



Inflammatory pseudotumor of the epididymis: a case report and review of the literature

İnflamatuvar psödotümör: Olgu sunumu ve literatürün gözden geçirilmesi

Recep Bedir¹, İbrahim Şehitoğlu¹, Hakkı Uzun², Cüneyt Yurdakul¹

ABSTRACT

Inflammatory pseudotumors (IPTs) are rare benign tumor-like lesions in the epididymis. They result from myofibrohistiocytic proliferation of the parenchymal organs of the body, such as the lungs and genitourinary system. A 48-year-old male patient presented with a palpable left scrotal mass and showed painless swelling within two months. Scrotal ultrasound revealed a 3 cm solid mass and spermatocele sac in the epididymis. Local excision was performed. Histopathologic and immunohistochemical examination revealed an inflammatory pseudotumor. Only ten cases have been reported to date. We present our case of pseudotumor of the epididymis as the eleventh case reported in the literature with a brief review.

Key words: Epididymis; inflammatory pseudotumor; spermatocele.

ÖZET

İnflamatuvar psödotümör (İPT) epididimde nadir görülen benign tümör benzeri bir lezyondur. Vücudumuzdaki akciğer ve genitouriner sistem gibi parankimatöz organların myofibrohistiyositik proliferasyonudur. Kırk sekiz yaşında erkek hasta sol skrotumda klinik olarak ele gelen 2 aydan beri büyüyen ağrısız şişlik nedeni ile başvurdu. Skrotal ultrasonografide epididimde 3 cm çapında solid kitle ve spermatocele kesesi gözlemlendi. Lokal eksizyon yapıldı. Histopatolojik ve immünohistokimyasal incelenmesi sonucunda inflamatuvar psödotümör olarak tanı verildi. Literatürde günümüze kadar yalnızca 10 olgu bildirilmiştir. Biz literatürde epididimde inflamatuvar psödotümör olarak rapor edilen 11. olguyu sunup ve literatürü kısaca gözden geçireceğiz.

Anahtar sözcükler: Epididim; inflamatuvar psödotümör; spermatocele.

¹Department of Pathology,
Faculty of Medicine, Recep
Tayyip Erdoğan University,
Rize, Turkey

²Department of Urology,
Faculty of Medicine, Recep
Tayyip Erdoğan University,
Rize, Turkey

Submitted:
18.02.2013

Accepted:
20.03.2013

Correspondence:
Recep Bedir
Department of Pathology,
Faculty of Medicine,
Recep Tayyip Erdoğan
University, 53100 Rize, Turkey
Phone: +90 464 213 04 91
E-mail: bedirrecep@gmail.com

©Copyright 2013 by Turkish
Association of Urology

Available online at
www.turkishjournalofurology.com

Giriş

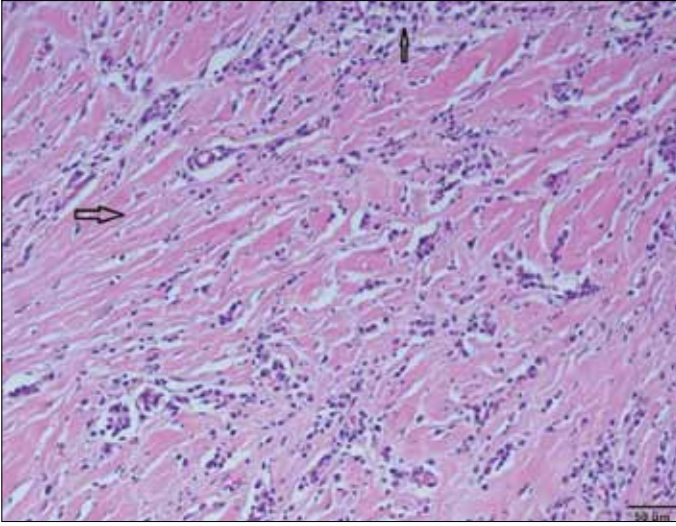
İnflamatuvar psödotümör (İPT) vücudumuzda çeşitli organlarda görülebilen en sık akciğerde rastlanan benign tümör benzeri bir lezyondur. Makroskopik olarak iyi sınırlı, kapsülsüz olup, nodüler ve diffüz büyüme paternleri vardır. Mikroskopik olarak gevşek kollajenize stromada iğsi hücre proliferasyonu ile karışık halde mikst tipte iltihabi hücre infiltrasyonu izlenir. Daha önceleri bu lezyon için birçok isimlendirme yapılmış olup bunlar arasında fibrom, psödofibromatöz periorşitis, reaktif periorşitis, inflamatuvar myofibroblastik tümör, atipik myofibroblastik tümör, plazma hücreli granülom, psödosarkomatöz myofibroblastik proliferasyon, psödosarkom ve fibröz psödotümör yer almaktadır.^[1,2] Paratestiküler yerleşimli İPT, paratestiküler

lezyon ve tümörlerin %6'sını oluştururlar. Epididimde yerleşimli İPT nadir görülmekte olup, literatürde günümüze kadar yalnızca 10 olgu tanımlanmıştır.^[2-4]

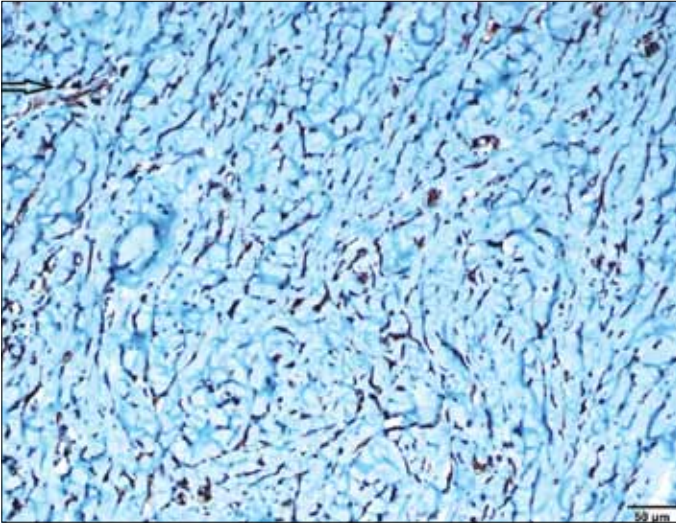
Biz burada 48 yaşında bir hastada epididimde yerleşimli nadir görülen İPT olgusunu klinik ve histopatolojik özellikleri sunarak literatür eşliğinde tartışmayı amaçladık.

Olgu sunumu

Kırk sekiz yaşında erkek hasta sol skrotal bölgede ağrısız şişlik nedeni ile üroloji polikliniğine başvurdu. Bu şişliğin 2 aydan beri var olduğu ve zamanla büyüdüğü öğrenildi. Disüri, idrar yolları enfeksiyonu ve hematüri gözlenmedi. Travma ve radyasyon öyküsü yoktu. Fiziksel muayenede sol skrotumda ele

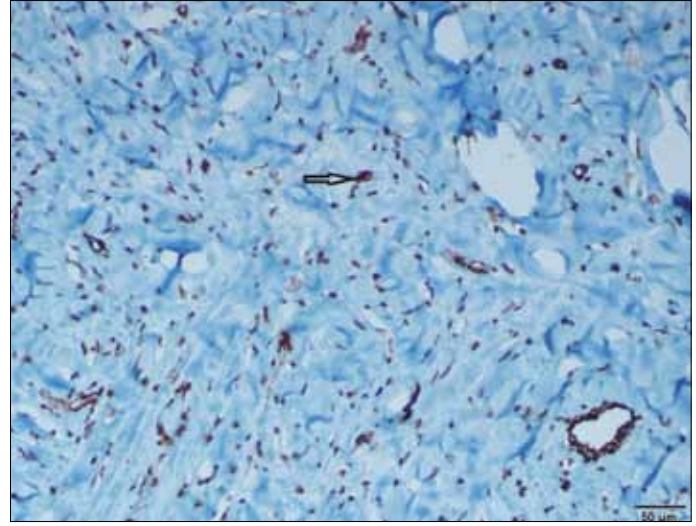


Resim 1. Gevşek kollajenize stromada iğsi myofibroblastik hücreler (kalın ok) ve plazma hücrelerinden zengin kronik iltihabi hücre infiltrasyonu (ince ok), proliferatif damarsal yapılar (H&Ex200)



Resim 2. İğsi myofibroblastik hücrelerde okla işaretli SMA pozitifliği (x200)

gelen yaklaşık 3x2x1,5 cm boyutlarında solid kitle vardı. Skrotal ultrasonografide sol tarafta paratestiküler bölgede sol epididim ucunda solid nitelikte kitle izlendi. Ayrıca hastada 10 cm çapında içinden açık sarı renkli sıvı boşalan spermatozel kesesi gözlemlendi. Hastaya organ koruyucu cerrahi tedavi uygulanmış olup, kitle ve spermatozel kesesi eksizyonu yapıldı. 3 cm çapında düzgün sınırlı kesit yüzeyi gri-beyaz renkli ve solid nitelikte kitlesel lezyon izlendi. Mikroskopik incelemede, proliferatif çaprazlaşan iğsi hücrelerden oluşan kollajenöz stroma içinde plazma hücrelerinden zengin kronik iltihabi hücre infiltrasyonu ve damarsal yapılarda proliferasyon gözlemlendi (Resim 1). Yapılan immünohistokimyasal incelemede kol-



Resim 3. Kollajen fibrillerinde okla işaretli vimentin pozitifliği (x200)



Resim 4. Basıklaşmış tek sıralı kübik epitel (ince ok) ile döşeli ince fibröz duvar (kalın ok) sahip spermatozel kesesi (H&E x200)

lajen demetlerinde vimentin ve myofibroblastik hücrelerde ise düz kas aktini (SMA) pozitifliği gözlemlendi (Resim 2, 3). Mitoz, nekroz ve anaplazi bulguları gözlemlenmedi. Bu bulgular sonucunda inflamatuvar psödötümör tanısı verildi. Birlikte gönderilen spermatozel kesesinde ise tek sıralı basıklaşmış kübik epitel ile döşeli ince fibröz bir duvara sahip kistik yapı gözlemlendi (Resim 4). Yazılı hasta onamı bu olguya katılan hastanın alınmıştır.

Tartışma

Epididimde İPT olgusu ilk defa Lam ve ark.^[5] tarafından tanımlanmıştır. Çoğunlukla öncesinde herhangi bir hastalık olmaksızın rast-

lantısal olarak saptanır. Etiyolojisi tam olarak bilinmemek ile birlikte kronik irritasyon, enfeksiyon, travma ve iskemi sonucunda oluşan reaktif bir cevaptan kaynaklandığı düşünülmektedir. Ebstein-Barr virüsü, Mycobacterium avium-intracellulare ve Human Herpes virüs-8'inde İPT etiyolojisinde rol oynadığı ileri sürülmek ile birlikte bu ilişki kesin olarak doğrulanamamıştır.^[2,6,7] Chan ve ark.^[8] yaptıkları çalışmada lenf nodu, karaciğer ve dalakta rapor edilen İPT olgularında EBV ait küçük nükleer RNA 1 ve 2'yi in-situ hibridizasyon yöntemi ile test etmişlerdir. Fakat epididimde yerleşimli 2 İPT olgusunda EBV ait RNA gözlenmediğini ve bunuda retikuloendotelial sistem organlarından farklı bir etiyolojinin rol oynayabileceğini önermişlerdir.

İnflamatuar psödötümör olguları genellikle skrotal kitle olarak kendilerini gösterirler. Skrotal ultrasonografi yapılarak kitlesel lezyonun çevre yapılar ile ilişkisi ve solid-kistik niteliği incelenir. Paratestiküler İPT skrotal ultrasonografisi ilk defa Kapur ve ark.^[9] tarafından heterojen ekojenite veren, vaskülaritesi artmış, lobüle kitle olarak tanımlanmıştır. Daha sonra Megremis ve ark.^[10] ikinci paratestiküler İPT'de, skrotal ultrasonografide septalı, kistik-solid görünümde çevre testisi basıya uğratmış hipoeoik kitle olarak tanımlama yapmışlardır. Makroskopik olarak, çoğunlukla iyi sınırlı, solid, nodüler kesit yüzeyleri gri-beyaz renkli olup, bazen kistik ve kanamalı olabilirler. Mikroskopisinde, gevşek kollajenize stroma içinde miyofibroblastik diferansiasyon gösterebilen işçi hücre proliferasyonu, mikst tipte iltihabi hücre infiltrasyonu, granülasyon dokusu tipinde vasküler yapılarda artış

izlenir. İnflamatuar hücrelerden baskın olarak plazma hücresi görülmek ile birlikte, lenfositler, nötrofil lökositler, eozinofil lökositler ve histiyositlerde eşlik edebilir. Bazen tümörde hyalinizasyon ve kalsifikasyon bulunabilir.^[2,6,7,11] Bu tümör benign olmak ile birlikte sıklıkla klinik olarak intraskrotal malignensileri taklit edebilir. Bu nedenle çoğunlukla ameliyat öncesi kesin tanı konulamaz. Kesin tanı histopatolojik inceleme sonucunda konur.^[12] İmmünohistokimyasal inceleme tanının doğrulanmasında yardımcıdır. Vimentin, SMA ve CD68 pozitifliği gözlenir. Ayrıca anaplastik lenfoma kinaz (ALK) miyofibroblastik hücrelerde sitoplazmik boyanma gösterir. Olguların %50'sinde ALK'nın pozitif boyanma gösterdiği ve özellikle genç hastalarda daha çok ekspresyon saptandığı bildirilmiştir.^[2,7] Bizim olgumuzda da vimentin mezenkimal hücrelerde, SMA düz kas hücrelerinde ve CD68 histiyositlerde boyanma göstermiş olup, fakat ALK ile boyanma saptanmamıştır. Bulgular Tablo 1'de özetlenen literatürde bildirilen diğer olgulardaki histokimyasal ve immünohistokimyasal bulgular ile uyumluluk göstermektedir.

Paratestiküler yerleşimli İPT ayırıcı tanısında testis ve epididimin çeşitli neoplastik ve inflammatuar oluşumlar yer almaktadır. Bunlar içinde, miksoid liposarkom, rabdomyosarkom, sarkomatoid karsinom, inflammatuar fibrosarkom, inflammatuar liposarkom, malign fibröz histiyositom, spermatosel, varikosel ve nadiren tüberküloz tutulumu yer almaktadır.^[2] Bizim olgumuzda malign bir tümörü düşündürecek mitoz, pleomorfizm ve nekroz gözlenmemiştir. Genitoüriner sistem dışındaki İPT

Tablo 1. Literatürde bildirilen İPT olgularına ait bilgilerin kısa özeti

Kaynak	Yaş	İmmünohistokimyasal bulgular	Tedavi	Yerleşim yeri	Takip
Orosz ve ark. ^[11]	63	SMA (+), vimentin (+), desmin(-), S-100(-), Faktör VIII-ilişkili Ag (-)	Radikal orşiektomi	Sol skrotum	-
Lam ve ark. ^[5]	43	Vimentin (+), SMA (+), desmin (-), sitokeratin (-)	Başlangıçta antibiyotik, daha sonra sınırlı cerrahi eksizyon	Sol skrotum	6 aylık takip sonucunda nüks yok
Chan ve ark. ^[8]	43	Hafif zincir için poliklonal plazma hücreleri (+)	Radikal orşiektomi	Sağ skrotum	-
Jha ve ark. ^[12]	32	Vimentin (+), SMA(+)	Sol orşiektomi	Sol skrotum	-
Brauers ve ark. ^[13]	73	Vimentin (+), CD68 (+), SMA (+), desmin (-), myoglobin (-), myozin (-)	Epididimektomi	Sol skrotum	-
Cooperman ve ark. ^[3]	30	-	Kitlenin eksizyonu	Sağ skrotum	-
Kapur ve ark. ^[9]	36	Vimentin (+), SMA (+), sitokeratin (-), desmin (-), CD34 (-) ALK (-), inhibin (-)	Radikal orşiektomi	Sağ skrotum	-
Megremis ve ark. ^[10]	45	SMA (+), desmin (+), CD34 (-) S-100 (-), sitokeratin (-), ALK(-)	Radikal orşiektomi	Sol skrotum	3 yıllık takip sonucunda nüks yok
Dangle ve ark. ^[7]	22	Vimentin (+), SMA (+), CD3 (+), CD20 (+), CD68 (+), ALK-1 (-), CD138 (-)	Radikal orşiektomi	Sağ skrotum	4 yıllık takip sonucunda nüks yok
Tunuguntla ve ark. ^[2]	17	-	Radikal orşiektomi	Sağ skrotum	-
Bizim olgumuz	42	Vimentin (+), SMA (+), CD68(+), ALK (-)	Lokal eksizyon	Sol skrotum	1 yıllık takip sonucunda nüks yok

için cerrahi olmayan tedavi seçenekleri arasında siklosporin, kortikosteroid, metotroksat, antibiyotikler ve radyasyon kullanımı yer almaktadır.^[7] İPT'nin tedavisi cerrahi olup, çeşitli seçenekler vardır. Cooperman ve ark.^[3] normal testis dokusu ile kitle ayırımı ultrasonografi ile doğrulanmış ve frozen ile malignensi dışlanmış ise ektratestiküler kitleler için lokal eksizyon önermişlerdir. Brauers ve ark.^[13] normal testiste ile birlikte 1 cm'lik klinik olarak palpabl kitle için epididimektomi yapılması gerektiğini bildirmişlerdir. Lam ve ark.^[5] ise klinik olarak testis ile ayırımı yapılamayan sert skrotal kitleler için orşiektomiye önermişlerdir. Tümörün komplet cerrahi rezeksiyondan veya kombine organ koruyucu tedavi seçeneklerinden sonra nüks görülme olasılığı çok nadirdir.^[10] Kapur ve ark.^[9] cerrahi tedavinin başarısız olduğu nüks olgularda radyoterapi, metotroksat ve kortikosteroidlerin tedavide kullanılabileceğini bildirmişlerdir. Bizim olgumuzda kitle ektratestiküler yerleşimli olup, ultrasonografi ile normal testis dokusu ile ayırımı yapıldığından ve malignensi düşünülmeyişi için spermatosel kesesi ile birlikte lokal eksizyon yapılmıştır. Bu tümörün abdominal ve retroperitoneal varyantları, ekstraabdominal yerleşimli olanlara göre daha agresif bir potansiyele sahip olmak ile birlikte epididimde yerleşimli İPT için bu zamana kadar nüks bildirilmemiştir.^[7] Bizim hastamızda da 1 yıllık takip sonucunda nüks saptanmamıştır.

Sonuç olarak; testis ve epididimde yerleşimli kitlelerin benign ve malign ayırımı klinik olarak zor olduğundan kesin tanı için cerrahi eksizyon sonrası histopatolojik inceleme yapılması gerekir. Paratestiküler yerleşimli kitlelerin ayırıcı tanısında nadirde görülse İPT akılda tutulmalıdır.

Conflict of Interest

No conflict of interest was declared by the authors.

Peer-review: Externally peer-reviewed.

Informed Consent: Written informed consent was obtained from patient who participated in this case.

Author Contributions

Concept - R.B.; Design - R.B., İ.Ş.; Supervision - R.B., C.Y.; Funding - R.B.; Data Collection and/or Processing - R.B., C.Y.; Analysis and/or Interpretation - R.B.; Literature Review - R.B.; Writer - R.B.; Critical Review - R.B.

Çıkar Çatışması

Yazarlar herhangi bir çıkar çatışması bildirmemişlerdir.

Hakem değerlendirmesi: Dış bağımsız.

Hasta Onamı: Yazılı hasta onamı bu olguya katılan hastadan alınmıştır.

Yazar Katkıları

Fikir - R.B.; Tasarım - R.B., İ.Ş.; Denetleme - R.B., C.Y.; Kaynaklar - R.B.; Veri toplanması ve/veya işlemesi - R.B., C.Y.; Analiz ve/veya yorum - R.B.; Literatür taraması - R.B.; Yazıyı yazan - R.B.; Eleştirel İnceleme - R.B.

Kaynaklar

- Orosz Z, Besznayk I. Diffuse Inflammatory Pseudotumor of the Testis, the Epididymis and the Spermatic Cord. *Pathol Oncol Res* 1995;1:75-9. [\[CrossRef\]](#)
- Tunuguntla H, Mishra A, Jorda M, Gosalbez R. Inflammatory myofibroblastic tumor of the epididymis: case report and review of the literature. *Urology* 2011;78:183-5. [\[CrossRef\]](#)
- Cooperman R, White B, Zincke JP, Kardon D, Andrawis R. Extratesticular inflammatory myofibroblastic tumor. *J Urol* 2003;169:1473. [\[CrossRef\]](#)
- Gleason BC, Hornick JL. Inflammatory myofibroblastic tumor: where are we now? *J Clin Pathol* 2008;61:428-37. [\[CrossRef\]](#)
- Lam KY, Chan KW, Ho MHM. Inflammatory pseudotumor of the epididymis. *Br J Urol* 1995;75:255-7. [\[CrossRef\]](#)
- Karahan N, Çandır Ö. Epididimde inflamatuvar psödotümör: olgu sunumu. *Genel Tıp Derg* 2006;16:125-8.
- Dangle PP, Wang WP, Pohar KS. Inflammatory myofibroblastic tumor of epididymis: a case report and review of literature. *World J Surg Oncol* 2008;6:119. [\[CrossRef\]](#)
- Chan KW, Chan KL, Lam KY. Inflammatory pseudotumor of epididymis and Epstein-Barr virus: a study of two cases. *Pathology* 1997;29:100-1. [\[CrossRef\]](#)
- Kapur P, Treat T, Chuang AT, Hoang M. Pathologic quiz case: paratesticular mass in young man. Inflammatory myofibroblastic tumor of the paratestis. *Arc Pathol Lab Med* 2004;128:589-90.
- Megremis S, Papamitsaki E, Ieromonachou P, Zois E. Inflammatory myofibroblastic tumor of the paratestis sonographic appearance with pathologic correlation. *J Ultrasound Med* 2007;26:1227-30.
- Oliva E, Young RH. Paratesticular tumor-like lesions. *Semin Diagn Pathol* 2000;17:340-58.
- Jha A, Baidya JL, Batajoo R. Paratesticular fibrous pseudotumor arising from tunica vaginalis. *Nepal Med Coll J* 2009;11:145-6.
- Brauers A, Striepecke E, Mersdorf A, Sohn M, Fiuzesi L. Inflammatory pseudotumor of the epididymis. *Eur Urol* 1997;32:253-5.