

<https://doi.org/10.24245/drm/bmu.v67i6.9322>

Leiomioma de escroto

Leiomyosarcoma of the scrotum.

Juan Astigueta Pérez,^{1,2} Milagros Abad Licham,^{1,3,5} Juan Terrones Deza,⁶ Marisabel Huerta Coronel,⁷ Kristian Cueva Martel⁴

Resumen

ANTECEDENTES: Los leiomiomas son neoplasias malignas mesenquimales que provienen del músculo liso, en el escroto son muy raros; en la revisión de la bibliografía hay aproximadamente 50 casos publicados.

CASO CLÍNICO: Paciente masculino de 50 años con tiempo de enfermedad de 8 meses caracterizada por un tumor escrotal de crecimiento lento y esporádico y dolor tipo punzada. Al examen se encontró una masa dependiente del escroto, de 3 x 3.5 cm, multinodular, de consistencia firme como caucho, individualizable, sin afectación de órganos intraescrotales. La ecografía corroboró la localización e informó nódulo subcutáneo de 30 x 14 x 26 mm, con vascularización periférica e interna multifocal al Doppler. El tumor escrotal se resecó con márgenes amplios; el diagnóstico anatómopatológico fue leiomioma. Los estudios de extensión de enfermedad fueron negativos para metástasis, pero por el riesgo de metástasis regional se indicó radioterapia a cadena ganglionar iliaca e inguinal bilateral. Actualmente, a 6 meses de la cirugía, el paciente se encuentra sin evidencia de enfermedad.

CONCLUSIONES: El leiomioma escrotal es poco frecuente y actualmente no tiene definido algún factor de riesgo. En general, su crecimiento es lento, incluso cuando existe recurrencia local. La ecografía es el estudio inicial para definir su localización y descartar el daño de órganos intraescrotales. Su manejo requiere un enfoque multidisciplinario; el tratamiento inicial es la resección local amplia del tumor con bordes quirúrgicos libres, que deben ampliarse si se sospecha afectación de los mismos. Aún no existe suficiente evidencia de la eficacia del tratamiento complementario con linfadenectomía, quimioterapia o radioterapia.

PALABRAS CLAVE: Leiomioma; escroto; músculo liso.

Abstract

BACKGROUND: Leiomyomas are malignant mesenchymal neoplasms that come from smooth muscle, in the scrotum they are very rare, finding approximately 50 published cases in the literature review.

CLINICAL CASE: A 50-year-old male patient with an 8-month illness characterized by a slow-growing scrotal tumor and sporadic stabbing pain. On examination, a 3 x 3.5 cm, multinodular mass dependent on the scrotum was found, with a firm consistency like rubber, individualizable, without involvement of intra-scrotal organs. Ultrasound corroborated the location and reported a subcutaneous nodule of 30 x 14 x 26 mm, with multifocal peripheral and internal vascularization on Doppler. The scrotal tumor was resected with wide margins; the pathological diagnosis was leiomyoma. Disease extension studies were negative for metastases, but due to the risk of regional metastasis, radiotherapy to the iliac and inguinal lymph node chain was indicated bilaterally. Currently, 6 months after surgery, there is no evidence of disease.

CONCLUSIONS: Scrotal leiomyoma is rare and currently there is no defined risk factor. In general, its growth is slow, even when there is local recurrence. Ultrasound is the initial study to define its location and rule out intra-scrotal organ involvement. Its management requires a multidisciplinary approach. The initial treatment is wide local resection of the tumor with free surgical margins, which should be extended if their involvement is suspected. There is still not enough evidence of the efficacy of complementary treatment with lymphadenectomy, chemotherapy and/or radiotherapy.

KEYWORDS: Leiomyoma; Scrotum; Smooth muscle.

¹ Escuela de Medicina, Universidad Privada Antenor Orrego, Trujillo, Perú.

² Departamento de Urología Oncológica.

³ Departamento de Patología Oncológica.

⁴ Departamento de Medicina Oncológica.

Instituto Regional de Enfermedades Neoplásicas, Trujillo, Perú.

⁵ Centro de Excelencia en Patología Oncológica, Trujillo, Perú.

⁶ Servicio de Urología. Hospital Belén, Trujillo, Perú.

⁷ Departamento de Patología, Hospital Virgen de la Puerta Essalud, Trujillo, Perú.

Recibido: septiembre 2022

Aceptado: octubre 2022

Correspondencia

Juan Carlos Arturo Astigueta Pérez
juancarlos.astigueta@gmail.com
jastigueta1@upao.edu.pe

Este artículo debe citarse como:

Astigueta-Pérez J, Abad-Licham M, Terrones-Deza J, Huerta-Coronel M, Cueva-Martel K. Leiomioma de escroto. Dermatol Rev Mex 2023; 67 (6): 873-878.

ANTECEDENTES

Los leiomiomas son neoplasias malignas mesenquimales que provienen del músculo liso; en el escroto se describe su origen en los músculos piloeorrectores, la pared de los vasos sanguíneos y en el dartos.¹ Son extremadamente raros, en la bibliografía hay aproximadamente 50 casos.² Comunicamos el caso de un paciente de 50 años de edad con un tumor escrotal con diagnóstico anatomopatológico de leiomioma. De forma multidisciplinaria, revisamos la bibliografía y discutimos la rareza de la manifestación de esta enfermedad, el trabajo diagnóstico inicial, los criterios oncológicos en el manejo quirúrgico, los factores de pronóstico y, finalmente, el dilema del manejo coadyuvante.

CASO CLÍNICO

Paciente masculino de 50 años, agricultor, sin antecedentes patológicos ni oncológicos de importancia, con tiempo de enfermedad de 8 meses caracterizada por un tumor escrotal de crecimiento progresivo lento y esporádicamente dolor tipo punzada. Al examen físico, se encontró un tumor de 3 x 3 x 5 cm, localizado en el rafo medio y el hemiescroto izquierdo, de consistencia firme como caucho, multinodular, superficie lisa, piel escrotal no ulcerada con pérdida de pliegues, individualizable y sin daño de órganos intraescrotales. No se encontraron adenopatías periféricas. **Figura 1A y B**

En términos ecográficos, en el escroto, a 2 cm de la base del pene, a nivel mediano y paramediano izquierdo, se observó un nódulo subcutáneo, hipocogénico, de 30 x 14 x 26 mm, de contornos ondulados bien delimitados; al estudio Doppler, se visualizó vascularización periférica e interna multifocal. Los testículos, los epidídimos y los cordones espermáticos eran normales. **Figura 1C**

Inicialmente se realizó resección de tumor con losange de escroto. La macroscopia describió

piel escrotal de 6 x 5 cm, con nódulo subcutáneo de 4.1 x 3.5 x 2.4 cm; al corte, se observó un tumor blanquecino, bien encapsulado, de aspecto sólido, con algunas áreas hemorrágicas y de consistencia firme. **Figura 2A y B**

Al microscopio se observó una neoplasia maligna fusocelular sarcomatoide de localización subcutánea; tenía áreas pleomórficas, índice mitótico de 7-10 mitosis/10CAP y necrosis tumoral en el 30% de la muestra. No se identificó embolia vascular ni infiltración perineural. Bordes quirúrgicos libres de neoplasia (**Figura 2C y D**). El perfil inmunohistoquímico se muestra en el **Cuadro 1**, con lo que se concluyó como diagnóstico leiomioma.

En la evaluación del paciente posterior a la cirugía, en el escroto se encontró una cicatriz de 4 cm, bien afrontada, con engrosamiento a la palpación en toda su extensión, por lo que se realizó resección local amplia de cicatriz con ampliación de márgenes laterales y profundos (**Figura 3**). En el estudio patológico no se encontró evidencia de neoplasia maligna.

Los estudios de extensión de enfermedad fueron negativos, pero por el riesgo de metástasis regional se indicó radioterapia; el paciente recibió 5000 cGy en 25 sesiones a la cadena ganglionar iliaca e inguinal bilateral. Actualmente, a 6 meses de la cirugía inicial, se encuentra sin evidencia de enfermedad.

DISCUSIÓN

El leiomioma escrotal es una afección rara con aproximadamente 50 casos reportados, la mayor parte de causa desconocida. Sólo existen algunos reportes de exposición previa a radioterapia por enfermedad benigna (leiomioma y hemangioma escrotal) o maligna (cáncer de próstata), con una latencia de 7 a 30 años.^{3,4,5} La mayoría de los pacientes se diagnostican entre la cuarta y séptima década de la vida, pero el

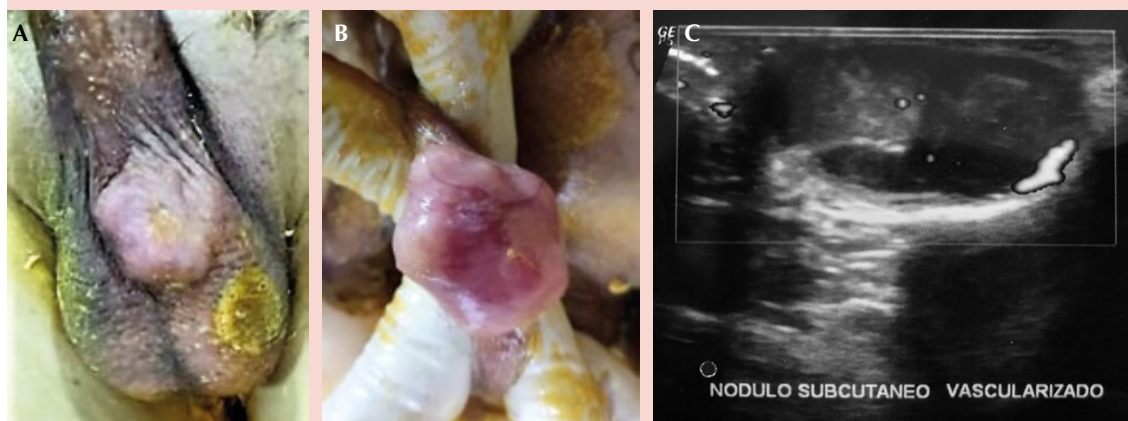


Figura 1. Tumor escrotal. **A.** Localizado a 2 cm del pene, en la línea media izquierda. **B.** Individualizable, multinodular, no afecta estructuras intraescrotales. **C.** A la ecografía Doppler se observa un nódulo escrotal vascularizado de bordes delimitados.

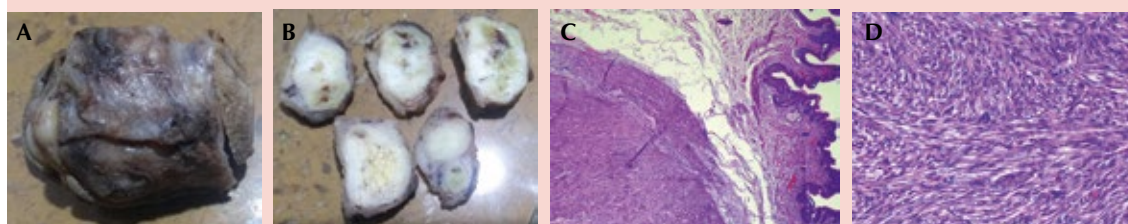


Figura 2. Macroscopia y microscopia. **A.** Vista macroscópica fijada en formol del tumor escrotal. **B.** Cortes seriados donde se observa tumoración nodular, blanquecina, sólida. Microfotografías a 10X y 20X (H&E). **C.** Nódulo tumoral subcutáneo. **D.** Vista a mayor aumento en la que se observa neoplasia fusocelular de tipo sarcomatoide con moderado pleomorfismo e hiperchromasia nuclear.

intervalo es amplio, con edades entre 27 y 89 años.^{6,7} En el caso comunicado, el paciente no tenía factores oncológicos de riesgo y estaba en el grupo etario más común.

El síntoma descrito con más frecuencia es el tumor escrotal de crecimiento lento, por lo general no doloroso.^{2,8,9} En términos clínicos se manifiestan como masas delimitadas en la pared escrotal

y sin afectación de las estructuras adyacentes, a medida que progresa la enfermedad la piel puede ulcerarse; este signo se considera indicativo de malignidad.^{8,10-13} Un gran número de casos reportados fueron diagnosticados inicialmente como lesiones quísticas epidérmicas.^{2,10,14,15,16}

La ecografía escrotal es fundamental en el diagnóstico diferencial, además de ser fiable para

Cuadro 1. Perfil inmunohistoquímico

Marcador	Resultado
Desmina	Positivo
Actina	Positivo parcial
h-caldesmon	Positivo
CD 56	+/-
Panqueratina	Negativo
S 100	Negativo
P 63	Negativo
CD 34	Negativo
MDM-2	Negativo
P 53	Negativo
Ki 67	30-40%

determinar el estado del cordón y los testículos con sensibilidad del 95 al 100%. En esta enfermedad suele mostrar una masa hipoeoica, heterogénea, delimitada y con aumento de la vascularización en el Doppler.^{13,17} Otro estudio importante es la resonancia magnética, útil para casos dudosos cuando sea necesario definir la localización del tumor, características morfo-

lógicas, la extensión de la masa en los tejidos vecinos y el estadiaje.¹⁷

El patrón de referencia para el diagnóstico es el examen anatomopatológico, en el que se observa un tumor compuesto por células fusiformes con núcleos en forma de cigarro dispuestos en fascículos entrelazados.¹⁶ Para diferenciarlo del leiomioma, la actividad mitótica y atipia nuclear son los criterios histológicos más importantes.^{2,13} La confirmación diagnóstica se realiza con el estudio inmunohistoquímico que permite diferenciarlo de otras neoplasias fusocelulares; el patrón clásico expresa positividad para vimentina, desmina, h-caldesmon, actina muscular específica, alfa actina y miosina de músculo liso.^{1,16,17}

La escisión quirúrgica amplia es el tratamiento inicial estándar; la radicalidad ha variado en el tiempo, con reportes que describían cirugías mutilantes con resección amplia del escroto y órganos intraescrotales,^{18,19} posteriormente con márgenes de 3 a 5 cm¹¹ y actualmente con bordes de al menos 10 mm para tener bajo riesgo

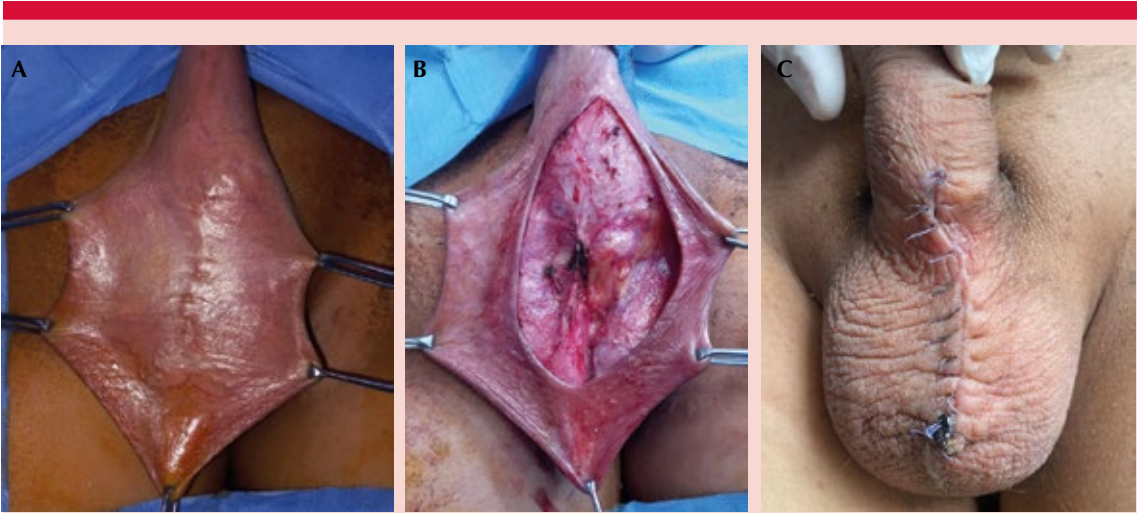


Figura 3. Resección de cicatriz. A. Cicatriz escrotal. B. Lecho escrotal posterior a la resección de cicatriz con márgenes amplios. C. Herida operatoria afrontada en proceso de cicatrización.

de recurrencia local.^{8,10,15,20} La mayor parte de las publicaciones indican que realizaron una segunda ampliación quirúrgica, pero ninguna describe sarcoma residual.

Son pocos los reportes de recurrencia local;^{12,20,21,22} la mayor parte 2 a 4 años después de la primera cirugía; en tres se realizó resección amplia, con informes de supervivencia libre de enfermedad a 4, 14 y 18 meses.^{13,23,24} En teoría, si la progresión tumoral es lenta y la evidencia de recurrencia local y metástasis es poca, consideramos que sería suficiente obtener bordes quirúrgicos negativos, o incluso plantear la cirugía de Mohs como reporta Taylor en un caso y Llombart en su algoritmo de leiomiosarcomas cutáneos.^{1,2}

Se han descrito tres vías de diseminación: 1) por contigüidad a órganos y tejidos adyacentes; 2) vía hematógena al pulmón, hígado, hueso y partes blandas y 3) vía linfática a ganglios inguino-crurales. Son contados los reportes de metástasis en vísceras, cuatro en el pulmón,^{5,9,22,23} una en el hígado³ y una en el hígado y el pulmón,²⁴ todos con supervivencia de 1 a 48 meses. También encontramos 2 comunicaciones de casos que al año de la resección del primario tuvieron adenopatías inguinales, por lo que se les realizó linfadenectomía con informes patológicos de ganglios infiltrados por leiomiosarcoma, en ambos a los 12 y 16 meses; la enfermedad progresó con derrame pleural en uno y metástasis pulmonar y hepática en otro.^{22,24}

El manejo posterior a la resección del leiomiosarcoma escrotal no está definido y no tenemos protocolos estandarizados. El conocimiento del drenaje linfático escrotal permitió plantear la linfadenectomía inguinal e iliaca profiláctica, pero considerando que la metástasis ganglionar es poco frecuente y que no hay evidencia de beneficio en la supervivencia, sólo se realiza si existe sospecha clínica o en estudios de imagen.^{22,24}

La quimioterapia actualmente no tiene un papel determinante y puede indicarse cuando el paciente no acepta la cirugía o a título paliativo en enfermedad metastásica; son pocos los reportes para sugerir recomendaciones sobre quimioterapia coadyuvante posterior a resección del primario o linfadenectomía.^{8,24} La radioterapia tampoco tiene definida su indicación, no existen trabajos que sugieran su utilidad para evitar la recurrencia locorregional.²⁴ El paciente del caso comunicado fue evaluado de manera multidisciplinaria, concluyendo que no era tributario de quimioterapia, pero sí radioterapia a nivel de la cadena ganglionar iliaca e inguinal bilateral. A seis meses de seguimiento desde la cirugía, el paciente se encuentra sin evidencia de enfermedad.

CONCLUSIONES

Los leiomiosarcomas de escroto son poco frecuentes y actualmente no tienen definido algún factor de riesgo. En general, su crecimiento es lento, incluso cuando existe recurrencia local. La ecografía es el estudio inicial para definir su localización y descartar el daño de órganos intraescrotales. Su manejo requiere un enfoque multidisciplinario; el tratamiento inicial es la resección local amplia del tumor con bordes quirúrgicos libres, que deben ampliarse si se sospecha afectación de los mismos. Aún no existe suficiente evidencia de la eficacia del tratamiento complementario con linfadenectomía, quimioterapia o radioterapia.

REFERENCIAS

1. Llombart B, Serra-Guillen C, Requena C, Alsina M, et al. Leiomiosarcoma y sarcoma pleomórfico dérmico: directrices para el diagnóstico y tratamiento. *Actas Dermosifiliogr* 2019; 110 (1): 4-11. <https://doi.org/10.1016/j.ad.2018.06.012>.
2. Taylor A, Dason S, Zynger D. Clinicopathologic features of scrotal leiomyosarcoma: single institutional experience of ten cases. *Human Pathology* 2022; 124: 96-102. <https://doi.org/10.1016/j.humpath.2022.03.011>.
3. Siegal G, Gaffey T. Solitary leiomyomas arising from the tunica dartos scroti. *J Urol* 1976; 116 (1): 69-71. [https://doi.org/10.1016/S0022-5347\(17\)58680-2](https://doi.org/10.1016/S0022-5347(17)58680-2).

4. Dalton D, Rushovich A, Victor T, Larson R. Leiomyosarcoma of the scrotum in a man who had received scrotal irradiation as a child. *J Urol* 1988; 139 (1): 136-138. [https://doi.org/10.1016/S0022-5347\(17\)42322-6](https://doi.org/10.1016/S0022-5347(17)42322-6).
5. Prameela C, Ravind R. Leiomyosarcoma of scrotum: A rare in-field second malignancy in a previously irradiated carcinoma of prostate and review of literature. *J Cancer Res Ther* 2017; 13 (2): 276-278. <https://doi.org/10.4103/0973-1482.189401>.
6. Iida K, Endo M, Tsutsumi M, Ishikawa S. Leiomyosarcoma of the scrotum: a case report. *Acta Urologica Japonica* 2000; 46 (12): 919-921. <https://europepmc.org/article/med/11211813>.
7. Johnson S, Rundell M, Platt W. Leiomyosarcoma of the scrotum. A case report with electron microscopy. *Cancer* 1978; 41 (5): 1830-1835. [https://doi.org/10.1002/1097-0142\(197805\)41:5<1830::aid-cnrcr2820410526>3.0.co;2-o](https://doi.org/10.1002/1097-0142(197805)41:5<1830::aid-cnrcr2820410526>3.0.co;2-o).
8. Batra A, Marwah N, Marwah S, Gupta S, et al. Subcutaneous leiomyosarcoma of scrotum presenting as an exophytic mass: An unusual presentation. *Indian Dermatol Online J* 2015; 6 (3): 193-195. <https://doi.org/10.4103/2229-5178.156394>.
9. Newman PL, Fletcher CD. Smooth muscle tumours of the external genitalia: clinicopathological analysis of a series. *Histopathology* 1991; 18 (6): 523-529. <https://doi.org/10.1111/j.1365-2559.1991.tb01479.x>.
10. Patel B, Vora A, Muruve N. Case of subcutaneous leiomyosarcoma of the scrotum presenting as a sebaceous cyst in a 71-year-old man: A case report and review of the literature. *Urol Case Rep* 2014; 2 (6): 181-182. <https://doi.org/10.1016/j.eucr.2014.07.008>.
11. Belmar P, Baniandr s O, Nieto O, Mu oz-Zato E, et al. Leiomyosarcoma located in the scrotal area. *Actas Dermosifiliogr* 2004; 95 (10):638-640. [https://doi.org/10.1016/S0001-7310\(04\)76903-3](https://doi.org/10.1016/S0001-7310(04)76903-3).
12. Agrawal R, Gupta M, Mohan N, Sharan J, et al. Recurrent leiomyosarcoma scrotum: An important differential in scrotal masses. *Indian J Pathol Microbiol* 2017; 60 (4): 581-583. https://doi.org/10.4103/IJPM.IJPM_391_16.
13. Zeng J, Pollock G, Addams J, Bracamonte E, et al. Leiomyosarcoma of the scrotum: a case report and literature review. *Translational Andrology Urology* 2021; 10 (3): 1342-1346. <https://doi.org/10.21037/tau-20-1184>.
14. John T, Portenier D, Auster B, Mehregan D, et al. Leiomyosarcoma of scrotum-case report and review of literature. *Urology* 2006; 67 (2): 424.e13-424.e15. <https://doi.org/10.1016/j.jurology.2005.09.022>.
15. Venyo A, Baiden-amissah K, Paiva-correia A, et al. Subcutaneous scrotal leiomyosarcoma presenting as pedunculated multi-locular cystic growth in the scrotum mimicking a sebaceous cyst: A case report and review of the literature. *WebmedCentral Urology* 2011; 2 (10). doi: 10.9754/journal.wmc.2011.002388.
16. Matsuda-Mitake Y, Sawada N, Inoue C, Kira S, et al. A case of subcutaneous leiomyosarcoma of the scrotum presenting as a slowly growing mass in a 36-year-old male: A case report and literature review. *Urol Case Rep* 2019; 23: 90-91. <https://doi.org/10.1016/j.eucr.2019.01.015>.
17. Erfani Z, Azari-Yam A, Yahyazadeh SR. Scrotal wall leiomyosarcoma: a case report and review of the literature. *J Med Case Rep* 2021; 15 (1): 465. <https://doi.org/10.1186/s13256-021-03076-x>.
18. Naito S, Kaji S, Kumazawa J. Leiomyosarcoma of the scrotum. *Urol Int* 1988; 43 (4): 242-244. <https://doi.org/10.1159/000281346>.
19. Echenique JE, Tully S, Tickman R, Walther MM, et al. A 37-pound scrotal leiomyosarcoma: a case report and literature review. *J Urol* 1987; 138 (5): 1245-1246. [https://doi.org/10.1016/S0022-5347\(17\)43567-1](https://doi.org/10.1016/S0022-5347(17)43567-1).
20. Surya Ram G, Phinehas E, Authy K. Recurrent leiomyosarcoma scrotum of dartos muscle - a nonplussed differential in scrotal swelling. *J Evol Med Dental Sci* 2022; 11 (6): 641-643. <https://doi.org/10.14260/jemds.v11i6.128>.
21. Bansal, D, Varghese, J, Babu, M, Mehta N, et al. Leiomyosarcoma presenting as a scrotal mass. *Urol Case Rep*. 2016;7:42-44. <https://doi.org/10.1016/j.eucr.2016.04.009>.
22. Immergut S, Epstein S, Levy G, Cottler ZR. Leiomyosarcoma of scrotum: case report. *J Urol* 1965; 93 (4): 479-485. [https://doi.org/10.1016/S0022-5347\(17\)63809-6](https://doi.org/10.1016/S0022-5347(17)63809-6).
23. Collier D, Pain J, Hamilton-Dutoit S. Leiomyosarcoma of the scrotum. *J Surg Oncol* 1987; 34 (3): 176-178. <https://doi.org/10.1002/jso.2930340309>.
24. Becchetti A, Monaldi M, Panighi F, Iuliani M, et al. Leiomyosarcoma of the scrotum. *Urol J* 1994; 61 (4): 306-307. <https://doi.org/10.1177/039156039406100415>.