

Mesotelioma maligno de túnica vaginal de testículo. *Caso clínico y revisión de la bibliografía*

Malignant mesothelioma of tunica vaginalis testis. *A case report*

Dres. Palazzo, C.
Doumic, E.
Esteban, F.
Camporeale, H.
Costa, M.

El mesotelioma maligno de túnica vaginal testicular es un tumor muy raro. Se publicaron menos de 90 casos. El tratamiento indicado inicialmente es la orquifuniculectomía inguinal; no hay tratamientos estandarizados para la recurrencia local ni para la diseminación a distancia del tumor. Los resultados con quimioterapia y radioterapia son pobres. Presentamos un caso de mesotelioma maligno de la túnica vaginal testicular en un hombre de 37 años, con tumor localizado, que fue sometido a orquifuniculectomía inguinal como único tratamiento; luego de 18 meses de seguimiento se encuentra asintomático y sin signos de recurrencia local ni diseminación a distancia. Realizamos una revisión de la literatura.

PALABRAS CLAVE: Testículo; Mesotelioma maligno; Tratamiento.

Malignant mesothelioma of tunica vaginalis testis is a rare tumor. Less than 90 cases have been reported. Radical inguinal orchiectomy is the treatment of choice for initial presentation; treatment of locally recurrence and metastatic spread are not standardized. The response of mesothelioma to radiation and chemotherapy usually is poor. We report a case of a malignant mesothelioma of tunica vaginalis testis in a 37 years-old man, who underwent inguinal orchiectomy. There is no evidence of local recurrence or metastases after 18 months follow-up. A literature review is presented.

KEY WORDS: Testis; Malignant mesothelioma; Treatment.

INTRODUCCIÓN

Las tumoraciones escrotales constituyen un motivo frecuente de consulta en la práctica urológica, debiéndose realizar diagnóstico diferencial entre distintos procesos, ya sean inflamatorios, infecciosos, neoplásicos, hidrocele, traumatismos, hernias, entre otros.

Los tumores paratesticulares son neoformaciones que se ubican en la región inguinoescrotal, independientes del testículo; constituyen el 7-10% de las masas intraescrotales. Pueden ser tumores de cordón espermático, de epidídimo, de tunicas testiculares o metastásicos. Los tumores de tunicas testiculares son poco frecuentes y se originan en la albugínea y en la vaginal testicular; la mayoría de los mismos son benignos⁽¹⁾. El mesotelioma maligno de la túnica vaginal es un tumor muy raro y hay menos de 90 casos reportados en la bibliografía.

Presentamos a continuación un caso de mesotelioma maligno de la túnica vaginal de testículo y una revisión de la literatura.

CASO CLÍNICO

Un hombre (R.M.) de 37 años de edad, empleado bancario, consultó a la guardia de Urología de la Policlínica Bancaria a fines de octubre de 2000 por presentar aumento de tamaño testicular izquierdo y algia leve de 2 meses de evolución.

- *Antecedentes personales:* Hepatitis A
Sin antecedentes de exposición a asbestos
- *Examen físico:* Formación sólida, dura en polo inferior de testículo izquierdo, leve dolor a la palpación; cordón espermático normal. Resto del examen genital normal. Sin adenomegalias inguinales, axilares ni supraclaviculares.

Con el diagnóstico presuntivo de masa ocupante testicular se decidió realizar tratamiento quirúrgico (exploración testicular por vía inguinal); previo al mismo se llevaron a cabo estudios complementarios de diagnóstico.

- *Laboratorio:*
Análisis de sangre: normal
Análisis de orina: normal
Marcadores tumorales (alfa fetoproteína y porción beta de gonadotropina coriónica humana): dentro de valores normales.
- *Ecografía escrotal:* Imagen hipoeecogénica en polo inferior de testículo izquierdo de 10 x 15 mm. Resto sin particularidades.

- *Rx de tórax:* Normal
- *Exploración quirúrgica:* El aspecto macroscópico del testículo era normal; la vaginal se encontraba engrosada y dura, y muy adherida al polo inferior de la gónada. Se realizó biopsia por congelación que informó *vaginitis crónica con microfocos de infiltración carcinomatosa*; se llevó a cabo una orquifuniculectomía izquierda por vía inguinal con ligadura alta del cordón espermático.

El informe de anatomía patológica definitivo fue: *mesotelioma maligno de vaginal testicular con patrón epitelial, sin componente neoplásico en la serie germinal; inmunohistoquímica: vimentina y citoqueratina positivas, antígeno carcinoembrionario negativo.*

El paciente presentó una buena evolución postoperatoria y fue externado 24 horas después de la cirugía. Completó su estadificación con una tomografía axial computada (TAC) de tórax, abdomen y pelvis que no mostraba signos de diseminación a distancia del tumor.

Luego de 18 meses, el paciente se encuentra asintomático y en buen estado general; se realiza controles trimestrales estrictos con examen físico, análisis de laboratorio, Rx de tórax y TAC de abdomen y pelvis.

DISCUSIÓN

Los mesoteliomas son tumores muy infrecuentes que se forman a partir de la superficie serosa de las cavidades celómicas (pleura, pericardio, peritoneo y túnica vaginal); el epitelio de estas cavidades se denomina mesotelio. La localización vaginal es poco frecuente, constituyendo menos del 5% de los mesoteliomas⁽²⁾.

El mesotelioma maligno de la túnica vaginal del testículo ha sido llamado también mesotelioma papilar, carcinoma papilar, tumor adenomatoide maligno⁽³⁾; el primer caso fue descrito por *Bailey y cols.* en 1955⁽⁴⁾. Se comunicaron menos de 90 casos de mesotelioma maligno de la vaginal testicular en la literatura mundial.

Con respecto a la etiología, el factor de riesgo más firmemente identificado es la exposición al asbesto⁽⁵⁾, con un riesgo relativo del 34,2%, no sólo referido al contacto directo con el mismo, sino también una historia familiar ocupacional. Otros autores observaron también la relación entre la exposición al asbesto y el desarrollo de mesotelioma maligno de la túnica vaginal^(6,7), siendo el período de latencia tras la exposición inicial a esta sustancia y el desarrollo del mesotelioma de entre 8 y 40 años^(5,8) similar que para las localizaciones pleural y peritoneal. También han sido relacionados con la causa de este tumor el traumatismo testicular y el antecedente de herniorrafia^(7,9,10), la radioterapia⁽¹¹⁾ y

ciertas infecciones virales⁽¹²⁾; pero ninguno de éstos fue confirmado como factor etiológico. El paciente que presentamos no tenía ninguna de las causas antes mencionadas como posible etiología de su mesotelioma.

La edad de aparición de este tumor es más frecuente entre la quinta y séptima década de la vida^(13,14), con un rango entre los 10 y los 86; *Khan y cols.*⁽¹⁵⁾ describieron un caso de mesotelioma maligno de la túnica vaginal en un niño de 6 años.

La bilateralidad fue descripta en un 3,8% de los casos⁽¹⁶⁾.

La forma de presentación clínica del mesotelioma maligno de túnica vaginal testicular es muy variada, sin una signo-sintomatología patognomónica. Lo más frecuentemente descripto en la bibliografía es su asociación con un hidrocele, y en menor medida con tumoraciones escrotales que sugieran la presencia de tumores testiculares o paratesticulares, hernias o procesos inflamatorios. *Escalera Almendros y cols.*⁽¹⁾ observaron que la orientación diagnóstica preoperatoria de hidrocele se detectó en un 56,3% de los casos, de tumor testicular en un 32%, y en menor medida de epididimitis, hernia escrotal y espermatocelo (3,2% cada uno). Evidentemente el diagnóstico preoperatorio de mesotelioma maligno de vaginal testicular es muy difícil y se lo detecta por lo general en forma incidental durante una exploración quirúrgica por hidrocele, tumor testicular o hernia. En la literatura consultada se describen 2 casos de diagnóstico preoperatorio de este tumor, realizado a través del examen citológico del líquido del hidrocele^(17,18).

La presencia de un mesotelioma maligno debería ser considerada en aquellos pacientes con antecedente de exposición al asbesto y tumoración escrotal (hidrocele, tumor testicular, etc.).

La exploración física permite diagnosticar la existencia de hidrocele o de tumoración testicular, puesto que la vaginal se encuentra dura a la palpación y a veces el examen de la gónada sugiere la presencia de una masa testicular.

La ecografía escrotal puede ser de utilidad para conocer las características y extensión de la tumoración detectada a través del examen físico pero no sirve, de ninguna manera, para realizar el diagnóstico preoperatorio de mesotelioma maligno de la vaginal. La tomografía axial computada (TAC) y la resonancia magnética nuclear tampoco son de utilidad para realizar diagnóstico preoperatorio y se utilizan para evaluar la extensión local y a distancia del tumor. La citología y punción aspirativa con aguja fina (PAAF) del líquido del hidrocele tienen sensibilidad baja y alta tasa de falsos negativos⁽¹⁾.

En nuestro caso el diagnóstico preoperatorio, tanto al examen físico como ecográficamente, fue de masa

ocupante testicular que requirió exploración quirúrgica; el diagnóstico definitivo lo dio la biopsia diferida y no la realizada por congelación durante la cirugía.

Macroscópicamente los mesoteliomas malignos de vaginal testicular aparecen como múltiples nódulos griseáceos en la superficie de un saco de hidrocele, la túnica vaginal suele estar engrosada y puede haber invasión de estructuras vecinas⁽¹⁾. Desde el punto de vista microscópico lo podemos clasificar en tres tipos histológicos: epitelial, fibroso y bifásico; en orden de frecuencia el patrón epitelial es el más común (54-75%), y el fibroso el más raro (8%)⁽¹⁾. Los mesoteliomas malignos de túnica vaginal están asociados con estructura papilar, invaden tejidos adyacentes y tienen una cápsula delgada o carecen de ella⁽¹³⁾, cualquiera de los tipos histológicos antes mencionados puede presentar polimorfismo nuclear y actividad mitótica⁽¹⁹⁾; estas características favorecen el diagnóstico diferencial con el tumor adenomatoide benigno, sumado al hecho de que la variedad maligna produce más mucopolisacáridos que la benigna^(20,21) y que el epidídimo es el sitio frecuente de localización del mesotelioma benigno (adenomatoide)^(13,15). Los estudios inmunohistoquímicos ayudan a confirmar el diagnóstico de mesotelioma maligno de la vaginal y a distinguirlo de las metástasis de adenocarcinoma en testículo, es positivo para vimentina y citoqueratina juntos, negativo para antígeno carcinoembrionario (CEA) y Leu-M1^(1,22), también es positivo para el antígeno relacionado con el factor VIII⁽²³⁾.

Últimamente se está usando también como marcador a la calretinina, que al ser positiva favorece la distinción con el adenocarcinoma⁽²⁴⁾.

La evolución natural del mesotelioma maligno de vaginal es hacia la invasión de tejidos circundantes: tejido conectivo adyacente (25,8%), testículo (19,4%), infiltración vascular (9,7%), piel escrotal (9,7%), epidídimo (6,5%)⁽¹⁾. La diseminación de la enfermedad ocurre primeramente a nivel local y luego progresa hacia los ganglios linfáticos; esto fue descripto en un 31% de los casos, comprometiendo los ganglios paraaórticos, inguinales y supraclaviculares⁽²⁵⁾. La diseminación hematogena, hacia pulmón e hígado es menos común, pudiendo también aparecer secundariamente en pleura, colon, bazo, mesenterio y mediastino^(1,26).

Respecto de la terapéutica del mesotelioma maligno de túnica vaginal de testículo podemos decir que la orquifuniculectomía por vía inguinal es el tratamiento curativo en estadios localizados, si es necesario, y dependiendo del caso se debe realizar resección en bloque de la cicatriz de la hidrocelectomía previa⁽²⁷⁾ y tejido circundante comprometido. El tratamiento quirúrgico se puede completar con disección de ganglios inguinales, e in-

cluso completar con la disección de los ganglios retroperitoneales si los primeros fueron positivos para células neoplásicas⁽⁸⁾, pero esto es motivo de controversia, como lo es también la propuesta de algunos autores de realizar hemiescrotectomía^(14,28) para evitar la recurrencia local. Smith y cols.⁽²⁹⁾ sugieren realizar la hemiescrotectomía con disección de ganglios retroperitoneales de rutina.

El tratamiento adyuvante puede realizarse con quimioterapia, radioterapia o combinación de ambos, siendo pobres los resultados obtenidos hasta ahora^(8,13,14,30,31). La quimioterapia ha mostrado tasas de remisiones parciales, con reducción del volumen tumoral en el 20% de los casos⁽¹⁾; la radioterapia ofrece resultados heterogéneos, debido sobre todo a los distintos esquemas terapéuticos aplicados, habiéndose observado tasas de remisión completa a los 12 meses en hasta un 50% de los casos y la remisión parcial en un 10%⁽¹⁾. Sin embargo, hay reportes de buenos resultados tanto con quimioterapia⁽³²⁾ como con radioterapia⁽³³⁾. Es muy pobre la experiencia con la combinación de quimioterapia y radioterapia.

Como vemos, el pronóstico de estos tumores es pobre, con una tasa de supervivencia media de entre 23 meses (14 meses en caso de recurrencia tumoral) según algunos autores⁽¹⁾ y 28 meses según otros⁽³⁴⁾. Plas y cols.⁽³⁵⁾ destacan como únicos factores pronósticos demostrados la mayor supervivencia en pacientes jóvenes, menores de 60 años ($p < 0,01$) y la ausencia de metástasis en el momento del diagnóstico, es decir, enfermedad localizada ($p < 0,05$).

El paciente presentado en esta oportunidad es joven, 37 años, y tiene al momento del diagnóstico una enfermedad localizada; se le realizó como único tratamiento una orquifuniculectomía por vía inguinal con ligadura alta del cordón espermático y por lo antes expuesto, características del caso clínico y revisión de la literatura, se decidió no realizar adyuvancia. Se efectuaron controles estrictos cada 3 meses con examen físico, análisis de laboratorio, Rx de tórax y TAC de abdomen y pelvis; el paciente luego de 18 meses de seguimiento se encuentra asintomático y sin evidencias de progresión local del tumor ni de diseminación a distancia.

Un control regular, estricto y frecuente es esencial para detectar en forma temprana una recurrencia local o a distancia del mesotelioma maligno de túnica vaginal del testículo.

CONCLUSIONES

Luego de analizar la bibliografía consultada y la evolución del caso presentado en esta oportunidad, podemos sacar las siguientes conclusiones:

- El mesotelioma maligno de túnica vaginal del testículo es un tumor muy raro.
- La presencia de un mesotelioma maligno de vaginal testicular debe sospecharse en todo paciente con antecedente de exposición al asbesto e hidrocele.
- La orquifuniculectomía inguinal debe considerarse como la primera medida terapéutica.
- El control y el seguimiento estricto es una alternativa terapéutica para pacientes con tumores localizados.

BIBLIOGRAFÍA

1. Escalera Almendros, C. y Saladié Roig, J.: Mesotelioma de Túnica Vaginal Testicular. En: *Patologías Excepcionales en Urología*, Editores: Leiva Galvis, O; Resel Estévez, L. págs 201-215, Madrid, 2000.
2. Serio, G.; Ceppi, M; Fonte, A. y Martinazzi, M.: Malignant mesothelioma of the testicular tunica vaginalis. *Eur Urol.*, 21: 174-176, 1992.
3. Vakalikos, I.; Destouni, E.; Valassis, K.; Eftchiadou, C.; Charalambopoulos, A. y Saleni, N.: Malignant mesothelioma of testicular tunica. *J. Surg. Oncol.*, 29: 264, 1985.
4. Bailey, G.; Willis, R. y Wilson, J.: A case of adenocarcinoma of the appendix testis. *J. Path. Bact.*, 69: 326, 1955.
5. Huncharek, M.: Genetics factors in the etiology of malignant mesothelioma. *Eur J. Cancer.* 31: 1741-1747, 1995.
6. Antman, K; Schiff, P y Pass, H.: *Benign and Malignant Mesothelioma*. En: *Cancer: Principles and Practice of Oncology*. Fifth Edition, editado por DeVita, V.; Hellman, S., Rosenberg, S., págs. 1853-1878, Philadelphia, 1997.
7. Chen, K.; Arhelger, R.; Flam, M. y Hanson, J.: Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis. *Urology*, 20: 316, 1982.
8. Carp, N., Petersen, J.; Kusiak, J. y Greenberg, R.: Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis. *J. Urol.*, 144: 1475-1478, 1990.
9. Amin, R. Case report: Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis: an indolent course. *Br. J. Radiol.*, 68: 1025-1027, 1995.
10. Antman, K; Cohen, S.; Dimitrov, N.; Green, M. y Muggia, F.: Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis. *J. Clin. Oncol.*, 2: 447-451, 1984.
11. Cavazza A. y cols.: Post-irradiation malignant mesothelioma. *Cancer*, 77: 1379-1385, 1996.
12. Stenton, S.: Asbestos, simian virus 40 and malignant mesothelioma. *Thorax*, 51: 1074-1076, 1996.
13. Kossow, A. y McCann, L.: Malignant mesothelioma of the testicular tunic. *J. Urol.*, 126: 272-274, 1981.
14. Prescott, S.; Taylor, R.; Sclaire, G. y Busuttill, A.: Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis: a case report. *J. Urol.*, 140: 623-624, 1988.
15. Khan, M.; Puri, P. y Devaney, D.: Mesothelioma of tunica vaginalis testis in a child. *J. Urol.*, 158: 198-199, 1997.
16. Menut, P.; Herve, J.; Barbagelata, M. y Botto, H.: Bilateral malignant mesothelioma of the tunica vaginalis. *Prog. Urol.*, 6: 587-589, 1996.
17. Dreblner, W. y cols.: Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis. *Pathologie*, 9: 318-321, 1988.
18. Japko, L.; Horta, A.; Schreiber, K.; Mitsudo, S., Karwa,

- G.; Singh, G. y Koss, L.: Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis: report of first case with preoperative diagnosis. *Cancer*, 49: 119-127, 1982.
19. Chetty, R.: Well differentiated (benign) papillary mesothelioma of the tunica vaginalis. *J. Clin. Path.*, 45: 1029, 1992.
 20. Wagner, J.; Munday, D. y Harrington, J.: I histochemical demonstration of hyaluronic acid in pleural mesothelioma. *J. Path. Bact.*, 84: 73, 1962.
 21. Taxy, J.; Battifora, H. y Oyasu, R.: Adenomatoid tumors: a light microscopic, histochemical, and ultrastructural study. *Cancer*, 34: 306, 1974.
 22. Kamiya, M. y Eimoto, T.: Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis. *Path. Res. Pract.*, 680, 1990.
 23. Bell, D. y Flotte, T.: Factor VIII related antigen in adenomatoid tumors: implications for histogenesis. *Cancer*, 50: 932, 1982.
 24. Sebbag, G.; Yan, H.; Shmookler, B. y Sugarbaker, P.: Malignant mesothelioma of the male genital tract. *Urol. Oncol.*, Vol. 6 Issue 6: 261-264, 2001.
 25. Yamanishi, T.; Wakisaka, M.; Ito, H.; Matsuzaki, O.; Nagao, K. y Shimazaki, J.: Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis. *Eur. Urol.*, 10: 207, 1984.
 26. Grove, A.; Jensen, M. y Donna, A.: Mesotheliomas of the tunica vaginalis testis and hernial sacs. *Virch. Arch. A. Path. Anat.*, 415: 283, 1989.
 27. Grippo, L.: Mesoteliocarcinoma de la vaginal. Sociedad Argentina de Urología, sesión del 27 de noviembre de 1975.
 28. Kasdom, E.: Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis propria testis. Report of two cases. *Cancer*, 23: 1144, 1969.
 29. Smith, J.; Malone, M.; Geffin, J.; Silverman, M. y Libertino, J.: Retroperitoneal lymph node dissection in malignant mesothelioma of tunica vaginalis testis. *J. Urol.*, 144: 1242, 1990.
 30. Aisner, J. y Wiernik, P.: Chemotherapy in the treatment of malignant mesothelioma. *Sem. Oncol.*, 8: 335, 1981.
 31. Noble, J.; Watkins, A.; Chappell, M. y Heath, A.: Mesothelioma of the tunica vaginalis of the testis. *Br. J. Urol.*, 70: 328, 1992.
 32. Jaffe, J.; Roth, J. y Carter, H.: Malignant papillary mesothelioma of tunica vaginalis testis. *Urology*, 11: 647, 1978.
 33. Brady, L.: Mesothelioma- the role for radiation therapy. *Sem. Oncol.*, 8: 3 29, 1981.
 34. Eden, C., Bettochi, C.; Coker, C.; Yates-Bell, A. y Pryor, J.: Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis. *J. Urol.*, 153: 1053-1054, 1995.
 35. Plas, E.; Riedl, C.; Pflüger, H.: Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis. *Cancer*, 83: 2437-2446, 1998.