

Artículo de Revisión

Criptorquidia bilateral y cáncer testicular. Presentación de un caso.

Bilateral cryptorchidism and testicular cancer. A case report

Dr. Hugo Ojeda Fiore¹, Dr. Blas Antonio Medina Ruíz², Dr. Darío Villalba³, Dr. Carlos Coronel⁴, Dr. Walter Cáceres⁵

Institución: Instituto Nacional del Cáncer (INC).

1) Cirujano de Staff- INC. Médico agregado de la Cátedra de Anatomía descriptiva, topográfica y funcional de la Facultad de Ciencias Médicas. UNA

2) Cirujano de Staff- INC. Médico agregado de la Cátedra de Anatomía descriptiva, topográfica y funcional de la Facultad de Ciencias Médicas. UNA.

3) Médico residente de 4º año del Departamento de Oncología clínica- INC.

4) Médico residente de 4º año del Departamento de Cirugía Oncológica- INC.

5) Jefe del Departamento de Cirugía- INC. Autor responsable: Dr. Hugo Ojeda. E-mail: bamci@hotmail.com

RESUMEN

Introducción: La criptorquidia o testículo no descendido (TND) es la malformación más frecuente que afecta a los genitales externos masculinos y el factor etiológico más conocido de cáncer testicular. El tratamiento quirúrgico recomendado en el adulto es la orquidectomía, puesto que la orquidopexia no previene el cáncer.

Objetivo: Mostrar la relación entre criptorquidia en el adulto y cáncer testicular. Determinar la conducta más adecuada ante estas dos entidades.

Material y Método: Descriptivo retrospectivo. Breve revisión bibliográfica del tema.

Presentación del caso: Paciente masculino con antecedente de criptorquidia bilateral, que consulta por una masa y dolor en hipogastrio. Tanto la Ecografía como la tomografía computada informan un tumor retroperitoneal y ausencia del riñón derecho. Los marcadores tumorales dentro de cifras consideradas normales. Es sometido a cirugía realizándose exéresis de ambos testículos. El informe de anatomía patológica revela el diagnóstico de seminoma en la glándula tumoral y atrofia en el otro. Recibe adyuvancia con quimioterapia. Buena evolución y buena respuesta al tratamiento con un seguimiento de 10 meses hasta la fecha, con ausencia de enfermedad.

Discusión: La criptorquidia es una entidad frecuente en la clínica pediátrica, generalmente es unilateral. Cuando es bilateral puede acompañarse de otras malformaciones genitourinarias, entre estas la agenesia renal. La orquidopexia no disminuye el riesgo de malignización de la glándula, pero mejora el pronóstico al permitir un diagnóstico más temprano y solo tiene la posibilidad de conservar la fertilidad si se realiza antes de los dos años de edad. El tratamiento de elección en el adulto es la orquidectomía, ya sea por cirugía convencional como laparoscópica. El diagnóstico del cáncer testicular es clínico y puede apoyarse en estudios complementarios como ecografía, tomografía, y marcadores tumorales, que no son concluyentes pero orientativos de extensión y variedad histológica respectivamente. El seminoma es el tumor más frecuente. La radioterapia y la quimioterapia adyuvantes tienen lugar según la histología y estadio. El pronóstico depende asimismo de estos factores.

Conclusiones: El TND es un factor para el desarrollo de cáncer testicular. Su bilateralidad se acompaña a veces de otras malformaciones, por lo que estas deben buscarse. El diagnóstico es clínico. En caso de no encontrarse la localización de las glándulas, los estudios por imágenes brindan una importante ayuda. Los marcadores tumorales en cifras normales no descartan la enfermedad. El tratamiento básico tanto del TND como del cáncer testicular es la exéresis, habiendo cabida para la adyuvancia.

Palabras clave: criptorquidia- bilateral- agenesia renal- cáncer testicular.

SUMMARY

Introduction: Cryptorchidism or non descended testicles (NDT) is the most frequent malformation that affects the male external genitals and the most known etiologic factor of testicular cancer. The recommended surgical treatment in adult is the orchietomies since orchyopexy doesn't prevent cancer.

Objectives: To show the relation between cryptorchidism in adults and testicular cancer. To determine the most adequate conduct in the presence of this two entities.

Material and Method: Descriptive retrospective. A brief bibliographical revision of the theme.

Case presentation: A male patient with past history of bilateral cryptorchidism, that consults for a mass and pain in hypogastrium. Both ultrasonography and computed tomography inform a retroperitoneal tumour and absence of the right kidney. The tumoral markers are in normal levels. He is subjected to surgery with excision of both testicles. The anatomopathology inform reveals the diagnosis of seminoma in the tumoral gland and atrophy in the other. He

receives adjuvant with chemotherapy. He presents good evolution and good answer to the treatment with a follow up of 10 months until the date, with absent of illness.

Discussion: Cryptorchidism is a frequent entity in pediatric clinic, generally is unilateral. When it is bilateral it can go with others genitourinary malformations, and between this, the renal agenesis. The orchidopexy doesn't decrease the risk of malignancy of the gland, but improves the prognosis because permits an earlier diagnoses and only has the possibility of preserve the fertility if it is realized before the 2 years old. The election treatment in adults is the orchiectomy by conventional or laparoscopic surgery. The diagnosis of testicular cancer is clinical and can support in complementary studies such as ultrasonography, computed tomography or tumoral markers that are not conclusive but provide orientation of the extension and histological variety respectively. The seminoma is the most frequent tumour. Radiotherapy and chemotherapy can be used according the histology and the stage. The prognosis also depends of these factors.

Conclusion: The NDT is a factor for the development of testicular cancer. Its bilateralism sometimes goes with others malformations, so those must be looked for. The diagnosis is clinical. In case of it doesn't find the localization of the gland the imaging studies offer an important help. The tumoral markers in normal levels don't discard the illness. The basic treatment of the NDT such as the testicular cancer is the excision, having possibilities for adjuvant.

Key words: Cryptorchidism – bilateral – kidney agenesis – testicular cancer.

INTRODUCCIÓN

El término criptorquidia deriva del griego Kriptos (oculto) y orquis (testículo). El testículo criptorquídico, oculto o no descendido (TND) es aquel que se encuentra espontánea o permanentemente fuera del escroto. El término incluye cualquier localización del testículo a lo largo de su recorrido normal, tanto retroperitoneal como inguinal, así como también las ubicaciones anómalas o ectópicas. Desde el punto de vista práctico comprende la ausencia de testículo palpable y la incapacidad para hacerlo descender al escroto (1). La criptorquidia es más frecuente como afección unilateral, pero están descritos casos de bilateralidad y éstos se asocian con frecuencia con otras malformaciones genitourinarias entre éstas la agenesis renal (2).

El primer estudio sobre la falta de descenso testicular data de finales del siglo XVIII, cuando Hunter describió testes retroperitoneales en fetos de 6 meses, localizados en el escroto a los 9 meses (1).

Pott en 1777 recomienda la ablación quirúrgica del teste criptorquídico, para evitar la aparición de neoplasias y ésta es la primera referencia histórica que relaciona criptorquidia y cáncer de testículo (3).

El principal factor predictor de la aparición de un tumor testicular es la neoplasia intratubular de células germinales (carcinoma in situ), siendo éste el precursor tanto de tumores seminomatosos como de los no seminomatosos. Fue descrito por Shakkeback en 1972 (4).

El cáncer testicular es el tumor sólido más frecuente en varones jóvenes, entre los 20 a 35 años, representando el 1 a 2 % de todas las neoplasias en el sexo masculino (5).

El diagnóstico de criptorquidia es clínico, con la palpación de los testes en algún sitio de su trayecto de descenso a las bolsas o su ausencia en las mismas. Es el factor etiológico más frecuente del cáncer testicular (1). En caso de testículos no palpables, la ecografía, la tomografía computada (TC) o la resonancia nuclear magnética (RNM) pueden ser útiles para localizarlos, aunque estos dos últimos estudios no demostraron ser mejores que la ecografía (6, 7, 8). La laparoscopia es un excelente método diagnóstico y terapéutico para los testículos de localización retroperitoneal (9). Así mismo, el cáncer de testículo puede ser diagnosticado por la clínica, con la palpación de un tumor a veces doloroso del teste en su bolsa o en su trayecto de descenso al mismo. Los estudios complementarios citados anteriormente son igualmente útiles para el diagnóstico. La autoevaluación mensual en todo paciente adulto con antecedente de criptorquidia es de gran ayuda para el diagnóstico temprano de la enfermedad (1, 10).

Los marcadores tumorales; alfafetoproteína (a-FP), fracción beta de la gonadotropina coriónica (B-HCG), láctico deshidrogenada (LDH), son útiles, pero muchas veces se encuentran dentro de los valores normales (11).

El manejo de la criptorquidia en el pospúber es controvertido, aunque la mayoría de los autores recomiendan la orquidectomía. La orquidopexia no ejerce un efecto protector sobre el riesgo incrementado de desarrollar cáncer, pero permitiría una detección más precoz al estar el teste accesible a la exploración (12). El tratamiento del cáncer testicular es quirúrgico, requiriendo adyuvancia, ya sea quimioterapia o radioterapia según el tipo y estadio tumoral (13).

PRESENTACIÓN DEL CASO

Paciente de 35 años de sexo masculino, que consulta al servicio de oncología quirúrgica del Instituto Nacional del Cáncer (INC) en abril del 2007, por dolor en hipogastrio, intenso, continuo, sin otros síntomas acompañantes. Al examen físico, se constata un tumor, móvil, de 15 cm. de diámetro aproximadamente, localizado en hipogastrio. Se constata además la ausencia de ambos testículos en sus bolsas escrotales. No se palpan adenopatías inguinales.

Ante la sospecha clínica de un cáncer testicular, se solicitan estudios de extensión, comenzando por una ecografía abdominal, que informa la ausencia del riñón derecho (Agenesia renal), riñón izquierdo de características ecográficas normales y una masa sólida en hipogastrio. El laboratorio informa una función renal conservada, con una creatinina de 0,6 mg/dl y una urea de 36 mg/dl. Ante estos hallazgos se solicita una TC que informa una masa tumoral en hipogastrio y en fosa iliaca izquierda de 30 por 20 cm. de diámetro, compatible con testículo izquierdo, confirmándose la agenesis renal. Los marcadores tumorales presentan los siguientes valores prequirúrgicos: a-FP de

2,06UI/ml (vn menor a 4), B-HCG de 2 UI/ml (vn menor a3) y LDH de 465 (vn 103-224UI/ ml). En fecha 26/ 04/ 07 es sometido a laparotomía exploradora, realizándose orquidectomía bilateral, constatándose el testículo derecho francamente tumoral. La anatomía patológica informa seminoma clásico, con infiltración de la albugínea y márgenes quirúrgicos libres de neoplasia. El testículo izquierdo se presenta con masiva hialinización, no observándose proceso neoplásico maligno. Cursa un posoperatorio sin complicaciones, siendo derivado al servicio de quimioterapia, donde se le indica quimioterapia adyuvante a base de cisplatino y etoposido (cuatro ciclos). Actualmente el paciente se encuentra sin evidencias clínicas de recidiva y con los marcadores tumorales dentro de los límites fisiológicos, siendo seguido por consultorios externos.

DISCUSIÓN

La criptorquidia constituye el problema genital más común en la práctica urológica pediátrica, afectando al 2 - 5% de los niños, con probada participación en la génesis de infertilidad masculina, siendo un factor de riesgo para el desarrollo de cáncer testicular (14, 15,16). Si bien la forma de presentación más

común es la unilateral, la bilateralidad de la afección podría estar relacionado con un grado mayor de trastornos de la fertilidad y un riesgo más elevado de malignización (2, 17, 18), como es el caso que presentamos, en el cual la criptorquidia bilateral se acompaña de agenesia renoureteral del lado derecho.

El diagnóstico de la afección es clínico, con la palpación se verifica la ausencia de los testes en sus respectivas bolsas escrotales, o bien por la presencia de las glándulas a nivel de su trayecto de descenso a las mismas, tanto a nivel inguinal como retroperitoneal, existiendo varias maniobras semiológicas para tal efecto. En caso de no encontrarse masa alguna compatible con un testículo no descendido (TND), el empleo de los métodos diagnósticos complementarios es imperioso, siendo la ecografía de gran utilidad, así como la TC y la RNM (1).

Entre los factores etiológicos propuestos en el desarrollo del cáncer testicular en los TND se citan: traumatismos, atrofia testicular, disgenesia gonadal, y el antecedente de tumor testicular contralateral. En el testículo no descendido ya se detectan cambios a partir de los dos primeros años de vida, siendo las principales complicaciones la infertilidad, la torsión y la malignización. La incidencia de cáncer testicular es de entre 3 a 48 veces mayor. Aproximadamente un 10% de todos los tumores testiculares aparecen sobre un TND. La bilateralidad de la criptorquidia, suele asociarse a otros trastornos congénitos, entre ellos la atrofia renal, como es el caso que presentamos (19, 20, 21, 22). El principal factor predictor en la aparición de un tumor testicular es la neoplasia intratubular de células germinales (carcinoma in situ) (4, 23).

La incidencia de criptorquidia en el adulto es del 0,3-0,4%, representando el 20% de los testículos que se encuentran en el abdomen o pelvis, de estos no todos sufren transformación, puesto que el 15% de los inguinales y el 30% de los abdominales presentan tumor de testículo. Esto indica que la malignización se incrementa con la distancia de la glándula al escroto (8).

La orquidopexia electiva antes de los dos años de edad, permite conservar la fertilidad, pero no disminuiría la incidencia de cáncer. Su empleo estaría justificado por el hecho que permite un diagnóstico precoz al estar el testículo accesible a la exploración (12, 24). De no existir una justificación psicológica o cosmética importante, la orquidectomía debería ser la primera opción terapéutica en el adulto (25, 26, 27, 28, 29).

Las formas de presentación más frecuente del cáncer testicular es el tumor, localizado ya sea en la bolsa escrotal, en la ingle o en el retroperitoneo. Puede haber dolor, variando su intensidad y su ubicación según la localización del tumor. Los síntomas y signos acompañantes como astenia, anorexia, adelgazamiento pueden faltar en los estadios tempranos. Tanto la Ecografía, como la TC y la RNM pueden ser útiles como estudios complementarios (1,6, 7, 8). En determinados casos, masas retroperitoneales grandes pueden ser palpados y detectados clínicamente, como ocurrió con nuestro caso, en el cual además la ecografía y la TC realizadas ayudaron a determinar y delimitar la presencia del tumor en el retroperitoneo. En casos como el presentado el diagnóstico y tratamiento por videocirugía es factible (9, 30,31). El equipo quirúrgico actuante no contaba con experiencia en este tipo de cirugía, motivo por el cual se optó por la cirugía convencional, que es el método realizado por la mayoría de los centros (4, 10), en este caso se realizó la orquidectomía bilateral. El dosaje sérico de marcadores tumorales A-FP, B- HCG, LDH solo hacen el diagnóstico si son positivos, siendo en este caso innecesario la realización de biopsias, las cuales solo debería realizarse en el acto operatorio, nunca a través de una punción trasescrotal por el riesgo de diseminación linfática fuera de su vía natural (4). El informe de Anatomía patológica informó Seminoma, que es el tipo más frecuentemente encontrado en todas las series (5, 10, 11, 32, 33, 34).

La indicación de adyuvancia en esta enfermedad depende del tipo tumoral y del estadio. Tienen cabida tanto la quimio como la radioterapia, con buenos resultados (4, 21). En nuestro caso se realizó cuatro ciclos de quimioterapia por lo avanzado del caso.

El pronóstico dependerá del estadio inicial y la histología del tumor (5). Las metástasis por lo general ocurren en los linfonodos retroperitoneales, le siguen en frecuencia las pulmonares y las hepáticas (11).

CONCLUSIÓN

El cáncer testicular está íntimamente relacionado al TND. La ausencia bilateral de testículos obliga a buscar otras malformaciones genitourinarias, entre estos a la agenesia renal. El diagnóstico clínico debe apoyarse en los estudios por imágenes para determinar no sólo la ubicación ectópica de las glándulas sino también para buscar estas

posibles anomalías asociadas. Los marcadores tumorales ayudan a orientar sobre la variedad histológica del tumor, pero su normalidad no descarta la enfermedad. El tratamiento quirúrgico de elección tanto para el TND en el adulto como para el cáncer testicular es la orquidectomía. La quimio y radioterapia ocupan un lugar preponderante en la asistencia a estos enfermos dependiendo su utilización de la variedad histológica y del estadio clínico, situaciones que también influyen en el pronóstico.

BIBLIOGRAFÍA

- 1- López- Cruz G., Pérez- Campos E., Hernández- Cruz P. Criptorquidia: Importancia del diagnóstico oportuno. *Bol.Clin.Hosp.Infant.Edo.Son* 2007; 27 (1): 32-7.
- 2- Holt PJ., Adehyad JM., Filiadis I., et al. Retroperitoneal anomalies in men with testicular germ cell tumours. *BJUI* 2006; 99 (2): 344-6.
- 3- Castejón- Casado J., Jiménez- Alvarez C., Alaminos- Mingorance M., et al. Metaanálisis cáncer- criptorquidia. *Cir.Pediatr* 2000; 13: 92-6.
- 4- Gómez- Planelles J., Beltrán Armada JR., Tarín- Planes M., et al. Cáncer testicular bilateral: presentación de cuatro casos. *Actas.Urol.Esp* 2007; 31 (10): 1117- 22.
- 5- Palma C., Cristóbal B., Maccioni R. Seminoma de testículo abdominal en un paciente adulto: reporte de un caso. *Actas.Urol.Esp* 2007; 31 (2): 160-3.
- 6- Weiss RM., Carter AR., Rosenfield AT. High resolution real-time ultrasonography in the localization of the undescended testis. *J.Urol* 1986; 135 (5): 936-8.
- 7- Green R Jr. Computarized axial tomography vs. spermatic venography in localization of cryptorchid testes. *Urology* 1985; 26 (5): 513-7.
- 8- L origan JG., Shirkhoda A., Dexeus FH. MR imaging of malignant germ cell tumour of the undescended testis. *Urol.Radiol* 1989; 11: 113-7.
- 9- Guiney EJ., Corbally M., Malone PS. Laparoscopy and the management of the impalpable testis *Br.J.Urol.* 1989; 63 (3): 313-6.
- 10- Carmona- Campos E., Regueiro- López JC., Prieto- Castro R., et al. Criptorquidia y cáncer testicular. *Actas Urol.Esp* 2000; 24 (1): 49-51.
- 11- Alonso- Dominguez FJ., Berardo AS., Fragas- Valdez R., et al. Testículos no descendidos y cáncer. *Arch. Esp.Urol* 2005; 58 (4)- (On line).
- 12- Rogers E., Teahan S., Gallagher H., et al. The role of orchietomy in the management of postpuberal cryptorchidism. *J.Urol* 1998; 159: 851-4.
- 13- Pereira JG., Astobieta A., Zabalza I., et al. Criptorquidia y cáncer testicular. *Arch.Esp.Urol* 1995; 48 (9): 959-961.
- 14- Stanley K. Cryptorchidism. En: Kelalis PP., King LR., Belman AB. *Clinical pediatric urology.* W.B.Saunders Company, Philadelphia, 3ª ed. 1992: 1050-83.
- 15- Berkowitz GS., Lapinski RH., Dolgin SE., et al. Prevalence and natural history of cryptorchidism. *Pediatrics* 1993; 92 (1): 44-9.
- 16- Batata MA., Whitmore JR., Chu FCH., et al. Cryptorchidism and testicular cancer. *J.Urol* 1980; 180; 124 (3). 382-7.
- 17- Stone JM., Criskshank DG., Sandeman TF., et al. Laterality, maldescent, trauma and other clinical factors in the epidemiology of testis cancer in Victoria, Australia. *Br.J.Cancer* 1991; 64(1): 132-8.
- 18- Lee PA., Coughlin MT. Fertility after bilateral cryptorchidism. Evaluation by paternity, hormone and semen data. *Horm.Res* 2001; 55 (1): 28-32.
- 19- Kulkarni JN., Kamat MR. Tumors in undescended testis. *J.Surg.Oncol* 1991; 46 (4): 257-60.
- 20- Kratzik C., Aiginger P., Kubler W., et al. Risk factors for bilateral testicular germ cell tumors. Does heredity play a role? *Cancer* 1991; 68 (4): 916-21.
- 21- Cañis-Sánchez D., Conde- Santos G., Alonso- Gracia N., et al. Diagnosis and therapeutic management in a germinal bilateral tumors. A report of one case and a literature revision. *Actas Urol.Esp* 2003; 27 (2): 147- 51.
- 22- United Kingdom Testicular Cancer Study Group. Aetiology of testicular cancer: association with congenital abnormalities, age at puberty, infertility and exercise. *BMJ* 1994; 28: 1393-99.
- 23- Skakkebaek NE., Berthelsen JG., Miller J. Carcinoma in situ of the undescended testis in symposium of cryptorchidism. *Urol.Clin:North.Am* 1982; 9: 377- 80.
- 24- Abratt RP., Reddi VB., Sarembok LA. Testicular cancer and cryptorchidism. *Br.J.Urol* 1992; 70 (6): 656-9.
- 25- Ford TF., Parkimsons CM., Pryor JP. The undescended testis in adult life. *Br.J.Urol* 1895; 57: 181-4.
- 26- R ozanski TA., Bloom DA. The undescended testis. Theory and management. *Urol.Clin.North.Am* 1995; 22 (1): 107-18.
- 27- Strader CH., Weiss NS., Daling JR. Cryptorchidism, orchiopexy and the risk of testicular cancer. *Am.J.Epidemiol* 1988; 127: 1013-17.
- 28- Pinczowski D., McLaughlin JK., Lackgren G., et al. Occurrence of testicular cancer in patients operated on for cryptorchidism and inguinal hernia. *J.Urol* 1991; 146 (5): 1291-94.
- 29- Granados- Loarca EA., Esau-Ortega S. ¿Es necesaria la orquidectomía en los pacientes con testículo no descendido post-puberal? *Acta Urol.Esp.*2005; 29 (10): 1- 6. (On line).
- 30- Valla JS., Steyaert H., Coloma F., et al. Impalpable ectopic testis: an excellent indication for laparoscopic, but by a specialist. *ANN.Chir* 1998; 52 (10): 1038- 42.
- 31- Cortes D., Thorup JM., Lenz K., et al. Laparoscopic in 100 consecutive patients with 128 impalpable testis. *Br.J.Urol* 1995; 75 (3): 281-7.
- 32- Brown JR., Dunlap HJ., Nizalik E., et al. A child with an intra-abdominal testicular teratoma: a case report and review of prepuberal cryptorchid germ cell tumors. *Urology* 1995; 46 (6): 863-6.

- 33- Garner MJ., Turner MC., Ghadirian P., et al. Epidemiology of testicular cancer: an overview. *Int.J.Cancer*. 2005; 116 (3): 131-9.
- 34- Mengel W., Hienz HA., Sippe WS., et al. Studies on cryptorchidism. A comparison of histological findings in the germinative epithelium before and after the second year of live. *J.Pediat.Surg* 1974; 9: 445