

CASO CLÍNICO

Tumor paratesticular atípico. Mesotelioma papilar bien diferenciado



Leandro Reina-Alcaina*, Emilio Izquierdo-Morejón, Antonio Romero-Hoyuela
y Bernardino Miñana-López

Servicio de Urología, Hospital Universitario Morales Meseguer, Murcia, España

Recibido el 30 de julio de 2015; aceptado el 20 de junio de 2016
Disponible en Internet el 29 de septiembre de 2016

PALABRAS CLAVE

Mesotelioma;
Testículo;
Tumor

Resumen Los tumores paratesticulares son poco frecuentes: suponen menos del 5% de las neoplasias intraescrotales. El mesotelioma testicular es un tumor raro paratesticular de la línea de células no germinales.

Presentamos el caso de un varón de 69 años de edad que consulta por tumoración testicular derecha y al que, tras exploraciones complementarias, se realiza orquiectomía radical con resultado anatomopatológico de mesotelioma de túnica albugínea.

© 2016 Asociación Española de Andrología, Medicina Sexual y Reproductiva. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

KEYWORDS

Mesothelioma;
Testicle;
Tumor

Paratesticular atypical tumor. Well differentiated papillary mesothelioma

Abstract Paratesticular tumors are rare, less than 5% of intrascrotal neoplasms. Testicular mesothelioma is a rare paratesticular not germ cell tumor.

We report the case of a 69 year-old man after attending Urology consultation due to the appearance of a right testicular tumor. He is diagnosed of mesothelioma of tunica albuginea after surgical treatment by radical right orchiectomy.

© 2016 Asociación Española de Andrología, Medicina Sexual y Reproductiva. Published by Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

Introducción

La región paratesticular es un área anatómica compleja que comprende los túbulos seminíferos, los conductos eferentes, el epidídimo, los conductos deferentes, las tunicas

* Autor para correspondencia.
Correo electrónico: leandro.reina@gmail.com
(L. Reina-Alcaina).

testiculares y el cordón espermático. Por el contrario, la piel escrotal no se considera estructura anatómica de la región paratesticular¹.

Los tumores paratesticulares son pocos frecuentes: suponen menos del 5% de las neoplasias intraescrotales. Las regiones donde se pueden formar estos tumores son: sistema colector testicular, túnicas testiculares y cordón espermático (este último es el sitio de asiento más frecuente). Los tumores benignos representan el 70%, aproximadamente: el lipoma es el más frecuente^{1,2}.

Los tumores adenomatoideos son lesiones neoplásicas benignas, poco frecuentes, de origen mesotelial. Este término fue utilizado por primera vez en 1945 por Golden y Ash³. Se trata de tumores que suelen ser únicos, que afectan sobre todo al aparato reproductor femenino y principalmente al útero durante la edad reproductiva⁴. También pueden encontrarse en la glándula suprarrenal, el corazón y la pleura⁵⁻⁷.

El origen mesotelial está aceptado en función de su inmunofenotipo, positivo para citoqueratina, antígeno de membrana epitelial A para calretinina y vimentina, y negativo para marcadores vasculares^{8,9}.

La ecografía escrotal es el método de imagen diagnóstico de elección. Con esta prueba de imagen podemos diferenciar entre lesiones sólidas y quísticas, o diferenciar entre un origen intratesticular o extratesticular¹⁰.

Los tumores paratesticulares son procesos poco frecuentes y por lo general benignos que, si se diagnostican correctamente, son susceptibles de extirpación local.

Presentación del caso

Varón de 69 años sin alergias medicamentosas conocidas, agricultor de profesión, con antecedente de haber trabajado en una fábrica de cartón durante 3 años y en una fábrica de vidrio durante 3 meses. Exfumador de 30 paquetes/año desde hace 7 años. No presenta antecedentes urológicos de interés. Con antecedentes clínicos de hipertensión arterial, cardiopatía hipertensiva, diabetes mellitus tipo 2, dislipidemia, síndrome de apnea obstructiva del sueño en tratamiento con *continue positive airway pressure* nocturna, fibrilación auricular crónica en tratamiento con fármaco anticoagulante (acenocumarol) y hernia de hiato.

Acude a consulta de Urología por aumento de tamaño del testículo derecho de un mes de evolución. La exploración física demostró masa intraescrotal unilateral, sin asociación de signos inflamatorios. No se objetivaron adenopatías inguinales ni supraclaviculares.

Se realizó ecografía escrotal que mostró ambos testes de forma, tamaño y ecoestructura conservados, hidrocele moderado en hemiescrotal derecho junto con una imagen nodular de bordes irregulares y aspecto sólido de 16 × 18 mm de diámetro mayor con algunas calcificaciones periféricas, en íntimo contacto con la albugínea testicular.

Los estudios de hematimetría y bioquímica fueron normales. Todos los marcadores tumorales séricos, como alfafetoproteína (2,2 ug/l), gonadotropina coriónica humana beta (1 UI/l) y lactato deshidrogenasa (264 UI/l) estaban dentro de los límites normales.

Tras estos hallazgos, y dada la edad del paciente, su cumplida descendencia y su preocupación ante una posible



Figura 1 Imagen de lesión excrecente.

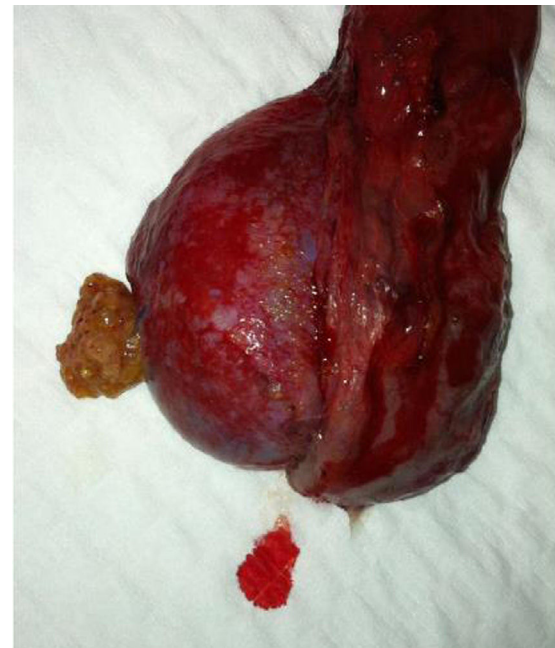


Figura 2 Imagen de lesión excrecente.

enfermedad maligna, se decidió realizar orquiectomía radical derecha por vía inguinal bajo anestesia raquídea. El postoperatorio cursó sin incidencias.

La pieza incluyó testículo de 4 cm de diámetro mayor y cordón espermático de 7 cm de longitud. Se identificó sobre la túnica albugínea del testículo una lesión excrecente de morfología papilomatosa de consistencia elástica de 2 × 2 × 1,5 cm, de aspecto amarillento con áreas hemorrágicas en su superficie (figs. 1 y 2).

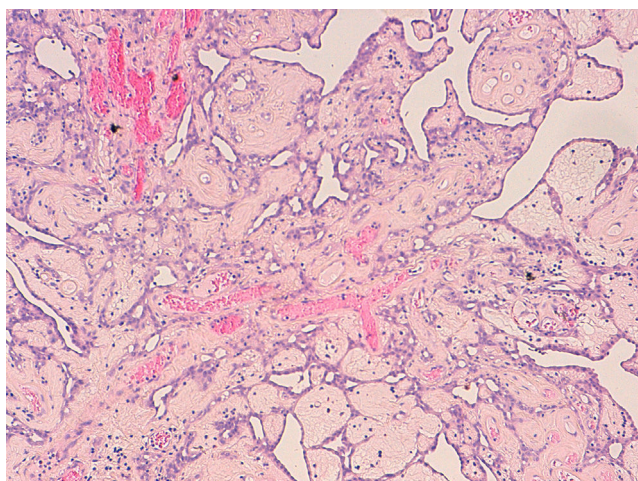


Figura 3 Imagen de tinción con hematoxilina-eosina.

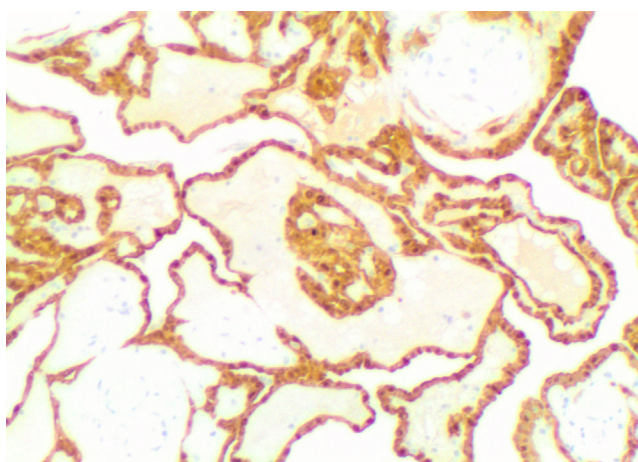


Figura 4 Imagen inmunohistoquímica de tinción para calretinina (tiñe las células mesoteliales).

En cuanto al aspecto microscópico, en relación con la túnica albugínea se identificó una lesión pediculada constituida por papilas de eje conectivo con áreas hialinizadas revestidas por epitelio cúbico y aplanado, de aspecto mesotelial, sin atipia citológica, actividad mitótica ni invasión estromal (fig. 3). La estirpe mesotelial de la lesión se confirmó por estudio inmunohistoquímico que demostró extensión CK7+/CK20– y positividad con calretinina, WT1 y EMA (fig. 4). Fueron negativas BER-EP4, CD15, PLAP y CK 5/6. No se observaron alteraciones morfológicas en el parénquima testicular, salvo ocasionales focos de aplasia de célula germinal con atrofia.

Diagnóstico anatomopatológico: mesotelioma papilar bien diferenciado de túnica albugínea.

Se completó el estudio de extensión con TC toracoabdominopélvica. Se objetivó un discreto patrón enfisematoso centroacinar de predominio en ambos lóbulos pulmonares superiores. Se apreciaron nódulos redondeados, densos e inespecíficos por su pequeño tamaño (un nódulo de 6,5 mm de diámetro menor en lóbulo inferior izquierdo, 2 nódulos de 3 mm de diámetro menor en lóbulo superior derecho y un nódulo de 3,5 mm de diámetro menor en lóbulo medio derecho). También se apreciaron 2 imágenes compatibles

con litiasis de 6 y 5 mm de diámetro mayor localizadas en grupo calicial inferior y medio del riñón derecho, respectivamente, con una densidad media de 500 UH (compatibles con litiasis de ácido úrico). El resto del estudio fue normal.

Se propuso seguimiento estrecho cada 3 meses con vigilancia de nódulos pulmonares inespecíficos mediante ecografías escrotales y TC toracoabdominopélvicas.

Discusión

Los tumores adenomatoideos son de comportamiento benigno de origen mesotelial, caracterizados por la presencia de numerosas glándulas junto con espacios a modo de lagunas, túbulos redondeados, ovales o en forma de hendidura, y cordones o grupos de células¹¹. Estos representan el grupo de tumores paratesticulares más frecuentes (60% de todas las neoplasias benignas en esta área)¹¹.

El tumor diagnosticado en el caso expuesto corresponde a un tipo poco frecuente de tumor paratesticular: el mesotelioma benigno. Este grupo de tumores, de origen mesotelial, está compuesto de 3 variantes: el mesotelioma quístico, el mesotelioma papilar bien diferenciado y el mesotelioma maligno¹¹.

El mesotelioma papilar bien diferenciado testicular se presenta como uno o múltiples nódulos, o depósitos granulares localizados sobre la túnica vaginal o albugínea. Microscópicamente, existen papilas de eje conectivo con áreas hialinizadas revestidas por epitelio cúbico y aplanado, de aspecto mesotelial, sin atipia citológica¹¹. En el análisis inmunohistoquímico, sus células expresaron positividad para marcadores epiteliales y de membrana (CK7+ y EMA, respectivamente)³. También para WT1. La proteína de tumor de Wilms está codificada por el gen WT1 en el cromosoma 11p. El WT1 representa un marcador eficaz para mesoteliomas¹². El estudio inmunohistoquímico también demostró el origen mesotelial mediante la positividad de la tinción para calretinina, una proteína fijadora de calcio de 29 kDa que pertenece a la familia de la proteína S100 y se localiza tanto en el citoplasma como en el núcleo celulares. Dicha proteína se identificó por primera vez en neuronas y tiene una alta sensibilidad para detectar tejido mesotelial¹³.

Otros hallazgos inmunohistoquímicos que permitieron demostrar el origen mesotelial de estas células tumorales consistieron en la negatividad para la expresión de marcadores epiteliales como PLAP, BER-EP4, CK 5/6 y CD15¹³.

La mayoría de ellos ocurren en pacientes jóvenes (2.ª y 3.ª décadas). Este tipo de tumor es ampliamente considerado como un tumor benigno de comportamiento *borderline*, ya que alguno de ellos puede llegar a ser agresivo en su comportamiento¹¹, sobre todo los hallados en individuos en la 5.ª o 6.ª décadas y con el antecedente de exposición a fibras ambientales (en este caso de vidrio), sin poder asegurar que la juventud o la no exposición ambiental eviten la aparición de una lesión maligna¹⁴.

La baja frecuencia de presentación de este tipo de tumores hace que las diferentes actitudes terapéuticas estén basadas en experiencias y publicaciones de baja casuística, por lo que no son comparables. Es esencial el diagnóstico en las primeras etapas de la enfermedad para lograr la exéresis quirúrgica completa en casos de malignidad, o realizar una biopsia intraoperatoria para intentar una exéresis lo más

conservadora posible de una lesión benigna. En nuestro caso no pudimos establecer el pronóstico favorable hasta conocer la anatomía patológica postoperatoria. La terapia adyuvante en forma de quimioterapia, inmunoterapia o radioterapia no han mostrado ventajas significativas¹⁵.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

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 o sujetos referidos en el artículo. Este documento obra en poder del autor de correspondencia.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Carrión López P. Sarcomas de cordón espermático: estado actual y presentación de cuatro casos clínicos. *Arch Esp Urol*. 2009;62. Madrid.
2. Hinman F, Gibson TE. Tumors of the epididymis, spermatic cord and testicular tunics: A review of literature and report of three cases. *Arch Surg*. 1924;8:100.
3. Golden A, Ash JE. Adenomatoid tumors of the genital tract. *Am J Pathol*. 1945;21:63–79.
4. Tiltman A. Adenomatoid tumors of the uterus. *Int J Gynecol Pathol*. 2002;21:305.
5. Raaf HN, Grant LD, Santoscoy C, Levin HS, Abdul-Karim FW. Adenomatoid tumor of the adrenal gland: A report of four new cases and a review of the literature. *Mod Pathol*. 1996;9:1046–51.
6. Minato H, Nojima T, Kurose N, Kinoshita E. Adenomatoid tumor of the pleura. *Pathol Int*. 2009;59:567–71.
7. Val-Bernal JF, Fogols J, Gómez-Román JJ. Incidental localized (solitary) epithelial mesothelioma of the pericardium: Case report and literature review. *Cardiovasc Pathol*. 2002;11:181–5.
8. Hes O, Perez-Montiel DM, Alvarado Cabrero I, Zamecnik M, Podhola M, Sulc M, et al. Thread-like bridging strands: a morphologic feature present in all adenomatoid tumors. *Ann Diagn Pathol*. 2003;273–7.
9. Amin MB. Selected other problematic testicular and paratesticular lesions: rete testis neoplasms and pseudotumors, mesothelial lesions and secondary tumors. *Modern Pathol*. 2005;18:131–45.
10. Kim TJ, Kim SH, Sim JS, Lee DK, Seong CK. Ultrasonographic findings of an intratesticular adenomatoid tumor. *J Ultrasound Med*. 2000;19:227–9.
11. Eble NJ. Pathology and genetics of tumours of the urinary system and male genital organs. World Health Organization Classification of Tumours; 2002. December.
12. Pelletier J, Bruening W, Kashtan CE, Mauer SM, Manivel JC, Striegel JE, et al. Germline mutations in the Wilms' tumor suppressor gene are associated with abnormal urogenital development in Denys-Drash syndrome. *Cell*. 1991;67:437–47.
13. Hispan P, Pascual JC, González I, Bravo D, Peiro G. Cutaneous metastases from malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis. *Am J Dermatopathol*. 2016;38:222–5.
14. Doo SW1, Cho KH, Kim JS, Yang WJ, Choi IH, Lee DW, et al. Radiologic findings of mesothelioma at the tunica vaginalis. *Urology*. 2012;80:e3–5. Epub 2012 May 17.
15. Gupta N, Kumar R. Malignant gonadal mesothelioma. *Curr Treat Options Oncol*. 2002;3:363–7.