

2. Lavallée G, Morcos R, Palardy J, Aubé M, Gilbert D. MR of nonhemorrhagic postpartum pituitary apoplexy. *AJNR Am J Neuroradiol.* 1995;16:1939–41.
3. Boulanger E, Pagniez D, Roueff S, Binaut R, Valat AS, Provost N, et al. Sheehan syndrome presenting as early post-partum hyponatremia. *Nephrol Dial Transplant.* 1999;14:2714–5.
4. Bunch TJ, Dunn WF, Basu A, Gosman RI. Hyponatremia and hypoglycemia in acute Sheehan's syndrome. *Gynecol Endocrinol.* 2002;16:419–23.
5. Bamoulid J, Courivaud C, Kazory A, Bonneville JF, Ducloux D. The case: a female with hyponatremia. Diagnosis: postpartum panhypopituitarism (Sheehan syndrome). *Kidney Int.* 2009;76:351–2.
6. Putterman C, Almog Y, Caraco Y, Gross DJ, Ben-Chetrit E. Inappropriate secretion of antidiuretic hormone in Sheehan's syndrome: a rare cause of postpartum hyponatremia. *Am J Obstet Gynecol.* 1991;165:1330–3.
7. Sert M, Tetiker S, Kirim S, Kocak M. Clinical report of 28 patients with Sheehan's syndrome. *Endocrine J.* 2003;50:297–301.
8. López-Caffarena E, Jadresic A, Crisosto C, Palma T. Sheehan syndrome and spontaneous pregnancy: report of 2 cases. *Rev Med Chil.* 1989;117:549–52.
9. See TT, Lee SP, Chen HF. Spontaneous pregnancy and partial recovery of pituitary function in a patient with Sheehan's syndrome. *J Chin Med Assoc.* 2005;68:187–90.

María Currás Freixes*, Isabelle Runkle De La Vega y María Paz de Miguel Novoa

Hospital Clínico San Carlos, Madrid, España

* Autor para correspondencia.

Correos electrónicos: mariacufr@hotmail.com, mariacufr@gmail.com (M. Currás Freixes).

doi:10.1016/j.endonu.2011.02.002

Leishmaniasis visceral en un paciente con diabetes tipo 1 y trasplante aislado de páncreas

Visceral leishmaniasis in a type 1 diabetic patient with isolated pancreas transplant

El trasplante aislado de páncreas (TPA) es un tratamiento que permite normalizar a largo plazo el metabolismo hidrocarbonado en pacientes con diabetes mellitus tipo 1 (DM1). Actualmente está indicado en pacientes con DM1 lábil, con complicaciones metabólicas agudas frecuentes y graves y con función renal conservada^{1,2}.

A continuación se describe el caso de un paciente varón de 31 años, con DM1 de 16 años de evolución, con mal control metabólico, alta variabilidad glucémica, complicaciones agudas de la diabetes (hipoglucemias desapercibidas que habían sido graves de forma repetida, y frecuentes episodios de cetosis y cetoacidosis) y complicaciones crónicas (retinopatía proliferativa, nefropatía establecida con filtrado glomerular conservado, neuropatía sensitivo-motora periférica y autonómica: gastroparesia que requirió yeyunostomía para alimentación y vejiga neurógena con autosondajes diarios e infecciones urinarias recurrentes). Se encontraba en seguimiento por el servicio de Endocrinología de otro centro hospitalario y fue derivado al servicio de Endocrinología y Nutrición de nuestro centro para valoración de TPA. Seguía tratamiento con análogos de insulina rápida y glargina en pauta basal-bolo, presentando niveles de hemoglobina glucosilada (HbA_{1c}) entre 10 y 12%. A pesar de optimización del tratamiento con un sistema integrado de monitorización continua de glucosa e infusión subcutánea continua de insulina, persistían hipoglucemias desapercibidas recurrentes, por lo que se sometió a TPA en noviembre de 2008. La evolución postoperatoria fue favorable y aunque no pudo retirarse totalmente el tratamiento con insulina (se mantuvo en torno a 30 UI al día de insulina detemir), el paciente presentó controles glucémicos estables, desaparecieron las hipoglucemias y se obtuvieron valores de HbA_{1c} en torno a 5,5% y de péptido C de 1,5 ng/ml.

Consultó a los 4 meses del trasplante por cuadro de 20 días de evolución de malestar general, fiebre de hasta 40 °C con escalofríos, tos irritativa, diarrea acuosa y pérdida de peso. Seguía tratamiento habitual con inmunosupresores (prednisona, micofenolato mofetil y tacrolimus), trimetoprim-sulfametoxazol a dosis profilácticas, insulina detemir e hipotensores (losartán, atenolol, manidipino, furosemida y doxazosina). Al ingreso se encontraba consciente y orientado, con moderada afectación del estado general, taquicardia, fiebre y con ligera palidez cutáneo-mucosa. En la mucosa del orificio nasal derecho presentaba pequeñas lesiones pustulosas. La auscultación cardiorrespiratoria fue normal. El abdomen y las extremidades no presentaban alteraciones. En las pruebas complementarias realizadas al ingreso destacaban: hemoglobina 8,5 g/dl, hematocrito 27%, plaquetas 62.000/mcL, leucocitos totales 1.800/mcL (neutrófilos absolutos 1.300/L, linfocitos absolutos 290/L), creatinina 2,9 mg/dl, siendo el resto de la bioquímica general, incluido el perfil hepático normales.

Se realizaron hemocultivos, urocultivo, cultivos de esputo, de exudado nasal y de punta de catéter, que resultaron negativos. Se determinaron las cargas virales para citomegalovirus, virus de Epstein-Barr, parvovirus B19 y herpes virus 6, siendo el resultado negativo. Una ecocardiografía y una ecografía abdominal con Doppler del injerto fueron normales, y en la tomografía computarizada (TC) de tórax sólo se halló ligero derrame pericárdico. Se realizó una TC abdominal donde se objetivó un aumento de tamaño del bazo con infarto del 50% de su volumen, injerto pancreático sin alteraciones y no se encontraron colecciones abdominales. Inicialmente el paciente fue tratado con antibioterapia de amplio espectro, sin obtenerse repuesta en el cuadro febril. Dada la existencia de pancitopenia y esplenomegalia, se realizó un aspirado de médula ósea que reveló la presencia de amastigotes en los monocitos, compatible con leishmaniasis visceral.

Se inició tratamiento con anfotericina B liposomal intravenosa a una dosis de 5 mg/kg durante 1 semana, y luego se administraron dosis de refuerzo de 3 mg/kg semanalmente

durante 1 mes de forma ambulatoria. Tras la primera semana de tratamiento se observó una mejoría progresiva, quedando el paciente afebril y asintomático. En una muestra de sangre previa al trasplante se realizó una serología de *Leishmania* que resultó negativa. A pesar de que se desconoce la serología de *Leishmania* del donante, parece improbable la transmisión de la infección a través del páncreas, ya que este órgano carece de sistema mononuclear fagocítico. Probablemente, la infección fue adquirida tras el trasplante, ya que el paciente reside en una zona endémica de leishmaniasis (Murcia) y tiene un perro (con frecuencia hospedadores del parásito).

No se ha objetivado recidiva de leishmaniasis durante el seguimiento. Tras la curación de la leishmaniasis, se retiró totalmente la insulina y el paciente se mantuvo estable durante unos dos meses. Posteriormente, presentó un cuadro de meningitis vírica que requirió ingreso hospitalario y probablemente asociado con la reducción de inmunosupresión en los periodos de infecciones intercurrentes, desarrolló finalmente un rechazo del injerto que obligó a su extracción a los 8 meses tras la realización del trasplante.

El término leishmaniasis engloba a varios síndromes clínicos que están producidos por protozoos celulares estrictos del género *Leishmania*. La leishmaniasis es endémica en América Central, América del Sur, la cuenca mediterránea, África, India y China³. Su prevalencia general se estima en unos 12 millones de casos en todo el mundo, con una incidencia de dos millones de casos al año⁴, que está en incremento principalmente en países del sur de Europa, debido a la inmunosupresión asociada a la infección por el virus de la inmunodeficiencia humana y a otras situaciones como el tratamiento inmunosupresor en pacientes oncológicos y en pacientes trasplantados⁵.

La leishmaniasis visceral se produce normalmente por microorganismos del complejo *Leishmania donovani*³, que se transmiten por la picadura del flebotomo hembra o "mosca de arena" (género *Phlebotomus* o *Lutzomyia*), aunque la transmisión mediante transfusiones de sangre, la infección de un órgano trasplantado o las agujas compartidas entre adictos a drogas por vía parenteral también está descrita^{6,7}. En los hospedadores mamíferos, *Leishmania* spp. son patógenos intracelulares estrictos que infectan las células hematopoyéticas de la línea monocito/macrófago.

La leishmaniasis es una enfermedad poco frecuente en pacientes trasplantados y puede ocurrir de 3 formas: el paciente desarrolla la infección de novo tras el trasplante, el paciente que está infectado previo al trasplante reactiva la infección latente, y el paciente se infecta a través del órgano trasplantado o a través de transfusiones sanguíneas^{6,8}. Antinori et al⁶ en 2008 revisaron todos los casos de leishmaniasis visceral publicados en pacientes trasplantados y encontraron 81 casos. La mayoría procedían de zonas endémicas y con alto número de sujetos trasplantados (España, Francia e Italia). El 77% se asociaban a trasplante renal y con menos frecuencia a trasplante hepático (9%), cardíaco (8%), pulmonar (8%), simultáneo de páncreas-riñón (un caso), trasplante de precursores hematopoyéticos (un

caso) y trasplante de médula ósea (un caso). Torregrosa et al⁹ describieron un caso de leishmaniasis visceral en un paciente con trasplante de riñón-páncreas en España un año después de la realización del trasplante y Aardema et al¹⁰ describieron en Holanda otro caso de leishmaniasis visceral en un paciente trasplantado de riñón-páncreas con el antecedente de un viaje a Grecia 17 meses antes de la aparición del cuadro.

Las manifestaciones clínicas de la leishmaniasis visceral en sujetos trasplantados son similares a la de sujetos inmunocompetentes, siendo la fiebre el síntoma más frecuente. El diagnóstico puede retrasarse hasta meses por el bajo índice de sospecha. El análisis con el microscopio de un aspirado de médula ósea es considerado el procedimiento diagnóstico de elección para la confirmación del cuadro. Sin tratamiento es mortal, y la evolución depende del momento en el que se establezca el diagnóstico y se inicie el tratamiento. Se han descrito tasas de curación del 84% en pacientes trasplantados con leishmaniasis visceral, resultado similar al observado en sujetos inmunocompetentes. La anfotericina B liposomal es considerada el fármaco de primera línea en su tratamiento⁶.

Por tanto, la leishmaniasis visceral se debería considerar dentro del diagnóstico diferencial de un cuadro de fiebre y pancitopenia en los pacientes trasplantados. Este es el primer caso de leishmaniasis visceral descrito en un paciente con trasplante aislado de páncreas en nuestro medio.

Bibliografía

1. Casanova D. Trasplante de pancreas en España, más vale tarde que... Cir Esp. 2010;87:4-8.
2. Ryan EA, Bigam D, Shapiro AMJ. Current indications for pancreas or islet transplant. Diabetes Obes Metab. 2006;8:1-7.
3. Braunwald E, Fauci AS, Kasper DL, Hauser SL, Longo DL, Jameson JL, et al. *Harrison Principios de Medicina Interna*. 15 ed. Madrid: Mc Graw Hill; 2002.
4. Choi CM, Lerner EA. Leishmaniasis as an emerging infection. J Invest Dermatol Symp Proc. 2001;6:175.
5. Basset D, Faraut F, Marty P, Dereure J, Rosenthal E, Mary C, et al. Visceral leishmaniasis in organ transplant recipients: 11 new cases and a review of the literature. Microbes and Infection. 2005;7:1370-5.
6. Antinori S, Cascio A, Parravicini C, Bianchi R, Corbellino M. Leishmaniasis among organ transplant recipients. Lancet Infect Dis. 2008;8:191-9.
7. Cruz I, Morales MA, Noguer I, Rodríguez A, Alvar J. Leishmania in discarded syringes from intravenous drug users. Lancet. 2002;359:1124-5.
8. Scope A, Trau H, Bakon M, Yarom N, Nasereddin A, Schwartz E. Imported mucosal leishmaniasis in a travel. Clin Infect Dis. 2003;37:83.
9. Torregrosa JV, Ricart MJ, Montesinos M, Campistol JM, Moreno A, Claramonte X, et al. Visceral leishmaniasis-like cause of unexplained fever in a renal-pancreatic graft recipient. Nephron. 1993;63:318-9.
10. Aardema H, Sijpkens YW, Visser LG. Pancytopenia in a simultaneous pancreas and kidney transplant: an unexpected cause—a case of visceral leishmaniasis in a transplant recipient. Clin Nephrol. 2009;71:460-2.

Natalia Colomo Rodríguez^{a,*}, M. Soledad Ruiz De Adana Navas^a, Stella González Romero^a, Inmaculada González Molero^a y José M. Reguera Iglesias^b

^a Servicio de Endocrinología y Nutrición, HRU Carlos Haya, Málaga, España

^b Servicio de Enfermedades Infecciosas, HRU Carlos Haya, Málaga, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: nataliacolomo@gmail.com (N. Colomo Rodríguez).

doi:10.1016/j.endonu.2011.02.004

Unusual characteristics and fatal outcome of a malignant struma ovarii. Case report and literature review

Características insólitas y resultado fatal de struma ovarii maligno. Informe de caso y revisión de la literatura

Struma ovarii is an uncommon teratoma of the ovary that contains over 50% of thyroid tissue. This tumor accounts for 0.2-1.3% of all ovarian tumors and for 2-4% of all teratomas. Malignancy is reported in 5% to 37% of patients with struma ovarii, with metastases occurring in few cases.¹⁻³ This article reports a patient with some unusual features, including malignancy, metastases, hormone production, and a fatal outcome. Literature is reviewed, and significance of appropriate treatment and follow-up of these patients is emphasized.

A 38-year-old woman was referred to our hospital in 1994 for a second opinion regarding management of a struma ovarii. The disease had been diagnosed at another center in 1981, when she was 25 years old, after right salpingectomy and partial oophorectomy for a right ovarian cyst. At that time, pathological study showed a struma ovarii with no signs of malignancy. In 1993 (at the age of 37 years), patient underwent a left salpingo-oophorectomy and completion of right oophorectomy because of detection of an 8-cm left ovarian mass. Multiple peritoneal nodules were found during surgery, and pathological study found a struma ovarii with positive immunohistochemistry for thyroglobulin. A ¹³¹I scan revealed physiological accumulation of iodine in the thyroid gland and pathological deposits in abdomen. Total thyroidectomy and ¹³¹I ablation therapy were proposed, but the patient refused them.

When patient attended our center in 1994, abdominal computed tomography (CT) showed nodules throughout the peritoneal cavity, and a ¹²³I scan revealed high uptake in the right iliac bone. A bone biopsy identified metastasis from a follicular carcinoma, reporting malignancy for the first time. The patient again refused thyroidectomy and ¹³¹I ablation therapy, but continued to return for follow-up visits.

Between 1994 and September 2008, thyroglobulin levels varied from 600 to 1,600 mcg/L (normal <60 mcg/L) and peritoneal lesions increased in number and size. In September 2008, a whole body positron emission tomography showed lung extension, with several nodules in the right

lobe and invasion of thoracic lymph nodes (fig. 1). A trans-bronchial biopsy was consistent with a poorly differentiated carcinoma and immunohistochemistry was non-conclusive. The patient finally agreed to total thyroidectomy, and the pathology laboratory reported a hyperplastic thyroid gland.

In November 2008, she was admitted for right transverse sinus thrombosis and multiple cerebral infarction from which she recovered completely; no etiology was found. One month later, the patient was readmitted to our center with dyspnea and no symptoms of infection. Chest X-rays showed a bilateral micronodular pattern (fig. 2), serum thyroglobulin level was 6,393 mcg/L, and TSH level was 3.15 mIU/L without thyroid replacement therapy. As the rapid spread of the disease in the lungs was considered the most probable cause of her current condition and thyroidectomy had already been performed, she was treated with 100 mCi of ¹³¹I. Twenty-four hours later, patient experienced left hemiparesia, dysarthria, anosognosia and hemianopsia. A brain CT ruled out hematoma, and a second cerebral ischemic event was diagnosed. Over the following days, patient experienced respiratory insufficiency and worsening of X-ray signs, and finally died.

Struma ovarii is typically diagnosed before menopause. Benign lesions usually occur in the 4th decade of life, and malignant tumors in the 5th decade. The disease generally occurs as a unilateral mass, but up to 6% of cases are bilateral.^{2,4} Most patients are asymptomatic or have nonspecific signs or symptoms such as pelvic pain, menstrual cycle changes, or an abdominal mass.³⁻⁵ Like other ovarian tumors, struma ovarii may also cause ascites and hydrothorax, an indolent condition called pseudo-Meigs syndrome.^{3,6} Hyperthyroidism appears in 5-8% of struma ovarii patients and is more frequent in benign lesions; however, when hyperthyroidism occurs in a malignant lesion, metastases are present in up to 83% of cases and are usually large.^{2,7,8}

Diagnostic imaging techniques such as ultrasonography, CT, or magnetic resonance imaging with gadolinium show a heterogeneous ovarian tumor. Pathological study is the only way to confirm diagnosis of struma ovarii. Gross appearance is a large, green-brown, solid-cystic tumor with other features typical of teratomas.¹ Microscopically, hyperplastic foci, thyroiditis, adenoma, or carcinoma may be seen.^{2,8} Immunohistochemical staining for thyroglobulin, chromogranin, and more recently with TTF-1 (thyroid transcription factor-1) is crucial for diagnosis of struma ovarii and helps differen-