

Bulletin de la Dialyse à Domicile

Home Dialysis Bulletin (BDD)

Journal internationale bilingue pour partager les connaissances et l'expérience en dialyse à domicile

(Edition française) (English version available at same address)

Tumeurs brunes mises en évidence par émission monophotonique/tomodensitométrie chez un patient dialysé présentant des douleurs neuropathiques progressives au niveau des membres inférieurs : rapport de cas

(Brown tumors revealed by SPECT/CT in a dialysis patient presenting with progressive neuropathic lower limb pain: a case report)

Alexandra Corcevei¹, Thibault Preumont¹, Ines Dufour¹, Guillaume Fernandes¹, Olivier Gheysens¹, Eric Goffin¹

¹ Clinique universitaires Saint-Luc Woluwe, Bruxelles (Belgique)

Pour citer : Preumont T, Corcevei A, Dufour I, Fernandes guillaume, Gheysens O, Goffin E. Brown tumors revealed by SPECT/CT in a dialysis patient presenting with progressive neuropathic lower limb pain. Bull Dial Domic [Internet];9(3). Available from doi: <https://bdd.rdpf.org/index.php/bdd/article/view/87124>

Résumé

Contexte : Les tumeurs brunes sont des lésions ostéolytiques bénignes causées par une résorption osseuse excessive dans le cadre d'un hyperparathyroïdisme sévère et prolongé. Bien qu'elles soient rares chez les patients sous dialyse, elles doivent être envisagées en cas d'hyperparathyroïdisme sévère réfractaire et de douleur focale inexpliquée. La scintigraphie osseuse du corps entier associée à la tomographie par émission monophotonique/tomodensitométrie (SPECT/TDM) peut s'avérer particulièrement utile pour détecter et localiser une atteinte squelettique multifocale.

Présentation du cas : Nous rapportons le cas d'un homme de 46 ans atteint d'une insuffisance rénale terminale sous hémodialyse et d'un hyperparathyroïdisme sévère et réfractaire, qui présentait une douleur neuropathique progressive au niveau du membre inférieur droit. La scintigraphie osseuse du corps entier a révélé de multiples zones d'augmentation de la captation du traceur touchant les deux tibias et les fémurs distaux. La SPECT/TDM a permis de localiser ces anomalies au niveau de lésions tibiales intramédullaires bilatérales, compatibles avec des tumeurs brunes multifocales. La lésion tibiale droite correspondait au site symptomatique. Une parathyroïdectomie de révision a ensuite été réalisée, entraînant une amélioration rapide et marquée des symptômes.

Conclusion : Ce cas souligne que les tumeurs brunes doivent être prises en compte dans le diagnostic différentiel des patients dialysés présentant une douleur neuropathique focale inexpliquée et une hyperparathyroïdie sévère réfractaire. La scintigraphie osseuse du corps entier associée à la SPECT/TDM est particulièrement utile, car elle met en évidence l'étendue de l'atteinte squelettique et fournit une localisation anatomique précise avec une corrélation clinico-radiologique. La reconnaissance de tumeurs brunes multifocales peut faciliter la prise en charge appropriée de l'hyperparathyroïdie sévère et réfractaire sous-jacente.

Mots-clés : Scintigraphie osseuse ; Tumeur brune ; Hémodialyse ; Hyperparathyroïdie secondaire ; SPECT/TDM

Summary

Background: Brown tumors are benign osteolytic lesions caused by excessive bone resorption in severe and prolonged hyperparathyroidism. Although uncommon in patients undergoing dialysis, they should be considered in cases of severe refractory hyperparathyroidism and unexplained focal pain. Whole-body bone scintigraphy combined with single-photon emission computed tomography/computed tomography (SPECT/CT) may be particularly useful for detecting and localizing multifocal skeletal involvement.

Case Presentation: We report the case of a 46-year-old man with end-stage kidney disease on hemodialysis and severe refractory hyperparathyroidism who presented with progressive neuropathic pain in the right lower limb. Whole-body bone scintigraphy showed multiple areas of increased tracer uptake involving both tibias and distal femurs. SPECT/CT localized these abnormalities to bilateral intramedullary tibial lesions, consistent with multifocal brown tumors. The right tibial lesion corresponded to the symptomatic site. Revision parathyroidectomy was subsequently performed, resulting in rapid and marked symptomatic improvement.

Conclusion: This case highlights that brown tumors should be considered in the differential diagnosis of dialysis patients with unexplained focal neuropathic pain and severe refractory hyperparathyroidism. Whole-body bone scintigraphy combined with SPECT/CT is particularly valuable, as it demonstrates the extent of skeletal involvement and provides precise anatomical localization with clinico-radiological correlation. Recognition of multifocal brown tumors may facilitate appropriate management of the underlying severe refractory hyperparathyroidism.

Keywords: Bone scintigraphy; Brown tumor; Hemodialysis; Secondary hyperparathyroidism; SPECT/CT



Open Access : cet article est sous licence Creative Commons CC BY 4.0 : <https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/deed.fr>

Copyright: les auteurs conservent le copyright.

Introduction

Les tumeurs brunes (TB) sont des lésions osseuses ostéolytiques bénignes résultant d'une résorption osseuse excessive dans le cadre d'un hyperparathyroïdisme sévère et prolongé [1–4]. Bien que rares, elles constituent une complication potentiellement grave de l'hyperparathyroïdisme chez les patients sous dialyse, en particulier dans le contexte d'une maladie réfractaire [1,3]. Les TB peuvent toucher plusieurs sites du squelette. Elles peuvent être asymptomatiques ou se manifester par une douleur osseuse localisée, un gonflement, des fractures pathologiques ou des symptômes neurologiques liés à une compression des nerfs ou de la moelle épinière [2,3]. Leur distribution multifocale et leur présentation clinique variable rendent leur diagnostic difficile.

Nous rapportons le cas de tumeurs osseuses multifocales chez un patient sous hémodialyse atteint d'une hyperparathyroïdie secondaire sévère et réfractaire, se manifestant par une douleur neuropathique progressive du membre inférieur droit. Cette présentation clinique inhabituelle met en évidence l'intérêt de la scintigraphie osseuse totale associée à une tomographie par émission monophotonique/tomodensitométrie (SPECT/TDM) pour identifier et localiser les lésions squelettiques multifocales.

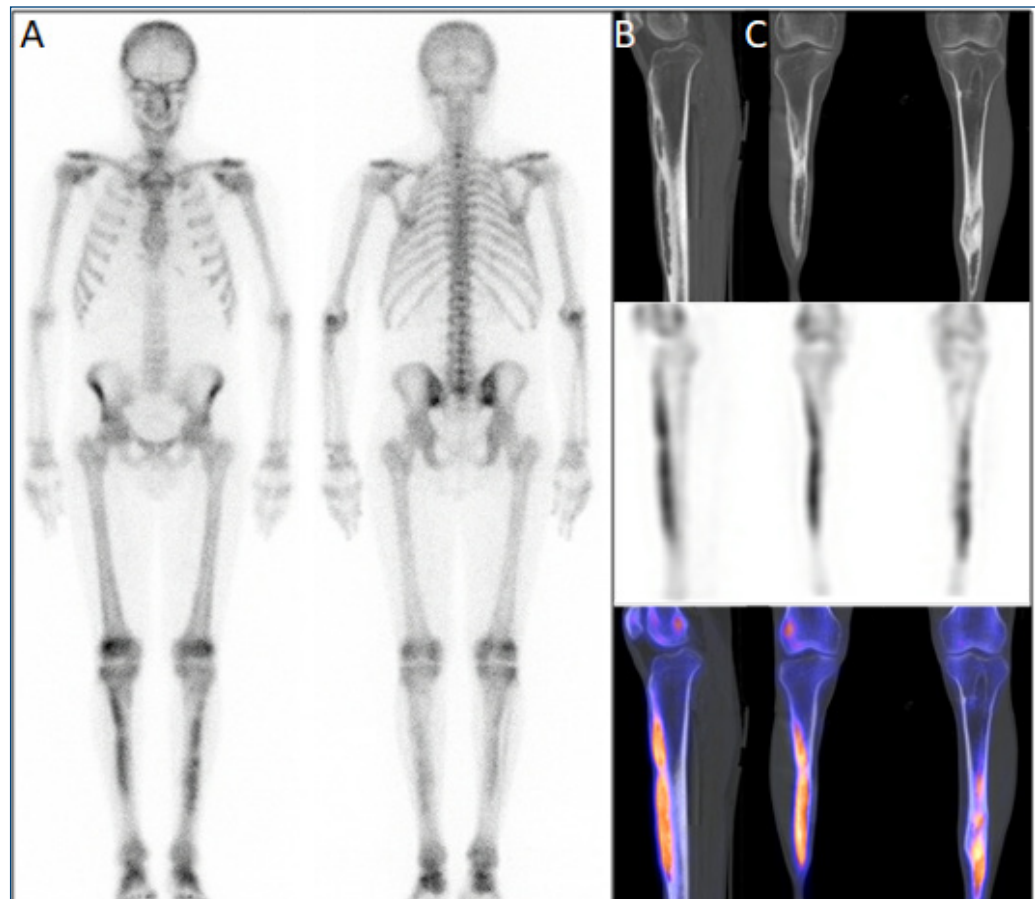
Présentation du cas

Un homme de 46 ans atteint d'une insuffisance rénale terminale secondaire à une néphronophtise confirmée génétiquement (délétion complète du gène NPHP1 associée à la mutation c.1027G>A, p.Gly343Arg) avait été traité par dialyse péritonéale (DP) pendant quatre ans avant de passer à l'hémodialyse (HD) en raison d'une dialyse insuffisante. Il avait subi une parathyroïdectomie subtotale deux ans auparavant, mais présentait un hyperparathyroïdisme sévère persistant, avec une mauvaise observance du cinacalcet. Trois mois avant l'apparition de la douleur, il est passé du cinacalcet à l'etelcalcétide par voie intraveineuse après le passage de la DP à l'HD. Les analyses de laboratoire ont révélé des taux de parathormone nettement élevés (1 481 pg/mL, soit environ 15 fois la limite supérieure de la normale), une phosphatase alcaline élevée (255 UI/L), une hypercalcémie (2,70 mmol/L) et une hyperphosphatémie (2,95 mmol/L). Une tomographie par émission de positons à la ¹¹C-méthionine a suggéré un adénome parathyroïdien récidivant au pôle inférieur du lobe thyroïdien gauche.

Le patient présentait une douleur neuropathique progressive touchant le membre inférieur droit, irradiant de la cheville jusqu'au milieu de la cuisse selon un trajet bien défini. La douleur était provoquée de manière reproductible par la mobilisation de la cheville et une pression locale. Aucune anomalie cutanée n'a été observée.

Une tomodensitométrie lombaire a permis d'exclure toute compression significative des racines nerveuses, et une échographie Doppler veineuse a écarté la possibilité d'une thrombose veineuse profonde. En raison de la persistance des symptômes et d'un hyperparathyroïdisme sévère et réfractaire, une scintigraphie osseuse du corps entier par SPECT/TDM a été réalisée. L'imagerie planaire a mis en évidence de multiples zones de captation nettement accrue du traceur, touchant les deux tibias et les fémurs distaux (Figure 1A). Les images fusionnées SPECT/TDM ont localisé la captation du traceur au niveau de lésions intramédullaires allongées dans les deux tibias, associées à un épaississement cortical (Figures 1B–C), ce qui correspond à des tumeurs brunes multifocales [2,3]. La lésion symptomatique du côté droit a été identifiée, et

une parathyroïdectomie de révision a ensuite été réalisée, entraînant une nette amélioration des symptômes un mois plus tard.



↑ Figure 1. Résultats d'imagerie de tumeurs brunes multifocales secondaires à un hyperparathyroïdisme réfractaire (A) Scintigraphie osseuse planaire du corps entier montrant de multiples foyers d'absorption accrue du traceur touchant les deux tibias et les fémurs distaux, indiquant une atteinte squelettique multifocale. (B) Images TDM coronales des deux tibias montrant des lésions intramédullaires allongées associées à un épaississement cortical. (C) Images fusionnées SPECT/TDM correspondantes montrant une captation intense du radiotracer au sein des lésions tibiales, confirmant des lésions métaboliquement actives compatibles avec des tumeurs brunes. La lésion tibiale droite correspondait aux sites symptomatiques du patient.

Discussion

Les tumeurs brunes constituent une manifestation rare de l'hyperparathyroïdie non contrôlée chez les patients atteints d'insuffisance rénale chronique.

Elles résultent d'une résorption osseuse ostéoclastique excessive et du remplacement du tissu osseux par un tissu fibrovasculaire contenant des macrophages et des cellules géantes multinucléées, pouvant entraîner des lésions ostéolytiques bien limitées, parfois expansives, avec un aspect soufflé caractéristique [1–4]. Dans ce cas, le tableau clinique était atypique, avec une douleur neuropathique progressive suggérant initialement un trouble neurologique ou musculo-squelettique. L'absence de compression significative des racines nerveuses lombaires ou de thrombose veineuse profonde, associée à une hyperparathyroïdie sévère et réfractaire, a fait envisager la possibilité TBs.

La scintigraphie osseuse du corps entier a mis en évidence une atteinte squelettique multifocale,

révélant une atteinte plus étendue que ne le laissaient supposer les symptômes focaux. La SPECT/TDM a permis de caractériser plus précisément les lésions en fournissant une localisation anatomique précise et en mettant en évidence leur distribution intramédullaire ainsi que l'épaississement cortical associé. La concordance entre le membre inférieur droit symptomatique et la lésion tibiale correspondante a permis d'établir une forte corrélation clinico-radiologique. Cela illustre les rôles complémentaires de la scintigraphie du corps entier et de la SPECT/TDM : la première offre une vue d'ensemble de l'atteinte squelettique, tandis que la seconde améliore la caractérisation anatomique et la corrélation avec les résultats cliniques [2].

Le diagnostic différentiel des lésions osseuses hypermétaboliques focales chez les patients atteints d'insuffisance rénale chronique inclut d'autres troubles osseux métaboliques, des lésions osseuses bénignes et une atteinte squelettique maligne. L'association d'un hyperparathyroïdisme sévère réfractaire, d'anomalies squelettiques multifocales et de résultats d'imagerie compatibles a étayé le diagnostic de tumeurs parathyroïdiennes multifocales [2,3]. Une confirmation histologique n'a donc pas été jugée nécessaire compte tenu des résultats cliniques, biochimiques et d'imagerie.

La prise en charge des TBs repose sur le contrôle de l'hyperparathyroïdie sous-jacente. Un traitement médical par calcimimétiques et analogues de la vitamine D peut s'avérer efficace chez certains patients, tandis qu'une parathyroïdectomie doit être envisagée en cas de maladie sévère ou réfractaire [1,3]. Dans ce cas, la persistance d'une hyperparathyroïdie marquée malgré une parathyroïdectomie subtotale antérieure et un traitement médical a conduit à une parathyroïdectomie de révision. L'amélioration marquée des symptômes qui s'en est suivie corrobore l'existence d'une relation entre la lésion squelettique et la douleur du patient. La régression des tumeurs parathyroïdiques et/ou le soulagement des effets mécaniques ou neurologiques locaux ont pu contribuer à l'amélioration clinique.

Conclusion

Ce cas souligne que les tumeurs osseuses doivent être prises en compte dans le diagnostic différentiel des patients dialysés présentant des douleurs neuropathiques focales inexpliquées et une hyperparathyroïdie sévère réfractaire. La scintigraphie osseuse du corps entier associée à la SPECT/TDM est particulièrement utile, car elle permet de mettre en évidence l'étendue de l'atteinte squelettique et de fournir une localisation anatomique précise, avec une corrélation clinico-radiologique. La reconnaissance de TB multifocales peut faciliter la prise en charge appropriée de l'hyperparathyroïdie sévère et réfractaire sous-jacente ; dans ce cas précis, une parathyroïdectomie de révision a entraîné une amélioration symptomatique marquée.

Contributions des auteurs

Rédaction du manuscrit : TP, AC (ils ont contribué à parts égales à ce travail et partagent la première auteure) ; révision et correction du manuscrit : EG, FG, ID ; analyse et examen des images : OG ; approbation finale : tous les auteurs ont approuvé la version finale du manuscrit.

Considérations éthiques

Cette étude a été menée conformément aux principes de la Déclaration d'Helsinki. Compte tenu de la nature rétrospective de l'étude et de l'utilisation de données anonymisées, l'approbation formelle d'un comité d'éthique n'était pas requise, conformément à la politique institutionnelle.

Consentement du patient

Un consentement éclairé écrit a été obtenu auprès du patient.

Financement

Cette recherche n'a bénéficié d'aucun financement externe.

Conflits d'intérêts

Aucun des auteurs n'a de conflit d'intérêts à déclarer.

Disponibilité des données

Ce rapport s'appuie sur le dossier médical du patient conservé par l'établissement. La législation locale n'autorise pas la divulgation des dossiers médicaux des patients.

Utilisation de l'intelligence artificielle

Des outils d'intelligence artificielle ont été utilisés pour la révision en anglais et l'aide à la traduction. L'IA n'a pas été utilisée pour la rédaction du manuscrit lui-même.

ORCID iDs

Alexandra Corcevei : <https://orcid.org/0009-0007-8855-4217>

Thibault Preumont : <https://orcid.org/0009-0001-6013-5762>

Ines Dufour : <https://orcid.org/0000-0002-2108-5280>

Guillaume Fernandes : <https://orcid.org/0009-0006-7087-6798>

Olivier Gheysens : <https://orcid.org/0000-0001-8478-9675>

Eric Goffin : <https://orcid.org/0000-0001-9242-7148>

Références

1. KDIGO CKD-MBD Work Group. KDIGO 2017 clinical practice guideline update for the diagnosis, evaluation, prevention and treatment of chronic kidney disease–mineral and bone disorder (CKD-MBD). *Kidney Int Suppl* (2011). 2017 Jul;7(1):1-59. doi: <https://doi.org/10.1016/j.kisu.2017.04.001>.
2. Xie C, Tsakok M, Taylor N, Partington K. Imaging of brown tumours: a pictorial review. *Insights Imaging*. 2019 Jul 29;10(1):75. doi: <https://doi.org/10.1186/s13244-019-0757-z>.
3. Santoso D, Thaha M, Empitu MA, Kadariswantiningsih IN, Suryantoro SD, Haryati MR, et al. Brown tumour in chronic kidney disease: revisiting an old disease with a new perspective. *Cancers (Basel)*. 2023 Aug 15;15(16):4107. doi: <https://doi.org/10.3390/cancers15164107>.
4. Gaied H, Trabelsi M, Hadded S, Thabti Y, Khadhar M, Goucha R. Early-Onset Craniofacial Brown Tumor Progressing to Multifocal Skeletal Lesions in Peritoneal Dialysis Patient: A Case Report and Literature Review. *Bull Dial Domic [Internet]*. 2026 Jun. 15 [cited 2026 Sep. 6];9(2):83-92. Available from doi: <https://doi.org/10.25796/bdd.v9i2.87111>.