

2. Brient C, Muller C, Cassagneau P, Taieb D, Sebag F, Henry JR, et al. Kyste bronchogénique rétroperitoneal. *J Chir Visc.* 2012;149:361-3.
3. Runge T, Blank A, Schäfer SC, Candinas D, Gloor B, Angst E. A Retroperitoneal Bronchogenic Cyst Mimicking a Pancreatic or Adrenal Mass. *Case Rep Gastroenterol.* 2013;7:428-32. <http://dx.doi.org/10.1159/000355879>.
4. Dua KS, Vijayapal AS, Kengis J, Shidham VB. Ciliated foregut cyst of the pancreas: Preoperative diagnosis using endoscopic ultrasound guided fine needle aspiration cytology—a case report with a review of the literature. *Cytojournal.* 2009;6:22. <http://dx.doi.org/10.4103/1742-6413.56362>.
5. Goh BK, Chan HS, Wong WK. A rare case of “giant” right-sided retroperitoneal bronchogenic cyst. *Dig Dis Sci.* 2004;49:1491-2.
6. Cai Y, Guo Z, Cai Q, Dai S, Gao W, Niu Y, et al. Bronchogenic cysts in retroperitoneal region. *Abdom Imaging.* 2013;38:211-4. <http://dx.doi.org/10.1159/000355879>.
7. Pidalá MJ, Eisenstat TE, Rubin RJ, Salvati EP. Presacral cysts: Ttransrectal excision in select patients. *Am Surg.* 1999;65:112-5.
8. Díaz Nieto R, Naranjo Torres A, Gomez Alvarez M, Ruiz Rabelo JF, Pérez Manrique MC, Ciria Bru R, et al. Intraabdominal bronchogenic cyst. *J Gastrointest Surg.* 2010;14:756-8. <http://dx.doi.org/10.1007/s11605-009-0932-5>.
9. Woon CS, Pambuccian SE, Lai R, Jessurun J, Woon CS, Pambuccian SE, et al. Ciliated foregut cyst of pancreas:

Cytologic findings on endoscopic ultrasound-guided fine-needle aspiration. *Diagn Cytopathol.* 2007;35:433-8. <http://dx.doi.org/10.1002/dc.20659>.

Ángel García-Romera*, Carlota Tuñón-Féquant, Beatriz Díaz-Pérez, Alberto Bravo-Gutiérrez y Antonio Alarcó-Hernández

Servicio de Cirugía General y del Aparato Digestivo, Hospital Universitario de Canarias, La Laguna, Santa Cruz de Tenerife, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: garcia.romera1988@gmail.com (Á. García-Romera).

<https://doi.org/10.1016/j.ciresp.2020.04.026>
0009-739X/

© 2020 AEC. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Tumores neuroblásticos en el adulto

Neuroblastic tumors in adults



Los tumores neuroblásticos son neoplasias del sistema nervioso simpático originadas a partir de células simpaticoadrenérgicas primitivas formadas en la cresta neural durante el desarrollo embrionario. Son de presentación casi exclusiva en niños, siendo muy raros y de mal pronóstico en el adulto. La localización de estos tumores suele ser intraabdominal, generalmente suprarrenal y siempre que sea posible, su tratamiento es quirúrgico¹. Se presenta el caso de un tumor neuroblástico diagnosticado en un adulto.

Varón de 22 años sin antecedentes personales de interés que se realiza ecografía abdominal en estudio de dolor lumbar leve, inespecífico y autolimitado, con dudas de que tuviera un origen mecánico y/o de vías urinarias. Como hallazgo incidental en dicha ecografía se observa una masa retroperitoneal derecha de gran tamaño. A la exploración, se palpa una masa que ocupa todo el hemiabdomen derecho, con molestias locales leves. El paciente no presentaba clínica obstructiva intestinal, urológica, fiebre ni otra sintomatología. En la analítica presenta un leve aumento de la proteína C reactiva (PCR) (1,40 mg/dL) y una velocidad de sedimentación de 22 mm/h, siendo el resto de parámetros normales. Ingresa para estudio, realizándose una tomografía computarizada (TC) donde se aprecia una voluminosa masa que ocupa hipocondrio y flanco derechos, de 15 cm x 20 cm x 29 cm, que impresiona de tener origen retroperitoneal (proveniente de la glándula suprarrenal como primera posibili-

dad), sin datos de extensión adenopática ni metastásica toracoabdominal (fig. 1 a). También se realiza determinación de catecolaminas/metanefrinas en orina, que son normales. Tras el estudio, se decide practicar una intervención quirúrgica diagnóstico-terapéutica. Mediante laparotomía subcostal bilateral se encuentra una gran tumoración de unos 35 cm x 20 cm que parece originarse en la glándula suprarrenal derecha. Se realizó exéresis de la misma, previa identificación, ligadura y sección de arteria y vena suprarrenales inferiores derechas (fig. 1 b). El estudio histopatológico de la pieza descubre un ganglioneuroblastoma subtipo entremezclado/nodular pobremente diferenciado, de origen suprarrenal, con margen de resección R1. Posteriormente, se le da de alta al paciente a los tres días de la intervención, con controles ambulatorios por parte de Cirugía y Oncología. En rastreo gammagráfico con TC 123 I-MIBG postoperatorio no se evidencia extensión a distancia. Se completa tratamiento con radioterapia, 21 Gy (14 x 1,5 Gy) y tras 22 meses de seguimiento, se encuentra asintomático y sin recaída.

Para valorar la frecuencia del tumor neuroblástico del adulto, se realizó una revisión de la literatura en PubMed, actualizada al 26 de junio de 2019, con la siguiente estrategia de búsqueda: Ganglioneuroblastoma y adulto. Se encontraron 22 casos de neuroblastoma del adulto en la bibliografía actual^{2,3}, de los que un 72% eran hombres. La mediana de

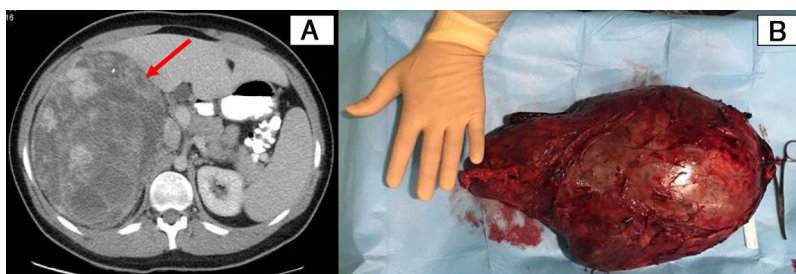


Figura 1 – A. Masa heterogénea de 15 cm x 20 cm x 29 cm que ocupa hipocondrio y flanco derechos de probable origen suprarrenal (se identifica con una flecha). **B.** Pieza quirúrgica ovalada y encapsulada de 35 cm x 20 cm que se corresponde con la masa tumoral descrita en las pruebas de imagen, originada en la glándula suprarrenal derecha.

Tabla 1 – Descripción casuística mundial de los tumores neuroblásticos en el adulto hasta 2019^{2,3}

Autor	Año	Género	Edad	Tamaño (cm)	Metástasis	Tratamiento	Supervivencia (S o SLE)
Butz	1940	Varón	25	-	Hígado	-	-
Cameron	1967	Mujer	58	-	No	Cirugía	41 meses (S)
Takahashi	1988	Varón	21	8,8	Ganglios linfáticos	Cirugía Radioterapia Quimioterapia	8 meses (S)
Koizumi	1992	Mujer	47	9	Médula ósea	-	3 meses (S)
Kishikawa	1992	Varón	29	11	Hueso	Cirugía	-
Higuchi	1993	Varón	29	11	Hueso	Cirugía	10 meses (SLE)
Hiroshige	1995	Varón	35	10	No	Cirugía	24 meses (S)
Mehta	1997	Varón	22	9	-	Cirugía	-
Rousseau	1998	Mujer	-	-	Hígado	Cirugía Radioterapia Quimioterapia	-
Fujiwara	2000	Varón	25	-	No	Cirugía	60 meses (S)
Leavitt	2000	Varón	67	-	No	Cirugía	-
Slapa	2002	Mujer	20	18	No	Cirugía	12 meses (SLE)
Koike	2003	Varón	50	4,5	-	Cirugía	30 meses (S)
Gunlusoy	2004	Varón	59	17	Ganglios linfáticos	Cirugía	-
Mizuno	2006	Varón	53	11	Hueso	Cirugía	30 meses (SLE)
Gupta	2007	Varón	40	-	No	Cirugía	-
Bolzacchini	2015	Varón	63	5	No	Cirugía	6 meses (SLE)
Qiu	2015	Mujer	27	11	No	Cirugía	5 meses (SLE)
Benedini	2017	Mujer	21	11	Ganglios linfáticos	Cirugía	21 (SLE)
Lonie	2017	Varón	27	17	-	Cirugía	-
Heidari	2017	Varón	38	5,5	No	Cirugía	3 meses (SLE)
Ramsingh	2018	Mujer	22	8	Ganglios linfáticos	Cirugía Radioterapia Quimioterapia	-
Caso actual	2019	Varón	22	29	No	Cirugía Radioterapia	22 meses (SLE)

S: supervivencia; SLE: supervivencia libre de enfermedad.

edad de los casos publicados es de 29 años con un rango entre los 21 y 67 años (tabla 1).

Los tumores neuroblásticos se clasifican según la *International Neuroblastoma Pathology Classification* (INPC), en cuatro categorías en función de su morfología, características clínicas y comportamiento: Neuroblastoma, ganglioneuroblastoma nodular, ganglioneuroblastoma entremezclado y ganglioneuroma⁴. Como los paragangliomas y feocromocitomas, algunos tienen la capacidad de sintetizar y secretar catecolaminas y producir los síntomas derivados de su aumento.

Son los tumores sólidos más frecuentes en menores de cinco años. Su presentación en adultos es muy rara, ya que menos del 6% de los casos se diagnostican en mayores de

20 años. Su ubicación con mayor frecuencia suele ser suprarrenal, siguiendo en frecuencia otras localizaciones intraabdominales, torácico, cervical o en ganglios pélvicos. Generalmente debutan como una masa abdominal con dolor abdominal o lumbar asociado, y/o clínica derivada de las metástasis, que suelen afectar a ganglios linfáticos, hueso, órbitas, hígado, piel, pulmón y cerebro. El diagnóstico se realiza con la sospecha clínica y pruebas de imagen como TC o resonancia magnética (RM). Es necesario añadir un estudio de catecolaminas en orina, ya que estos tumores pueden ser funcionantes. Tanto para el estudio de extensión como para la realización del control evolutivo es preciso realizar un rastreo gammagráfico con TC 123 I-MIBG. El tratamiento es quirúrgico,

siempre que sea posible. La quimioterapia se utiliza en estadios avanzados para disminuir el tamaño tumoral, mientras que la radioterapia se emplea como complemento a una cirugía donde no se ha conseguido una resección completa del tumor. El pronóstico en niños es bueno, la supervivencia aumenta a menor edad de inicio. En adultos tienen un mal pronóstico, ya que la supervivencia a los tres y a los cinco años es del 46% y 36%, respectivamente. Todos los casos en adultos que existen en la bibliografía actual, tienen una supervivencia menor a 20 años desde el diagnóstico^{5,6}. El caso presentado es de mal pronóstico dada la edad del paciente y su pobre diferenciación en las características anatomopatológicas, aunque el seguimiento todavía es muy corto para sacar conclusiones pronósticas.

En conclusión, aunque el debut de los tumores neuroblásticos en el adulto es muy infrecuente (existiendo muy pocos casos publicados en la literatura actual) y de mal pronóstico, el caso que aportamos persiste en remisión tras 22 meses de seguimiento después del tratamiento quirúrgico y radioterápico.

BIBLIOGRAFÍA

1. Matthey KK, Maris JM, Schleiermacher G, Nakagawara A, Mackall CL, Diller L, et al. Neuroblastoma. *Nat Rev Dis Primers*. 2016;2:16078.
2. Bolzacchini E, Martinelli B, Pinotti G. Adult onset of ganglioneuroblastoma of the adrenal gland: case report and review of the literature. *Surg Case Rep*. 2015;1:79.
3. Benedini S, Grassi G, Aresta C, Tufano A, Carmignani L, Rubino B, et al. Adrenal Ganglioneuroblastoma in Adults: A Case Report and Review of the Literature. *Case Rep Endocrinol*. 2017;2017:1-7.

4. Lama A. Update on Adrenal Tumors in 20017 World Health Organization (WHO) of Endocrine Tumors. *Endocrine Pathology*. 2017;28:213-27.
5. London WB, Castleberry RP, Matthey KK, Look AT, Seeger RC, Shimada H, et al. Evidence for an age cutoff greater than 365 days for Neuroblastoma Risk Group stratification in the Children's Oncology Group. *J Clin Oncol*. 2005;23:6459-65.
6. Esiashvili N, Goodman M, Ward K, Marcus RB Jr, Johnstone PA. Neuroblastoma in adults: Incidence and a surgical analysis based on SEER data. *Pediatr Blood Cancer*. 2007;49:41-6.

Melody Baeza Murcia^a, Graciela Valero Navarro^{b,*}, Benito Flores Pastor^b, José Andrés García Marín^b y José Luis Aguayo Albasini^c

^aMédico Interno Residente de Cirugía General y Digestiva del Hospital Universitario Morales Meseguer, Murcia, España

^bFEA Cirugía General y Digestiva del Hospital Universitario Morales Meseguer. Profesora asociada de la Universidad de Murcia, Murcia, España

^cJefe de Servicio de Cirugía General y Digestiva del Hospital Universitario Morales Meseguer. Catedrático de la Universidad de Murcia, Murcia, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: valerograciela@gmail.com (G. Valero Navarro).

<https://doi.org/10.1016/j.ciresp.2020.04.025>
0009-739X/

© 2020 AEC. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

Recidiva local de adenomas de paratiroides como causa infrecuente de hiperparatiroidismo primario recurrente



Local relapse of parathyroid adenomas: an uncommon cause of recurrent primary hyperparathyroidism

El hiperparatiroidismo primario recurrente (HPTP-R) se define como la elevación sérica de calcio y parathormona (PTH) después de una paratiroidectomía con normalización de estos parámetros durante al menos 6 meses. Se diferencia del hiperparatiroidismo primario persistente (HPTP-P), en que en este último la hipercalcemia posquirúrgica no se resuelve en este periodo¹. A pesar de los avances en las pruebas

de imagen preoperatorias y manejo quirúrgico, la persistencia/recurrencia de esta enfermedad todavía ocurre en el 2,5%-5,5% del HPTP esporádico^{2,3}.

Las principales causas del HPTP-P son la ausencia de identificación del adenoma y enfermedad multiglandular no diagnosticada o insuficientemente tratada⁴. Entre las causas de HPTP-R se incluyen la recidiva de un carcinoma paratiroideo,