

Cirugía conservadora de parénquima en tumores testiculares

M.R. Ibarra Rodríguez¹, F.J. Murcia Pascual¹, F. Vázquez Rueda^{1,2}, M. de Lucio Rodríguez¹, A. Siu Uribe¹, S.D. Ramnarine Sánchez¹, A. Escassi Gil¹, R.M. Paredes Esteban¹

¹Unidad de Gestión Clínica de Cirugía Pediátrica. Hospital Universitario Reina Sofía. Córdoba.

²Profesor de la Facultad de Medicina. Universidad de Córdoba. Instituto Maimónides de Investigación Biomédica de Córdoba (IMIBIC).

RESUMEN

Objetivos. La orquiectomía ha sido la técnica quirúrgica clásicamente más empleada en tumores testiculares (TT). Sin embargo, en función del tamaño del tumor, marcadores tumorales e histología, se puede considerar la tumorectomía como técnica de elección, ya que en su mayoría se trata de tumores benignos. Presentamos nuestra experiencia en cirugía conservadora.

Material y métodos. Estudio retrospectivo de 21 casos de TT en 19 pacientes menores de 14 años, tratados en nuestro centro entre 1998-2018. Analizamos las siguientes variables: edad, lateralidad, tipo histológico, evolución, existencia o no de recidivas, seguimiento ecográfico y analítico. Revisamos la actitud terapéutica empleada, con énfasis en la posibilidad de preservación testicular en pacientes seleccionados.

Resultados. Se realizó cirugía conservadora en nueve casos de TT tratados que correspondían a siete pacientes (dos bilaterales). La edad media de presentación fue de seis años (0-13 años). El 86% de los casos debutaron como masa escrotal asintomática. No existieron diferencias significativas en cuanto a lateralidad. Los marcadores tumorales fueron negativos antes y después de la intervención, salvo en un lactante con alfafetoproteína elevada, normalizada en el posoperatorio. El estudio histológico diagnóstica 7TT estromales (tres de células de Leydig y uno bilateral de células de Sertoli, un hamartoma y un fibroma) y 2TT de células germinales (quiste epidermoide bilateral). Evolución favorable en todos ellos, sin recidivas clínicas ni ecográficas.

Conclusiones. La cirugía conservadora del parénquima testicular, mediante tumorectomía, puede ser la primera opción terapéutica en tumores benignos y en pacientes seleccionados con tumores bilaterales, con el objetivo de preservar la función hormonal y reproductora futura.

PALABRAS CLAVE: Tumor testicular; Orquiectomía; Cirugía conservadora.

CONSERVATIVE PARENCHYMAL SURGERY IN TESTICULAR TUMORS

ABSTRACT

Objectives. Orchiectomy is the most widely used surgical technique in testicular tumors (TT). However, according to tumor size, tumor markers, and histology, tumorectomy can be considered as the technique of choice, since these tumors are mostly benign. We present our experience with conservative surgery.

Materials and methods. A retrospective study of 21 TT cases in 19 patients under 14 years of age treated in our healthcare facility from 1998 to 2018 was carried out. The following variables were analyzed: age, laterality, histological type, evolution, presence or absence of recurrence, and ultrasound and analytical follow-up. The therapeutic attitude used was reviewed while assessing the possibility of testicular preservation in selected patients.

Results. Conservative surgery was performed in 9 TT cases in 7 patients (2 bilateral cases). Mean age was 6 years (0-13 years). 86% of cases started as an asymptomatic scrotal mass. No significant differences were found in terms of laterality. Tumor markers were negative before and after surgery, except in an infant with high alpha-fetoprotein, which was normalized in the postoperative period. The histological study diagnosed 7 stromal TTs (three Leydig cell stromal TTs, one bilateral Sertoli cell stromal TT, one hamartoma, and one fibroma) and 2 germ cell TTs (bilateral epidermoid cyst). Evolution was favorable in all cases, without clinical or ultrasound recurrence.

Conclusions. Conservative surgery of the testicular parenchyma using tumorectomy can be the first therapeutic option in benign tumors and in selected patients with bilateral tumor, since it allows future hormonal and reproductive function to be preserved.

KEY WORDS: Testicular tumor; Orchiectomy; Conservative surgery.

INTRODUCCIÓN

Los tumores testiculares representan el 1-2% de las neoplasias sólidas en la infancia⁽¹⁾. Su incidencia en la población general es de 0,5-2 por cada 100.000 personas menores de 18 años y ha permanecido relativamente estable en los últimos 30 años^(2,3). Existen dos picos de edad: entre los 2-4 años y después de los 15 años⁽⁴⁾. Suelen ser tumores de buen pronóstico, con un porcentaje de benignidad descrito en la

Correspondencia: Dra. María Rosa Ibarra Rodríguez

E-mail: rosa_ir90@hotmail.com

Recibido: Mayo 2020

Aceptado: Agosto 2020

Tabla I. Resumen de los casos clínicos de nuestra serie.

<i>Edad</i>	<i>Estirpe</i>	<i>Localización</i>	<i>Clínica</i>	<i>Marcadores T antes de la intervención quirúrgica</i>	<i>Imagen ecográfica</i>	<i>Asociaciones</i>	<i>Recidivas y/o atrofia</i>	<i>Marcadores T tras la intervención quirúrgica</i>	<i>Biopsia</i>
13 meses	Hamartoma fibroso	Izquierdo	Masa testicular indolora	Normales	Masa hiperecogénica de 4 cm	No	No	Normales	No
8 años	Tumor de células de Leydig	Izquierdo	Masa testicular indolora	Normales	Masa sugestiva de quiste epidermoide o teratoma	Intervenido de criptorquidia ipsilateral	No	Normales	No
12 años	Tumor de células de Leydig	Derecho	Masa testicular indolora	Normales	ECO lesión focal hipoecoica polo superior teste de 0,7 cm	Herniotomía derecha	No	Normales	No
13 años	Tumor de células de Sertoli	Bilateral	Masa testicular dolorosa y dolor abdominal	Normales	Calcificaciones testiculares bilaterales y lesiones hiperecogénicas 7 y 5 mm	Lentiginosis, ginecomastia, hamartomas en cuero cabelludo, síndrome de Carney	No	Normales	No
9 meses	Fibroma	Izquierdo	Masa testicular indolora	AFP: 10,84 ng/ml BHCG normal	Lesión anecoica 12 x 5 mm	Quiste de rete testis ipsilateral	No	Normales	No
2 años	Teratoma monodérmico maduro	Bilateral	Masa testicular indolora	Normales	Lesión hiperecogénica 3,2 mm heterogénea	Intervenido de hidrocele derecho	No	Normales	Preoperatoria unilateral
2 años	Tumor de células de Leydig	Derecho	Masa testicular indolora, pubertad precoz	Normales	Lesión intratesticular de 10 x 8 mm de ecogenicidad heterogénea	McCune-Albright	No	Normales	No

literatura cercano al 50% y una supervivencia global del 99% a los cinco años⁽⁵⁾.

Suelen ser tumores de baja sintomatología, usándose para el diagnóstico la exploración física, las pruebas de imagen (fundamentalmente la ecografía) y el análisis de marcadores tumorales⁽⁶⁾. La mayoría de los pacientes se encuentran asintomáticos al diagnóstico. Los marcadores más utilizados, para el diagnóstico pero también para el seguimiento, son la alfa fetoproteína (AFP), la subunidad beta de la gonadotropina coriónica humana (b-HCG) y la lactatodeshidrogenasa (LDH).

La orquiectomía radical se ha considerado clásicamente el tratamiento estándar de masas testiculares en todas las edades⁽⁴⁾. Sin embargo, debido al comportamiento benigno de la mayoría de estos tumores, se ha replanteado actualmente la actitud, tendiendo a practicar una resección conservadora de parénquima testicular^(7,8).

El objetivo de nuestro estudio es presentar nuestra experiencia en resecciones conservadoras (tumorectomía) de tumores testiculares primarios en la edad pediátrica.

MATERIAL Y MÉTODOS

Realizamos un estudio retrospectivo de 21 casos de tumores testiculares primarios en pacientes menores de 14 años diagnosticados en nuestro centro en los últimos 20 años (1998-2018).

Se excluyeron del estudio los pacientes en los que se realizó una orquiectomía completa y aquellos que presentaron tumores secundarios o metastásicos.

Se analizaron las siguientes variables: edad al diagnóstico, lateralidad, tipo histológico, evolución, existencia o no de recidivas, seguimiento ecográfico y analítico (normalización o no de marcadores tumorales tras la intervención).

En todos los casos, el abordaje quirúrgico fue por vía inguinal, exteriorizando el testículo y realizando clampaje atraumático del cordón espermático para evitar el sangrado y la diseminación tumoral. Se practicó tumorectomía con control ecográfico intraoperatorio y marcaje de las lesiones con aguja hipodérmica para localizar la lesión. Los datos de edad y seguimiento se expresan como mediana con su rango.

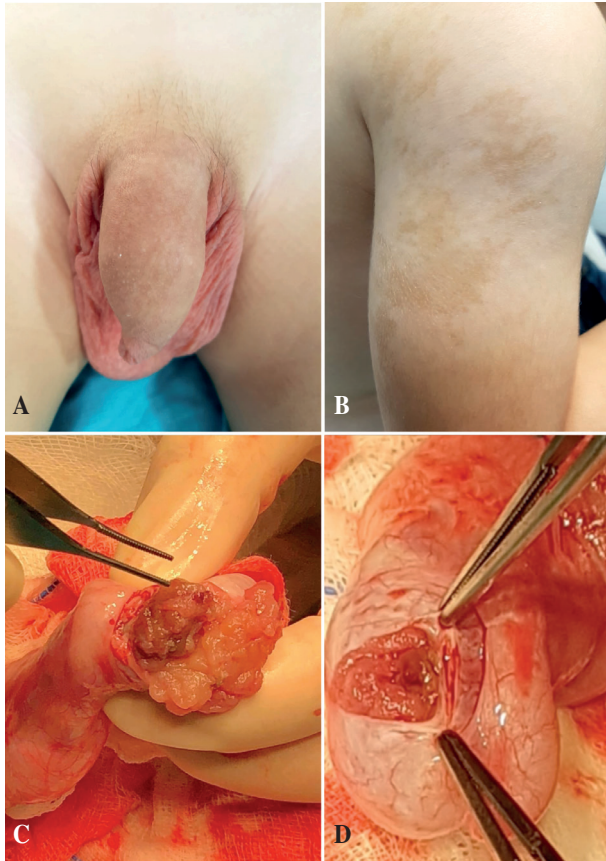


Figura 1. Cirugía conservadora de tumor testicular (tumor de células de Leydig) en paciente con signos de pubertad precoz y manchas café con leche diagnosticado de síndrome de McCune-Albright. A) Pubarquia incipiente, signo de pubertad precoz. B) Manchas café con leche. C) Imagen intraoperatoria. D) Tumorectomía.

RESULTADOS

La mediana de edad fue de 26 meses (9 meses-13 años). Todos los pacientes debutaron con masa escrotal asintomática, salvo uno que presentó una masa testicular dolorosa asociada a dolor abdominal. Tres tumores se localizaron en el testículo izquierdo, dos en el derecho y dos fueron bilaterales (Tabla I).

Dos presentaron síntomas típicos de síndromes concretos. Uno de ellos lentiginosis, ginecomastia, hamartomas en cuero cabelludo y fracturas frecuentes compatible con síndrome de Carney. El otro debutó con signos de pubertad precoz y manchas café con leche, siendo diagnosticado de síndrome de McCune-Albright (Fig. 1). Otras patologías asociadas en la serie fueron una criptorquidia, una hernia inguinal, un hidrocele y un quiste de rete testis (todas ipsilaterales).

Tras la exploración física, se realizó ecografía testicular en todos los casos, salvo en el primer paciente de la serie, al que se realizó, además, una resonancia magnética (RMN) tras la ecografía por duda diagnóstica. En la ecografía se describió una lesión intratesticular de ecogenicidad heterogénea de pre-

dominio hiperecogénico. En el caso de la RMN observamos realce del contraste en la lesión.

Se encontraron en todas las intervenciones tumores bien delimitados con parénquima de aspecto normal circundante que se preservó. Tras la tumorectomía, se procedió a reconstruir el testículo remanente con sutura de la albugínea y a su fijación a la vaginal y al dartos.

En uno de los pacientes el hallazgo fue incidental durante la intervención por hidrocele derecho. La biopsia del tumor obtuvo un diagnóstico anatomopatológico de teratoma monodérmico maduro, evidenciando en la ecografía una lesión similar en testículo contralateral. Se realizó tumorectomía bilateral con el mismo diagnóstico anatomopatológico final.

El estudio histológico diagnosticó 7TT estromales (tres de células de Leydig y uno bilateral de células de Sertoli, un hamartoma y un fibroma) y 2TT de células germinales: quiste epidermoide bilateral (teratoma monodérmico maduro).

Los marcadores tumorales empleados fueron la alfa-fetoproteína (AFP) y la subunidad beta de la gonadotropina coriónica humana (b-HCG). Ambos fueron negativos tanto antes de la intervención como durante el seguimiento posterior.

Un paciente presentó hipoplasia testicular ipsilateral previa a la intervención. Ninguno de ellos presentó atrofia testicular posquirúrgica. Otro de los pacientes presentó calcificaciones bilaterales asociadas a tumor de células de Sertoli.

Durante el seguimiento (tiempo medio de 5 años), se realizaron ecografías de control al mes, a los 3 y 6 meses y posteriormente anual. Ningún paciente presentó recidivas ecográficas ni analíticas, ni metástasis locales ni a distancia.

DISCUSIÓN

Los tumores testiculares constituyen una patología muy poco frecuente en la edad pediátrica⁽⁸⁾. Su clínica es anodina, tal y como demuestra nuestra serie, en la que la forma de presentación en todos los casos excepto en uno fue la masa palpable asintomática, lo que coincide con los hallazgos de otros estudios^(4,7,9).

Se han descrito factores de riesgo asociados al desarrollo de TT en todas las edades, como son: antecedentes de criptorquidia, síndrome de Klinefelter, antecedentes de cáncer de testículo en familiares de primer grado y presencia de tumor contralateral entre otros⁽⁴⁾. En nuestro estudio un paciente había sido intervenido previamente de criptorquidia ipsilateral.

Respecto a la estirpe histológica, en la literatura encontramos mayor frecuencia de tumores de células germinales: teratomas, tumores del saco vitelino y quistes epidermoides^(10,11). En nuestra serie solo el 22% de los TT fueron de origen germinal (un paciente con teratoma monodérmico maduro bilateral), tal y como ocurre en la serie estudiada por Bujons et al., cuyo porcentaje es del 33%⁽⁹⁾. Los tumores germinales presentan una incidencia en pacientes prepúberes del 0,5% y del 14% en pacientes adolescentes.

El teratoma tiene una edad de presentación media de 13 meses (en nuestra serie, un único caso bilateral de 24 meses de edad). Aproximadamente un 15% tienen elementos inmaduros, que no implican necesariamente peor pronóstico. Los tumores de origen estromal son benignos en la edad pediátrica, pero se han descrito tumores de células de Sertoli malignos en los adultos. Es por ello que se ha sugerido **tratamiento con orquiectomía** en estos últimos⁽⁹⁾. Los tumores de células de Sertoli se asocian a síndromes u otras alteraciones endocrinológicas (síndrome de Peutz-Jeghers, el complejo de Carney, la enfermedad de Cushing, adenomas hipofisarios, etc.)⁽⁴⁾. El tumor de células de Leydig se presenta entre los 5-10 años (siete años de media en nuestra serie), con pubertad precoz y el tratamiento es la tumorectomía⁽¹³⁾. Observamos un caso en nuestra serie que fue diagnosticado de síndrome de McCune-Albright.

Según Taskinen et al., el 68% de sus pacientes en edad prepuberal tienen un tumor benigno, y después de la pubertad la proporción de tumores benignos disminuye al 38%⁽¹³⁾. Las metástasis tienen lugar en el 61% de los adultos y solo en el 9% en los niños, si bien en nuestra serie ningún paciente presentó metástasis ni falleció⁽¹⁴⁾.

Los marcadores tumorales son útiles tanto en el diagnóstico como en el seguimiento de estas lesiones^(15,16). De hecho, en protocolos norteamericanos y europeos, la negatividad de los mismos es criterio indispensable para considerar la cirugía conservadora^(15,17). Los niveles de AFP pueden estar elevados de manera fisiológica en recién nacidos hasta los primeros seis meses de vida, y también en niños con disfunción hepática⁽⁹⁾. No es el caso en nuestra serie.

Aunque por edad y frecuencia el tumor sospechado sea benigno, algunos grupos realizan biopsia por congelación intraoperatoria para confirmar su benignidad¹⁹. En nuestra serie solo se realizó biopsia pretumorectomía en el paciente en el que el hallazgo del tumor fue incidental.

La atrofia testicular y la recidiva local son las complicaciones potenciales de este tipo de intervención. Ahmed et al. señalaron la ausencia de atrofia testicular en su serie tras la realización de tumorectomías en teratomas testiculares²⁰. Asimismo, Weissbach et al. publicaron en 1984 los casos de dos pacientes con teratoma tratados mediante enucleación sin evidencia de recurrencia ni atrofia testicular tras 10 años de seguimiento⁽¹⁰⁾. En nuestra serie y hasta el momento, no se ha detectado atrofia testicular en ningún paciente, como tampoco ninguno ha sufrido recidiva local tras un seguimiento medio de cinco años.

Hasta 1980, todos los tumores testiculares se presumían malignos, por lo que el manejo era, casi sin excepción, la orquiectomía radical⁽²⁰⁾. En las últimas décadas se ha reevaluado el abordaje terapéutico de las masas testiculares en niños, debido a la preponderancia de la enfermedad benigna en la etapa prepuberal^(19,21). Esto, acompañado de la baja probabilidad de recurrencia local y de extensión, ha hecho que la tumorectomía sea un tratamiento a considerar en este grupo de edad, ya que es una técnica que permite la preser-

vación de células de Leydig y de los túbulos seminíferos para su función.

Por ello, y a pesar de que nuestro trabajo presenta evidentes limitaciones por su carácter unicéntrico y retrospectivo, sugerimos que se puede realizar un tratamiento conservador mediante tumorectomía en pacientes con masa testicular palpable y marcadores tumorales negativos. No obstante, esta intervención debe realizarse en un centro con experiencia, extirpando por completo la lesión para evitar recurrencias.

BIBLIOGRAFÍA

1. Treiyer A, Blanc G, Stark E, Haben B, Treiyer E, Steffens J. Prepubertal testicular tumors: Frequently overlooked. *J Pediatr Urol.* 2007; 3: 480-3.
2. Albers P, Albrecht W, Algaba F, Bokemeyer C, Cohn-Cedermarck G, Fizazi K, et al. EAU guidelines on testicular cancer. *Eur Urol.* 2015; 68: 1054-68.
3. Caballero Mora FJ, Muñoz Calvo MT, García Ros M, Rodríguez de Alarcón J, Fernández Pérez ML, Casco F, et al. Tumores testiculares y paratesticulares en la infancia y adolescencia. *An Pediatr (Barc).* 2013; 78: 6-13.
4. Romo Muñoz MI, Núñez Cerezo V, Dore Reyes M, Vilanova Sánchez A, González-Peramato P, López Pereira P, et al. Tumores testiculares en la edad pediátrica: indicaciones de la cirugía conservadora. *An Pediatr (Barc).* 2018; 55(5): 253-8.
5. Trama A, Mallone S, Nicolai N, Necchi A, Schaapveld M, Gietema J, et al. Burden of testicular, paratesticular and extragonadal germ cell tumours in Europe. *Eur J Cancer.* 2012; 48: 156-69.
6. Walsh TJ, Grady RW, Porter MP, Lin DW, Weiss NS. Incidence of testicular germ cell cancers in U.S. children: SEER program experience 1973 to 2000. *Urology.* 2006; 68: 402-5.
7. Wang X, Xu S, Tang D, Li M, Wu D, Huang Y. Prepubertal testicular and paratesticular tumors in China: A single-center experience over a 10-year period. *J Pediatr Surg.* 2012; 47: 1576-80.
8. Murcia Pascual FJ, Gracia-Rodríguez R, Vázquez Rueda F, López Pereira P, Paredes Esteban RM. Tumores testiculares y paratesticulares en la edad pediátrica. *Arch Esp Urol.* 2016; 69: 691-7.
9. Bujons A, Sfulcini JC, Pascual M, Feu OA, Garat JM, Villavicencio H. Prepubertal testicular tumours and efficacy of testicular preserving surgery. *BJU Int.* 2011; 107: 1812-6.
10. Weissbach L, Schaefer C. Organ erhaltende Hodentumorchirurgie [Organ-sparing surgery for testicular tumors] [published correction appears in *Urologe A.* 2008; 47: 809-17].
11. Alane S, Shukla A. Paediatric testicular cancer: an updated review of incidence and conditional survival from the Surveillance, Epidemiology and End Results database. *BJU Int.* 2009; 104: 1280-3.
12. Karaman MI, Gonzales Jr ET. Splenogonadal fusion: report of 2 cases and review of the literature. *J Urol.* 1996; 155: 309-11.
13. Taskinen S, Fagerholm R, Aronniemi J, Rintala R, Taskinen M. Testicular tumors in children and adolescents. *J Pediatr Urol.* 2008; 4: 134-7.
14. Maizlin II, Dellinger M, Gow KW, Goldin AB, Goldfarb M, Nuchtern JG, et al. Testicular tumors in prepubescent patients. *J Pediatr Surg.* 2018; 53: 1748-52.

15. Ross JH, Rybicki L, Kay R. Clinical behavior and a contemporary management algorithm for prepubertal testis tumors: a summary of the Prepubertal Testis Tumor Registry. *J Urol.* 2002; 168(4 Pt 2): 1675-8.
16. Skoog SJ. Benign and malignant pediatric scrotal masses. *Pediatr Clin North Am.* 1997; 44: 1229-50.
17. Cushing B, Perlman E. y cols. Germ cell tumors. En: Pizzo P y Poplack D, eds. *Principles and practice of pediatric Oncology.* 4ª ed. Philadelphia: Lippincott, Williams and Wilkins publishers; 2001.
18. Metcalfe PD, Farivar-Mohseni H, Farhat W, McLorie G, Khoury A, Bagli DJ. Pediatric testicular tumors: Contemporary incidence and efficacy of testicular preserving surgery. *J Urol.* 2003; 170 6Pt 1: 2412-5.
19. Ahmed HU, Arya M, Muneer A, Mushtaq I, Sebire NJ. Testicular and paratesticular tumours in the prepubertal population. *Lancet Oncol.* 2010; 11: 476-83.
20. Valla JS. For the group d'Etude en Urologie Pédiatrique: Testis-sparing surgery for benign testicular tumors in children. *J Urol.* 2000; 165: 2280-3.
21. Hoag NA, Afshar K, Youssef D, Masterson JST, Murphy J, MacNeily AE. Cystic intratesticular lesions in pediatric patients. *J Pediatr Surg.* 2013; 48: 1773-7.