

- results in patients with lung metastases from differentiated thyroid carcinoma. *Eur J Nucl Med Mol Imaging*. 2004;3:825-30.
5. Ronga G, Filesi M, Montesano T, Di Nicola AD, Pace C, Travascio L, et al. Lung metastases from differentiated thyroid carcinoma. A 40 years experience. *Q J Nucl Med Mol Imaging*. 2004;48:12-9.
 6. Cooper DS, Doherty GM, Haugen BR, Kloos RT, Lee SL, Mandel SJ, et al. Management Guidelines for Patients with Thyroid Nodules and Differentiated Thyroid Association Guidelines Taskforce. *Thyroid*. 2009;19:223-233.
 7. Sarlis NJ. Metastatic thyroid cancer unresponsive to conventional therapies: novel management approaches through translational clinical research *Curr Drugs Targets Immune Endocr Metabol Disord*. 2001;1:103-15.
 8. Kloos RT, Ringel MD, Knopp MV, Hall NC, King M, Stevens R, et al. Phase II trial of sorafenib in metastatic thyroid cancer. *J Clin Oncol*. 2009;27:1675-84.
 9. Zhang J, Yang PL, Gray NS. Targeting cancer with small molecule kinase inhibitors. *Nat Rev Cancer*. 2009;9:28.
 10. Schlumberger M, Sherman SI. Clinical trials for progressive differentiated thyroid cancer: patient selection, study design, and recent advances. *Thyroid*. 2009;19:1393-9.
 11. Gupta-Abramson V, Troxel AB, Nellore A, Puttaswamy K, Redlinger M, Ransone K, et al. Phase II trial of sorafenib in advanced thyroid cancer. *J Clin Oncol*. 2008;26:4714-9.
 12. Cabanillas ME, Waguespack SG, Bronstein Y, Williams MD, Feng L, Hernández M, et al. Treatment with tyrosine kinase inhibitors for patients with differentiated thyroid cancer: the M D. Anderson experience. *J Clin Endocrinol Metab*. 2010;95:2588-93.
- M. del Carmen Cabrejas Gómez^{a,*}, Esperanza Aguillo Gutiérrez^a, Jara Altemir Trallero^a, Julia Ocón Bretón^a
- y Javier Lázaro Sierra^b
- ^a Servicio de Endocrinología y Nutrición, H.C.U. Lozano Blesa, Zaragoza, España
^b Servicio de Neumología, H.C.U Lozano Blesa Zaragoza, España
- * Autor para correspondencia.
 Correo electrónico: carmenmallen2000@yahoo.es (M.d.C. Cabrejas Gómez).
- doi:10.1016/j.endonu.2011.05.011

Hemangioma cavernoso adrenal de gran tamaño como hallazgo inesperado tras estudio de masa abdominal

Large adrenal cavernous hemangioma as an unexpected finding after work-up of an abdominal mass

Los hemangiomas cavernosos (HC) son tumores benignos que aparecen con frecuencia en localizaciones como la piel y a nivel hepático, siendo extremadamente rara su aparición en las glándulas suprarrenales¹. Aunque el primer caso de hemangioma cavernoso adrenal (HCA) fue comunicado en 1955², sólo se han descrito hasta la fecha actual aproximadamente 60 casos en la literatura médica. Suelen ser lesiones unilaterales en la mayoría de los casos, hormonalmente no funcionantes y con una edad de aparición entre los 50 y 70 años de edad, con predilección por el sexo femenino en una proporción de 2:1³. Su diagnóstico diferencial con el carcinoma suprarrenal constituye un reto para el clínico, ya que son habitualmente tumores muy grandes y aunque presentan algunas características típicas en los estudios radiológicos, la gran mayoría se descubren tras la cirugía y posterior estudio histológico.

Presentamos el caso de un varón de 65 años remitido a nuestras consultas de Endocrinología por el hallazgo ecográfico de una masa abdominal probablemente dependiente de la adrenal izquierda. El paciente acudió en primer lugar a consultas de Digestivo por dolor continuo y persistente en flanco izquierdo en los últimos 3 meses. La exploración abdominal en dichas consultas evidenció una masa palpable a dicho nivel, realizándole una ecografía abdominal que mostró un nódulo heterogéneo de bordes lobulados y apro-

ximadamente 7,5 x 6 cm de diámetro en polo superior del riñón izquierdo, en probable relación y origen en la suprarrenal izquierda.

Como antecedentes personales destacaba una diabetes mellitus tipo 2 (DM 2), hipertensión arterial (HTA) y dislipemia, las cuales estaban bien controladas con el tratamiento médico correspondiente. Era fumador de 2 paquetes al día y había sufrido un accidente isquémico transitorio carotídeo derecho previamente. En la exploración clínica en consultas de Endocrinología, presentaba un peso de 78,7 kg con talla de 172 cm e IMC de 26,6 kg/m². La presión arterial era de 137/85 mmHg. La exploración por órganos y aparatos fue anodina, excepto por una dudosa masa palpable a nivel del flanco izquierdo.

En la analítica, presentaba un hemograma con las tres series y coagulación normales. La bioquímica completa con perfil renal, hepático, óseo y lipídico fue normal. Niveles de HbA1c de 5,4%. TSH y T4L normales. Cortisol basal de 12,53 µg/dl (niveles normales entre 6-28) y ACTH de 17 pg/ml (normal entre 7,2-63,3). Cortisol libre urinario (CLU) normal de 88 µg/24 h. Niveles de testosterona total y libre, dehidroepiandrosterona sulfato (DHEA-S), prolactina y 17-OH progesterona normales. Marcadores tumorales: alfa fetoproteína, β-HCG, antígeno carcinoembrionario (CEA), CA 19.9, CA 125, cyfra 21.1 y antígeno específico prostático (PSA), fueron todos normales. Catecolaminas y metanefrinas en orina de 24 horas tras dieta de 5 días fueron normales en 2 ocasiones consecutivas. Los niveles de cortisol basal tras frenación con 1 mg de dexametasona (DXM) nocturna fueron de 4,89 mcg/dl. Posteriormente se realizó frenación nocturna con 3 mg de dexametasona (DXM), siendo el cortisol basal tras la prueba de 1,6 mcg/dl.

Tras estos hallazgos, se solicitó un estudio mediante resonancia magnética (RM) con gadolinio que mostró una lesión bilobulada de 8 x 6 cm de diámetro, de señal hete-

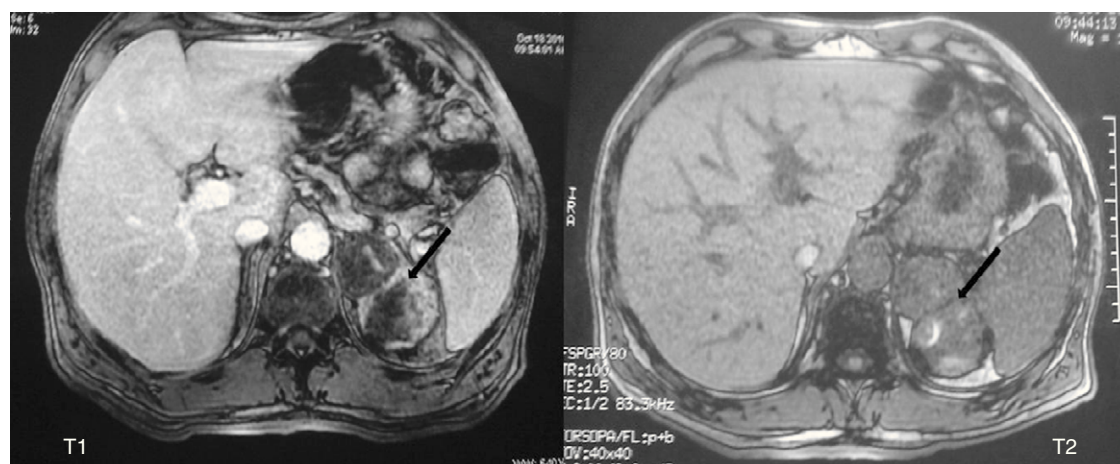


Figura 1 RM abdominal: lesión bilobulada de 8x6 cm de diámetro, de señal heterogénea en secuencias T1 y T2 compatible con tumoración adrenal izquierda, probablemente carcinoma adrenal.

rogénea en secuencias T1 y T2 en relación con pequeños focos hemorrágicos en su interior, existiendo realce heterogéneo tras la administración del contraste, compatible con lesión/tumoración adrenal izquierda, probablemente carcinoma adrenal, aunque no se pudiera descartar feocromocitoma (fig. 1). Ante la duda de un posible feocromocitoma, y a pesar de que ya teníamos dos estudios de catecolaminas consecutivos negativos, decidimos realizar un estudio isotópico gammagráfico con metayodobenzilguanidina (MIBG), el cual fue también negativo.

Tras el exhaustivo estudio diagnóstico y, teniendo en cuenta el resultado de nuestras pruebas complementarias, se consideró en primer lugar el posible diagnóstico de carcinoma adrenal izquierdo y se decidió el tratamiento quirúrgico de la masa para el consiguiente estudio histológico. Tras el visto bueno por el Servicio de Anestesia, se practicó adrenalectomía izquierda mediante abordaje subcostal izquierdo. El examen macroscópico mostró una pieza de adrenalectomía con peso de 164,5g y de 8,5x6x4 cm de diámetro con superficie muy vascularizada y con 2 nódulos de 4,3 y 4,2 cm bien delimitados de coloración parduzca rojiza (fig. 2). Al microscopio existía una tumoración bien delimitada por cápsula fibrosa con dos nódulos compuestos por

proliferación de vasos sanguíneos dilatados con endotelio sin atipias ni mitosis, hematíes con proliferación endotelial y áreas de infarto con hemorragia y fibrina. El diagnóstico histológico definitivo fue de hemangioma cavernoso adrenal izquierdo de gran tamaño.

A pesar de que el HC es un tumor benigno frecuente en ciertas localizaciones, como puede ser a nivel hepático, es extremadamente raro su origen en las glándulas adrenales. La importancia de nuestro caso radica en la complejidad del diagnóstico preoperatorio de este tumor, siendo difícil su diagnóstico diferencial con el carcinoma adrenal y, en determinadas ocasiones, con el feocromocitoma⁴. Además, se han descrito casos de hemorragias retroperitoneales espontáneas masivas como complicación del HC adrenal de gran morbilidad⁵.

Existen signos radiológicos típicos, aunque no específicos de HC adrenal, que nos pueden orientar hacia su diagnóstico. En la tomografía computarizada (TAC), se presenta como una masa bien delimitada con áreas de calcificación y zonas grasas. En los estudios dinámicos tras la administración de contraste intravenoso se observa un realce progresivo del contraste desde la periferia hacia el centro del tumor. En la RM se muestra como una masa heterogénea, de baja

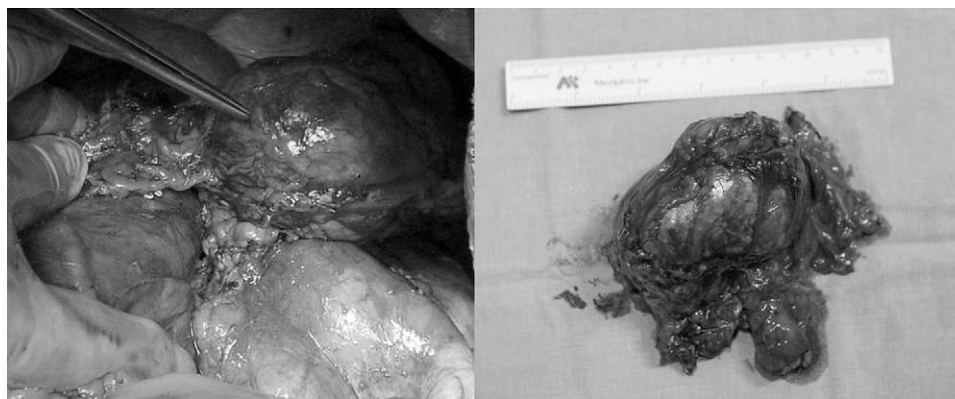


Figura 2 Imagen macroscópica en el postoperatorio inmediato: pieza de adrenalectomía de 8,5x6x4 cm de diámetro con superficie muy vascularizada y 2 nódulos de 4,3 y 4,2 cm bien delimitados de coloración parduzca rojiza.

intensidad de señal en secuencias potenciadas en T1 y de alta intensidad de señal en secuencias en T2. En la serie dinámica tras la administración de gadolinio presenta un realce periférico tardío⁶. Nuestro paciente se realizó un primer estudio radiológico mediante ecografía abdominal y se decidió realizar RM adrenal posterior como técnica radiológica confirmatoria. Se describieron signos que podrían ser sugestivos de HC adrenal, como el tamaño, los pequeños focos hemorrágicos y el realce heterogéneo del contraste. La rareza de la patología y el gran tamaño hicieron pensar en primer lugar en un carcinoma adrenal izquierdo como diagnóstico más probable.

Aunque la gran mayoría de los HC adrenales descritos no son funcionantes, se ha documentado algún caso excepcional de producción de catecolaminas e incluso aldosterona por el tumor, por lo que la hipersecreción hormonal no descarta el diagnóstico⁷. En el caso descrito, el paciente con sobrepeso grado I, DM tipo 2, HTA y dislipemia, presentó una supresión inadecuada del cortisol al test de frenación con 1 mg de DXM nocturno. Los niveles de ACTH y CLU en 24 h estaban dentro del rango de normalidad. Al repetir el test de frenación con 3 mg de DXM nocturna, tal y como está descrito por algunos autores para evitar falsos positivos⁸, obtuvimos un cortisol basal suprimido de forma adecuada. De esta forma, nos aseguramos que no existía producción autónoma de cortisol significativa, no siendo necesaria la utilización de corticoterapia perioperatoria. Es posible que si el tumor hubiera seguido creciendo, con el paso de los años, la secreción de cortisol se hubiera vuelto autónoma, dando lugar a un síndrome de Cushing, el cual sí precisaría del uso de esteroides durante y tras la cirugía.

En conclusión, el HC adrenal es un tumor raro que debe incluirse en el diagnóstico diferencial de las masas adrenales, sobre todo si son de gran tamaño, unilaterales y presentan signos radiológicos sugerentes.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Heis Ha, Bani-Hani KE, Bani-Hani BK. Adrenal cavernous hemangioma. *Singapore Med J*. 2008;49:236–7.
2. Johnson CC, Jeppesen FB. Hemangioma of the adrenal. *J Urol*. 1955;74:573–7.
3. Aljabri KS, Bokhari SA, Alkeraithi M. Adrenal hemangioma in a 19-year-old female. *Ann Saudi Med*. En prensa 2011.
4. Oh BR, Jeong YY, Ryu SB, Park YI, Kang HK. A case of adrenal hemangioma. *Int J Urol*. 1997;4:608–10.
5. Forbes TL. Retroperitoneal hemorrhage secondary to a ruptured cavernous hemangioma. *Can J Surg*. 2005;48:224–5.
6. Arkadopoulos N, Kyriazi M, Yiallourou AI, Stafyla VK, Thodosopoulos T, Dafnios N, et al. A rare coexistence of adrenal cavernous hemangioma with extramedullary hemopoietic tissue: a case report and brief review of the literature. *World J Surg Oncol*. 2009;5:13.
7. Ng AC, Loh HL, Shum CF, Yip SK. A case of adrenal cavernous hemangioma presenting with progressive enlargement and apparent hormonal hypersecretion. *Endocr Pract*. 2008;14:104–8.
8. Reincke M. Subclinical Cushing's syndrome. *Endocrinol Metab Clin North Am*. 2000;29:43–56.

Daniel Jesús González Duarte^{a,*},
Mercedes Serrano Romero^b,
Lourdes García García-Doncel^a, Gloria Baena Nieto^a
y Pablo Sáenz De Tejada Valdivia^c

^a Sección de Endocrinología y Nutrición, Hospital Punta de Europa de Algeciras, Cádiz, España

^b Sección de Aparato Digestivo, Hospital Punta de Europa de Algeciras, Cádiz, España

^c Servicio de Cirugía General y Aparato Digestivo, Hospital Punta de Europa de Algeciras, Cádiz, España

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: dgduarte@hipocampo.org
(D.J. González Duarte).

doi:10.1016/j.endonu.2011.05.013