

УДК 616.447-006.55-089.87

DOI: 10.34215/1609-1175-2023-2-73-76



# Хирургическое лечение первичного гиперпаратиреоза с эктопированной аденомой паращитовидной железы в средостение

П.В. Васильев<sup>1,2</sup>, М.М. Скоробогатов<sup>1</sup>, Б.З. Джафарова<sup>1,2</sup>, Н.Г. Семков<sup>1</sup>, Н.В. Климович<sup>1</sup><sup>1</sup> Окружная клиническая больница, Ханты-Мансийск, Россия<sup>2</sup> Ханты-Мансийская государственная медицинская академия, Ханты-Мансийск, Россия

Представлен редкий клинический случай ведения пациентки 36 лет с первичным гиперпаратиреозом (ПГПТ) и эктопированной аденомой паращитовидной железы (ПЩЖ) в средостение. Эктопированная аденома ПЩЖ в средостение встречается в 1–2% случаев. Это крайне редкая атипичная локализация по сравнению с множеством других возможных неклассических вариантов расположения. Выполнено торакоскопическое удаление аденомы. По результатам патогистологического исследования, полученного после операции материала, предварительный диагноз был подтвержден. В препарате обнаружена аденома ПЩЖ без атипии. Пациентка выписана на седьмой день после хирургического лечения в удовлетворительном состоянии.

**Ключевые слова:** эктопированная аденома паращитовидной железы, первичный гиперпаратиреоз, паратиреоидный гормон, видеоассистированная торакоскопическая хирургия

Поступила в редакцию: 25.01.23. Получена после доработки: 01.02.23, 04.02.23, 06.02.23. Принята к публикации: 18.02.23

**Для цитирования:** Васильев П.В., Скоробогатов М.М., Джафарова Б.З., Семков Н.Г., Климович Н.В. Хирургическое лечение первичного гиперпаратиреоза с эктопированной аденомой паращитовидной железы в средостение. *Тихоокеанский медицинский журнал*. 2023;2:73–76. doi: 10.34215/1609-1175-2023-2-73-76

**Для корреспонденции:** Джафарова Бахалы Зульфигаровна – ассистент кафедры анатомии человека с курсом оперативной хирургии и топографической анатомии, врач-хирург Окружной клинической больницы (628012, г. Ханты-Мансийск, ул. Калинина, 40); ORCID: 0000-0003-4554-1591; тел.: +7 (922) 423-79-44; e-mail: bz.dzhafarova@hmgma.ru

## Surgical treatment of primary hyperparathyroidism with ectopic parathyroid adenoma in the mediastinum

P.V. Vasiliev<sup>1,2</sup>, M.M. Skorobogatov<sup>1</sup>, B.Z. Dzhafarova<sup>1,2</sup>, N.G. Semkov<sup>1</sup>, N.V. Klimovich<sup>1</sup><sup>1</sup> District Clinical Hospital, Khanty-Mansiysk, Russia; <sup>2</sup> Khanty-Mansiysk State Medical Academy, Khanty-Mansiysk, Russia

The paper presents a rare clinical case of a 36-year-old female patient with primary hyperparathyroidism (PHPT) and an ectopic parathyroid adenoma (EPA) in the mediastinum. Ectopic parathyroid adenoma in the mediastinum is found in 1–2% of cases. This is an extremely rare atypical localization as compared with many other possible uncommon locations. Thoracoscopic resection of the adenoma was performed. Pathohistological examination of the postoperative specimen confirmed the preliminary diagnosis. The specimen revealed typical parathyroid adenoma. On the seventh day after surgical treatment the patient was discharged in satisfactory condition.

**Keywords:** ectopic parathyroid adenoma, primary hyperparathyroidism, parathyroid hormone, video-assisted thoracoscopic surgery

Received 25 January 2023; Revised 1, 4, 6 February 2023; Accepted 18 February 2023

**For citation:** Vasiliev P.V., Skorobogatov M.M., Dzhafarova B.Z., Semkov N.G., Klimovich N.V. Surgical treatment of primary hyperparathyroidism with ectopic parathyroid adenoma in the mediastinum. *Pacific Medical Journal*. 2023;2:73–76. doi: 10.34215/1609-1175-2023-2-73-76

**For corresponding:** Bakhaly Z. Dzhafarova, assistant professor, Department of Human anatomy, operative surgery and gross anatomy; surgeon of District Clinical Hospital (40 Kalinina str., Khanty-Mansiysk, 628012, Russia). ORCID: 0000-0003-4554-1591; phone: +7 (922) 4237944; e-mail: bz.dzhafarova@hmgma.ru

Регуляция обмена кальция и фосфора в организме человека осуществляется паратиреоидным гормоном, который синтезируется паращитовидными железами (ПЩЖ). Открытие этого простого и, казалось бы, очевидного научного факта произошло сравнительно недавно. А лишь в начале XX века наступила эра изучения и понимания клинической значимости патологии ПЩЖ. Впервые взаимосвязь между патологически увеличенными ПЩЖ и поражением костей обнаружил венский патологоанатом Джейкоб Эрдгейм у умирающей от костной болезни пациентки в 1907 году [1].

Основными проявлениями манифестной формы ПГПТ являются симптомы висцеральных и костных нарушений. Чаще всего происходит поражение опорно-двигательного аппарата (остеопороз, переломы и деформации костей), желудочно-кишечного тракта (панкреатиты, дефекты слизистой оболочки желудка и двенадцатиперстной кишки) и патологии почек (нефролитиаз, нарушение фильтрационной функции почек).

До 70-х годов XX столетия первичный гиперпаратиреоз (ПГПТ) входил в список орфанных заболеваний.

Однако после включения кальция в стандартное биохимическое исследование крови данная патология вышла из этой категории [1]. В настоящее время ПГПТ признан одной из часто встречаемых эндокринопатий, занимающей третье место по распространенности, уступающей лишь сахарному диабету и заболеваниям щитовидной железы (ЩЖ) [2, 3]. Результаты эпидемиологических исследований демонстрируют, что наиболее часто ПГПТ встречается в возрасте 40–60 лет, у женщин – в 3 раза чаще, чем у мужчин [4]. В общей популяции распространенность ПГПТ составляет 0,1–1%, в популяции лиц старше 55 лет – 2–3% [5, 6].

Наиболее частой причиной ПГПТ является наличие аденомы ПЩЖ (80–85%), которые в типичных случаях располагаются на шее, и чаще всего поражаются нижние пары желез [1]. Однако в 20–25% случаев встречаются эктопированные аденомы ПЩЖ. В таких случаях топическая диагностика значительно усложняется [1, 7]. Наличие аномально расположенных ПЩЖ связано с нарушениями процессов эмбриогенеза. Формирование и миграция ПЩЖ определяются многочисленными генами, мутация которых может привести, в частности, к эктопии [1]. При этом часто встречается эктопия в паренхиму тимуса, так как развитие этих органов тесно взаимосвязано. Достаточно редко эктопированная ПЩЖ встречается в средостении (1–2%).

#### Клинический случай

Пациентка Х., 36 лет, поступила в хирургическое отделение Окружной клинической больницы г. Ханты-Мансийска 14.02.2022 с жалобами на общую слабость, периодическое повышение артериального давления (АД), максимально до 200 и 100 мм рт. ст., умеренные боли в суставах. Из анамнеза заболевания известно, что периодическое повышение АД и общая слабость появились в 2020 году. На плановом осмотре у стоматолога после выполнения ортопантомографии в октябре 2021 года впервые были выявлены признаки остеопороза нижней челюсти. Пациентка была направлена на дообследование к эндокринологу.

Данные объективного обследования: общее состояние пациентки удовлетворительное. Рост 163 см. Вес 71 кг. Индекс

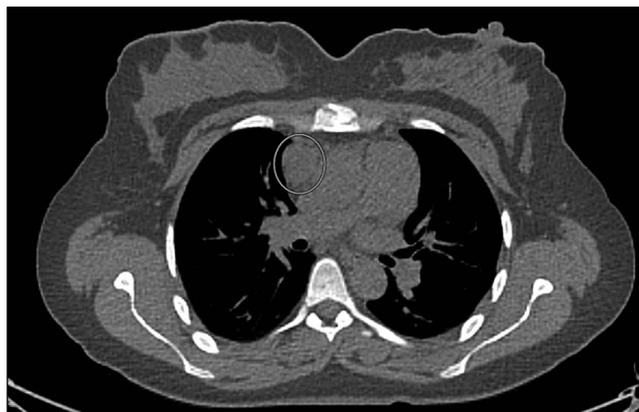


Рис 1. ПЭТ/КТ грудной клетки. Кругом отмечена аденома ПЩЖ переднего средостения.

массы тела = 26,7 кг/м<sup>2</sup>. Стрий, избыточного роста волос не выявлено. Тремор пальцев рук отсутствует. Кожный покров бледно-розовой окраски, чистый, нормальной влажности и эластичности. Тургор тканей удовлетворительный. Периферические отеки отсутствуют. Подкожно-жировая клетчатка избыточно развита, распределена равномерно. При аускультации дыхание в легких везикулярное, над всей поверхностью легких. Хрипы не выслушиваются. Число дыхательных движений в минуту – 16. Тоны сердца приглушены, ритм правильный. Сердечные шумы отсутствуют. ЧСС = 78 ударов в минуту. АД 125 и 90 мм рт. ст. Щитовидная железа визуально не определяется, при пальпации не увеличена, безболезненная, мягко-эластичной консистенции, подвижная, поверхность гладкая, неоднородная. Стул с частыми запорами. Мочепускание нормальное. Моча соломенно-желтого цвета, прозрачная.

По данным анализов крови выявлено повышение уровня паратиреоидного гормона до 483,6 пг/мл, повышение содержания ионизированного кальция до 1,65 ммоль/л, снижение уровня витамина D до 11,83 нг/мл и фосфора до 0,68 ммоль/л.

По результатам ультразвукового исследования (УЗИ) щитовидной железы от 18.12.2021 была выявлена киста правой доли. Паращитовидные железы без патологических изменений.

Наиболее информативным инструментальным методом диагностики при ПГПТ является скинтиграфия. Пациентке была проведена скинтиграфия паращитовидных желез от 20.12.2021, в результате которой достоверных скинтиграфических данных за патологическое накопление радиофармпрепарата (РФП), характерное для аденом и гиперплазии паращитовидных желез, выявлено не было.

С целью исключения диффузного остеопороза было выполнено стандартное исследование состояния осевого скелета. По результатам рентгеноденситометрии поясничного отдела позвоночного столба и проксимального отдела бедренной кости основные показатели находились в пределах нормы.

По данным лабораторных исследований у пациентки был выявлен первичный гиперпаратиреоз, при более чем трехкратном исследовании уровня ионизированного кальция (19.11.21 – 1,65 ммоль/л; 04.12.21 – 1,5 ммоль/л; 29.12.21 – 1,6 ммоль/л) и повышение ПТГ (3.12.21 – 348,7 пг/мл; 13.01.21 – 483,6 пг/мл). Учитывая отсутствие гормонально активной опухоли ПЩЖ в типичном месте, с целью определения ее локализации пациентке была назначена позитронно-эмиссионная томография (ПЭТ), совмещенная с компьютерной томографией (КТ) с туморотропными РФП (<sup>11</sup>С-метионин) грудной клетки. По результатам исследования было выявлено, что в мягких тканях шеи очагов патологической метаболической активности F-фтордезоксиглюкозы (ФДГ) и образований не визуализируется. В переднем средостении справа, на уровне правого желудочка, определяется тканевое образование однородной плотности, размерами 45 x 22 мм с патологической метаболической активностью РФП SUVmax 3.4. Таким образом, ПЭТ/КТ картина выявила образование переднего средостения с патологической метаболической активностью (аденома паращитовидной железы, aberrantное расположение) (рис. 1).

Учитывая наличие гормонально активного очага (предположительно аденомы) в переднем средостении, неуклонное повышение уровня паратиреоидного гормона, был установлен предварительный диагноз: Первичный гиперпаратиреоз,

гиперкальциемия легкой степени тяжести. Эктопированная аденома паращитовидной железы в средостение. В данной ситуации показано оперативное лечение – видеоторакоскопия справа, торакоскопическое удаление аденомы переднего средостения. Согласие пациента на хирургическое лечение было получено.

**Описание операции:** после обработки кожи грудной клетки йодопираном под общим наркозом в 8-м межреберье справа по средне-подмышечной линии установлен торакопорт 10 мм, наложен пневмоторакс. При ревизии в правой плевральной полости выпота нет, паренхима легкого без очаговой патологии, в переднем средостении на верхней полой вене определяется опухоль 4 см (рис. 2, 3).

Мобилизация опухоли аппаратом LigaSure, диафрагмальный нерв сохранен, отведен в сторону, питающая ножка пересечена аппаратом LigaSure от внутренней грудной артерии (рис. 4). Удален препарат в контейнере. Дренажи установлены к верхушке легкого и в реберно-диафрагмальный синус, переведены в систему Бюлау. Фиксированы швами. Раны ушиты послойно. Наложены асептические повязки.

По результатам патогистологического исследования материала предварительный диагноз был подтвержден. В препарате обнаружена аденома ПЩЖ без атипии.

Пациентка после удаления дренажей из плевральной полости, послеоперационного рентгенологического контроля органов грудной клетки выписана в удовлетворительном состоянии.

Данный рассмотренный клинический случай является редким не только потому, что у пациентки был выявлен ПППТ вследствие ectopированной аденомы ПЩЖ в средостение, его уникальность определяется еще и тем, что ПППТ встречается у женщины репродуктивного возраста. Большинство пациентов (79%) с ПППТ – это женщины в постменопаузе с развитием заболевания в первое десятилетие после менопаузы, средний возраст которых составляет  $59 \pm 8,2$  года [8]. Наличие у пациентки достаточно редко встречающейся патологии усложняло дифференциальную диагностику. Также стоит добавить, что жалоба в виде артериальной гипертензии не является характерным клиническим проявлением ПППТ по утверждению в консенсусе эндокринологов в 2014 году.

После хирургического лечения аденомы ПЩЖ пациентка наблюдалась у эндокринолога и хирурга амбулаторно. По данным анализов крови через два месяца после оперативного

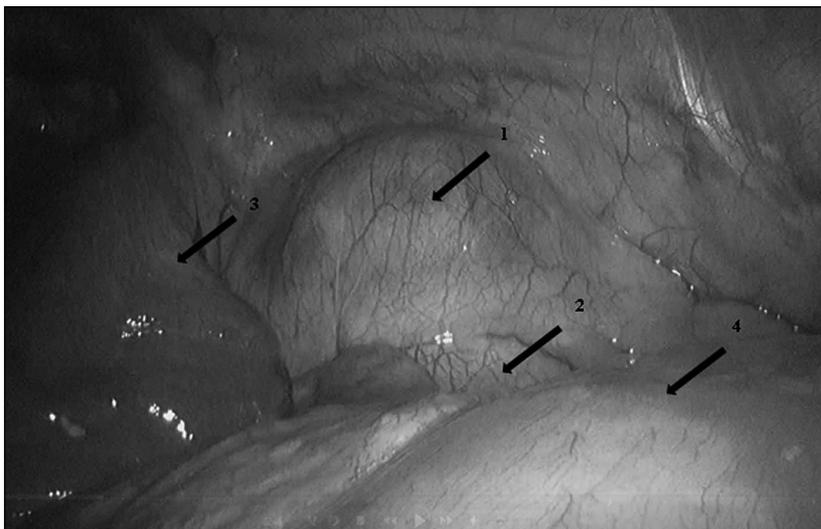


Рис. 2. Видеоторакоскопия справа. Стрелкой 1 обозначена ectopированная аденома ПЩЖ, стрелкой 2 – правое предсердие, стрелкой 3 – паренхима легкого, стрелкой 4 – диафрагма.

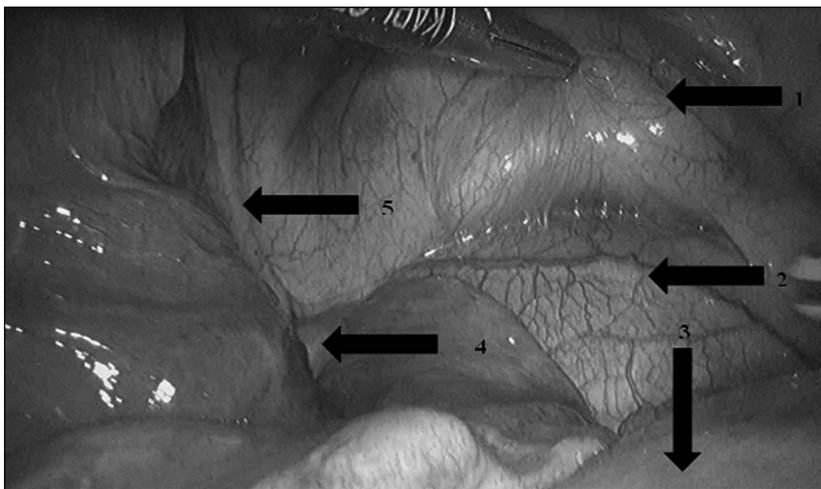


Рис. 3. Видеоторакоскопия справа. Стрелкой 1 отмечена ectopированная аденома ПЩЖ, стрелкой 2 – правое предсердие, стрелкой 3 – диафрагма, стрелкой 4 – ткань легкого, стрелкой 5 – диафрагмальный нерв.



Рис. 4. Видеоторакоскопия справа. Стрелкой 1 обозначены внутренняя грудная артерия и вена, стрелкой 2 – ложе удаленной ectopированной аденомы ПЩЖ.

лечения у пациентки выявлена нормализация ранее патологически измененных показателей, улучшение самочувствия, а также снижение артериального давления до уровня нормальных значений. Снижен также уровень ПТГ до 115,7 пг/мл, нормализованы уровень ионизированного кальция (1,13 ммоль/л), витамина D (47,7 нг/мл) и фосфора (0,8 ммоль/л).

#### Заключение

За последние десятилетия отмечается увеличение ПГПТ за счет совершенствования методов диагностики. Включение в биохимический анализ определения кальция в Европе, Азии и Северной Америке, в последующем и в России позволило врачам выявлять даже бессимптомные формы этого заболевания. Единственное радикальное и эффективное лечение ПГПТ остается хирургическое. В 80–85 % случаев причиной ПГПТ является аденома ПЩЖ. Эктопированная аденома ПЩЖ в средостение встречается в 1–2% случаев. Это крайне редко встречающаяся атипичная локализация по сравнению с множеством других возможных неклассических вариантов расположения.

Таким образом, практикующим врачам необходимо помнить о существовании ectopированной аденомы паращитовидной железы, чтобы уменьшить частоту ошибок при дифференциальной диагностике, а главное, своевременно оказать пациенту медицинскую помощь.

**Конфликт интересов:** авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

**Источник финансирования:** авторы заявляют о финансировании проведенного исследования из собственных средств.

#### Участие авторов:

Концепция и дизайн исследования – ВПВ, ДБЗ

Сбор и обработка материалов – ВПВ, СММ, СНГ, КНВ

Написание текста – ВПВ, ДБЗ

Редактирование – ВПВ

#### Литература / References

1. Мокрышева Н.Г., Крупинова Ю.А., Воронкова И.А. Околощитовидные железы: нормальное развитие, анатомическое и гистологическое строение. *Эндокринная хирургия*. 2018;12(4):178–87. [Mokrysheva NG, Krupinova YuA, Voronkova IA. Parathyroid glands: the normal development, anatomy and histological structure. *Endocrine Surgery*. 2018;12(4):178–87 (In Russ.)]. doi: 10.14341/serg10039
2. Дедов И.И., Васильева Т.О., Рожинская Л.Я., Мокрышева Н.Г. Эпидемиология первичного гиперпаратиреоза. *Проблемы эндокринологии*. 2010;56(5):3–7. [Dedov II, Vasilieva TO, Rozhinskaya LYa, Mokrysheva NG. Epidemiology of primary hyperparathyroidism. *Problems of Endocrinology*. 2010;56 (5):3–7 (In Russ.)].
3. Дедов И.И., Мельниченко Г.А., Мокрышева Н.Г., Рожинская Л.Я., Кузнецов Н.С., Пигарова Е.А., Еремкина А.К., Егшатын Л.В., Мамедова Е.О., Крупинова Ю.А. Первичный гиперпаратиреоз: клиника, диагностика, дифференциальная диагностика, методы лечения. *Проблемы Эндокринологии*. 2016;62(6):40–77. [Dedov II, Melnichenko GA, Mokrysheva NG, Rozhinskaya LY, Kusnezov NS, Pigarova EA, Eremkina AK, Egshatyan LV, Mamedova EO, Krupinova YA. Primary hyperparathyroidism: the clinical picture, diagnostics, differential diagnostics and methods of treatment. *Problems of Endocrinology*. 2016;62(6):40–77 (In Russ.)]. doi: 10.14341/probl201662640-77
4. Levine DS, Wiseman SM. Fusion imaging for parathyroid localization in primary hyperparathyroidism. *J Expert Rev. Anticancer Ther*. 2010; 10(3):353–63. doi: 10.1586/era.10.11
5. Калинин А.П., Майстренко Н.А., Ветшев П.С. Хирургическая эндокринология: руководство. СПб: Пульс. 2004, 960 с. [Kalinin AP, Majstrenko NA, Vetshev PS. Surgical endocrinology: guideline. SPb: Piter, 2004, 960 p. (In Russ.)].
6. Дедов И.И., Рожинская Л.Я., Мокрышева Н.Г., Васильева Т.О. Этиология, патогенез, клиническая картина и лечение первичного гиперпаратиреоза. *Остеопороз и остеопатии*. 2010; 1:13–8 [Dedov II, Rozhinskaya LYa, Mokrysheva NG, Vasilieva TO. Etiology, pathogenesis, disease patterns and treatment of primary hyperparathyroidism. *Osteoporosis and Osteopathy*. 2010;1:13–8 (In Russ.)].
7. Issoufou I, Belliraj L, Rabiou S, Ghalimi J, Rchachi M, Lakranbi M, Ajdi F, Ouadnouni Y, Smahi M. Intrathymic parathyroid adenoma. *J Case reports in Clinical Medicine*. 2015;4(8):297–301. doi: 10.4236/crcm.2015.48059
8. Мокрышева Н.Г., Мирная С.С., Добрева Е.А., Маганева И.С., Ковалева Е.В., Крупинова Ю.А., Крюкова И.В., Тевосян Л.Х., Лукьянов С.В., Маркина Н.В., Бондарь И.А., Подпругина Н.Г., Игнатьева И.А., Шабельникова О.Ю., Древал А.В., Анциферов М.Б., Мельниченко Г.А., Дедов И.И. Первичный гиперпаратиреоз в России по данным регистра. *Проблемы Эндокринологии*. 2019;65(5): 300–10. [Mokrysheva NG, Mirnaya SS, Dobreva EA, Maganeva IS, Kovaleva EV, Krupinova YA, Kryukova IV, Tevosyan LK, Lukyanov SV, Markina NV, Bondar IA, Podprugina NG, Ignatieva IA, Shabelnikova OYu, Dreval AV, Antsiferov MB, Melnichenko GA, Dedov II Primary hyperparathyroidism in Russia according to the registry. *Problems of Endocrinology*. 2019;65(5):300–10 (In Russ.)]. doi: org/10.14341/probl10126