

# El raro caso de un hemangioma adrenal, cuando los síntomas apuntan a otro diagnóstico: reporte de caso

## The rare case of an adrenal hemangioma, when symptoms point to another diagnosis: case report

Martina Lochocki<sup>1</sup>, Marco Bonilha<sup>1</sup>, Julián Méndez<sup>2</sup>, Marisel Recalde<sup>3</sup>, Adriana Bejarano<sup>3</sup>, Marina Curriá<sup>3</sup>, Adriana García<sup>1</sup>

### RESUMEN

El hemangioma cavernoso suprarrenal es un tipo de tumor poco frecuente que suele diagnosticarse después de una operación y que a menudo se excluye del diagnóstico diferencial. Informamos un caso de hemangioma cavernoso suprarrenal en una mujer de 66 años con aumento de catecolaminas y antecedentes de cáncer de mama extirpado hace 4 años. La paciente concurre al Servicio de Endocrinología de nuestra institución con un diagnóstico reciente de una masa suprarrenal detectada en una resonancia magnética abdominal realizada en otro centro, no disponiéndose en ese momento de las imágenes. Se realizó una nueva resonancia magnética abdominal en nuestro hospital, que confirmó la presencia de un nódulo bien definido de 3×2 mm en la glándula suprarrenal derecha, con realce heterogéneo con gadolinio. Según este hallazgo, además del aumento de los niveles de norepinefrina, se presumía que era un feocromocitoma. La masa se extirpó mediante cirugía laparoscópica transabdominal. Una inmunotinción fuerte y positiva para CD34 confirmó el diagnóstico de un hemangioma cavernoso. Aunque es poco frecuente, el hemangioma suprarrenal debe considerarse entre los diagnósticos diferenciales, prestando especial atención al realce nodular periférico, más intenso en la fase de contraste posterior. La resección es el tratamiento electivo para confirmar la benignidad.

**Palabras clave:** hemangioma cavernoso, resonancia magnética, glándula suprarrenal.

### ABSTRACT

Adrenal cavernous hemangioma is a rare type of tumour that is usually diagnosed post-operatively and often is excluded from differential diagnosis. We report a case of adrenal cavernous hemangioma in a 66-year-old woman with increased catecholamines and a history of breast cancer removed 4 years ago. She came to the Endocrinology Service of our institution with a recent diagnosis of an adrenal mass detected on an abdominal MRI performed in another centre, the images being unavailable. A new abdominal MRI was performed in our hospital which confirmed the presence of a well-defined 3×2 mm nodule in the right adrenal gland, with heterogeneous enhancement with gadolinium. According to this finding, plus the increased levels of norepinephrine, it was presumed to be a pheochromocytoma. The mass was removed by transabdominal laparoscopic surgery. Strong positive immunostaining for CD34 confirmed the diagnosis of a cavernous hemangioma. Though rare, adrenal hemangioma should be considered among the differential diagnoses, specially paying attention to the nodular peripheral enhancement, more intense in the later contrast phase. Resection is the elective treatment to confirm benignity.

**Keywords:** cavernous hemangioma, MRI, adrenal gland.

Fronteras en Medicina 2020;15(1):52-56. <https://DOI.org/10.31954/RFEM/202001/0054-0058>

### INTRODUCCIÓN

El hemangioma cavernoso suprarrenal constituye una entidad rara que afecta más comúnmente a la piel y al hígado. En general es evidenciada como un hallazgo

en estudio por imágenes con un diagnóstico definitivo suele ser posoperatorio.

Describimos el caso de un hemangioma cavernoso suprarrenal descubierto incidentalmente en una resonancia magnética realizada en un control.

### PRESENTACIÓN DE CASO

Paciente de sexo femenino de 66 años que consulta al servicio de endocrinología del Hospital Británico con una resonancia magnética (RM) de otro centro que había sido pedida como estudio de control por el antecedente de cáncer de mama tratado hace 4 años. Dicho estudio informó una imagen nodular en glándula suprarrenal derecha de origen no adenomatoso. No se contaba con las imágenes de dicho estudio.

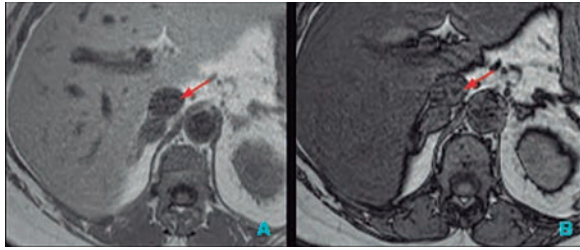
Al momento de la consulta la paciente presentaba diabetes insulino dependiente mal controlada, obesidad, hipotiroidismo y estaba en tratamiento psiquiátrico por esquizofrenia. Como antecedente de relevancia,

1. Servicio de Diagnóstico por Imágenes del Hospital Británico de Buenos Aires, Argentina.
2. Servicio de Anatomía Patológica del Hospital Británico de Buenos Aires, Argentina.
3. Servicio de Endocrinología del Hospital Británico de Buenos Aires, Argentina.

Correspondencia: Martina Lochocki. Servicio de Diagnóstico por Imágenes, Hospital Británico de Buenos Aires. Perdriel 74, C1280AEB CABA, Rep. Argentina [martinalochocki@gmail.com](mailto:martinalochocki@gmail.com).

Los autores declaran no poseer conflictos de intereses.

Recibido: 01/11/2019 | Aceptado: 13/12/2019

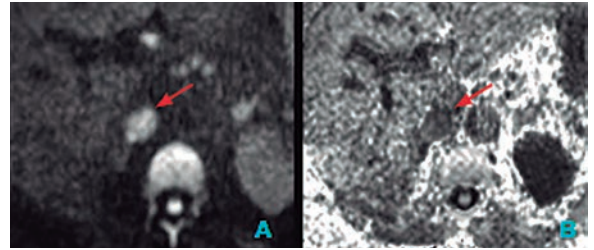


**Figura 1.** Resonancia Magnética, imagen en plano axial en secuencia fase (A) y fuera de fase (B). La formación adrenal (flecha roja) muestra la misma intensidad de señal en ambas fases, lo cual excluye la presencia de lípidos intracitoplasmáticos y permite descartar el origen adenomatoso.

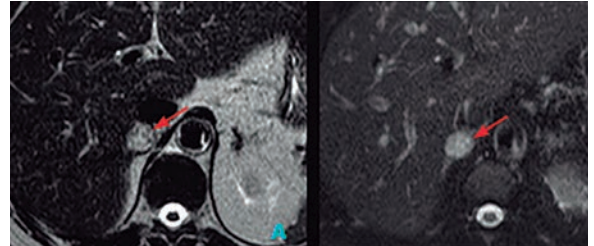
la paciente había padecido cáncer de mama que requirió cuadrantectomía derecha y radioterapia. Al examen físico presentó obesidad androide, giba dorsal y hábito Cushingoide. Se decidió realizar una nueva RM de abdomen con contraste endovenoso en el Servicio de Diagnóstico por Imágenes de nuestra institución para mejor caracterización, la cual evidenció una glándula suprarrenal derecha aumentada de tamaño a expensas de una imagen nodular de 21 mm con señal discretamente hipointensa en T1, hiperintensa en T2 y difusión, con realce heterogéneo progresivo tras la administración de contraste endovenoso, más intenso en fases tardías (**Figura 1**). Se procedió a explicar el razonamiento que se llevó a cabo por los médicos radiólogos de nuestro servicio ante dicho hallazgo. Por orden de frecuencia, el primer diagnóstico a descartar, ante el hallazgo de una masa adrenal es un adenoma, el cual suele ser rico en lípidos intracitoplasmáticos. Aprovechando esta característica se utiliza la secuencia de desplazamiento químico (fase y fuera de fase), la cual en nuestra paciente no presentó caída de señal, descartando el origen adenomatoso de la misma (**Figura 2**).

Por otro lado, la paciente había padecido cáncer de mama hace 4 años, el cual requirió cirugía y radioterapia. Ante el antecedente de un primario conocido se debe tener en cuenta la posibilidad que se trate de una metástasis, ya que esta es la lesión maligna más común de las glándulas suprarrenales (principalmente pulmón, mama, melanoma y riñón). En el caso de nuestra paciente, los hallazgos a favor de metástasis fueron que era hipointensa en T1, hiperintensa en T2, presentaba restricción en la difusión y realzaba de manera heterogénea tras la administración de contraste endovenoso persistiendo en tiempos tardíos (**Figuras 3 y 4**).

Sin embargo, su morfología no concordaba, ya que estas suelen ser irregulares, de bordes mal definidos, sumado al hecho de que era una lesión unilateral y la paciente no tenía signos de secundarismo en otros órganos. Por lo expuesto se descartó dicho origen. La tercera posibilidad que se planteó fue la de que se tratara de un feocromocitoma. Desde el punto de vista radiológico poseía características típicas: hiperintenso en T2 e hipointenso en T1. Su comportamiento en fase dinámica era de una lesión hipervascular con realce heterogéneo con mayor intensidad en las fases tardías. Ante



**Figura 2.** Resonancia magnética, imagen en plano axial en secuencia difusión (A) y mapa de ADC (B). La formación adrenal (flecha roja) restringe en la difusión y cae la señal en el mapa de ADC.



**Figura 3.** Resonancia magnética, imagen en plano axial en secuencia T2 (A) y T2 FAT SAT (B). La imagen nodular (flecha roja) es hiperintensa en T2 y presenta la misma intensidad en la secuencia FAT SAT; por lo tanto, no existe presencia de grasa macroscópica.

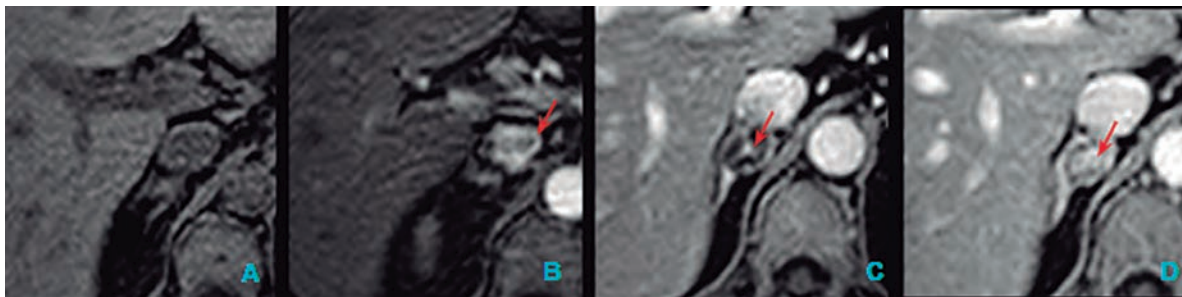
estos hallazgos el diagnóstico presuntivo fue el de feocromocitoma, por lo tanto, se sugirió la correlación con el laboratorio y la clínica del paciente (**Figuras 5 y 6**). Con esta presunción diagnóstica, se indicó un dosaje de catecolaminas en sangre y sus metabolitos en orina, arrojando como único valor patológico un aumento de la noradrenalina sérica de 118 pg/ml (VN 15 a 80). Con estos datos, el caso se discutió en un ateneo de manera interdisciplinaria decidiendo la escisión de la lesión, siendo derivada al Servicio de Urología para planificación quirúrgica de resección de posible feocromocitoma.

Se realizó una adrenalectomía laparoscópica programada cuyo resultado histopatológico informó: Macroscopia: lesión nodular de 2x2 cm con centro hemorrágico. Microscopia: lesión constituida por estructuras vasculares de aspecto cavernomatoso con abundante material hemático en su interior. La inmunomarcación fue positiva para CD34 (endotelio vascular) y Melan A en corteza suprarrenal. Resultado: hemangioma cavernoso (**Figura 7**).

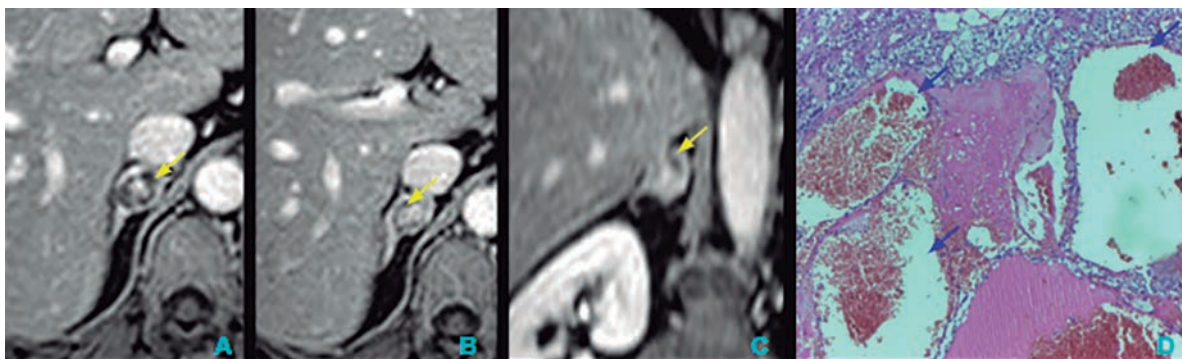
## DISCUSIÓN

Las glándulas suprarrenales secretan hormonas esteroideas como catecolaminas, de forma triangular aplanada y están incluidas en el tejido adiposo perirrenal, rodeadas por grasa, a la altura del polo superior de los riñones<sup>1</sup>. Son por lo general triangulares o con forma de V o Y invertida. Sus extremos miden entre 4 y 5 mm, por lo general en situaciones normales no exceden los 10 mm de grosor<sup>2</sup>.

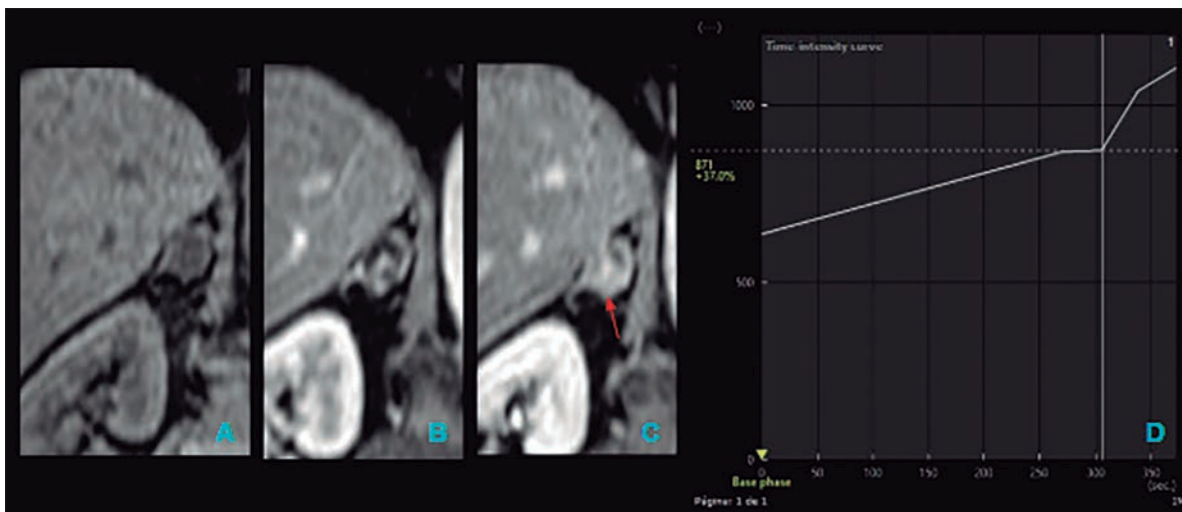
La corteza es la porción secretora de esteroides (cortisol, aldosterona andrógenos y estrógenos), se halla si-



**Figura 4.** Resonancia magnética, imagen en plano axial en secuencia T1 con saturación grasa sin contraste (A), en fase arterial (B), fase portal (C) y tardía (D). Se identifica imagen nodular en glándula suprarrenal derecha de 21 mm hipointensa en T1 que presenta realce heterogéneo progresivo, más intenso en fases tardías (flechas rojas).



**Figura 5.** Resonancia magnética, imagen en plano axial en secuencia T1 con saturación grasa en fase portal (A) y tardía (B), misma secuencia en reconstrucción MPR coronal en tiempo tardío (C) y microfotografía de nódulo ubicado en glándula suprarrenal derecha teñida con H-E (100 X) (D). Analizando las imágenes retrospectivamente se observa que si bien la lesión nodular realza ávidamente tras la administración de contraste, hay zonas focales que permanecen hipointensas (flechas amarillas) las cuales podrían corresponder a lagos venosos propios de los hemangiomas cavernosos (flechas azules) que no logran llenarse en tiempos tardíos tras la administración del contraste.



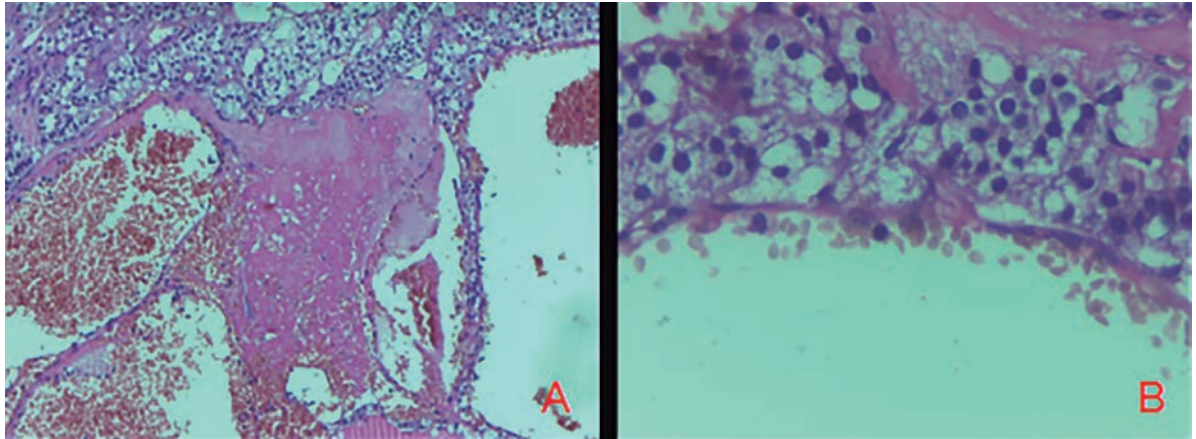
**Figura 6.** Resonancia magnética, reconstrucción MPR en plano coronal en secuencia T1 con saturación grasa sin contraste (A), fase portal (B) y tardía (C); Curva de intensidad/tiempo (D). Se observa el comportamiento típico de los hemangiomas cavernosos con realce periférico en tiempos tempranos y llenado centripeto en tiempos tardíos. Dicho patrón es más evidente en la región más caudal de la glándula (flecha roja). Este comportamiento se traduce en (D) observándose realce paulatino de la lesión, presentando una curva más pronunciada en tiempos tardíos

tuada debajo de la cápsula y constituye cerca del 90% del peso de la glándula. La médula es la porción secretora de catecolaminas, ubicada más profundamente que la corteza y forma el centro de la glándula<sup>1</sup>. La corteza y médula se comportan como unidades funcional y anatómicamente independientes. Las neoplasias adrenales son lesiones relativamente comunes incluyendo tanto las de origen primario como las metástasis. Una clasificación útil puede ser la de masas funcionantes como el

feocromocitoma, aldosteronoma y tumores productores de cortisol y andrógenos; y no funcionantes, como los adenomas y las metástasis. En el caso de nuestra paciente se tuvieron en cuenta los próximos diagnósticos diferenciales:

### 1. Adenoma

El primer diagnóstico a descartar por su frecuencia es el adenoma. Generalmente son un hallazgo incidental,



**Figura 7.** (A) y (B) Microfotografía de nódulo ubicado en glándula suprarrenal derecha teñida con H-E (100 X y 400 X respectivamente). Se observa proliferación constituida por múltiples estructuras vasculares de calibre variable anastomosadas entre sí con abundante material hemático en su interior.

y sobre todo en el caso de historia previa de un tumor primario conocido en otra localización, se debe hacer diagnóstico diferencial con metástasis.

Se presentan como masas bien definidas, homogéneas y redondeadas por lo general menores a 3 cm. Típicamente son ricos en lípidos (70%), teniendo en la tomografía computarizada (TC) una densidad menor a 10 UH. Su realce tiende a ser de intensidad moderada y uniforme. La eliminación del mismo suele ser más rápida que en las metástasis, característica importante para discriminar estas últimas de los adenomas pobres en grasa (30%).

Cuando son ricos en lípidos puede usarse esta característica en secuencias eco de imagen en eco de gradiente, ya que estos muestran una particular disminución de la intensidad de la señal en las imágenes fuera de fase (las señales de agua y de la grasa se cancelan la una a la otra) en comparación con las imágenes en fase (señal aditiva del agua y de la grasa)<sup>2</sup>.

## 2. Metástasis

Generalmente provienen de tumores como de pulmón, mama y melanoma. Suelen ser mayores a 3 cm (la mayoría de las masas adrenales de más de 5 cm tienden a ser malignas o carcinoma suprarrenal), lobuladas y con contornos poco definidos y presentan un realce heterogéneo tras la administración de contraste<sup>2</sup>.

En el caso de nuestra paciente, dado los antecedentes de cáncer de mama operado hace 4 años, se tuvo en cuenta, pero debido a que no habían indicios de secundarismo en otros órganos, la localización unilateral en la glándula suprarrenal y la morfología ovoidea de bordes bien delimitados, se descartó este diagnóstico.

## 3. Feocromocitoma

Volviendo al caso de nuestra paciente, debido a las características radiológicas de ser hiperintenso en T2 y presentar realce heterogéneo tras la administración de contraste sumado a los datos de laboratorio que indicaban una noradrenalina sérica elevada, se pensó que la masa adrenal en cuestión se trataba de un feocromocitoma.

El feocromocitoma también llamado paraganglioma medular adrenal suele secretar adrenalina y noradrenalina (esta última predominantemente).

Actualmente, debido al gran uso tanto de TC como de RM, un número cada vez mayor de estas lesiones es diagnosticado antes de que los pacientes presenten sintomatología. Los pacientes sintomáticos presentan la típica triada: cefalea, sudoración y taquicardia<sup>4</sup>.

Típicamente son unilaterales y benignos, aunque en un 10% pueden ser bilaterales y malignos. Es sospechado sobre todo en pacientes jóvenes con hipertensión y palpitaciones. Para su evaluación se miden los niveles séricos de catecolaminas, ácido vainillín-mandélico y metanefrinas en orina de 24 hs. Los falsos negativos ocurren generalmente por drogas exógenas o episodios aislados de producción de catecolaminas.

Cuando se sospecha un feocromocitoma, la tomografía es el método de elección, aunque ambas modalidades, tomografía y resonancia, tienen gran utilidad para dicho fin.

En general se presentan como masas bien circunscritas de 3-5 cm, grisáceas. Su atenuación es similar a la de los tejidos de partes blandas adyacentes. Puede presentar calcificaciones. Debido a sus diferentes grados de degeneración, necrosis, calcificación, fibrosis, cambios quísticos y depósitos lipídicos intracelulares, pueden ser confundidos con adenomas y metástasis. En resonancia suelen ser hiperintensos en T2, con el realce tanto homogéneo como heterogéneo por las características nombradas previamente<sup>4</sup>.

La resonancia es útil detectando los paragangliomas extraadrenales y las recurrencias después de la resección, generando hiperintensidad en T2. Para aquellos pacientes en que el feocromocitoma es sospechado sin observarse masa adrenal, se puede recurrir a la medicina nuclear. Pueden utilizarse I-131 MIBG e In-111 octreotida. El primero es un análogo estructural de la norepinefrina y el segundo es un análogo de la somatostatina<sup>3</sup>.

## 4. Hemangioma

Debido a la baja frecuencia, sumado al comportamiento de la lesión en la resonancia y a la elevación

de la noradrenalina, solo se pudo llegar al diagnóstico de hemangioma cavernoso tras el estudio de la pieza quirúrgica.

Los hemangiomas adrenales son extremadamente raros con una prevalencia de 1 cada 10.000 autopsias y típicamente asintomáticos ya que suelen medir menos de 2 cm. Si los síntomas están presentes, se debe a su volumen. Se dividen en 2 tipos: capilares y cavernosos, siendo el segundo grupo más prevalente. En cuanto a su aspecto son masas blandas y esponjosas de color rojo-azulado. A nivel histológico son lesiones constituidas por grandes conductos vasculares dilatados llenos de sangre, separados por un estroma moderado de tejido conjuntivo. Es frecuente la trombosis vascular asociada a calcificación distrófica<sup>6</sup>.

Afectan a personas entre 50-70 años predominando el sexo femenino 2:1. Usualmente comprometen la corteza, son bien delimitados y están encapsulados.

En TC los flebolitos, no siempre frecuentes, son característicos, aunque también se ven calcificaciones irregulares presentes. Tras la administración de contraste se observa realce nodular periférico, en relación al llenado de los lagos venosos, con o sin relleno centrípeto (siendo mucho más frecuente en hemangiomas hepáticos, debido al mayor componente de fibrosis y necrosis de los adrenales)<sup>5</sup>.

En RM típicamente es hipointenso en T1 e hiperintenso en T2, excepto en las áreas fibróticas, aunque puede haber áreas hiperintensas en T1 debido a la presencia de hemorragia y necrosis. El patrón de realce es idéntico al de la TC<sup>5</sup>. En el caso de nuestra paciente se destaca, además de la hiperintensidad en T2, el patrón de realce poco común, el cual fue analizado retrospectivamente una vez que se tuvo el resultado de la anatomía patológica. Este se caracterizaba por volverse más evidente en las fases más tardías, aunque siempre persistiendo áreas hipointensas que podrían corresponder a lagos vasculares que no se terminan de llenar tras la administración de contraste.

Para concluir, aunque sea raro, el hemangioma adrenal debería ser considerado dentro de los diagnósticos diferenciales. Se sugiere prestar especial atención al tipo de realce nodular con mayor intensidad en tiempos tardíos, presente tanto en resonancia como en tomografía. Analizando el caso en retrospectiva, el equipo de endocrinología tratante llegó a la conclusión de que la noradrenalina se encontraba aumentada por la medicación psiquiátrica que estaba recibiendo la paciente por su esquizofrenia, lo cual fue un factor importantísimo para considerar el diagnóstico de feocromocitoma. El tratamiento de elección es la resección para confirmar benignidad y para evitar sangrado retroperitoneal.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Ross M, Pawlina W. Histología Texto y atlas color con biología celular y molecular. 5ta edición. Pag: 760. 2013; Editorial panamericana, Buenos Aires, Argentina.
2. Webb RW, Brant WE, Major NM. Fundamentos de TAC BODY. 3ra edición. Pag: 303. Editorial Marban. Buenos Aires, Argentina.
3. Mayo-Smith WW, Boland G, Noto R. State-of-the-Art Adrenal Imaging. Radiographics 2001;21:995-1012.
4. Lattin G, Sturgill E, Tujo C, et al. From the Radiologic Pathology Archives: Adrenal Tumors and Tumor-like Conditions in the Adult: Radiologic-Pathologic Correlation. Radiographics 2014;34:805-29.
5. Otal P, Escorrou G, Mazerolles C, et al. Imaging Features of Uncommon Adrenal Masses with Histopathologic Correlation. Radiographics 1999;19(3):569-81.
6. Kumar V, Abbas A, Fausto N. Robbins y Cotran. Patología estructural y funcional. 8va edición. Barcelona: Editorial Elsevier; 2010
7. Del Gaudio A, Solidoro G, Martinelli G. Adrenal hemangiomas: Two case reports with a review of the literature. Surgery 1989;105:674-81.
8. Aljabri K, Bokhari S, Alkeraithi M. Adrenal hemangioma in a 19-year-old female. Ann Saudi Med 2011;31(4):421-3.