



Revista Internacional de
Andrología

www.elsevier.es/andrologia



CASO CLÍNICO

Linfedema genital crónico gigante. Contribución de 2 casos, abordaje quirúrgico y revisión de la literatura



CrossMark

Antonio Sampietro Crespo^{a,*}, Ana Isabel Cobo-Cuenca^b,
Natanael García Betancourth^a, Blanca Arce Casado^a, Javier de la Fuente^c
e Ignacio Gómez García^a

^a Servicio de Urología, Hospital Virgen de la Salud, Servicio de Salud de Castilla-La Mancha (SESCAM), Toledo, España

^b Departamento de Enfermería y Fisioterapia, Facultad de Enfermería y Fisioterapia, Universidad de Castilla-La Mancha (UCLM), Toledo, España

^c Servicio de Cirugía Plástica, Hospital Virgen de la Salud, Servicio de Salud de Castilla-La Mancha (SESCAM), Toledo, España

Recibido el 1 de mayo de 2014; aceptado el 17 de julio de 2014

Disponible en Internet el 4 de septiembre de 2014

PALABRAS CLAVE

Linfedema;
Genital;
Pene;
Escroto;
Procedimientos
quirúrgicos

Resumen

Objetivo: Exponer una descripción detallada de la técnica quirúrgica para el linfedema genital crónico gigante. Comentar otras opciones quirúrgicas de extirpación y reconstrucción.

Método: Se presentan los casos de 2 varones con linfedema genital crónico gigante de más de 2 años de evolución, con gran afectación funcional y un estado de ánimo y autoestima bajos. Se realiza una descripción por pasos de la técnica quirúrgica y los cuidados posteriores.

Resultados: Se realizó la extirpación completa del linfedema genital crónico gigante hasta tejido sano, la disminución de la oquedad condicionada por la extirpación, con flaps de piel y tejido celular subcutáneo, y la reparación del defecto de la piel con injertos cutáneos libres de espesor parcial obtenidos del abdomen. El resultado estético fue muy bueno y se obtuvo un magnífico resultado psicológico, con mejoría de la autoestima y el estado de ánimo.

Conclusiones: El tratamiento quirúrgico en casos avanzados es la única opción posible. Con la técnica descrita se obtienen buenos resultados (estéticos, funcionales y psicológicos).

© 2014 Asociación Española de Andrología, Medicina Sexual y Reproductiva. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

KEYWORDS

Lymphedema;
Genitalia;
Penis;
Scrotum;
Surgical procedures

Chronic giant genital lymphedema: Contribution of 2 cases, description of surgical approach and literature review

Abstract

Aim: To provide a detailed description of the surgical technique for the chronic giant genital lymphedema. To explain other surgical methods of removal and reconstruction.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: asampietro@ono.com (A. Sampietro Crespo).

Method: Based in 2 males with a chronic giant genital lymphedema with more than 2 years of evolution, with high functional impairment, low mood and low self-esteem. Description, step by step, of the surgical procedures and postoperative care.

Results: The removal of the chronic giant genital lymphedema up to healthy tissue was performed. Reduction of the cavity conditioned by the removal, with flaps of skin and subcutaneous tissue. Repair of skin defect with partial thickness skin grafts obtained from the abdomen. Very good aesthetic result and splendid psychological outcome with improved self-esteem and mood.

Conclusions: Surgical treatment in advanced cases is the only option. With the described technique good results (aesthetic, functional and psychological) are obtained.

© 2014 Asociación Española de Andrología, Medicina Sexual y Reproductiva. Published by Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

Introducción

El linfedema genital crónico gigante (LGCG) es una entidad de rara presentación que condiciona una grave deformidad genital acompañada de una gran afectación psíquica¹. Ocasiona gran dificultad para la deambulaci3n, para orinar e impide las relaciones sexuales.

El nexa com3n de los procesos que la originan es la obstrucci3n de los vasos linfáticos regionales²⁻⁴. Los procesos que pueden causarlo se agrupan en inflamatorios, posquir3rgicos y neoplásicos, secundarios a secuelas posradioterapia y formas idiopáticas⁵. La causa m3s frecuente en el mundo es la filariasis, aunque se puede relacionar con otras enfermedades infecciosas como la hidrosadenitis supurativa⁶, y con infecciones estreptoc3cicas o tuberculosas.

El linfedema primario se debe a una malformaci3n del sistema linfático⁷, conocida como enfermedad de Milroy, causada principalmente por una hipoplasia valvular de los vasos linfáticos. En esta enfermedad suelen afectarse m3s frecuentemente las extremidades que el escroto, puesto que la mayor anomalía linfática ocurre desde las rodillas hasta las partes distales.

En los 3 3ltimos a3os en nuestro centro, hemos tratado 2 casos de LGCG. Pretendemos hacer una descripci3n m3s detallada de la t3cnica quir3rgica empleada para extirpar la masa penoescrotal gigante y de la reconstrucci3n del defecto ocasionado por la misma, tras una revisi3n bibliogr3fica de las t3cnicas m3s utilizadas.

En los 2 casos hemos utilizado la misma t3cnica, con buenos resultados est3ticos y mejora de la autoestima, del estado de ánimo y de la satisfacci3n con la vida, como se desprende de los cuestionarios contestados por los pacientes antes y despu3s del procedimiento.

Descripci3n de los casos clínicos

El primer caso trata de un var3n de 46 a3os, con antecedentes de obesidad, con un linfedema genital gigante de 3 a3os de evoluci3n. El segundo caso es un var3n de 43 a3os, que presentaba como antecedentes obesidad e hidrosadenitis en las regiones inguinal y axilar, que ya había precisado alg3n drenaje quir3rgico previo por infecci3n. En la exploraci3n ambos casos presentaban tumoraci3n de tejido escrotal de gran tama3o, que no dejaba apreciar ni el pene ni los

Tabla 1 Calidad de vida, autoestima, ansiedad y depresi3n antes y despu3s de la intervenci3n

	Var3n 1	Var3n 2	Valores
Calidad de vida antes	9	11	Mala
Calidad de vida despu3s	24	25	Aceptable
Autoestima antes	19	23	< 26: baja
Autoestima despu3s	26	29	26-29: media
Ansiedad antes	7	7	< 8: no ansiedad
Ansiedad despu3s	6	5	< 8: no ansiedad
Depresi3n antes	13	11	> 7: depresi3n
Depresi3n despu3s	6	5	No depresi3n

testículos, con aspecto de piel de naranja. El primer caso, adem3s, presentaba infecciones cut3neas escrotales.

Los pacientes tenían el ánimo muy afectado, estaban muy desanimados, presentaban baja calidad vida y autoestima baja (tabla 1).

Como prueba complementaria se realiz3 TAC abdominop3lvica, donde se demostraba gran aumento de la bolsa escrotal, con ambos testículos de característic3s normales, sin hernia inguinal acompa3ante.

Tras el diagn3stico de LGCG, se realiza la intervenci3n quir3rgica bajo anestesia general, que consistió en:

- Colocaci3n del paciente en posici3n de litotomía y sondaje vesical (fig. 1).
- Incisi3n suprap3blica transversa en zona de piel sana, con progresi3n hacia la profundidad. Se secciona el tejido hipertr3fico mediante bisturí el3ctrico y LigaSure Atlas™.
- Identificaci3n de las estructuras genitales (base del pene y salida de los cordones espermáticos) por el orificio inguinal externo.
- Disecci3n roma de las estructuras genitales desde el interior de la masa linfedematosa hacia el exterior. De esta



Figura 1 Paciente en posición de litotomía.



Figura 3 Progresión hasta la raíz de la masa penoescrotal.

manera se van «desenterrando» las estructuras genitales desde el interior de la masa.

- Tras conseguir evidenciar por completo el pene desnudo hasta la fascia de Buck y disecar completamente ambos testes con sus cordones espermáticos, la masa escrotal queda unida al paciente por un tendón central de tejido hipertrófico que lo ancla al periné, recubierto por piel y tejido celular subcutáneo (fig. 2).
- Se realizan 2 incisiones laterales por tejido sano, que van desde la parte lateral de la masa escrotal hasta la región perianal. A través de estas incisiones se va progresando en profundidad, hasta llegar a la zona central, donde se habían desenterrado los genitales. Con esto se consigue la

extirpación de la masa escrotal. En el primer caso la masa pesó 13,2 Kg, y en el segundo, 9,3 Kg (fig. 3).

- Se revisa cuidadosamente la hemostasia de toda la superficie de resección y se realiza eversión de la túnica vaginal de ambos testículos.
- Se liberan flaps de la piel y tejido subcutáneo de las partes laterales con la intención de disminuir la oquedad que ha quedado tras la extirpación de la masa. Estos flaps se suturan con puntos de prolene de 2 ceros.
- Se sustituye la piel del pene y el escroto con colgajos de piel libres de espesor parcial, obtenidos del abdomen del paciente, ya que al no tener dermis carecen de folículo piloso, mejorando la estética (fig. 4).



Figura 2 Identificación de las estructuras genitales.



Figura 4 Reconstrucción de pene y escroto con injertos libres de espesor parcial.



Figura 5 Primera cura bajo anestesia general.



Figura 6 Resultado a los 6 meses de la cirugía.

Se realizaron las 2 primeras curas bajo anestesia general, a las 48 y 96 h de la intervención (fig. 5). Para las curas de los genitales se utilizaron gasas empapadas en nitrofuril líquido, y para las zonas del abdomen, donde se extrajeron los injertos, se utilizaron apósitos de Linitul®. Se retiró la sonda vesical al mes de la cirugía.

A los 6 meses de la cirugía los pacientes ya referían poder mantener relaciones sexuales satisfactorias, buenos resultados estéticos (fig. 6) y mejora de la autoestima, del estado de ánimo y de la satisfacción con la vida (tabla 1), como se desprende de los cuestionarios contestados por los pacientes antes del procedimiento y a los 6 meses del mismo (Escala de Autoestima de Rosenberg, escala de ansiedad y depresión hospitalaria HADS y escala de satisfacción con la vida LISAT-8).

En la revisión a los 2 años ninguno de los 2 casos ha presentado recidiva alguna, debido a la resección total del tejido enfermo.

Discusión

El LGCG es una afección poco frecuente, sobre todo en los países desarrollados, en los que la filariasis, que es la principal causa mundial, no está presente⁷.

La fisiopatología del LGCG es la obstrucción del drenaje linfático por compromiso ganglionar locorregional, ocasionando la acumulación de linfa y proteínas en el intersticio de los tejidos. Esto provoca la formación de grandes pliegues, deformidad de la piel y aparición de infecciones bacterianas recurrentes²⁻⁴.

En los países occidentales la etiología más frecuente es la iatrogénica (linfadenectomía inguinal o radioterapia pélvica) o la infecciosa. Probablemente, en nuestro segundo caso, el origen del LGCG esté relacionado con la hidrosadenitis supurativa⁵, ya que el paciente había precisado drenajes quirúrgicos de abscesos por hidrosadenitis inguinal y axilar.

Hay numerosos tratamientos descritos para esta enfermedad, que van desde medidas locales (elevación de las piernas, vendajes compresivos, etc.) a medicamentos (diuréticos), siendo el tratamiento quirúrgico el más efectivo, sobre todo en casos crónicos⁸.

Fundamentalmente hay 2 líneas de tratamiento quirúrgico:

1. Técnicas de drenaje, que consiste en la reconstrucción del drenaje linfático mediante colgajos o mediante reconstrucción microvascular^{9,10}.
2. Técnicas de extirpación: para lograr la curación de la enfermedad es fundamental la extirpación de todo el tejido afectado, con posterior reconstrucción anterior mediante colgajos o injertos cutáneos (habitualmente de espesor parcial)¹¹.

En la reconstrucción del defecto del pene se describen en la literatura injertos de piel de espesor parcial obtenidos de muslo y abdomen^{12,13}, colgajos cutáneos de piel de prepucio sana², incisiones en w-plastia con reconstrucción con mucosa prepucial y zona no indurada de piel de pene¹⁴, y flaps locales según técnica de Ouzilleau¹⁵.

Para la reconstrucción de piel escrotal se utilizan colgajos cutáneos laterales en alas de mariposa¹⁴, flaps de tejido escrotal adyacentes¹⁵, escisión de tejido afecto con sutura primaria envolviendo los testes¹³, colgajos locales de muslo¹², e injertos de espesor parcial que no parecen interferir en la espermatogénesis⁵ y que pueden ser utilizados para sustituir grandes defectos de piel, como es nuestro caso. Parece ser que con este tipo de injerto disminuye el número de recidivas, pues se es más radical en la extirpación⁵. En nuestro caso obtuvimos los injertos libres de espesor parcial del abdomen del paciente.

Conclusiones

- El principio fundamental para conseguir la curación del LGCG y prevenir las recidivas es la extirpación completa y en profundidad del tejido enfermo.
- Si existe piel viable adyacente, se puede plantear la reconstrucción de los defectos ocasionados, con colgajos pediculados y plastias (en Z o alas de mariposa).

- En nuestro caso, y dada la extensión del tejido enfermo, hubo que recurrir a injertos libres de espesor parcial del abdomen del paciente.
- Se consiguió buen resultado estético, con conservación de la erección y magníficos resultados psicológicos (mejoría en el estado de ánimo, autoestima y calidad de vida).

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que los procedimientos seguidos se conformaron a las normas éticas del comité de experimentación humana responsable y de acuerdo con la Asociación Médica Mundial y la Declaración de Helsinki.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores han obtenido el consentimiento informado de los pacientes y/o sujetos referidos en el artículo. Este documento obra en poder del autor de correspondencia.

Conflicto de intereses

Los autores declaran que no tienen ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Díaz Hernández O, Peña de la Moneda H, Cairós Báez J. Variantes quirúrgicas para el tratamiento del linfedema primario de pene y escroto. *Rev Cubana Cir.* 2000;39:230-7.
2. Singh V, Sinha RJ, Sankhwar SN, Kumar V. Reconstructive surgery for penoscrotal filarial lymphedema: A decade of experience and follow-up. *Urology.* 2011;77:1228-31.
3. Faye O, Petit F, Poli F, Petit T, Wechsler J, Gabison G, et al. Lymphedema as a complication of hidradenitis suppurativa in three patients. *Ann Dermatol Venereol.* 2007;134:567-9.
4. Laplume E, Belinky J, Romano S, Rey HM, Chéliz G. Linfedema genital crónico. Tratamiento quirúrgico. *Rev Argent Urol.* 2011;76:176-80.
5. García-Tutor E, Botellé del Hierro J, San Martín Maya A, Castro García J, España A, Fernández Montero J, et al. Surgical treatment of penile lymphedema associated with hidradenitis suppurativa. *Actas Urol Esp.* 2005;29:519-22.
6. Konety BR, Cooper T, Flood HD, Futrell JW. Scrotal elephantiasis associated with hidradenitis suppurativa. *Past Reconstr Surg.* 1996;97:1243-5.
7. Rubio Hidalgo E, López García-Moreno A, Buendía González E, Sampietro Crespo A, Arce Casado B, de la Fuente Núñez J. Tratamiento quirúrgico en un caso de linfedema escrotal gigante. *Arch Esp Urol.* 2011;64:121-4.
8. Salas Cabrera R, Moré Pérez F. Giant scrotal lymphedema. *Arch Esp Urol.* 2007;60:195-8.
9. Mukenge S, Pulitanò C, Colombo R, Negrini D, Ferla G. Secondary scrotal lymphedema: A novel microsurgical approach. *Microsurgery.* 2007;27:655-6.
10. Mukenge SM, Catena M, Negrini D, Ratti F, Moriondo A, Briganti A, et al. Assessment and follow-up of patency after lymphovenous microsurgery for treatment of secondary lymphedema in external male genital organs. *Eur Urol.* 2011;60:1114-9.
11. Hornberger BJ, Elmore JM, Roehrborn CG. Idiopathic scrotal elephantiasis. *Urology.* 2005;65:389.
12. Tosun Z, Sutcu M, Guven S, Gurbuz R. Giant scrotal elephantiasis with unknown etiology. *Ann Plast Surg.* 2005;54:685-6.
13. Garaffa G, Christopher N, Ralph DJ. The management of genital lymphoedema. *BJU Int.* 2008;102:480-4.
14. Franco Mora MC, Pichín Quesada A, Giraudy Simón G, León Estrada M, Candebat Montero LH, Tamayo Tamayo I. External genitalia lymphedema. Case report. *Arch Esp Urol.* 2007;60:688-92.
15. Kossoko H, Allah CK, Kadio MR, Yéo S, Djè VA. Two cases of penoscrotal elephantiasis treated by Ouzilleau's surgical procedure. *Ann Chir Plast Esthet.* 2011;56:265-8.