
ARTÍCULO REVISIÓN

ASOCIACIÓN ENTRE ADENOMA HIPOFISIARIO Y ANEURISMA CEREBRAL, PRESENTACIÓN DE UN CASO CLÍNICO Y REVISIÓN DE LA LITERATURA

ASSOCIATION BETWEEN PITUITARY ADENOMA AND BRAIN ANEURYSMS: CASE REPORT AND LITERATURE REPORT

ASSOCIAÇÃO ENTRE ADENOMA HIPOFISÁRIO E ANEURISMA CEREBRAL, APRESENTAÇÃO DE UM CASO CLÍNICO E REVISÃO DA LITERATURA

Andrés Ordoñez Ruiz M.D.¹, Andrés Felipe Pineda-Martínez², Alex Francisco Corredor¹ Víctor Hugo Bastos²

¹Departamento de Neurocirugía, Universidad Nacional, Bogotá, Colombia.

²Facultad de Medicina, Universidad del Rosario, Bogotá, Colombia.

Correspondencia

Andrés Ordoñez MD, Departamento de neurocirugía, Universidad Nacional de Colombia, Bogotá, Colombia

Dirección: Cra 63 # 23 a - 84

Correo Electrónico: andresr21109@gmail.com

Resumen

La asociación entre aneurismas intracraneales y tumores cerebrales ha sido descrita escasamente en la literatura, siendo los tumores más frecuentemente relacionados los meningiomas y adenomas hipofisarios. La presencia de estas entidades implica consideraciones específicas en el abordaje diagnóstico y terapéutico, puesto que, la presencia de una lesión aneurismática podría implicar riesgos de lesión vascular catastrófica, si esta no se identifica de forma preoperatoria. Se presenta un caso clínico de una paciente con antecedente de resección de adenoma hipofisario funcional, asociado a un aneurisma complejo de carótida interna supraclinoideo, se realiza revisión de la literatura de esta entidad.

Abstract

The association between intracranial aneurysms and brain tumors has been poorly described in the literature, the most frequently related being meningiomas and pituitary adenomas. The presence of these entities implies specific considerations in the diagnostic and therapeutic approach, since the presence of an aneurysmal lesion could imply risk of catastrophic vascular injury, if it is not identified preoperatively.

We present a case report of a patient with a history of resection of a functional pituitary adenoma associated with a complex supraclinoid internal carotid aneurysm. Additionally, we also performed a literature review on the subject.

Abstrato

A associação entre aneurismá intracraniana e tumores cerebrais tem sido pouco descrita na literatura, sendo os meningiomas e adenomas hipofisários os mais frequentemente relatados. A presença dessas entidades implica em considerações específicas na abordagem diagnóstica e terapêutica, pois a presença de uma lesão aneurismática pode implicar em riscos de lesão vascular catastrófica, caso não seja identificada no pré-operatório. Apresenta-se o caso clínico de um doente com história de ressecção de adenoma hipofisário

funcional, associado a um aneurisma complexo supraclínóide de carótida interna, sendo feita uma revisão da literatura sobre esta entidade.

Palabras clave (DeCS): Aneurisma intracraneal, Neoplasias hipofisarias, Neoplasias encefálicas

Key Words (MeSH): Intracranial aneurysm, Pituitary neoplasm, Brain neoplasm

Introducción.

La asociación entre tumores hipofisarios y aneurismas cerebrales, se ha descrito a lo largo de la literatura médica; entre los subtipos de neoplasias en esta localización más relacionados con lesiones vasculares se encuentran los meningiomas y los adenomas hipofisarios, los cuales pueden coexistir hasta en el 7% de casos con aneurismas intracraneales. La importancia de la identificación de estas entidades radica en aspectos fisiopatológicos, quirúrgicos y pronóstico de los mismos. Presentamos un caso de un aneurisma cerebral carotídeo relacionado con un adenoma hipofisario no funcional, se describe el abordaje diagnóstico y quirúrgico determinado por nuestro servicio, se revisa la literatura en relación con esta infrecuente presentación. (1-4)

Caso clínico

Paciente femenina de 54 años de edad, con antecedente de resección transcraneal de adenoma hipofisario productor de prolactina, hace 32 años. En manejo ambulatorio por neurocirugía con residuo tumoral conocido.

Consulta por cuadro clínico de 6 días de evolución de cefalea de aparición súbita, asociada a episodios eméticos, y alucinaciones visuales complejas intermitentes. Al examen neurológico con evidencia de hemianopsia temporal en ojo derecho sin déficit motor, ni sensitivo complementario.

Se realizó imagen por Resonancia Magnética (RM) cerebral a su ingreso, identificando lesión selar y supraselar, de 10x21x18mm, con un componente quístico hiperintenso en T2/FLAIR, como también una región sólida que realza con medio de contraste, que condiciona retracción caudal de quiasma óptico, compatibles con residuo tumoral. (Figura 1).



Figura 1. RM cerebral contrastada, (A) Axial. Donde se puede identificar lesión selar residual, componente mixto. (B) Panangiografía cerebral, sagital, aneurisma de segmento clinoides de carótida interna derecha.

De igual forma se evidencia imagen redondeada lobulada con vacío de señal en componente operculoinsular anterior de valle silviano derecho compatible con aneurisma cerebral clinoides de la carótida interna derecha. Por dichos hallazgos se realiza panangiografía cerebral donde se identifica aneurisma carotídeo, sacular lobulado con cuello de 10.29mm, ancho 12.94 mm y alto 12.55, con proyección inferior y lateral que compromete tope de arteria carótida interna derecha su aspecto lateral y se extiende hasta la porción proximal de m1. (Figura 1)

Se determinó residuo tumoral sin indicación quirúrgica, contaba con un perfil hormonal normal, en manejo con agonista dopaminérgico. Se considera paciente cursa con cefalea centinela con aneurisma complejo de carótida interna supraclinoides, con alto riesgo de sangrado, por lo cual se decide llevar paciente a manejo quirúrgico.

Se lleva paciente a cirugía donde se realiza craneotomía pterional convencional derecha. Por medio de visualización microscópica, se explora y disecciona valle de silvio de proximal a distal evidenciando aneurisma que compromete arteria carótida interna derecha en su segmento comunicante hasta bifurcación de la

misma, con un trayecto anormalmente largo, se realiza disección de domo aneurismática, posteriormente se ocluye con clip semicurvo de 20mm y en tándem de 17mm, se punciona aneurisma evidenciando flujo y sangrado del mismo, razón por la que se decide realizar colocación de otro clip de aneurisma semicurvo de 11 mm evidenciando oclusión definitiva de aneurisma.

Paciente con adecuada evolución en postoperatorio, sin complicaciones quirúrgicas inmediatas, se realiza panangiografía cerebral de control sin evidencia de aneurisma residual, con circulación distal a punto de clipaje conservada, por lo anterior se considera continuar vigilancia de forma ambulatoria, en conjunto con servicio de endocrinología. (Figura 2).

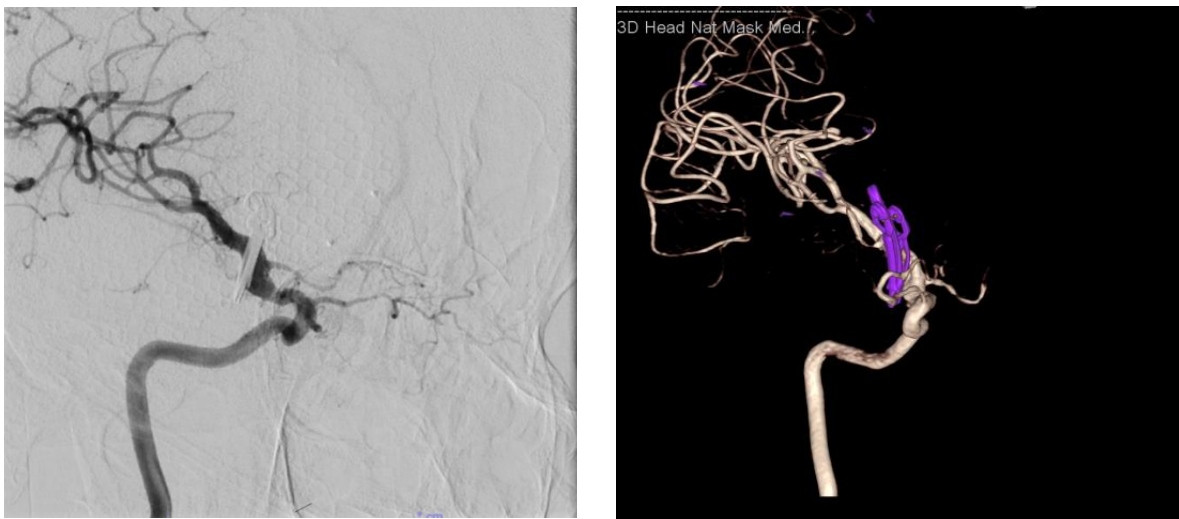


Figura 2. Panangiografía cerebral proyección oblicua y reconstrucción 3D, donde se evidencia adecuado posicionamiento de clips en tándem, sobre lesión aneurismática con preservación de circulación distal

Discusión.

La asociación de aneurismas intracraneales en pacientes con tumores cerebrales ha sido descrita desde el siglo pasado. En una revisión de la literatura realizada por Zhong et al. que incluyó 54 estudios con un total de 108 pacientes, se evidencio que los tumores más frecuentemente asociados a aneurismas cerebrales son los meningiomas (41,7%), adenomas hipofisarios (24,1%), tumores neuroepiteliales (16,7%) y tumores metastásicos (5,6%) (1-3).

En el caso de los adenomas hipofisarios, la incidencia de aneurismas varía entre 0,5 – 7,4% (2,4–6). Es así como algunos autores consideran estos tumores un factor de riesgo para el desarrollo de aneurismas respecto a la población general (2). No obstante autores como Pant y colaboradores, plantean una ausencia de asociación entre estas entidades, presentándose un riesgo para el desarrollo de aneurismas intracerebrales no mayor a la población general (6–8).

La localización de aneurismas cerebrales asociados, ha sido más frecuentemente descrita a nivel de la Arteria Carótida Interna. Chul et al en una cohorte de 800 pacientes con adenoma hipofisario llevados a resección quirúrgica, encontró mediante estudio vascular la presencia de aneurismas cerebrales en el 2.3% de la población estudiada. Donde en el 50% de los casos (9 pacientes) la lesión se encontraba a nivel de la ACI, 33.3% (6 pacientes) a nivel de la Arteria Cerebral Media (ACM), 11.1% (2 pacientes) en la Arteria Cerebral Anterior, y en el 5.6% (1 paciente) a nivel de la arteria basilar (AB) (3,9). En nuestro caso la localización de la lesión aneurismática se encontraba a nivel de la ACI derecha, comprometiendo el segmento oftálmico, comunicante, hasta la bifurcación de la misma, de igual forma la lesión selar asociada fue un adenoma hipofisario productor de prolactina, ambas características en concordancia con la literatura descrita previamente. (2,5,10).

De igual forma Hu. et al. realizó un estudio en 434 pacientes con adenomas hipofisarios, quienes fueron llevados a angiotomografía cerebral (AngioTAC), encontrando una prevalencia de 8,3% de aneurismas cerebrales, siendo la localización más frecuente la ACI (69,8%) presentándose con menor frecuencia en la ACM (2,3%, 1 caso) y AB (2,3%). No obstante, en este estudio se encontraron factores de riesgo independientes, para el desarrollo de aneurismas intracraneales en el contexto de un adenoma hipofisario, siendo estos la edad mayor a 55 años ($P=0.002$) y la invasión tumoral al seno cavernoso ($P=0.019$) (4,11).

El proceso fisiopatológico que desencadena la formación de un aneurisma cerebral en asociación con un adenoma hipofisario todavía es motivo de estudio, sin embargo, se han planteado múltiples teorías dentro de las cuales se propone un mecanismo vascular. Pia et al. sugieren la producción de cambios microvasculares secundarios a la compresión, tracción, o infiltración vascular causada por la lesión tumoral, lo cual produce un aumento del flujo sanguíneo,

aumento de turbulencia en flujo y predisposición aneurismática. De igual forma la propia lesión neoplásica puede sintetizar sustancias a nivel circulatoria que induzcan cambios en el metabolismo de colágeno que predisponga al desarrollo de aneurismas intracraneales (3,8,12).

En segundo lugar, un mecanismo hormonal descrito por Hori et al, quienes encontraron en sus estudios una relación entre el desarrollo de adenomas secretores de hormona del crecimiento (GH) y la formación de aneurismas cerebrales, lo cual puede correlacionarse con procesos ateroscleróticos y degenerativos inducidos por esta hormona. Esta asociación se demostró en un estudio descriptivo por parte de Willis et al, donde se observó una relación estadísticamente significativa entre la presencia de aneurismas cerebrales y los valores de GH al inicio de la enfermedad hipofisiaria (8,13). Los altos niveles de GH pueden también condicionar aumento del riesgo de entidades como diabetes, hipertensión arterial y dislipidemia, los cuales a su vez son importantes factores de riesgo para la formación de lesiones vasculares (4,14).

Las manifestaciones clínicas son variables, y pueden ser causadas por crecimiento, efecto de masa, endocrinopatía secundaria a la presencia del adenoma hipofisiario o pueden ser atribuidos al aneurisma cerebral, en relación con efectos compresivos del mismo, representados como neuropatías craneales, déficit focal o de forma secundaria a la ruptura del mismo (2,3).

A nivel de neuroimagen, la RM es la imagen más ampliamente usada para el estudio de patología hipofisaria, y por tanto se convierte en el estudio de mayor uso para la identificación de lesiones vasculares asociadas. La presencia de vacíos de flujo observados por RM en ponderación T1 o T2, es 100% específico para la identificación de aneurisma cerebrales, con una sensibilidad del 88% según lo descrito por Teng et al. Sin embargo, Oslen et al describieron que solo el 80% de los casos de aneurismas gigantes presentaba signo de flujo en el saco de la lesión. Sin embargo, es relevante aclarar que la RM puede fallar en la detección de aneurismas de menor tamaño. En el caso disertado la identificación inicial del aneurisma se realizó por medio de RM, no obstante, se realizó panangiografía cerebral para una mejor caracterización y análisis de la lesión. (3,10,14)

La presencia de lesiones aneurismáticas aumenta el riesgo de sangrado y complicaciones intra y post operatorias en una resección tumoral,

especialmente cuando la localización del aneurisma se encuentra en estrecha relación con la lesión neoplásica. Es por esto que, en el análisis del abordaje quirúrgico, son de relevancia aspectos como la morfología y tamaño de las lesiones, considerar si estamos frente a un aneurisma roto o con algo riesgo de ruptura intraoperatoria, malignidad tumoral y comorbilidades (1,3).

Zhong recomienda realizar manejo endovascular de aneurisma y posteriormente resección tumoral (3). Seda et al en su revisión acerca del abordaje quirúrgico de estas lesiones, encontró una tendencia hacia el manejo simultaneo por abordaje quirúrgico pterional, cuando las lesiones se encuentran en estrecha proximidad. No obstante, en sus casos descritos, se optó por un manejo endovascular con coil en el cuello del aneurisma a nivel de la ACI, con posterior abordaje quirúrgico para clipaje. El abordaje del adenoma hipofisario se realizó un mes después vía transesfenoidal optando por un manejo de mínima invasión (5). En nuestro caso se optó por un manejo quirúrgico en base a la extensión de la lesión aneurismática la cual requirió un clipaje complejo con clips en tándem, mientras que se determinó continuar en manejo farmacológico para la patología neoplásica (3,5).

Hu J plantea tres estrategias para el abordaje de estas lesiones 1) Manejar ambas patologías vía transcraneal, 2) Manejar ambas patologías con abordaje transesfenoidal o 3) Resección tumoral transesfenoidal y clipaje del aneurisma transcraneal (4,15). En el momento no hay evidencia que sugiera beneficio complementario de una de las estrategias. El caso debe ser individualizado y valorado en conjunto con el grupo de cirugía endovascular como también endocrinología.

Conclusiones

La asociación entre aneurisma intracraneales y adenomas hipofisarios, es poco frecuente, sin embargo, se plantean distintos mecanismos relacionados con su formación. Es importante tener presente la coexistencia de estas entidades a fin de realizar una planeación quirúrgica más apropiada, tratando de minimizar los riesgos de una posible lesión vascular.

Referencias.

1. Satyarthee G, Raheja A. Unruptured internal carotid artery aneurysm associated with functional pituitary adenoma: A true association. *Asian J Neurosurg.* 2017 Dec;12(4):701.
2. Oh MC, Kim EH, Kim SH. Coexistence of intracranial aneurysm in 800 patients with surgically confirmed pituitary adenoma: Clinical article. *J Neurosurg.* 2012 May;116(5):942–7.
3. Zhong Z, Sun Y, Lin D, Sun Q, Bian L. Surgical treatment of brain tumor coexisted with intracranial aneurysm - Case series and review of the literature. *Neurosurg Rev.* 2013 Oct;36(4):645–56.
4. Hu J, Lin Z, Zhang Y, Zheng X, Ran Q, Zhang D, et al. Prevalence of Unruptured Intracranial Aneurysms Coexisting with Pituitary Adenomas. *World Neurosurg.* 2019 Jun 1;126:e526–33.
5. Kino H, Ito Y, Akutsu H, Tanaka S, Hara T, Ishikawa E, et al. Combined Endoscopic Endonasal and Bilateral Subfrontal Approach for a Nonfunctioning Pituitary Adenoma Associated with an Internal Carotid Artery–Superior Hypophyseal Artery Aneurysm. *World Neurosurg.* 2020 Feb 1;134:297–301.
6. Yu K, Herwadkar A, Kearney T, Gnanalingham KK. Pituitary adenoma and incidental superior hypophyseal aneurysm. *Br J Neurosurg.* 2011 Jun;25(3):432–3.
7. Pant B, Arita K, Knrisu K, Tominaga A, Eguchp K, Uozumi T. Incidence of intracranial aneurysm associated with pituitary adenoma. Vol. 20, *Neurosurg. Rev.* 1997.
8. Bulsara KR, Karavadia SS, Powers CJ, Paullus WC. Case Report Association between pituitary adenomas and intracranial aneurysms: An illustrative case and review of the literature. Vol. 55.
9. Housepian EM, Lawrence J. A Systematic Analysis of Intracranial Aneurysms from the Autopsy File of the Presbyterian Hospital 1914 to 1956 [Internet]. Vol. 17, *JOURNAL OF NEUROPATHOLOGY & EXPERIMENTAL NEUROLOGY.* 1958. Available from: <http://jnen.oxfordjournals.org/>

-
10. Teng MMH, Qadri SMN, Luo CB, Lirng JF, Chen SS, Chang CY. MR imaging of giant intracranial aneurysm. *Journal of Clinical Neuroscience*. 2003;10(4):460–4
 11. Seda L, Cukiert A, Nogueira KC, Huayllas MKP, Liberman B. Intracellular Internal carotid aneurysm coexisting with gh-secreting pituitary adenoma in an acromegalic patient. Vol. 66, *Arq Neuropsiquiatr*. 2008.
 12. Curto L, Squadrito S, Almoto B, Longo M, Granata F, Salpietro F, et al. MRI finding of simultaneous coexistence of growth hormone-secreting pituitary adenoma with intracranial meningioma and carotid artery aneurysms: Report of a case. *Pituitary*. 2007 Sep;10(3):299–305.
 13. Hanak BW, Zada G, Nayar V v., Thiex R, Du R, Day AL, et al. Cerebral aneurysms with intrasellar extension: A systematic review of clinical, anatomical, and treatment characteristics - A review. Vol. 116, *Journal of Neurosurgery*. 2012. p. 164–73.
 14. Hardy RE, Obianyo I, Suck Shu H, Adair L. Unilateral Moyamoya Disease, Intracranial Aneurysm, And A Pituitary Adenoma: A Case Report. 1991.
 15. Wakai S, Fukushima T, Furihata T, Sano K. Association of cerebral aneurysm with pituitary adenoma. *Surg Neurol [Internet]*. 1979 Dec;12(6):503—507. Available from: <http://europepmc.org/abstract/ME>