólogo es la hipocalcemia posoperatoria. Esta complicación se produce como consecuencia de la supresión previa del tejido paratiroideo normal por las glándulas hiperfuncionantes.<sup>22</sup> Asimismo, el laringoespasma con obstrucción puede complicar la hipocalcemia, a la vez que la hiperventilación produce disminución adicional del calcio ionizado y puede agravar los síntomas, mientras que la insuficiencia renal enmascara temporalmente la hipocalcemia.

## CONCLUSIONES

En resumen, la hipercalcemia mantenida tras el intento fallido de una paratiroidectomía puede asociarse a una glándula paratiroides localizada en el mediastino como ocurrió en el primero de nuestros pacientes. La CTVA ofrece acceso y exposición excelentes del mediastino con índices posoperatorios de complicaciones y morbilidad menores, estadía corta e incisiones pequeñas. La hipocalcemia posoperatoria puede representar un riesgo significativo, sobre todo en las primeras 24 a 48 horas. Hasta donde sabemos, el segundo paciente fue el primero operado mediante CTVA en el país.

## REFERENCIAS

- Roy M, Mazeh H, Chen H, Sippel RS. Incidence and localization of ectopic parathyroid adenomas in previously unexplored patients. *World J Surg.* 2013;37(1):102-106. <https://doi.org/10.1007/s00268-012-1773-z>
- Fatimi SH, Inam H, Chagan FK, Choudry UK. Management of mediastinal parathyroid adenoma via minimally invasive thoracoscopic surgery: Case report. *Int J Surg Case Rep.* 2017;40:120-123. <https://doi.org/10.1016/j.ijscr.2017.08.056>
- Chen M, Zhou WB, Xu JF, Sun K. Primary hyperparathyroidism caused by mediastinal ectopic parathyroid adenoma. *Hong Kong Med J.* 2017;23(4):411-413. <https://doi.org/10.12809/hkmj164957>
- Kim J, Cubangbang M, Adkins L, Chia S, DeKlotz TR, Boyle L, et al. Ectopic parathyroid adenoma in the pyriform sinus. *Head Neck.* 2017;39(10):E110-E113. <https://doi.org/10.1002/hed.24878>
- Grozavu C, Pantile D. Primary hyperparathyroidism through an ectopic parathyroid adenoma. *Chirurgia (Bucur).* 2016;111(2):156-160.
- Patrinos A, Zarokosta M, Piperos T, Tsiaoussis J, Noussios G, Mariolis-Sapsakos T. An anatomic aberration and a surgical challenge: mediastinal parathyroid adenoma anterior the pericardium. A case report. *Int J Surg Case Rep.* 2019;58(2):153-156. <https://doi.org/10.1016/j.ijscr.2019.04.005>
- Fuentes Valdés E, Escarpanter González JC, López Díaz A, Alfonso Trujillo Y, Infante Amorós A, Domínguez Álvarez CA, et al. Cirugía radioguiada para la extirpación de un quiste paratiroideo gigante con hiperparatiroidismo. *Rev Cubana Endocrinol.* 2009;20(1). Disponible en: [http://bvs.sld.cu/revistas/end/vol20\\_1\\_09/end05109.htm](http://bvs.sld.cu/revistas/end/vol20_1_09/end05109.htm)
- Sunny SA, Singh A, Adhikary AB. Ectopic parathyroid adenoma: surgical correction and its complication management. *Mymensingh Med J.* 2019;28(1):245-249.
- Mansour DE, Lee ME, D'Souza DM, Merritt RE, Kneuert P. Robotic resection of ectopic parathyroid glands in the superior posterior mediastinum. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 2019;29(5):677-680. Available from: <https://doi.org/10.1089/lap.2018.0548>.
- Martos-Martínez JM, Sacristán-Pérez C, Pérez-Andrés M, Durán-Muñoz-Cruzado VM, Pino-Díaz V, Padillo-Ruiz FJ. Prevertebral cervical approach: a pure endoscopic surgical technique for posterior mediastinum parathyroid adenomas. *Surg Endosc.* 2017;31(4):1930-1935. <https://doi.org/10.1007/s00464-016-5197-y>
- Padinhare-Keloth TNTK, Bhadada SK, Sood A, Kumar R, Behera A, Radotra BD, et al. Sensitive detection of a small parathyroid adenoma using fluorocholine PET/CT: a case report. *Nucl Med Mol Imaging.* 2017;51(2):186-189. <https://doi.org/10.1007/s13139-016-0450-9>
- Medbery RL, Winters A, Chen AY, Rogers TE, Force SD. VATS resection of large ectopic posterior mediastinal cystic parathyroid adenoma. *Ann Thorac Surg.* 2019;108(5):e301-e302. <https://doi.org/10.1016/j.athoracsur.2019.03.029>
- Liu X, Meng Z, Wang P, Jia Q. Comparative imaging of ectopic mediastinal parathyroid adenoma with magnetic resonance imaging and single photon emission computed tomography/computed tomography: advantages of multimodality imaging. *Korean J Intern Med.* 2020;35(4):1024-1025.
- Boccalatte LA, Abuawad CY, Smith DE, Figari MF. Adenoma paratiroideo mediastinal detectado por PET/TC con 18F colina. *Medicina (Buenos Aires).* 2018;78(5):382.
- Møller ML, Rejnmark L, Arveschoug AK, Højsgaard A, Rolighed L. Clinical value of 11C-methionine positron emission tomography in persistent primary hyperparathyroidism-A case report with a mediastinal parathyroid adenoma. *Int J Surg Case Rep.* 2018;45:63-66. <https://doi.org/10.1016/j.ijscr.2018.03.009>
- Buderi SI, Saleh HZ, Theologou T, Shackcloth M. Endobronchial ultrasound-guided biopsy to diagnose large posterior mediastinal parathyroid adenoma prior to video-assisted thoracoscopic resection.

- BMJ Case Rep. 2014;2014:bcr2013200131. <https://doi.org/10.1136/bcr-2013-200131>
17. Nakai K, Fujii H, Maeno K, Nishida K, Kobayashi A, Shin J, et al. A case of parathyroid adenoma adjacent to the thoracic spine in a hemodialysis patient. *Clin Nephrol*. 2014;81(1):52-57. <https://doi.org/10.5414/cn107533>
  18. Miller BJ, Isaacs K, Khan E, Palazzo FF. Transcervical excision of a giant mediastinal parathyroid adenoma. *BMJ Case Rep*. 2019;12(2):e228292. <https://doi.org/10.1136/bcr-2018-228292>
  19. Iihara M, Suzuki R, Kawamata A, Horiuchi K, Okamoto T. Thoracoscopic removal of mediastinal parathyroid lesions: selection of surgical approach and pitfalls of preoperative and intraoperative localization. *World J Surg*. 2012;36(6):1327-1334. <https://doi.org/10.1007/s00268-011-1404-0>
  20. Chae AW, Perricone A, Brumund KT, Bouvet M. Outpatient video-assisted thoracoscopic surgery (VATS) for ectopic mediastinal parathyroid adenoma: a case report and review of the literature. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*. 2008;18(3):383-390. <https://doi.org/10.1089/lap.2007.0124>
  21. Nagano H, Suda T, Ishizawa H, Negi T, Kawai H, Kawakami T, et al. Video-assisted thoracoscopic surgery for ectopic mediastinal parathyroid tumor: subxiphoid and lateral thoracic approach. *J Thorac Dis*. 2019;11(7):2932-2938. <https://doi.org/10.21037/jtd.2019.07.35>
  22. Wang X, Zhu YM, Huang H, Zhang LP, Zhang Y, Wang XL. Surgery for ectopic parathyroid adenoma in lower part of superior mediastinum through a transcervical incision. *Chin Med J (Engl)*. 2017;130(11):1376-1377. <https://doi.org/10.4103/0366-6999.206350>

**Conflicto de intereses:** Los autores declaran no tener conflicto de intereses.