

## Hemoptises como primeira manifestação de um tumor do testículo com fenómeno “burned-out”

José C. Amaral\*, Vitor Oliveira\*\*, Luís Ferraz\*\*\*, Manuel Pereira\*, Rosete Nogueira\*\*\*\*

Serviço de Urologia do Centro Hospitalar de Vila Nova de Gaia

Director: Dr. Luís Ferraz

\*Assistente Hospitalar de Urologia do Centro Hospitalar de V. N. de Gaia

\*\*Interno Complementar de Urologia do Centro Hospitalar de V. N. de Gaia

\*\*\*Assistente Hospitalar Graduado de Urologia do Centro Hospitalar de V. N. de Gaia

\*\*\*\*Assistente Hospitalar de Anatomia Patológica do Centro Hospitalar de V. N. De Gaia

Correspondência: José Carlos Vieira Amaral – Serviço de Urologia do C.H.V.N. Gaia – Rua Conceição Fernandes 4400 V. N. Gaia  
E-mail: joseamaral@mail.telepac.pt

### Resumo

O tumor testicular com fenómeno “burned-out”, é uma entidade muito rara e que é definida pela regressão espontânea do foco tumoral primitivo a nível testicular, após ter desenvolvido metástases, permanecendo em seu lugar uma lesão cicatricial. Apresentamos o caso de um tumor testicular com fenómeno “burned-out”, num jovem de 21 anos de idade, cuja primeira manifestação foi o aparecimento de hemoptises o que o levou a recorrer ao Serviço de Urgência do nosso Hospital. Os critérios clínicos, imageológicos e analíticos disponíveis foram suficientes para ter uma suspeita diagnóstica do quadro. Foi executada uma orquidectomia radical esquerda e biópsia das lesões metastáticas hepáticas e retroperitoneais, tendo sido o tratamento complementado com poliquimioterapia. A resposta foi boa, e o doente neste momento está em remissão quase completa.

**Palavras chave:** Tumor germinativo do testículo. Burned-out. Tumor extragonadal.

### Summary

#### *Hemoptisis as first manifestation of a “burned-out” phenomenon in a testicular neoplasia*

The “burned-out” phenomenon in testicular neoplasias, is an uncommon entity defined by the spontaneous regression of the primitive testicular tumoral site after spread to metastasis, leaving behind a scarring lesion. We present one case of “burned-out” phenomenon in a young 21- years old patient, that went in our Hospital complaining of hemoptisis. Available clinical, radiological and laboratorial data, were enough to reach a suspected diagnosis. Homolateral radical orchidectomy and biopsy of hepatic and retroperitoneal lesions were performed, rounding treatment up with polychemoterapy. The immediate response was good, and the case is going on to complete remission.

**Keywords:** Testicular germ-cell tumour. Burned-out. Extragonadal tumour.



Figura 1



Figura 2

### Introdução

A forma clínica de apresentação mais habitual de um tumor de células germinativas, é o aparecimento de um nódulo indolor ou aumento de tamanho do testículo, normalmente detectado pelo próprio doente.

Situações menos frequentes são representadas pelos tumores de células germinativas de localização extragonadal. Estes aparecem em 3 a 5% dos casos e podem ser primitivos (retroperitoneu, mediastino ou cérebro), ou representar lesões metastáticas de um tumor primitivo do testículo que no entanto desapareceu espontaneamente (fenómeno “burned-out”) (1,2,3).

O fenómeno “burned-out”, descrito pela primeira vez por Azzopardi, Mostofi e Theiss em 1961 (4), é uma entidade extremamente rara sendo definida pela regressão espontânea do foco tumoral testicular após ter desenvolvido metástases, permanecendo em seu lugar uma lesão cicatricial com alterações histológicas características.(5,6,7). Histologicamente é caracterizado pela presença de células germinativas a nível extragonadal e a evidência no testículo de extensas áreas relativamente acelulares, com cicatrizes fibróticas, depósitos nos túbulos de substâncias amorfas que coram com hematoxilina, polimorfonucleares carregados de hemossiderina e microcalcificações dispostas em lâminas concêntricas.

A sua fisiopatologia é desconhecida, no entanto poderá ser atribuída a um processo de auto-imunidade ou ao crescimento de metástases a partir de microcarcinomas.

### Caso clínico

Apresentamos o caso de um jovem de 21 anos de idade, que recorreu ao Serviço de Urologia do nosso Hospital, por apresentar desde há vários meses episódios recorrentes de hemoptises, desconforto

persistente no hipocôndrio direito e emagrecimento de cerca de 7 Kg. nas últimas semanas.

Observado pela Medicina/Pneumologia efectuou Rx pulmonar que revelou imagem típica de “largada de balões” (fig. 1), pelo que foi pedida colaboração de Urologia.

Na história urológica apenas uma leve referência a um quadro provável de “escroto agudo” à esquerda surgido há dois anos e não valorizado pelo doente.

No exame físico, constatou-se dor à palpação na área hepática. No exame genital, os testículos estavam bem posicionados nas bolsas, tinham volume e consistência normais e não apresentavam nódulos ou irregularidades nos seus contornos.

Pedi-se uma Ecografia abdominal e escrotal e ainda rotina analítica. A Ecografia abdominal revelou várias imagens nodulares a nível hepático (segmentos III, VI e VII), um conglomerado de adenomegalias retroperitoneais abaixo do polo inferior do rim esquerdo e ainda moderada ureterohidronefrose do mesmo lado. A nível escrotal, era evidente no testículo esquerdo a existência de um nódulo (4,4 x 1,9 x 3,2cm) predominantemente sólido com áreas císticas e microlitíase. (fig. 2).

Com o diagnóstico clínico de tumor do testículo foi internado no Serviço de Urologia onde se solicitou a realização de uma TAC tóraco-abdómino-pélvica, e um estudo analítico com marcadores tumorais. A TAC revelou, no tórax, várias imagens nodulares no parênquima pulmonar (fig. 3), e ausência de adenomegalias mediastínicas. No abdómen, eram visíveis no fígado, várias imagens nodulares sólidas (fig. 4) e no retroperitoneu um conglomerado de adenomegalias inter-aorto-cava e látero-aórticas à esquerda.

O estudo analítico, com marcadores tumorais, revelou: Bil.t = 1,34 mg/dl, Bil.d = 0,84 mg/dl, LDH = 1014 U/l, F.alc = 225 U/l, AFP = 3,30 UI/ml, Beta HCG = 636062 Ui/ml.

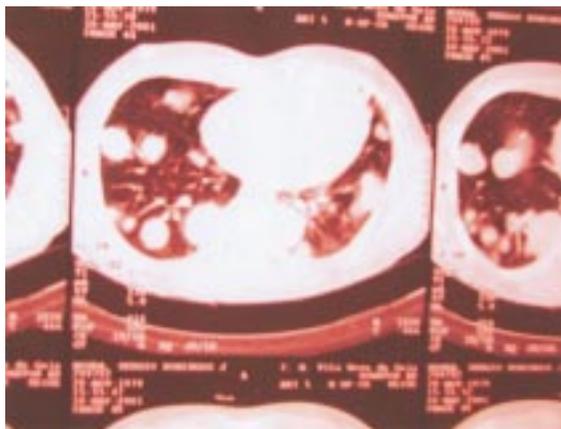


Figura 3

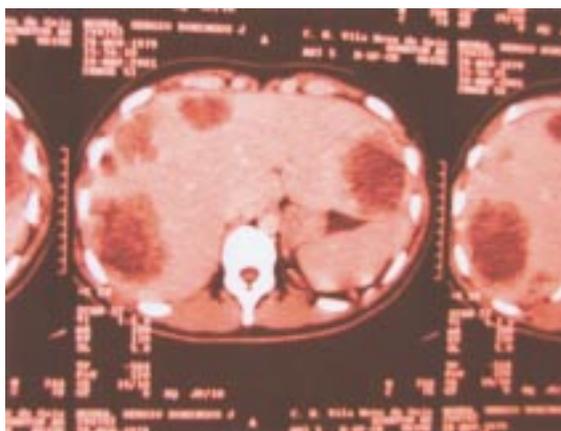


Figura 4



Figura 5

Face a estes achados, e apesar da palpação testicular ser normal, a hipótese diagnóstica tumor testicular da linha germinativa não deixava dúvidas, pelo que se optou por orquidectomia radical à esquerda e biópsia à direita. O relatório anátomo-patológico da peça de orquidectomia, revelou macroscopicamente um nódulo com 3,6 x 3,7 cm. constituído por tecidos esbranquiçados com pequenos cistos, na periferia do qual era evidente uma lâmina

de parênquima testicular aparentemente preservado. Histologicamente o nódulo era constituído por extensas áreas de tecido fibrótico hialino-vascular (fig. 6), com abundantes histiócitos ricos em pigmento hemossidérico (fig. 7), focos de microcalcificação e pequenas áreas de teratoma maduro (fig. 8). A biópsia do testículo direito revelou parênquima testicular normal.

Na tentativa de uma caracterização histológica da neoplasia, procedemos a duas biópsias per-cutâneas de nódulos hepáticos e retroperitoneais, que foram inconclusivas já que revelaram apenas áreas de necrose.

Apesar da ausência de diagnóstico histológico, com base na imageologia e nos dados laboratoriais

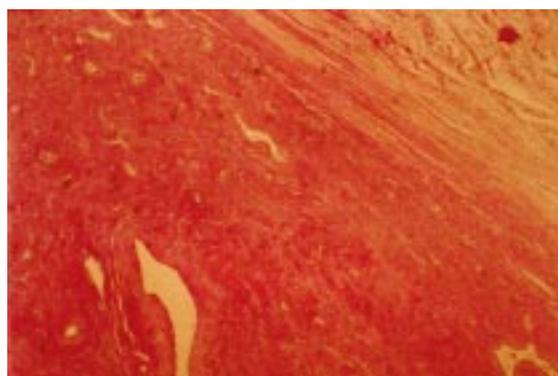


Figura 6

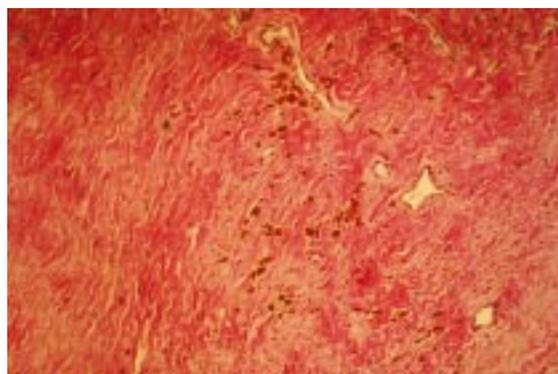


Figura 7

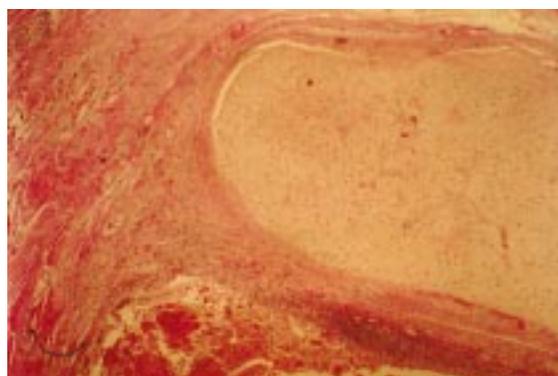


Figura 8

foi proposta poliquimioterapia sistémica com BEP (Bleomicina + Etoposido + Cisplatinum).

Três meses após o início do tratamento, foi evidente uma regressão acentuada da doença sob o ponto de vista clínico, analítico e imageológico.

### Discussão

Os dados imageológicos, aliados às alterações analíticas e à idade do paciente, devem fazer suspeitar de neoplasia testicular mesmo quando o exame genital é normal. No entanto o diagnóstico de tumor testicular com fenómeno “burned-out” em doentes com testículos clinicamente normais é sempre uma tarefa difícil.

Um método seguro e de importância inquestionável no diagnóstico desta patologia, é o estudo ecográfico que normalmente revela lesões testiculares (hipoecóicas ou mais raramente hiperecóicas no caso de haver enfartes intratumorais ou necrose hemorrágica) que passam despercebidas à exploração física (8,9).

Diagnosticar ou classificar um tumor germinativo como extragonadal primário ou como metastático com fenómeno “burned-out”, é primordial já que esse facto tem implícitos factores prognósticos e também factores relacionados com o tratamento.

Em relação aos factores de prognóstico, os tumores com fenómeno “burned-out” têm um comportamento menos agressivo e manifestam-se normalmente com menor quantidade de massa tumoral e taxas de resposta e sobrevivência mais elevadas (10).

Em relação ao tratamento, os tumores com fenómeno “burned-out” devem ser tratados como tumores primitivos do testículo, começando obvia-

mente pela orquidectomia complementada pela poliquimioterapia mais adequada e se necessário a exérese de massas residuais. (11,12).

### Bibliografia

1. Bohle A, Studer UE, Sonntag RW, Scheidegger JR: Primary or secondary extragonadal germ cell tumors ? *J. Urol*, 1986; 135: 939-943.
2. Johnson DE, Laneri JP, Mountain CF, Luna M: Extragonadal germ cell tumors. *Surgery*, 1973; 73: 85-90.
3. Richie JP: Neoplasms of the testis. *Campbell's Urology* 6 th. Ed. WB Saunders Co, 1992; 2 (30): 1222-1263.
4. Azzopardi JG, Mostofi FK, Theiss EA: Lesions of the testes observed in certain patients with widespread choriocarcinoma and related tumors. The significance and genesis of hematoxylin-staining bodies in the human testis. *Amer. J. Path* 1961; 38: 207
5. Extramina J, De La Rosa F, Madero S, Tagarro D, Diaz R, Martinez M, Gandia V, Leiva O, Borobia V: Tumor testicular fundido. *Actas Urol Esp*, 1986; 10: 289-294.
6. Hpbarth K, Susani M, Szabo N, Kratzik C: Incidence of testicular microlithiasis. *Urology* 1992; 40: 464.
7. Renshaw AA: Testicular calcifications: Incidence, histology and proposed pathological criteria for testicular microlithiasis. *J. Urol* 1998; 160: 1625.
8. Peterson LJ, Catalona WJ, Koehler RE: Ultrasonic localization of a non-palpable testis tumor. *J. Urol*, 1979; 122: 843-844.
9. Gross GW, Rohner JR, Lombard JS, Abrams CS: Metastatic seminoma with regression of testicular primary: ultrasonographic detection. *J. Urol*, 1986; 136: 1086-1088.
10. Garnick MN, Canellos GP, Richie JP: Treatment and surgical staging of testicular and primary extragonadal germ cell cancer. *Jama* 1983; 250: 1733.
11. Snow BW, Robland RG, Donohue JP, Heinhorn LH, Williams SD: Review of delayed orchietomy in patients with disseminated testis tumors. *J. Urol* 1983; 129: 522.
12. Comiter GV, Renshaw AA, Benson CB, Loughlin BK: Burned-out primary testicular cancer: sonographic and pathological characteristics. *J. Urol* 1996; 156: 85.