



ENDOCRINOLOGÍA Y NUTRICIÓN

www.elsevier.es/endo



CARTAS AL EDITOR

Crisis paratiroidea por adenoma quístico de paratiroides

Parathyroid crisis due to a cystic parathyroid adenoma

Sr. Editor:

La crisis paratiroidea (CP), también conocida como tormenta paratiroidea, o hiperparatiroidismo primario agudo, es una manifestación clínica del hiperparatiroidismo primario (HPP) que constituye una emergencia endocrina, caracterizada por una hipercalcemia grave (>15 mg/dl). En algunos casos la crisis ocurre en pacientes con un hiperparatiroidismo conocido y, en otros, es la primera evidencia de una enfermedad paratiroidea.

Presentamos el caso de una mujer de 53 años que sufrió una CP que puso en evidencia la enfermedad paratiroidea. Como antecedentes personales de interés presentaba endometriosis con ooforectomía izquierda y menopausia a los 40 años. No tenía antecedentes familiares de interés. Acudió a urgencias por estreñimiento y dolor en epigastrio y fosa renal izquierda. La analítica reveló una creatinina de 2,12 mg/dl y urea de 60 mg/dl, y la ecografía abdominal una litiasis renal bilateral con hidronefrosis y atrofia renal derecha, por lo que ingresó en el servicio de Urología para un cateterismo ureteral. Al día siguiente presentó clínica compatible con abdomen agudo, con 17.000 leucocitos y neutrofilia en la analítica y neumoperitoneo en la tomografía axial computarizada (TAC) abdominal. Fue operada de urgencias, objetivándose perforaciones en colon por escíbalos, por lo que se realizó colectomía con ileostomía de descarga. El segundo día de estancia en la Unidad de Cuidados Intensivos presentó un deterioro neurológico llegando al estupor. Se descartó causa farmacológica (benzodiazepinas y opiáceos negativos en orina), infecciosa (punción lumbar sin gérmenes) y neurológica (TAC sin patología intracraneal aguda, electroencefalograma normal). En la analítica del quinto día se detectaron unas concentraciones séricas de calcio de 18,2 mg/dl (8,1-10,2), fósforo de 2,4 mg/dl (2,7-4,5), proteínas de 55,1 g/l (66-87) y albúmina de 23 g/l (35-50), con un calcio corregido de 19,5 mg/dl. La calciuria fue de 1.734 mg (100-230) con una diuresis de 6.200 ml. La concentración sérica de parathormona (PTH) fue de 1.933 pg/ml (12-72). Con el diagnóstico de HPP, se inició tratamiento con infu-

sión de 4 l de suero salino 0,9%, furosemida, calcitonina y bifosfonatos (ácido zoledrónico) por vía intravenosa, recuperándose del estupor en 24 horas. La ecografía tiroidea, la TAC cervical y la resonancia magnética cervico-torácica informaron de un nódulo mixto de 2-3 cm en lóbulo tiroideo derecho (LTD) sin características típicas de paratiroides, aunque sin descartar un adenoma de paratiroides atípico; la gammagrafía con tecnecio-99m sestamibi ($^{99m}\text{Tc-MIBI}$) no puso de manifiesto glándulas paratiroides hiperfuncionantes y el octreoscan mostró hipercaptación a nivel del nódulo del LTD. Se trasladó al servicio de Endocrinología para realización de ecografía-punción aspirativa con aguja fina (PAAF) y completar estudio. La ecografía mostró un nódulo mixto en LTD, de predominio quístico, con área sólida isocogénica, bien delimitado, de 1,71 x 2,34 cm, aparentemente intratiroideo (fig. 1). La PAAF de la zona sólida y quística (3 ml de líquido coloide-hemático) reveló un patrón morfológico e inmunocitoquímico compatible con celularidad paratiroidea. Las hormonas tiroideas fueron normales, tirotrópina (TSH) de 0,46 $\mu\text{UI/ml}$ (0,35-5,5) y tiroxina no unida a proteína (T4L) de 0,84 ng/dl (0,84-1,76). La concentración de PTH en 7 ml de líquido extraído en una segunda aspiración fue >19.000 pg/ml. Las radiografías de manos y cráneo fueron normales, la densitometría ósea mostró osteopenia en fémur y columna lumbar con valores de *T-score* $-1,8$ y $-2,2$ respectivamente. La función renal se normalizó pero no así la calcemia (11,3 mg/dl) por lo que se administró otra dosis de ácido zoledrónico. Se operó al cabo de un mes de la crisis, realizando hemitiroidectomía derecha y paratiroidectomía selectiva inferior derecha, con determinaciones seriadas de PTH previa, a los 5 y 10 minutos de la exéresis con valores de 550, 183 y 83 pg/ml respectivamente. La descripción macroscópica de anatomía patológica fue de un nódulo blanquecino, carnoso, de 3,5 cm de diámetro y 4 g de peso, correspondiente a un adenoma de paratiroides, y la microscópica de una tumoración circunscrita, encapsulada, constituida por células poligonales de citoplasmas amplios y claros, y núcleos redondos sin atipia que se disponen en nidos o en macrofoliculos, con una apariencia sólida en periferia y quística en el centro compatible con adenoma quístico de paratiroides. No se observó invasión vascular ni capsular (fig. 2). Tras 1 mes, la paciente se encontraba asintomática y con una calcemia de 9,3 mg/dl.

La causa más frecuente de HPP es un adenoma único, más común en las glándulas paratiroides inferiores, de 1-3 cm

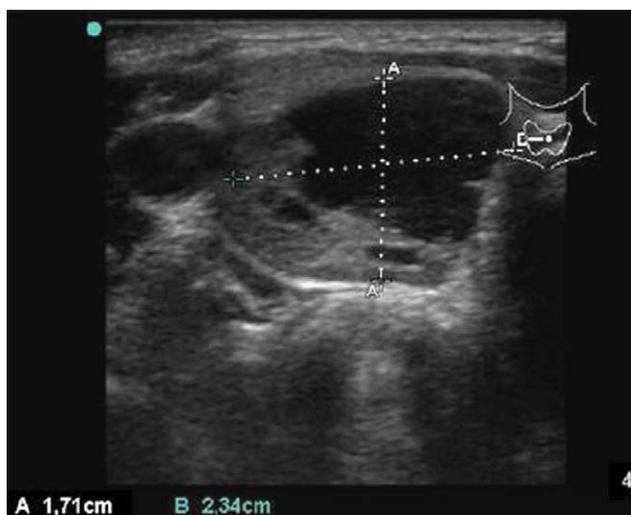


Figura 1 Nódulo mixto de predominio quístico de 1,7 x 2,3 cm en lóbulo tiroideo derecho.

de tamaño, de 0,3-5 g de peso, y en mujeres posmenopáusicas de entre 50-60 años¹.

Actualmente, el 70-80% de los pacientes diagnosticados de HPP están asintomáticos o paucisintomáticos. La CP es una manifestación rara del HPP causada por un adenoma, adenoma quístico, adenoma atípico o carcinoma de paratiroides, con una mortalidad del 100% sin tratamiento y del 20% cuando se combinan tratamiento médico-quirúrgico².

En la CP parecen estar implicados tanto factores intrínsecos (degeneración o infarto agudo de un adenoma preexistente), como extrínsecos (inmovilización o una enfermedad intercurrente, que provoque una deshidratación y disminución de la eliminación de calcio favoreciendo el desarrollo de la crisis, especialmente en el caso de un hiperparatiroidismo preexistente asintomático)^{3,4}. Dichas circunstancias coinciden en nuestra paciente, pues se hallaba en el postoperatorio de una colectomía,

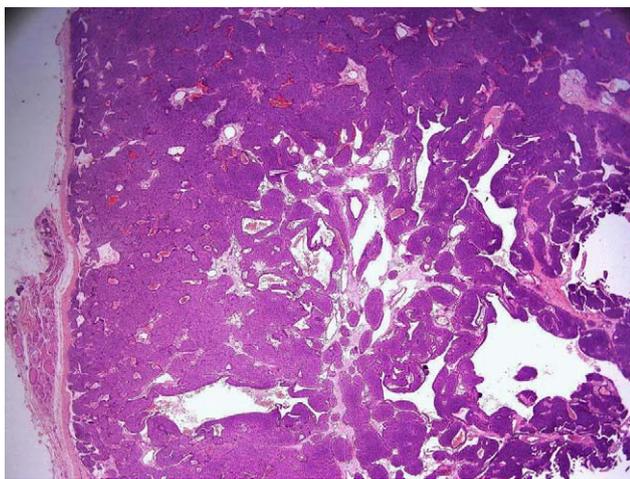


Figura 2 Estudio anatomopatológico que muestra adenoma de paratiroides con una parte sólida en la periferia y quística en el centro.

inmovilizada, con drenajes y sondas que favorecían la deshidratación, presentaba una litiasis renal bilateral que sugería un hiperparatiroidismo preexistente de larga evolución, que no se pudo comprobar por falta de calcemias previas, y un adenoma quístico de paratiroides, como el descrito por otros autores⁵⁻⁸.

Los quistes de paratiroides se clasifican en no funcionales y funcionales, representando estos últimos el 10-15% de todos ellos y asociados a hiperparatiroidismo, hipercalcemia e hipofosfatemia. Los quistes no funcionales suelen contener un líquido claro y transparente, mientras que el de los funcionales suele ser marrón o hemorrágico.

Existen diferentes teorías sobre la etiología de los quistes de paratiroides como la retención de secreciones glandulares, restos embriológicos de la tercera y cuarta bolsa faríngea, degeneración quística de glándulas paratiroides, aumento o coalescencia de microquistes y persistencia de los canales de Kursteiner, aunque ninguna de ellas es aplicable universalmente. Sin embargo, existe más unanimidad sobre la etiología de los quistes funcionales, procediendo de una degeneración quística, infarto o hemorragia de un adenoma preexistente⁷.

El diagnóstico diferencial entre adenoma, adenoma quístico, adenoma atípico y carcinoma radica principalmente a nivel histológico, siendo difícil desde el punto de vista clínico. Las cifras muy elevadas de PTH y calcio se observan preferentemente en el adenoma quístico, atípico y carcinoma. La presencia de una masa cervical palpable de rápido crecimiento y síntomas compresivos locales, como parálisis del nervio laríngeo recurrente, orienta hacia un carcinoma. A nivel histológico, el adenoma no presenta actividad mitótica, ni invasión capsular ni vascular. El adenoma atípico comparte ciertas características con el carcinoma como la presencia de bandas fibrosas, invasión capsular y actividad mitótica pero no invasión vascular ni metástasis, propias del carcinoma^{7,8}.

Los adenomas quísticos de paratiroides se confunden con los quistes de tiroides por técnicas de imagen, por ello, la aspiración con aguja fina y determinación de PTH y tiroglobulina intraquística puede ayudarnos a distinguir entre ambos³. Los quistes funcionales tienen unas concentraciones de PTH intraquísticas superiores a las de los no funcionales, alcanzando en ocasiones, hasta varios millones pg/ml⁸.

Las técnicas de localización más utilizadas son la ecografía cervical y la gammagrafía con ^{99m}Tc-MIBI, con una sensibilidad y especificidad para adenomas únicos que varían según diferentes estudios entre 74-79% y 96% respectivamente para ecografía y entre 58-88% y 96% para gammagrafía. Tublin et al proponen el uso de la ecografía por clínicos experimentados en primer lugar y la gammagrafía cuando los resultados de la ecografía son negativos o ambiguos⁹. La falta de tejido paratiroideo en la periferia del adenoma quístico y el rápido lavado del radiotrazador pueden explicar el falso negativo observado con la gammagrafía con ^{99m}Tc-MIBI⁸.

Ante la falta de resultados concluyentes con la ecografía cervical y la gammagrafía con ^{99m}Tc-MIBI realizadas, y para descartar la producción ectópica de PTH¹⁰, se practicó el octreoscan, que puso en evidencia captación a nivel del LTD pero no a otros niveles. Aunque algunos adenomas de paratiroides expresan receptores de somatostatina¹¹, el octreoscan no es una técnica habitual de localiza-

ción del HPP. La PAAF y la PTH intraquística realizadas posteriormente confirmaron el origen paratiroideo de la PTH.

Respecto al tratamiento de la CP, un rápido reconocimiento de la misma junto con un tratamiento inmediato de la hipercalcemia son imprescindibles para disminuir la mortalidad¹². El tratamiento médico rara vez restablece la normocalcemia, por lo que el tratamiento definitivo es el quirúrgico, con un 98% de curación y 2,3% de complicaciones, cuando es realizado por cirujanos experimentados. Mientras se programa la intervención quirúrgica de forma preferente, se estabiliza al paciente con infusión de 2-4 l de suero salino 0,9%, furosemida, calcitonina y bifosfonatos por vía intravenosa, llegando a precisarse hemodiálisis en determinados casos.

El presente caso pone de manifiesto la necesidad de realizar una calcemia en pacientes sin antecedentes de interés, en los que se detecta un deterioro de la función renal y litiasis renal, para descartar un hiperparatiroidismo primario asociado. Asimismo hay pensar en las alteraciones metabólicas, entre ellas la hipercalcemia, como causa del deterioro del nivel de conciencia e iniciar un tratamiento médico intensivo inmediato.

Bibliografía

- Fraser WD. Hyperparathyroidism. *Lancet*. 2009;374:145–58.
- Ntaios G, Savopoulos C, Chatziniolaou A, Kaiafa G, Hatzitolios A, Karamitsos D. Parathyroid crisis as first manifestation of primary hyperparathyroidism. *Eur J Intern Med*. 2007;18:551–2.
- Marienhagen K, Due J, Hanssen TA, Svartberg J. Surviving extreme hypercalcaemia—a case report of the literature. *J Intern Med*. 2005;258:86–9.
- Fitzpatrick LA, Bilezikian JP. Acute primary hyperparathyroidism. *Am J Med*. 1987;82:275–82.
- Cao H, Lai CK, Head CS, Sercarz JA. Cystic parathyroid presenting as an apparent thyroid goiter. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2008;265:1285–8.
- Halenka M, Frysak Z, Koranda P, Kucerova L. Cystic parathyroid adenoma within a multinodular goiter: a rare cause of primary hyperparathyroidism. *J Clin Ultrasound*. 2008;36:243–6.
- Wani S, Hao Z. Atypical cystic adenoma of the parathyroid gland: case report and review of literature. *Endocr Pract*. 2005;11:389–93.
- Wirowski D, Wicke C, Böhner H, Lammers BJ, Pohl P, Schwarz K, et al. Presentation of 6 cases with parathyroid cysts and discussion of the literature. *Exp Clin Endocrinol Diabetes*. 2008;116:501–6.
- Tublin ME, Pryma DA, Yim JH, Ogilvie JB, Mountz J, Bencherif B, et al. Localization of parathyroid adenomas by sonography and technetium Tc 99m sestamibi single-photon emission computed tomography before minimally invasive parathyroidectomy. Are both studies really needed? *J Ultrasound Med*. 2009;28:183–90.
- VanHouten JN, Yu N, Rimm D, Dotto J, Arnold A, Wysolmerski JJ, et al. Hypercalcemia of malignancy due to ectopic transactivation of the parathyroid hormone gene. *Clin Endocrinol Metab*. 2006;91:580–3.
- Faggiano A, Tavares LB, Tauchmanova L, Milone F, Mansueto G, Ramundo V, et al. Effect of treatment with depot somatostatin analogue octreotide on primary (PHP) in multiple endocrine neoplasia type 1 (MEN1) patients. *Clin Endocrinol*. 2008;69:756–62.
- Van den Hauwe K, Oeyen SG, Schrijvers BF, Decruyenaere JM, Buylaert WA. A 50-year-old man with severe hypercalcemia: a case report. *Acta Clin Belg*. 2009;64:442–6.

Guillermo Serra Soler^{a,*}, Honorato García Fernández^a, Julia Quevedo Juanals^a, Iñaki Argüelles Jiménez^a y Paula Carrillo García^b

^a Servicio de Endocrinología y Nutrición, Hospital Son Espases, Palma de Mallorca, Islas Baleares, España

^b Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Son Espases, Palma de Mallorca, Islas Baleares, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: gserseol@hotmail.com (G. Serra Soler).

doi:10.1016/j.endonu.2010.09.010

Fístula quilosa cervical tras linfadenectomía por carcinoma papilar de tiroides tratada con análogos de la somatostatina

Cervical chyloous fistula after lymphadenectomy for papillary thyroid carcinoma treated with somatostatin analogs

Sr. Editor:

El desarrollo de una fístula quilosa, por lesión del conducto torácico o uno de sus afluentes, tras la disección y/o linfadenectomía cervical, es una complicación infrecuente durante la cirugía del carcinoma tiroideo. Diversas modalidades de tratamiento han sido descritas, siendo la cirugía

una opción reservada al fracaso de las mismas. Describimos un caso de una fístula quilosa en el postoperatorio de una tiroidectomía, con linfadenectomía por carcinoma papilar de tiroides, que se resolvió de forma conservadora con el uso de análogos de la somatostatina (octreótido).

Paciente mujer de 34 años, sin antecedentes de interés, que consultó por un cuadro de hipotiroidismo subclínico. La exploración física puso de manifiesto la presencia de un nódulo pétreo de unos 2 cm, a expensas del lóbulo tiroideo izquierdo, sin palpase adenopatías cervicales. En el estudio preoperatorio se practicó una determinación de hormonas tiroideas y anticuerpos antitiroideos, que no mostraron alteraciones significativas. Una ecografía informó de la presencia de un nódulo de 11 milímetros en lóbulo tiroideo izquierdo con calcificación grosera en su interior. La punción aspiración con aguja fina de la lesión, informó de la presencia de un carcinoma papilar de tiroides, por lo que