

y la rotura². De hecho, cuando esta última se produce, existe una elevada mortalidad, pues suelen estar localizados en las profundidades de la pelvis, siendo difícil la resolución durante el sangrado. En nuestro caso, ya con clínica de obstrucción intestinal por efecto masa, repetir el tratamiento endovascular no tenía sentido, por lo que se optó por la cirugía.

Esta enfermedad debe ser considerada en el diagnóstico diferencial de la obstrucción intestinal y han de ser considerados emergencias abdominales, realizando cirugía electiva en aquellos que tengan 3,5 cm de diámetro³.

BIBLIOGRAFÍA

- Richardson JW, Greenfield LJ. Natural history and management of iliac aneurysms. *J Vasc Surg.* 1988;8:165-71.
- Tasoglu I, Imren Y, Iriz E, Erer D. Rectal obstruction attributable to bilateral iliac aneurysms. *Surgery.* 2007;141:279-80.
- Gladman MA, Sayer GL. Clinical challenges and images in GI. Chronic constipation secondary to bilateral internal iliac artery aneurysms. *Gastroenterology.* 2008;134:1294-636.
- Netto R Jr, Caserta Lemos G, Ikari O, Bastouly M. Urologic aspects associated with isolated hypogastric artery aneurysm. *Urology.* 1986;28:486-8.
- Lane T, Bentley P. Rectal strictures following abdominal aortic aneurysm surgery. *Ann R Coll Surg Engl.* 2000;82:421-3.
- Sugimoto A, Haga M, Motohashi S, Takahashi Y, Kanazawa H, Nakazawa S. A case of rectal obstruction caused by bilateral internal iliac artery aneurysms. *Ann Vasc Surg.* 2011;25:267-315.
- Ufuk Ö, Vatansev C, Durgut K, Özülkü M, yazı Görmüş N. An internal iliac artery aneurysm causing a colonic obstruction: Report of a case. *Surg Today.* 2001;31:839-41.
- Morita S, Yamaguchi M, Yamagiwa T, Inokuchi S. Constipation following bilateral internal iliac artery aneurysms. *Journal of Emergency Medicine Trauma & Acute Care.* 2012;25:1-3.
- Mencia AJ, Hines GL. Internal iliac artery aneurysm presenting as severe constipation. A Case report. *Vasc Endovascular Surg.* 1999;33:313-6.
- Elkouri S, Blair JF, Beaudoin N, Bruneau L. Ruptured solitary internal iliac artery aneurysm: A rare cause of large-bowel obstruction. *Can J Surg.* 2008;51:E122-3.

Pedro José Gil Vázquez^{a*}, Francisco Gutierrez García^b, Vicente Olivares Ripoll^a, David Ferreras Martínez^a y Sergio J Cánovas López^b

^aServicio de Cirugía General y Aparato Digestivo, Hospital Clínico Universitario Virgen de la Arrixaca, El Palmar, Murcia, España

^bServicio de Cirugía Cardiovascular, Hospital Clínico Universitario Virgen de la Arrixaca, El Palmar, Murcia, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: pedro_jgv@hotmail.com (P.J. Gil Vázquez).

<https://doi.org/10.1016/j.ciresp.2018.02.005>
0009-739X/

© 2018 AEC. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Hibernoma retroperitoneal bilateral identificado por I-MIBG SPECT/TC en un paciente con feocromocitoma unilateral



Bilateral retroperitoneal hibernoma identified by I-MIBG SPECT/CT in a patient with single pheochromocytoma

Los hibernomas son tumores benignos extremadamente raros derivados de restos vestigiales de tejido adiposo pardo. El color característico es debido a la presencia de numerosas mitocondrias pleomórficas y a la irrigación vascular importante¹. En adultos, los hibernomas son más comunes en los hombres, con una incidencia máxima en la tercera y cuarta décadas de la vida; se encuentran con mayor frecuencia en las partes centrales del cuerpo, donde la grasa parda se acumula, y logran una función de termorregulación²: mediastínica, retroperitoneal, cervical, axilar e interescapular³. En la mayoría de los casos se presentan como una masa asintomática. Sin embargo, también pueden presentarse como

hallazgos incidentales en pruebas de imagen y rara vez causan síntomas relacionados con la compresión de las estructuras adyacentes⁴. A diferencia del tejido graso adiposo, la grasa parda contiene abundantes fosfolípidos y glucógeno, que se metabolizan⁵ y suministran energía, que se obtiene en forma de calor. Esta capacidad depende de la presencia de abundantes mitocondrias y de la expresión de UCP1 (proteína de desacoplamiento 1). Además, también difiere de la grasa adiposa en tener una importante inervación. El feocromocitoma, una condición patológica caracterizada por una alta activación adrenérgica, se ha asociado con hibernomas⁶ y la mayoría de los casos se descubren

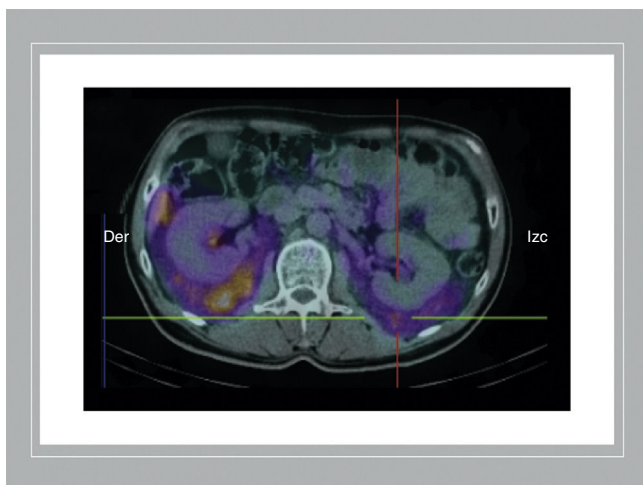


Figura 1 – Estudio de SPECT/TC ^{123}I -MIBG. Se evidencia una captación difusa, bilateral y simétrica del radiofármaco en ambos espacios perirrenales, que se extiende a las crestas ilíacas. En la suprarrenal derecha, se observa una imagen nodular de aproximadamente 3,5 cm, que no presenta una captación patológica del radiotrazador, probablemente en relación con el mielolipoma.

incidentalmente en pruebas de imagen con contraste, lo que indica que la expresión de UCP1 puede inducirse en ciertos tumores⁷ y alteraciones metabólicas⁸.

Se describe un caso de hibernoma perirrenal bilateral descubierto en la prueba de SPECT-TC ^{123}I -MIBG en un paciente diagnosticado con feocromocitoma.

Un paciente de 44 años fue valorado en consulta externa: refería dolor abdominal durante los últimos 5 meses, asociado a vómitos y sudoración esporádica. Se inició tratamiento antihipertensivo con respuesta parcial. Una TC con contraste mostró una masa suprarrenal derecha de 35 mm, mal delimitada, con captación de contraste heterogénea y aumento difuso de la atenuación de la grasa retroperitoneal, con afectación de ambos compartimentos perirrenales, sugestiva de angiomiolipoma. La RM mostró una infiltración masiva y simétrica de ambos espacios adrenales, con señal hiperintensa en T1 y un tumor suprarrenal derecho, que confirmó el diagnóstico radiológico de angiomiolipoma. Sin embargo, los análisis de sangre evidenciaron metanefrinas plasmáticas de 442 pg/ml y normetanefrina en orina de 1.839 $\mu\text{g}/24$ h. La adrenalina, la noradrenalina y la dopamina en la orina mostraron valores normales. Un estudio con SPECT-TC ^{123}I -MIBG demostró una captación difusa, simétrica y bilateral de moderada intensidad radioopaca en espacios perirrenales, con una mayor densidad de grasa perirrenal en cada lado de la línea media, que se extendía hacia ambas crestas ilíacas. Ambas lesiones mostraron drenajes importantes en las venas renales. Se describió, además, un tumor de 4 cm en la glándula suprarrenal derecha sugestivo de feocromocitoma (fig. 1). Una supra-renalectomía derecha laparoscópica y la extirpación parcial de la grasa parda que rodeaba la suprarrenal se realizaron

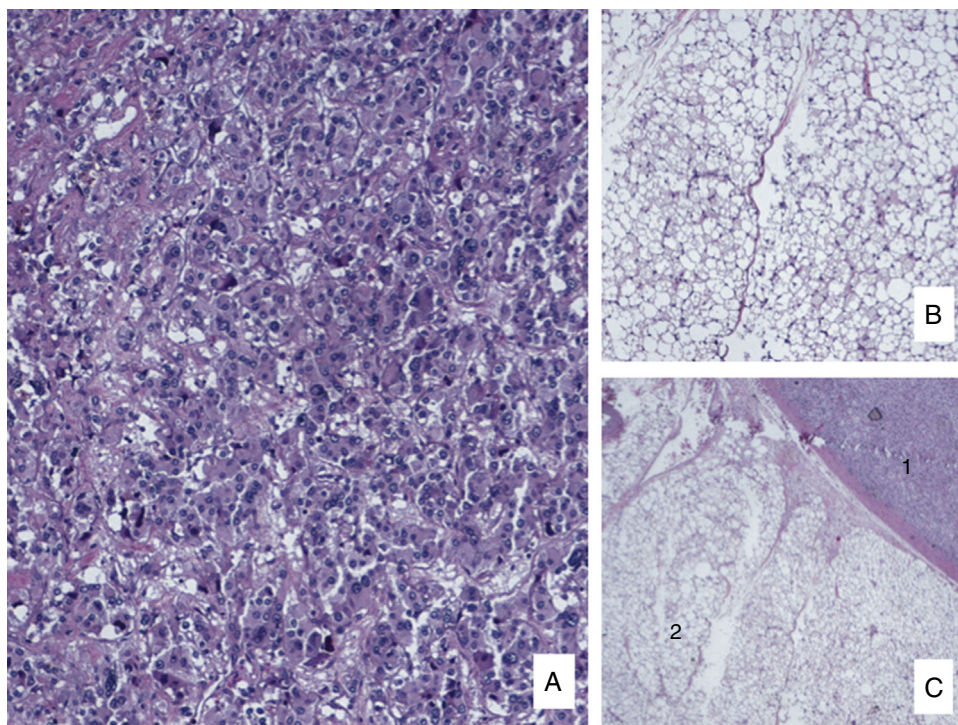


Figura 2 – Reporte de anatomía patológica. A) Secciones histológicas de alta potencia (x20) con hematoxilina-eosina (HE) compatibles con feocromocitoma. B) Secciones de alta potencia (x20) con HE que muestran células de grasa parda multivacuoladas con abundante citoplasma granular y un pequeño núcleo central: estos hallazgos fueron consistentes con el diagnóstico de hibernoma (variante típica). C) Secciones histológicas de baja potencia (x10) con HE que muestran la contigüidad del tejido graso pardo (1) y el feocromocitoma (2).

con éxito. El curso postoperatorio transcurrió sin incidentes y el paciente fue dado de alta al segundo día postoperatorio. El reporte de anatomía patológica describió un feocromocitoma suprarrenal de $3 \times 2 \times 1,5$ cm. Alrededor de la glándula suprarrenal, se observó grasa parda con tejido adiposo maduro, que incluía células grandes de citoplasma multivacuolado y núcleo central pequeño, compatible con hibernoma típico (fig. 2). Las pruebas de imagen al mes (RMN) mostraron cambios postoperatorios en fosa suprarrenal derecha con espacios perirrenales sin alteraciones y desaparición total de la captación de contraste. En el seguimiento al año posterior a la cirugía, el paciente permanece con presión arterial controlada y nivel de catecolaminas normal en orina.

La diferencia entre la grasa parda y el tejido adiposo normal no se basa simplemente en la morfología o en la distribución. La grasa parda de los hibernomas está más vascularizada y presenta ciertas diferencias bioquímicas importantes, como un mayor contenido de fosfolípidos⁹ y una composición de ácidos grasos saturados más alta¹⁰. El primer estudio de la relación entre un feocromocitoma y un hibernoma fue en 1957, cuando se encontró grasa parda adrenal pericapsular en 2 muestras de los 18 casos de feocromocitoma.

En nuestro estudio, hemos observado que la aparición del hibernoma no se limita a la proximidad de la glándula suprarrenal, sino que puede estar presente en otros lugares, o incluso aparecer de forma bilateral. Se acepta que las hormonas simpaticomiméticas desempeñan un papel importante en el metabolismo del tejido graso. Un marcado aumento en el metabolismo hormonodependiente podría ser captado por pruebas de imagen con contraste, como ¹²³I-MIBG, como se produjo en nuestro paciente. En conclusión, este es el primer caso que describe la desaparición de un tejido pardo (hibernoma) después de la resección de un feocromocitoma concomitante y el retorno del nivel sérico de catecolaminas al rango normal.

BIBLIOGRAFÍA

1. Barbetakis N, Asteriou C, Stefanidis A, Kynigou M. Mediastinal hibernoma presenting with hoarseness. *Interact Cardiovasc Thorac Surg*. 2011;12:845-6.
2. Murphey MD, Carroll JF, Flemming DJ, Pope TL, Gannon FH, Kransdorf MJ. From the archives of the AFIP: Benign

musculoskeletal lipomatous lesions. *Radiographics*. 2004;24:1433-66.

3. Heaton JM. The distribution of brown adipose tissue in the human. *J Anat*. 1972;112:35-9.
4. Colville J, Feigin K, Tang L, Keating D, Cohen MA. Mammary hibernoma. *Breast J*. 2006;12:563-5.
5. Hards J, Scheil-Bertram S, Hartwig E, Gebert C, Gosheger G, Schulte M. Sonographic findings of hibernoma. A report of two cases. *J Clin Ultrasound*. 2005;33:298-301.
6. English JT, Patel SK, Flanagan MJ. Association of pheochromocytomas with brown fat tumors. *Radiology*. 1973;107:279-81.
7. Penna D, Quartuccio N, Testa C, Arena V, Cistaro A, Pelosi E. A rare case of hibernoma occasionally identified by 18F-fluorodeoxyglucose positron emission tomography/computed tomography in a patient with lung cancer. *Cureus*. 2017;9:e1124.
8. González-Barroso MM, Fleury C, Jiménez MA, Sanz JM, Romero A, Bouillaud F, et al. Structural and functional study of a conserved region in the uncoupling protein UCP1: The three matrix loops are involved in the control of transport. *J Mol Biol*. 1999;292:137-49.
9. Cox RW. Hibernoma: The lipoma of immature adipose tissue. *J Pathol Bacteriol*. 1954;68:511-8.
10. Morgan AD, Jepson EM, Billimoria JD. Intrathoracic hibernoma. *Thorax*. 1966;21:186-92.

Dennis César Lévano-Linares^{a*}, Jaime Ruiz-Tovar^a, Alejandro García Muñoz-Najar^{ab}, Verónica Familiar^c y Manuel Durán Poveda^{ab}

^aDepartamento de Cirugía, Hospital Universitario Rey Juan Carlos, Móstoles (Madrid), España

^bDepartamento de Cirugía Endocrina, Hospital Universitario Rey Juan Carlos, Móstoles (Madrid), España

^cDepartamento de Radiología, Hospital Universitario Rey Juan Carlos, Móstoles (Madrid), España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: cesdenlinares@gmail.com (D.C. Lévano-Linares).

<https://doi.org/10.1016/j.ciresp.2018.01.006>
0009-739X/

© 2018 AEC. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.