

PRESENTACIONES POCO USUALES EN CÁNCER DE TESTÍCULO: REPORTE DE 2 CASOS

Diana Chamorro^{1*}, Erika Pavón¹, Sonia Acuña²



Este artículo está bajo una licencia de Creative Commons de tipo Reconocimiento - No comercial - Sin obras derivadas 4.0 International.

OPEN ACCESS

1 Universidad Central del Ecuador. Facultad de Ciencias Médicas. Posgrado Oncología Clínica. Quito - Ecuador.

2 Hospital de Especialidades Eugenio Espejo. Servicio de Oncología Clínica. Quito - Ecuador.

ORCID ID:

Diana Chamorro
[orcid.org/ 0000-0003-1707-3313](https://orcid.org/0000-0003-1707-3313)
 Erika Pavón
[orcid.org/ 0000-0002-8745-101X](https://orcid.org/0000-0002-8745-101X)
 Sonia Acuña
[orcid.org/ 0000-0003-3893-8101](https://orcid.org/0000-0003-3893-8101)

***Corresponding author:** Acuña Sonia
E-mail: svacuna@uce.edu.ec

Received: 29 - Feb - 2024
Accepted: 23 - Dic - 2024
Publish: 01 - Jan - 2025

CARE 2017 Check List statement: The authors have read the CARE 2017 Check List and the manuscript was prepared and revised according to the CARE 2017 Checklist.

Conflict of interest: The authors were free to prepare the manuscript and there were no potential conflicts of interest.

Financial disclosure: The authors have no financial relationships relevant to this article to disclose.

CRedit - Contributor Roles

Taxonomy: : Conceptualización: DC, EP, SA, Curación de datos, Análisis formal Investigación, Metodología: DC, EP, Supervisión y Validación: SA, Redacción, revisión y edición: todos los autores



DOI: 10.48018/RMVv35i24

Forma de citar este artículo: Chamorro D, Pavon E, Acuña S. PRESENTACIONES POCO USUALES EN CÁNCER DE TESTÍCULO: REPORTE DE 2 CASOS. Rev Med Vozandes. 2024; 35 (2):-

Resumen

Los tumores testiculares se clasifican en derivados de células germinales y no germinales, siendo los segundos los menos frecuentes, dentro de los cuales se encuentra los teratomas post puberales, como tipo histológico poco frecuente por lo que presentamos un caso donde describimos el proceso diagnóstico y el tratamiento con resección quirúrgica completa. En raros casos, el tumor maligno primario no se encuentra, siendo diagnosticado por una metástasis, que en el caso de cáncer testicular configura el llamado: testículo quemado de células germinales, para lo que se recomienda, además de la cirugía, manejo con quimioterapia, de lo que reportamos un caso. En esta publicación se revisan estas dos formas de tumores testiculares poco frecuentes para aportar a la literatura sobre la experiencia y guiar para futuros pacientes.

Palabras clave: teratoma testicular, testículo quemado, cáncer de testículo, caso clínico

ABSTRACT

UNUSUAL PRESENTATIONS IN TESTICULAR CANCER: REPORT OF 2 CASES

Testicular tumors are classified as derived from germ cells and non-germ cells, the latter being the least frequent, among which are post-pubertal teratomas, being a rare histological type, so we present a case where we describe the diagnostic process and treatment with surgery for complete resection. In rare cases, the primary tumor is not found, being diagnosed by a metastasis, which in the case of testicular cancer constitutes the so-called: burned testicle of germ cells, for which it is recommended, in addition to surgery, management with chemotherapy as we report a case. In this publication, these two forms of rare testicular tumors are reviewed to contribute to the literature on experience and guide future patients.

Keywords: testicular teratoma, burned out testicle cancer, testicular cancer, case report

INTRODUCCIÓN

El cáncer de testículo es el tumor sólido más común en hombres jóvenes, de entre 20 a 40 años; aunque representa sólo el 1% de todos los cánceres en dicho sexo. La incidencia de esta patología ha ido en constante aumento, sobretodo en los últimos 30 años y presenta una tasa de supervivencia a 5 años excelente, alrededor del 95%¹.

Dentro de la clasificación, el cáncer de testículo se divide en tumores de células germinales y células no germinales. Los tumores de células no germinales corresponden a menos del 5% de casos e incluyen los sub tipos histológicos: espermático, derivados del saco de Yolk pre puberal y teratoma pre puberal. Los derivados de las capas germinales se dividen en tumores seminomatosos, no seminomatosos, misceláneos y mixtos².

El tumor quemado o "burn out" se refiere a un tumor retroperitoneal seminomatoso pero de origen testicular, a pesar de que no se detecta tumor en el estudio anatomopatológico de las gónadas, hay significativas alteraciones en ambos testículos, tanto ecográficas como anatomopatológicas. Su presentación es anecdótica y su diagnóstico requiere un estudio exhaustivo para cumplir los criterios indicados³.

El tratamiento inicial de esta patología depende de varios factores, entre ellos la histología y la extensión del tumor, e incluye cirugía, quimioterapia y radioterapia. De entrada todos los pacientes deben someterse a una orquiectomía radical por vía inguinal como parte del diagnóstico y tratamiento, posteriormen-

te se valora dependiendo el caso, la disección de ganglios retroperitoneales (RPLND) .

El objetivo de esta revisión es presentar dos casos poco frecuentes de cáncer de testículo como son teratoma post puberal y cáncer de testículo quemado o "burned out", describiendo el proceso diagnóstico y tratamientos empleados, aportando a la literatura científica y que sirvan como referencia para futuros casos.

DESCRIPCIÓN DE CASOS CLÍNICOS

Caso clínico 1

Paciente masculino de 16 años, nacido en Pasto – Colombia, residente en Ambato – Ecuador, con antecedentes de testículo en ascensor derecho, presenta, luego de trauma, crecimiento testicular progresivo de 6 meses de evolución. Se somete el 10/12/2021 a orquiectomía derecha inguinal alta cuyo histopatológico reporta: tumor de células germinales con predominio de teratoma inmaduro (corresponde a tipo post puberal); tejido neural 80%, tejido maduro 20%, unifocal de 11x8x6 cm, con invasión linfovascular y microcalcificaciones.



Gonadotropina coriónica humana fracción beta (BHCG)
Lactato deshidrogenasa (LDH)
Alfa feto proteína (AFP)

Tabla 1: Línea de tiempo de la enfermedad caso clínico 1.

Fuente: Elaborado por los autores.

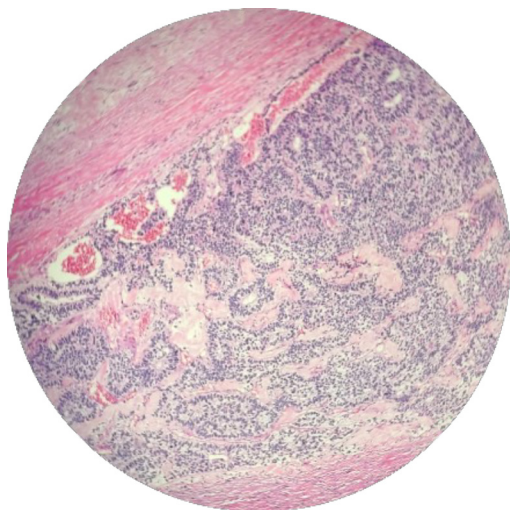


Figura 1. Teratoma testicular con invasión linfovascular.

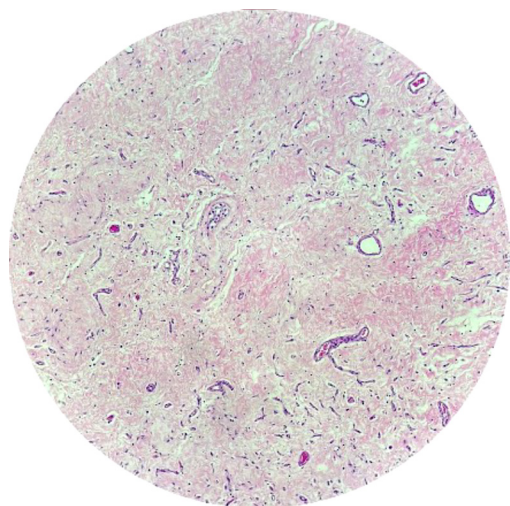


Figura 2. Hialinización extensa en parénquima testicular con túbulo seminífero atrófico remaneciente en el centro.

Se realizan estudios de estadificación con tomografía corporal simple y contrastada en donde se evidencia la presencia de varios ganglios para ilíacos derechos redondeados, el de mayor tamaño de ubicación retrocecal, presenta diámetro corto de 13 mm. Gonadotropina coriónica humana fracción beta (BHCG) menor a 0.001 mIU/ml, lactato deshidrogenasa (LDH) 144 U/L y alfa feto proteína (AFP) 1.24 ng/ml. Se diagnostica de cáncer de testículo estadio clínico IIB S0 no seminomatoso tipo teratoma post puberal. Tomografía de seguimiento muestra lesión retroperitoneal de 3 cm, se solicita biopsia de pacien-

te rechaza, así como nueva cirugía planteada para resección de ganglios retroperitoneales y otro tratamiento. Se encuentra pendiente cariotipo de la masa tumoral; examen no cubierto por sistema de salud y paciente tampoco puede pagarlo. Al momento, con una sobrevida desde la cirugía de 30 meses, sin evidencia de progresión en tomografía, marcadores tumorales negativos, asintomático; se mantiene en vigilancia activa para evaluar actividad de enfermedad siguiendo criterios Recist 1.1. **Tabla 1 y figura 1**

Caso clínico 2

Paciente masculino de 25 años, nacido en Esmeraldas y residente en Quito, sin antecedentes de importancia. Evaluado por primera vez en enero del 2022 por presentar aumento de tamaño de testículo izquierdo de 8 meses de evolución, secundario a trauma a nivel testicular. En tomografía se evidencia masa a nivel retroperitoneal, sólida, homogénea que mide 14.6 cm de diámetro transversal por 16.9 cm de diámetro craneocaudal y 7.3 cm de diámetro anteroposterior, que rodea completamente a la aorta abdominal y desplaza lateralmente la vena cava inferior, causando obstrucción del sistema urinario. En ecografía testicular se reporta testículo izquierdo incrementado de tamaño, mide 5.4x4.1 cm, con proceso ocupativo hipocogénico, de borde anterior mal definido, mide 3.1x1.2 cm. Tiene BHCG 1207 mIU/ml, LDH 8475 U/L y AFP 3.63 ng/ml. Se somete a orquiectomía izquierda con reporte histopatológico: cicatriz fibrosa intratesticular, compatible por hallazgos a testículo "quemado". Se realizan marcadores tumorales post orquiectomía que reportan BHCG en 1127 mIU/ml, LDH en 6340 U/L y AFP en 3.01 ng/ml. Posteriormente, se realiza biopsia de masa retroperitoneal, cuyo resultado indica tumor de células germinales, seminoma. Se cataloga como cáncer de testículo quemado estadio clínico IIC (T0,N3,M0 S1), de riesgo intermedio, recibió quimioterapia 2 ciclos con esquema PEB (cisplatino 20 mg/m², etopósido 100 mg/m² y bleomicina 30 UI) cada 21 días y 2 ciclos con esquema EP (etopósido 100 mg/m² y cisplatino 20 mg/m²) de marzo a agosto 2022 con buena tolerancia. Se realiza TAC en octubre 2022 con lesión persistente de 7x2.5 cm, se cataloga como respuesta parcial y se planifica cirugía de tumor retroperitoneal. Fue evaluado por cirugía oncológica quienes realizan biopsia de masa retroperitoneal en enero del 2023, resultado histopatológico reporta seminoma. Se decide radioterapia, sin embargo, por demora para recibir dicho tratamiento, se administra nueva línea de quimioterapia con gemcitabina (1000 mg/m²) y cisplatino (70 mg/m²) por 6 ciclos, que recibió desde mayo del 2023 hasta octubre 2023,



Gonadotropina coriónica humana fracción beta (BHCG)
Lactato deshidrogenasa (LDH)
Alfa feto proteína (AFP)
Cisplatino, etopósido y bleomicina (PEB)
Gemcitabina, cisplatino (GEMCIS)

Tabla 2: Línea de tiempo de la enfermedad caso clínico 2.

Fuente: Elaborado por los autores.

sin reporte de toxicidad. Último control en julio del 2024, paciente asintomático, marcadores tumorales negativos, estudio tomográfico reporta lesión retroperitoneal de 2x1 cm, permanece en controles. **Tabla 2** y **figura 2**.

DISCUSIÓN

La palabra teratoma tiene su origen en el vocablo griego "teras" que significa monstruo, considerado así por su conformación que suele incluir diferentes tejidos como estructuras pilosebáceas, glándulas sudoríparas, epitelio respiratorio, tejido glandular tiroideo o hipofisario, músculo liso y cartílago; en su presentación ovárica se suele mostrar con alto grado de maduración, sin embargo, en los testiculares se ve una disposición más desordenada con atipia citológica significativa. En estudios de cariotipo del tumor, se puede encontrar hiperdiploidías e hipotriploidías con anomalías citogenéticas complejas que incluyen amplificación invariable de 12p, a menudo en forma de isocromosoma [i (12p)]². En nuestro paciente, se encontró tejido neural y otros tipos maduros, lo que es menos frecuente

según lo descrito en la literatura. No contamos con el cariotipo.

En el caso expuesto, la edad de presentación está acorde a la literatura descrita, con clínica de crecimiento testicular y sin elevación de marcadores tumorales, lo cual también corresponde con la bibliografía revisada⁵. Oruc y colaboradores en 2020 realizaron un estudio de 243 tumores testiculares de los cuales el 4.5% correspondieron a teratomas⁶ lo que confirma lo poco frecuente de nuestro caso. De los casos reportados en la literatura, de forma similar al nuestro, García-Morúa et al en 2008 reportó un caso de tumor germinal mixto con predominio de teratoma inmaduro con 80% de malignización a tumor neuroendocrino en un paciente de 17 años³, así como Rodríguez - Pastoriza y colaboradores reportaron en 2021 un caso de teratoma maligno con elementos atípicos e inmaduros, con marcadores tumorales negativos, en un paciente de 22 años⁴.

En cuanto a tratamiento, la cirugía con resección completa es el estándar por la característica de quimio radio resistencia de esta estirpe tumoral, lo que también define el pronóstico⁹, en nuestro paciente se realizó una resección completa del tumor primario, sin embargo, no se ha establecido si la imagen retroperitoneal corresponde a una metástasis dado que ha rechazado cualquier tipo de nueva intervención clínica y quirúrgica.

En relación con el paciente con tumor testicular quemado "burn out", una patología inusual de la cual existe escasa bibliografía, la mayoría de información deriva de reportes de casos, desde su reconocimiento en 2016 en la Clasificación de la OMS (Organización Mundial de la Salud) de los Tumores del Sistema Urinario y de los Órganos Genitales Masculinos⁵. El cáncer de testículo con tumor quemado se caracteriza por la regresión total o parcial del tumor primario sin intervención y por lo general se presenta con metástasis a distancia a nivel retroperitoneal o mediastínico⁶. Los 2 principales mecanismos probables son, una respuesta inmunológica mediada por linfocitos T citotóxicos que reconocen antígenos tumorales y destruyen células neoplásicas y una respuesta isquémica secundaria al bajo suministro de sangre. Adicionalmente existe la teoría de la producción de anticuerpos cuando los seminomas se vuelven metastásicos⁷.

En los testículos de los casos publicados y agrupados en una revisión de Iannantuono y colaboradores publicada en 2021, con 68 casos, típicamente se evidencia una cicatriz fibrosa, espermatogénesis reducida y micro litiasis, de forma similar a nuestro paciente. Los hallazgos patológicos específicos y diagnósticos según la OMS incluyen el infiltrado linfoplasmocitario inflamatorio, hialinización tubular, aumento de la vascularización, hemosiderina y calcificaciones gruesas, siendo patognomónico la presencia de neoplasia germinal in situ y las calcificaciones intratubulares¹⁰.

El manejo de esta patología es similar al resto de los tumores de células germinales primarios, cuya conducta inicial es la orquiectomía, con o sin quimioterapia o radioterapia adyuvante en la enfermedad localizada y quimioterapia en la enfermedad avanzada¹⁴ como lo realizado en nuestro paciente, en quien se empleó el esquema PEB. Durante la espera de trata-

miento de radioterapia, debido a la demora, se decidió instaurar un nuevo esquema de quimioterapia con esquema gemcitabina cisplatino; si bien este tratamiento se usa para pacientes con recaída o con enfermedad refractaria a platinos, se decidió usarlo en este caso por la razón expuesta¹⁵. Paciente con buena respuesta clínica y radiológica a dicho esquema, se mantiene en controles.

Se han revisado los casos de dos pacientes con tumores testiculares poco frecuentes: teratoma post puberal en quien se describe el manejo quirúrgico como herramienta fundamental que mejora la sobrevida, como lo visto en nuestro paciente y tumor testicular quemado sometido a cirugía del tumor metastásico y testicular (sin evidencia de primario) que lleva al diagnóstico, seguido por un manejo guiado por su estirpe seminomatosa con buena respuesta.

CONCLUSIONES

El cáncer de testículo tiene varias variantes histopatológicas que requieren diferente comportamiento terapéutico. En este artículo se mencionaron a dos casos clínicos del Hospital de Especialidades Eugenio Espejo, Quito – Ecuador, con dos variantes poco frecuentes; el teratoma inmaduro y el conocido como testículo "quemado" o "burn out". Es importante entender los diferentes subtipos de cáncer de testículo para poder ofertar el mejor tratamiento.

AGRADECIMIENTOS

Agradecimiento a la Dra Paula Rivas, médico patólogo del Hospital de Especialidades Eugenio Espejo, por su contribución con las fotos de las placas del caso expuesto previamente.

REFERENCIAS

- Gaddam SJ, Chesnut GT. Testicle Cancer. [Updated 2023 May 27]. In: StatPearls [Internet]. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing; 2024 Jan-. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK563159/>
- Williamson SR, Delahunt B, Magi-Galluzzi C, Algaba F, Egevad L, Ulbright TM, et al. The World Health Organization 2016 classification of testicular germ cell tumours: a review and update from the International Society of Urological Pathology Testis Consultation Panel. *Histopathology*. 2017 Feb;70(3):335-346. doi: 10.1111/his.13102. Epub 2016 Dec 14. PMID: 27747907.
- Mola Arizo MJ, Gonzalvo Pérez V, Torregrosa Maicas MD, Navarro Antón JA, Gómez-Ferrer Lozano A, Estany Pérez A, et al. Tumor testicular bilateral "quemado" ("burn out") [Burn out bilateral testicular tumor]. *Actas Urol Esp*. 2005 Mar;29(3):318-21. Spanish. PMID: 15945261.
- McHugh DJ, Gleeson JP, Feldman DR. Testicular cancer in 2023: Current status and recent progress. *CA Cancer J Clin*. 2024 Mar-Apr;74(2):167-186. doi: 10.3322/caac.21819. Epub 2023 Nov 10. PMID: 37947355.
- Farci F, Shamsudeen S. Testicular Teratoma. 2023 Apr 23. In: StatPearls [Internet]. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing; 2024 Jan-. PMID: 33620805.
- Oruc Z, Ebinç S, Kaplan MA. Rare Tumours of the Testis: Twelve Years of Experience. *Prague Med Rep*. 2020;121(3):181-193. doi: 10.14712/23362936.2020.17. PMID: 33030147.
- García-Morúa A, Mendoza-Lucio LA, Gutiérrez-García JD, et al. Tumor germinal mixto con predominio de teratoma inmaduro y malignización a tumor neuroectodérmico primitivo: reporte de un caso. *Rev Mex Urol*. 2008;68(4): 234-236.
- Rodríguez-Pastoriza R, De-Zayas-Pelegrín L, Socorro-Palomino D. Presentación de un caso de teratoma testicular. *Revista Cubana de Urología [Internet]*. 2021 [citado 17 Feb 2024]; 10 (3) Disponible en: <https://revurologia.sld.cu/index.php/rcu/article/view/717>
- Patrikidou A, Cazzaniga W, Berney D, Boormans J, de Angst I, Di Nardo D, et al. European Association of Urology Guidelines on Testicular Cancer: 2023 Update. *Eur Urol*. 2023 Sep;84(3):289-301. doi: 10.1016/j.eu-

- uro.2023.04.010. Epub 2023 May 12. PMID: 37183161.
- 10 Humphrey PA, Moch H, Cubilla AL, Ulbright TM, Reuter VE. The 2016 WHO Classification of Tumours of the Urinary System and Male Genital Organs-Part B: Prostate and Bladder Tumours. *Eur Urol*. 2016 Jul;70(1):106-119. doi: 10.1016/j.eururo.2016.02.028. Epub 2016 Mar 17. PMID: 26996659.
 - 11 McQueen TS, Dyer RB. The "burnt-out" testicular (Azzopardi) tumor. *Abdom Radiol (NY)*. 2019 Feb;44(2):800-801. doi: 10.1007/s00261-018-1760-4. PMID: 30159594.
 - 12 Simon MA, Iyer S, Goyal G, Chhabra S. Rare Presentation of Burned-Out Testicular Seminoma. *Radiol Case Rep*. 2020 Jul 16;15(9):1650-1653. doi: 10.1016/j.radcr.2020.06.055. PMID: 32695250; PMCID: PMC7365895.
 - 13 Iannantuono GM, Strigari L, Roselli M, Torino F. A scoping review on the "burned out" or "burnt out" testicular cancer: When a rare phenomenon deserves more attention. *Crit Rev Oncol Hematol*. 2021 Sep;165:103452. doi: 10.1016/j.critrevonc.2021.103452. Epub 2021 Aug 9. PMID: 34384861.
 - 14 NCCN Clinical Practice Guidelines in Oncology (NCCN Guidelines), Testicular Cancer [Internet]. 2024 [citado 17 Feb 2024]. Disponible en: https://www.nccn.org/professionals/physician_gls/pdf/testicular
 - 15 Oldenburg J, Berney DM, Bokemeyer C, Climent MA, Daugaard G, Gietema JA, et al. Testicular seminoma and non-seminoma: ESMO-EURACAN Clinical Practice Guideline for diagnosis, treatment and follow-up. *Ann Oncol [Internet]*. 2022;33(4):362-75. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1016/j.annonc.2022.01.002>