



ENDOCRINOLOGÍA Y NUTRICIÓN

www.elsevier.es/endo



CARTAS CIENTÍFICAS

Hallazgo incidental de estruma ovárico

Incidental finding of struma ovarii

Entre los tumores funcionales del ovario, los más frecuentes son los tumores estromales y de los cordones sexuales. Dependiendo de la variante histológica pueden secretar diversas hormonas como estrógenos, andrógenos, gonadotropina coriónica humana (hCG) y hormonas tiroideas. El ovario presenta un desarrollo embriológico complejo por lo que pueden aparecer tumores de muy variada histología¹. El teratoma quístico maduro del ovario o quiste dermoide benigno es la neoplasia ovárica benigna más frecuente y deriva de las células germinales². Puede estar constituido por una amplia variedad de tejidos maduros y desde el punto de vista hormonal puede comportarse como un tumor carcinoide o como una neoplasia secretora de hormonas tiroideas, lo que se conoce como estruma ovárico. El estruma ovárico representa el 3% de los teratomas benignos y puede conllevar una verdadera tirotoxicosis hasta en el 8% de las ocasiones³. Generalmente, el comportamiento es benigno. Se presenta con mayor frecuencia entre la 5.^a y la 6.^a década de la vida, siendo raro antes de la pubertad. En ocasiones puede palpase una masa tumoral anexial unilateral correspondiente al tumor ovárico⁴.

A continuación, presentamos el caso de una paciente con hallazgo incidental de estruma ovárico detectado en el seguimiento de un carcinoma folicular de tiroides. Se trata de una mujer de 32 años de edad que acudió a consulta de Endocrinología para estudio de bocio. La paciente refería la aparición de un bulto en la cara anterior del cuello desde 2 meses antes, sin clínica local ni general sugestiva de disfunción tiroidea. Interrogada, no tenía hábitos tóxicos ni tomaba medicación de forma habitual. Tampoco tenía familiares con bocio. En la exploración física se palpaba un nódulo tiroideo izquierdo de unos 3 cm de diámetro y consistencia media, que ascendía con la deglución, y un lóbulo tiroideo derecho levemente aumentado de tamaño; no se palpaban adenopatías.

Se realizó analítica que mostraba el hemograma y el perfil bioquímico sin alteraciones, tirotropina (TSH) 1,3 mUI/ml (valor normal (VN): 0,2-3,5), tiroxina (T4l) 1,4 ng/dl (VN: 0,8-2,1), y anticuerpos (Ac) antitiroideos y antitiroglobulina negativos ambos. En la gammagrafía se apreciaba un tiroides

de situación normal, de tamaño aumentado, baja captación global y distribución irregular, presentando una zona de hipocaptación en el lóbulo izquierdo que coincidía con el nódulo palpable. La ecografía cervical describía un lóbulo tiroideo izquierdo de 25 × 32 × 58 mm con ecogenicidad conservada, y en tercio medio e inferior se encontraba ocupado por un único nódulo hipoecoico de 24 × 26 × 30 mm y vascularización mixta. El diámetro ántero-posterior del istmo era de 22 mm y no presentaba lesiones parenquimatosas. El lóbulo tiroideo derecho medía 24 × 28 × 49 mm y presentaba ecoestructura conservada. No se apreciaban adenopatías cervicales patológicas. Con tales hallazgos se solicitó una punción aspiración con aguja fina del nódulo. El diagnóstico citológico resultó de tumor folicular.

Se realizó hemitiroidectomía izquierda e istmectomía. El informe anatomopatológico indicaba que se trataba de un carcinoma folicular de 3 cm con focales rasgos oncocitarios en la base del lóbulo izquierdo, por lo que se reintervino realizando tiroidectomía derecha. El informe anatomopatológico del hemitiroides derecho no informó de alteraciones.

Con el diagnóstico de carcinoma folicular de tiroides pT2N0Mx, la paciente recibió posteriormente una dosis ablativa de 100 milicurios (mCi) de I¹³¹ como tratamiento complementario. La analítica pre-I¹³¹ mostraba: TSH 58 mUI/ml, T4l 0,1 ng/dl, tiroglobulina (Tg) 46 ng/ml (VN: 2-16) y Ac-antitiroglobulina negativos. El rastreo corporal total realizada mostraba captación a nivel cervical y otra zona activa en pelvis menor, ligeramente desplazada hacia la derecha, sugestiva de captación ovárica (fig. 1).

Se solicitó valoración por Ginecología. En la ecografía ginecológica se observaba el útero de tamaño normal con un mioma en cara posterior y lateral de 25 mm, ovario derecho con escaso estroma y abundantes folículos (poliquístico), y ovario izquierdo con predominio de tejido folicular. Fue intervenida por vía laparoscópica realizándose ooforectomía derecha. La pieza quirúrgica correspondía a ovario, con 2 pequeñas soluciones de continuidad, que medía 3 cm. El diagnóstico anatomopatológico fue de ovario con notable riqueza folicular y con un fragmento de tejido tiroideo (2 mm) sin alteraciones destacables (estruma ovárico) (fig. 2).

La analítica en la revisión 4 meses después de la dosis ablativa con I¹³¹ fue la siguiente: TSH 0,22 mUI/ml, T4l 1,34 ng/dl, Tg < 0,2 ng/ml, con Ac-antitiroglobulina negativos.

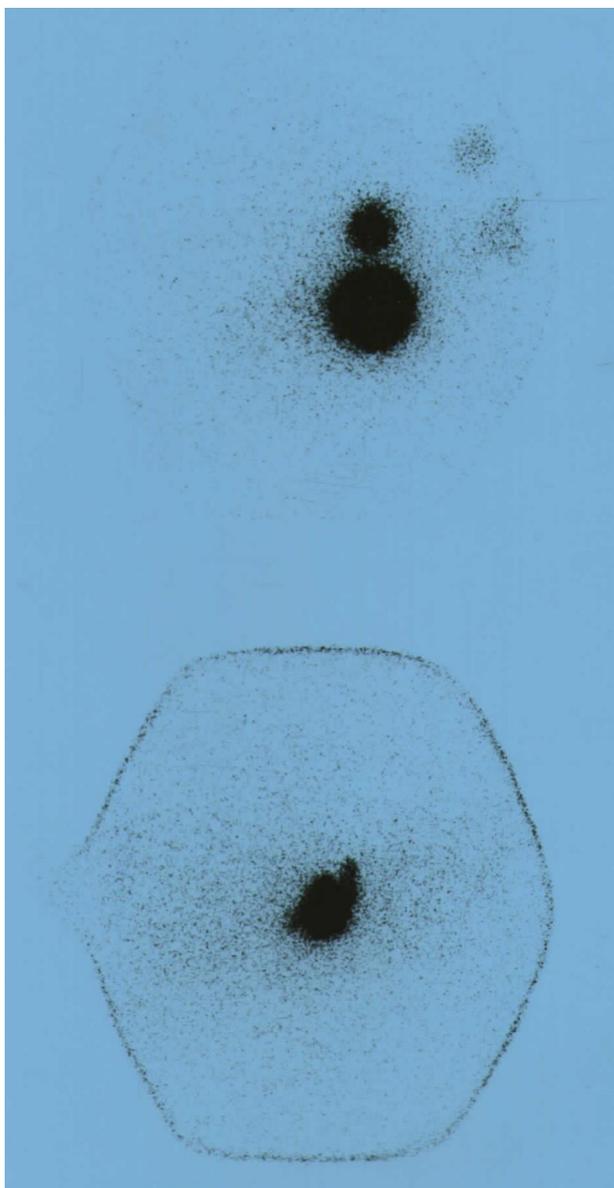


Figura 1 Rastreo corporal total tras tratamiento con I^{131} .

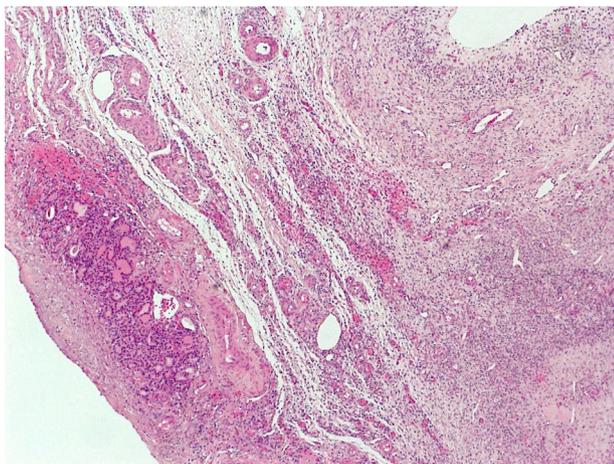


Figura 2 Imagen histológica del struma ovárico en ovario derecho.

Seis meses después se realizó rastreo corporal total tras supresión del tratamiento con levotiroxina, que resultó negativo, siendo la analítica en ese momento: TSH 38 mUI/ml, T4l 0,1 ng/dl, Tg <0,2 ng/ml, Ac-antitiroglobulina negativos. La paciente 2 y 4 años después de este rastreo presentó sendos embarazos, sin ninguna complicación. En las siguientes revisiones persistían datos de remisión completa con Tg <0,2 ng/ml, Ac-antitiroglobulina negativos, y ecografías cervicales normales.

La capacidad para concentrar radioyodo depende de la expresión del transportador de yodo NIS en la membrana celular. Dicha expresión puede detectarse en tejidos extra-tiroideos como el ovario. Ante una captación ovárica de I^{131} debemos establecer diagnóstico diferencial entre estruma ovárico, metástasis ováricas de carcinoma tiroideo y carcinoma tiroideo sobre estruma ovárico⁵. La captación ovárica de I^{131} ha sido descrita en pocas ocasiones en la literatura, probablemente porque el empleo del rastreo corporal total se reserva para carcinomas tiroideos y para hipertiroidismos con tiroidectomía total previa.

Revisando la literatura, hemos encontrado pocos casos descritos de hallazgo incidental de estruma ovárico detectado en el seguimiento de un carcinoma diferenciado de tiroides⁶⁻¹⁰. En 4 de los casos, al igual que en el nuestro, se detectaba el estruma ovárico en el rastreo corporal total tras la dosis ablativa de I^{131} por un carcinoma diferenciado de tiroides^{6,8-10}.

En el presente caso, el estruma ovárico se halló incidentalmente en el seguimiento del carcinoma folicular. Debemos considerar la posibilidad de metástasis ovárica en el diagnóstico diferencial. Dicha posibilidad siempre debe considerarse, especialmente cuando en la pieza quirúrgica ovárica no se identifican otros elementos teratomatosos¹⁰. Las metástasis representan menos del 10% de los tumores malignos del ovario. En caso de metástasis el tumor primario raramente es tiroideo. El estudio anatomopatológico determina si se trata de patología benigna o maligna. En el caso actual, se descartó que se tratara de metástasis del carcinoma folicular. Después de realizar la ooforectomía la Tg basal siempre se ha mantenido indetectable y los posteriores rastreos han sido negativos.

Bibliografía

1. Shanbhogue AK, Shanbhogue DK, Prasad SR, Surabhi VR, Fasih N, Menias CO. Clinical syndromes associated with ovarian neoplasms: a comprehensive review. *Radiographics*. 2010;30:903-19.
2. Choudhary S, Fasih N, Mc Innes M, Marginean C. Imaging of ovarian teratomas: appearances and complications. *J Med Imaging Radiat Oncol*. 2009;53:480-8.
3. Morillo M, Martín F, Muñoz V, González Sicilia Muñoz E, González Sicilia Cotter E, Carrasco S. Ovarian mature teratoma. Clinico-pathological study of 112 cases and review of the literature. *Ginecol Obstet Mex*. 2003;71:447-54.
4. Roth LM, Talerman A. The enigma of struma ovarii. *Pathology*. 2007;39:139-46.
5. Lim ST, Jeong HJ, Chung MJ, Yim CY, Sohn MH. Malignant struma ovarii demonstrated on post-therapy radioiodine scan after total thyroidectomy for papillary thyroid cancer. *Clin Nucl Med*. 2008;33:429-31.
6. Ghander C, Lussato D, Conte B, Mundler O, Taieb D. Incidental diagnosis of struma ovarii after thyroidectomy for thyroid can-

- cer: functional imaging studies and follow-up. *Gynecol Oncol.* 2006;102:378-80.
7. Iavazzo C, Vorgias G, Psarrou A, Lekka I, Katsoulis M. Late struma ovarii diagnosis many years after total thyroidectomy. A rare entity. *J BUON.* 2008;13:573-4.
 8. Macdonald W, Armstrong J. Benign struma ovarii in a patient with invasive papillary thyroid cancer: detection with I-131 SPECT-CT. *Clin Nucl Med.* 2007;32:380-2.
 9. Jammah AA, Driedger A, Rachinsky I. Incidental finding of ovarian teratoma on post-therapy scan for papillary thyroid cancer and impact of SPECT/CT imaging. *Arq Bras Endocrinol Metab.* 2011;55:490-3.
 10. Van Wijk JPH, Broekhuizen-de Gast HS, Smits AJJ, Schipper MEI, Zelissen PMJ. Scintigraphic detection of benign ovarian teratoma after total thyroidectomy and radioactive iodine

for differentiated thyroid cancer. *J Clin Endocrinol Metab.* 2012;97:1094-5.

Jorge Rojo Álvaro*, Emma Anda Apiñániz, Edelmiro Menéndez Torre, Ana Echeگویen Silanes y Juan Pablo Martínez De Esteban

Servicio de Endocrinología, Complejo Hospitalario de Navarra Pamplona, Navarra, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: jorgerojo23@hotmail.com (J. Rojo Álvaro).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.endonu.2012.05.006>

Hipercalcemia hipocalciúrica familiar: una presentación atípica

Familial hypocalciuric hypercalcemia: An atypical presentation

La hipercalcemia hipocalciúrica familiar (HHF) es una entidad de herencia autosómica dominante debida a mutaciones inactivantes en el gen del receptor sensor de calcio (CaSR). Bioquímicamente se caracteriza por hipercalcemia leve-moderada, relativa hipocalciuria y concentraciones de PTH inapropiadamente normales o altas (en el 20%). Clínicamente los pacientes suelen tener pocos o ningún síntoma de hipercalcemia y es excepcional la afectación ósea o renal. Es importante realizar un correcto diagnóstico diferencial entre el hiperparatiroidismo primario (HPP) y la HHF, ya que esta es una patología benigna que no mejora tras paratiroidectomía. Se describen los miembros de una familia con HHF que evidencia la heterogeneidad bioquímica de la misma y la dificultad del diagnóstico diferencial con el HPP.

Las determinaciones de PTH intacta (valor normal: 10-65 pg/ml) se realizaron por electroquimioluminiscencia con analizador ELECSYS. Con el analizador Cobas 711 (Roche Diagnostics) se realizaron las determinaciones de: fósforo (valor normal: 2,7-4,5 mg/dl) por espectrofotometría con molibdato; de calcio (valor normal: 8,6-10,4 mg/dl) por método de Schwarzenbach con o-cresolftaleína complejona y de creatinina (valor normal: 0,67-1,17 mg/dl) por método de Jaffé. Para las determinaciones de calcio (valor normal: 100-320 mg/24 h), fósforo (valor normal: 700-1.500 mg/24 h) y creatinina (valores normales en mujeres 740-1.570 mg/24 h y en hombres 1.040-2.350 mg/24 h) en orina se usaron los mismos métodos que en suero. Las concentraciones de 25 hidroxivitamina D resultaron normales en todos los casos descritos (valor normal: 30-100 ng/ml). Las concentraciones de calcio se expresan corregidas por albúmina [4-albúmina (gr/dl) x 0,8] + calcio (mg/dl). En todos los casos se midió magnesio, gastrina, hormona de crecimiento, factor de crecimiento insulínico 1, TSH, T4 libre, ACTH, cortisol, prolactina, LH, FSH, subunidad alfa y calcitonina, así como de catecolaminas en orina de 24 horas cuyos resultados estaban en el rango normal en todos los casos. La ortopantomografía descartó la presencia de tumores mandibulares

fibróseos y la ecografía renal objetivó riñones de morfología normal en cada uno de los sujetos estudiados. En ningún caso el estudio genético descubrió mutaciones asociadas a los síndromes de neoplasia endocrina múltiple tipo 1.

El caso índice es el de una mujer de 16 años remitida en 1996 para estudio de hipercalcemia. A partir de esa fecha se han estudiado 9 miembros de la familia, estando 6 de ellos afectados. De los 9 miembros, 6 han sido estudiados en el hospital, describiéndose a continuación los 4 afectados y seguidos en nuestro centro (fig. 1). Los otros 3 han sido valorados en otro centro (no disponemos de datos).

El caso índice refería poliuria, polidipsia y epigastralgia. Las determinaciones de laboratorio desde 1996 hasta la actualidad reflejan: calcemia de 10,6 a 11,1 mg/dl, fosfemia de 2,4 a 3,6 mg/dl y PTH de 40,7 a 62,2 pg/ml. Orina de 24 horas: calcio de 127,9 a 179,4 mg/24 h, fósforo de 680 a 870 mg/24 h y Ca/CrCl <0,01 en todas las determinaciones. La gammagrafía con ^{99m}Tc sestamibi no mostró captación patológica. Una densitometría ósea (DMO) realizada a los 23 años fue normal para su edad.

La hermana de la paciente de 20 años, asintomática, presenta en sangre: calcio de 10,5 a 10,9 mg/dl, fósforo de 2,9 a 3,4 mg/dl y PTH de 48,6 a 94,7 pg/ml. En orina de 24 horas: calcio de 174,4 a 231,4 mg/24 h, fósforo de 710 a 1.320 mg/24 h y Ca/CrCl <0,01 en todas las determinaciones. La DMO realizada a los 26 años mostró osteopenia en columna lumbar, fémur y antebrazo.

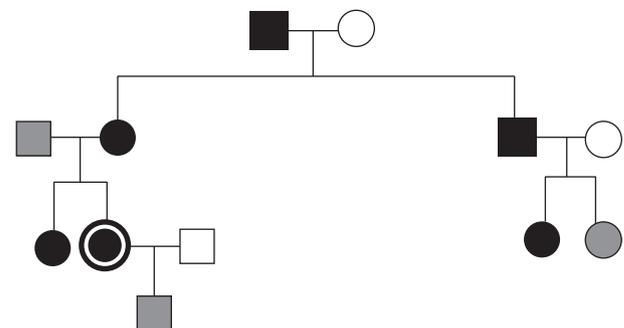


Figura 1 Árbol genealógico de la familia presentada. Círculo: mujeres; Cuadrado: hombres; Negro: pacientes afectados; Sombreado: no afectados.