

CASO CLÍNICO

Tumor adenomatoide da túnica albugínea. Um desafio no tratamento conservador



Jorge Cabral Ribeiro^{a,*}, Luciana Sousa^b e Vicente Gonçalves^c

^a Unidade de Urologia, Hospital Privado da Trofa, Trofa, Portugal

^b Unidade de Imagiologia, Hospital Privado da Trofa, Trofa, Portugal

^c Anatomia Patológica, Laboratório Anatomia Patológica (LAP), Porto, Portugal

Recebido a 7 de dezembro de 2016; aceite a 27 de fevereiro de 2017

Disponível na Internet a 2 de maio de 2017

PALAVRAS-CHAVE

Tumor;
Adenomatoide;
Testículo;
Albugínea

Resumo Os tumores adenomatoides são tumores benignos raros, de origem mesotelial que, no homem, afetam principalmente o epidídimo. Representam mais de um terço dos tumores paratesticulares e o tratamento de eleição é a excisão cirúrgica. Extremamente rara é a origem no parênquima testicular ou na túnica albugínea. Os sinais clínicos e estudos de imagem são frequentemente inconclusivos, não permitindo o diagnóstico diferencial com a neoplasia testicular maligna, resultando em orquidectomias radicais desnecessárias. Os autores descrevem um caso clínico de tumor adenomatoide da túnica albugínea, em que a suspeita clínica e exame anatomopatológico intraoperatório conduziram à realização de uma orquidectomia parcial.

© 2017 Asociación Española de Andrología, Medicina Sexual y Reproductiva. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos os direitos reservados.

KEYWORDS

Tumor;
Adenomatoide;
Testes;
Albugínea

Tunica albuginea adenomatoid tumor. A challenging case managed conservatively

Abstract The adenomatoid tumors are rare benign mesothelial lesions that in males affect mainly the epididymis. They account for over one third of paratesticular tumors, and the treatment of choice has been surgical excision. The origin in testicular parenchyma or the tunica albuginea is extremely rare. Clinical signs and imaging studies are often inconclusive in differentiate from a more common malignant intratesticular solid tumour, which can result in unnecessary orchiectomies. We present a case of adenomatoid tumor of tunica albuginea where clinical suspicion and intraoperative frozen section analysis led to a partial orchiectomy.

© 2017 Asociación Española de Andrología, Medicina Sexual y Reproductiva. Published by Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

* Autor para correspondência.

Correio eletrónico: jmcr1234@gmail.com (J. Cabral Ribeiro).

Introdução

Os tumores adenomatoides (TA) são lesões de origem mesotelial benignas raras que envolvem, mais frequentemente, os tratos genitais masculino e feminino. A nível masculino, a grande maioria apresenta-se como lesões paratesticulares, sobretudo epididimárias, onde representam mais de 30% dos tumores¹.

Sendo um tumor benigno, o tratamento cirúrgico consiste na excisão tumoral e conservação do testículo, sempre que possível. A ecografia e a ressonância magnética nuclear (RMN) escrotais permitem a localização e caracterização da lesão, mas as suas manifestações não são uniformes. O crescimento atípico dos TA, com padrão infiltrativo e ausência de encapsulação, coloca ainda dificuldades no exame histológico intraoperatório e subsequente decisão de tratamento conservador. O diagnóstico definitivo de TA da albugínea pode depender do uso de marcadores imunocitoquímicos.

Os autores pretendem com o presente caso clínico alertar para a existência destes raros tumores, para o desafio e particularidades de diagnóstico, pois só a sua consideração atempada pode evitar orquiectomias indesejáveis².

Caso clínico

Um homem de 51 anos de idade, com antecedentes de hipertensão arterial e dislipidemia, recorreu à consulta para um exame urológico de rotina.

No exame físico foi detetada lesão nodular pétérea, centimétrica, indolor, bem delimitada, envolvendo a superfície lateral do terço distal do testículo direito, adjacente à cauda do epidídimo.

Na ecografia escrotal, a tumefação do hemiescroto direito correspondia a um nódulo sólido hiperecogénico pericentimétrico (fig. 1). A imagem sugeria tratar-se de nódulo extraparenquimatoso na eventual dependência das tûnicas escrotais pela continuidade com a túnica albugínea; a hipótese de tumor testicular exofítico era menos provável, uma

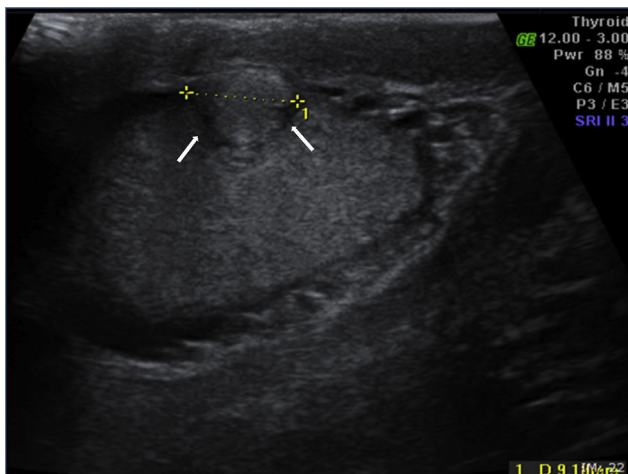


Figura 1 Ecografia escrotal – nódulo sólido hiperecogénico pericentimétrico em aparente continuidade com albugínea e aparente compressão extrínseca sobre parênquima testicular (setas).

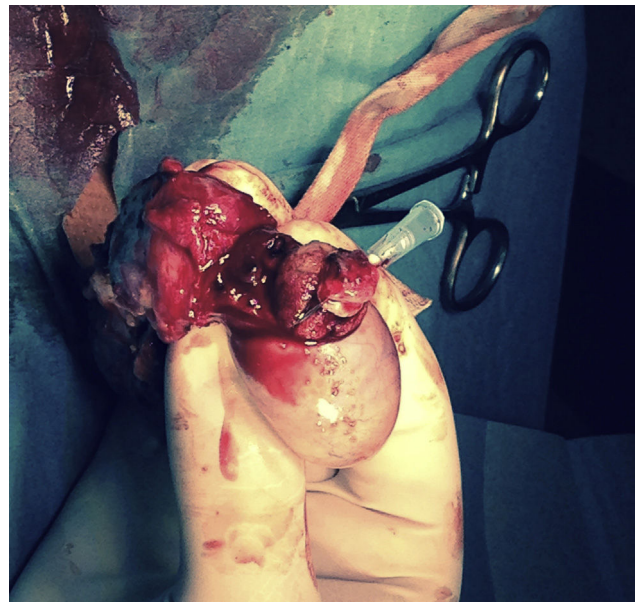


Figura 2 Exploração testicular por via inguinal – exérese de lesão nodular referenciada.

vez que a lesão exercia aparente compressão extrínseca sobre o testículo (fig. 1 setas).

Os marcadores tumorais desidrogenase láctica (DHL), alfa-fetoproteína (α FP) e fração β da gonadotrofina coriônica (β HCG) foram negativos, e a tomografia toraco-abdominopélvica não revelou alterações.

O doente foi submetido a exploração testicular por via inguinal com isolamento prévio do cordão espermatóico, exteriorização do testículo e identificação da lesão. Após referenciar a lesão, procedeu-se à exérese em bloco (fig. 2).

O exame histológico intraoperatório documentou neoformação com 1 cm, compacta e esbranquiçada, em continuidade com albugínea e revestida internamente por polpa testicular. O exame microscópico em cortes de congelação mostrou neoplasia de padrão glandular mal delimitada na transição para a polpa testicular, compatível com TA, mas o diagnóstico mais seguro e definitivo exigiria estudo imunocitoquímico.

Perante a forte possibilidade de se tratar de uma lesão benigna, procedemos a alargamento da margem (remoção de 5 mm de margem adicional), orquidorrafia e encerramento da vaginal, preservando-se o testículo. No pós-operatório, verificou-se o desenvolvimento de discreta hematocele.

O exame histológico posterior, após inclusão em parafina, revelou neoplasia de padrão epitelióide com formação de túbulos e estroma fibroso, sem pleomorfismo nuclear significativo e sem encapsulação, notando-se estruturas tubulares neoplásicas entre tubos seminíferos na zona de transição entre neoplasia e o parênquima testicular. As características morfológicas, muito sugestivas de TA, foram confirmadas com estudo imunocitoquímico, com positividade para pancitoqueratinas CAM5.2 e calretinina, e negatividade para citoqueratinas 5/6. Esta negatividade e a ausência de alterações citológicas de malignidade levaram a excluir o diagnóstico de mesotelioma maligno (fig. 3).

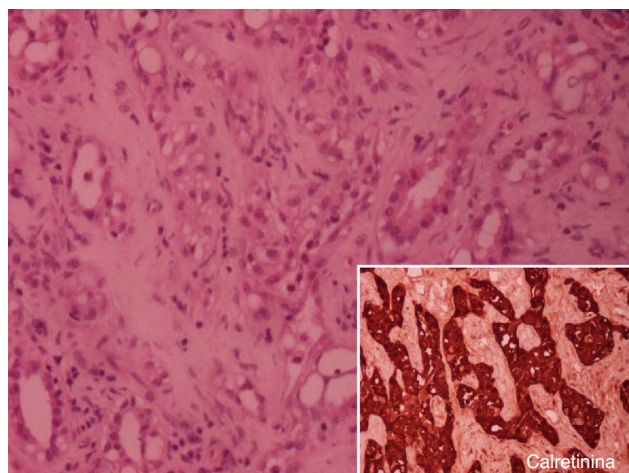


Figura 3 H. E., ampl. 100x. A neoplasia tem aspeto epitelial com padrão tubular e as células, umas têm citoplasma eosinófilo e outras têm citoplasma claro vacuolizado; caixa – imunocitoquímica 400x – positividade acentuada para calretinina.

Após 18 meses de seguimento, o doente está assintomático e com controlo ecográfico sem evidência de recidiva.

Discussão

Os TA são tumores benignos e o tratamento recomendado é a exérese tumoral, preservando o testículo, contribuindo para a conservação da fertilidade, produção de testosterona e imagem corporal. Representam 6,9% dos tumores intraescrotais, sendo a vasta maioria de localização paratesticular (epidídimo/cordão espermático), reportando-se que apenas 14% destes afetam o parênquima ou as túnicas testiculares, vaginal e albugínea^{1,3,4}.

Procedemos à revisão bibliográfica dos TA da albugínea publicados e apenas recolhemos 22 casos (tabela 1)^{2,4-22}. Garg e Monappa reportam o mesmo caso clínico^{5,6}. Com idades compreendidas entre 12-62 anos (média 37,5), os TA da albugínea foram diagnosticados maioritariamente pela palpação de uma massa/nódulo intraescrotal de crescimento lento, indolor e duro, com dimensão média de 1,5 cm (0,6-5,5 cm). Estes dados não diferem dos reportados para os restantes TA paratesticulares²³. Contudo, não detetámos uma localização preferencial dos TA da albugínea, contrariamente aos TA do epidídimo que tipicamente afetam a cauda.

A localização do paratesticular ou na túnica vaginal do TA poder ser facilmente individualizável, a localização na albugínea ou no parênquima testicular tornam-no indiferenciável de um nódulo testicular maligno^{7,8,24}. Contudo, nos TA, os marcadores tumorais testiculares (α FP, β HCG, DHL) estão invariavelmente normais.

A ecografia escrotal contribui para a localização anatómica dos TA, mas a falta de um padrão ecográfico típico dificulta a suspeição clínica; podem ser descritos como lesões hiperecogénicas relativamente ao parênquima testicular, mas podem comportar-se de forma hipoeecogénica ou mesmo isoeecogénica^{9,24}. Estratégias de mobilização podem auxiliar a determinação de origem paratesticular ou na túnica vaginal, sobretudo quando há hidrocele

associado²⁵. A utilização de Doppler mostra lesões com fraca vascularização²⁴. Podem ser úteis no diagnóstico de TA da albugínea, como no presente caso, a aparente continuidade com a túnica albugínea e a existência de uma típica imagem de menor ecogenicidade circundante à lesão, indiciando compressão extrínseca do parênquima testicular⁸.

Na RMN, os TA apresentam comportamento típico de tecido fibroso. São lesões com hipointensidade de sinal relativamente ao parênquima testicular em T1, com fraco realce após administração de gadolínio e com menos intensidade que o parênquima testicular circundante. Em T2 a lesão é hipointensa com discreta heterogeneidade. Está descrito, como na ecografia, a presença de uma fina margem circundando a lesão nas imagens tardias em T2, separando-a do parênquima testicular e interpretada como edema face à inexistência de cápsula. Este comportamento pode ser útil nas lesões testiculares e da albugínea^{4,8,13}.

A dificuldade de caracterização imagiológica deve-se ao facto destes tumores não serem encapsulados e terem um padrão de crescimento com infiltração celular das estruturas circundantes⁷. Nos casos descritos da cabeça do epidídimo, verifica-se que em 50% há mesmo infiltração macroscópica, o que aumenta dificuldades no diagnóstico diferencial e induz orquidectomias radicais¹.

Seguindo as recomendações, realizamos uma abordagem cirúrgica inguinal com exame histológico intraoperatório.

Os TA são lesões que macroscopicamente apresentam superfície branco-rosada, bem circunscritos mas não encapsulados; microscopicamente, é um tumor caracterizado por células neoplásicas formando cordões, ninhos ou estruturas glanduliformes tubulares revestidas por células cúbicas de citoplasma eosinofílico ou vacuolizado, podendo ocasionalmente apresentar atipia citológica, mas ausência de mitoses. O estroma é de densidade variável, geralmente fibroso, ocasionalmente contendo tecido muscular liso ou agregados linfóides periféricos (raros em outro tipo de lesões)^{1,15,23}. A neoplasia pode envolver estruturas vizinhas e túbulos seminíferos e, nestes casos, não deve ser considerado como suspeito de malignidade.

Dadas as variadas características morfológicas, podem colocar-se como diagnósticos diferenciais: o tumor do saco vitelino, mesotelioma maligno, adenocarcinoma primário ou metastático, leiomioma, tumor de células de Leydig ou de Sertoli^{1,25}. O estudo imunocitoquímico deverá ser orientado em função dos diagnósticos diferenciais suscitados.

Tratando-se de neoplasia de origem mesotelial, o diagnóstico é suportado pelas características fenotípicas e pelo padrão de marcação imunocitoquímica típica, como positividade para marcadores epiteliais de tipo pancitoqueratinas e antigénio de membrana epitelial (EMA), positividade para vimentina e para marcadores mesoteliais (calretinina, podoplanina e WT 1). Os anticorpos ber-Ep4, marcadores vasculares, α FP e alfa-inibina são negativos^{10,23}. A diferenciação com o mesotelioma maligno pode ser difícil pois partilham origem mesotelial e marcação imunocitoquímica, mas o mesotelioma maligno é positivo para citoqueratinas 5/6, enquanto o TA é na maior parte dos casos negativo; o mesotelioma maligno é, também, um tumor de maiores dimensões, tem um padrão de crescimento invasivo com envolvimento de estruturas anexas e apresenta maior atipia celular e mitoses²⁶.

Tabela 1 Caracter sticas dos tumores adenomatoides da albug nea publicados

n	Refer�ncia	Idade	Apresenta��o sintomas dura��o	Lado/localiza��o	Dimens�es (cm)	Exame histol�gico intraoperat�rio	Tratamento	FW
1	Garg ⁵ + Monappa ⁶	40	Massa indolor – um ano	D – polo inferior	4 × 3,5		OR	
2	Evans ⁸	40	Massa indolor – um ano	D – polo inferior	5,5 × 5,5 × 4		OR	
3	Fujimoto et al. ²²	45	Massa indolor – 8 meses	D	1		ET	6 meses
4	Patel et al. ⁹	27	Massa indolor	E – polo inferior	1		PO	
5	Lee ¹⁶	36	Massa indolor – 2 meses	D – polo inferior	0,8 × 0,7	Inconclusivo	OR	
6	Karasu et al. ¹⁹	62	Massa indolor – 6 meses	E	1,7 × 1,7 × 1,3		OR	
7	Barry et al. ⁷	44	Massa indolor – um ano	D – face posterior	0,7 × 0,6 × 0,5	Inconclusivo	OR	
8	Guo et al. ¹⁰	12	Dor – 6 meses	E – polo superior	0,8 × 1	Tumor benigno	ET	12 meses
9	Lang et al. ¹¹	39	Dor abdominal	D – polo inferior	0,9 × 0,5		OR	
10	Sun et al. ¹⁷	36	Massa indolor – 7 anos	E – polo superior	1,2 × 1 × 0,7		OR	
11	Manson ²	32	Exame m�dico rotina n�dulo duro	E – face anterior	1,2 × 0,9 × 0,3	Inconclusivo	OR	
12	Arcadi ¹²	39	N�dulo duro	D	0,6		ET	27 anos
13	Bah�lo Mateu ¹³	28	Dor – n�dulo duro uma semana	E	0,7	Tumor benigno	ET	2 anos
14	Spitale et al. ²¹	31	Dor – n�dulo duro	E	1,5 × 1		ET	
15		32	Dor – n�dulo duro	D	1,5 × 1		ET	
16		29	Dor – n�dulo duro	E	1,5 × 1		ET	
17	Oyama ¹⁴	54	N�dulo duro – 4 meses	D	0,7		OP	
18	Estebanez Zarranz ¹⁸	31	Dor – n�dulo duro um ano	E – face posterior	2 × 2	TA	ET	
19	Serrano Pascual ¹⁵	36	N�dulo duro – 3 meses	D – polo inferior	1 × 0,6	TA	ET	Um ano
20	Tsili ⁴	45	N�dulo duro – 2 anos	E – polo superior	3,4 × 3,3 × 3,2		ET	
21	Golabek et al. ²⁰	37	N�dulo duro – 2 anos	E – polo inferior			ET	Um ano
22	Presente caso	51	Exame m�dico de rotina –n�dulo duro	D – polo inferior	1	Prov�vel TA	OP	18 meses
	M�dia	37,5			1,5			

D: direito; E: esquerdo; ET: ex rese tumoral; OP: orquidectomia parcial; OR: orquidectomia radical; TA: tumor adenomatoide.

Na nossa revisão, 8 doentes foram submetidos a orquidec-tomia radical (36%); o exame histológico intraoperatório, com papel crescente como auxiliar na decisão clínica de preservação testicular nas pequenas massas escrotaes, está reportado em 8 doentes. Em 3 casos não foi evitada a cirurgia radical, por não poder ser excluída neoplasia maligna^{7,16} ou, apesar de lesão benigna, não ser possível definir o tipo².

No nosso caso, a histologia intraoperatória foi sugestiva de TA, mas a presença de células tumorais no parênquima testicular adjacente levantou dúvidas.

A previsível benignidade da lesão em conjugação com os dados da ecografia e a aparente origem na albugínea fomentaram a decisão de alargamento da margem cirúrgica e preservação do testículo, revelando-se uma decisão acertada após confirmação anatomopatológica de TA da albugínea.

Este caso alerta para localizações infrequentes dos TA. A sua continuidade com a albugínea e o halo ecográfico característico conduziram à hipótese de lesão da túnica albugínea, que em articulação com a análise intraoperatória conduziu à preservação do testículo.

Sublinha ainda as características histológicas da lesão, não encapsulação e presença de células tumorais infiltrando tecido adjacente, que podem acrescentar dificuldades e limitações do exame histológico intraoperatório, reforçando o papel da equipa na decisão clínica.

O acompanhamento ecográfico destes doentes parece ser suficiente, uma vez que, até à data, não estão descritas recorrências tumorais¹.

Responsabilidades éticas

Proteção de pessoas e animais. Os autores declaram que para esta investigação não se realizaram experiências em seres humanos e/ou animais.

Confidencialidade dos dados. Os autores declaram que não aparecem dados confidenciais de pacientes neste artigo.

Direito à privacidade e consentimento escrito. Os autores obtiveram consentimento escrito e informado do paciente reportado, preservando a sua privacidade.

Conflito de interesses

Os autores declaram que participaram no trabalho, o qual não tem qualquer financiamento nem existe conflito de interesses.

Bibliografia

1. Pacheco AL, Polo MAA, León VML, Ocaña MN, Martín MA, Gómez AZ. Tumor adenomatoide dependiente de la porción inferior del epidídimo. *Rev Int Androl.* 2009;7:229–32.
2. Manson AL. Adenomatoid tumor of testicular tunica albuginea mimicking testicular carcinoma. *J Urol.* 1988;139:819–20.
3. Maestro MA, Gonzalez RT, Dorrego JMA, Barthel JDP, Serrano MNM. Adenomatoid tumors of the epididymis and testis: Report of 9 cases and bibliographic review. *Arch Esp Urol.* 2009;62:137–41.
4. Tsili AC, Argyropoulou MI, Giannakis D, Sofikitis N, Tsampoulas K. Conventional and diffusion-weighted magnetic resonance imaging findings of benign fibromatous paratesticular tumor: A case report. *J Med Case Rep.* 2011;5:169.
5. Garg S, Mathew M, Thomas J, Goel T. Adenomatoid tumor of tunica albuginea mimicking a testicular neoplasm. *The Internet Journal Urology.* 2006;4.
6. Monappa V, Rao AC, Krishnanand G, Mathew M, Garg S. Adenomatoid tumor of tunica albuginea mimicking seminoma on fine needle aspiration cytology: A case report. *Acta Cytol.* 2009;53:349–52.
7. Barry P, Chan KG, Hsu J, Quek ML. Adenomatoid tumor of the tunica albuginea. *Int J Urol.* 2005;12:516–8.
8. Evans K. Rapidly growing adenomatoid tumor extending into testicular parenchyma mimics testicular carcinoma. *Urology.* 2004;64:589.
9. Patel MD, Siva AC. MRI of an adenomatoid tumor of the tunica albuginea. *AJR Am J Roentgenol.* 2004;182.
10. Guo K, Tian R, Liu L, Du C, Li F, Wang H. Adenomatoid tumor of the tunica albuginea in a boy: A case report and literature review. *Case Rep Urol.* 2015;2015:935193.
11. Lang T, Lee F. Adenomatoid tumour of tunica albuginea of testis. *Pathology.* 2016;48(S1):S136–7.
12. Arcadi JA. Adenomatoid tumors on the tunica albuginea of the testis. *J Surg Oncol.* 1988;37:39–49.
13. Bahílo Mateu P, Poveda AMS, Sacoto ADC, Fradique CG, Solchaga GM, Morera J, et al. Adenomatoid tumor of the tunica albuginea. A case report. *Actas Urol Esp.* 2010;34:208–9.
14. Oyama H, Ogawa M, Mikurika H, Kido A, Hayashi H. Adenomatoid tumor of testicular tunica albuginea: A case report. *Hinyokika Kyo.* 2001;47:661–3.
15. Serrano Pascual A, González FI, Cuerpo GE, Gutierrez PGP, Gonzalez GR, Castellanos FL. Tumor adenomatoide de la túnica albuginea testicular: aportación de un nuevo caso. Consideraciones histogénicas y terapéuticas. *Arch Esp Urol.* 1998;51:721–4.
16. Lee JI. Touch imprint cytology of adenomatoid tumor of the tunica albuginea – A case report. *Korean J Cytopathol.* 2008;19:45–7.
17. Sun AY, Polackwich AS, Sabanegh ES. Adenomatoid tumor of the testis arising from tunica albuginea. *Rev Urol.* 2016;18:51–3.
18. Estebanez Zarranz MJ, Moran CL, Jaka SPS, Ribas CG, Lanz FA. Tumor adenomatoide de albuginea testicular. *Actas Urol Esp.* 1989;13:391–2.
19. Karasu B, Firat F, Asci S. Adenomatoid tumor of the tunica albuginea. *Gaziosmanpasa Universitesi Tip Fakultesi Dergisi.* 2015;7:163–8.
20. Golabek T, Bukowaczan J, Wiatr T, Przydacz M, Belch L, Cholsta P. Intrascrotal adenomatoid tumour: A report of seven cases and review of the literature. *Hellenic Urology.* 2015;27:42–6.
21. Spitale LS, Carral JJ, Pautasso OS. Mesotelioma benigno de la albuginea testicular. *Rev Arg Urol.* 1990;55:14–6.
22. Fujimoto M, Nanba Y, Koga M, Kondh N, Takeyama M. Adenomatoid tumor of the tunica albuginea: a case report. *Hinyokika Kyo.* 2000;46:345–7.
23. Amin W, Parwani AV. Adenomatoid tumor testis. *Pathology.* 2009;2:17–22.
24. Feuer A, Dewire DM, Foley D. Ultrasonographic characteristics of testicular adenomatoid tumors. *J Urol.* 1996;155:174–5.
25. Kolgesiz AI, Kantarci F, Kadioglu A, Mihmanli I. Adenomatoid tumor of the tunica vaginalis testis. A special maneuver on diagnosis by ultrasonography. *J Ultrasound Med.* 2003;22:303–5.
26. Chekol SS, Sun CC. Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis: Diagnostic studies and differential diagnosis. *Arch Pathol Lab Med.* 2012;136:113–7.