

Vicente Artigas Raventós^{a*}, Diego Rivero Cruces^a, José González López^a, Manuel Rodríguez Blanco^a e Isidre Boguñá^b

^aUnidad de Cirugía HBP-Oncológica, Servicio de Cirugía General y Digestiva, Hospital Santa Creu i Sant Pau, Universidad Autónoma de Barcelona, Barcelona, España

^bUnidad de Cirugía Onco-Ginecológica, Hospital Santa Creu i Sant Pau, Universidad Autónoma de Barcelona, Barcelona, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: vartigas@santpau.cat (V. Artigas Raventós).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.ciresp.2016.01.006>
0009-739X/

© 2016 AEC. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

DetECCIÓN INTRAOPERATORIA RADIOGUIADA DE TUMOR CARCINOIDE PRODUCTOR DE HORMONA ADRENOCORTICOTROPA ECTÓPICA



RADIOGUIDED INTRAOPERATIVE DETECTION OF ECTOPIC ADRENOCORTICOTROPIC HORMONE-PRODUCING CARCINOID TUMOR

Los tumores carcinoides son neoplasias malignas neuroendocrinas originadas en las células enterocromafines del sistema endocrino difuso (APUD). Un 10% presenta localización broncopulmonar, y entre el 1-2% pueden asociarse a síndromes paraneoplásicos como el síndrome de Cushing¹.

La GRS (¹¹¹In-octreótido), puede indicarse para la detección de tumores carcinoides diseminados o funcionantes subcentimétricos difícilmente localizables mediante otras pruebas de imagen^{2,3}. Su utilización intraoperatoria está descrita en la literatura de forma anecdótica, y en nuestro caso ha sido esencial para la resección completa de las lesiones⁴.

Varón de 30 años sin antecedentes de interés que presentó clínica de síndrome de Cushing. Las analíticas evidenciaron hiperglucemias (hasta 300 mg/dl con cetonuria negativa) con elevación de la hemoglobina glucosilada (6,3%), leve hipopotasemia, hipercolesterolemia e hipercortisolismo urinario (3.978 µg/día). Se inició tratamiento con insulina. El 5-OH-indolacético fue de 8,5 mg/24 h, y la cromogranina A de 225 ng/ml sugiriendo tumor carcinoide, la secreción episódica de hormona adrenocorticotropa (ACTH) fue de 153 µg y 83,3 µg a las 8 y 23 h, respectivamente, orientando a una etiología ACTH-dependiente extra-adrenal. La ausencia de supresión con dexametasona y la resonancia magnética hipofisaria anodina orientaron a un síndrome de secreción ectópica de ACTH.

La tomografía computarizada (TC) toraco-abdominal no evidenció hallazgos patológicos, pero la GRS objetivó una captación patológica milimétrica en el hilio pulmonar derecho (fig. 1), y en la broncoscopia no se observaron lesiones endobronquiales.

Tras 24 h desde la inyección del radiofármaco (octreótido), se realizó una toracotomía exploradora, palpación manual del pulmón y rastreo gammagráfico con una sonda intraoperatoria (fig. 2). Además del escaso líquido pleural de aspecto seroso, se hallaron un nódulo periférico de 6 mm en LID, y un ganglio interlobar (ambos con hipercaptación con valores de 34 y 37 sobre el «pool pulmonar» de 2). Se efectuó una resección pulmonar

atípica, linfadenectomía mediastínica sistemática y confirmación anatomopatológica intraoperatoria de las lesiones.

El estudio inmunohistoquímico reveló carcinoma neuroendocrino tipo 1. La adenopatía interlobar y la citología del líquido pleural fueron positivas para malignidad, correspondiendo a un estadio IVA (T1N1M1). No se realizó tratamiento adyuvante. El síndrome de Cushing se resolvió tras la cirugía y 5 años de seguimiento, el paciente permanece asintomático y sin signos de recidiva.

Entre el 15-20% de los casos de síndrome de Cushing pueden ser originados por tumores no hipofisarios, constituidos por tejido neuroendocrino¹. Los carcinoides bronquiales son la causa más común de secreción ectópica de ACTH (25%)¹.

En nuestro caso, una vez confirmado el hipercortisolismo, se inició el diagnóstico diferencial entre enfermedad de Cushing y Cushing ectópico, y tras comprobar el origen ectópico se realizó una TC toraco-abdominal sin objetivar lesiones.

Tal como afirman ciertos autores, un número considerable de carcinoides bronquiales son indetectables mediante técnicas de imagen convencionales, debido a su pequeño tamaño y/o su ubicación en el hilio pulmonar, donde es particularmente difícil la diferenciación con la vasculatura normal². En una revisión de Özkan et al., en la que se valora la GRS, se hace mención a una serie de 90 casos, en la que el 47% era secundaria a un tumor de localización intratorácica y en el 19% de los casos no se localizó la lesión³. Publicaciones más recientes, describen la localización de los tumores hipersecretores solo en el 62,5% de los casos mediante el uso de distintas pruebas de imagen³. Aunque hay resultados controvertidos en la literatura, la GRS con In-¹¹¹ se ha propuesto para localizar tumores que secretan ACTH ectópico no visibles por las técnicas convencionales^{2,3}.

En el caso presentado se realizó un GRS buscando al tumor hipersecretor, hallando una lesión milimétrica con captación patológica a nivel hilar derecho que correspondió a una metástasis ganglionar. El tumor pulmonar primario, de apenas

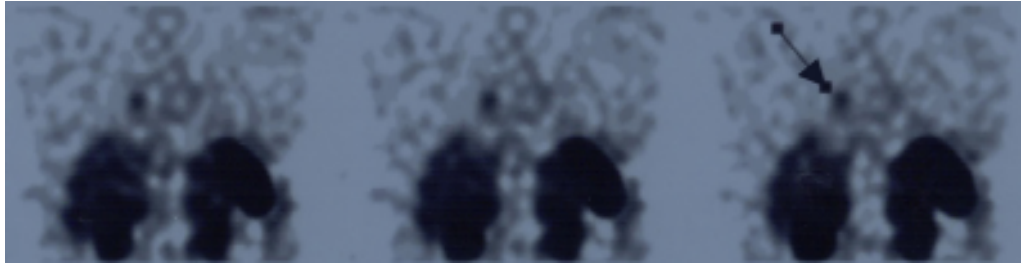


Figura 1 – La gammagrafía con receptores de somatostatina (GRS) (^{111}In -Octreotide) preoperatoria halló una captación patológica milimétrica en el hilio pulmonar derecho.

6 mm, solo se pudo identificar gracias a la palpación y exploración radioguiada. La anatomía patológica intraoperatoria confirmó ambas lesiones, y el estudio definitivo reveló carcinoma neuroendocrino tipo 1 en un estadio inusualmente avanzado (T1N1M1).

Este tipo de tumores, aunque considerados malignos, habitualmente se presentan con estadios iniciales y con un potencial metastásico e invasivo menor que el resto de los tumores neuroendocrinos pulmonares¹. El tratamiento de elección es la resección completa, presentando un excelente pronóstico, incluso con metástasis ganglionares. La lobectomía es la resección más recomendada, aunque también se han descrito «sleeve resections» en los tumores centrales y resecciones sublobares en los periféricos con buenos resultados¹. Yendamuri et al., por ejemplo, consideran que la extensión de resección quirúrgica en este tipo de tumores no es un factor pronóstico⁵. En nuestro caso, al tratarse de un tumor periférico subcentimétrico se optó por una resección atípica, con un excelente resultado tras 5 años de seguimiento, a pesar de presentar un estadio IV. Estos tumores son relativamente resistentes a la quimioterapia y a la radioterapia, por ello se recomienda el tratamiento quirúrgico incluso en los casos de enfermedad avanzada¹. En conclusión, la localización y tratamiento de los tumores secretores de ACTH-ectópica representa un desafío diagnóstico y requiere un manejo multidisciplinar. La GRS y la cirugía radioguiada fueron técnicas valiosas para este caso en que las pruebas de imagen convencionales no fueron concluyentes.

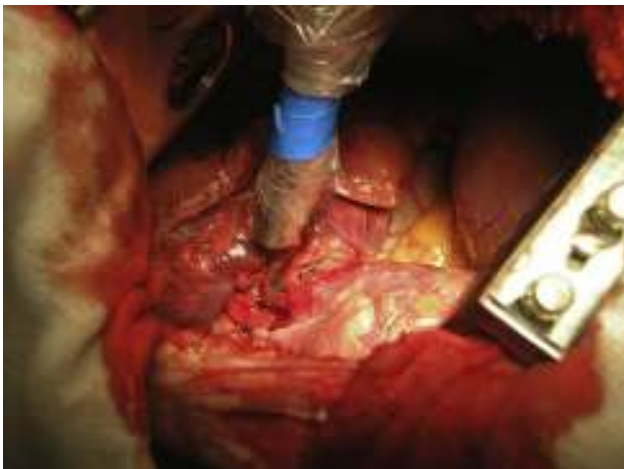


Figura 2 – Rastreo gammagráfico de todo el pulmón con un transductor intraoperatorio.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

BIBLIOGRAFÍA

1. Sánchez de Cos Escuín J. Diagnosis and treatment of neuroendocrine lung tumors [Article in English, Spanish]. *Arch Bronconeumol*. 2014;50:392–6.
2. Tabarin A, Valli N, Chanson P, Bachelot Y, Rohmer V, Bex-Bachelier V, et al. Usefulness of somatostatin receptor scintigraphy in patients with occult ectopic adrenocorticotropin syndrome. *J Clin Endocrinol Metab*. 1999;84:1193–202.
3. Özkan ZG, Kuyumcu S, Balköse D, Özkan B, Aksakal N, Yılmaz E, et al. The value of somatostatin receptor imaging with In-111 Octreotide and/or Ga-68 DOTATATE in localizing Ectopic ACTH producing tumors. *Mol Imaging Radionucl Ther*. 2013;22:49–55.
4. García-Talavera P, Ruano R, Rioja ME, Cordero JM, Razola P, Vidal-Sicart S. Radioguided surgery in neuroendocrine tumors A review of the literature [Article in Spanish]. *Rev Esp Med Nucl Imagen Mol*. 2014;33:358–65.
5. Yendamuri S, Gold D, Jayaprakash V, Dexter E, Nwogu C, Demmy T. Is sublobar resection sufficient for carcinoid tumors? *Ann Thorac Surg*. 2011;92:1774–8.

Carlos A. Rombolá^{a*}, Marta Genovés-Crespo^a,
Luz López-Jiménez^b, Francisco Martín-Ordoñez^c
y Pablo León-Atance^a

^aServicio de Cirugía Torácica, Complejo Hospitalario Universitario de Albacete, Albacete, España

^bServicio de Endocrinología, Complejo Hospitalario Universitario de Albacete, Albacete, España

^cServicio de Medicina Nuclear, Hospital de Cuenca, Cuenca, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: carrombola@hotmail.com (C.A. Rombolá).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.ciresp.2015.05.001>
0009-739X/

© 2015 AEC. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.