

El uso de MIOP se ha recomendado en pacientes sometidos a PMI en función de un único estudio de localización⁸⁻¹⁰. Si la localización preoperatoria con sestamibi y ultrasonidos no es concordante y el cirujano decide hacer una PMI, está indicado el uso de MIOP ya que la prevalencia de enfermedad multiglandular en este grupo es del 17%⁸⁻¹⁰.

Aunque 2 pacientes, junto a los descritos previamente, son insuficientes para establecer conclusiones, la PMI podría ser una opción válida en pacientes con CTP, incluso con una única técnica de localización como la gammagrafía. El hecho de implicar una disección limitada y la naturaleza dirigida de la técnica en teoría suponen ventajas para el paciente (disminución del riesgo de complicaciones, menor estancia hospitalaria, menor cicatriz) y una disminución en costes, aunque hacen faltan estudios dirigidos para determinarlo con evidencia.

Bibliografía

1. Gracie D, Hussain SS. Use of minimally invasive parathyroidectomy techniques in sporadic primary hyperparathyroidism: Systematic review. *J Laryngol Otol.* 2012;126:221-7.
2. Norman J, Denham D. Minimally invasive radioguided parathyroidectomy in the reoperative neck. *Surgery.* 1998;124:1088-92.
3. Spiros D, Nikolaos R, Ioannis C. Minimally invasive parathyroidectomy in patients with previous endocrine surgery. *JSL.* 2011;15:499-503.
4. Dimas S, Michas S, Christakis I, Augoustis C, Alevizaki M. Minimally invasive parathyroidectomy in patients with previous neck surgery. *Hormones (Athens).* 2012;11:160-5.
5. Kandil E, Malazai AJ, Alrasheedi S, Tufano RP. Minimally invasive/focused parathyroidectomy in patients with negative sestamibi scan results. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* 2012;138:223-5.
6. Mihai R, Barczynski M, Iacobone M, Sitges-Serra A. Surgical strategy for sporadic primary hyperparathyroidism: an evidence-based approach to surgical strategy, patient selection, surgical access, and reoperations. *Langenbecks Arch Surg.* 2009;394:785-98.
7. Karakas E, Müller HH, Schlosshauer T, Rothmund M, Bartsch DK. Reoperations for primary hyperparathyroidism-improvement of outcome over two decades. *Langenbecks Arch Surg.* 2013;398:99-106.
8. Barczynski M, Konturek A, Cichon S, Hubalewska-Dydejczyk A, Golkowski F, Huszno B. Intraoperative parathyroid hormone assay improves outcomes of minimally invasive parathyroidectomy mainly in patients with a presumed solitary parathyroid adenoma and missing concordance of preoperative imaging. *Clin Endocrinol (Oxf).* 2007;66:878-85.
9. Bergenfelz AO, Hellman P, Harrison B, Sitges-Serra A, Dralle H; European Society of Endocrine Surgeons. Positional statement of the European Society of Endocrine Surgeons (ESES) on modern techniques in pHPT surgery. *Langenbecks Arch Surg.* 2009;394:761-4.
10. Harrison BJ, Triponez F. Intraoperative adjuncts in surgery for primary hyperparathyroidism. *Langenbecks Arch Surg.* 2009;394:799-809.

Roberto de la Plaza Llamas*, José Manuel Ramia Ángel, Andréé Wolfgang Kühnhardt Barrantes, Jhonny David Gonzales Aguilar y José del Carmen Valenzuela Torres

Servicio de Cirugía General y del Aparato Digestivo, Hospital Universitario de Guadalajara, Guadalajara, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: rdplazal@sescam.jccm.es (R. de la Plaza Llamas).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.endonu.2015.05.001>

Síndrome de Cushing asociado a oncocitoma adrenocortical



Cushing's syndrome associated with an adrenocortical oncocytoma

Presentación del caso

Las neoplasias oncocíticas u oncocitomas generalmente surgen en órganos como el riñón, la tiroides, la paratiroides, las glándulas salivales o la hipófisis. Los oncocitomas de la corteza suprarrenal son extremadamente raros y generalmente descubiertos como hallazgos incidentales. Se presenta el caso de una paciente con síndrome de Cushing causado por un oncocitoma suprarrenal benigno.

Se trata de una mujer de 61 años de edad remitida en febrero de 2014 a la consulta de Endocrinología por obesidad. En la anamnesis dirigida refería que, a pesar de haber presentado desde los 30 años una tendencia al sobrepeso, dicha tendencia se había exacerbado en el último año, en el que había ganado 10 kg de forma aparentemente

injustificada. También presentaba HTA desde hacía 8 años, en tratamiento actual con 5 fármacos antihipertensivos (ARA II, betabloqueante, alfabloqueante, tiazida y calcioantagonista).

Entre sus antecedentes personales destacaba haber presentado la menopausia a los 50 años; no tenía otros antecedentes personales o familiares de interés.

En la exploración física destacaban un peso de 96,4 kg con IMC de 38,6 kg/m², TA 130/90 mmHg, plétora facial con ligera apariencia de «luna llena», hirsutismo facial, piel atrófica, aumento de grasa cervical posterior y supraclavicular, incremento del perímetro abdominal con redistribución de la grasa y atrofia muscular en los miembros inferiores.

En la analítica solicitada inicialmente se objetivó hemograma con hemoglobina 16,7 g/dl, hematocrito 51,8%, y el resto era normal; bioquímica con glucosa 107 mg/dl, y el resto, normal; sobrecarga oral con 75 g de glucosa: 106-280 mg/dl; cortisol plasmático 15,9 mcg/dl tras 1 mg de dexametasona, y cortisol libre urinario 233,9 mcg/24 h (N=0-100).

Con la sospecha de síndrome de Cushing se llevaron a cabo las siguientes determinaciones, algunas repetidas

en 2 días consecutivos: cortisol plasmático a las 8h: 14,1 y 13,9 mcg/dl, cortisol plasmático a las 23h: 12,3 y 10,9 mcg/dl, ACTH: <5 y <5 pg/ml. Frenación débil con dexametasona (0,5 mg/6 h 2 días): cortisol plasmático 13,7 mcg/dl, cortisol libre urinario 160 mcg/24 h.

Las catecolaminas y metanefrinas en orina de 24 h fueron normales, así como el resto de los andrógenos determinados (testosterona 0,27 ng/ml, androstendiona 2,04 ng/ml, DHEAS 1,3 mcg/ml). Respecto a las gonadotropinas y el estradiol, sus valores fueron: FSH 42,80 mUI/ml, LH 7,21 mUI/ml y estradiol 13 pg/ml.

En la TC abdominal con contraste se objetivó una lesión ovalada, bien definida y homogénea, dependiente de la glándula suprarrenal izquierda, de unos 33 × 30 mm. Las unidades Hounsfield (UH) fueron: sin contraste 23 UH, tras la inyección intravenosa de contraste a los 65 s 102 UH y a los 10 min 40 UH, lo cual evidencia benignidad por producirse un lavado superior al 50%, a pesar de presentar un comportamiento de bajo contenido lipídico y ser más denso de lo normal.

La paciente fue sometida a una suprarrenalectomía laparoscópica izquierda. Se administraron 100 mg de hidrocortisona intravenosa antes de la intervención quirúrgica, que discurrió sin incidentes; la evolución fue favorable, con alta hospitalaria al sexto día postoperatorio. A los 3 meses de la intervención quirúrgica las cifras de TA eran normales sin tratamiento hipotensor, había perdido 4 kg y su aspecto facial pletórico mejoró ostensiblemente. A los 11 meses la paciente continúa en tratamiento sustitutivo con hidrocortisona 30 mg/día, ya que en la última analítica el cortisol tras ACTH pasaba de 3,4 a 7,6 mcg/dl.

El estudio anatomopatológico de la pieza de adrenalectomía mostró, en el examen macroscópico, un tumor redondeado, bien delimitado y encapsulado, de 3 cm de eje mayor y coloración marrón-mahogany al corte. Al

microscopio se observaba una población tumoral con un patrón de crecimiento sólido; más del 50% de las células tumorales presentaban citoplasma eosinofílico y granular. Estas células oncocíticas tenían núcleos con pleomorfismo leve, sin encontrar figuras mitóticas. El estudio inmunohistoquímico resultó positivo para vimentina, alfa-inhibina y melan-A, positivo débil para calretinina y focalmente positivo para sinaptofisina, con ausencia de tinción para cromogranina, S-100, EMA y CD10. El índice de proliferación celular era inferior al 1% (fig. 1).

El oncocitoma es una neoplasia que se caracteriza por estar formada exclusiva o predominantemente por oncócitos, unas células grandes, con citoplasma abundante eosinofílico y granular como consecuencia de la acumulación de mitocondrias. El oncocitoma adrenocortical es extremadamente infrecuente; hasta el momento, y desde su primera descripción en 1986, han sido publicados aproximadamente 148 casos en la literatura¹, en su mayoría, benignos y no funcionantes. Debido a estas características se suelen diagnosticar de forma incidental². Se han descrito en todas las edades, sin una clara preferencia (edad media 47 años, rango 3-77 años), más frecuentemente en mujeres (2,5:1) y en la glándula suprarrenal izquierda (3,5:1). No obstante, alrededor del 20% de los oncócitos adrenales pueden presentar cierto grado de malignidad, y en el 17% de los casos existe hiperproducción hormonal^{3,4}.

La presencia de síndrome de Cushing asociada a un oncocitoma suprarrenal ha sido publicada en muy pocas ocasiones⁵⁻⁸. En nuestro caso, la paciente fue diagnosticada de síndrome de Cushing de origen adrenal, por lo que fue sometida a tratamiento quirúrgico, que es la alternativa terapéutica generalmente indicada⁹, con resolución del hiperfuncionamiento. En el estudio de la pieza quirúrgica hemos aplicado la descripción de Bisceglia et al.¹⁰ para tumores suprarrenales oncócitos, según la cual los

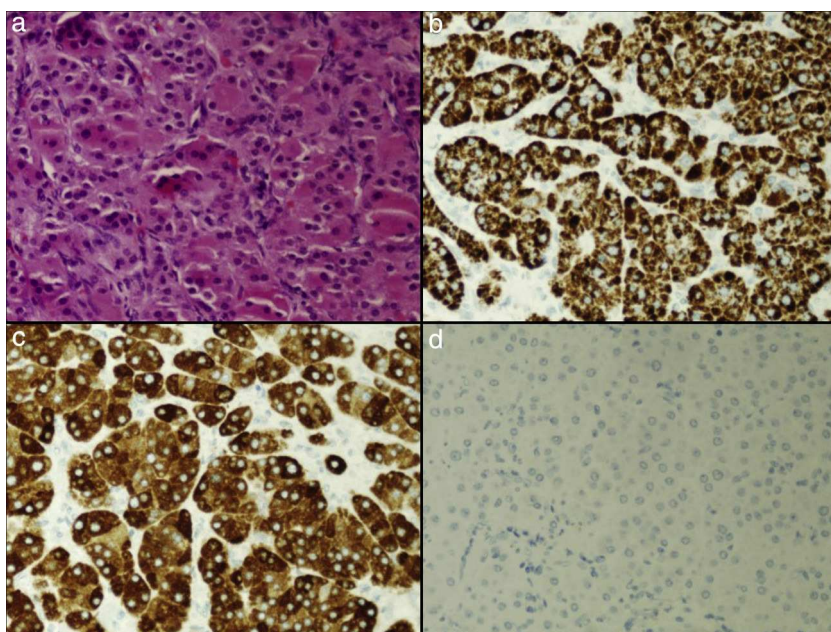


Figura 1 a. Proliferación de células tumorales con amplio citoplasma eosinofílico y granular, con un patrón de crecimiento difuso, en las que se observa pleomorfismo nuclear. b, c y d. El citoplasma de las células tumorales muestra una tinción fuerte y difusa con melan-A y alfa-inhibina, siendo negativo con cromogranina.

tumores suprarrenales compuestos por más del 90% de células oncocíticas se consideran oncocíticos puros (A), aquellos que presentan entre 50-90% de células oncocíticas se consideran oncocíticos mixtos (B), y los que tienen menos del 50% de células oncocíticas se incluyen dentro de los tumores adrenocorticales convencionales con diferenciación oncocítica (C). Nuestro caso se incluye en la categoría B. El perfil inmunohistoquímico del tumor que presentamos es superponible al de las neoplasias adrenocorticales oncocíticas. Estas son típicamente positivas con vimentina, melan-A, alfa-inhibina, sinaptofisina y calretinina, presentando tinción negativa con CK20, cromogranina, S-100, EMA y CD10¹. Existen varias clasificaciones para determinar el comportamiento de las neoplasias adrenales oncocíticas; entre ellas, la que tiene más aceptación es la de Lin-Weiss-Bisceglia². Este sistema propone unos criterios mayores y menores, de tal manera que la presencia de al menos uno de los 3 criterios mayores (índice mitótico mayor de 5 por 50 campos de alto aumento, mitosis atípicas e invasión venosa) indica malignidad, al menos uno de los 4 criterios menores (tamaño mayor de 10 cm y/o más de 200 g de peso, necrosis microscópica, invasión capsular e invasión sinusoidal) comporta un potencial maligno incierto, y la ausencia de criterios mayores y menores implica potencial benigno. En nuestro caso no se han encontrado criterios mayores o menores, por lo cual estamos ante un tumor de potencial benigno.

En el diagnóstico diferencial del síndrome de Cushing de origen suprarrenal, o incluso también del incidentaloma adrenal, ya que la mayoría de los oncocitomas son no funcionantes, debería considerarse el oncocitoma adrenal.

Bibliografía

- Mearini L, del Sordo R, Costantini E, Nunzi E, Porena M. Adrenal oncocyctic neoplasm: A systematic review. *Urol Int*. 2013;91:125–33.
- Bisceglia M, Ludovico O, di Mattia A, Ben-Dor D, Sandbank J, Pasquinelli G, et al. Adrenocortical oncocyctic tumors: Report of 10 cases and review of the literature. *Int J Sug Pathol*. 2004;12:231–43.
- Tahar GT, Nejjib KN, Sadok SS, Rachid LM. Adrenocortical oncocyctoma: A case report and review of literature. *J Pediatr Surg*. 2008;43:E1–3.
- Xiao G, Pertsemlidis D, Unger P. Functioning adrenocortical oncocyctoma. A case report and review of the literature. *Ann Diagn Pathol*. 2005;9:295–7.
- Kabayegit OY, Soysal D, Oruk G, Ustaoglu B, Kosan U, Solmaz S, et al. Adrenocortical oncocyctic neoplasm presenting with Cushing's syndrome: A case report. *J Med Case Rep*. 2008;2:228.
- Lee SS, Baek KH, Lee YS, Lee JM, Kang MI, Cha BY, et al. Subclinical Cushing's syndrome associated with an adrenocortical oncocyctoma. *J Endocrinol Invest*. 2008;31:675–9.
- Sahin SB, Yucel AF, Bedir R, Ogullar S, Ayaz T, Algun E. Testosterone- and cortisol-secreting adrenocortical oncocyctoma: An unusual cause of hirsutism. *Case Rep Endocrinol*. 2014;2014:206890.
- Singhai A, Banzal S. Oncocyctic adrenal tumour presenting as Cushing syndrome: Rare presentation of a rare tumour. *Egypt J Intern Med*. 2014;26:184–5.
- Muñoz de Nova JL, García-Sanz Í, del Campo Val L, Delgado Valdeuza J, Martín-Pérez E. Oncocitoma: una lesión infrecuente en la glándula suprarrenal. *Endocrinol Nutr*. 2015;62:144–5.
- Bisceglia M, Ben-Dor D, Pasquinelli G. Oncocyctic adrenocortical tumors. *Pathol Case Rev*. 2005;10:228–42.

Dulce M. Calderón Vicente^{a,*}, Araceli Ronquillo Rubio^b, Pedro Yunta Abarca^c, Rosa Quílez Toboso^a y Jaime Aranda Regules^a

^a Sección de Endocrinología y Nutrición, Hospital Virgen de la Luz, Cuenca, España

^b Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Virgen de la Luz, Cuenca, España

^c Servicio de Cirugía General, Hospital Virgen de la Luz, Cuenca, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: dmcv2000@yahoo.es

(D.M. Calderón Vicente).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.endonu.2015.04.002>