

Cas Clinique

Tumeurs des deux surrénales. A propos d'un cas

M. El Baghouli, A. Debbagh, Y. Elmessaoudi, S. Bennani et

F. Meziane

Service d'Urologie, CHU Ibn Rochd, Casablanca, Maroc.

RESUME

Les tumeurs surrénales bilatérales sont rares. Nous rapportons un cas de phéochromocytome surrénalien associé à un corticosurrénales controlatéral chez une patiente de 65 ans. L'association d'une hypertension artérielle à des céphalées, sueurs, et palpitations a orienté vers le diagnostic de phéochromocytome. Le bilan biologique basé sur le dosage urinaire des dérivés méthoxylés a confirmé ce diagnostic. L'échographie et le scanner ont montré la présence de deux masses surrénales bilatérales de structure tissulaire. Les deux masses sont discrètement rehaussées après injection du produit de contraste. Devant ce tableau clinique, biologique et morphologique, le diagnostic de phéochromocytome surrénalien bilatéral est retenu. Par conséquent une surrénalectomie bilatérale par voie bi-sous-costale a été réalisée. L'examen anatomopathologique a révélé la coexistence d'un phéochromocytome sur la pièce de surrénalectomie droite et d'un carcinome corticosurrénalien sur la pièce de surrénalectomie gauche, ce qui était imprévu. Les suites opératoires ont été bonnes, sans récurrence, avec un recul de 4 ans. A la lumière de cette observation et d'une revue de la littérature, nous discutons les différentes caractéristiques de cette association inhabituelle.

Mots clés: Phéochromocytome, corticosurrénales, surrénale, incidentalome.

Correspondance: Dr. Mohamed EL BAGHOULI, 173 Rue Saint Laurent, App n° 13, 09000 Casablanca, MAROC.
e-mail : elbaghoulim@yahoo.fr

Détails d'acceptation : article reçu: 12/9/2008

article accepté (après corrections): 10/5/2009

INTRODUCTION

Les tumeurs surrénales bilatérales sont rares. Généralement, elles sont définies par l'existence d'un processus tumoral isolé ou non, atteignant les deux glandes surrénales de manière synchrone ou métachrone. La présentation clinique et biologique de ces tumeurs est polymorphe. L'évolution, ces dernières années, des techniques d'imagerie et des moyens biologiques a permis une amélioration de la prise en charge de ces tumeurs. Les auteurs rapportent le cas d'une patiente qui présentait l'association entre un phéochromocytome surrénalien droit et un carcinome corticosurrénalien gauche avec une symptomatologie clinique de phéochromocytome.

OBSERVATION

Une patiente âgée de 65 ans, sans antécédents familiaux particuliers, ayant comme antécédent personnel une myomectomie pour fibrome utérin 10 ans auparavant, a été admise dans le service pour des douleurs péri-ombilicales, des céphalées, des accès de palpitations, des tremblements, des sueurs et une asthénie évoluant depuis 2 mois sur un fond d'hypertension artérielle (HTA) mal traitée évoluant depuis 12 ans. L'examen clinique a trouvé une HTA permanente de 170/110 mmHg. Le reste de l'examen clinique était normal.

Devant ce tableau clinique le diagnostic de phéochromocytome a été suspecté et un



Fig. 1: TDM abdominale avant injection de produit de contraste: masse surrénalienne bilatérale (A et B)

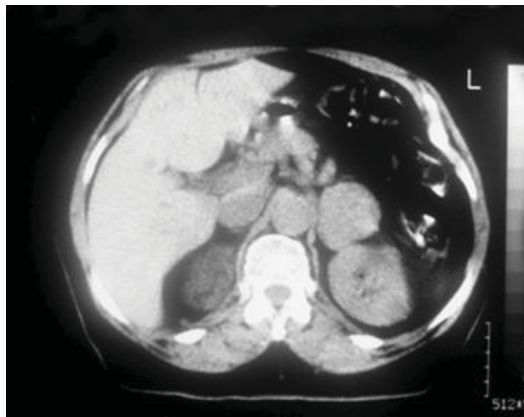


Fig. 2: TDM abdominale après injection de produit de contraste: masse surrénalienne gauche se rehaussant par le produit de contraste.



Fig. 3: TDM abdominale avant injection de produit de contraste: masse surrénalienne droite.

bilan biologique a mis en évidence une élévation des dérivés méthoxylés urinaires (méthanéphrines à 1430 mg/24h [normale: 20 à 345mg/24h], norméméthanéphrines à 902 mg/24h [normale : 30 à 440mg/24h]) et une hyperglycémie à 2,06 g/l. Le dosage du cortisol libre urinaire des 24 heures était normal, de même que le dosage de l'aldostérone plasmatique. L'ionogramme sanguin et la numération formule sanguine étaient normaux. L'échographie abdominale a montré la présence d'une masse surrénalienne droite arrondie, d'échostructure tissulaire, mesurant 42 × 34 mm, de contours réguliers avec quelques microcalcifications. Pour étayer le diagnostic, la patiente a bénéficié d'une tomodensitométrie (TDM) abdominale qui a montré la présence de deux masses surrénaliennes de structure tissulaire: l'une à droite mesurant 55 × 42 mm, hétérogène et siège de quelques calcifications, l'autre

à gauche homogène et mesurant 42 × 46 mm. Les deux masses étaient discrètement rehaussées après injection du produit de contraste. Il n'y avait pas d'atteinte ganglionnaire, ni d'envahissement des organes adjacents, ni de métastases; le foie était normal et le scanner thoracique était sans particularité, ce qui correspond à droite à un stade T2N0M0 et à gauche à un stade T1N0M0 (Fig. 1-3).

Devant ce tableau clinique, biologique et morphologique, le diagnostic de phéochromocytome bilatéral a été retenu en première intention et l'indication de surrénalectomie bilatérale a été posée. La préparation préopératoire a comporté un équilibrage du diabète de la patiente, ainsi que de sa tension artérielle par des alpha bloquants. Le traitement par mitotane n'a pas été instauré vu qu'il n'a pas été possible de prouver qu'il s'agissait d'un corticosurrénalome sécrétant. L'intervention a consisté en une surrénalectomie bilatérale en un seul temps menée par voie bi-sous-costale trans-péritonéale, sous anesthésie générale. Du côté gauche, après décollement pariéto-colique gauche, le bloc spléno pancréatique a été mobilisé permettant de réaliser la surrénalectomie. De même du côté droit, le décollement colopariétal droit et la section du ligament triangulaire du foie a permis la surrénalectomie droite. Les deux surrénales avec leur tumeur ont été adressées pour examen anatomopathologique.

Les suites opératoires ont été simples avec normalisation de l'HTA et la patiente a été mise sous hydrocortisone à la dose de 100 mg/j.

L'examen anatomopathologique de la tumeur droite a montré une masse pesant 80 g et mesurant 9 x 4 x 3 cm. Elle présentait une capsule fine entourée de graisse à laquelle elle était adhérente par endroits. Elle était arrondie, ferme, jaunâtre à la coupe, assez homogène, mais présentait des remaniements nécroticohémorragiques. A l'examen histologique, il s'agissait d'une prolifération néoplasique bien différenciée et reproduisant la corticosurrénale sur un fond richement vascularisé. La capsule était envahie avec extension à la graisse concluant ainsi à la découverte anatomopathologique d'un carcinome corticosurrénalien avec effraction capsulaire. Le score de Weiss est à 5, ce qui est en faveur de la nature maligne de la masse.

A gauche, la pièce était d'aspect nodulaire mesurant 6 x 5 x 4 cm et pesant 55 g. A la coupe, on a constaté un foyer hémorragique mesurant 3 cm de grand axe bordant un parenchyme jaune grisâtre, homogène, dense. L'étude immunohistochimique a montré que toutes les cellules tumorales exprimaient intensément l'anticorps antichromogranine A confirmant le diagnostic de phéochromocytome.

L'évolution a été favorable, sans récurrence locale ni métastases, avec un recul de 4 ans. La surveillance a été basée sur l'examen clinique, la TDM thoracoabdominale, le dosage des dérivés méthoxylés urinaires et le dosage du cortisol libre urinaire des 24 heures de façon semestrielle pendant les 3 premières années puis annuelle jusqu'à 15 ans.

DISCUSSION

Les tumeurs surrenaliennes bilatérales sont rares^{1,2}. Elles peuvent être du même type histologique comme ils peuvent être de types

différents. Mais l'association phéochromocytome-corticosurrénalome malin n'a jamais été décrite dans la littérature à notre connaissance, ce qui rend ce cas clinique unique³⁻⁶.

Critères cliniques:

Les phéochromocytomes se manifestent par les conséquences de l'hypersécrétion de catécholamines ou par celles de la croissance tumorale. Parfois elles sont découvertes fortuitement réalisant alors un incidentalome⁶. Le signe clinique principal en est l'HTA^{1,3,4}.

Les carcinomes corticosurréaliens sont des tumeurs malignes exceptionnelles avec un potentiel évolutif important. Lorsqu'elles sont sécrétantes, elles produisent un excès d'hormones stéroïdes engendrant un tableau clinique qui peut être un syndrome de Cushing le plus souvent, rarement un tableau d'hyperaldostéronisme primaire, d'un syndrome de virilisation ou d'un syndrome de féminisation. Le corticosurrénalome non sécrétant représente 20 à 40% de l'ensemble des corticosurrénalomes malins. La plupart des patients ayant une tumeur non sécrétante développent des signes cliniques en rapport avec une tumeur avancée au moment du diagnostic (douleur abdominale et masse abdominale palpable)⁷.

Critères biologiques:

Le dosage des dérivés méthoxylés urinaires (méтанéphrines et norméтанéphrines urinaires) est associé à une meilleure sensibilité et permet de poser le diagnostic de phéochromocytome.

Le corticosurrénalome malin sécrétant peut être exploré par le dosage du cortisol libre urinaire des 24 heures, cortisolémie, dosage de la kaliémie, dosage des androgènes et dosage des oestrogènes^{2,6,8}.

Critères radiologiques:

La multiplication des examens radiologiques a conduit à découvrir de plus en plus fré-

quement des anomalies surrénaliennes non symptomatiques exprimées actuellement par le terme incidentalome.

La TDM permet de repérer la tumeur et d'en préciser la nature surrénalienne et son extension. La mesure du diamètre de la tumeur est un élément prédictif de la malignité des phéochromocytomes. Ce critère est important, car il peut être isolé et donc inciter à proposer une surveillance rapprochée des patients dont le plus grand diamètre de la tumeur est supérieur à 50 mm. La probabilité de malignité du phéochromocytome est de 70% pour une tumeur de taille supérieure à 5 cm et de 24% pour une tumeur inférieure ou égale à 5 cm. La question de malignité d'un phéochromocytome est importante en pratique, car l'apparition secondaire de métastases (plus ou moins récidive locale) a été observée jusqu'à 15 ans après une chirurgie d'exérèse pour une tumeur «apparemment bénigne». Il a été rapporté dernièrement que le peptide EM 66 pourrait être un marqueur initial de la malignité d'un phéochromocytome^{9,10,11}.

L'exploration par l'imagerie par résonance magnétique (IRM) de la glande surrénale peut dans certains cas compléter les images apportées par le scanner. L'IRM permet de différencier chez un patient hypertendu un phéochromocytome d'un adénome. Elle est l'examen de choix pour le bilan diagnostique et thérapeutique des phéochromocytomes.

La scintigraphie à la MIBG est associée à une sensibilité variant entre 80 et 90% et une forte spécificité (90%). Habituellement ces trois examens sont réalisés en préopératoire de façon systématique. La question est de savoir, chez un patient ayant une biologie positive associée à une imagerie (TDM-IRM) montrant une lésion unilatérale surrénalienne unique, s'il est licite ou non de réaliser une scintigraphie à la MIBG. Le but de cet examen serait de détecter une éventuelle lésion bilatérale, extrasurrénalienne ou une métastase⁹⁻¹¹.

L'imagerie par émission de positron (TEP) est performante pour la recherche de lésions bilatérales, extrasurrénales ou

métastases avec une sensibilité de 100%. En situation métastatique, l'imagerie TEP semble être supérieure. À l'inverse, la scintigraphie ne semble plus devoir être réalisée en routine en préopératoire chez un patient ayant un diagnostic biologique certain et dont l'imagerie (TDM-IRM) montre une lésion unilatérale surrénalienne certaine et unique. La négativité de la scintigraphie MIBG dans cette situation peut être secondaire soit à l'absence de lésion controlatérale, extrasurrénalienne ou de métastases (vrai négatif), soit à la présence de ces lésions qui ne seraient pas vues par la scintigraphie (faux négatif). Indépendamment du problème des vrais négatifs, il apparaît légitime de se poser la question de l'utilisation de l'imagerie TEP pour dépister les faux négatifs. Cependant, aucune étude ne permet actuellement de valider cette proposition, ni pour les patients ayant une imagerie (TDM-IRM) montrant une lésion surrénalienne unique certaine, ni pour ceux ayant une imagerie douteuse ou négative (scintigraphie MIBG, octréoscan)⁹⁻¹¹.

Plusieurs facteurs ont été évalués pour essayer d'objectiver des facteurs prédictifs de malignité (sécrétion dopamine, profil sécrétoire: noradrénaline; noradrénaline+adrénaline, volume tumoral, localisation extrasurrénalienne, protéine S100, index de prolifération Ki67...), mais aucun d'entre eux n'a pu être validé. Le seul critère universellement admis pour établir la malignité d'un phéochromocytome reste la présence d'adénopathies envahies ou de métastases à distance⁹⁻¹¹.

Pour les carcinomes corticosurrénaux, la TDM est l'examen de référence^{6,12}. Le taux de détection est estimé à 98% avec moins de 10% de faux positifs. Les signes de malignité les plus communément admis sont : la taille supérieure à 6 cm, des contours irréguliers, la présence de zones de nécrose et de calcifications, ainsi qu'un envahissement des organes de voisinage et des lésions métastatiques^{2,6,12}; ces éléments sont d'un grand apport diagnostique permettant de différencier morphologiquement un corticosurréalome malin d'un adénome. L'aspect des corticosurréalomes en IRM est hétérogène et hyperintense en T1 et T2 à

cause des zones nécrosées et hémorragiques. L'IRM permet quelquefois d'apprécier l'envahissement local, particulièrement au niveau de la face inférieure du foie et de la veine cave^{6,12}.

Critères anatomopathologiques:

Macroscopiquement, le phéochromocytome est une tumeur bien limitée encapsulée, de couleur rouge sang virant à la coloration brune. Elle est solide et ferme, avec la présence parfois des zones hémorragiques et des remaniements nécrotiques et kystiques. La taille des phéochromocytomes est variable avec une taille moyenne de 41,2 mm. Sur le plan microscopique, les phéochromocytomes sont caractérisés par une architecture endocrinoïde avec un important polymorphisme d'une zone à l'autre : architecture classiquement en nids le plus souvent, architecture diffuse. Les cellules sont souvent polygonales à cytoplasme granulaire éosinophile. Les cellules sont munies dans 47% des cas des globules hyalins qui sont positifs à la coloration PAS (acide périodique shift). Ces globules hyalins au niveau du cytoplasme sont le reflet d'une activité neurosécrétoire. La coloration par les sels de chrome objective des granulations chromaffines dans le cytoplasme. L'étude cytologique permet aussi d'objectiver une anisocaryose, un pléomorphisme nucléaire et la présence et le nombre des mitoses. Ces éléments ne sont pas des signes de malignité. L'immunohistochimie permet d'affirmer le diagnostic de phéochromocytome en utilisant différents marqueurs : la NSE (neurone spécifique éolase), la chromogranine, la sérotonine, la gastrine, la VIP (vasoactive intestinal peptide), la protéine S100 et la GFAP (protéine fibrillaire gliale acides). À priori aucun argument anatomopathologique n'incluant une invasion vasculaire ou des atypies cytologiques ne peut prédire la malignité. C'est l'existence de métastases souvent synchrones, mais parfois métachrones, dans un tissu ou un organe ne contenant normalement pas de tissu chromaffine qui confirme la malignité. Les sites métastatiques principaux sont le foie, les poumons, les ganglions lymphatiques et les os. Au décours de l'intervention, certains arguments peuvent apporter une suspicion, tels

un volume important supérieur à 200 ml, un siège ectopique, une aneuploïdie, une latence clinique d'une forme non sécrétoire ou une forme sécrétant des précurseurs hormonaux. L'ectopie extrasurrénale multiplie le risque de malignité par quatre^{1,11,13}.

Critères histologiques:

Les carcinomes corticosurrénaux sont d'aspect multinodulaire avec des nodules mous friables, et sont hétérogènes avec des zones nécrosées, hémorragiques et des calcifications. En microscopie, ils sont constitués de cellules au cytoplasme clair ou éosinophile en fonction de leur richesse de leur contenu en lipides, disposés en travées massifs ou alvéoles. Les cellules sont petites et régulières ou présentant des atypies (pléomorphisme, chromatine mottée, nucléoles proéminents). Les mitoses sont souvent présentes. Il s'y associe des plages de nécrose et des zones hémorragiques. Le diagnostic histologique de malignité est généralement considéré comme difficile. Il repose sur plusieurs critères qui sont généralement exprimés sous forme de score de Weiss. Pour Weiss, il suffit d'au moins 4 critères parmi les suivants pour poser le diagnostic de malignité : haut grade nucléaire, cellules claires représentant moins de 25% de la tumeur, architecture diffuse (plus de 33%), nécrose, plus de cinq mitoses sur 50 champs au fort grossissement, figures mitotiques atypiques, invasion capsulaire, invasion veineuse et invasion des sinusoides. La place des marqueurs moléculaires est en cours d'évaluation^{1,7,12}.

Traitement:

Pour les phéochromocytomes, le seul traitement curatif est l'exérèse chirurgicale. La voie de référence est la chirurgie ouverte. Pour les phéochromocytomes bénins de taille inférieure à 5 cm, la surrénalectomie par voie laparoscopique peut être indiquée. Au delà de 5 cm, la dissection et le contrôle vasculaire seraient difficiles et périlleux par ce procédé. En cas de tumeur localement avancée, de même qu'en cas de phéochromocytome malin, la surrénalectomie par voie laparoscopique

doit être abandonnée en raison de risque de fragmentation de la tumeur. Du côté droit, si elle envahit la veine cave inférieure, un shunt veineux peut être recommandé. Les métastases à distance détectées par l'imagerie (scintigraphie à la MIBG), si elles sont accessibles et si elles envahissent les tissus mous, sont aussi traitées chirurgicalement. Malheureusement ces métastases sont souvent multiples et localisées dans les os et ne sont donc pas accessibles à la chirurgie. La radiothérapie sera donc indiquée pour ces métastases osseuses, mais elle ne sera que palliative. La chimiothérapie combinée par cyclophosphamide, vincristine et dacarbazine, peut être aussi recommandée, mais son taux de réponse tumorale n'est que de 57%, et son taux de réponse sécrétoire est de 79% durant une moyenne de 21 mois après 4 cycles¹⁰⁻¹³.

L'embolisation du phéochromocytome a été essayée avec quelque succès. L'administration postopératoire de MIBG marqué à l'iode 131 a permis d'obtenir des réponses hormonales et/ou tumorales, malheureusement, transitoires de certains phéochromocytomes malins^{10,11,13}.

De même, l'exérèse chirurgicale carcinologique de la tumeur est le traitement de première intention du corticosurréalome. La voie de référence est la chirurgie ouverte. Le traitement de référence des formes non réséquables, incomplètement réséquées ou métastatiques est le mitotane. Ce traitement est également efficace pour le contrôle hormonal préopératoire des formes sécrétantes. Son rôle en traitement adjuvant après chirurgie complète est discuté^{2,7,12}. À notre connaissance, il n'existe aucun essai randomisé pour évaluer réellement l'efficacité de l'o,p-DDD, tout comme il n'en existe pas pour comparer en termes de tolérance et d'efficacité les deux formes galéniques de cette molécule : le Mitotane® et le Lysodren®. Quand même, dans l'étude de Terzolo et al, l'utilisation du mitotane en adjuvant a amélioré la survie sans progression chez les patients présentant un corticosurréalome radicalement réséqué¹³. Un traitement substitutif s'impose en cas de surrénalectomie bilatérale^{1,12,14}. La place de la laparoscopie reste discutée. Pour certains

auteurs, le diagnostic de corticosurréalome est une contre indication^{1,12,14}.

En cas d'association phéochromocytome et carcinome corticosurrénalien, la surrénalectomie à ciel ouvert reste le traitement de référence, le plus souvent en un seul temps. La voie d'abord transpéritonéale bi-sous-costale reste préférable à l'incision médiane en permettant un abord de meilleure qualité en permettant d'explorer facilement les deux surrénales, ainsi que le reste de la cavité abdominale. La thoraco-phréno-laparotomie peut se trouver exceptionnellement justifiée pour l'exérèse de volumineuses tumeurs surrénales, susceptibles d'envahir à droite la veine cave inférieure et le foie, à gauche le bloc spléno pancréatique. Après la mise à jour de la surrénale, le principal objectif est la ligature des veines capsulaires afin d'arrêter le largage des catécholamines dans la circulation générale, principal vecteur des problèmes anesthésiques. Ensuite, il faut dégager la surrénale du pédicule rénal surtout à droite où il est plus rapproché ainsi que la veine cave, la résection se fera alors sans problème. Si le diagnostic de malignité est retenu, un geste carcinologique doit être réalisé: surrénalectomie en monobloc avec la graisse périrénale voire même une néphrectomie si le rein ou son pédicule sont intéressés par le processus tumoral, avec une marge de résection passant par une zone saine. Le curage ganglionnaire est systématique en cas d'adénopathie latéro-cave à droite, latéro-aortique à gauche et du pédicule rénal^{1,8,15}.

Le pronostic des corticosurréalomes est sombre, 15 à 30% des malades ont une survie à 5 ans. Les deux facteurs pronostiques qui prédominent sont le stade tumoral au moment du diagnostic et la qualité de la résection chirurgicale^{2,12}.

Dans les cas des phéochromocytomes initialement bénins, la probabilité des récurrences est de 8% à cinq ans, les récurrences pouvant être bénignes ou malignes.

En cas de récurrence maligne localisée, la chirurgie permet de très longues rémissions.

En cas d'essaimage métastatique à distance, le traitement palliatif dispose de la chirurgie de réduction tumorale, de la radiothérapie in situ par une forte dose de MIBG et de l'embolisation, suivie de plastie en cas de métastase osseuse^{11,14}.

Dans notre cas, le pronostic est lié plus au corticosurréalome, et il sera très mauvais en cas de phéochromocytome malin. C'est donc l'évolution ultérieure et le degré de malignité du corticosurréalome et du phéochromocytome lors des récidives ou des métastases qui précise alors le pronostic de la patiente.

En conclusion, l'association phéochromocytome surrénalien et corticosurréalome controlatéral est une lésion rare, et ce diagnostic doit faire partie des étiologies des tumeurs surrénales bilatérales. L'évaluation hormonale est impérative avant l'intervention chirurgicale pour empêcher les pics hypertensifs peropératoires ou l'insuffisance surrénalienne postopératoire. Le progrès en imagerie est d'un apport fondamental à la décision thérapeutique. Le pronostic est sombre et dépend de l'évolution ultérieure et le degré de malignité du corticosurréalome et du phéochromocytome lors des récidives ou des métastases.

BIBLIOGRAPHIE

1. Benchekroun A, Lachkar A, Soumana A, Farid MH, Belahnech Z, Marzouk M, et al. Le phéochromocytome surrénalien bilatéral. A propos d'un cas. [Bilateral adrenal pheochromocytoma. A case report]. *Ann.Urol. (Paris)*. 1998;32(5):274-8.
2. Benchekroun A, Ghadouane M, Amhajji R, Alami M, Zannoud M, Faik M. Cortico-surréalome bilatéral non sécrétant. [Bilateral non-secreting adrenal cortical adenoma]. *Prog.Urol.* 2002; Jun;12(3):459-61.
3. Cotesta D, Petramala L, Serra V, Giustini S, Divona L, Calvieri S, et al. Pheochromocytoma associated with adrenocortical tumor in the same gland. Two case reports and literature review. *Minerva Endocrinol.* 2006; Jun;31(2):183-9.
4. Morimoto S, Sasaki S, Moriguchi J, Miki S, Kawa T, Nakamura K, et al. Unique association of pheochromocytoma with contralateral nonfunctioning adrenal cortical adenoma. *Am.J.Hypertens.* 1998; Jan;11(1 Pt 1):117-21.
5. Hwang WR, Ma WY, Tso AL, Pan CC, Chang YH, Lin HD. Pheochromocytoma and adrenocortical adenoma in the same gland. *J.Chin.Med.Assoc.* 2007; Jul;70(7):289-93.
6. Lockhart ME, Smith JK, Kenney PJ. Imaging of adrenal masses. *Eur.J.Radiol.* 2002; Feb;41(2):95-112.
7. Samaha E, Meria P, Hernigou A, Duclos JM. Tumeurs non sécrétantes de la surrénale. [Non-secreting adrenal tumors]. *Ann.Urol.(Paris)*. 2004; Feb;38(1):35-44.
8. Haab F, Duclos JM, Julien J, Plouin PF. Tumeurs des deux surrénales. 12 cas consécutifs. [Tumors of both adrenal glands. 12 consecutive cases]. *Presse Med.* 1994; Mar 19;23(11):511-4.
9. Brunaud L, Ayav A, Bresler L, Klein M, Boissel P. Les problèmes diagnostiques du phéochromocytome. [Problems in pheochromocytoma diagnosis.]. *Ann.Chir.* 2005; Apr;130(4):267-72.
10. Proye C. Aspects modernes de la prise en charge des phéochromocytomes et des paragangliomes abdomino-pelviens. [Modern aspects of management of pheochromocytoma and abdominopelvic paraganglioma]. *Ann.Chir.* 1998;52(7):643-56.
11. Plouin PF, Vuagnat A, Batide-Alanore AL, Ficquet-Kempf B. [Phéochromocytomes malins: Histoire naturelle et traitement]. Malignant pheochromocytoma: Pathogenesis and treatment. *Revue Française D'Endocrinologie Clinique, Nutrition et Métabolisme.* 1998;39(4-5):129-35.
12. Mongiat-Artus P, Miquel C, Meria P, Hernigou A, Duclos JM. [Adrenocortical secretory tumors]. Tumeurs sécrétantes de la corticosurrénale. *Ann.Urol. (Paris)*. 2004; Aug;38(4):148-72.
13. Terzolo M, Angeli A, Fassnacht M, Daffara F, Tauchmanova L, Conton PA, et al. Adjuvant mitotane treatment for adrenocortical carcinoma. *N.Engl.J.Med.* 2007; Jun 7;356(23):2372-80.
14. Mirallie E, Cariou B, Kraeber Bodere F. Phéochromocytomes bilatéraux. Génétique et traitement. [Bilateral pheochromocytoma. Genetics and treatment]. *Ann.Chir.* 2005; Apr;130(4):273-6.
15. Inabnet WB, Caragliano P, Pertsemliadis D. Pheochromocytoma: Inherited associations, bilaterality and cortex preservation. *Surgery.* 2000; Dec;128(6):1007,11;discussion 1011-2.

ABSTRACT

Bilateral Adrenal Tumors. A Case Report

Bilateral adrenal tumors are rare. We report a case of adrenal pheochromocytoma associated with a contralateral adrenocortical carcinoma in a 65-year-old woman. Her presenting symptoms, consisting of hypertension associated with headache, sweating and palpitations, suggested the diagnosis of pheochromocytoma, which was confirmed by measurement of catecholamine metabolites in her urine. Ultrasonography and computed tomography revealed bilateral solid adrenal masses with tissue enhancement after the injection of contrast medium. Based on these clinical, biological and morphological findings, the diagnosis of bilateral adrenal pheochromocytoma was made and bilateral adrenalectomy was performed. Histopathological examination revealed a pheochromocytoma in the right adrenal and an unsuspected adrenocortical carcinoma in the left adrenal gland. The post-operative course was uneventful, without recurrence at 4 years follow-up. Based on the present case and a literature review, we discuss the various characteristics of this unusual entity.