

Recidiva de leucemia mieloide aguda em testículo criptorquídico: relato de caso

Recurrence of acute myeloid leukemia in cryptorchid testis: case report

Luccas Santos Patto de Góes¹, Roberto Iglesias Lopes^{1,2}, Octavio Henrique Arcos Campos¹, Luiz Carlos Neves de Oliveira², Alexandre Crippa Sant'Anna², Marcos Francisco Dall'Oglio², Miguel Srougi²

RESUMO

Paciente de 23 anos, masculino, com antecedente de transplante de medula óssea por leucemia mieloide aguda. Há 5 anos, apresentou volumosa massa em região inguinal direita. No exame físico, foi constatada criptorquidia à direita. Os marcadores tumorais alfa-fetoproteína e beta-HCG encontravam-se dentro da normalidade, e a desidrogenase láctica estava aumentada. A tomografia computadorizada de abdomen e pelve revelou massa testicular direita com contiguidade pelo canal inguinal, até o retroperitônio ipsilateral, associada a hidronefrose direita. Devido ao alto risco de neoplasia germinativa em testículo criptorquídico, o paciente foi submetido à orquiectomia radical direita, cujo anatomopatológico revelou recidiva de leucemia mieloide aguda em testículo. Foi encaminhado para oncologia para terapia adjuvante. Nossa revisão não revelou nenhum caso semelhante na literatura.

Descritores: Leucemia mieloide aguda; Criptorquidismo; Orquiectomia; Neoplasias testiculares; Recidiva; Quimioterapia adjuvante; Relatos de casos

ABSTRACT

A 23-year-old male with a history of bone marrow transplant for acute myeloid leukemia. He presented a large mass in the right inguinal region 5 years ago. Upon physical examination, right-sided cryptorchidism was observed. The tumor markers alpha-fetoprotein and beta-HCG were within normalcy range and lactate dehydrogenase was raised. Computed tomography of the abdomen and pelvis revealed right testicular mass in contiguity with the inguinal canal to the ipsilateral retroperitoneum, associated with right hydronephrosis. Due to the risk of germ-cell tumor in undescended testicle, the patient underwent radical right orchiectomy. The pathological examination showed recurrence of acute myeloid leukemia in the testis. He was

referred to oncology for adjuvant therapy. Our literature review found no similar cases described.

Keywords: Leukemia, acute myeloid; Cryptorchidism; Orchiectomy; Testicular neoplasms; Recurrence; Chemotherapy, adjuvant; Case reports

INTRODUÇÃO

A leucemia mieloide aguda (LMA) é uma síndrome mieloproliferativa que corresponde a 20% das leucemias agudas na infância. Ocorre em 50% até os 20 anos, predominando em homens brancos. O tratamento é baseado em transplante de medula óssea e quimioterapia.⁽¹⁾

Criptorquidia é a ausência de testículo na bolsa escrotal e representa uma das afecções mais comuns da infância, acometendo de 0,8 a 1% dos adultos jovens. Seu diagnóstico e tratamento com orquidopexia devem ser precoces, pois é associada a torções testiculares, hérnias, infertilidade e malignização. O risco de degeneração para tumor germinativo é 40 vezes maior em relação à população geral.^(2,3)

Aproximadamente 4% dos pacientes pediátricos com linfoma podem ter comprometimento testicular primário ou recidiva. Acredita-se que o testículo possua uma barreira vascular que dificulta a ação quimioterápica, sendo a orquiectomia o tratamento padrão.⁽⁴⁻⁶⁾

O objetivo deste trabalho foi relatar um caso de massa testicular não identificada em avaliação clínica pré-transplante de medula óssea, e as dificuldades no diagnóstico e tratamento dessa patologia. De acordo

¹ Hospital do Servidor Público Municipal de São Paulo, São Paulo, SP, Brasil.

² Hospital das Clínicas, Faculdade de Medicina, Universidade de São Paulo, São Paulo, SP, Brasil.

Autor correspondente: Roberto Iglesias Lopes – Divisão de Urologia, Faculdade de Medicina, Universidade de São Paulo, Rua Dr. Enéas de Carvalho Aguiar, 455, 7º andar – Cerqueira César – CEP: 05403-000 – São Paulo, SP, Brasil – Tel.: (11) 3069-8080 – E-mail: robertoiglesias@terra.com.br

Data da submissão: 22/12/2012 – Data do aceite: 1/12/2013

DOI: 10.1590/S1679-45082014RC2689

com nossa revisão de literatura, este deve ser o único caso de recidiva de LMA em criptorquidia relatado.

RELATO DE CASO

Paciente de 23 anos, masculino, diagnosticado com LMA em 2003. Submetido a transplante de medula óssea alogênico (doadora: irmã) em fevereiro de 2004. Evoluiu 100 dias após com doença do enxerto *versus* hospedeiro, manifestada por placas esclerodermiformes difusas. Tratado com pulsoterapia, evoluiu com regressão parcial das lesões. Após cinco anos, foi notada uma massa volumosa em região inguinal direita, endurecida e fixa (Figura 1). No exame físico, não foi identificado testículoipsilateral.



Figura 1. Massa inguinal direita endurecida e fixa

Aventada a hipótese de neoplasia testicular associada à criptorquidia direita. Os marcadores tumorais eram: alfa-fetoproteína 2,5ng/mL (valor de referência – VR: até 7ng/mL), beta-HCG normal (VR: <3U/mL) e desidrogenase láctica aumentada 483UI/L (100 a 190UI/L). A tomografia computadorizada de abdome e pelve revelou massa testicular direita com contiguidade pelo canal inguinal até o retroperitônio ipsilateral, associada à hidronefrose direita (Figuras 2A e 2B).

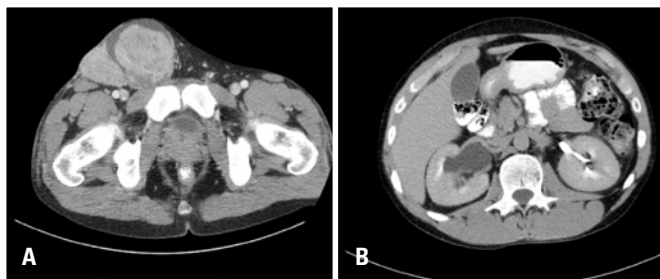


Figura 2. (A) Tomografia computadorizada revelando massa testicular direita com contiguidade para canal inguinal ipsilateral; (B) hidronefrose à direita pela compressão da massa escrotal, que se estendia ao retroperitônio

Indicada orquiectomia radical direita, pela suspeita de tumor primário ou recidiva da LMA. Realizada inguilotomia, sendo evidenciado linfonodo peritesticular aumentado e endurecido, que também foi excisado (Figuras 3A e 3B). O exame de congelação evidenciou linhagem epitelial com alto índice mitótico, porém sem definição do padrão histológico. O resultado anatomo-patológico revelou infiltração difusa por LMA em testículo e linfonodo peritesticular (Figuras 4A e 4B). O paciente evoluiu sem intercorrências no pós-operatório, recebendo alta no segundo dia. Foi encaminhado para oncologia para terapia adjuvante.

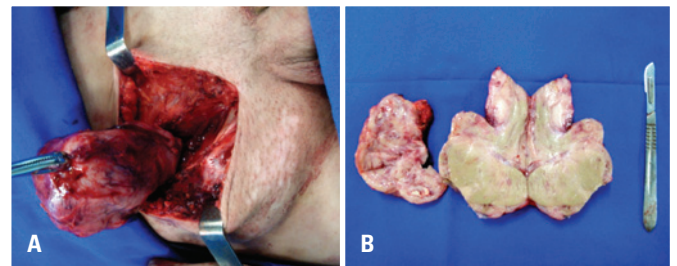


Figura 3. (A) Orquiectomia radical direita referente a tumoração em testículo criptorquídico. (B) Massa testicular e linfonodo peritesticular após orquiectomia

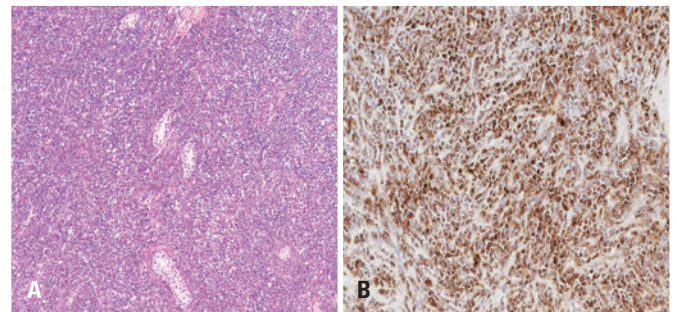


Figura 4. (A) Histologia demonstrando hiperproliferação celular anárquica sugestiva de leucemia. (B) Imunoistoquímica com mieloperoxidase revelando leucemia mieloide aguda

DISCUSSÃO

Os tumores testiculares são frequentes na população adulta jovem, tendo incidência anual de 4 em 100 mil pessoas, das quais 95% são germinativas.^(7,8) Nesse caso relatado, podemos observar um tipo raro de neoplasia, que corresponde a menos de 0,5% dos casos de tumor testicular, causado pela infiltração de leucemia/linfoma do testículo. O subtipo mais frequente de leucemia no testículo é a leucemia linfóide. Na população adulta jovem com leucemia linfóide aguda, até 5% dos pacientes podem ter acometimento primário ou recidiva no testi-

culo.⁽⁶⁾ Há, na literatura, relatos de caso de recidiva de leucemia linfóide aguda em testículo após transplante de medula óssea, em que a quimioterapia e radioterapia mostraram-se ineficazes, sendo realizada orquiectomia como tratamento para remissão da doença.^(9,10)

Em relação à LMA, o acometimento testicular é extremamente raro, com poucos casos relatados, principalmente pediátricos, nos quais o envolvimento da medula ocorreu posteriormente em quase todos os casos. Nesses casos, o tempo entre a remissão e a recidiva testicular variou de 4 a 60 meses, com média de 21 meses.⁽⁴⁾ Neste caso, o intervalo foi de 60 meses. Vários trabalhos mostram que o acometimento testicular das leucemias deve ser tratado com orquiectomia, devido à barreira vascular que dificulta a ação da quimioterapia.⁽⁴⁻⁶⁾

No caso em questão, a orquiectomia foi indicada pela presença de tumoração testicular, indefinida, pois os marcadores tumorais não sugeriram o diagnóstico. A tomografia de abdome e pelve é mandatória em casos de tumores testiculares, para estadiamento, buscando principalmente adenomegalias retroperitoneais, pois são as cadeias linfonodais mais acometidas nestas neoplasias.⁽⁷⁾ A congelação intraoperatória foi realizada com intuito de confirmar a presença de malignidade da lesão, visto que a literatura mostra que tanto a presença de recidiva de LMA como um tumor primário do testículo deve ser abordado com orquiectomia, podendo ser complementado o tratamento com quimioterapia adjuvante, guiada pelo resultado anatomopatológico.⁽⁴⁻⁶⁾ O caso relatado foi abordado e conduzido conforme as

recomendações atuais, com a peculiaridade da recidiva da LMA, evento incomum, ter ocorrido em um paciente com criptorquidismo, o que dificultou ainda mais o diagnóstico.

REFERÊNCIAS

1. Villela L, Bolaños-Meade J. Acute myeloid leukaemia: optimal management and recent developments. *Drugs*. 2011;71(12):1537-50. Review.
2. Walsh TJ, Dall'Era MA, Croughan MS, Carroll PR, Turek PJ. Prepubertal orchiopey for cryptorchidism may be associated with lower risk of testicular cancer. *J Urol*. 2007;178(4 Pt 1):1440-6; discussion 1446. Review.
3. Pettersson A, Richiardi L, Nordenskjöld A, Kaijser M, Akre O. Age at surgery for undescended testis and risk of testicular cancer. *N Engl J Med*. 2007;356(18):1835-41.
4. Grier DD, Eskew A, White T, McLean TW. An unusual case of acute myeloid leukemia: late isolated testicular relapse followed by isolated central nervous system relapse. *Pediatr Blood Cancer*. 2010;55(6):1231-3.
5. Kulkarni KP, Marwana RK, Trehan A, Bansal D. Testicular relapse in childhood acute lymphoblastic leukemia: the challenges and lessons. *Indian J Cancer*. 2010;47(2):134-8.
6. Gutjahr P, Humpl T. Testicular lymphoblastic leukemia/lymphoma. *World J Urol*. 1995;13(4):230-2. Review.
7. Shaw J. Diagnosis and treatment of testicular cancer. *Am Fam Physician*. 2008;77(4):469-74. Review.
8. Jemal A, Siegel R, Ward E, Hao Y, Xu J, Murray T, et al. Cancer statistics, 2008. *CA Cancer J Clin*. 2008;58(2):71-96.
9. Kodama Y, Okamoto Y, Ijichi O, Shinkoda Y, Nishikawa T, Tanabe T, et al. Continued complete remission without systemic therapy for isolated testicular relapse after bone marrow transplantation in a boy with acute lymphoblastic leukemia. *Pediatr Transplant*. 2009;13(6):769-72.
10. Li CK, Shing MM, Chik KW, Kwan WH, Lai DH, Leung TF, et al. Isolated testicular relapse after bone marrow transplant with total body irradiation and testicular boost in acute lymphoblastic leukemia. *Bone Marrow Transplant*. 1998;22(4):397-9.