

## Tumor “burned out” de testículo.

*Revisión de sus características y presentación de tres nuevos casos*

### Burned out testis tumor

*Revision of their characteristics and presentation of three new cases*

Dres. Vázquez Avila Luis G\*;  
Frattini Gustavo\*;  
Fernández Mario D\*\*.

**Introducción:** El término tumor “burned out” o “quemado” de testículo se utiliza para definir la regresión espontánea y completa de un tumor testicular a tejido fibroso, encontrándose el mismo en estadio metastásico. Luego de que fuera descripto por primera vez en 1927, sólo algunas series cortas y casos aislados fueron publicados en la literatura.

**Material y Métodos:** Se analizó en forma retrospectiva una serie corta de 3 casos de tumores “burned out” de testículo diagnosticados en dos clínicas de la ciudad de Mar del Plata. Se registró su historia natural, diagnóstico clínico y por imágenes, anatomopatología y tratamiento.

**Resultados:** Se trata de pacientes jóvenes que consultan a causa de síntomas producidos por sus metástasis. En un caso el examen físico es irrelevante, pero la ecografía es diagnóstica en los 3 pacientes. En todos los casos se realiza la orquiectomía radical evidenciándose signos de atrofia testicular y se tratan con quimioterapia.

**Conclusiones:** Afecta a paciente jóvenes que se presentan por lo general con síntomas debidos a sus metástasis. Ante un paciente masculino con adenopatías retroperitoneales y examen físico testicular normal debe sospecharse un tumor “burned out” hasta que se demuestre lo contrario. La quimioterapia previa orquiectomía radical es el tratamiento más efectivo para esta patología. Aún quedan interrogantes que serán respondidos cuando surjan nuevos estudios sobre el tema.

**PALABRAS CLAVE:** Testículo; Cáncer de testículo; Tumor de células germinales; Quemado; Orquiectomía; Retroperitoneal; Metástasis.

**Introduction:** “Burned out” testis tumor is used to define the spontaneous and complete regression of a testicular cancer to scar tissue while the primary tumor is in metastatic stage. After it was described for the first time in 1927, only some short series and isolated cases were published in the literature.

**Material and Methods:** It was retrospectively analyzed 3 cases of burned out testicular tumor diagnosed in two clinics of Mar del Plata. We registered their natural history, clinical diagnosis, images, pathology and management.

**Results:** They were young patients that consulted with metastatic symptoms. In one case the physical examination was irrelevant but the ultrasonography was diagnostic in the 3 patients. In all the cases we carried out radical orchiectomy that showed testicular atrophy and the treatment was chemotherapy.

**Conclusions:** It affects young patients that presents generally with symptoms due to their metastases. A male with retroperitoneal lymphadenopathy and normal testicular physical examination, a

\* Servicio de Urología de Clínica Privada Pueyrredón, Mar del Plata.  
\*\* Servicio de Urología de Clínica Colón, Mar del Plata.

Vázquez Avila Luis Guillermo  
Balcarce 3316 4°C, (7600) Mar del Plata, Buenos Aires, Argentina.  
Tel.: (0223) 473-9209  
E-mail: luisvazquezavila@yahoo.com.ar

burned out tumor should be suspected until proven otherwise. The chemotherapy previous radical orchiectomy is the most effective treatment. They are still queries that will be responded when new studies of the topic arise.

**KEY WORDS:** Testis; Testicular tumor; Germ cell tumor; Burned out; Orchiectomy; Retroperitoneal; Metastases.

## INTRODUCCIÓN

El término tumor “burned out” o “quemado” de testículo se utiliza para definir la regresión espontánea y completa de un tumor testicular a tejido fibroso, encontrándose el mismo en estadio metastásico. El diagnóstico diferencial debe hacerse principalmente con los tumores germinales primarios extragonadales, los cuales tienen la particularidad de originarse de células pluripotenciales situadas en la línea media del cuerpo o de células germinales primitivas a lo largo de la migración de las gónadas y poseer testículos sin patología alguna<sup>1</sup>.

El fenómeno “burned out” fue descrito por primera vez en 1927 por *Prym*, el cual reportó la presencia de una cicatriz testicular en la autopsia de un paciente con un coriocarcinoma extragonadal<sup>2</sup>. Ya en la década del 60, *Azzopardi* describió en forma detallada la estructura anatomopatológica de un testículo con tumor “burned out”<sup>3-4</sup>. A partir de entonces, sólo algunas series cortas y casos aislados fueron publicados en la literatura<sup>5-10</sup>.

## MATERIAL Y MÉTODOS

Se analizó en forma retrospectiva una serie corta de 3 casos de tumores “burned out” de testículo diagnosticados en dos clínicas de la ciudad de Mar del Plata. Se registró su historia natural, diagnóstico clínico y por imágenes, anatomopatología y tratamiento.

## RESULTADOS

### Caso 1

Paciente de 33 años de edad, hipertenso y obeso. Consulta a su médico de cabecera por dolor lumbar izquierdo y en la ecografía abdominal se informa una masa retroperitoneal. Le solicita una TC abdominal que confirma adenopatías lateroaórticas de entre 1 y 4 cm de diámetro desde 12<sup>a</sup> dorsal hasta 4<sup>a</sup> lumbar y una masa suprarrenal de 6,5 x 6 cm.

*Marcadores tumorales:*  $\alpha$  fetoproteína: 48.77 UI/ml. Subunidad  $\beta$  GCH: 14806 mUI/ml. Por sospechar tumor testicular es derivado al urólogo.

El examen físico testicular es normal y se palpa una adenopatía supraclavicular izquierda fija de 3 cm de diámetro. Se realiza ecografía testicular que muestra un área hipoecoica de 1 cm sin vascularización.

Se decide exploración testicular izquierda por vía inguinal. Se obtienen biopsias para congelación, las cuales se informan negativas para neoplasia infiltrante, sólo con fibrosis estromal. No se realiza la orquiectomía en ese momento. En la anatomía patológica diferida se informa que se reciben tres fragmentos de tejido pardo claro de consistencia elástica y sectores blanquecinos, con pérdida del aspecto testicular habitual. Microscópicamente hay amplias áreas de fibrosis del estroma intertubular, observándose zonas con marcada hialinosis, especialmente rodeando a los túbulos seminíferos, y focos de infiltrado inflamatorio leve. El epitelio germinal intratubular muestra ausencia de maduración espermatogénica y presencia de células con núcleos amplios e irregulares, escaso citoplasma y pérdida de la relación núcleo-citoplasmática. Dichas células muestran citoplasmas PAS positivo. Algunos túbulos presentan esclerohialinosis completa, con depósitos de calcio distrófico ocluyendo su luz.

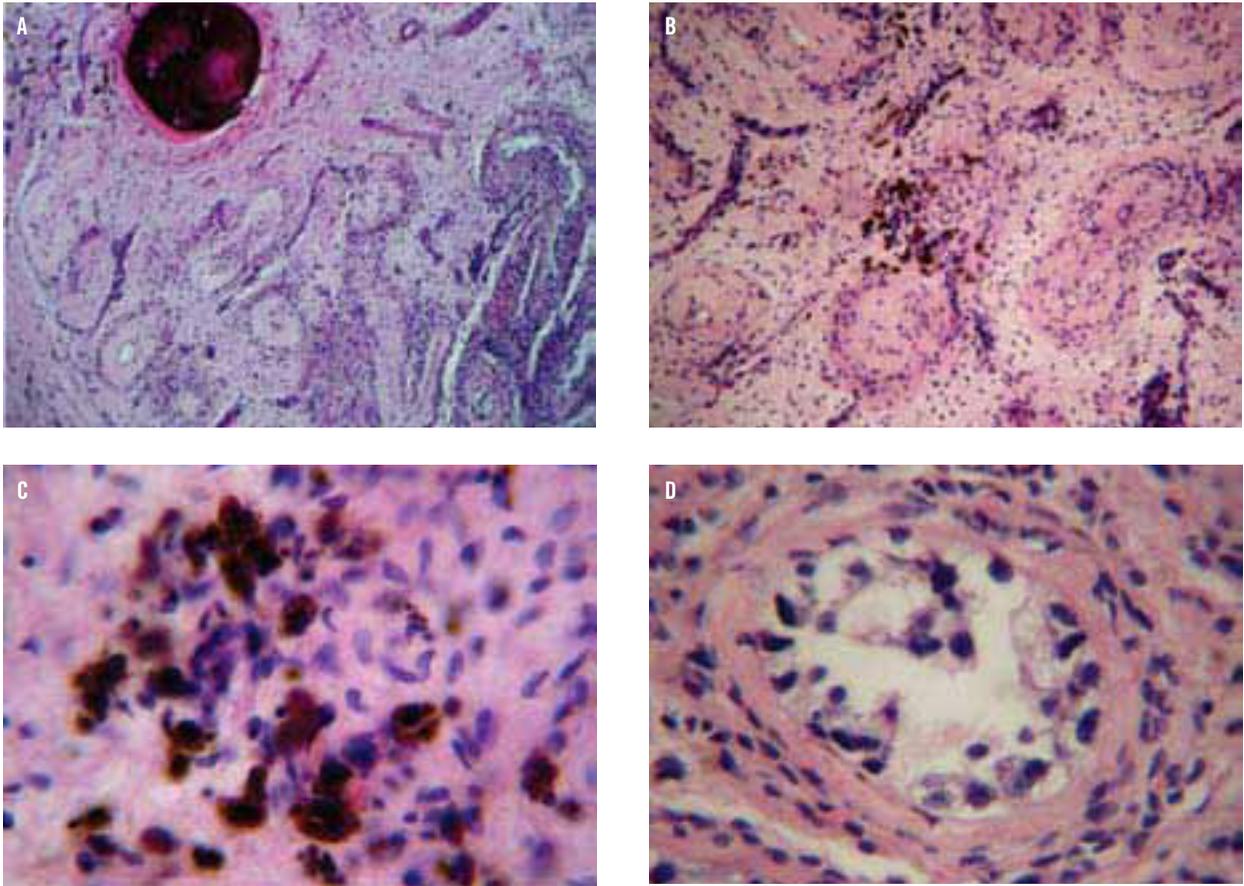
*Diagnóstico:* Neoplasia germinal intratubular testicular con fenómeno “burned out” (Figura 1).

Se completa estadificación con TC de tórax que muestra adenomegalias mediastinales de entre 2 y 4 cm de diámetro.

Se decide comenzar con quimioterapia endovenosa con bleomicina, etopósido y cisplatino. Se realizan en total 4 ciclos con buena tolerancia. Al terminar el tratamiento, se efectúa orquiectomía radical izquierda. Los estudios tomográficos de control no muestran patología alguna, sólo se observa una imagen de 1,3 x 1 cm en región paraaórtica infrarrenal izquierda. Los marcadores tumorales están dentro de valores normales.

### Caso 2

Paciente de 45 años de edad, tabaquista, sin otro antecedente de relevancia. Se le solicita como estudio de rutina una radiografía de tórax que muestra masa pul-



**Figura 1.** Anatomía patológica de tumor testicular “burned out”: 1A: Atrofia tubular con hialinoesclerosis y depósitos de calcio; 1B: Atrofia tubular con hialinoesclerosis y hemosiderófagos; 1C: Acúmulos de hemosiderófagos; 1D: Neoplasia germinal intratubular. Engrosamiento de la membrana basal.

monar derecha de 6 cm de diámetro. Posteriormente se realiza TC de tórax y abdomen que presenta 3 imágenes sólidas, redondeadas en ambos campos pulmonares compatibles con metástasis de 5 cm de diámetro en lóbulo medio e inferior derecho y de 7 cm de diámetro en lóbulo inferior izquierdo; se observan además, adenomegalias retroperitoneales paraaórticas izquierdas de 4 cm de diámetro (Figura 2).

Se decide solicitar marcadores tumorales y efectuar una fibrobroncoscopia. En esta última, en el segmento basal posterior del lóbulo inferior izquierdo, presenta a 1 cm de su origen, un tumor endobronquial irregular de color blanco que ocupa aproximadamente 50% de su luz. Se toman biopsias, se lava y se aspira. La anatomopatología informa células epiteliales atípicas dispersas en colgajos y sueltas, algunas con citoplasmas acidófilos de aspecto queratósico, siendo éstas (+) para células neoplásicas, pudiendo corresponder a carcinoma epidermoide.

Se obtienen resultados de los marcadores tumorales:  $\alpha$

fetoproteína: 835.2 UI/ml. Subunidad  $\beta$  GCH: 634 mUI/ml. LDH: 475 UI/l.

En este momento es derivada al urólogo. Al examen físico: Nódulo indurado en testículo derecho, doloroso a la palpación. Se pide ecografía escrotal: A nivel testicular derecho, quiste de 4 mm de diámetro y dos calcificaciones de 3 mm de diámetro rodeados por edema (Figura 2).

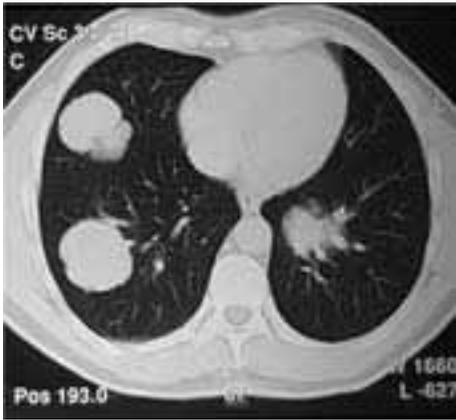
Se realiza orquiectomía radical derecha.

Anatomía patológica: Hiperplasia de células de Leydig, con atrofia testicular. Se sospecha tumor no seminomatoso de testículo, con fenómeno “burned out”.

Se le realizan 4 ciclos de quimioterapia con cisplatino y etopósido con buena tolerancia. No se realizó tratamiento con bleomicina por haber presentado rash cutáneo y cuadro febril luego de la administración de la misma.

Los marcadores postquimioterapia se mantienen en niveles normales:  $\alpha$  fetoproteína: 1.8 UI/ml. Subunidad  $\beta$  GCH: <1 mUI/ml. LDH: 186 UI/l.

La TC cerebral no presenta alteraciones. La TC de



A: TC de tórax.

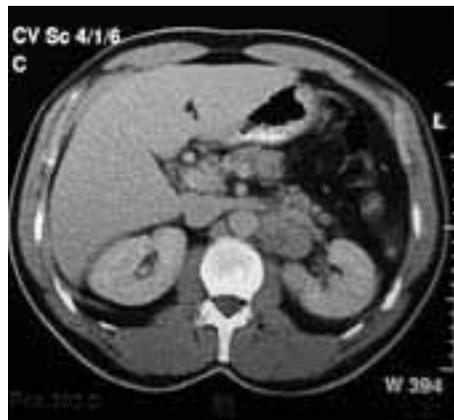


B: Ecografía testicular.

Figura 2. Imágenes de tumor testicular "burned out".



C: TC de abdomen.



tórax muestra disminución del tamaño con cavitación de las lesiones derechas, las cuales miden 2,5 y 3,5 cm de diámetro. La lesión del lóbulo inferior izquierda está marcadamente más pequeña, persistiendo en su lugar un tracto denso de 3 x 1 cm de diámetro. En la TC abdominal se observa una imagen nodular de 2 cm de diámetro, por detrás de la vena renal izquierda compatible con adenopatía.

Actualmente, la TC de tórax presenta marcada involución de las imágenes descritas, persistiendo pequeñas áreas de fibrosis. La TC abdominal muestra marcada reducción de la estructura ganglionar previamente descrita, evidenciando sólo una pequeña lesión entre aorta y psoas.

### Caso 3

Paciente de 36 años de edad, sin antecedentes patológicos de relevancia. Consultó en otra institución 2 años atrás por atrofia de testículo derecho, restándosele importancia al episodio. Al momento de la consulta, refiere lumbalgia derecha de 2 meses de evolución irradiada a fosa iliaca

homolateral. Se le solicita ecografía abdominal donde se observa una imagen ovoidea de bordes definidos de 77 x 51 x 44 mm por delante de la vena cava inferior y la aorta, con efecto de masa sobre la vena. En la tomografía computada (TC), se constatan en retroperitoneo, 2 imágenes heterogéneas con áreas hipodensas y áreas cálcicas ubicadas en espacio prevascular e intervalascular a nivel de la arteria renal de 2,5 cm de diámetro mayor; y otra de 6 x 4 x 3,7 cm en el espacio prevascular a la altura del cono terminal aórtico, comprimiendo a la VCI, sin poder determinar plano de clivaje con ésta. Ambas lesiones presentan discreto realce con contraste endovenoso en sus bordes y de finos tabiques en su interior. Ante la sospecha de adenopatías por tumor testicular, es derivado al urólogo. Al examen físico, se palpa la gónada derecha de menor tamaño con respecto a la contralateral, sin otro detalle significativo. Se realiza ecografía escrotal que muestra un testículo derecho disminuido de tamaño, estructura heterogénea con áreas parcheadas hipoeoicas y pequeñas microcalcificaciones dispersas, sin alteración de la vascularización.

*Marcadores tumorales:*  $\alpha$  fetoproteína: 39,7 UI/ml. Subunidad  $\beta$  GCH: no detectable (menos de 5 mUI/ml.). LDH: 323 UI/l.

Por sospechar un tumor testicular “burned out”, se realiza orquiectomía radical derecha.

*Anatomía patológica:* Testículo con parénquima pardo claro con áreas blanquecinas centrales y nodulares bien delimitadas de 1 x 0,5 cm de consistencia firme (Figura 3). Los cortes muestran áreas de esclerohialinosis y extensa atrofia de conductos, algunos residuales con espermatogénesis y grupos de células de *Leydig* dispersos. Cuadro histológico compatible con “burned out” del tumor primario.

Para completar la estadificación, se solicita TC de tórax que muestra en pulmón derecho, en lóbulo superior, una lesión nodular de 15 mm de diámetro compatible con metástasis.

Se realiza punción biopsia de la masa retroperitoneal guiada por TC obteniéndose sólo material necrótico con colgajos de células sospechosas de malignidad.

Al derivar el paciente a oncología, se efectúan nuevos marcadores tumorales, con  $\alpha$  fetoproteína de 72,7 UI/ml. y subunidad  $\beta$  GCH de 140 mUI/ml. Se decide comenzar tratamiento de quimioterapia con bleomicina, etopósido y cisplatino.

Terminado el 2º ciclo, la  $\alpha$  fetoproteína disminuyó a la mitad de su valor prequimioterapia y la subunidad  $\beta$  GCH hizo lo mismo hasta valores no detectables.

Actualmente, luego del 4º ciclo de quimioterapia, el paciente se encuentra asintomático, con marcadores tumorales en niveles normales.

## DISCUSIÓN

La causa por la cual un tumor testicular podría retrogradar hasta convertirse en tejido fibroso aún no se conoce. Se han propuesto mecanismos isquémicos e inmunológicos, aunque estos últimos parecerían los más probables, ya que se han descrito para otros cánceres<sup>11</sup>.

Habitualmente se trata de pacientes jóvenes, al igual que ocurre con los tumores testiculares. Estos se presentan por lo general con síntomas originados por sus metástasis como dolor abdominal y lumbar<sup>12</sup>. Menos frecuentemente pueden aparecer pérdida de peso, fiebre, masa palpable abdominal, constipación, disnea, retención urinaria aguda. Los síntomas locales como dolor o masa testicular en estos casos son raros. Más aún, el examen físico suele ser irrelevante en manos de un urólogo con experiencia hasta en un 42% de los casos<sup>13</sup>. En nuestros casos tuvimos un examen físico normal, una atrofia y un nódulo testicular a la palpación.

La tomografía computada suele ser el primer mé-



**Figura 3.** Pieza quirúrgica de tumor testicular “burned out”.

todo diagnóstico para la detección de linfadenopatías retroperitoneales, que es el sitio más afectado por los tumores “burned out”. Además, este estudio es útil para la exploración de otros sitios probables de metástasis como el pulmón, el hígado y otras zonas ganglionares como el mediastino y la región supraclavicular<sup>14</sup>.

Ante un paciente masculino con adenopatías retroperitoneales y examen físico testicular normal debe descartarse un tumor “burned out”. Los pasos a seguir serían solicitar marcadores tumorales y realizar una ecografía testicular, ya que ésta ha resultado ser un método efectivo en el diagnóstico de esta patología<sup>12,14,15</sup>. Los hallazgos ecográficos varían desde pequeños focos hiperecogénicos o áreas hipoeoicas y ausencia de lesiones homogéneas hasta microlitiasis, macrocalcificaciones y signos de atrofia testicular<sup>14</sup>. Un estudio reciente propone también a la resonancia magnética nuclear como un método eficaz para diagnosticar lesiones testiculares ante una ecografía sin resultados concluyentes<sup>16</sup>. En nuestros casos, la ecografía testicular evidenció alteraciones en todos los pacientes.

Ante esta situación, es mandatorio realizar una orquiectomía radical ipsilateral al sitio de la linfadenopatía retroperitoneal, aunque se han descrito casos en el testículo contralateral<sup>13</sup>. Efectuar la orquiectomía radical tiene singular importancia, ya que en ocasiones se detectan células neoplásicas activas en las piezas quirúrgicas. Por tanto, si ésta no se realizara, la barrera hemato-testicular reduciría los efectos de los agentes quimioterápicos en los túbulos germinales y podría llevar a recurrencias tumorales<sup>12,13</sup>.

Con respecto a la anatomía patológica, el estudio macroscópico de la pieza puede ser en ocasiones normal

o identificarse cicatrices de diferentes configuraciones: nodulares, multinodulares, en bandas, estrelladas, etc.<sup>17</sup>. Azzopardi y cols., en sus trabajos hicieron una descripción microscópica detallada y sus hallazgos fueron similares a los encontrados por otros autores en estudios anatómopatológicos posteriores: áreas cicatrizales relativamente acelulares, cuerpos hematofílicos (depósitos de sustancias amorfas en los túbulos seminíferos que se tiñen con hematoxilina), cuerpos de psammoma (microcalcificaciones dentro de túbulos atróficos), macrófagos cargados de hemosiderina, hiperplasia de células de Leydig en el tejido intertubular y presencia variable de tumores intratubulares seminomatosos y no seminomatosos<sup>3,4,12,17,18</sup>.

Actualmente, la quimioterapia es efectiva para el tratamiento de estas neoplasias pero, como fue comentado anteriormente, no para el tumor primario testicular en sí mismo. Por tal motivo, ya que el testículo es considerado un "santuario" o un sitio anatómicamente protegido, la cirugía está indicada en todos los casos.

A pesar de que se ha progresado mucho en el diagnóstico y tratamiento de los tumores "burned out", quedan algunos interrogantes como por ejemplo: ¿qué hacer ante un paciente con diagnóstico de tumor germinal extragonadal con ecografía testicular normal? ¿orquiectomía ipsilateral? ¿biopsias testiculares bilaterales? ¿quimioterapia y observación? O también: ¿qué hacer con las masas retroperitoneales? ¿biopsia? ¿quimioterapia aunque no se tenga un diagnóstico histológico? Seguramente éstos serán respondidos cuando surjan nuevos estudios sobre el tema, multicéntricos, con mayor número de casos y seguimiento prolongado.

## CONCLUSIONES

Afecta a paciente jóvenes que se presentan por lo general con síntomas debidos a sus metástasis.

Ante un paciente masculino con adenopatías retroperitoneales y examen físico testicular normal debe sospecharse un tumor "burned out" hasta que se demuestre lo contrario.

La quimioterapia previa orquiectomía radical es el tratamiento más efectivo para esta patología.

Aún quedan interrogantes que serán respondidos cuando surjan nuevos estudios sobre el tema.

## BIBLIOGRAFÍA

- Campbell's Urology 8<sup>th</sup> Edition<sup>®</sup> 2002 Saunders, An Imprint of Elsevier Science, Philadelphia. Volume 4. Chapter 81.
- Prym P: Spontanheilung eines bösartigen, wahrscheinlich chorionepitheliomatösen gewächses im hoden. *Virchows Arch Pathol Anat* 1927; 265: 239-258.
- Azzopardi JG, Mostofi FK, Theiss EA.: Lesions of testis observed in certain patients with widespread choriocarcinoma and related tumors. *Am J Pathol* 1961; 38: 207-225.
- Azzopardi JG, Hoffbrand AV.: Retrogression in testicular seminoma with viable metastases. *J Clin Path* 1965; 18: 135-141.
- Anglade RE, Chang B, Siroky MB.: Primary retroperitoneal seminoma with ultrasonically abnormal testes. *Urology* 2001; 57 (4): 800i-800iii.
- Curigliano G, Magni E, Renne G, De Cobelli O, Rescigno M, Torrisi R, Spitaleri G, Pietri E, De Braud F, Goldhirsch A.: "Burned out" phenomenon of the testis in retroperitoneal seminoma. *Acta Oncológica* 2006; 45: 335-336.
- Mola Arizo MJ, Gonzalvo Pérez V, Torregrosa Maicas MD, Navarro Antón JA, Gómez-Ferrer Lozano A, Estany Pérez A, Polo Peris AC.: Tumor testicular bilateral "quemado" ("burn out"). *Actas Urol Esp* 2005; 29 (3): 318-321.
- Ojea Calvo A, Rodríguez Alonso A, Pérez García D, Domínguez Freire F, Alonso Rodrigo A, Rodríguez Iglesias B, Benavente Delgado J, Barros Rodríguez JM, Fiaño Valverde C, Nogueira March JL.: Tumor extragonadal de células germinales con fenómeno "burned-out" en testículo. *Actas Urol Esp* 1999; 23 (10): 880-884.
- Perimenis P, Athanasopoulos A, Geraghty J, Macdonagh R. Retroperitoneal seminoma with "burned out" phenomenon in the testis. *Int J Urol* 2005; 12 (1): 115-116.
- Fujita K, Itoh Y, Wada R, Nagao K, Fujime M. Embryonal carcinoma producín DU-PAN-2 with burned out phenomenon in the testis. *Int J Urol* 2006; 13 (4): 473-475.
- Saleh FH, Crotty KA, Hersey P, Menzies SW, Rahman W.: Autonomous histopathological regression of primary tumours associated with specific immune responses to cancer antigens. *J Pathol* 2003; 200: 383-395.
- Comiter CV, Renshaw AA, Benson CB, Loughlin KR.: Burned-out primary testicular cancer: sonographic and pathological characteristics. *J Urol* 1996; 156 (1): 85-88.
- Scholz M, Zehender M, Thalmann GN, Borner M, Thöni H, Studer UE.: Extragonadal retroperitoneal germ cell tumor: evidence of origin in the testis. *Ann Oncol* 2002; 13: 121-124.
- Tasu JP, Faye N, Eschwege P, Rocher L, Bléry M.: Imaging of burned-out testis tumor. *J Ultrasound Med* 2003; 22: 515-521.
- Fabre E, Jira H, Izard V, Ferlicot S, Hammoudi Y, Theodore C, Di Palma M, Benoit G, Droupy S.: "Burned-out" primary testicular cancer. *BJU Int* 2004; 94: 74-78.
- Patel MD, Patel BM.: Sonographic and magnetic resonance imaging appearance of a burned-out testicular germ cell neoplasm. *J Ultrasound Med* 2007; 26: 143-146.
- Balzer BL, Ulbright TM.: Spontaneous regression of testicular germ cell tumors. An analysis of 42 cases. *Am J Surg Pathol* 2006; 30 (7): 858-865.
- Daugaard G, Roth M, von der Maase H, Skakkebaek NE.: Management of extragonadal germ-cell tumors and the significance of bilateral testicular biopsies. *Ann Oncol* 1992; 3 (4): 283-289.