

İnguinal lenfadenopati ile saptanan burned-out testis tümörü

Burned-out testis tumor revealed by inguinal lymphadenopathy

Nil Çulhacı¹, Haluk Erol², İbrahim Meteöğlu¹, Hicran Turhan¹, Mehmet Dündar²¹Adnan Menderes Üniversitesi Tıp Fakültesi, Patoloji Anabilim Dalı, Aydın²Adnan Menderes Üniversitesi Tıp Fakültesi, Üroloji Anabilim Dalı, Aydın

Özet

Testisteki primer tümörü tamamen involusyona giden metastatik testiküler germ hücreli tümörler, ya da burned-out tümörler, nadir görülen olgulardır. Burada, inguinal lenf nodu metastazı ile saptanan bir testiküler germ hücreli tümör olgusu sunulmaktadır. Elliiki yaşındaki erkek hasta sol inguinal bölgesinde şişlik yakınması ile hastaneye başvurmuştur. İnguinal bölgede saptanan lenf nodundan alınan biyopsi örnekleri seminom metastazı ile uyumludur. Fiziksel muayenede sol testiste sert nodül, radyolojik incelemelerde multipl paraaortik ve inguinal lenf nodları saptanmıştır. Hastaya daha sonra sol radikal orşiektomi uygulanmış, histolojik incelemede fibröz skar saptanmış, tümör gözlenmemiştir. Sonuç olarak, metastatik lenf nodu saptandığında testiküler germ hücreli tümörler akla gelmelidir.

Anahtar sözcükler: Lenfadenopati; skleroz; testiküler neoplazmlar.

Abstract

Metastatic testicular germ cell tumors with complete involution of the primary site (i.e. burned-out tumor) are rare entities. In this study, we report a case of testicular germ cell tumor with inguinal lymph node metastasis. A 52-year-old man was admitted to hospital with swelling in his left inguinal area. Lymph node biopsy from the left inguinal area revealed seminoma metastasis. On physical examination a stony hard nodule was discovered in the left testis and radiological imaging demonstrated multiple paraaortic and inguinal lymph nodes. Subsequently, he underwent left radical orchiectomy. Histological examination demonstrated fibrous scar without any tumor formation. In conclusion, testicular regressed germ cell tumor should be suspected when a metastatic lymph node is detected.

Key words: Lymphadenopathy; sclerosis; testicular neoplasms.

Geliş tarihi (Submitted): 29.03.2008

Düzeltilme sonrası kabul tarihi (Accepted after revision): 22.02.2009

Giriş

Gonad dışı yerleşim gösteren germ hücreli tümörler oldukça nadir görülen tümörlerdir ve germ hücreli tümörlerin yaklaşık %1-4'ünü oluşturmaktadır. Bu tümörlerin ya primer olarak ekstraparadikal gelişim gösterdiği ya da regrese olmuş bir testiküler tümörün metastazı olduğu düşünülmektedir. Ancak bu konu hala tartışmalıdır. Spontan olarak ve tamamıyla gerileyen, ancak metastazlarıyla ortaya konabilen testis tümörleri “burned-out tümörler” olarak tanımlanmaktadır.^[1,2] Metastazları çoğunlukla mediastinum, retroperiton, supraklavikuler, servikal ve aksiller lenf nodları ile akciğer ve karaciğerde saptanmaktadır.^[3] Nadiren üst gastrointestinal kanamaya neden olabilen gastrik metastazlar da bildirilmiştir.^[4] Özellikle retroperitoneal alanda saptanan germ hücreli tümörler

aksi ispatlanana dek burned-out testis tümörü gibi düşünülmeli ve bilateral testis dikkatle incelenmelidir. Bu çalışmada inguinal lenf nodu metastazı ile ortaya konan bir burned-out testis tümörü olgusu sunulmaktadır.

Olgu sunumu

Elliiki yaşındaki erkek hasta sol kasıkta şişlik yakınması ile doktora başvurmuş, yapılan fiziksel muayenesinde sol inguinal lenfadenopati yanı sıra, sol testiste sert nodül yapısı dikkati çekmiştir. Sağ testis normal boyutlardadır. Ek olarak sol bacakta şişme ve ağrısı olan hastada nabızlar bilateral normal bulunmuştur. Hastanın kan laktik dehidrogenaz (LDH) (745 U/L, N=125-243) seviyeleri yüksek, α -fetoprotein (AFP), beta HCG, prostat spe-

sifik antijen (PSA) değerleri ise normal sınırlardadır. Ultrasonografik incelemede sol testis parankiminde 4x2.5 cm boyutunda, küçük kalsifikasyonlar içeren hipoekoik solid kitle saptanmıştır. Yapılan abdominal bilgisayarlı tomografide ise sol paraaortik, sol parailyak ve bilateral inguinal lenf nodu pakeleri belirlenmiştir. Öncelikle inguinal bölgede saptanan lenf nodundan başka merkezde alınmış biyopsi örnekleri tekrar değerlendirilmiş, bu örneklerde lenfoid doku yanı sıra fibröz bantlar oluşturan, geniş sitoplazmalı, yuvarlak nükleuslu, belirgin nükleoluslu hücrelerden oluşan tümör varlığı dikkati çekmiştir. Histopatolojik değişiklikler “seminom metastazi” lehine değerlendirilmiştir. Hastaya daha sonra sol radikal orşiektomi uygulanmıştır. Sol testise ait materyalin makroskopik incelemesinde dış yüzü olağan bulunmuş, ancak kesit yüzünde 3.5x3.2x2.6 cm boyutlarında kirli beyaz renkli, solid, sert kıvamlı, iyi sınırlı lezyon dikkati çekmiştir. Epididim ve duktus deferens olağan yapıdadır. Lezyonun tamamı örneklenerek işleme alınmıştır. Histopatolojik incelemede dens fibrozis, yer yer kalsifikasyon, çevre testis dokusunda tubuler skleroz ve atrofi gözlenmiş (Şekil), ancak intratübüler germ hücre neoplazisi veya invazif bir neoplazm saptanmamıştır. İmünohistokimyasal olarak uygulanan plasental alkalen fosfataz (PLAP) ile boyanma olmamıştır. Tüm bu bulgular ışığında sol inguinal bölge lenf nodunda saptanan, seminom özellikleri sergileyen tümörün testisteki primerinin sklerozla tamamıyla gerilediği sonucuna varılmıştır. Hasta operasyon sonrasında 4 kür BEP kemoterapisi almıştır. Tedavi sonrasında lezyonlar gerilemiş olup halen tedavi devam etmektedir.

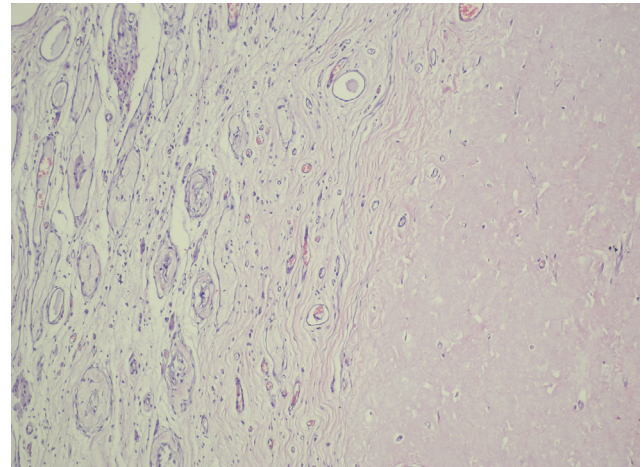
Tartışma

“Burned-out testis tümörü” tanımlaması testisteki primer tümörün metastaz sonrasında spontan gerilemesi durumunda kullanılır.^[1] Spontan gerileme çoğunlukla koryokarsinom gibi nonseminomatöz tümörlerde izlense de olgumuzda olduğu gibi saf seminomatöz tümörlerde de karşımıza çıkmaktadır.^[5,6] Burned-out tümörlerin gelişim nedeni tam olarak bilinmemekle birlikte etyopatogenezinde imünolojik ve iskemik etkenlerden kuşkulıdır.^[1,4,7] Tümöre karşı gelişen imünolojik reaksiyonun primer tümörde spontan nekroza neden olduğu, beraberinde imünoestimulan etki oluşturan endokrin bozukluğun bulunabileceği belirtilmektedir.

Değişik çalışmalarda burned-out testis tümörlü hastalarda fiziksel muayenede testis olağan sınırlarda, atrofik ya da endure bulunmuştur.^[8,9] Yakınmalar arasında başlıcaları skrotal ağrı, abdominal kitle

ve olgumuzda olduğu gibi lenfadenopati olarak belirlenmiştir.^[8] Ultrasonografik olarak testiste hipo-/hiperekojenik lezyonlar ve/veya mikrokalsifikasyonlar gözlenebilir. Kebapçı ve ark. hipoekoik kitle lezyonu bulguları olmasa da noktasal ekojenik odaklar saptandığında regrese testiküler germ hücreli tümörden kuşulanılması gerektiğini belirtmektedir.^[1] Histopatolojik incelemede ise testiste tek ya da multinodüler skar dokusu, skleroz, fibrozis, hemosiderin, atrofik ve hyalinize tübüller, psammom cisimleri, hematoksisilik cisimler, nekroz, yer yer lenfoplazmositik infiltrat, Leydig hücre kümeleri, intratübüler neoplazi bulguları ile primer tümördeki anjiyogenez nedeniyle regresyon sonrasında küçük damar yapıları bildirilmektedir.^[5,9,10] Balzer ve Ulbright çalışmalarında %90 olguda tek nodüler skar saptamış ve bunun önemli bir bulgu olduğunu belirtmişlerdir.^[5] Olgumuzda da tek nodül yapısı, fibrozis ve kalsifikasyon bulunmaktaydı. Balzer ve Ulbright’a göre histopatolojik bulgular içinde regresyonun en spesifik göstergesi skar dokusu yanında intratübüler germ hücre neoplazisidir.^[5] Olgumuzda intratübüler germ hücre neoplazisi saptanmamıştır. Ancak burned-out tümörlerde intratübüler germ hücre neoplazisi yüzdesi %48 olarak bildirildiğinden yokluğu regresyonu ekarte ettirmemektedir. İntratübüler düzensiz kalsifikasyonlar daha az sensitif bulgulardır. Burned-out testis tümörü olgularında ekstraponadal metastazlar retroperiton, mediastinum, karaciğer, akciğer ya da olgumuzdaki gibi lenf nodlarında ortaya çıkmaktadır.

Ayırıcı tanıda primer ekstraponadal germ hücreli tümörler düşünülmelidir. Bu tümörler oldukça nadir olup germ hücrelerinin gelişimi sırasında geçtiği göç yolu üzerindeki primordial germ hücrelerinden



Şekil

Testis dokusunda iyi sınırlı nodüler fibröz skar ve atrofik tübüller (HE, x100).

geliştiği ileri sürülmektedir.^[9] Primer ekstragonadal germ hücreli tümörde testis dokusu olağan görünümündedir. Scholz ve arkadaşlarının çalışmasında ekstragonadal germ hücreli tümör olarak düşünülen olguların %48'inde testiste skar saptanmış ve bu rezidüel tümör olarak yorumlanmıştır.^[9] Bu nedenle testis incelemesinin dikkatli yapılması önerilmiştir. Ancak testisin incelenmesi için palpasyon spesifik bir yöntem değildir.^[11] Çalışmalarda palpasyonda patolojik bir bulgu saptanmayan olguların %91'inde ultrasonografik incelemede şüpheli alanlar görülmüştür.^[12] Bu nedenle ekstragonadal germ hücreli tümör düşünülen hastalarda skrotal ultrasonografinin yapılması özellikle önerilmektedir.^[1,7,12] Eğer radyolojik incelemeler de olağan sınırlarda ise bilateral testis biyopsisi invaziv bir tümör veya intratübüler germ hücre neoplazisi açısından değerlendirilmelidir. Karşı taraf testiste de primer odak bulunabileceğinden mutlaka incelenmesi gereklidir.^[9]

Metastatik testis tümörlerinin prognozu primer ekstragonadal germ hücreli tümörlere oranla daha iyidir. Bu olgularda genel sağkalım açısından testis çıkarılmadığı.^[8] Sistemik kemoterapiye rağmen testiste primer tümör kaldığı görüldüğünden kemoterapi uygulansa da primer testiküler tümörün çıkarılması önerilmektedir.^[9] Mindrup ve Konety primer ekstragonadal germ hücreli tümör tanısı alan bir olguda 50 ay sonra testiküler nüks bildirmektedir.^[13] Bu nedenle gonod dışı germ hücreli tümör tanısı alan hastalarda en azından 3 yıl boyunca 3 ayda bir, daha sonraki 2 yıl boyunca 6 ayda bir ve daha sonra yıllık takipler önerilmektedir. Tümör belirleyicileri ve görüntüleme yöntemleri, özellikle skrotal ultrason, takipte önemlidir.

Testiste var olan değişikliklerin histolojik ayırıcı tanısında ise travma, vasküler infarkt, geçirilmiş cerrahi veya enfeksiyon gibi durumlar da düşünülmelidir. Klinik hikaye, serum belirteçleri ve ultrasonografik inceleme burada da oldukça yardımcıdır. Bu gibi nonneoplastik durumlarda değişiklikler daha çok multifokaldır ve skar dokusu ile kalsifikasyonlar çoğunlukla belirgin değildir. İntratübüler germ hücre neoplazisi de izlenmemektedir.

Sonuç olarak; olgumuzda olduğu gibi metastatik lenf nodu saptandığında aksi ispatlanana dek burned-out testis tümörü gibi düşünülmeli ve bilateral testis klinik ve radyolojik olarak dikkatle incelenmelidir. Testis cerrahi olarak çıkarıldıktan sonra standart kemoterapi uygulanmalıdır.

Kaynaklar

1. Kebapci M, Can C, Isiksoy S, Aslan O, Oner U. Burned-out tumor of the testis presenting as supraclavicular lymphadenopathy. *Eur Radiol* 2002;12:371-3.
2. Ulbright TM, Amin MB, Young RH: Regression of testicular germ cell tumors ("burnt-out" germ cell tumors). In: Tumors of the testis, adnexa, spermatic cord and scrotum. Washington: AFIP; 1997. p. 181-4.
3. Leleu O, Vaylet F, Debove P, Levagueresse R, L'her P. Pulmonary metastasis secondary to burned-out testicular tumor. *Respiration* 2000;67:590.
4. Yamamoto H, Deshmukh N, Gourevitch D, Taniere P, Wallace M, Cullen MH. Upper gastrointestinal hemorrhage as a rare extragonadal presentation of seminoma of testis. *Int J Urol* 2007;14:261-3.
5. Balzer B, Ulbright TM. Spontaneous regression of testicular germ cell tumors. An analysis of 42 cases. *Am J Surg Pathol* 2006;30:858-65.
6. Sarid DL, Ron IG, Avinoach I, Sperber F, Inbar MJ. Spontaneous regression of retroperitoneal metastases from a primary pure anaplastic seminoma. A case report. *Am J Clin Oncol* 2002;25:380-2.
7. Curigliano G, Magni E, Renne G, De Cobelli O, Rescigno M, Torrissi R et al. "Burned-out" phenomenon of the testis in retroperitoneal seminoma. *Acta Oncol* 2006;45:335-6.
8. Fabre E, Jira H, Izard V, Ferlicot S, Hammoudi Y, Theodore C et al. "Burned-out" primary testicular cancer. *BJU Int* 2004;94:74-8.
9. Scholz M, Zehender M, Thalman GN, Borner M, Thöni H, Studer UE. Extragonadal retroperitoneal germ cell tumor: evidence of origin in the testis. *Ann Oncol* 2002;13:121-4.
10. Perimenis P, Athanasopoulos A, Geraghty J, Macdonagh R. Retroperitoneal seminoma with "burned-out" phenomenon in the testis. *Int J Urol* 2005;12:115-6.
11. Minamida S, Irie A, Ishii J, Minei S, Kimura M, Iwamura M et al. Case of seminoma with possible spontaneous regression without extragonadal metastatic lesion. *Urology* 2007;70:1222 e1-3.
12. Küçükzeybek BB, Sarı A, Ermete M, Şahin O, Dinçel Ç. Metastatik retroperitoneal yolk-sac tümör: olgu sunumu. *Türk Üroloji Dergisi* 2007;33:117-20.
13. Mindrup SR, Konety BR. Testicular recurrence from "primary" retroperitoneal germ cell tumor. *Urology* 2004;64:1031.

Yazışma (Correspondence): Doç. Dr. Nil Çulhacı. Adnan Menderes Üniversitesi, Tıp Fakültesi Patoloji Anabilim Dalı, 09100 Aydın, Türkiye
Tel: +90256-444 12 56/227 e-posta: nculhaci@hotmail.com