

De la hiperplazia limfoidă benignă a bazei limbii la hipotiroidism iatrogenic și osteoporoză severă de menopauză

From benign lymphoid hyperplasia of the tongue base to iatrogenic hypothyroidism and severe menopausal osteoporosis

Cristina Vasiliu¹,
Mara Cârșote²,
Ana Valea³,
Simona Elena Albu¹,
Corina Grigoriu¹,
Adina Ghemigian²

1. Departamentul de Ginecologie, Universitatea de Medicină și Farmacie „C. Davila”, Spitalul Universitar de Urgență, București, România
2. Departamentul de Endocrinologie, Universitatea de Medicină și Farmacie „C. Davila”, Institutul Național de Endocrinologie „C.I. Parhon”, București, România
3. Departamentul de Endocrinologie, Universitatea de Medicină și Farmacie „J. Hatieganu”, Spitalul Județean, Cluj-Napoca, România

Correspondență:
Mara Cârșote
e-mail: carsote_m@hotmail.com

Abstract

Introduction. The histological aspects described in benign lymphoid hyperplasia (BLH) are rarely found at the level of head and neck. The prognosis is usually good but, for oncologic safety, the differential diagnosis with a lymphoma needs to be established. For the cases with lingual sites, the breathing or eating difficulties may be similar with those from thyroid conditions. **Aim.** We introduce a clinical case with symptoms potentially caused by a polinodular goiter but who was also diagnosed with a lingual tumor and other multiple comorbidities which are potentially pathogenic correlated. **Material and methods.** The gynecological and endocrine assessments are described. **Results.** A 69-year-old female accused dysphagia and dyspnea at the age of 53. The endocrine assays revealed at that moment an enlargement of thyroid volume which was partially consistent with the symptoms. These investigations were fulfilled with otolaryngology evaluation which pointed a tumor of the tongue base. The biopsy confirmed BLH. The goiter was periodically checked-up and 8 years later she developed hyperthyroidism. Initially, she was treated with thiamazole followed by total thyroidectomy and later on thyroid substitution with levothyroxine which was offered to her. Four years later, she suffered a low-trauma fracture at the level of left distal radius caused by osteoporosis, as confirmed by central DXA. In order to treat this, intravenous therapy with anti-resorbative (ibandronate) was started once every 3 months (in association with vitamin D and calcium supplements). The therapy was continued for four more years without new fractures and with an improvement at DXA scores. **Conclusion.** BLH of the tongue is exceptional and needs to be differentiated from thyroid pathology due to accuses. The menopausal context may associate osteoporosis which is potentially related to BLH or to the therapy of iatrogenic hypothyroidism. **Keywords:** benign lymphoid hyperplasia, goiter, hypothyroidism, menopausal osteoporosis

Rezumat

Introducere. Aspectele anatomopatologice descrise în hiperplazia limfoidă benignă (HLB) sunt rar decelate la nivelul capului și al gâtului. Prognosticul este de regulă bun, dar pentru siguranța oncologică este necesar diagnosticul diferențial cu limfomul. Pentru situațiile cu localizare linguală, tulburările de respirație sau alimentare pot fi similare celor din afectarea tiroidiană. **Obiectiv.** Să prezentăm un caz clinic cu simptome potențial cauzate de o gușă polinodulară, dar care a fost apoi diagnosticat cu o tumoră linguală și multiple alte comorbidități potențial corelate fiziopatogenic. **Material și metodă.** Sunt expuse evaluările ginecologice și endocrine. **Rezultate.** Pacienta în vârstă de 69 de ani a acuzat disfație și dispnee de la 53 de ani. Examenul endocrin a decelat la acel moment o tiroidă mărită de volum, parțial superpozabilă cu simptomele. Investigațiile au fost completate cu examenul otorinolaringologic, ce a reliefat o tumoră de bază de limbă. Biopsia a confirmat HLB. Gușa a fost controlată periodic, iar după 8 ani s-a complicat cu hipertiroidism. Tratamentul inițial cu tiamazol a fost urmat de tiroidectomie și substituție ulterioară cu levotiroxină. Patru ani mai târziu, pacienta a suferit o fractură de traumatism minim la nivelul radiusului distal stâng, în context de osteoporoză, așa cum a confirmat și DXA central. Pentru aceasta, s-a inițiat antiresorbativ injectabil de tip ibandronat o dată la trei luni (asociat cu suplimentarea vitaminei D și a calciului). Terapia a fost continuată pentru încă patru ani, fără a se înregistra noi fracturi, iar DXA a arătat o ameliorare. **Concluzie.** HLB a limbii este excepțională și necesită diferențierea cu patologia tiroidiană, având în vedere acuzele. Contextul menopausal poate asocia osteoporoză, potențial legată de HLB sau de terapia hipotiroidismului iatrogenic. **Cuvinte-cheie:** hiperplazie limfoidă benignă, gușă, hipotiroidism, osteoporoză de menopauză

Introducere

Hiperplazia limfoidă benignă (HLB) este o entitate rară, la extremitatea superioară a corpului, precum baza limbii (Sands și Newfik, 2011). Formele severe pot induce tulburări respiratorii precum cele cauzate de fenomenele similare tonsilare sau de dispneea obstructivă de cauză tiroidiană (Carnelio și Rodrigues, 2005). Leziunile linguale bogate în țesut limfoid întâlnite la femeile în menopauză trebuie diferențiate între ele, de la aspectele maligne, precum limfoamele primare, la benigne, precum pseudolimfoamele (care nu necesită intervenție agresivă), ale căror morfotipuri includ trăsături comune cu hiperplazia limfoidă sau angioliomfoidă, granulomul histiocitic atipic, granulomul ulcerativ (de Vicente Rodriguez și col., 1991; Kabani și col., 1988; del Río și col., 1997). Tiroida ectopică se poate prezenta ocazional la baza limbii, având în vedere traiectul de migrare intraembrionară (Santangelo și col., 2015; Kumar și col., 2015; Cappelli și col., 2006). Cazuri clinice foarte rare pot asocia fenomene obstructive respiratorii care să aibă o cauză duală: tumora linguală, respectiv gușa polinodulară (Ulug și col., 2003; Kim și col., 2015). Decizia de intervenție majoră este ghidată de severitatea simptomelor și de rezultatele de la biopsie (Voyagis și col., 1995).

Obiectiv

Ne propunem să prezentăm un caz internat pentru simptome potențial cauzate de o gușă polinodulară, ulterior diagnosticat cu o tumoră linguală. Pe parcursul monitorizării anuale, dimensiunile tumorii de limbă nu s-au modificat, în timp ce gușa a devenit toxică, necesitând intervenție radicală. Pe parcursul anilor de substituție tiroidiană s-a adăugat diagnosticul de osteoporoză severă.

Material și metodă

Acesta este un studiu de caz ce include testele ginecologice și endocrine precum cele legate de funcția tiroidiană sau capitalul osos, inclusiv prin utilizarea Absorptiometriei Duale cu raze X (DXA) central care furnizează scorul T (exprimat în deviații standard sau DS) pe baza densității minerale osoase (DMO). Consimțământul informat scris a fost obținut de la pacientă în 2016.

Rezultate

Pacienta, de 69 de ani, a acuzat disfație și dispnee intermitente, fără un pattern specific, de la vârsta de 53 de ani. A intrat la menopauză spontan, de la 45 de ani, fără terapie de substituție hormonală. Inițial, acuzele au fost considerate într-un context mai amplu de tulburări vasomotorii de menopauză, dar s-a recomandat și un bilanț endocrin. Examenul tiroidian a relevat gușă polinodulară, care nu explica deplin simptomele. Funcția tiroidiană a fost normală, fără autoimunitate. S-a recomandat completarea investigațiilor, cu evaluarea otorinolaringologică, confirmând o tumoră bazală linguală. S-a practicat biopsie, cu confirmarea aspectelor benigne de tip HLB.

Atât tumora linguală, cât și tiroidomegalia au fost evaluate imagistic și dozimetric (pentru partea de endocrinologie) timp de câțiva ani. După aproximativ 8 ani, pacienta a dezvoltat hipertiroidism primar (gușă polinodulară toxică). După terapia inițială cu tiamazol, pentru echilibrarea funcției tiroidiene, s-a practicat tiroidectomie totală.

Examenul histopatologic a relevat aspecte foliculare benigne. Hipotiroidismul iatrogen a necesitat substituție cu levotiroxină zilnică. TSH (hormonul tireostimulant) s-a menținut în parametri normali, iar fenomenele obstructive au fost diminuate considerabil, dar 4 ani mai târziu pacienta a suferit o fractură de fragilitate la antebrațul stâng (cădere la traumatism minim), confirmând osteoporoza de menopauză. DXA lombar (L2-4) a arătat DMO de 0,869 g/cm², scor T de -2,5 DS, scor Z de -1,2 DS, DMO la nivelul colului femural de 0,69 g/cm², scor T de -2,7 DS, scor Z de -1,3 DS, DMO la nivelul șoldului total de 0,669 g/cm², scor T de -2,7 DS, scor Z de -1,3 DS, DMO la nivelul treimii distale a radiusului de pe partea non-dominantă de 0,491 g/cm², scor T de -3,1 DS, scor Z de -1,4 DS (figura 1). Pe lângă substituția tiroidiană și evaluarea otorinolaringologică, s-a recomandat antiresorbtiv de tip ibandronat intravenos (3 mg/3 ml), care a fost administrat la fiecare trei luni (asociat cu suplimente zilnice de vitamina D și calciu).

Pe parcursul următorilor 4 ani, evoluția a fost bună, fără noi fracturi de traumatism minim, iar DXA a arătat o ameliorare: DMO L1-4 de 0,89 g/cm², scor T de -2,3 DS, scor Z de -1,3 DS, DMO la nivelul colului de 0,717

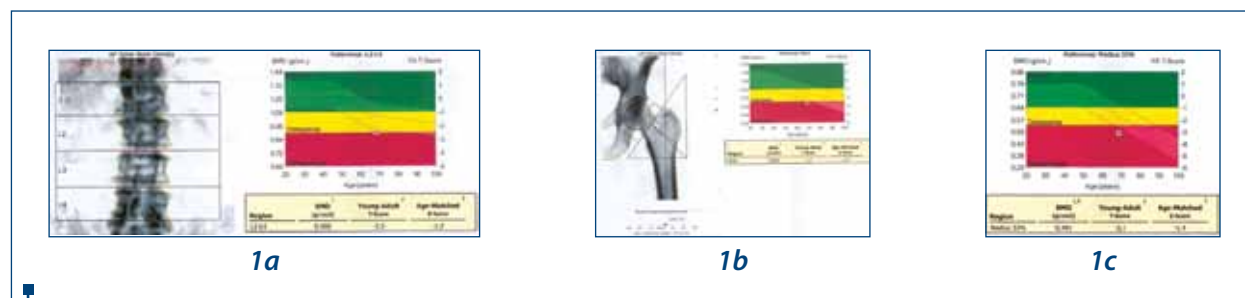


Figura 1. Examenul DXA central, care arată scor de osteoporoză la o pacientă cu hipotiroidism iatrogen în tratament și hiperplazie limfoidă benignă la nivelul bazei limbii; 1a. DXA lombar L2-4; 1b. DXA la nivelul colului femural; 1c. DXA la nivelul șoldului total

g/cm², scor T de -2,3 DS, scor Z de -1,3 DS. Bilanțul imagistic și dozimetric periodic a fost recomandat mai departe.

Discuții

Acest caz este important pentru trei aspecte majore, care îmbină mai multe specialități: ginecologie, endocrinologie, otorinolaringologie, imagistică.

Primul punct este prezența unei tumori linguale în spatele căreia se află un diagnostic rar, de tip hiperplazie benignă limfoidă.

Opțiunile terapeutice sunt relativ limitate (precum termoterapia cu radiofrecvență), dar pentru cazurile cu fenomene obstructive de mică anvergură terapia este conservativă (Nicoli și col., 2015; den Herder C și col., 2006; Adkins și col., 1973). Pentru cazul de față, opțiunea conservativă aleasă s-a dovedit utilă, pentru că dimensiunile masei linguale nu s-au modificat consistent de-a lungul timpului.

Al doilea aspect este asocierea dintre HPB și gușa polinodulară ca patologie concurentă pentru fenomenele obstructive; din punct de vedere endocrin, prezența unei tumori la baza limbii necesită evaluarea posibilității de tiroidă linguală (care, având în vedere

biopsia efectuată, la această pacientă a fost exclusă) (Reed și Grant, 2014).

A treia observație se referă la asocierea dintre hipotiroidismul tratat și osteoporoza de menopauză (dacă este incidentală sau nu). Date moderne ne arată că, propriu-zis, hipotiroidismul netratat nu este cauză de pierdere de masă osoasă, dar posibilitatea supradozării levotiroxinei, chiar și pe scurte perioade de timp, poate cauza status hiperresorbtiv osos (Abrahamsen și col., 2015; Abrahamsen și col., 2014; Leader și col., 2014).

Concluzie

HLB a limbii este excepțională și necesită diferențierea cu patologia tiroidiană, având în vedere acuzele. Contextul menopauzal poate asocia osteoporoza, potențial legată de HLB sau de terapia hipotiroidismului iatrogenic. ■

Conflict de interese: autorii nu au nici un conflict de interese de declarat.

Mulțumiri: Mulțumim echipei interdisciplinare de medici care au urmărit pacienta în diverse centre medicale din România. De asemenea, mulțumim pacienței.

Bibliografie

- Sands NB, Tewfik M (2011). Benign lymphoid hyperplasia of the tongue base causing upper airway obstruction. Case Rep Otolaryngol, 625185. doi: 10.1155/2011/625185.
- Carnelio S, Rodrigues G (2005). Benign lymphoid hyperplasia of the tongue masquerading as carcinoma: case report and literature review. J Contemp Dent Pract, 6(3):111-9.
- de Vicente Rodriguez JC, Santos Oller JM, Junquera Gutierrez LM, López Arranz JS (1991). Atypical histiocytic granuloma of the tongue: case report. Br J Oral Maxillofac Surg, 29(5):350-2.
- Kabani S, Cataldo E, Folkerth R, Delellis RA, Bhan I, Farren P, Neville T (1988). Atypical lymphohistiocytic infiltrate (pseudolymphoma) of the oral cavity. Oral Surg Oral Med Oral Pathol, 66(5):587-92.
- del Río E, Sánchez Yus E, Requena L, García Puente L, Vázquez Veiga H (1997). Oral pseudolymphoma: a report of two cases. J Cutan Pathol, 24(1):51-5.
- Santangelo G, Pellino G, De Falco N, Colella G, D'Amato S, Maglione MG, De Luca R, Canonico S, De Falco M (2015). Prevalence, diagnosis and management of ectopic thyroid glands. Int J Surg. pii: S1743-9191(15)01428-4. doi: 10.1016/j.ijsu.2015.12.043.
- Kumar LK, Kurien NM, Jacob MM, Menon PV, Khamal SA (2015). Lingual thyroid. Ann Maxillofac Surg, 5(1):104-7. doi: 10.4103/2231-0746.161103.
- Cappelli C, Gandossi E, Cumetti D, Castellano M, Pirola I, De Martino E, Agosti B, Micheletti L, Cherubini L, Mattanza C, Agabiti Rosei E (2006). Ectopic lingual thyroid tissue and acquired hypothyroidism: case report. Ann Endocrinol (Paris), 67(3):245-8.
- Ulug T, Ulubil SA, Alagol F (2003). Dual ectopic thyroid: report of a case. J Laryngol Otol, 117(7):574-6.
- Kim MS, Kong YH, Lee DY (2015). A Case of Subclinical Hypothyroidism with Lingual and Right Pretracheal Ectopic Thyroid. J Clin Res Pediatr Endocrinol, 7(2):148-50. doi: 10.4274/jcrpe.1791.
- Voyagis GS, Kyriakis KP, Roussaki-Danou K, Bastounis EA (1995). Evaluating the difficult airway. An epidemiological study. Minerva Anestesiol, 61(12):483-9.
- Nicoli TK, Gupta S, Kotecha B (2015). Radiofrequency thermotherapy in the treatment of tongue base lymphoid hyperplasia: case report. J Laryngol Otol, 129(4):398-402. doi: 10.1017/S0022215115000225.
- den Herder C, Kox D, van Tinteren H, de Vries N (2006). Bipolar radiofrequency induced thermotherapy of the tongue base: Its complications, acceptance and effectiveness under local anesthesia. Eur Arch Otorhinolaryngol, 263(11):1031-40.
- Adkins KF (1973). Lymphoid hyperplasia in the oral mucosa. Aust Dent J, 18(1):38-40.
- Reed JT, Grant CM (2014). Large mass on base of tongue. Diagnosis: lingual thyroid. J Fam Pract, 63(10):603-5.
- Abrahamsen B, Jørgensen HL, Laulund AS, Nybo M, Bauer DC, Brix TH, Hegedüs L (2015). The excess risk of major osteoporotic fractures in hypothyroidism is driven by cumulative hyperthyroid as opposed to hypothyroid time: an observational register-based time-resolved cohort analysis. J Bone Miner Res, 30(5):898-905. doi: 10.1002/jbmr.2416.
- Abrahamsen B, Jørgensen HL, Laulund AS, Nybo M, Brix TH, Hegedüs L (2014). Low serum thyrotropin level and duration of suppression as a predictor of major osteoporotic fractures—the OPENTHYRO register cohort. J Bone Miner Res, 29(9):2040-50. doi: 10.1002/jbmr.2244.
- Leader A, Ayzefeldt RH, Lishner M, Cohen E, Segev D, Hermoni D (2014). Thyrotropin levels within the lower normal range are associated with an increased risk of hip fractures in euthyroid women, but not men, over the age of 65 years. J Clin Endocrinol Metab, 99(8):2665-73. doi: 10.1210/jc.2013-2474.