

de los glucocorticoides) junto a la hipopotasemia crónica, sin haber encontrado otros casos similares descritos en la literatura. La respuesta parcial tras la suprarrenalectomía bilateral apoyaría la hipótesis del daño crónico establecido sobre la pared colónica.

En resumen, se presenta un caso de hipercortisolismo asociado a megacolon, cuya causa puede estar relacionada con el daño estructural inducido por la sobreproducción de cortisol y la hipopotasemia crónica.

Conflicto de intereses

Los autores declaramos no tener conflicto de intereses.

Bibliografía

- Gutiérrez Restrepo J, Latorre Sierra G, Campuzano Maya G. Síndrome de Cushing. *Medicina & Laboratorio*. 2009;15(9-10):411–30.
- Newell-Price J, Bertagna X, Grossman AB, Nieman LK. Cushing's syndrome. *Lancet*. 2006;367:1605–17.
- Carpenter PC. Diagnostic evaluation of Cushing's syndrome. *Endocrinol Metab Clin North Am*. 1988;17(3):445–72.
- Nieman LK. Cushing's syndrome: Update on signs, symptoms and biochemical screening. *Eur J Endocrinol*. 2015;173(4):M33–8.
- Ross EJ, Linch DC. Cushing's syndrome-killing disease: Discriminatory value of signs and symptoms aiding early diagnosis. *Lancet*. 1982;2(8299):646–9.
- Nieman LK, Biller BM, Findling JW, Newell-Price J, Savage MO, Stewart PM, et al. The diagnosis of Cushing's syndrome: An Endocrine Society Clinical Practice Guideline. *J Clin Endocrinol Metab*. 2008;93(5):1526–40.
- Messer J, Reitman D, Sacks HS, Smith H Jr, Chalmers TC. Association of adrenocorticosteroid therapy and peptic-ulcer disease. *N Engl J Med*. 1983;309(1):21–4.
- Carone FA, Liebow AA. Acute pancreatic lesions in patients treated with ACTH and adrenal corticoids. *N Engl J Med*. 1957;257(15):690–7.
- Sterioff S, Orringer MB, Cameron JL. Colon perforations associated with steroid therapy. *Surgery*. 1974;75(1):56–8.
- Abdul Sater Z, Jha S, McGlotten R, Hartley I, el Lakis M, Araque KA, et al. Diverticular perforation: A fatal complication to forestall in Cushing syndrome. *J Clin Endocrinol Metab*. 2018;103(8):2811–4.

Laura Márquez López^{a,*}, Luis Matías Beltrán Romero^a, Miguel Ángel Mangas Cruz^b, Alfonso Pumar López^b y Domingo Acosta Delgado^b

^a Servicio de Medicina Interna, Hospital Universitario Virgen del Rocío, Sevilla, España

^b Servicio de Endocrinología y Nutrición, Hospital Universitario Virgen del Rocío, Sevilla, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: laumarlop92@gmail.com (L. Márquez López).

<https://doi.org/10.1016/j.endinu.2020.02.004>
2530-0164/ © 2020 SEEN y SED. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Priapismo asociado al uso de cabergolina en un adulto joven



Priapism Associated With Cabergoline In A Young Adult

Los prolactinomas son los adenomas hipofisarios más prevalentes. Mientras que son más frecuentes en mujeres con una ratio entre sexos de 10:1, en los varones es más habitual que se presenten en forma de macroprolactinomas. Aunque pueden manifestarse por efecto masa como cefaleas y alteraciones visuales, el hipogonadismo central es el principal síndrome con independencia del tamaño tumoral. Los agonistas dopaminérgicos como la cabergolina son una terapia efectiva para los prolactinomas, consiguiendo una normalización de los niveles de prolactina y disminución del tamaño tumoral. Entre sus efectos secundarios destaca la alteración valvular cardíaca, así como de manera menos frecuente el comportamiento compulsivo y la hipersexualidad¹. Hasta la fecha en la literatura se ha comunicado únicamente un caso de priapismo como efecto secundario de cabergolina². Presentamos otro caso en un adulto joven con un macroprolactinoma.

Paciente varón de 18 años con antecedente de diabetes mellitus tipo 1 desde los 10 meses de vida que presentaba ganancia ponderal de 10 kg en el último año (peso 79,5

kg, talla 1,70 cm), desarrollo puberal incompleto (Tanner III-IV, volumen testicular 12 cc) y una edad ósea de 16,5 años. Analíticamente se objetivó un hipogonadismo hipogonadotropo con niveles de testosterona total de 2,41 ng/mL (2,6-10 ng/mL), LH 1,68 UI/L y FSH 3,33 UI/L. Asimismo, presentaba hiperprolactinemia (192 mcg/L), con el resto de los niveles hormonales hipofisarios conservados y una IGF-1 en rango de la normalidad (228,6 ng/mL). Se practicó una resonancia magnética nuclear que mostró la presencia de un macroadenoma de 12 x 9 mm sin extensión supraselar que producía desplazamiento contralateral del tallo hipofisario, en ausencia de cefalea y de alteración visual en la campimetría por confrontación. Como tratamiento se inició cabergolina a dosis de 0,25 mg, dos veces por semana.

Tras seis meses de tratamiento, el paciente presentó un marcado descenso de la prolactinemia (0,59 mcg/L), asociado a desarrollo puberal clínico (Tanner IV-V, testes 16 cc) y analítico [testosterona total 8,89 ng/mL (2,6-10 ng/mL), LH 3,43 UI/L y FSH 5,14 UI/L], así como a pérdida ponderal de 8,6 kg e incremento estatural de 1 cm. A pesar de la buena evolución, presentó en los siguientes meses episodios semanales de erecciones dolorosas, muy prolongadas y siempre en ausencia de estímulo sexual, teniendo que acudir a Urgencias hasta en seis ocasiones por falta de detumescencia espontánea tras varias horas de evolución. Se practicó análisis gasométrico de sangre aspirada de cuerpos cavernosos, presentando acidosis, hipercapnia e hipoxia

sugestivas de priapismo isquémico. Para revertir los episodios de priapismo se requirió el uso de simpaticomiméticos intracavernosos (adrenalina o efedrina) y aspiración hemática en alguna ocasión. El paciente negó haber consumido drogas de uso recreativo u otros fármacos, más allá de la cabergolina y su tratamiento habitual con múltiples dosis de insulina subcutánea.

Se realizó estudio ambulatorio por parte del urólogo de referencia, con ultrasonografía doppler de arterias cavernosas sin hallazgos destacables, siendo el caso orientado como priapismo probablemente secundario a cabergolina. Ante esta situación, y tras completar un año de tratamiento presentando prolactina baja y reducción tumoral (7 mm), se decidió disminuir la dosis de cabergolina a 0,25 mg/semana. Tras el descenso, el paciente presentó en los siguientes meses episodios semanales de erecciones dolorosas de menos de una hora de duración y con detumescencia espontánea, sin tener que acudir de nuevo a Urgencias. Con prolactina sérica baja (0,66 ng/mL), se decidió disminuir la dosis de cabergolina a 0,125 mg/semana sin presentar a partir de entonces nuevos episodios de priapismo y manteniendo niveles bajos de prolactina (6,96 ng/mL) y estabilidad radiológica (6 mm).

El priapismo isquémico o de bajo flujo es considerado una urgencia urológica y mantenido en el tiempo puede causar daño estructural del tejido eréctil con necrosis y fibrosis de los cuerpos cavernosos. Por este motivo, requiere un rápido diagnóstico y una supresión de los posibles factores desencadenantes. El priapismo puede presentarse como efecto secundario de distintos tratamientos farmacológicos, siendo los más frecuentes los utilizados para la disfunción eréctil. Se han comunicado también casos asociados al uso de anti-depresivos, antipsicóticos y antihipertensivos. En los casos comunicados de priapismo por fármacos no existe correlación entre la dosis o bien la duración de los tratamientos, pudiendo presentarse el priapismo tras la primera dosis o tras un tiempo de tratamiento. En el presente caso el paciente llevaba seis meses en tratamiento con cabergolina.

Además, por la evidente coincidencia temporal y la mejora con la disminución de la dosis de cabergolina, la sospecha de relación causa-efecto radica en la plausibilidad biológica, dado que la dopamina es un neurotransmisor clave implicado en la erección y en el control central de la función sexual, actuando a nivel del área paraventricular hipotalámica³. De hecho, la apomorfina, agonista de los receptores D₁/D₂ dopaminérgicos, es un tratamiento de utilidad en el manejo de la disfunción eréctil.

A pesar de que sólo hemos sido capaces de encontrar un caso reportado con anterioridad de priapismo secundario a cabergolina², son varios los casos documentados con agonistas dopaminérgicos de vida media corta y administración diaria por vía transdérmica utilizados en la enfermedad de Parkinson como la rotigotina⁴. En el sexo femenino también se ha comunicado un caso de priapismo de clítoris secundario a bromocriptina⁵.

En el presente caso también podría relacionarse el priapismo con el aumento de los niveles de testosterona que

presentaba el paciente tras el inicio de cabergolina. Aunque se ha descrito en el curso de tratamiento con testosterona⁶, no hemos encontrado casos de priapismo tras resolución del hipogonadismo en pacientes con hiperprolactinemia.

A pesar de que el priapismo se trate de un efecto adverso de la cabergolina muy infrecuente, consideramos relevante comunicarlo para dar a conocer esta asociación y así llevar a cabo un diagnóstico y tratamiento más precoces.

Financiación

La presente publicación no ha recibido financiación alguna.

Conflicto de intereses

Los autores declaran que no existe ningún potencial conflicto de interés relacionado con este artículo.

Bibliografía

1. Molitch ME. Diagnosis and Treatment of Pituitary Adenomas. *JAMA*. 2017;317(5):516.
2. De La Peña Zarzuelo E, Hernández Cañas V, Llorente Abarca C. Priapismo secundario a tratamiento por cabergolina: primera descripción de esta asociación. *Actas Urol Esp*. 2010;34(5):487-8.
3. Simonsen U, Comerma-Steffensen S, Andersson KE. Modulation of Dopaminergic Pathways to Treat Erectile Dysfunction. *Basic Clin Pharmacol Toxicol*. 2016;119:63-74.
4. Cannas A, Meloni M, Mascia MM, Solla P, Orofino G, Farris R, et al. Priapism and Hypersexuality Associated With Rotigotine in an Elderly Parkinsonian Patient. *Clin Neuropharmacol*. 2016;39(3):162-3.
5. Blin O, Schwertschlag US, Serratrice G. Painful clitoral tumescence during bromocriptine therapy. *Lancet*. 1991;337(8751):1231-2.
6. Albrecht A, Penger T, Marx M, Hirsch K, Dörr HG. Short-term adverse effects of testosterone used for priming in prepubertal boys before growth hormone stimulation test. *J Pediatr Endocrinol Metab*. 2018;(1):21-4.

Alex Mesa^{a,*}, Ignacio Conget^{a,b,c}
y Clara Viñals^a

^a Servicio de Endocrinología y Nutrición, Hospital Clínic de Barcelona, Barcelona, España

^b Institut d'investigacions biomèdiques August Pi I Sunyer (IDIBAPS), Barcelona, España

^c Centro de Investigación Biomédica en Red de Diabetes y Enfermedades Metabólicas Asociadas (CIBERDEM), Madrid, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: almesa@clinic.cat (A. Mesa).

<https://doi.org/10.1016/j.endinu.2020.01.008>
2530-0164/ © 2020 SEEN y SED. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.