

## RELATO DE CASO E REVISÃO DE LITERATURA

## HEMANGIOMA TESTICULAR CAVERNOSO – RELATO DE CASO E REVISÃO DE LITERATURA

*Cavernous testicular hemangioma – case report and literature review*

<sup>1</sup>Marcus Vinícius Silva Costa, <sup>2</sup>Tereza Cristina Monteiro de Melo Prazeres, <sup>3</sup>Benito Júnior Santos da Costa, <sup>4</sup>Ingrid Lima Albuquerque

 ACESSO LIVRE

**Citação:** Costa MVS, Prazeres TCMM, Da Costa BJS, Albuquerque IL. (2020) Hemangioma testicular cavernoso – relato de caso e revisão de literatura Revista de Patologia do Tocantins, 7(1):113-116

**Instituição:** <sup>1</sup> Residente de Urologia do Hospital Universitário Presidente Dutra (HU-UFMA), São Luís (MA), Brasil.

<sup>2</sup>Preceptora do Programa de Residência Médica em Urologia e Médica Assistente do Hospital Universitário Presidente Dutra (HU-UFMA), São Luís (MA), Brasil.<sup>3</sup> Cirurgião Geral do Hospital Municipal Djalma Marques, São Luís (MA), Brasil. <sup>4</sup> Acadêmica de Medicina da Universidade Federal do Maranhão, São Luís (MA), Brasil. Relato de caso desenvolvido no Hospital da Universidade Federal do Maranhão. São Luís, Maranhão, Brasil

**Autor correspondente:** Ingrid Lima Albuquerque;  
[ingrid.limaa@hotmail.com](mailto:ingrid.limaa@hotmail.com)

**Editor:** Guedes V. R. Medicina, Universidade Federal do Tocantins, Brasil.

**Publicado:** 09 de junho de 2019.

**Direitos Autorais:** © 2020 Da Costa et al. Este é um artigo de acesso aberto que permite o uso, a distribuição e a reprodução sem restrições em qualquer meio, desde que o autor original e a fonte sejam creditados.

**Conflito de interesses:** os autores declararam que não existem conflitos de interesses.

**RESUMO**

Hemangioma testicular é extremamente raro e ocorre principalmente em pacientes com menos de vinte anos de idade. Devido à semelhança com lesões malignas, a orquiectomia radical geralmente é o tratamento estabelecido. No presente relato de caso, apresentamos um paciente com quinze anos de idade, apresentando tumoração testicular unilateral, com contornos irregulares, alto fluxo na ultrassonografia com Doppler e marcadores tumorais negativos. Submetido a orquiectomia radical, sendo evidenciado hemangioma testicular cavernoso, um tumor raro, de evolução benigna, cujo diagnóstico histopatológico é considerado o padrão ouro. Com base neste relato, foi feita uma revisão de literatura com os principais aspectos sobre esse diagnóstico.

**Palavras chave:** hemangioma testicular; neoplasia testicular benigna; orquiectomia.

**ABSTRACT**

Testicular hemangioma is extremely rare and occurs primarily in patients less than twenty years old. Due to the similarity with malignant lesions, radical orchiectomy is usually the established treatment. In the presente case report, we presente a patient with fifteen years old, presenting unilateral testicular tumor with irregular contours, high flow on Doppler ultrasonography and negative tumor markers. Submitted to radical orchiectomy, being evidenced cavernous testicular hemangioma, a rare tumor, of benign evolution, whose histopathological diagnosis is considered the gold standard. Based on this report, a literature review was done with the main aspects about this diagnosis.

**Keywords:** testicular hemangioma; benign testicular neoplasm; orchiectomy

## INTRODUÇÃO

Com o conhecimento cada vez maior da angiogênese, a Sociedade Internacional para o Estudo das Anomalias Vasculares (ISSVA) classificou as alterações vasculares em tumores e malformações. Os tumores ocorrem principalmente devido hiperplasia endotelial, já as malformações ocorrem de um defeito na embriogênese dos vasos<sup>1</sup>.

Os tumores testiculares de origem vascular possuem natureza benigna, os hemangiomas estão dentro desta classe e acometem principalmente pacientes com menos de vinte anos de idade, a mesma faixa etária em que os tumores de células germinativas podem se apresentar. Até o momento, foram identificados quatro tipos de hemangiomas testiculares, de acordo com o aspecto histopatológico: cavernoso, histiocitóide, capilar e hiperplasia endotelial papilar<sup>2</sup>.

Os hemangiomas cavernosos são extremamente raros, com 26 casos relatados na literatura de língua inglesa. São caracterizados por vasos grandes, dilatados, porém com paredes finas, que podem ser tão anormais a ponto de não ser possível caracterizá-las como arteriais ou venosas. Acredita-se que a interrupção da formação da rede capilar dê origem aos hemangiomas cavernosos<sup>3</sup>.

Devido à grande semelhança do quadro clínico com lesões malignas, a abordagem geralmente é agressiva, com a realização de orquiectomia radical, embora a ressecção parcial possa ser uma opção<sup>3,4</sup>.

## RELATO DE CASO

Um termo de consentimento livre e esclarecido para a publicação deste relato de caso foi obtido com o responsável legal pelo paciente. Paciente de quinze anos de idade, compareceu ao serviço de urgência com queixa de dor e aumento testicular à direita, de início há cinco dias, acompanhado de febre não aferida. Ao exame físico, apresentava dor à palpação, hiperemia em hemibolsa testicular direita e sinal de Prehn positivo. Foi solicitado ultrassonografia (US) Doppler de bolsa testicular, sendo evidenciado imagem heterogênea em polo inferior do testículo direito, com vascularização periférica capsulada de alto fluxo, medindo 2,5cm no seu maior diâmetro (Figuras 1 e 2). Fez uso de antibioticoterapia e analgésicos por uma semana, apresentando regressão do quadro doloroso, porém mantendo aumento testicular, com contornos irregulares. Após dois meses, foi submetido a nova US, que evidenciou lesão semelhante, com as mesmas características.

Fig 1. Aspecto ultrassonográfico do testículo direito, heterogêneo, com vascularização acentuada



Fig 2. Aspecto ultrassonográfico do testículo esquerdo sadio

Dosagem dos marcadores tumorais: desidrogenase láctica (DHL), alfa-fetoproteína (AFP) e gonadotrofina coriônica humana (hCG), todos negativos. Foi submetido a orquiectomia radical à direita, sem intercorrências. Recebeu alta hospitalar com 48h e apresentou boa evolução no acompanhamento ambulatorial durante seis meses. O resultado da análise histopatológica evidenciou extensa lesão vascular composta por vasos largos e comunicantes, congestionados, configurando

hemangioma cavernoso, além de sinais de isquemia crônica na periferia da lesão, com parênquima testicular atrofico. Ausência de sinais de malignidade na amostra.

## DISCUSSÃO

Os hemangiomas de partes moles são os tumores benignos de origem vascular mais comuns. Na população pediátrica, estão localizados principalmente na cabeça e pescoço (60%), tronco (25%) e extremidades (15%), raramente na região genitália<sup>5</sup>. Nos testículos, os tumores são malignos na maioria dos casos<sup>6</sup>, principalmente nos adultos, onde representam 95% dos casos. Porém, na pré-puberdade, as lesões benignas podem chegar a 70%<sup>7</sup>.

Os hemangiomas testiculares, que são lesões benignas, são extremamente raros e podem ocorrer em diversas faixas etárias. Quatro tipos histológicos já foram relatados: cavernosos, capilares, histiocitoides e hiperplasia endotelial papilar<sup>8</sup>. O caso apresentado é de um hemangioma cavernoso no testículo. O aumento testicular unilateral, com alteração ou não da sensibilidade local, é a principal forma de apresentação, que é similar aos tumores testiculares malignos. A presença ou ausência de dor não é um achado consistente, podendo o hemangioma testicular ser diagnosticado em um quadro agudo de torção ou associado a isquemia tecidual<sup>19/10</sup>. O paciente do caso apresentou dor testicular, que pode ter sido por causa do hemangioma ou da isquemia tecidual. Somente em 27% dos casos este sintoma está presente<sup>11</sup>.

De forma ainda mais rara, um hemangioma testicular pode se apresentar com sangramento ou ulceração cutânea. Não há relatos de regressão espontânea da lesão e complicações como infertilidade e necrose testicular podem acontecer. Pode ser vista ainda extensão da lesão para o pênis, parede abdominal anterior e períneo<sup>12/13</sup>. Há ainda relatos da presença de hemangiomas testiculares em associação com hemangiomas em outros sítios, como bexiga e fígado<sup>14/15</sup>.

Os hemangiomas genitais podem ser confundidos com teratomas testiculares, devido a presença de trombos calcificados, ou com varicocele, quando localizados no tecido subcutâneo do escroto. Os casos relatados na literatura apresentaram uma boa evolução, sem presença de metástases ou recorrência da lesão<sup>16</sup>. Em alguns casos, o crescimento pode ser rápido, simulando mais ainda um tumor maligno<sup>17</sup>.

Embora a ultrassonografia com Doppler seja o exame de escolha para caracterizar lesões testiculares, há uma baixa especificidade para diferenciar lesões sólidas malignas das benignas, devido alto grau de semelhança, o mesmo acontece com imagens geradas por ressonância magnética (RM)<sup>18</sup>. Em 80% dos casos, os hemangiomas são vistos na US como imagens hipocogênicas, mas também podem ser hiperecogênicas ou heterogêneas<sup>2/19/20</sup>, como no caso apresentado. Alguns estudos citam a ultrassonografia de alta frequência e o uso de contraste como ferramenta para melhorar o diagnóstico diferencial de lesões testiculares<sup>21</sup>, porém ainda são poucos os trabalhos com o uso deste exame em lesões benignas, com a avaliação histopatológica sendo ainda considerada necessária para o diagnóstico definitivo<sup>11</sup>.

Quando os marcadores tumorais são negativos e a lesão possui focos de calcificação, há uma chance maior de corresponder a um hemangioma cavernoso. Porém os marcadores são elevados em somente metade dos pacientes com tumores malignos, que são cada vez mais frequentes, havendo uma estimativa de que a incidência dobrou nos últimos quarenta anos. O diagnóstico diferencial deve conter neoplasias de células germinativas, adenomatoides e estromais de células do cordão sexual, como os de células de Sertoli<sup>17</sup>.

As opções terapêuticas possíveis são a excisão cirúrgica, fulguração com laser, escleroterapia intralesional e crioterapia<sup>1</sup>. Há ainda vários relatos de sucesso no tratamento dos hemangiomas infantis com betabloqueadores, porém em outros sítios que não os testículos. Apesar do mecanismo de ação ainda desconhecido, postula-se que os receptores beta teriam papel importante na angiogênese e proliferação vascular<sup>22</sup>. Com base nisto, e com a melhora da acurácia do US de alta frequência, este tratamento poderia ser utilizado nas suspeitas de lesões benignas.

A orquiectomia radical é realizada em 63,6% dos casos, considerada atualmente um sobretratamento, podendo causar infertilidade, danos psicológicos e desordens endocrinológicas. Os outros casos são submetidos a orquiectomia parcial, que pode ser realizada em caso de suspeita de lesão benigna no pré-operatório, com realização de biopsia de congelamento no intra-operatório<sup>1/11</sup>.

A cirurgia poupadora vem se tornando mais popular nos últimos anos, sendo indicada principalmente para pequenas massas, com diâmetro menor que 1,5cm ou 2,0cm, dependendo dos autores<sup>23</sup>. Como a lesão apresentada pelo paciente era de 2,5cm no seu maior diâmetro e os exames pré-operatórios não asseguravam a natureza da lesão, se maligna ou benigna, foi optado por realizar orquiectomia radical.

## CONCLUSÃO

O Hemangioma testicular cavernoso é um tumor bastante raro e, caso o diagnóstico pudesse ser feito de forma precisa no pré-operatório, o tratamento agressivo poderia ser evitado, diminuindo os impactos físicos e emocionais que a orquiectomia causa nos pacientes jovens. A ultrassonografia de alta frequência, aliada ao uso de contraste, se apresenta como uma nova ferramenta na avaliação pré-operatória. Quando a imagem sugerir lesão benigna, associada a marcadores tumorais negativos, a biopsia de congelamento deve ser indicada objetivando uma cirurgia poupadora de tecido. Em qualquer suspeita de lesão maligna, a orquiectomia radical deve ser realizada.

## REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Talmon GA, Stanley SM, Lager DJ, et. al. Capillary hemangioma of the testis. *Int J Surg Pathol.* 19 (2011) 398-400.
2. Mazal PR, Kratzik C, Kain R, et. al. Capillary hemangioma of the testis. *J Clin Pathol.* 53 (2000) 641-642.

3. Tepeneu NF, Krafka K, Meglic S, et. al. Testicular cavernous hemangioma associated with testicular torsion – case report and review of literature. *Int J Surg Case Rep.* 2018; 49:247-250.
4. Suriawinata A, Taleman A, Vapneck JM et. al. Hemangioma of the testis: report of unusual occurrences of cavernous hemangioma in a fetus and capillary hemangioma in an older man. *Ann Diagn Pathol.* 5(2001) 80-83.
5. Nayyar S, Liagat N, Sultan N, et. al. Cavernous hemangioma mimicking as clitoral hypertrophy. *Afr J Paediatr Surg.* 11 (2014) 65-66
6. Frias-Kletecka MC, MacLennan GT. Benign soft tissue tumors of the testis. *J Urol.* 192:312-313.
7. Tallen G, Driever P, Degenhardt G, et. al. High reliability of scrotal ultrasonography in the management of childhood primary testicular neoplasms. *Klin Padiatr.* 3 (2011) 131-137.
8. Kaygusuz EI, Çetiner H, Moralioglu S, et. al. Testicular cavernous hemangioma presenting as an ipsilateral lesion in a child with multicystic dysplastic kidney. *Turk J Pediatr.* 57 (2015) 632-634.
9. Minagawa T, Murata Y. Testicular cavernous hemangioma associated with intrascrotal testicular torsion: a case report. *Hinyokika Kyo.* 55 (2009) 161-163.
10. Mazzella FM, Sieber SC, Lopez V. Histocytoid hemangioma of the testis: a case report. *J Urol.* 153 (1995) 743-744.
11. He Y, Liao H, Xiang X, et. al. High-frequency ultrasonography and contrast-enhanced ultrasound for the evaluation of testicular capillary hemangioma. *Medicina* 98 (2019) 98:11
12. Rastogi R. Diffuse cavernous hemangioma of the penis, scrotum, perineum, and rectum: a rare tumor. *Saudi J Kidney Dis Transpl.* 19 (2008) 614-618
13. Froehner M, Tsatalpas P, Wirth MP. Giant penile cavernous hemangioma with intrapelvic extension. *Urology* 53 (1999) 414-415
14. Keret D, Kam I, Bem-Arieh Y, et. al. Scrotal cavernous hemangioma with a family history of cutaneous angiomata. *J R Soc Med.* 83 (1990) 402-403.
15. Yanai S, Tsutsumi H, Hotsubo T, et. al. Development of a testicular haemangioma after interferon therapy for hepatic hemangiomas: a case report. *Eur J Pediatr.* 156 (1997) 784-786
16. Liu B, Chen J, Lue J, et. al. Cavernous hemangioma of the testis mimicking a testicular teratoma. *Exp Ther Med.* 6 (2013) 91-92
17. Bonetti LR, Schirosi L, Sartori G, et. al. Rapidly-growing hemangioma of the testicle clinically simulating an aggressive neoplasm, a case report. *101 (2009) 123-125.*
18. Muller T, Gozzi C, Akkad T, et. al. Management of incidental impalpable intratesticular masses of  $\leq 5$ mm in diameter. *BJU Int.* 98 (2006) 1001-1004
19. Atkin G, Miller M, Clarkson KS, et. al. Testicular capillary hemangioma in a child. *J R Soc Med.* 94 (2001) 638-640
20. Vital RJ, Mattos LA, Souza LRMF, et. al. Sonographic findings in non-neoplastic testicular lesions. *Radiol Bras* 1 (2007) 40
21. Isidori AM, Pozza C, Gianfrilli D, et. al. Differential diagnosis of nonpalpable testicular lesions: qualitative and quantitative contrast-enhanced US of benign and malignant testicular tumors. *Radiology* 273 (2014) 606-618
22. Gonzalez CE, Hernandez A, Villalon CM, et. al. B-adrenoceptor blockade for infantile hemangioma therapy: do b3-adrenoceptors play a role? *J Vasc Res.* 55 (2018)159-168.
23. Connolly SS, D’Arcy FT, Bredin HC, et. al. Value of frozen section analysis with suspected testicular malignancy. *Urology* 67 (2006) 162-165