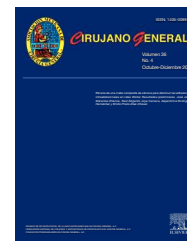




Cirujano General

www.elsevier.es/cirujanogeneral



REPORTE DE CASO

Incidentalomas adrenales: a propósito de un mielolipoma

Roberto Bautista Olayo, Pedro San Cristobal Zepeda, Mario Guzman Gutierrez, Hector Santiago Diliz Perez y Alejandro Rossano Garcia*

Departamento de Trasplantes, Hospital General de México Eduardo Liceaga, México

Recibido el 1 de julio de 2014; aceptado el 30 de agosto de 2014

PALABRAS CLAVE

Glándula suprarrenal;
Mielolipoma

Resumen

Introducción: A los tumores en la glándula suprarrenal mediante estudios realizados por una indicación no relacionada se les conoce como “incidentalomas”. Son lesiones raras que se puede encontrar en hasta un 4% de la población joven, pero hasta el 10% de los pacientes entre la quinta y la séptima década de la vida. El advenimiento de los modernos métodos diagnósticos de imagen como la tomografía computarizada y la resonancia magnética han incrementado considerablemente su diagnóstico y cada vez resulta más común enfrentarse a ellos. El espectro en el tipo de lesión es amplio. Pueden ser: lesiones benignas, malignas, funcionales o no, y su hallazgo obliga a realizar un protocolo de diagnóstico que busque establecer su naturaleza y definir un plan terapéutico, que puede ser quirúrgico o no.

Reporte de caso: Presentamos el caso de una paciente de 60 años de edad atendida en nuestro servicio por dolor inespecífico en hipocondrio derecho compatible con cólico biliar, ante el hallazgo en ultrasonografía (que se completó con una tomografía abdominal y con sospecha de tumor hepático) de una lesión dependiente de glándula suprarrenal derecha. Tras realizar el protocolo diagnóstico y por las características de la lesión, se realizó resección de un tumor quístico complejo de 15 × 13 × 10 cm dependiente de la glándula suprarrenal derecha, cuyo análisis histopatológico correspondió a un mielolipoma suprarrenal. La evolución postoperatoria de la paciente fue favorable, egresó al tercer día y se mantenía asintomática al momento de este reporte.

Conclusión: Los incidentalomas son lesiones a las que los cirujanos nos enfrentamos hoy con mayor frecuencia debido a la disponibilidad de mejores recursos diagnósticos de imagen. Ante su hallazgo, debemos realizar un protocolo completo de evaluación para establecer la naturaleza de la lesión. La cirugía estará indicada en todos los casos en que se sospeche malignidad o en aquellos que, considerados benignos, produzcan síntomas, sean tumores grandes (> 4 cm) o secretores, y cuando durante el seguimiento el tumor presente cambios en sus características que pudieran asociarse a complicaciones mayores como malignización o sangrado. Si las condiciones del tumor y la experiencia del cirujano lo permiten, el abordaje laparoscópico será la primera opción.

© 2014 Asociación Mexicana de Cirugía General, A.C. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

*Autor para correspondencia: Hospital General de México, route 304-b, Dr. Balmis #148, Colonia Doctores, Delegación Cuauhtémoc, CP 06726 México. Teléfono +52 (55) 2789 2000, ext. 1253.

Correo electrónico: alexrossano@yahoo.com (A. Rossano Garcia).

KEYWORDS

Glandula suprarrenal;
Mielolipoma

Adrenal Incidentalomas: A case of Myelolipoma**Abstract**

Introduction: A tumor in the adrenal gland from studies performed for an unrelated indication they are known as "incidentalomas". Are rare lesions that can be found in up to 4% of young people, but up to 10% of patients between the fifth and seventh decade of life. The advent of modern diagnostic imaging methods such as computed tomography and magnetic resonance imaging have significantly increased their diagnosis and becoming increasingly common face them. The spectrum on the type of injury is extensive. They can be: benign, malignant, or not functional injuries and their finding undertakes to perform a diagnostic protocol seeking to establish their nature and define a treatment plan that can be surgical or not.

Case report: We report the case of a 60 year old in our service attended by nonspecific pain in right hipocondrio compatible with biliary colic, before the discovery in ultrasonography (completed with a suspected abdominal CT and liver tumor) of a dependent injury right adrenal gland. After the diagnosis and by the characteristics of the lesion protocol, resection of a cystic tumor complex of $15 \times 13 \times 10$ cm depending on the right adrenal gland, histopathological analysis was performed which corresponded to adrenal Myelolipoma. The postoperative course of the patient was favorable, he graduated the third day and remained asymptomatic at the time of this report.

Conclusion: Incidentalomas are injuries to surgeons facing today more frequently due to the availability of better diagnostic imaging resources. Before his discovery, we perform a complete evaluation protocol to establish the nature of the injury. Surgery is indicated in all cases where malignancy is suspected or those considered benign, symptoms occur, whether large tumors (>4 cm) or secretory, and when the tumor during follow present changes in their characteristics could be associated with greater complications as malignant or bleeding. If the conditions of the tumor and the surgeon's experience allow, the laparoscopic approach will be the first choice.

© 2014 Asociación Mexicana de Cirugía General, A.C. Published by Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

Introducción

A los tumores en la glándula suprarrenal mediante estudios realizados por una indicación no relacionada se les conoce como "incidentalomas". Son lesiones raras que se puede encontrar en hasta un 4% de la población joven, pero hasta el 10% de los pacientes entre la quinta y la séptima década de la vida. El advenimiento de los modernos métodos diagnósticos de imagen como la tomografía computarizada y la resonancia magnética han incrementado considerablemente su diagnóstico y cada vez resulta más común enfrentarse a ellos. El espectro en el tipo de lesión es amplio. Pueden ser: lesiones benignas, malignas, funcionales o no, y su hallazgo obliga a realizar un protocolo de diagnóstico que busque establecer su naturaleza y definir un plan terapéutico, que puede ser quirúrgico o no.

Reporte de caso

Una mujer de 60 años fue referida a nuestro servicio por la presencia de un tumor hepático por tomografía y clínicamente con dolor abdominal inespecífico en cuadrante superior derecho de 3 meses de evolución, fijo, de moderada intensidad y con irradiación a región escapular homolateral, sin más síntomas acompañantes. Entre sus antecedentes de importancia está que 16 años antes fue operada de histerectomía por miomatosis uterina; padecía hipertensión arterial desde 8 años antes, en tratamiento con metoprolol

100 mg/12 h y control regular. En la exploración física se encontró a una paciente obesa (peso, 98 kg; talla, 153 cm; índice de masa corporal, 41.9). Sus signos vitales eran: frecuencia cardíaca (FC), 88 lpm; frecuencia respiratoria (FR), 20 rpm; presión arterial, 120/90 mmHg, y temperatura, 37 °C. Presentaba limitación a la movilización y deambulación, adecuada coloración mucotegumentaria, sin afección cardiopulmonar alguna y con un abdomen globoso a expensas de panículo adiposo; a la palpación refiere dolor 2/10 en hipocondrio derecho, sin lograrse palpar alguna lesión; no presenta otros signos de irritación peritoneal y en la auscultación la peristalsis es adecuada. En las extremidades inferiores observamos datos de insuficiencia venosa crónica; pulsos y reflejos normales. Sus estudios de laboratorio se muestran en la tabla 1.

La tomografía computarizada (TC) motivo de su envío (figura 1) mostro una lesión dependiente de la glándula suprarrenal derecha de forma ovoide, 10×9 cm aproximadamente y bordes definidos y regulares con patrón de atenuación heterogéneo (-12 UH), que no se reforzaba con la administración de medio de contraste. Tras realizarse las valoraciones cardiovascular y anestésica, fue programada para resección, la cual se realizó con técnica abierta e incisión subcostal derecha. Se encontró una lesión quística dependiente de la glándula suprarrenal del mismo lado (figura 2) y con unas dimensiones aproximadas de $15 \times 13 \times 10$ cm, bordes regulares, blanda y con áreas blanquecinas, ligeramente adherida a estructuras adyacentes, principalmente a la cava, aunque también a los segmentos V y VI hepáti-

cos, y cubriendo casi la mitad superior del riñón, aunque sin invasión local ni adenomegalias. Realizamos una resección completa, con un sangrado de 350 ml y un tiempo quirúrgico de 110 min. El postoperatorio transcurrió sin incidentes. Se inició dieta y deambulación en las siguientes 12 h. Se pudo darle el alta el tercer día posquirúrgico en condiciones de estabilidad. En las consultas de control se la encontró asintomática y restablecida en actividades cotidianas desde la tercera semana posterior a la cirugía. El estudio histopatológico del espécimen obtenido fue de mielolipoma suprarrenal derecho.

Discusión

El hallazgo de un tumor en la glándula suprarrenal mediante un estudio de imagen realizado por una indicación no relacionada se conoce como incidentaloma¹. En su mayoría benignos y no funcionales, se los consideraba raros, con incidencias desde el 0.4% de la población general²³, pero con el uso de las nuevas técnicas de imagen cada día nos enfrentamos a ellos con más frecuencia.

La incidencia varía según las series. En los estudios de Baizon et al y Kloos et al¹⁻³ que consideraron incidentaloma las lesiones > 1 cm, de 71,206 casos de necropsias, encontraron una frecuencia del 2.3%, sin predominio de sexo y con mayor número a mayor edad. En la población joven, la incidencia es < 1%; después de los 50 años aumenta al 3% y puede llegar hasta el 15% de los mayores de 70 años⁴.

Los modernos estudios de imagen como la tomografía computarizada (TC) y la resonancia magnética (RM) nos han permitido identificar estos tumores, antes inadvertidos, en estadios más tempranos. En un 2-10% de los estudios de imagen se puede identificar tumores suprarrenales silentes²¹. Cuando son de menor tamaño, y muchos de ellos sin capacidad secretora demostrada, se los considera benignos, por lo que algunos médicos optan por un manejo conservador con vigilancia activa, aunque esta conducta continúa siendo materia de controversia.

La mayoría de las series no han encontrado predominio de lado afectado¹; otras mencionan que es más frecuente en la glándula derecha, en mujeres y que un 10-11% pueden ser bilaterales⁶.

Las posibilidades sobre la naturaleza de la lesión son múltiples: benignas, malignas, funcionales o no, incluso metastásicas (figura 3). Ante el hallazgo, el médico debe tratar de establecer con base en sus características y paraclínicas la potencial etiología pues, a pesar de que en su mayoría son consideradas benignas, algunas pueden tener una degeneración maligna o secretora en su vigilancia. Hasta el 5.7% de las lesiones diagnosticadas incidentalmente son feocromocitomas⁷.

El mielolipoma es un tumor raro y benigno descrito inicialmente en 1905 por Gierke⁸ como un tumor compuesto de tejido graso y elementos hematopoyéticos. En 1929, Oberling⁹ acuñó el término mielolipoma. Se trata de un tumor generalmente unilateral y no secretor. La incidencia real se desconoce, pero se estima que entre los incidentalomas representa un 0.06-0.25% de los casos^{10,11}. Suele asociarse a enfermedades endocrinas como la obesidad, el síndrome de Cushing y la enfermedad de Addison¹²; generalmente no superan los 5 cm de diámetro y se comportan de manera asin-

Tabla 1 Estudios paraclínicos de la paciente en su valoración inicial

Hemoglobina	12.4 g/dl
Glucosa	97 mg/dl
Proteínas totales	7.4 g/dl
Potasio	3.8 mmol/l
Leucocitos	10.8 × 10 ³ /UL
Creatinina	0.5 mg/dl
Albúmina	3.9 g/dl
Sodio	137 mmol/l
Neutrófilos	89%
Urea	17.1 mg/dl
TP	12.1 s
Calcio	9.1 mg/dl
Bandas	2%
Plaquetas	147 × 10 ³ /UL
Bilirrubina	0.20 mg/dl
Bilirrubina indexada	1.1 mg/dl
TPT	30.7 s
INR	1
Fósforo	3.1 mg/dl

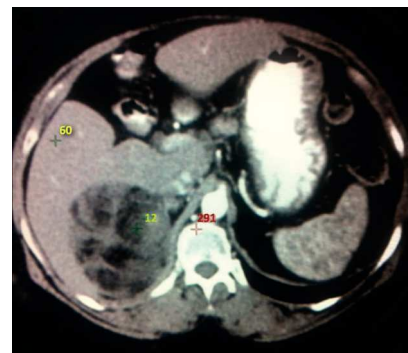


Figura 1 Tomografía computarizada de abdomen que muestra lesión quística compleja y su relación con los segmentos V y VI hepáticos.

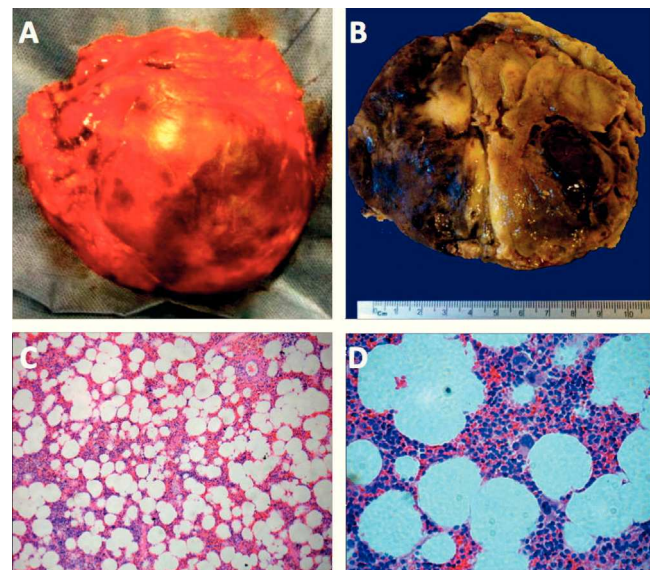


Figura 2 Las características macroscópicas y microscópicas del tumor corresponden a mielolipoma.

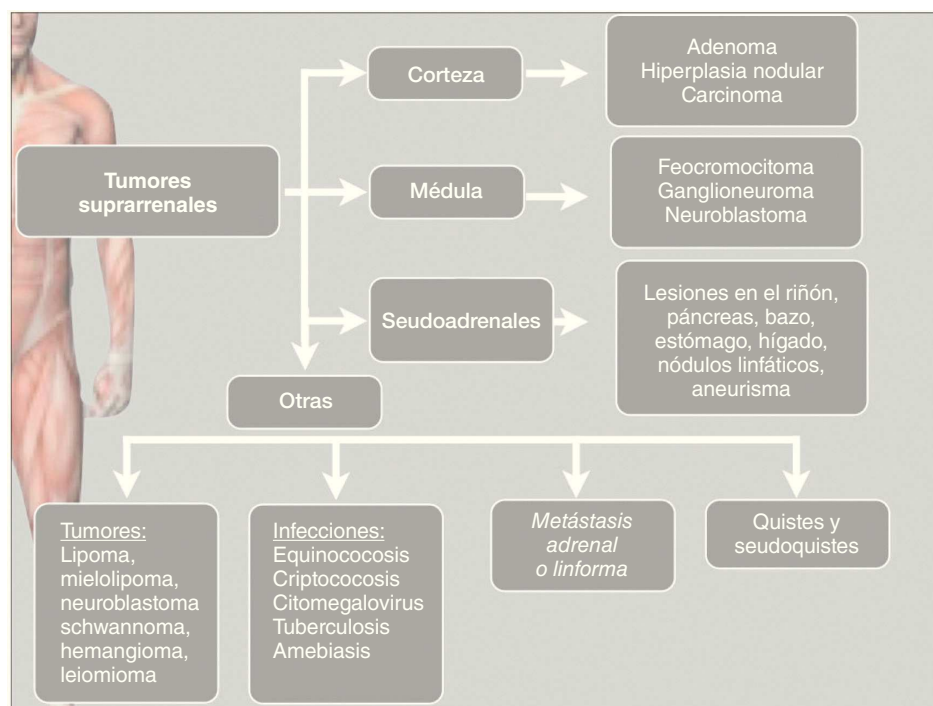


Figura 3 Tipos de tumores suprarrenales. Basado en Arnaldi G, Boscaro M. Adrenal incidentaloma. Best Pract Res. Clin Endocrinol Metab. 2012;26:405-19.

tomática. En el caso que hemos presentado, es una lesión de mayor tamaño y sí puede haber síntomas, generalmente relacionados con el “efecto de masa” de la lesión, con dolor abdominal inespecífico, estreñimiento y vómitos¹³. Incluso se han reportado casos de sangrado retroperitoneal espontáneo asociado a rotura del incidentaloma¹⁴.

Su etiología es desconocida. Lo que se conoce al respecto se ha basado en reportes de casos o pequeños estudios retrospectivos que han postulado diferentes teorías sobre su origen.

En 1950, Selye et al¹⁵ propusieron como etiología el propio potencial hematopoyético de la glándula suprarrenal, al observar que los pacientes con hipercortisonismo mostraban hematopoyesis extramedular y/o policitemia en la misma glándula. En un modelo de rata tratado con testosterona y corticotropina, documentaron por inmunohistoquímica la presencia de metaplasia adrenocortical con células hematopoyéticas y tejido graso. Postularon que el estroma suprarrenal contiene tejido graso *per se* y podría acumularse con la edad; el tejido hematopoyético podría derivar adyacente a la glándula. Estos hallazgos eran interesantes, pero no ha habido estudios posteriores que confirmaran los resultados de sus observaciones.

Los aspectos epidemiológicos del tumor apoyarían esta teoría, al ser benignos, asintomáticos, presentarse en etapas tardías de la vida y por el tipo de enfermedad asociada, principalmente hiperplasia suprarrenal.

Otra posibilidad descrita es que surjan de émbolos de medula ósea localizados en la glándula, aunque contra esta teoría se ha mencionado que este tipo de célula que “emboliza” no suele tener capacidad para diferenciarse, al contrario que las características histológicas de estas lesiones (suelen ser tejido graso y hematopoyético completamente diferenciado). Que deriven de células embrionarias mesan-

giales también se ha comentado como probabilidad. Ninguna teoría está completamente probada y los investigadores argumentan que, además de la poca cantidad de casos y no disponer de tejidos frescos para realizar estudios genéticos y funcionales, muchos médicos no les dan la importancia que deberían por considerarlos benignos.

En la revisión de Feng et al¹⁶, se postula la hipótesis de que el mielolipoma efectivamente deriva de células progenitoras en diferentes localizaciones y momentos distintos. Al parecer, primero el componente graso derivaría de células mesenquimales localizadas en las paredes de los vasos o la mima corteza y que inician un crecimiento ante la presencia de un estímulo desencadenante. El crecimiento de estos adipocitos inicia un estado inflamatorio que hace que en la corteza se liberen sustancias que estimularían la maduración de las células hematopoyéticas, y estas al crecer podrían incluso “quemar” la grasa adyacente, al diferenciarse completamente y detenerse la división. Al no poder crecer más, la parte central de la lesión sufriría necrosis y calcificación, mientras que la periferia mantendría un crecimiento lento pero sostenido de adipocitos y células hematopoyéticas progenitoras. Este proceso de necrosis y calcificación liberaría factores inflamatorios que podrían perpetuar su crecimiento incluso ya sin estímulos posteriores.

Los mielolipomas que alcanzan un tamaño > 5 cm, y dependiendo de su localización, suelen asociarse a dolor abdominal u otros síntomas ya descritos según el tamaño del tumor. Sin embargo, su diagnóstico se complementa con el estudio de imagen con TC o RM. Ambas se han demostrado efectivas en el escrutinio de lesiones benignas y malignas. Los mielolipomas, por la cantidad significativa de lípidos que contienen, presentan valores de atenuación bajos.

En la práctica clínica, un patrón de atenuación < 10 UH es altamente indicativo de adenoma¹⁷. En nuestro caso documentamos un patrón de -12 UH. Las lesiones adrenales diagnosticadas incidentalmente suelen ser pequeñas, redondas y de bordes bien definidos, y en el caso de los mielolipomas, con alto contenido de lípidos, tumores > 4 cm, irregulares, con calcificaciones o en los que se observa invasión de estructuras vecinas, son altamente sospechosos de malignidad. La TC y la RM suelen ser suficientes para inferir la naturaleza de la lesión, pero en caso de duda se puede recurrir (sobre todo asociado a TC) a la tomografía por emisión positrónica (PET) con 18-fluoro-2-desoxi-D-glucosa, que se ha demostrado como buen complemento diagnóstico¹⁸.

La evaluación endocrina comprende el diagnóstico diferencial de feocromocitoma e hipercortisonismo. La mayoría de los autores proponen no realizar estudios cuando la lesión tiene características de mielolipoma o quiste, aunque también se ha observado que incluso en estas lesiones puede haber hipersecreción. El aldosteronismo primario debe considerarse en pacientes con hipertensión o hipopotasemia.

También hay consenso^{17,19-20} en que los adenomas pequeños y no funcionales se mantienen asintomáticos incluso de por vida, por lo que se propone un manejo conservador. Nosotros consideramos que ante lesiones de mayor tamaño, sintomáticas o que sufren algún cambio (clínico o radiológico) durante el seguimiento, se debería considerar la cirugía. Incluso habría que considerar otros aspectos, la posibilidad de tener lesiones pequeñas, en estadios iniciales, para su estudio podría ayudar en el conocimiento etiopatológico del tumor. Este tipo de tumores, cuando son funcionales, pueden ser una causa curable de hipertensión arterial, motivo también para considerar la cirugía. Además, como la mayoría de ellos se diagnostican después de la cuarta década de la vida, se debe considerar también, que a más tiempo de seguimiento, aumenta el riesgo quirúrgico del paciente.

La cirugía es el único tratamiento curativo y sus indicaciones se han discutido previamente. Sobre el tipo de abordaje, estudios recientes tanto en feocromocitomas como en adenomas^{22,23} se ha considerado la resección laparoscópica como la mejor opción para los pacientes, con las reservas propias de este tipo de abordaje: el tamaño de la lesión, la experiencia del cirujano y las condiciones generales del paciente.

El caso que se ha presentado, dentro de su rareza, parece el "típico" de estos tumores: paciente casi en la séptima década de la vida, obesa e hipertensa y con dolor inespecífico asociado probablemente al tamaño de la lesión encontrada. La indicación quirúrgica se estableció por los síntomas y el tamaño de la lesión. Tras protocolo de valoración prequirúrgica completo, fue intervenida sin incidentes y evolucionó sin complicaciones. Al momento de redactar el reporte se mantenía en vigilancia y completamente asintomática.

Conclusiones

Los incidentalomas son lesiones a las que los cirujanos nos enfrentamos hoy con mayor frecuencia debido a la disponibilidad de mejores recursos diagnósticos de imagen. Ante su hallazgo, debemos realizar un protocolo completo de evaluación para establecer la naturaleza de la lesión. La cirugía estará indicada en todos los casos en que se sospeche malignidad o en aquellos que, considerados benignos, produzcan síntomas, sean tumores grandes (> 4 cm) o secretores, y cuando durante el seguimiento el tumor presente cambios en sus características que pudieran asociarse a complicaciones mayores como malignización o sangrado. Si las condiciones del tumor y la experiencia del cirujano lo permiten, el abordaje laparoscópico será la primera opción.

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Referencias

- Barzon L, Sonino N, Fallo F, et al. Prevalence and natural history of adrenal incidentalomas. *Eur J Endocrinol.* 2003;149:273-85.
- Kloos RT, Gross MD, Francis IR, et al. Incidentally discovered adrenal masses. *Endocr Rev.* 1995;16:460-84.
- Terzolo M, Stigliano A, Chiodini I, et al. Italian Association of Clinical Endocrinologists. AME position statement on adrenal incidentaloma. *Eur J Endocrinol.* 2011;164:851-70.
- Grumbach MM, Biller BMK, Braunstein GD, et al. Management of the clinically inapparent adrenal mass ("Incidentaloma"). *Ann Intern Med.* 2003;138:424-9.
- Reinhard C, Saeger W, Schubert B. Adrenocortical nodules in post-mortem series. Development, functional significance, and differentiation from adenomas. *Gen Diagn Pathol.* 1996;141:203-8.
- Mantero F, Terzolo M, Arnaldi G, et al. A survey on adrenal incidentaloma in Italy. Study Group on Adrenal Tumors of the Italian Society of Endocrinology. *J Clin Endocrinol Metab.* 2000;85:637-44.
- Cawood TJ, Hunt PJ, O'Shea D, et al. Recommended evaluation of adrenal incidentalomas is costly, has high false-positive rates and confers a risk of fatal cancer that is similar to the risk of the adrenal lesion becoming malignant; time for a rethink? *Eur J Endocrinol.* 2009;161:513-27.
- Gierke E. Über Knochenmarksgewebe in der Nebennier. *Bietr Z Path Anat.* 1905;37 Suppl 7:311.
- Oberling C. Les formations myelolipomaleuses. *Bull Assoc Fr Cancer.* 1929;18:234-6.
- Lam KY, Lo CY. Adrenal lipomatous tumours: A 30 year clinicopathological experience at a single institution. *J Clin Pathol.* 2001;54:707-12.
- Daneshmand S, Quek ML. Adrenal myelolipoma: Diagnosis and management. *Urol J.* 2006;3:71-4.
- Hofmockel G, Dammrich H, Manzanilla García H, Frohmüller H. Myelolipoma of the adrenal gland associated with contralateral renal cell carcinoma: case report and review of the literature. *J Urol.* 1995;153:129.
- Meaglia JP, Schmidt JD. Natural history of an adrenal myelolipoma. *J Urol.* 1992;147:1089-90.
- Goldman HB, Howard RC, Patterson AL. Spontaneous retroperitoneal hemorrhage from a giant adrenal myelolipoma. *J Urol.* 1996;155:639.
- Elye H, Stone H. Hormonally induced transformation of adrenal into myeloid tissue. *Am J Pathol.* 1950;26:211-33.
- Feng C, Jiang H, Ding Q, et al. Adrenal myelolipoma: A mingle of progenitor cells? *Med Hypotheses.* 2013;80:819-22.
- Blake MA, Cronin CG, Boland GW. Adrenal imaging. *AJR Am J Roentgenol.* 2010;194:1450-60.
- Terzolo M, Stigliano A, Chiodini I, et al. Italian Association of Clinical Endocrinologists. AME position statement on adrenal incidentaloma. *Eur J Endocrinol.* 2011;164:851-70.

19. Tsagarakis S, Vassiliadi D, Thalassinou N. Endogenous subclinical hypercortisolism: diagnostic uncertainties and clinical implications. *J Endocrinol Invest.* 2006;29:471-82.
20. Mansmann G, Lau J, Balk E, et al. The clinically inapparent adrenal mass: update in diagnosis and management. *Endocr Rev.* 2004;25:309-40.
21. Bovio S, Cataldi A, Reimondo G, et al. Prevalence of adrenal incidentaloma in a contemporary computerized tomography series. *J Endocrinol Invest.* 2006;29:298-302.
22. Lenders JWM, Eisenhofer G, Mannelli M, et al. Pheochromocytoma. *Lancet.* 2005;366:665-75.
23. Young WF. The incidentally discovered adrenal mass. *N Engl J Med.* 2007;356:601-10.
24. Herrera MF, Grant CS, Van Heerden JA, et al. Incidentally discovered adrenal tumors: an institutional perspective. *Surgery.* 1991;110:1014-21.
25. Arnaldi G, Boscaro M. Adrenal incidentaloma. *Best Pract Res. Clin Endocrinol Metab.* 2012;26:405-19.