

Revista Cubana de Urología

PRESENTACIÓN DE CASO

Leiomioma de epidídimo

*Leiomyosarcoma of the epididymis*Reinel Rodríguez Pastoriza,^{1*} Reizy Jiménez Álvarez,¹ Esteban Viera Hernández¹¹Hospital Provincial Docente "Dr. Antonio Luaces Iraola". Ciego de Ávila, Cuba.* Autor para la correspondencia: reinel@infomed.sld.cu**RESUMEN**

Introducción: El leiomioma de epidídimo es una neoplasia maligna que forma parte de los tumores paratesticulares de estirpe mesenquimal con diferenciación muscular lisa. Su localización en el epidídimo es muy rara y representa menos del 5 % del total de los sarcomas genitourinarios.

Objetivo: Describir un caso de leiomioma de epidídimo, el primero de su tipo que se ha reportado en la provincia de Ciego de Ávila.

Caso clínico: Paciente masculino de 72 años, blanco, sin antecedentes urológicos que acude a consulta por aumento de tamaño del testículo izquierdo y la presencia de signos flogísticos de la inflamación, acompañada de dolor. En el examen físico se constató epidídimo duro, pétreo y engrosado. Los exámenes complementarios fueron normales. Se realizó orquiectomía escrotal y se ligó el cordón espermático, pues no resolvió con el tratamiento indicado. El estudio histopatológico reveló un leiomioma de epidídimo.

Conclusiones: El leiomioma de epidídimo es un tumor bastante infrecuente. La cirugía es la terapéutica con posibilidades curativas. Los tratamientos adyuvantes, como la radioterapia y la quimioterapia, podrían ser útiles para evitar la recidiva local y en pacientes con enfermedad metastásica.

Palabras clave: epidídimo; leiomioma; testículo.

Recibido: 07/07/2019, Aceptado: 23/09/2019

Introduction: Leiomyosarcoma of the epididymis is a malignant tumor that is part of the mesenchymal origin's paratesticular tumors with smooth muscle differentiation. Its location in the epididymis is very rare and represents less than 5% of the total of the genitourinary sarcomas.

Objective: To describe a case of leiomyosarcoma of the epididymis, the first in its kind that has been reported in Ciego de Ávila province.

Clinical case: 72-years-old masculine patient, white skin, with no history of urological disorders that attends to consultation due to the increase in the size of the left testicle and the presence of inflammation's phlogistics signs accompanied by pain. On physical examination, it was found hard, stony and thickened epididymis. Complementary tests were normal. An scrotal orchiectomy was performed and it was tied the spermatic cord, as the treatment did not solve the problem. The histopathological study showed a leiomyosarcoma of epididymis.

Conclusions: The leiomyosarcoma of epididymis is a quite infrequent tumor. Surgery is the treatment with curative chances. Adjuvant treatments such as chemotherapy and radiation therapy may be useful in avoiding the local recurrence and in patients with metastatic disease.

Keywords: epididymis; leiomyosarcoma; testicle.

INTRODUCCIÓN

Los tumores del epidídimo y de los tejidos paratesticulares son muy infrecuentes. Desde el punto de vista anatómico, el área paratesticular es compleja. Incluye las estructuras del epidídimo, las túnicas testiculares, el cordón espermático y las estructuras vestigiales como el apéndice de Morgagni.

Esta área histológicamente está compuesta por una variedad de elementos epiteliales mesoteliales y mesenquimales donde las neoplasias forman un grupo heterogéneo de tumores con diferentes patrones de comportamiento.⁽¹⁾

Los sarcomas genitourinarios comprenden el 2,7 % de los sarcomas en el adulto y su localización paratesticular abarca menos del 1 %. Los subtipos histológicos incluyen el liposarcoma, leiomiosarcoma y rabdomyosarcoma.⁽²⁾ Entre el 75 y el 90 % de estos tumores se originan en el cordón espermático. Le siguen en orden de

frecuencia los del epidídimo, que representan menos del 5 % del total.

El leiomiosarcoma de epidídimo constituye una neoplasia maligna que forma parte de los tumores paratesticulares de estirpe mesenquimal con diferenciación muscular lisa. Su localización es extremadamente rara en el epidídimo. Resulta más frecuente en el cordón espermático y en la túnica vaginal.⁽³⁾

El objetivo de este trabajo es describir el caso de un leiomiosarcoma de epidídimo, el primero de su tipo reportado en la provincia de Ciego de Ávila.

CASO CLÍNICO

Paciente CRP de 72 años, blanco, masculino, sin antecedentes urológicos. Quince días antes de acudir a consulta comenzó a notar aumento de tamaño del testículo izquierdo y la presencia de signos flogísticos de la inflamación, acompañada de dolor. Requirió reposo, antiinflamatorios no

esteroideos para su alivio y tratamiento antibiótico con cotrimoxazol. Se interpretó como una epididimitis aguda. Fue reevaluado a los 10 días. En ese tiempo el dolor y los signos flogísticos habían desaparecido, pero el epidídimo se mantenía duro, por lo que se decidió comenzar tratamiento antibiótico con ciprofloxacina.

En la reconsulta a los 21 días, el epidídimo seguía pétreo aunque no doloroso. Se decidió agregar al tratamiento esteroides (prednisona) y se revaluó nuevamente a los 21 días. No se logró mejoría. Luego se optó por la exploración quirúrgica, mediante escrotomía. No se observaron signos de malignidad. El epidídimo estaba engrosado, duro, pétreo pero sin infiltración al testículo.

Previo consentimiento informado, se acordó realizar orquiectomía escrotal, ligando el cordón espermático. Para hacer un estudio histopatológico, la pieza se envió al departamento de Anatomía Patológica, donde se informó la presencia de un leiomioma de epidídimo. Ese resultado confirmó que no había infiltración testicular.

Examen físico

Paciente asténico, piel y mucosas sin alteraciones. No adenopatías en cadenas ganglionares periféricas.

Temperatura: 36,5 C°.

Sistema respiratorio: FR: 17 respiraciones por minuto. Murmullo vesicular normal.

Sistema cardiovascular: Ruidos cardíacos rítmicos, de buen tono e intensidad, no se auscultaron soplos. TA: 130/80 mmHg. FC

central: 88 latidos por minuto. Pulsos periféricos presentes y sincrónicos. Temperatura distal conservada.

Abdomen sin alteraciones. No tumoraciones palpables.

Sistema nervioso: Orientado en tiempo, espacio y persona. No signos meníngeos, no focalización neurológica.

SOMA: Normal.

Tacto rectal y fondo de ojos: Normales.

Durante el estudio urológico se constató que ambos testículos estaban en bolsas escrotales de características normales. El epidídimo izquierdo tenía consistencia dura y dolorosa a la palpación profunda.

Estudio analítico

Leucocitos: $6,2 \times 10^9/L$, con diferencial normal.

Glucemia, creatinina, iones, enzimas hepáticas, pancreáticas, ácido úrico, VIH; VDRL: Normales.

Coagulación, sangramiento, plaquetas, INR, PSA: Dentro del rango de normalidad.

Hb: 128g/L.

Hto: 0,39 %.

Radiografía de tórax PA y lateral: Normal.

ECG: Sin alteraciones.

Velocidad de sedimentación globular: 20 mm/h.

Mediante el ultrasonido escrotal se observó testículo y epidídimo derecho normales, testículo izquierdo sin alteraciones. El epidídimo izquierdo estaba aumentado de tamaño,

ecogénico y homogéneo, sin adenopatías a nivel de las regiones inguinales.

A través del estudio histológico se confirmó la presencia de gran pleomorfismo celular y células con citoplasma eosinófilo y delicadas fibrillas longitudinales con núcleos de terminaciones romas, elementos característicos del leiomiosarcoma (Figs. 1 y 2).

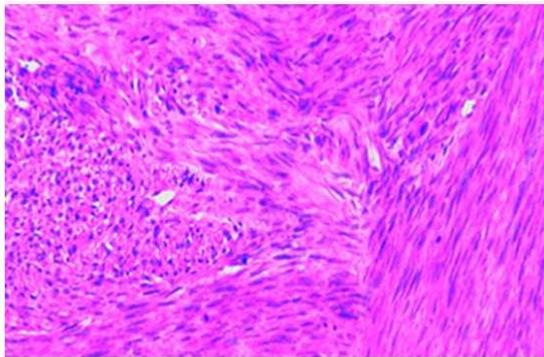


Fig. 1- Células con citoplasma eosinófilo. Características histológicas del leiomiosarcoma de epidídimo.

DISCUSIÓN

La afección epididimaria por leiomyosarcoma es extremadamente rara, con muy pocos casos aislados descritos en la literatura. Por tal razón, se presenta esta investigación. El diagnóstico definitivo es histopatológico, con hallazgo de células fusiformes con arquitectura fascicular que puede ser de bajo o alto grado con citoplasma eosinófilo que contiene fibrillas longitudinales.⁽⁴⁾

El leiomyosarcoma del epidídimo es un tumor en extremo infrecuente, menos aún que los del cordón espermático. Se presenta entre la sexta y la séptima décadas de la vida, aunque se han reportado casos en niños.⁽⁵⁾

Deriva de las fibras musculares lisas de origen mesenquimatoso, que rodean al conducto

epididimario o a sus vasos sanguíneos. Por lo general, sus manifestaciones clínicas son masas testiculares indoloras, muchas veces de gran tamaño, de consistencia firme, que pueden producir ciertas molestias si es comprimida por estructuras vecinas.⁽⁶⁾

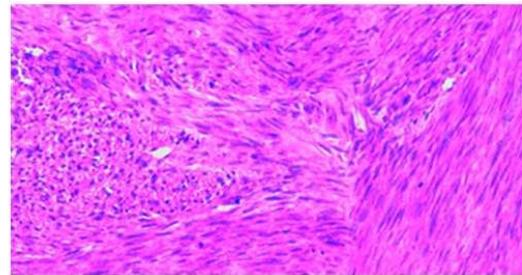


Fig. 2- Células de delicadas fibrillas longitudinales con núcleos de terminaciones romas. Características histológicas de esta enfermedad.

En ocasiones se asocia con hidrocele, lo que algunos autores consideran un signo de malignidad. A la palpación estas lesiones están bien definidas a nivel del epidídimo, no son dolorosas y su consistencia es firme.⁽⁷⁾

El estudio imagenológico debe comenzar por el ultrasonido, en el cual se describen homogéneamente hipoecoicos, con un patrón heterogéneo con áreas hipo e hiperecoicas. En la ecografía Doppler se constata aumento del flujo sanguíneo a ese nivel.

La tomografía axial computarizada no se emplea para evaluar el tumor en sí mismo, mas es útil para conocer la extensión de la lesión y la presencia de metástasis a distancia y para descartar la extensión al escroto, de un sarcoma retroperitoneal. Otros autores afirman que se debe sospechar la existencia de una neoplasia maligna paratesticular, cuando estamos en presencia de grandes tumores sólidos de ecoestructura compleja.⁽⁸⁾

Se han descrito factores predisponentes para el surgimiento de estos tumores, tales como la ingestión mantenida de esteroides anabolizantes, la inflamación crónica local y como secuela de radioterapia.⁽⁹⁾ La conducta a seguir es la orquiectomía con pinzamiento alto del cordón espermático.⁽¹⁰⁾

La disección sistemática de los ganglios retroperitoneales no ha demostrado tener efectos significativos en la sobrevida en niños y adolescentes. Sin embargo, pudiera tener implicaciones futuras para la fertilidad.⁽¹¹⁾

La biopsia por congelación transoperatoria estaría indicada en los tumores de pequeño tamaño con la esperanza de, si no son malignos, realizar cirugía conservadora. Las principales vías de diseminación son la hematológica a hígado, pulmón y huesos, y la linfática a los ganglios paraaórticos. Por extensión local pueden infiltrar el escroto y el canal inguinal o la pelvis, siguiendo la vía del conducto deferente.

Macroscópicamente tienen apariencia carnosa. Los hallazgos histológicos típicos son la presencia de gran pleomorfismo celular y células con citoplasma eosinófilo y delicadas fibrillas longitudinales con núcleos de terminaciones romas. La presencia de necrosis se puede observar en los tumores de alto grado.⁽⁶⁾ La confirmación se logra mediante estudios de inmunohistoquímica, que muestran la diferenciación de células de músculo liso con positividad para actina, desmina y caldesmon.⁽⁸⁾

Los tratamientos adyuvantes, como la radioterapia, pudieran ser útiles para evitar la recidiva local. Se recomienda la quimioterapia para aquellos pacientes con enfermedad

metastásica. Sin embargo, la tendencia actual es a su uso limitado.⁽¹²⁾

En la actualidad, las recomendaciones de tratamiento son la resección completa de la masa, con márgenes amplios, y resección completa del testículo, el epidídimo y el cordón espermático. Se deja una ligadura del cordón espermático a un nivel alto.⁽¹³⁾

En conclusión, el leiomioma de epidídimo es un tumor bastante infrecuente, que se presenta con mayor frecuencia entre la quinta y octava década de vida. Presenta una diseminación hematológica mayor que la linfática (6:2). Se caracteriza por un crecimiento rápido y un aumento de la recidiva local. Se presentó el caso de un paciente que fue intervenido quirúrgicamente. Al cierre de este artículo se mantenía asintomático y sin evidencia de metástasis.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Ruiz Liso JM, Ruiz García J, Pardo López ML, Vaillo Vinagre A, Gutiérrez Martín A, Bermúdez Villaverde R. Leiomioma paratesticular de larga evolución: Revisión conceptual y de la literatura. *Actas Urol Esp.* 2008 Ago [acceso: 21/05/2019]; 37(7):727-36. Disponible en: http://scielo.isciii.es/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0210-48062008000700010
2. Matias M, Carvalho M, Xavier L, Teixeira JA. Paratesticular sarcomas: two cases with different evolutions. *BMJ Case Rep.* 2014 Aug 21 [acceso: 21/05/2019]. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC4154016/>

3. García NAC, González JMM, Gómez OAU. Leiomioma paratesticular. Rev Cient Cienc Méd [acceso: 18/05/2019]; 2015; 18:32-7. Disponible en: http://www.scielo.org.bo/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S1817-74332015000200008
4. Corey RM, Swett K, Ward WG. Epidemiology and survivorship of soft tissue sarcomas in adults: a national cancer data base report. Cancer Med 2014 Oct [acceso: 21/05/2019]; 3(5). Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC4302691/>
5. Mechri M, Ghozzi S, Khiari R, Bougrine F, Bouziani A, Ben Rais N. A rare cause of scrotal mass: primary leiomyosarcoma of epididymis. BMJ Case Rep. 2009 [acceso: 21/05/2019]. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3027341/>
6. Yuen VTH, Kirby SD, Chi Woo Y. Leiomyosarcoma of the epididymis: 2 cases and review of the literature. Can Urol Assoc J. 2011 Dec [acceso: 21/05/2019]; 5(6). Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3235188/>
7. Román Birmingham PI, Navarro Sebastián FJ, García González J, Romero Barriuso G, Guijarro Espadas A. Tumores paratesticulares. Descripción de nuestra casuística general a lo largo de un período de 25 años. Arch Esp Urol. 2012 [acceso: 21/05/2019]; 65(6). Disponible en: <http://www.redalyc.org/articulo.oa?id=181025863011>
8. Singh Bhau k, Singh Bhau S, Singh S, Chrungoo RK. Unusual presentation of rare paratesticular tumour in a child. JK Science. 2009 [acceso: 21/05/2019]; 11(3):148. Disponible en: https://www.researchgate.net/publication/26644798_Unusual_Presentation_of_a_Rare_Paratesticular_Tumour_in_a_Child
9. Gupta A, Livingston M, Singh R, Tansey D, Solomon L. Infarcted adenomatoid tumour of epididymis: A rare case report. Case Rep Urol. 2013 [acceso: 21/05/2019]. Article ID: 937689. Disponible en: <http://www.hindawi.com/crim/urology/2013/937689/>
10. Rodríguez Collar TL. Diagnosis and treatment of epididymal tumors. Rev Cub Med Mil. 2014 Sep [acceso: 21/05/2019]; 43(3):352-69. Disponible en: <https://www.medigraphic.com/pdfs/revcubmedmil/cmm-2014/cmm143i.pdf>
11. Richie JP, Steele GS. Tumors of testicular adnexa. In: Wein AJ, Kavoussi LR, Novick AC, Partin AW, Craig CA, editors. Campbell Walsh Urology. 9th ed. [CD-ROM]. Philadelphia: Saunders Elsevier; 2007.
12. Tazi MF, Bouchikhi AA, Ahallal Y, Mellas S, Elammari J, Khallouk A, *et al.* Epididymal leiomyosarcoma: One case report. Case Rep Urol. 2012 Dec [acceso: 21/05/2019]. Article ID: 236320. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3350274/>
13. Chiodini S, Luciani LG, Cai T, Molinari A, Morelli L, Cantaloni Ch, *et al.* Unusual case of locally advanced and metastatic paratesticular

liposarcoma: a case report and review of the literature. Arch Ital Urol Androl. 2015; (87)1. Disponible en: <https://www.pagepressjournals.org/index.php/aiua/article/view/aiua.2015.1.87/4581>

Conflicto de intereses

Los autores declaran que no tienen conflicto de intereses.

Contribuciones de los autores

Reinel Rodríguez Pastoriza: Selección bibliográfica, revisión y corrección del artículo.

Reizy Jiménez Álvarez: Selección bibliográfica, redacción, revisión y corrección del artículo.

Esteban Viera Hernández: Revisión y corrección del artículo.