

CHISTURILE DE SUPRARENALĂ. CAZ CLINIC ȘI REVISTA LITERATURII

Gheorghe Rojnovanu – prof. univ., dr. hab. șt. med.¹,

Ion Gagauz – dr. șt. med., conf. cercet.²,

Radu Gurghiș – dr. șt. med., cercet. științific¹,

Elena Mironova – medic rezident¹,

¹Catedra de chirurgie Nr. 1 „Nicolae Anestiadi”,

Laboratorul Chirurgie Hepato-Pancreato-Biliară, USMF „Nicolae Testemițanu”,

²IMSP Institutul de Medicină Urgentă

E-mail: gurghis@yahoo.com Tel.: 069283660

Rezumat

În articolul respectiv, prin prisma revistei literaturii, prezentăm un caz clinic tratat cu succes al unei patologii chirurgicale rar întâlnite – chist gigant al suparenalei drepte. În pofida examinărilor imagistice, topografia și dimensiunea mare a chistului au determinat dificultățile de diagnostic pozitiv preoperator. Originea adrenală a chistului a putut fi stabilită doar în timpul intervenției chirurgicale, prognozate prezumtiv pentru chist al lobului hepatic drept. Dificultățile diagnostice preoperator și cazuistica acestei patologii ne-a determinat să împărtășim din această experiență, aliniindu-ne la cele publicate în literatura de specialitate.

Cuvinte-cheie: chist, suprarenală, diagnostic, tratament

Summary. Adrenal gland cysts. Clinical case and review of literature

In this article, through the list of literature, we present a clinical case of a rare surgical disease successfully treated – giant cyst of right adrenal. Despite imaging examinations topography and large size of the cyst determined difficulties of a positive preoperative diagnostic. The adrenal origin cyst could be established only during surgery potentiated presumptive for a cyst on the right hepatic lobe. The difficulties of preoperative diagnostic of this case prompted us to share this experience, considering the published literature.

Key words: cyst, adrenal, diagnostic, treatment

Резюме. Кисты надпочечника. Клинический случай и обзор литературы

В данной работе, основываясь на данных литературы, представлен клинический случай успешного лечения редко встречаемой хирургической патологии – гигантской кисты правого надпочечника. Несмотря на проведенные инструментальные исследования, топография и большие размеры кисты не позволили поставить правильный диагноз в предоперационном периоде. Происхождение кисты из надпочечника было выявлено интраоперационно в процессе проведения оперативного вмешательства по поводу кисты правой доли печени. Трудности предоперационной диагностики и казуистика данной патологии побудили нас поделиться опытом, основываясь на данных литературы.

Ключевые слова: киста, надпочечник, диагноз, лечение

Introducere. Chistul de suprarenală sau incidentalomul (eng. *incidental* - întâmplător) reprezintă o tumoră suprarenală bine delimitată, descoperită întâmplător la examenul necroptic sau imagistic, mai frecvent tomografic, fiind privată de activitate hormonală și cu evoluție de obicei benignă [1]. Chistul adrenal este o patologie rar întâlnită și constituie 5% din incidentalomae, unele surse literare prezentând date de până la 22% [2,3,4,5].

Clinic o perioadă îndelungată decurge asimptomatic, fiind descoperite inopinat cu ocazia unor examinări imagistice de rutină, sau pentru diagnosticul afecțiunilor organelor din vecinătate. Simptomatologia poate fi diversă: dureri pe flancuri, simptome gastrointestinale, greutate în regiunea abdominală, formațiune palpabilă. În majoritatea cazurilor chis-

tul este unilateral, fără predilecție pentru suprarenala stângă sau dreaptă. După datele publicate de Bellantone (1998), la necropsii în 8-15% din cazuri se atestă afectare bilaterală a suprarenalelor [6]. Dimensiunile chisturilor pot varia de la câțiva milimetri până la 50 cm [7], dimensiunile mai mari de 10 cm întâlnindu-se destul de rar, situație înregistrată și în cazul prezentat [8,9,10]. În studiile morfologice incidența a fost raportată de 0,064-0,18% [11]. Studiul efectuat de către Pollack (1990) a indicat o frecvență a chisturilor de 0,06% la 14000 de cazuri autopsiate [12].

Patologia dată se întâlnește cu predilecție la vârsta de 40-50 ani, preponderent la femei, raportul B:F fiind de la 1:2 până la 1:5 [2,13,14,15]. Prevalența chistului adrenal este direct proporțională vârstei, înregistrându-se mai puțin de un 1% la persoanele sub

30 ani și mai mult de 7% la persoanele peste 70 ani [16]. Cazuistica acestei patologii și problematica diagnosticului, mai ales, din considerentul necesității de diferențiere de alte formațiuni retroperitoneale sau intraabdominale cu evoluție mult mai agresivă, ne-a determinat să publicăm acest caz prin prisma revistei literaturii.

Caz clinic. Bărbat, 61 ani, se adresează de sine stătător la IMU Chișinău. Din antecedente: este bolnav de 2-3 luni, când au apărut senzații de greutate intraabdominală și dureri în regiunea lombară pe dreapta. Ecografia efectuată ambulator evidențiază o formațiune chistică în ficat, stabilindu-se diagnosticul ecografic de Echinococoză hepatică S8. Examenul clinic relevă dureri pe flancul drept abdominal fără semne de dereglare a tranzitului. Investigațiile preoperatorii de rutină nu evidențiază abateri, doar leucocitoză ($10,9 \times 10^9/l$) și VSH elevat (33 mm/h). Preoperator nu s-au apreciat valorile hormonilor adrenalini și nu s-au constatat devieri ale presiunii arteriale sistolice. Ecografia abdominală, repetată în staționar, descrie de asemenea formațiune chistică gigantă în S8 al ficatului. Scanarea abdominală atestă o formațiune sferică cu contur regulat, de asemenea cu pornire din lobul hepatic drept (Fig. 1a, b, c).

După indicații absolute se efectuează laparotomie cu braț subcostal drept. În spațiul subhepatic se determină o formațiune de volum $15,0 \times 13,0$ cm, aderată la marginea inferioară a lobului hepatic drept cu pornire din spațiul retroperitoneal. După mobilizarea ficatului s-a reușit determinarea caracterului formațiunii – chist al suprarenalei drepte. S-a efectuat chistectomie cu suprarenalectomie pe dreapta. Piesa postoperatorie înălțurată reprezintă o formațiune chistică cu pereții subțiri, suprafață interioară neregulată de culoare maro și zone cartilaginoase gălbui-surii și conținut lichidian hemoragic în volum de 400 ml (Fig. 2a, b).

Perioada postoperatorie a decurs fără particularități. Examenul histologic al piesei postoperatorii constată chist endotelial al suprarenalei, care de regulă se dezvoltă ca consecință a ectaziilor vaselor limfatice sau sangvine. Monitorizarea la distanță de 6 luni nu relevă recurențe imagistice (Fig. 3a, b) și schimbări în probele sangvine.

Discuții. Chistul de suprarenală, descris pentru prima dată de către austriacul Greiselius în 1670 [17], reprezintă o patologie benignă în majoritatea cazurilor cu rata raportată a malignizării până la 7% [18]. După Angeli (1997) riscul de malignizare a chistului adrenal este direct proporțional cu dimensiunea,



Fig. 1a. TC – formațiune chistică intraabdominală a suprarenalei drepte, aspect axial

Fig. 1b. TC – formațiune chistică intraabdominală a suprarenalei drepte, aspect frontal

Fig. 1c. TC – formațiune chistică intraabdominală a suprarenalei drepte, aspect sagital



Fig. 2a. Piesa postoperatorie – Chist adrenal 15,0x13,0 cm



Fig. 2b. Piesa postoperatorie – Chist adrenal, pe secțiune suprafața interioară a chistului

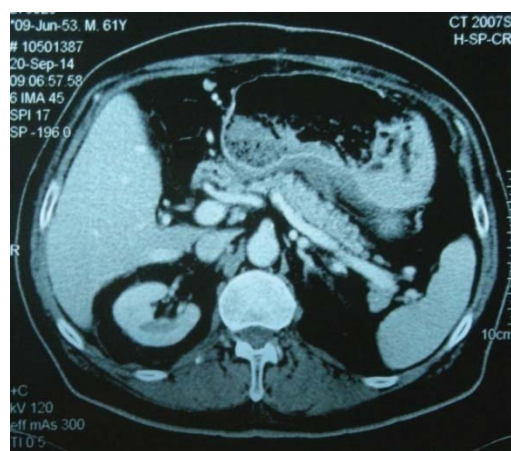
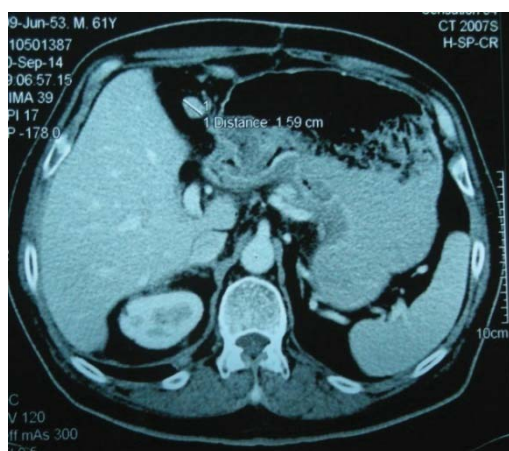


Fig. 3a, b. TC în dinamică peste 6 luni de la intervenția chirurgicală

formațiunea mai mică de 4cm poate fi malignă până în 2% cazuri, pe când la dimensiunea de peste 6cm se pot înregistra carcinoame în circa 25% [19]. Actualmente, etiopatogenia incidentalomelor este nelucidată. Conform unor concepte chistul adrenal se formează încă în perioada embrionară, fără a se manifesta timp îndelungat [20].

Anatomopatologic incidentalomurile adrenale sunt în 54% cazuri adenoame corticale, fiind întâlnite și alte entități ca: chist (15%), mielolipom (12%), ganglioneurom (9%), hiperplazie corticală (6%), angiom (4%), hematom (1,5%), granulom (1,5%), lipom (0,7%), hamartom (0,7%), fibrom (0,7%), tuberculom (0,7%), neurofibrom (0,7%) [1]. În 1966 Foster, analizând 220 cazuri de chisturi ale suprarenalelor, le clasifică în baza criteriului histopatologic în 4 tipuri:

- endoteliale (45%) – formațiuni chistice ce apar ca rezultat al ectaziei vaselor limfatice sau sanguine (limfangioame, hemangioame);
- epiteliale (9%) – chisturi formate din epitelul cilindric al stratului cortical al suprarenalei sau din epitelul celulelor migratoare ale porțiunii secretoare a rinichilor;
- pseudochisturi (39%) – formațiuni ce se dezvoltă ca rezultat al unui traumatism, infecție sau consecință a hemoragiei în țesutul glandei și metastaze chistice;
- parazitare (7%) – mai frecvent de origine hidatică [3,5,14,21,22].

Iar Neri și Nance (1999) pe 515 cazuri au stabilit alt raport al formelor histologice: endoteliale – 24%, epiteliale – 6%, pseudochisturi – 56%, parazitare – 2% (cel mai des provocate de *Echinococcus granulosus*) și chisturi benigne nespecificate – 12% [13,18,23].

În majoritatea cazurilor chistul adrenal decurge asimptomatic și doar în cazul dimensiunilor mari se

poate dezvolta: hipertensiune arterială (prin comprimarea arterei renale), senzație de greutate în regiunea lombară, masă palpabilă abdominală, dereglări ale funcției renale [8,9,10]. Conform studiului realizat de Richards (2005), pe un lot de 286 de pacienți s-a stabilit următorul raport al simptomelor clinice: asimptomatici – incidental (34%), dureri abdominale (19%), senzații de greutate în abdomen (10%), dureri și compresiunea organelor din vecinătate (10%), hipertensiune arterială (9%), dureri pe flancul drept (6%), dureri în spate și regiunea lombară (3%), șoc prin ruperea chistului angiomasos (1%) [23].

Diagnosticul pozitiv al incidentalomelor impune concretizarea a două criterii:

- absența activității hormonale a formațiunii;
- demonstrarea caracterului benign ale acesteia.

Preoperator în cazul incidentalomelor este necesar efectuarea testelor hormonale pentru diagnosticul diferențial cu feocromocitomul, hiperaldosteronismul, hipercortizolismul, carcinomul adrenal, tumorile secretorii de hormoni sexuali prin: aprecierea valorilor metanefrinelor și normetanefrinelor urinare în 24h, raportul activității reninei plasmatice și al aldosteronului, dozarea cortizolului urinar în 24h, testul de supresie a cortizolului cu dexametazonă "overnight", de asemenea dozarea dehidroepiandrosteronului sulfat, testosteronului și estradiolului, dozarea 17-hidroxi-progesteronului după stimularea cu hormon adreno-corticotrop [1,24,25,26]. Chisturile adrenale gigante prin comprimarea și deplasarea organelor adiacente creează interpretări eronate de localizare și origine, impunând necesitatea diferențierii cu chisturile rinichilor, ficatului, pancreasului sau splinei. Conform datelor din literatură adesea preoperator chisturile glandei suprarenale de dimensiuni mari sunt confundate cu chisturi ale organelor din vecinătate și, doar, intraoperator se constată geneza acestora, acest mo-

ment fiind constatat în mai multe lucrări, de asemenea și în cazul prezentat [15,27].

Cea mai mare sensibilitate în depistarea incidențaloamelor are tomografia computerizată (TC), urmată de ecografie și rezonanța magnetică. La ultrasonografie chistul adrenal are formă rotundă sau ovală, suprafață interioară netedă și contur clar, pereți subțiri și conținut heterogen [8,25]. Conform studiului efectuat de Zina Ricci și coautori (2013), pe un lot de 20 pacienți s-a demonstrat că chisturile adrenale au perete subțire în 100% cazuri, în 60% au perete calcificat, în 20% chisturile au prezentat septuri [27]. Scintigrafia cu analogi de catecolamine (131I, MIBG), indicată să suplimenteze examenele imagistice, are o sensibilitate și specificitate de 88-99% pentru diagnosticul de feocromocitom prin hipercaptarea substanței de contrast [1,29].

Managementul medico-chirurgical al chisturilor adrenale rămâne, la moment, controversat din lipsa datelor concrete în literatura de specialitate. Unii autori propun tratamentul chirurgical de rutină pentru orice chist asimptomatic, având în vedere incertitudinea diagnosticului pozitiv [30,31,32]. Rozenblit (1996) sugerează clasificarea chisturilor non-funcționale în 3 grupuri: chisturi *necompllicate* – care necesită management conservator, chisturi *complicate* – care necesită intervenție chirurgicală și *nedeterminate* [33]. Conform datelor literaturii, chisturile până la 4,0 cm (după Rozenblit mai mici de 6 cm), cu grosimea pereților mai puțin de 3 mm, fără complicații și semne de malignizare nu sunt operate, acestea doar se monitorizează în dinamică prin efectuarea TC la fiecare 6 luni [33,34]. Dacă după 18 luni caracterele ce sugerează originea benignă a chistului se păstrează și nu apar semne clinice sau biologice de tumoră activă, atunci tratamentul conservator este binevenit. Conform National Institutes of Health (2002) tratamentul chirurgical se impune în cazul chistului adrenal mai mare de 6,0 cm, sau la prezența hemoragiei în interiorul acestuia, la ruperea sau infectarea chistului, la apariția semnelor de malignizare și la accelerarea ritmului de creștere a formațiunii cu mai mult de 1cm pe an [35].

În prezent, se optează pentru înlăturarea chistului cu preservarea țesutului adrenal maxim posibil [36]. Abordul laparoscopic este contraindicat în cazul chisturilor cu un diametru mai mare de 10 cm, selectându-se în acest caz metoda deschisă [33]. Chirurgia laparoscopică este însă net superioară abordului tradițional prin efectul său cosmetic, invazivitate minimă, durere diminuată și timpi reduși de spitalizare [37]. Aspirarea percutană ecoghidată a conținutului chistic poate fi drept opțiune de tratament a chistului adrenal, dar preferabil în cazuri bine selectate [38]. Însă, rata

elevată a recurențelor și imposibilitatea efectuării diagnosticului histologic al chistului în absența ablației acestuia privează metoda dată de popularitate ca soluție de rezolvare chirurgicală [27,38,39,40].

Concluzii. Chistul suprarenalei este o patologie foarte rară, de etiologie neelucidată, ce evoluează timp îndelungat asimptomatic și este diagnosticat în majoritatea cazurilor incidental. Diagnosticul pre-operator este deseori dificil din motivul confundării afecțiunii respective cu formațiuni ale organelor din vecinătate. Chisturile de dimensiuni mici fără complicații pot fi abordate conservativ prin monitorizare imagistică, pe când în cazul chisturilor cu dimensiuni peste 6,0 cm și apariția complicațiilor este preferabil tratamentul chirurgical radical laparoscopic sau tradițional, selectat în funcție de dimensiunile chistului și abilitățile chirurgicale.

Bibliografie

1. Angelescu N., Dragomirescu C., Coculescu M. și al. *Patologia chirurgicală a glandelor suprarenale*. În *Tratat de patologie chirurgicală*. Vol. I București, 2003:1292 p.
2. El-Hefnawy A.S., Garba M., Osman Y., Eraky I., Mekresh M., Ibrahim H. *Surgical management of adrenal cysts: single-institution experience*. BJU Int, 2009; 104:847–850.
3. Dindo M., Demartines P., Clavien A. *Classification of surgical complications: a new proposal with evaluation in a cohort of 6336 patients and results of a survey*. Ann Surg, 2004; 240:205-213.
4. Kuruba R., Gallagher S.F. *Current management of adrenal tumors*. Curr Opin Oncol, 2008; 20(1):34-46.
5. Masumori N., Adachi H., Noda Y., Tsukamoto T. *Detection of adrenal and retroperitoneal masses in a general health examination system*. Urology, 1998; 52(4):572-576.
6. Bellantone R., Ferrante A., Raffaelli M. et al. *Adrenal cystic lesions: report of 12 surgically treated cases and review of the literature*. J Endocrinol Invest, 1998; 21:109-114.
7. Sidawy M.K., Syed Z.A., Erozan Y.S. *Fine Needle Aspiration Cytology. Kidney and Adrenal Gland*. Churchill Livingstone Elsevier, 2007:327 p.
8. Cavallaro A., Toma G., Mingazzini P., Cavallaro G., Mosiello G., Marchetti G., Memeo L., Fauci M. *Cysts of the adrenal gland: revision of a 15-year experience*. Anticancer Res, 2001;21:1401-1406.
9. Ellis F.H. Jr., Dawe C.J., Clagett O.T. *Cysts of the adrenal gland*. Ann Surg, 1952; 136:217-227.
10. Sanal H., Kocaoglu M., Yildirim D., Bulakbasi N., Guvenc I., Tayfun C., Ucoz T. *Imaging features of benign adrenal cysts*. Eur J Radiol, 2006; 60:465-469.
11. Foster D. *Adrenal cysts: review of literature and report of case*. Arch Surg, 1966; 92(1):131-143.
12. Pollack H. *Miscellaneous conditions of the adrenals and adrenal pseudotumors*. Clin Urogr, 1990; 3:2403-2405.

13. Gourtsoyiannis N. *Clinical MRI of the Abdomen. Why How When. Adrenals*. Springer, 2011: 316 p.
14. Abeshouse G.A., Goldstein R.B., Abeshouse B.S. *Adrenal cysts: review of the literature and report of three cases*. J Urol, 1959; 81:711–719.
15. Sroujreh A.S., Farah G.R. Haddad M.J., Abu-Khalaf M.M. *Adrenal cyst; diagnosis and treatment*. Br J Urol, 1990; 65:570-575.
16. Mantero F., Albiger N.A. *Comprehensive approach to adrenal incidentalomas*. Arq Brasi Endocrinol Metabol, 2004; 48:583-591.
17. Amarillo H., Bruzoni M., Loto M., et al. *Hemorrhagic adrenal pseudocyst: laparoscopic treatment*. Surg Endosc, 2004; 18:1539.
18. Neri L.M., Nance F.C. *Management of adrenal cysts*. Am Surg, 1999; 65:151-163.
19. Angeli A., Osella G., Ali A., Terzolo M. *Adrenal incidentaloma: An overview of clinical and epidemiological data from the National Italian study group*. Horm Res, 1997; 47:279-283.
20. Пучков К.В., Филимонов В.Б., Васин Р.В., Лапароскопический доступ в хирургическом лечении новообразований надпочечников. Эндоскопическая хирургия, 2006; 12:48.
21. Carvounis E., Marinis A., Arkadopoulos N., Theodosopoulos T., Smyrniotis V., *Vascular adrenal cysts: a brief review of the literature*. Arch Pathol Lab Med, 2006; 130:1722-1724.
22. Савельева В. С., Кириенко А. И. Клиническая хирургия: национальное руководство в 3-х т. М. ГЭОТАР-Медиа, 2009; 2:832.
23. Linos D., van Heerden J. A. *Adrenal Glands. Diagnostic Aspects and Surgical Therapy*. Springer, 2005:357 p.
24. Ceruti M., Petramala L., Cotesta D., Cerci S., Serra V., Caliumi C., Iorio M., De Toma G., Ciardi A., Vitolo D., Letizia C. *Ambulatory blood pressure monitoring in secondary arterial hypertension due to adrenal diseases*. J Clin Hypertens, 2006; 8:642-648.
25. Gaillard S., Meyer P. *Incidentalome surrénalien: maladie des temps modernes*. Rev Med Suisse, 2009; 198:774-778.
26. Bourdeau I. *Les masses surrénaliennes Fréquemment détectées*. Le clinicien, 2007; 22(3):83-88.
27. Xiao Lyu, Liangren Liu, Lu Yang, Liang Gao, Qiang Wei *Surgical management of adrenal cysts: a single-institution experience*. Int Braz J Urol, 2014; 40:656-665.
28. Ricci Z., Chernyak V., Hsu K., Mazzariol F., Flusberg M., et al. *Adrenal Cysts: Natural History by Long-Term Imaging Follow-Up*. AJR, 2013; 201:1009–1016.
29. Troncone L., I tumori della cresta neural. Arcadia, 1991: 164 p.
30. Berthet B., Assadourian R.R. *Une complication des lymphangiomes kystiques surrénaliennes: l'hémorragie*. Press Méd, 1989; 18:939.
31. Seddon J.M., Baranetsky N., Van Boxel P.J. *Adrenal incidentalomas: Need for surgery*. Urology, 1985; 25:1-7.
32. Linos D.A., Stylopoulos N., Raptis S.A. *Adrenaloma: a call for more aggressive management*. World J Surg, 1996; 20:788-793.
33. Rozenblit A., Morehouse H.T., Amis E.S. Jr. *Cystic adrenal lesions: CT features*. Radiology, 1996; 201:541-548.
34. Klingler P.J. et al. *Pheochromocytoma in an incidentally discovered asymptomatic cyst adrenal mass*. Mayo Clin Proc, 2000; 75(5):517-520.
35. NIH State-of-the-Science *Statement on management of the clinically inapparent adrenal mass ("Incidentaloma")*, NIH Consens State Sci Statements, 2002; 19(2):1-25.
36. Castillo O., Litvak J., Kerkebe M., Urena R. *Laparoscopic management of symptomatic and large adrenal cysts*. J Urol, 2005; 173:915-917.
37. McKinlay R., Mastrangelo M.J., Park A.E. *Laparoscopic adrenalectomy: indications and technique*. Curr Surg, 2003; 60:145-149.
38. Tobias-Machado M., Rincon Rios F., Tulio Lasmarr M., Tristao R., Herminio Forseto P. Jr., Vaz Juliano R. *Laparoscopic retroperitoneal adrenalectomy as a minimally invasive option for the treatment of adrenal tumors*. Arch Esp Urol, 2006; 59:49-54.
39. Erbil Y., Salmaslioglu A., Barbaros U. *Clinical and radiological features of adrenal cysts*. Urol Int, 2008; 80:31-36.
40. Schmid H., Mussack T., Wornle M., Pietrzyk M.C., Banas B. *Clinical management of large adrenal cystic lesions*. Int Urol Nephrol, 2005; 37:767-771.