

## PRESENTACION DE CASOS

SINOVITIS SIMETRICA SERONEGATIVA  
REMITENTE Y EDEMA BLANDO.  
SINDROME R S3 PE

Se presentan las historias clínicas de dos casos que llenan los requisitos del síndrome de sinovitis simétrica seronegativa remitente con edema blando (R S3 PE), recientemente descrito por McCarty. Son los primeros casos de este síndrome que se publican en Colombia. Se revisan las características clínicas, de laboratorio y de rayos X. Al tratamiento aceptado con antiinflamatorios no esteroideos y cloroquina, se sugiere agregar 7.5 mg/día de prednisolona en dosis fraccionadas. Este tratamiento se prescribió en los casos presentados y se observó que acorta la evolución de la enfermedad y produce alivio sintomático rápido con efectos colaterales escasos y leves.

Gairod (1), desde 1859, identificó la artritis reumatoidea (AR) como una entidad diferenciada que, según se sabe en el momento actual, puede constituir un grupo de afecciones distintas. En efecto, para la segunda mitad de este siglo había sido posible distinguir como variantes de la AR varios cuadros clínicos que hoy se consideran como enfermedades independientes, a saber: espondilitis anquilosante, artritis reumatoidea juvenil (ARJ), síndrome de Reiter, espondilitis con enfermedad inflamatoria intestinal y artritis viral crónica (2).

Según las respuestas serológicas (3), estas afecciones articulares se pueden clasificar en dos categorías principales: a) artritis reumatoidea seropositiva o "vera" y b) artritis reumatoidea seronegativa. En esta última división se incluían las variantes mencionadas atrás.

Por otra parte, en 1985, con base en 10 pacientes de artritis seronegativas que compartían características especiales, McCarty (4) describió el síndrome de sinovitis simétrica seronegativa remitente con edema blando que se abrevia R S3 PE por las siglas en inglés. A partir de este hallazgo se ha propuesto la siguiente división de la artritis reumatoidea seronegativa: 1) similar a ARJ, pero con comienzo en la edad adulta, compromiso de las articulaciones grandes (cadera, hombro) y asimetría relativa; 2) similar a osteoartritis erosiva pero con compromiso de muñecas, carpo, articulaciones metacarpofalángicas, codos y tobillos; hay osteofitos y puede conducir a la anquilosis; y 3) R S3 PE.

En esta comunicación se presentan dos pacientes que sufrían esta última entidad.

#### Presentación de los casos

**Paciente 1.** AJH. Hombre de 53 años, ejecutivo. Consultó en enero 20, 1987, por dolor en las manos y rigidez articular matinal que duraba 90 min, desde un mes atrás. Otro médico le formuló ibuprofén, 1800 mg

diarios e hidroclorotiazida, 50 mg diarios con muy poca mejoría.

Antecedentes personales: lumbalgia por discopatías. No fuma. Es deportista y practica tenis, golf y trote.

Examen físico: talla 1.82 m; peso 83 Kg; PA 120/90 mm Hg; P 76 mm; T. bucal 36.7° C. En ambas manos hay edema e infiltración que limitan en forma notoria la flexión de los dedos. Signos de Phalen y Tinel, negativos. La flexión de la columna vertebral también está limitada.

Laboratorio: hemograma normal. Eritrosedimentación (ES) en diciembre 22/86, con la técnica de Wintrobe 20 mm/hora; en enero 21, marzo 26 y septiembre 28/87, con el método de Westergreen 26, 43 y 26 mm hora respectivamente. Factor reumatoideo en la prueba de látex (LAR) negativo. Anticuerpos antinucleares (AAN) 1:40, patrón homogéneo. Uricemia normal. En septiembre 28 y octubre 7/87, los hemogramas fueron normales y hubo resultados negativos para LAR y AAN. Las radiografías mostraron articulaciones sacroilíacas normales y en la columna lumbosacra se observaron varios discos disminuidos de altura.

Tratamiento y evolución: naproxén, 1000 mg/día; prednisolona, 7.5 mg/día. Estos medicamentos se disminuyeron lentamente. En marzo 30 con el paciente asintomático se redujeron el naproxén a 500 mg/día y la prednisolona a 2.5 mg interdiarios. Esta última droga se suspendió en mayo 15. En el control de octubre 7, en franca recuperación, se ordenaron sólo 250 mg/día de naproxén.

**Paciente 2.** CAC. Ganadero, 69 años. Consultó en mayo 12 de 1987, por dolor y edema de ambas manos desde noviembre de 1986 (Figuras 1 y 2), que producían incapacidad funcional. No se observaron manifestaciones cutáneas, fenómeno de Raynaud, ni disfgia. Desde marzo de 1987, otro médico prescribió d-penicilamina 250 mg/día; nifedipina 20 mg/día; prednisolona 20 mg interdiarios y maxepa (aceite de pescado).

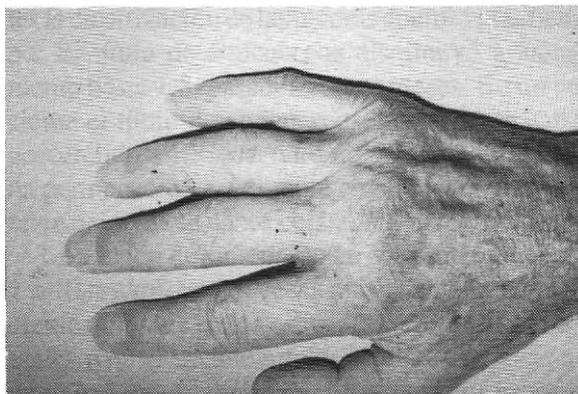


Figura 1. Dedos edematizados "en salchicha" (caso 2).

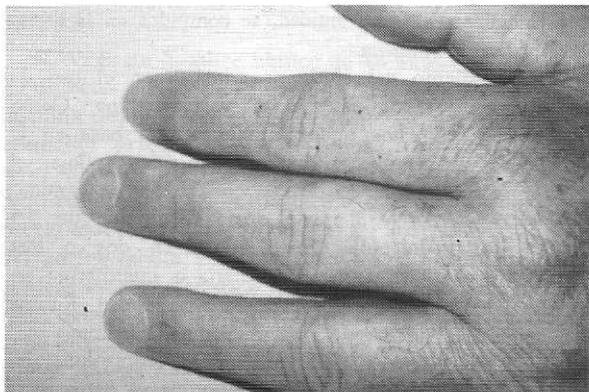


Figura 2. Infiltración de las manos (Caso 2).

Antecedentes personales: desde 1980 sufre de diabetes, recibe insulina cristalina 15 U dos veces diarias. En agosto de 1986 hizo insuficiencia vascular cerebral y hasta esa misma ocasión fumaba 60 cigarrillos por día. En enero de 1987, se le practicó prostatectomía transuretral.

Examen físico: talla 1.74 m; peso 58 Kg; PA 160/80 mm Hg; P 64 min; T. bucal 36.6°. En ambas manos había edema que obstaculizaba la flexión y extensión de los dedos (Figura 3), con cambios más severos en el lado izquierdo. El dolor limitaba las funciones de la mano izquierda.

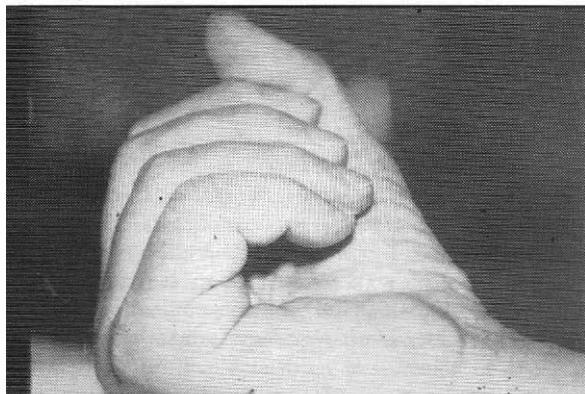


Figura 3. Limitaciones en la flexión de los dedos (Caso 2).

Laboratorio: ES (Wintrobe) 27 mm en mayo 12/87; 15 mm en junio 4/87; inmunoglobulinas normales: LAR y ANN negativos en agosto 27; N. ureico, creatinina, colesterol, triglicéridos, proteinemia y relación A/G dentro de límites normales. ES (Westergreen), 13 mm. Rayos X (figuras 4 y 5).

Tratamiento y evolución: naproxén, 1000 mg/día; prednisolona, 15 mg/día. Para mayo 18/87 había desaparecido el edema y fue posible apreciar retracciones tendinosas en los flexores de los dedos de la mano iz-



Figura 4. La radiografía de las manos en el caso 2 muestra sólo una disminución ligera de la interlínea en las articulaciones interfalángicas proximales.

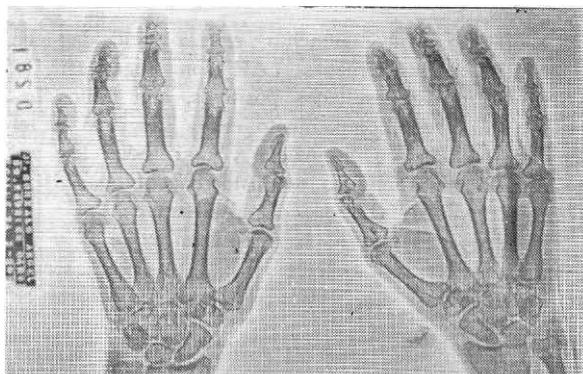


Figura 5. Xerografía de las manos en el Caso 2. Se aprecia edema de partes blandas.

quierda (figura 6). Se ordenó reducir gradualmente la prednisolona; en junio 17/87, al mejorar la función, se disminuyó en 10 mg/día. La retracción sobre los tendones ha persistido, pero en menor grado y la recuperación ha sido lenta. Por último, se prescribió cloroquina 250 mg/día. En agosto 20/87, la retracción en los flexores de la mano izquierda y el edema han cedido más.



Figura 6. Retracción de los tendones flexores de los dedos (Caso 2).

## DISCUSION

Clínicamente los dos casos que se refieren en este trabajo, son muy similares a los que sirvieron a McCarty (4) para describir el síndrome R S3 PE (R = remitente; S3 = sinovitis simétrica seronegativa; PE = "pitting edema" = edema blando), pues comparten muchas de sus características.

En efecto, se sabe (5) que el cuadro clínico: a) aparece más en hombres que en mujeres, 8:2; b) constituye 6% de los casos de AR en hombres; c) afecta personas de edad, 60-80 años (promedio 70 años); d) el comienzo es agudo y rápido, simétrico, aunque no necesariamente en la iniciación; e) hay edema blando en el dorso de muñecas, manos y pies, con compromiso invariable de los tendones flexores de los dedos; f) hay engrosamiento de las articulaciones interfalángicas proximales (TFP).

Laboratorio. Hay aumento en la velocidad de sedimentación; las pruebas LAR son negativas; los AAN pueden dar resultados positivos, con títulos bajos; las cifras del complemento en la sangre o en el líquido sinovial, son normales; y casi todos los pacientes tienen el antígeno de histocompatibilidad HLA B7. En las radiografías no hay cambios erosivos.

Pronóstico. Es bueno; hay remisión entre 3 y 36 meses de evolución (promedio 15 meses). Como secuelas se pueden ver las retracciones por contracturas en los flexores de los dedos.

Diagnóstico diferencial. El cuadro clínico es bastante característico, pero se deben descartar las enfermedades donde hay edema de manos, pies o de ambos. Por ejemplo, en el edema traumático de las manos por el uso del martillo neumático, el antecedente o la profesión llevan al diagnóstico. Aunque la polimialgia reumática afecta a personas en un grupo similar de edad, el compromiso es más difuso, la ES es mucho más alta y la evolución se prolonga más. En la distonía simpática refleja o síndrome hombro-mano, el aspecto de la mano es casi idéntico pero es unilateral y, además, el compromiso del hombro aclara el diagnóstico. La enfermedad mixta del tejido conectivo (6) puede producir edema de las manos con dedos en salchicha y, ocasionalmente, tenosinovitis en los flexores de las manos. En esta entidad, por definición, el ataque se hace a varios sistemas orgánicos, hay superposición en las características de diversas entidades y tiene los hallazgos serológicos que faltan en el síndrome R S3 PE. En el síndrome de Dupuytren (7) la lesión se limita casi siempre a los tendones flexores de los dedos cuarto y quinto, no es regresiva y, excepto por la formación de cojines en el dorso de las articulaciones IFP de las manos, no hay edema.

Con base en el diagnóstico diferencial que antecede, no hay duda de que los casos motivo de este trabajo, corresponden al síndrome R S3 PE. Es la primera vez

que el hallazgo de esta entidad, se comunica en la literatura médica colombiana.

El tratamiento del síndrome consiste en el uso de antiinflamatorios no esteroideos y cloroquina. Como se ha visto en estos dos pacientes y con base en la experiencia de casos de distonía simpática refleja, el autor propone el empleo de corticosteroides en cantidades bajas, como la llamada dosis fisiológica de 7.5 mg/día de prednisolona fraccionados en dos o tres tomas. La administración única diaria o interdiaria no es efectiva en la fase aguda de la enfermedad. En los dos casos motivo de esta comunicación, el primero respondió muy bien a los 7.5 mg/día de prednisolona; en el segundo se usó una cifra mayor porque ya había recibido una dosis interdiaria baja sin resultado. El único efecto colateral en este último caso fue la elevación de la glicina que se controló con disminución de la droga y aumento de la insulina. En ninguno de los enfermos hubo dificultades para reducir la dosis ni, como en el primer caso, en suspenderla después de la remisión.

## SUMMARY

Two cases of the recently described Remitting Seronegative Symmetrical Synovitis with Pitting Edema (R S3 PE) Syndrome are reported. Its clinical laboratory and radiological features are reviewed. It is proposed to add prednisolone 7.5 mg/day in divided doses to the established treatment of non-steroidal antiinflammatory drugs and chloroquine. This addition diminished the duration of its clinical course while fast symptomatic relief was obtained with few and mild side effects. Prednisolone was given to these two patients. These are the first two cases of the entity reported in the Colombian literature.

P. STARUSTA

## REFERENCIAS

1. GARROD AB. The great practical importance of separating rheumatoid arthritis from gout. *Lancet* 1982; 2:1033-1037.
2. WHITE DG, WOLF AD, MORTIMER PP, et al. Human parvovirus arthropathy. *Lancet* 1985; 1:419-421.
3. McCARTY JD. *Reumatology* contempo 85. *JAMA* 1985; 254: 2262-2263.
4. McCARTY JD. Remitting seronegative symmetrical synovitis with pitting edema. R S3 PE syndrome. *JAMA* 1985; 254: 2763-2767.
5. McCARTY JD. Update in rheumatology. ACP annual session, ACP update 4. Cassette B-8625, San Francisco, 1986.
6. BENNETT MR. Mixed connective tissue disease and other overlap syndromes. Pp. 1115-1136. In KELLEY, HARRIS, RUDDY and SLEDGE, "Textbook of rheumatology", 2nd. ed., Philadelphia, Saunders, 1985.
7. LYNCH M, JACSON MIV. Fasciitis and fibrosis. *Clin Rheum Dis* 1979; 5: 833.

Dr. Pérez Starusta B.: Docente Adjunto, Departamento de Medicina Interna, Facultad de Salud, Universidad del Valle, Cali, Colombia.

Solicitud de separatas al Dr. Starusta.

### SINDROME DE WOLFRAM

**K.W. es un hombre blanco de 18 años que desarrolló diabetes mellitus a la edad de siete años requiriendo insulina desde entonces. Posteriormente desarrolló disminución progresiva de la visión, sordera sensorial leve, diabetes insípida leve y vejiga neurogénica que requirió cateterización diaria. La evaluación psicológica reveló moderado retardo mental; la aparición de la pubertad fue tardía. Esta constelación de manifestaciones clínicas es característica del síndrome de Wolfram, el cual, debido a la multitud de sistemas comprometidos, debe alterar al clínico para buscar las manifestaciones menos obvias que son importantes desde el punto de vista pronóstico.**

#### Presentación del caso

K.W. fue admitido al hospital pediátrico a la edad de siete años con un cuadro sintomático clásico de diabetes mellitus no tratada, con poliuria, polidipsia, polifagia y pérdida de peso. La diabetes se controló con insulina, 8 unidades de NPH y 4 de Regular en la mañana y 3 de NPH y 2 de Regular en la noche. La segunda admisión a la edad de 10 años mostró un grado leve de atrofia óptica. Debido a enuresis persistente se realizó una evaluación urológica. El volumen residual de la vejiga fue de 250 ml con cierto grado de hidronefrosis. Se le hizo una meatotomía, se le instruyó para practicar múltiples cateterizaciones diarias de la vejiga, lo cual el paciente ha venido haciendo desde entonces, y se inició también terapia con urecolina. La diabetes fue controlada y al salir del hospital la dosis de insulina era de 16 unidades de NPH y 12 de Regular en la mañana y 8 de NPH y 6 de Regular en la tarde. El paciente se siguió en la consulta externa y se logró mantener control adecuado de su diabetes. A los 14 años, debido a retardo en el desarrollo, se le hizo una evaluación hormonal del crecimiento. Se encontró una leve disminución en la reserva de la hormona del crecimiento pero se consideró que no requería suplementación. La investigación neuroendocrina, por polidipsia persistente, demostró con una prueba de deshidratación (Prueba de Miller) (1) un leve defecto en la secreción de la hormona antidiurética. La tomografía computarizada de la hipófisis fue normal. La edad ósea mostró un retardo de por lo menos dos años con respecto a la edad cronológica. Los niveles de hormonas tiroideas, prolactina y cortisol fueron normales. Se le instruyó en la determinación de la glucosa por medio de la punción digital y el uso de un glucómetro (Ames). A los 15 años se le repitió la evaluación de hormona de crecimiento; el nivel basal fue 2 ng/ml y el valor máximo, a las dos horas de estimulación con L-Dopa 500 mg orales fue de 21.4 ng/ml lo cual se considera una respuesta normal. A los 16 años el crecimiento había mejorado y su

estatura era de 157 cm; la edad ósea era de 15 años y tres meses y el nivel sérico de somatomedina C fue normal 0.78 U/ml (0.56-3.1). El desarrollo genital había progresado a un estado Tanner IV. Aunque el desarrollo intelectual había sido lento, fue capaz de terminar estudios secundarios en una escuela especial para personas con retardo mental leve. La diabetes mellitus seguía bajo control adecuado con dos dosis diarias de insulina, recibiendo 17 unidades de NPH y 17 de Regular en la mañana y 13 de NPH y 13 de Regular en la tarde. Los niveles de hemoglobina glicosilada eran de 6.7% (3.4-6.1%).

La historia médica fue positiva para alergias a varios estímulos ambientales, las cuales habían mejorado mucho con tratamiento crónico de desensibilización. Se le practicó adenoidectomía a la edad de 12 años. No tenía historia de trauma craneano, infecciones perinatales, debilidad muscular, neuropatía periférica, contacto con metales pesados ni otros tóxicos y ninguna otra enfermedad crónica o debilitante. La historia familiar demostró que, a excepción del prolapso mitral, que sufre la madre, ambos padres gozaban de buena salud. No tiene hermanos. No había historia familiar de diabetes o atrofia óptica.

El examen físico a la edad de 18 años demostró una estatura de 159 cm, un peso de 61 kg, presión arterial de 100/70 y pulso regular de 72 por minuto. Al examen físico se descubrió palidez de ambos discos ópticos, con una agudeza visual de 20/100 en ambos ojos; no había evidencia de bocio, el examen cardiovascular no mostró anomalías. El abdomen y las extremidades no presentaron tampoco anomalías. El desarrollo sexual mostró cambios consistentes con el estado IV de Tanner. El sistema neurológico mostró sordera neurosensorial bilateral leve, pero no existían signos de neuropatía periférica, ataxia, parálisis o temblores; los reflejos tendinosos fueron normales y no presentaba signos de Babinski. Los exámenes de laboratorio de rutina no demostraron anomalías.

#### DISCUSION

El presente caso corresponde al síndrome de Wolfram que fue descrito en 1938, asociando diabetes mellitus y atrofia óptica (2, 3). Otros componentes de este síndrome han sido descritos posteriormente incluyendo sordera, diabetes insípida, atonía de la vejiga y tracto urinario inferior y otras anomalías menores (4). La sordera neurosensorial ocurre en al menos 39% de los casos, la diabetes insípida central en 32% y la atonía del tracto urinario en 15%. La diabetes insulino-dependiente se desarrolla a edad temprana (5) y no se han demostrado anticuerpos contra las células de los islotes (6). Los niveles del péptido C son bajos y no responden a la estimulación (5); los haplotipos que se

encuentran comúnmente en la diabetes tipo I insulino-dependiente (DR3, DR4) no se encuentran en este síndrome (6, 7). La atrofia óptica se asocia con anomalía progresiva en la visión de color y limitación concéntrica de los campos visuales (4, 8); aunque la presión infraocular es normal hay excavación del nervio óptico (9). Estudios patológicos *post-mortem* han demostrado atrofia de todo el sistema óptico y del puente del cerebro. La sordera es generalmente de tipo sensorial y puede ser detectada como defecto de alta frecuencia ( $> 400$  Hz) como fue demostrado en este paciente. La sordera puede progresar y comprometer las frecuencias bajas (4, 5, 10). La diabetes insípida se puede encontrar en 32% de los pacientes y generalmente la poliuria y la polidipsia se atribuyen a la diabetes mellitus fuera de control; la edad de aparición generalmente es de 12 años. Estudios de autopsia han demostrado pérdida de neuronas en los núcleos supraóptico y paraventricular (11, 12). El compromiso del tracto genitourinario inferior varía de hidroureter leve a vejiga atónica hipertrófica o finalmente hidronefrosis severa (4). Aunque inicialmente fue atribuida al exceso de volumen urinario, se han demostrado estos cambios en pacientes con el mismo síndrome sin diabetes insípida y debe corresponder a degeneración de los nervios del tracto urinario inferior (5). El descubrir este componente del síndrome posee gran importancia práctica ya que tanto la morbilidad como la mortalidad pueden ser significativas (11, 13). Hasta 20% de los hombres adultos con este síndrome pueden presentar hipogonadismo con testículos pequeños y espermatogénesis defectuosa, posiblemente por daño primario testicular puesto que las gonadotropinas se encuentran elevadas (5).

Estudios familiares sugieren una herencia autosómica recesiva; casos múltiples en una familia se han encontrado solamente entre hermanos y hermanas; la incidencia por sexos es la misma y la relación de hermanos afectados y no afectados es de uno a tres (3). Este es un síndrome poco común y el clínico debe estar alerta a investigar el posible compromiso de múltiples sistemas, en particular el genitourinario, ya que con un cuidado oportuno se pueden prevenir la falla renal progresiva y la muerte temprana.

#### SUMMARY

A 19 year old man developed type I diabetes mellitus at age 7, optic atrophy and neurogenic bladder at age 10 and partial diabetes insipidus at age 14. He also had some delay in puberty, and some degree of mental retardation. Early recognition of this syndrome is important in order to prevent progressive renal failure if the neurogenic bladder is overlooked.

#### AGRADECIMIENTOS

Reconocemos a Gloria S. Gaitán su excelente ayuda en la preparación de este manuscrito.

J. A. PINO  
E. GAITAN  
R. VARGAS  
S. MIRELMAN  
E. LAWACZECK

#### BIBLIOGRAFIA

- MILLER M, DALAKOS T, MOSES AM, FELLERMAN H, STREETEN DHP. Recognition of partial defects in antidiuretic hormone secretion. *Ann Intern Med* 1970; 73: 721-729.
- WOLFRAM DJ. Diabetes mellitus and simple optic atrophy among siblings: Report of four cases. *Proc Mayo Clin* 1938; 13:715-718.
- DIDMOAD (WOLFRAM) Syndrome. Editorial. *The Lancet* May 1986; 10:1075-1076.
- CREMERS CWRI, WILDDEVELD PGAB, PINCKERS AJLG. Juvenile diabetes mellitus, optic atrophy, hearing loss, diabetes insipidus, atonia of the urinary tract and bladder, and other abnormalities (Wolfram syndrome). *Acta Paed Scand Supp* 1977; 264:3-16.
- PEDEN NR, GAY JDL, JUNG RT, KUWAYTI K. Wolfram (DIDMOAD) Syndrome: A complex long-term problem in management. *Quart J Med* 1986; 58:167-180.
- MONSON JP, BOUCHER BJ. HLA type and islet cell antibody status in family with (diabetes insipidus and mellitus, optic atrophy and deafness) DIDMOAD syndrome. *Lancet* 1983; 1:1286-1287.
- DESCHAMPS I, LESTRADET H, SCHMID M, HORS J. HLA-DR2 and DIMO AD syndrome. *Lancet* 1983; 11:109.
- IKKOS DG, FRASER GR, MATSOUKI-GAVRA E, PETROCHILOS M. Association of juvenile diabetes mellitus, primary optic atrophy and perceptible hearing loss in three sibs, with additional idiopathic diabetes mellitus insipidus in one case. *Acta Endocrinol* 1970; 65: 95-102.
- LESSELL S, ROSMAN NP. Juvenile diabetes mellitus and optic atrophy. *Arch Neurol* 1977; 34:759-765.
- NAJJAR SS, SAIKALY MG, ZAYTOUN GM, ABDELNOOR A. Association of diabetes insipidus, diabetes mellitus, optic atrophy and deafness. The Wolfram or DIDMOAD syndrome. *Arch Dis Child* 1985;60:823-828.
- CARSON MJ, SLAGER UT, STEINBERG RM. Simultaneous occurrence of diabetes mellitus, diabetes insipidus and optic atrophy in a brother and sister. *Am J Dis Child* 1977; 131:1382-1385.
- KARP M, LARON Z, SANDBANK U. Wolfram syndrome. *Am J Dis Child* 1978; 132: 818-819.
- KHARDORI R, STEPHENS JW, PAGE OC, DOW RS. Diabetes mellitus and optic atrophy in two siblings: A report on a new association and a review of the literature. *Diabetes Care* 1983; 6: 67-70.

---

Dr. Jorge Arturo Pino: Profesor Asistente Clínico de Medicina, Universidad de Alabama en Birmingham; Dr. Eduardo Gaitán: Profesor de Medicina, Universidad de Mississippi y Jefe de Endocrinología, Hospital de Veteranos, Jackson; Dr. Rodolfo Vargas: Profesor Asistente Clínico de Medicina, Universidad de Alabama en Birmingham; Dr. Simón Mirelman: Urólogo en práctica privada, Hospital Brookwood, Birmingham; Dr. Elmar Lawaczek: Oftalmólogo en práctica privada, Hospital Brookwood, Birmingham.

Solicitud de separatas al Dr. Pino.

### LOCALIZACION DE ADENOMAS PARATIROIDEOS POR MEDIO DE LA TOMOGRAFIA COMPUTARIZADA

El hiperparatiroidismo primario se origina en un adenoma único de las paratiroides en más de un 80% de los casos, y se manifiesta clínicamente algunas veces por lesiones óseas con dolor y fracturas patológicas, otras por lesiones renales (nefrocalcinosis o más comúnmente nefrolitiasis), aunque pueden existir manifestaciones poco específicas o incluso no haber síntomas. El diagnóstico se hace por la demostración de hipercalcemia en presencia de una parathormona (PTH) elevada (1).

Uno de los problemas previos al tratamiento quirúrgico es la demostración del adenoma por medios imagenológicos. En varios pacientes colombianos (2-4) un esofagograma positivo resultó de utilidad en la localización preoperatoria del adenoma, método sencillo que se recomienda si no se dispone de otros más sofisticados (5). También encontramos positivos en sendos casos nuestros la ecografía de cuello y la gamagrafía de tiroides (un falso "nódulo frío" palpable) (3). Otros métodos como los gamagráficos con seleniometionina o la cateterización selectiva de las glándulas para medir PTH no se han usado en nuestro medio.

En dos casos intervenidos recientemente en el Hospital San Ignacio, la localización imagenológica previa se logró por medio de la tomografía computarizada (TC), con un aparato explorador Phillips (Tomoscan 310) de 3a. generación que pertenece al Hospital Militar y que da cortes de alta resolución. Esto permitió planear una disección unilateral en ambos pacientes a quienes se operaba por primera vez.

#### Informe de los casos

Caso No. 1. Paciente de 46 años, sexo femenino, quien vino a consulta para una segunda opinión, con diagnóstico de hiperparatiroidismo primario. Seis meses antes había sido vista en una institución de la ciudad por estado febril y pérdida moderada de peso. Allí se le diagnosticó y trató una pancreatitis aguda.

Desde cuatro años antes había presentado episodios de sensación de "vacío" en el abdomen con escalofríos y diaforesis, en ocasiones dolor epigástrico irradiado a ambos flancos asociado a náuseas. Año y medio antes presentó un cuadro de litiasis renal. Posteriormente presentó en ocasiones episodios de fiebre y escalofríos y alguna vez se confirmó una infección urinaria. En meses recientes había continuado con un cuadro de astenia, anorexia, náuseas y cefaleas. Tenía antecedentes personales de migraña y familiares de hepatoma en el padre (quien había tenido cirrosis) y un hermano.

Traía calcios séricos determinados en meses anteriores que estaban en 12.0, 13.0, 13.0 y 12.5 mg/dl, con

fósforos de 1.7, 2.5, 2.0 y 2.3 mg/dl. El parcial de orina mostraba incontables leucocitos con 8 hematíes por campo. El urocultivo había sido positivo para *Serratia marcescens*, más de cien mil colonias. El resto de los exámenes hematológicos, serológicos y de química sanguínea eran normales.

Al examen se encontró una paciente en regulares condiciones generales, T.A. 140/80 mm Hg, F.C. 80/minuto, estatura 1.68 m y peso 56.5 kg, afebril. Con excepción de un "click" sistólico, el examen físico era negativo.

Los estudios imagenológicos previos mostraban una radiografía de tórax, unas vías digestivas altas, y unos rayos X de manos comparativas y senos paranasales normales. La urografía excretora mostró cálculos coraliiformes en pelvis renal izquierda sin evidencia de obstrucción. Una TC con otro aparato y una ultrasonografía de cuello habían sido negativas. Una gamagrafía ósea hecha con <sup>99m</sup>Tc no había mostrado lesiones localizadas pero sí una ligera hipercaptación difusa del trazador en los huesos largos. El ecocardiograma demostraba un prolapso valvular mitral, debido a síndrome de Barlow.

Se practicaron entonces algunos exámenes complementarios. El calcio por absorción atómica 3.40 nanomoles/L (N: 2.10-2.50). Fosfatemia 1.9 mg/dl (N: 2.5-5.1). PTH-M 53 mU/dl (N: 0-56). Una TC de alta resolución mostró un adenoma de 13 mm de diámetro a nivel de polo inferior de lóbulo derecho, paraesofágico. Se utilizó una infusión de medio de contraste yodado para mejorar la nitidez al tiempo que se pasó sonda esofágica para evitar su colapso (Figura 1). Con el diagnóstico de hiperparatiroidismo primario se intervino, extirpándole el adenoma. Se identificó la otra paratiroides del mismo lado, que era normal. La paciente mejoró notablemente en el postoperatorio y la calcemia descendió a 8.8 mg/dl.

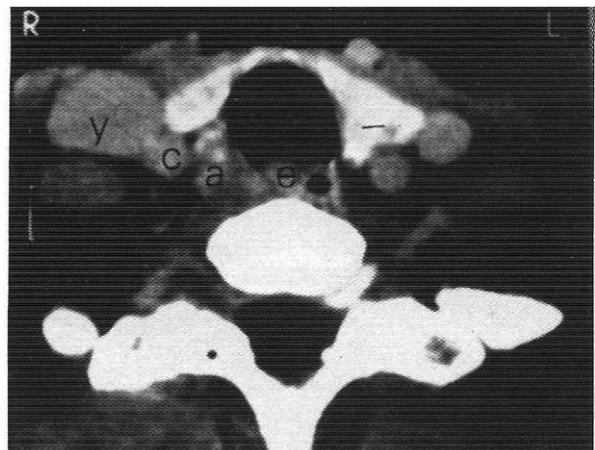


Figura 1. Adenoma paratiroideo paraesofágico derecho de 13 mm de diámetro, a nivel de polo inferior de tiroides. TC de alta resolución (marcado con la letra a).

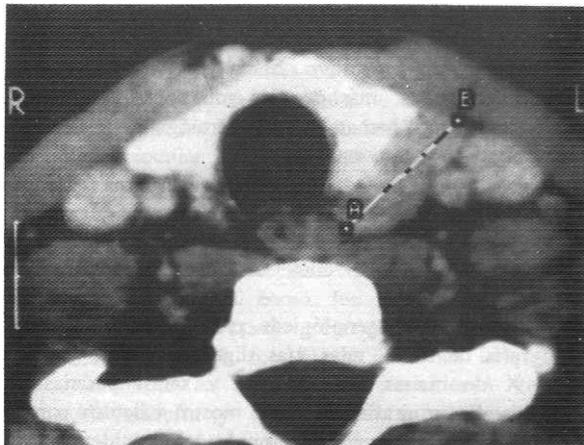


Figura 2. Adenoma paratiroideo de 40x28 mm de diámetro, aspecto posterior de tiroides hacia polo inferior izquierdo. TC de alta resolución (marcado con la línea A-B).

Caso No. 2. Paciente de 30 años, sexo masculino, a quien un año antes se le practicó un chequeo ejecutivo en una institución de la ciudad, encontrándosele hipercalcemia. Quince días después presentó un cuadro de cólico renal, el que le repitió 10 semanas antes de la consulta, expulsando un cálculo de oxalato de calcio dihidratado. La revisión por sistemas sólo muestra estreñimiento de reciente evolución, que requirió enemas. Tiene antecedentes de "disrritmia cerebral", para lo cual recibió fenobarbital y difenilhidantoína. Al examen se encontró un paciente en buenas condiciones, afebril, T.A. 120/80 mm/Hg, F.C. 80/minuto, estatura 1.71 m, peso 73 kg. El examen físico fue normal.

Tres calcemias seriadas fueron: 12.05, 12.1 y 11.95 mg/dl, fosfatasa alcalina de 251 UI/L (N = 100-290). La prueba de Pak (con carga de calcio) mostró aumento tanto de la calcemia como de la calciuria, encontrándose esta última en 89 mg para 4 horas en la post-

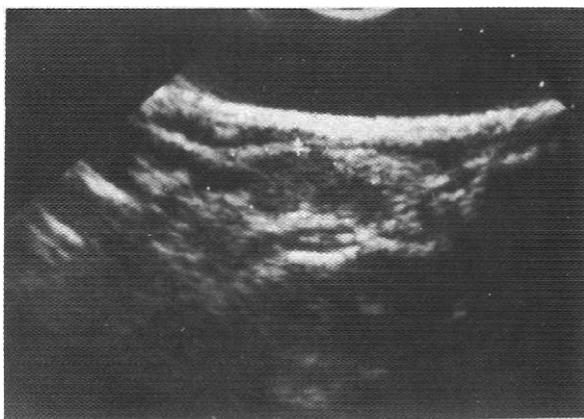


Figura 3. Ecografía del mismo adenoma que demuestra su naturaleza quística (marcado con una cruz y un círculo de puntos).

carga, mientras que el valor de Ca/cr subió de 0.226 a 0.340, 3 veces por encima de lo normal.

Una determinación de calcemia por espectrofotometría de absorción atómica fue de 11.9 mg/dl (N: 8.9-10.3) y la PTH de 5.4 ng/L (N: 0.4-0.9). Los Rx comparativos de manos fueron normales.

Una TC de alta resolución mostró una masa en el aspecto posterior del lóbulo izquierdo del tiroides, más hacia su polo inferior, de forma lobulada con diámetro transversal mayor de 2.8 cm y longitudinal de 4 cm, con densidad de tejidos blandos, sin calcificaciones. Estaba adherida al tiroides pero bien delimitada de la carótida izquierda y del esófago por planos grasos. En este caso no se utilizó medio de contraste (figura 2). Una ecografía con aparato convencional, transductor de 3.5 MHz, confirmó la presencia de una masa en parte hipoecogénica, sugiriendo una naturaleza quística (Figura 3).

Con el diagnóstico de hiperparatiroidismo primario se intervino, extirpándose un adenoma quístico de la paratiroides inferior izquierda. Se identificó la otra paratiroides del mismo lado, que era normal. Un calcio por absorción atómica tomado en el postoperatorio fue de 2.0 nanomoles/L (N: 2.10-2.50) y se asoció a discretas parestesias transitorias en manos. Se recuperó normalmente hasta permanecer asintomático.

#### DISCUSION

Con estos dos casos, nuestra serie de pacientes operados en el Hospital Universitario San Ignacio aumenta a ocho. A diferencia de los seis anteriores (1) en donde el diagnóstico se basó más que todo en hallazgos radiológicos de lesión ósea y/o litiasis renal, hipercalcemia y métodos indirectos de localización del adenoma, en los dos pacientes que ahora presentamos se utilizaron métodos modernos disponibles en Bogotá tales como dosificación de calcio por absorción atómica, PTH, TC y ultrasonografía de paratiroides; en ninguno de los dos se evidenció radiológicamente la presencia de lesiones óseas y ambos presentaron nefrolitiasis, aunque antes de esto a nuestro segundo paciente se le había encontrado una hipercalcemia asintomática en un chequeo rutinario.

La literatura sobre aspectos imagenológicos modernos de las paratiroides es relativamente escasa. El grupo de radiología de la Universidad de California en San Francisco ha publicado dos trabajos sobre TC (6, 7) en donde destacan el uso de un arnés de acrílico que hiperextiende el cuello, que elimina artefactos como rayas del hombro y mejora la nitidez; utilizan también medio de contraste de 120 ml de metilglucamina al 60% en bolo y secuencia dinámica de imágenes, con un explorador ("scanner") G E 8800. Con un protocolo antiguo con el que estudiaron con TC a 43 pacientes operados de hiperparatiroidismo primario, se detectaron por este

método el 51% de los adenomas, mientras que el 16% de los exámenes fue ininterpretable; con los métodos para mejorar la calidad de la imagen, un 78% de las glándulas aumentadas de tamaño fueron observadas preoperatoriamente por TC en 14 pacientes (6).

En otro artículo (7), el mismo grupo compara los hallazgos imagenológicos por TC con protocolo convencional, protocolo mejorado por el arnés, el bolo de medio de contraste y el estudio dinámico vs. sonografía de alta resolución (aparato Picker de 10 MHz) en 60 pacientes, 49 con adenoma único y 39 glándulas hiperplásicas en los restantes 11 casos. El protocolo mejorado de TC detectó el 70% de los adenomas y el 88% de las hiperplasias, hallazgos que mejoraron la posibilidad diagnóstica del TC con el mismo aparato y protocolo convencional (63% y 30%, respectivamente) y la de la ecografía de alta resolución (61% de adenomas y 69% de hiperplasias).

Aunque la localización paratiroidea preoperatoria no se requiere para cada paciente (ya que en manos de un cirujano experimentado en intervenciones de paratiroides se puede controlar el hiperparatiroidismo en un 95% de los casos no operados previamente, haciendo una disección bilateral de cuello) (8), la localización imagenológica no invasiva preoperatoria permite planear una disección unilateral, dejando "virgen" la región contralateral, como ocurrió en nuestros dos casos. Esta localización es obviamente de utilidad también en los casos de hiperparatiroidismo recurrente.

La disponibilidad de aparatos con mejor resolución espacial, cortes más delgados y tiempos de exploración más rápidos puede mejorar la exactitud de la TC, que tiene relación directa con el tamaño del tumor. Nuestro segundo caso se evidenció fácilmente sin medio de contraste por su tamaño y se detectó también a la ecografía con un transductor de sólo 3.5 MHz.

Se pueden presentar falsos positivos imagenológicos al confundir vasos tortuosos, esófagos colapsados, masas tiroideas y ganglios linfáticos con glándulas paratiroides aumentadas de tamaño (6). Sin embargo, la nitidez de la imagen mejora notablemente con aparatos exploradores para TC que dan cortes de alta resolución como el utilizado en estos dos pacientes y también en otros cuatro de diferentes médicos tratantes estudiados por uno de nosotros (R.R.) en el Hospital Militar, haciendo posible la localización imagenológica del adenoma paratiroideo.

Esta localización preoperatoria tranquiliza al paciente y lo motiva para la cirugía, reduce el tiempo de ésta, permite conocer previamente la relación del adenoma con estructuras vecinas (vasos, esófago), evitando además el temor del ocasional adenoma único ubicado en el mediastino, como ocurrió en el clásico caso del capi-

tán Carlos Martell (1). Sobra decir que como en otros casos de apudoma, es necesario demostrar inequívocamente la hiperfunción glandular autónoma con las mediciones hormonales y bioquímicas correspondientes.

#### SUMMARY

Two cases of primary hyperparathyroidism (with associated nephrolithiasis) demonstrated by simultaneous hypercalcemia and elevated parathyroid hormone serum level, were preoperatively studied with high resolution CT scan. Single adenomas were located in each case by this technique; both of them were successfully operated on. High resolution CT scan improves sharpness and overall image quality as well as frequency of positive findings which allows surgeon to plan unilateral neck exploration.

A. JACOME  
R. REINA  
A. MATUK  
L. JIMENEZ

#### REFERENCIAS

- JACOME A. Fisiopatología paratiroidea, calcitonina calciferoles y metabolismo óseo. Sandoz Colombiana, Bogotá 1985: 32-42.
- RAMIREZ J, JACOME A, DELGADO C, MATUK A. Problemas diagnósticos del hiperparatiroidismo primario, presentación de cinco casos. Acta Med Colomb 1980; 5: 395-406.
- JACOME A, MATUK A, GARTNER G, RAMIREZ J. Osteitis fibrosa quística, manifestación común del hiperparatiroidismo primario. Acta Med Colomb 1983; 8: 326-329.
- VILLABONA G, ESPINEL R, CERQUERA L. Ostitis fibrosa quística, manifestación del hiperparatiroidismo primario en Colombia. Acta Med Colomb 1985; 10: 180-185
- SOFIANIDES T, CHANG YS, LEARY JS, NICHOLS FX. Localization of parathyroid adenomas by cervical esophagogram. J Clin Endocrinol Metab 1978; 46:587-592.
- STARK DD, MOSS AA, GOODING GAW, CLARK OH. Parathyroid scanning by computed tomography. Radiology 1983; 148: 297-299.
- STARK DD, GOODING GAW, MOSS AA, CLARK OH, OVENFORS CO. Parathyroid imaging, comparison of high-resolution CT and high-resolution sonography. AJR 1983; 141: 633-638.
- STAVA RM, BEAHR OH, SCHOLZ DA. Success rate of cervical exploration for hyperparathyroidism. Arch Surg 1975; 110: 625-627 (citado por Staik y colaboradores, AJR 1983; 141: 633-638).

---

Doctores Alfredo Jácome Roca: FACP, Jefe Unidad de Endocrinología y Profesor Asociado de Medicina Interna; Ramón Reina: Director Departamento de Radiología; Assaad Matuk Morales: FACS, Director Departamento de Cirugía y Profesor Titular, Facultad de Medicina, Universidad Javeriana y Hospital San Ignacio; Lázaro Jiménez González: Instructor de Endocrinología, Facultad de Medicina, Universidad Javeriana, Hospital San Ignacio, Bogotá.

Solicitud de separatas al Dr. Jácome.

## FE DE ERRATA

En la página 396, segunda columna, último párrafo, línea 7, del artículo "Implantación de las Unidades SI en los resultados de Laboratorio Clínico", publicado en el vol. 12, No. 6, 1987, de Acta Médica Colombiana, aparece la frase: "Sin embargo, la razón dominante del cambio es que los componentes biológicos reaccionan in vivo con base no molar". Debe leerse: "Sin embargo, la razón dominante del cambio es que los componentes biológicos reaccionan in vivo con base molar".