

## CASOS CLÍNICOS

# Tumor adenomatoide de epidídimo. A propósito de un caso y revisión de la bibliografía

Luciano Delgado Plasencia<sup>a</sup>, Pedro-Ramón Gutiérrez Hernández<sup>b</sup>, Julián Fernández Ramos<sup>c</sup>, Alejandro Hernández Morales<sup>a</sup>, Rafael Méndez Medina<sup>d</sup> y Pedro Rodríguez Hernández<sup>b</sup>

<sup>a</sup>Servicio de Cirugía General y Digestiva. Hospital Universitario de Canarias. Universidad de La Laguna. Tenerife. España.

<sup>b</sup>Servicio de Urología. Hospital Universitario de Canarias. Universidad de La Laguna. Tenerife. España.

<sup>c</sup>Servicio de Radiodiagnóstico. Hospital Universitario de Canarias. Universidad de La Laguna. Tenerife. España.

<sup>d</sup>Servicio de Anatomía Patológica. Hospital Universitario de Canarias. Universidad de La Laguna. Tenerife. España.

### RESUMEN

El tumor adenomatoide, de características benignas, es el más frecuente de los tumores paratesticulares. Habitualmente se presenta en la edad adulta. La localización más frecuente en el varón es en el epidídimo, de predominio izquierdo, sin embargo se han descrito casos en el cordón espermático, la túnica testicular, los conductos eyaculadores y la próstata; mientras que en la mujer se ha localizado en el útero y la trompa de Falopio. El diagnóstico se apoya en los métodos radiológicos (ecografía y tomografía computarizada). Su sospecha y conocimiento permite realizar cirugía conservadora.

Se presenta el caso de un varón de 52 años, afectado de masa sólida en cola de epidídimo derecho, con diagnóstico de tumoración sólida en ecografía preoperatoria, que se trató mediante exéresis de ésta. El estudio anatomo-patológico mostró tumoración adenomatoide de epidídimo.

La importancia de este tumor radica en el diagnóstico diferencial con otros procesos de naturaleza inflamatoria y tumoral, para adoptar una actitud terapéutica adecuada.

**Palabras clave:** Epidídimo. Tumores benignos. Tumor adenomatoide.

### ABSTRACT

**Adenomatoid tumor of the epididymus.**

**Apropos of a case and review of the literature**

Adenomatoid tumor, mostly benign, is the most frequent paratesticular tumors. It commonly affects to middle aged subjects. Although most reported cases arise from left epididymis, rare cases have been reported in the spermatic cord, testicular tunica, ejaculatory ducts and prostate, in male subjects. In female subjects, adenomatoid tumors are commonly found in the uterus and fallopian tubes. Diagnosis is supported by radiologic evaluation (US, CT). Its suspicious allow us to do local remove.

We present a male of 52 years old with solid lesion in the tail of the right epididymis. In preoperative US was described a solid tumor. The surgical treatment was exeresis. Pathologic study showed an epididymis adenomatoid tumor.

It is important to know about this illness in order to make a differential diagnosis from other inflammatory and tumor processes, for adopting a right surgical approach.

**Key words:** Epididymis. Benign tumors.

Adenomatoid tumor.

### INTRODUCCIÓN

Los tumores paratesticulares son poco frecuentes, representan menos del 5% de las neoplasias intraescrotales, y el 75-80% de ellos son de naturaleza benigna<sup>1</sup>. Dentro de los tumores de tejidos paratesticulares el

más frecuente es el tumor adenomatoide (TA), excluido el lipoma, que supone entre el 30 y el 60%, seguido del leiomioma y cistoadenoma papilar<sup>2-4</sup>.

La localización más frecuente de los TA, en el varón, es en el polo inferior del epidídimo, aunque también pueden afectar al cordón espermático, la próstata, el conducto eyaculador, el testículo, la túnica vaginal y la albugínea; mientras que en la mujer se localiza en el útero, la trompa de Falopio y el hilio ovárico<sup>1,5-8</sup>.

Este tumor normalmente se presenta entre la tercera y la quinta décadas de la vida, aunque se ha descrito algún caso en sujetos jóvenes<sup>1,9,10</sup>.

**Correspondencia:** Dr. L. Delgado Plasencia.  
Servicio de Cirugía General y Digestiva.  
Hospital Universitario de Canarias.  
Ofra, s/n. La Cuesta. 38320 La Laguna.  
Santa Cruz de Tenerife. España.  
Correo electrónico: luciano\_delgado1@yahoo.es

El origen de este tumor es incierto, si bien la histogénesis mesotelial está apoyada por la elevada concentración de mucopolisacáridos ácidos (ácido hialurónico), así como por la presencia de numerosas vellosidades, desmosomas, tonofilamentos y de espacios intercelulares dilatados<sup>3,11</sup>. El traumatismo asociado se ha descrito en pocos casos<sup>5</sup>.

## CASO CLÍNICO

Paciente varón de 52 años de edad, sin antecedentes de interés, que acude por masa en el testículo derecho. A la exploración física destaca una masa firme, en cola de epidídimo derecho no dolorosa. Las analíticas sanguíneas se encontraban dentro de rangos normales, así como los marcadores tumorales. La exploración ecográfica reveló la presencia de una masa sólida, bien delimitada, isoecogénica, localizada en cola del epidídimo derecho, con discreto flujo vascular periférico en el modo Doppler color (fig. 1).

Intraoperatoriamente se evidenció una tumoración de  $2,5 \times 2,5$  cm, redondeada, bien delimitada, de superficie lisa, pardusca, de consistencia firme-elástica y planos de sección blanquecinos-homogéneos, dependiente de la cola de epidídimo derecho. El estudio microscópico reveló una lesión nodular constituida por numerosas oquedades o hendiduras en estroma fibroso laxo o denso que podía presentar componente inflamatorio focal. El revestimiento era aplanado o cuboideo monoseriado con positividad para citoqueratina, calretinina, y menos evidente para vimentina, y negatividad para CD31, CD34, factor VIII, EMA, CEA y actina. La lesión se insinuó en el componente fibromuscular y rechazaba estructura epididimaria (fig. 2).

## DISCUSIÓN

En 1916, Sakaguchi<sup>12</sup> describió el primer caso de tumor benigno de epidídimo; no obstante, no es hasta 1945 cuando Golden y Ash<sup>13</sup> aplicaron por primera vez el término de tumor adenomatoide. Desde entonces han surgido diferentes denominaciones para el TA, como mesotelioma adenomatoide, adenofibroma, adenofibromioma, adenomioma, tumor angiomatoide, fibroma, linfangioma, linfadenoma, mesotelioma benigno, mioadenofibroma, leiomioma adenomatoide y leiomioma mixoide<sup>3</sup>.

Clínicamente se caracteriza por presentar una masa indolora extratesticular, de un tamaño que oscila entre 3 y 5 cm, y sólo en un 30% de los casos presenta dolor, pudiendo ser de gran intensidad cuando se presenta infarto de éste<sup>14,15</sup>. En un 5% de los pacientes puede presentarse como una forma inflamatoria, entonces hay que plantear el diagnóstico diferencial con una epididimitis aguda o crónica<sup>5</sup>.

A la exploración física se presenta como una tumoración unilateral, excepto en un 15% de los casos que es bilateral, de localización mayoritariamente en el lado izquierdo, blanco-amarillento, de superficie lisa y consistencia elástica, bien delimitado, con una periferia al corte fibrosa y homogénea, con transiluminación negativa<sup>2,3,5</sup>. En un 15-20% de los casos esta tumoración se ve asociada a un hidrocele, si bien su presencia se relaciona más frecuentemente con las tumoraciones paratesticulares malignas<sup>3</sup>.

El diagnóstico de sospecha se determina por la clínica y la exploración física. La ultrasonografía escrotal es el método de imagen de elección. Dicha prueba aporta datos que permiten diferenciar lesiones sólidas de quísticas y localizar el tumor como extra o

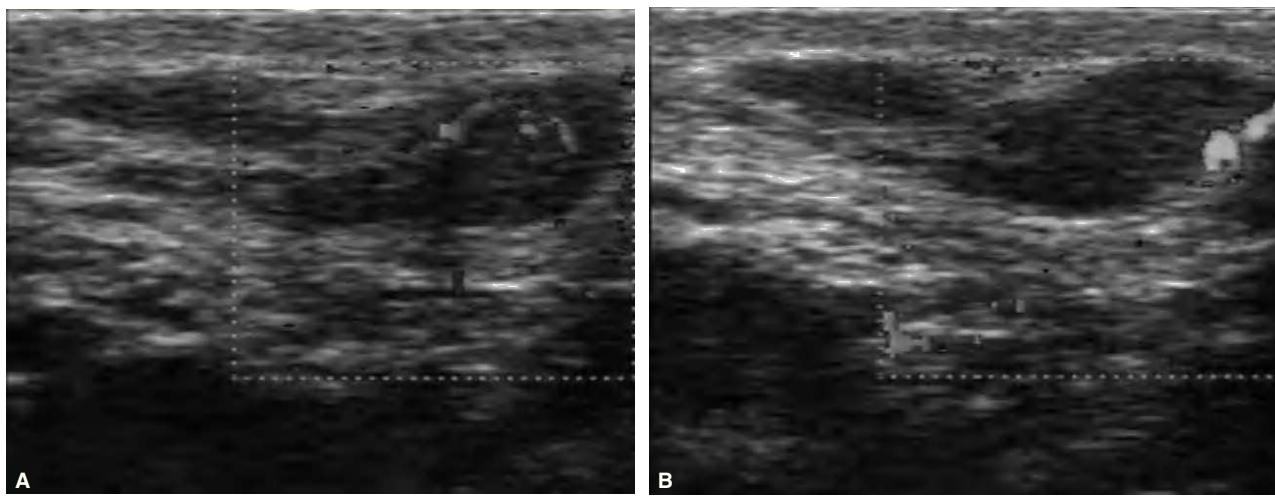
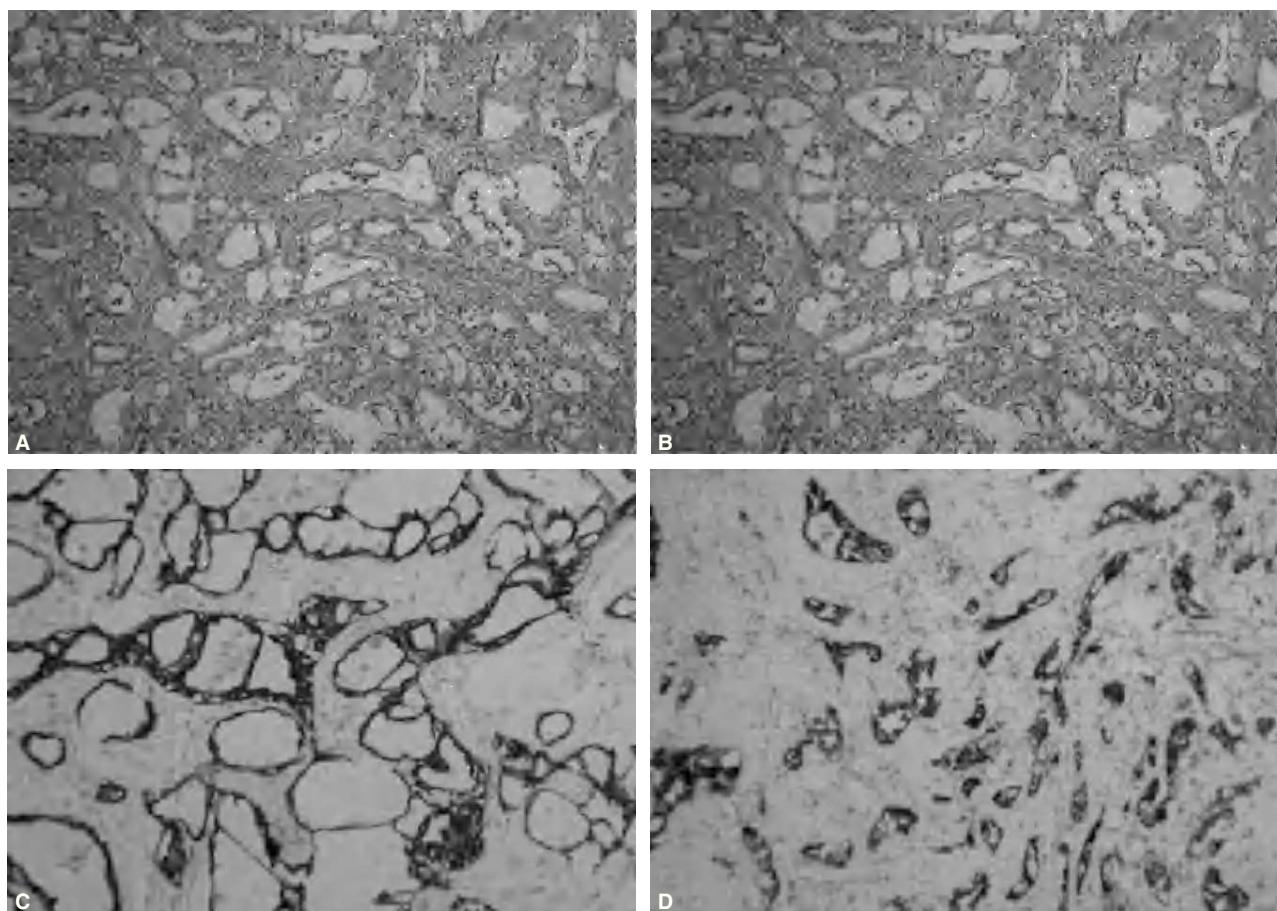


Figura 1. Ecografía Doppler color: presencia de una masa sólida, bien delimitada, isoecogénica, localizada en cola del epidídimo derecho, con discreto flujo vascular periférico (fotos A y B).



**Figura 2.** A) Visión panorámica de la lesión tumoral con oquedad de tamaño visible y morfología en estroma fibroso (HE,  $\times 100$ ). B) Detalle de la lesión con las oquedades revestidas por elementos aplanados o cuboideos en estroma con áreas densas y componente inflamatorio focal (HE,  $\square 200$ ). C) Positividad en las células de revestimiento de las múltiples oquedades neiformadas (IHQ-pancitoqueratina). D) Similar positividad de las células epiteliales, lo que indican origen mesotelial (IHQ-calretinina).

intratesticular<sup>8</sup>. Normalmente se presenta como una tumoración isoecogénica o hiperecoica, aunque estos hallazgos son muy variables<sup>3,16</sup>. El uso de punción-aspiración con aguja fina (PAAF) guiada por ecografía puede ayudar a realizar el diagnóstico de este tumor; sin embargo, en ocasiones el diagnóstico es indeterminado y es necesario realizar exploración quirúrgica<sup>17,18</sup>. También se ha descrito el uso de la resonancia magnética aunque no se ha generalizado su empleo<sup>5</sup>.

El diagnóstico diferencial del TA se debe plantear con determinadas enfermedades, como epididimitis aguda y crónica, quistes de epidídimo, espermatocèle, hematoma, adenocarcinoma metastásico, liposarcoma, neoplasia vascular, tumor *yolk-sac*, tumor de las células de Sertoli y de Leidig, leiomioma, mesotelioma y seminoma<sup>1,8,15</sup>.

Al examen anatopatológico macroscópico son lesiones sólidas, redondeadas, bien delimitadas con

superficie al corte de aspecto fibroso, aunque dicho tumor no es encapsulado y puede extenderse al testículo, lo que crea dudas acerca de la diferenciación diagnóstica de los tumores intratesticulares<sup>8</sup>.

Histológicamente, Mostofi y Price<sup>19</sup> describieron los 3 posibles patrones de presentación de este tumor: sólido, glandular y angiomaide, según el patrón de disposición dominante de las células. Este tumor presenta proliferación de células epiteliales de morfología variable entre aplanadas y cuboidales, con moderado a abundante citoplasma vacuolado, con apariencia en anillo de sello aunque no hay positividad para melenas epiteliales. En ocasiones el citoplasma presenta un aspecto eosinofílico, formando cordones sólidos. La presencia de canales simula estructuras vasculares. También se pueden observar células aisladas<sup>15,20</sup>. La estroma es de tipo fibroso, formada por colágeno, a veces hialinizada y contiene agregados linfoides, fibras elásticas y un abundante componente muscular liso

que ha ocasionado que algunos de estos tumores se hayan denominado como leiomiomas adenomatoides. También pueden observarse colecciones aisladas de células inflamatorias<sup>1,3,5</sup>. Los marcadores tumorales no son específicos<sup>1,21</sup>.

Estos tumores exhiben inmunohistoquímica positiva para citoqueratina AE1/AE3, antígeno de membrana epitelial y vicentina, y ausencia de antígenos asociados a adenocarcinomas como CEA, CD15, B72.3, la aglutinina Y de *Ulex europeus*, factor VIII, CD-34, estos resultados apoyan el origen mesotelial de estos tumores<sup>22,23</sup>. El TA tampoco muestra reactividad para el p53, AFP y PSA<sup>3</sup>. El origen mesotelial se confirma con la tinción para calretinina, CK5/6 y WT-1, que se localiza en el citoplasma y en el núcleo celular<sup>2</sup>.

Debido a la naturaleza benigna de este tumor y a la presencia de un plano de clivaje, el tratamiento de elección es la escisión local o epididimectomía parcial o total, por vía inguinal cuando la tumoración se encuentra bien delimitada y no ofrece dudas a cerca de su naturaleza benigna, se haya realizado o no biopsia intraoperatoria<sup>1-3</sup>.

El pronóstico es satisfactorio dada las características histológicas y clínicas del tumor, y no se han descrito casos de diseminación metastásica o recidiva locoregional tras su exéresis, incluso aunque en un 40% de los casos son localmente invasivos<sup>1,3,11</sup>, aunque sólo en un caso se ha citado la posibilidad de malignidad<sup>8</sup>. Esta característica ha hecho que Tammela et al<sup>24</sup> cuestionasen si los TA son lesiones neoplásicas o reactivas.

Por último, y en lo que a España se refiere, desde 1968 hasta la fecha se han descrito unos 35 casos en la literatura especializada, debido a la escasa presentación de esta lesión<sup>2</sup>.

## CONCLUSIONES

El caso clínico aquí presentado cumple con las características (clínicas, morfológicas e histopatológicas) correspondientes a un TA de epidídimo, y se suma a los casos previamente descritos

El conocimiento y toma de conciencia de este tipo de tumores benignos, de localización paratesticular, orienta en el diagnóstico diferencial de las masas sólidas intraescrotales.

## Bibliografía

- Alapont Pérez FM, Gálvez Calderón J, Lemberg Lapaco PM, Varea Herrero J, Machín Hamalainen S. Adenomatoid tumor of the epididymis. *Actas Urol Esp.* 1999;23:613-6.
- Moyano Calvo JL, Giraldez Puig J, Sánchez de la Vega J, Dávalos Casanova G, Morales López A. Adenomatoid tumor of the epididymis. *Actas Urol Esp.* 2007;31:417-9.
- Tato Rodríguez J, Lema Grille J, Cimadevila García A, Abejeda Barca J, Blanco Parra M, Cimadevila Covelo A, et al. New report of epididymal adenomatoid tumor. Infrequent pathology. *Actas Urol Esp.* 1997;21:502-7.
- Heidenreich A, Moul JW, Srivastava S, Engelmann UH. Synchronous bilateral testicular tumour: nonseminomatous germ cell tumours and contralateral benign tumours. *Scand J Urol Nephrol.* 1997;31:389-92.
- Akbar SA, Sayyed TA, Jafri SZH, Hasteh F, Neill JSA. Multimodality imaging of paratesticular neoplasms and their rare mimics. *Radiographics.* 2003;23:1461-76.
- Serrano Frago P, Medrano Llorente P, Borque Fernando A, Pascual Llorente M, Allue Lopez M.. Consults by scrotum mass: epididymo lesions. *Actas Urol Esp.* 2007;31:420-2.
- Evans K. Rapidly growing adenomatoid tumor extending into testicular parenchyma mimics testicular carcinoma. *Urology.* 2004;64:589.
- Barry P, Chan KG, Hsu J, Quek ML. Adenomatoid tumor of the tunica albuginea. *Int J Urol.* 2005;12:516-8.
- Davies JH, Notley RG. Adenomatoid tumours of the male genital tract. Review of 5 men presenting with an intrascrotal swelling subsequently diagnosed as an adenomatoid tumour. *Eur Urol.* 1989;16:393-4.
- Espuela R, Nogueras MA, Passas J, et al. Tumor adenomatoide de epidídimo: rara presentación clínica de un tumor poco frecuente. *Actas Urol Esp.* 1982;6:247-50.
- Romero Pérez P, Amat Cecilia M, Rafie Mazketli W, Merenciano Cortina FJ, Laforga Canales JB. Epididymal adenomatoid tumor. Review of the national literature and report of a case. *Actas Urol Esp.* 1996;20:839-43.
- Sakaguchi Y. Über das Adenomym des Nebenhodens. *Ztschr Pathol.* 1916;18:379-87.
- Golden A, Ash JE. Adenomatoid tumors of the genital tract. *Am J Path.* 1945;21:63-79.
- Delahunt B, Eble JN, King D, Bethwaite PB, Nacey JN, Thornton A. Immunohistochemical evidence for mesothelial origin of paratesticular adenomatoid tumour. *Histopathology.* 2000;36: 109-15.
- Amin MB. Selected other problematic testicular and paratesticular lesions: rete testis neoplasms and pseudotumors, mesothelial lesions and secondary tumors. *Mod Pathol.* 2005;18 Suppl 2:S131-45.
- Woodward PJ, Schwab CM, Sesterhenn IA. From the archives of the AFIP: extratesticular scrotal masses: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics.* 2003;23:215-40.
- Singh I, Dev G, Singh N. Chronic epididymitis (epididymal nodule) mimicking an adenomatoid tumor-case report with review of literature. *Int Urol Nephrol.* 2002;34:219-22.
- Rege JD, Amarapurkar AD, Phatak AM. Fine needle aspiration cytology of adenomatoid tumor. A case report. *Acta Cytol.* 1999;43:495-7.
- Mostofi F, Price EB. Tumors of the male genital system. En: *Atlas of tumor pathology: fasc 8, ser 2.* Washington DC: Armed Forces Institute of Pathology; 1973.
- Strigley JR, Hartwick RW. Tumors and cysts of the paratesticular region. *Pathol Annu.* 1990;25:51-108.
- Kuhn MT, MacLennan GT. Benign neoplasms of the epididymis. *J Urol.* 2005;174:723.
- Gokce G, Kilicarslan H, Ayan S, Yildiz E, Kaya K, Gultekin EY. Adenomatoid tumors of testis and epididymis: a report of two cases. *Int Urol Nephrol.* 2001;32:677-80.
- Williams SB, Han M, Jones R, Andrawis R. Adenomatoid tumor of the testes. *Urology.* 2004;63:779-81.
- Tammela TL, Karttunen TJ, Makarainen HP, Hellstrom PA, Mattila SI, Kontturi MJ. Intrascrotal adenomatoid tumors. *J Urol.* 1991;146:61-5.