

Mesotelioma maligno de la túnica vaginalis del testículo. Reporte de caso y revisión de la literatura

Malignant mesothelioma of tunica vaginalis. Case report and literature review

Adriana Jiménez Cantero¹, Mario A. Ponce Viveros², Alejandra Mantilla Morales³, Jessica Chávez Noguera⁴

*Instituto Mexicano del Seguro Social, Centro Médico Nacional Siglo XXI, Unidad Médica de alta especialidad,
Hospital de Oncología, Ciudad de México, México.*

MESOTELIOMA MALIGNO DE LA TÚNICA VAGINALIS DEL TESTÍCULO. REPORTE DE CASO Y REVISIÓN DE LA LITERATURA.

INTRODUCCIÓN.

Los tumores paratesticulares son neoformaciones independientes del parénquima testicular, pudiendo originarse del epidídimo, cordón espermático, de las tunicas de recubrimiento e incluso de índole metastásico. El mesotelioma es una neoplasia poco frecuente y de comportamiento agresivo, siendo su principal localización a nivel pleural y en menor frecuencia pericardio y peritoneo, sin embargo, menos del 5% se presentan a nivel testicular; debido a un curso inespecífico en la sintomatología, representa un reto diagnóstico preoperatorio, por lo que la mayoría de los diagnósticos se realizan tras el abordaje de otras patologías urológicas. Dada la baja incidencia de estas neoplasias no existe un protocolo de tratamiento específico, por lo que, la adyuvancia aún no está bien establecida y menos aún, el manejo de esta como un segundo primario en un sitio previamente tratado.

El presente trabajo aborda el caso de un mesotelioma persistente de la túnica vaginalis con antecedente de exposición a asbesto en un medio laboral y a radiación ionizante, como tratamiento adyuvante a un sarcoma fusocelular inguinocrural.

CASO CLÍNICO

Paciente de 58 años de edad de ocupación mecánico sin otros factores de riesgo; inició el padecimiento oncológico hace 16 años con crecimiento indoloro paratesticular derecho, el cual se resecó con reporte de neoplasia benigna no especificada, en el año 2005 presentó un nuevo crecimiento que protruye a la maniobra de Valsalva, ante sospecha de hernia inguinal se programó para plastia inguinal y toma de biopsia de una lesión inguinal, reportada como positiva para malignidad, luego fue enviado a tercer nivel, donde se realiza TAC en marzo del 2006, evidenciando neoplasia inguinal adyacente al cordón espermático de 4,3 x 3,3 cm. sin infiltración pélvica, con revisión de laminillas referida como neoplasia mesenquimatosa maligna con patrón epitelioides. Posteriormente se otorgaron 4 ciclos de quimioterapia a base de fluorouracilo sin impacto, por lo que en mayo del 2006 fue sometido a resección amplia con hallazgo de tumor inguinal de 5,5 x 5 cm. con reporte histopatológico de sarcoma de alto grado con áreas fusocelulares y epitelioides, con formación de elementos heterólogos a 2 mm. del límite quirúrgico (ver Figura 1).

Recibido en julio 2017 - Aceptado en julio 2017
Conflictos de interés: ninguno

Correspondencia
Email: adriana.liesl@gmail.com

Received on July 2017 - Accepted on July 2017
Conflicts of interest: none

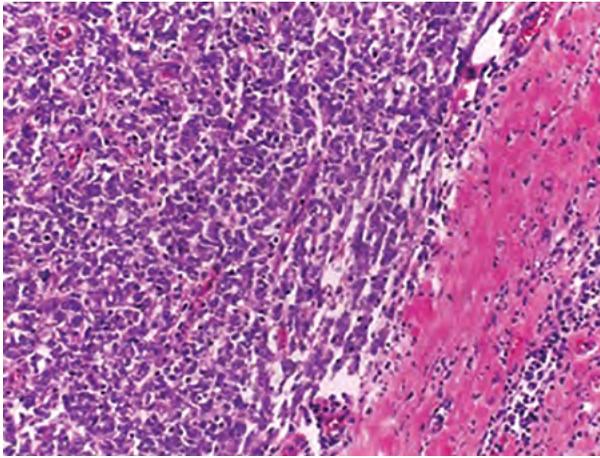


Figura 1. Sarcoma de alto grado con componente epitelial y fusocelular con formación de matriz osteoide

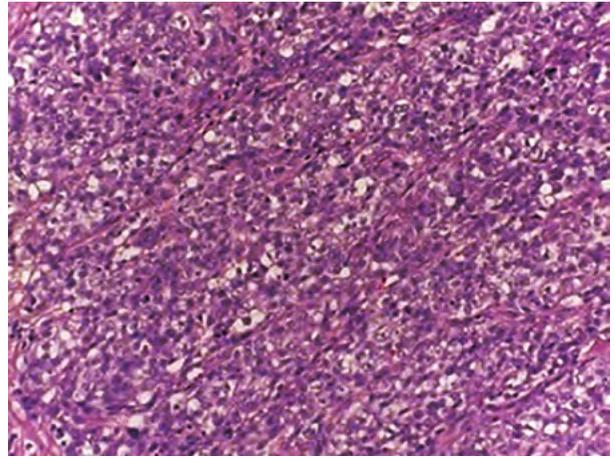


Figura 2. Cortes histológicos en hematoxilina y eosina de mesotelioma epitelial de la túnica vaginalis

Se otorgó manejo adyuvante con radioterapia de 45 Gy. como primera fase con posterior incremento a 65 Gy. a lecho y cicatriz quirúrgica, las cuales finalizaron en diciembre de 2006, siendo mantenido en vigilancia clínica y por imagen.

En mayo del 2015 presentó un aumento progresivo paratesticular derecho asociado a dolor, se solicitó USG en diciembre del 2015 que mostró masas heterogéneas paratesticulares derechas, una de ellas con sospecha de pérdida de interfase con parénquima testicular; se complementó con resonancia magnética en la que se destacan cambios por fibrosis, refuerzo intenso heterogéneo en la túnica vaginalis con diámetros de 3 x 4,2 cm. que no infiltra parénquima testicular.

En 2016 fue intervenido de urgencia mediante cirugía no oncológica reportando seminoma clásico producto de orquiectomía. En la revisión del material histopatológico se diagnosticó mesotelioma epitelioide de la túnica vaginalis, con expresión de citoqueratina, calretinina y WT-1. Túnica albugínea, testículo y cordón espermático sin evidencia de neoplasia (Figuras 2, 3 y 4).

En septiembre del 2016 presentó engrosamiento de piel escrotal derecha de hasta 8 mm. corroborado con USG, incremento de la vasculatura e imagen adyacente nodular de 25 x 16 x 25 mm. Heterogénea, con aumento vascular.

Mediante TAC abdominopélvica en octubre de 2016 se evidenció actividad tumoral de 42 x 49 mm. con realce

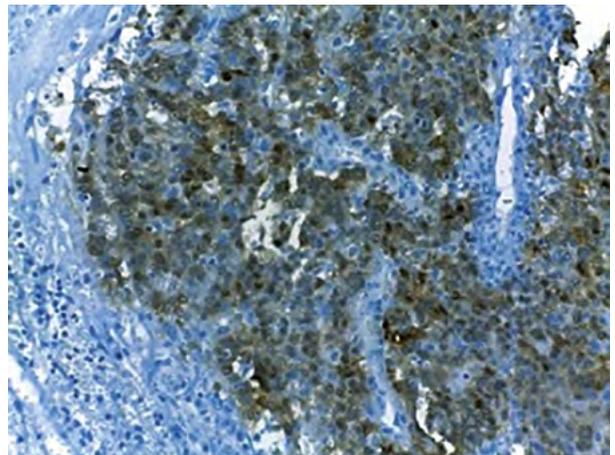


Figura 3. Inmunohistoquímica con expresión de calretinina

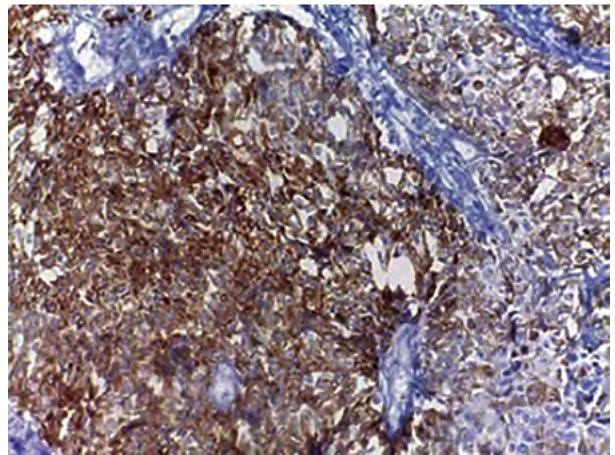


Figura 4. Expresión de citoqueratina

heterogéneo a la aplicación del medio de contraste, engrosamiento de la piel, así como cambios por fibrosis a nivel inguinal.

Fue sometido a tumorectomía con hemiescrotectomía derecha en diciembre del 2016 con hallazgo histopatológico de mesotelioma epitelioide de 7,5 cm. y una segunda lesión de 1,5 cm., con invasión linfovascular, bordes quirúrgicos a 1 mm., piel escrotal sin alteraciones.

Ante comportamiento de la neoplasia y características histopatológicas como invasión linfovascular, bordes estrechos y tamaño tumoral, se decide otorgar adyuvancia con radioterapia 60 Gy. en 30 fracciones con electrones, energía de 9 MeV. y cono de 15 x 10 cm. a la cicatriz y lecho quirúrgico, las cuales finalizaron en mayo de 2017 con presencia de radiodermatitis grado 3 a nivel inguinoescrotal, actualmente en remisión, sin otros efectos secundarios agudos asociados a radioterapia.

DISCUSIÓN

Los mesoteliomas se presentan en superficies serosas de las cavidades celómicas, pleura, pericardio, peritoneo y en menor frecuencia en la túnica vaginalis testicular, siendo este último el más atípico en cuanto a localización, con menos de 300 casos reportados en la literatura mundial; del 68 al 85% de los casos de mesotelioma se presenta a nivel pleural, del 9,1 al 24% en el peritoneo y un porcentaje menor al 5% en la túnica vaginalis del testículo¹. El rango de edad de presentación es de 55 a 75 años, sin embargo, hasta un 10% tendrán menos de 25 años².

Se estima que del 50 al 70% de los mesoteliomas se relacionan a la exposición de asbesto, sin importar la localización; con un riesgo relativo del 34,2%¹ y una latencia de 8 a 40 años entre la exposición inicial y el desarrollo de la neoplasia³ recordando que estos productos se encuentran en diversos materiales de construcción y en componentes de transmisión, embragues y frenos de automóviles, por otro lado, menos de la mitad de los mesoteliomas de la túnica vaginalis se asocian a dicho agente, por lo que se cree que su aparición puede estar relacionada a otros factores de riesgo como el traumatismo, el hidrocele de larga evolución, los cuales aún no están confirmados^{4,5}. Por otro lado, se ha asociado su aparición a exposición previa

a radiación terapéutica, siendo esta un carcinógeno reconocido y un factor de riesgo para el desarrollo de diversas neoplasias, sin embargo, la mayoría de los casos reportados de mesoteliomas radioinducidos son escasos, de predominio pleural o peritoneal y con largos períodos de latencia, que oscilan entre los 7 a los 50 años⁶. Existen reportes que correlacionan el desarrollo de mesotelioma maligno y el manejo con radioterapia externa de un tumor primario con HR de 1,34 y una latencia mínima de 10 años⁷; no obstante, son pocos los pacientes estudiados debido a la poca frecuencia de aparición, el tiempo de desarrollo y el comportamiento de la enfermedad oncológica inicial, sumado a la aparición de factores confusores, como la exposición a asbesto u otros minerales, por lo que la radiación ionizante como factor de riesgo continua siendo controversial⁸.

En cuanto al cuadro clínico, no existe un síntoma clásico o patognomónico, siendo de presentación ambigua, usualmente diagnosticado de manera incidental durante el abordaje de otras patologías, entre las más frecuentes se encuentra la hidrocele en un 49,5%, tumores testiculares 36%, hernia inguinal 5,9%, epididimitis, torsión testicular, traumatismo e inflamación crónica en menos del 3%^{1,4,9-12}.

La incidencia es igual en ambos testículos⁹ y la bilateralidad infrecuente, siendo reportada únicamente en el 3,8%¹³.

Por ultrasonido se puede observar engrosamiento de la túnica vaginalis y nodulaciones con incremento de la ecogenicidad dependientes de la misma^{4,5}.

De acuerdo a sus características histopatológicas, en el 2010 Brimo y colaboradores propusieron una clasificación para mesotelioma de túnica vaginalis siendo el bien diferenciado aquel con arquitectura papilar, sin invasión estromal y ausencia de actividad mitótica; en tanto que el mesotelioma de potencial maligno incierto, conocido también como mesotelioma de bajo grado de malignidad, mesotelioma diferenciado de comportamiento agresivo o mesotelioma maligno difuso es aquel de patrón papilar agrupado a arquitecturas de mayor complejidad, como patrón cribiforme o sólido, además de presencia de actividad mitótica¹⁴. Finalmente el mesotelioma maligno, histología perteneciente a nuestro caso, se caracteriza por presencia de morfología epitelial, células ahusadas o morfología bifásica con invasión a estructuras adyacentes, característica ausente

en los otros subtipos³. En cuanto a la expresión de inmunohistoquímica, no existe diferencia entre ellos presentando vimentina, calretinina, EMA, WT-1, CD30, CD20, CK 5/6 (+), CEA (-) 1,4,9,14,15. Sin embargo, algunos autores han demostrado un incremento en Ki 67 y GLUT-1 de acuerdo con el grado de desdiferenciación del mesotelioma^{15,16}.

Los mesoteliomas malignos son de carácter infiltrante, el 40% presenta invasión local, el 25% invasión a tejido conectivo, el 19% a parénquima testicular y en menor proporción a epidídimo y piel escrotal^{3,10} posteriormente presenta diseminación ganglionar inguinal, paraaórtica y supraclavicular en un 14 al 31% y hematógena a pulmón e hígado en 9,2 y 4,2% respectivamente^{4,10}.

El manejo quirúrgico es el pilar del tratamiento, siendo de elección en caso de mesotelioma maligno confinado, la orquiectomía radical vía inguinal, en cuanto a la disección linfática inguinal o retroperitoneal se trata de manejos controvertidos ya que el porcentaje de afección es diversa de acuerdo a lo reportado por la literatura, siendo en su mayoría menos de 15% positivos, por tanto, se considera únicamente en caso de ser positivos (por patología o por imagen) ya que hasta el 35% de los pacientes sometidos a disección tendrán resultados negativos^{1,2}, por otro lado, algunos autores proponen la hemiescrotectomía para reducir la tasa de recurrencia local³. En caso de mesotelioma papilar bien diferenciado se recomienda la escisión amplia, a menos que involucre el parénquima testicular, en cuyo caso, se recomienda un manejo radical¹⁷.

En cuanto a la adyuvancia, su uso es controversial por los bajos resultados asociados a control local, sin embargo se debe individualizar el manejo a cada paciente e incluso se debe considerar el manejo secuencial en caso de etapas avanzadas^{3,9}. Por otro lado, más del 60% de los pacientes presentará recurrencia en los primeros dos años^{1,2,5} con una tasa de mortalidad de hasta el 53% en el caso del mesotelioma maligno⁹ y medias de sobrevida global de 23 meses^{1,5} disminuyendo a 14 meses en caso de recurrencia².

Por su rareza, no existe un tratamiento estandarizado para la recurrencia local o diseminación a distancia, puesto que, de manera general los resultados del manejo sistémico o con radioterapia son pobres³, sin embargo, algunos autores recomiendan resección local y quimioterapia, incluyendo platinos, que han

reportado remisión parcial del volumen en el 20% de los casos y radioterapia con dosis por lo menos de 60 Gy.^{3,5,18}, no obstante, ante el comportamiento de este caso en particular y las características histopatológicas reportadas (tamaño tumoral, márgenes estrechos e invasión linfovascular) se decidió otorgar adyuvancia con radioterapia externa con la dosis ya descrita, sin embargo, la decisión fue compleja dadas las altas dosis previas y el campo de tratamiento empleados en el manejo adyuvante del sarcoma inguinocrural del 2006.

El seguimiento de estos pacientes se recomienda mediante estudios de imagen trimestrales los primeros dos años y posteriormente de manera anual¹⁹.

BIBLIOGRAFIA

1. Segura-González M, Urias- Rocha J, Castelán-Pedraza J. Malignant Mesothelioma of the Tunica Vaginalis: A Rare Neoplasm – Case Report and Literature Review. *Clinical Genitourinary Cancer* 2015; 13: e401- e405.
2. Plas E, Riedl C, Pflugger H. Malignant Mesothelioma of the Tunica Vaginalis Testis: Review of Literature and assessment of Prognostic Parameters. *Cancer* 1998;83:2437-46.
3. Palazzo C, Doumic E, et.al. Mesotelioma maligno de túnica vaginal de testículo. Caso clínico y revisión de la bibliografía. *Rev Arg de Urol* 2003;68: 33-37.
4. Jankovichova T, Jankovich M, et.al. Extremely rare tumour – malignant mesothelioma of túnica vaginalis testis. *Bratisl Med J* 2015; 116: 574-576.
5. Maheshwari P N, Olajide O, et.al. Hydrocele with a surprise: Malignant mesothelioma of the túnica vaginalis- Case report and Review of literatura. *Urol Ann* 20
6. Bharat, Jasani and Allen Gibbs. Mesothelioma not associated with asbestos exposure. *Arch Pathol Lab Med* 2012; 136.
7. Farioli A, Ottone M, Morganti A et.al. Radiation – induced Mesothelioma among long – term solid cáncer survivors a longitudinal analysis of SEER database. *Cancer Medicine* 2016; 5 (5): 950-959.
8. Goodman J, Nascarella M, Valberg P. Ionizing Radiation: a risk factor for mesothelioma. *Cancer Causes Control* 2009; 20: 1237 – 1254.

9. Akin Y, Bassorgun I, et.al. Malignant mesothelioma of túnica vaginalis: an extremely rare case presenting without risk factors. *Singapore Med J* 2015; 56: e53-e55.
10. Jing – Liang Chen and HsuYung Hsiang. Malignant Mesothelioma of the Tunica Vaginalis Testis: a Case Report and Literature Review. *Kaohsiung J Med Sci* 2009;25: 77-81.
11. Peterson JT Jr, Greenberg SD, Buffler PA. Non-asbestos related malignant mesothelioma. A review. *Cancer* 1984; 54: 951- 960.
12. Yen CH, Lee CT, Su CJ, et.al. Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis testis: a malignancy associated with recurrent epididimitis? *World J Surg Oncol* 2012;10: 238.
13. Menut P, Herve J, et.al. Bilateral malignant mesothelioma of tunica vaginalis. *Prog Urol* 1996; 6: 587-589.
14. Brimo F, Peter BI and Epstein JI. Mesothelioma of the tunica vaginalis: a series of eight cases with uncertain malignant potential. *Modern Pathology* 2010; 23: 1165-1172.
15. Taheri ZM, Mehrafza M, et.al. The diagnostic value of Ki 67 and repp 86 indistinguishing between benign and malignant mesothelial proliferations. *Arch Pathol Lab Med* 2008; 132: 694- 697.
16. Kato Y, Tsuta K, Seki K, et.al. Immunohistochemical detection of GLUT-1 can discriminate between reactive mesothelium and malignant mesothelioma. *Mod Pathol* 2007; 20: 215 – 220.
17. Ramirez Sevilla C, Admella Salvador C, et.al. Two Case Reports of Benign Testicular Mesothelioma and Review of the Literature. *Case Reports in Oncological Medicine* 2017: 1-3.
18. Harmse JL, Evans AT and Windsor PM. Malignant mesothelioma of the tunica vaginalis: a case with an unusually indolent course following radical orchidectomy and radiotherapy. *The British Journal of Radiology* 1999; 72: 502-504.
19. Tan WK, Tan MY, et.al. Well – Differentiated Papillary Mesothelioma of the Tunica Vaginalis: Case Report and Systematic Review of Literature . *Clinical Genitourinary Cancer* 2016: 1-5.