

POLIORQUIDISMO CON TORSIÓN: REPORTE DE UN CASO Y REVISIÓN DE LA LITERATURA

Dres. Gabriela Konajovich*, Diego Bustamante**.

RESUMEN

El poliorquidismo refiere a la presencia de más de dos testículos y es una anomalía urológica muy poco frecuente con menos de 200 casos descritos en la literatura mundial (1,2,11,15). No se han encontrado casos publicados en nuestro país.

Se presenta el caso de un varón de 15 años que consulta por una masa palpable indolora en hemiescrotal izquierdo, por lo cual se le realiza una ecografía y una resonancia magnética que confirma el diagnóstico. Posteriormente el paciente consulta por dolor y es intervenido quirúrgicamente de urgencia con el diagnóstico de torsión.

Este caso se publica por la baja frecuencia de presentación y su asociación con la torsión y mayor riesgo de malignidad (3,4). De allí reside la importancia que todo imagenólogo debe conocer su existencia, para realizar un preciso diagnóstico y orientar la terapéutica a seguir.

Palabras clave: Poliorquidismo, Resonancia Magnética, Ecografía.

ABSTRACT

Polyorchidism refers to the presence of more than two testicles and is a very unusual urological anomaly with less than 200 cases described in the world literature (1,2,5,15). No published cases have been found in our country.

We report the case of a 15-year-old male with a palpable painless mass in the left hemiscrotum, therefore ultrasound and magnetic resonance were performed, and the diagnosis was confirmed. Afterwards the patient presented acute pain and was operated urgently with the diagnosis of testicular torsion.

We report the case because of the low frequency of the anomaly and its association with torsion and increased risk of malignancy (3,4). This is why it is important for all imaging specialists to know about its existence in order to make an accurate diagnosis and guide the therapy to be followed.

Key words: Polyorchidism, Magnetic Resonance, Ultrasound.

INTRODUCCIÓN

El poliorquidismo es una anomalía congénita definida como la presencia de más de dos testículos a nivel intraescrotal o extraescrotal y con menor frecuencia en la cavidad abdominal. El primer reporte fue realizado en 1670 por Blasius y el primer caso con confirmación histológica fue en 1895 por Lane (6) (8).

Se han informado menos de 200 casos publicados en la literatura mundial (1) (2). La mayoría de los casos son clínicamente asintomáticos. La media de los pacientes a la detección es de 17 años y se presenta como una masa escrotal o inguinal (5).

Este diagnóstico se confirma mediante dos estudios imagenológicos; la ecografía y la resonancia magnética, los cuales permiten también orientar la terapéutica a seguir.

El riesgo de malignidad (6 %) hace que la extracción quirúrgica se considere una opción, no obstante existen reportes de pacientes asintomáticos los cuales indican la

posibilidad de un seguimiento imagenológico (5) (12) (19).

El poliorquidismo puede tener diferentes presentaciones clínicas: como una masa palpable indolora o torsión testicular. La forma más frecuente de presentación es el poliorquidismo con predominio del lado izquierdo (65 %).

CASO CLÍNICO

Se presenta el caso de un paciente de 15 años que consulta por la aparición de masa indolora en hemiescrotal izquierdo. El examen físico y la paraclínica (alfa feto proteína, subunidad beta de gonadotropina coriónica, lactato deshidrogenasa) incluido el espermograma no evidenciaban ninguna alteración.

Se solicita una ecografía en la que el hallazgo más destacado fue la presencia en hemiescrotal izquierdo de una masa bien definida, ubicada cefálica y adyacente al testículo, la cual presentaba una ecoestructura de similares características a la del testículo normal, no encontrándose características sospechosas de malignidad. (fig 1)

Sanatorio CAMY.

IAMPR Young.

Uruguay.

*Postgrado

Imagenología

UDELAR.

**Postgrado Urología
UDELAR.

Con el estudio Doppler color se evidenció que cada testículo poseía su pedículo y no existían alteraciones en la vascularización a nivel parenquimatoso (fig. 2). El testículo izquierdo cefálico supranumerario presentaba una rete testis prominente (fig 3).

Si bien se visualizaba un solo conducto deferente y un epidídimo que envolvía totalmente el testículo supernumerario; el testículo izquierdo estaba rodeado parcialmente en el polo superior. Esta situación generaba duda de su relación y se decidió complementar el estudio con una resonancia magnética.

La evaluación complementaria con resonancia magnética

confirmó la presencia de un testículo supernumerario que mostraba las mismas características que los testículos normales; una estructura ovalada homogénea claramente demarcada con una intensidad baja a intermedia en imágenes ponderadas en T1 y una señal alta en imágenes ponderadas en T2. Estaba rodeado por una túnica albugínea que evidenciaba baja intensidad en T1 y baja en T2. (fig 4) El epidídimo se observaba mejor en las imágenes ponderadas en T2 porque tenía una señal más baja que el testículo adyacente. Se vio como este rodeaba totalmente al testículo supernumerario y parcialmente al testículo izquierdo cefálico (fig 5). En cuanto al pedículo vascular, se observó un pequeño vaso que se relacionaba con el testículo seprnnumerario izquierdo (fig 6).



Figura 1
Corte oblicuo muestra los tres testículos, los superficiales pertenecientes al hemi escroto izquierdo y el profundo al derecho. Obsérvese las características ecoestructurales testiculares que confirman el diagnóstico.

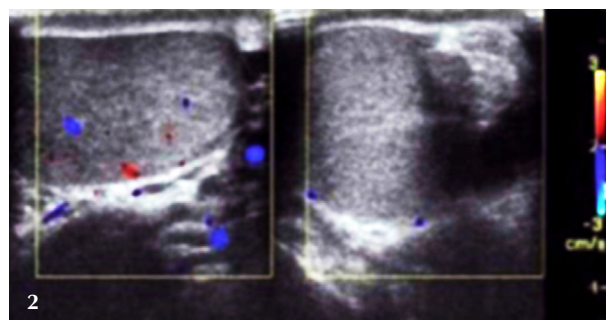


Figura 2
A la derecha de la imagen el testículo normal inferior izquierdo y a izquierda el testículo supernumerario. Como era de esperar el mismo se encuentra aumentado de tamaño y sin vascularización al estudio doppler color provocada por la isquemia de la torsión.



Figura 3
se muestra la rete testis prominente del testículo supernumerario del hemiescrotos izquierdo (flecha blanca).

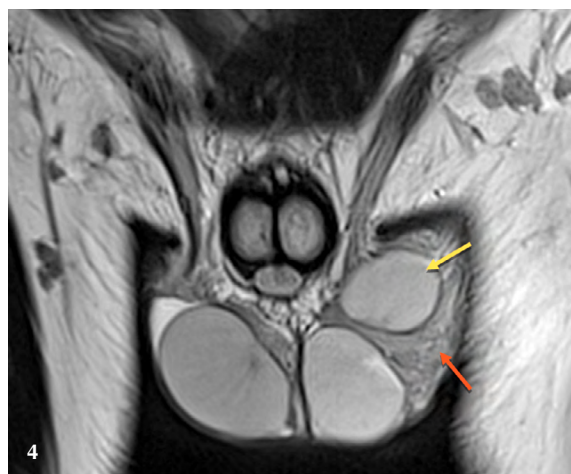


Figura 4
Resonancia con imagen coronal ponderada en T2 evidencia y confirma la poliorquidia.
Se observa claramente la disposición del epidídimo (señal intermedia menor a testículo, flecha roja). Nótese que el testículo supernumerario posee las mismas características en RM que los testículos normales (Flecha amarilla).

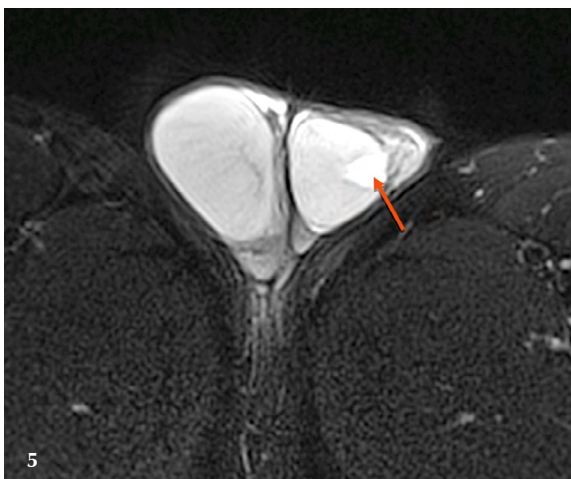


Figura 5
T2 axial con saturación grasa
donde evidencia en testículo supernumerario la rete testis prominente la cual es más brillante que el parénquima del testículo que lo rodea.



Figura 6
T2 Fat sat
donde evidencia a izquierda el pequeño pedículo que presenta el testículo izquierdo supernumerario (a diferencia del testículo en hemiescoto derecho).

Posteriormente el paciente consultó en emergencia por dolor de aparición brusca e intenso en hemiescrotal izquierdo. En el examen físico se palpó un testículo superior tumefacto y doloroso con cordón espermático engrosado. Se solicitó una ecografía de urgencia que evidenció el testículo supernumerario izquierdo aumentado de tamaño, con ecoestructura heterogénea y levemente más hipoeoico con respecto al contralateral; se acompañaba de escaso hidrocele y al estudio Doppler color no evidenciaba vascularización en el parénquima (no se

cuenta con imágenes de dicho estudio). Con diagnóstico de torsión se decide la intervención quirúrgica inmediata. Se realizó una exploración escrotal, previo consentimiento informado del paciente y su familia. Bajo anestesia general se realiza incisión escrotal transversa izquierda, disección por planos hasta túnica albugínea donde se encontró dos estructuras de aspecto y consistencia similar al testículo. El superior medía 2 cm, era de consistencia más dura y de coloración grisácea, presentaba un solo pedículo vascular sobre el cual estaba torsionado (fig. 7-9). El testículo infe-

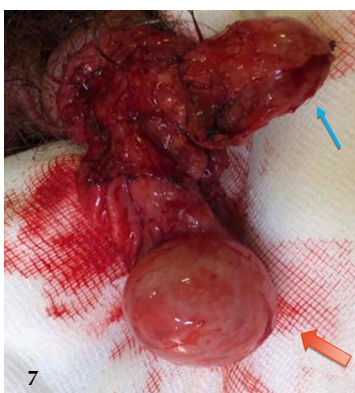


Figura 7
Se observa el testículo supranumerario (flecha azul) con torsion sobre eje vascular y el testículo inferior (flecha anaranjada) de aspecto habitual con vascularización y conductos ¿escretorios? de aspecto normal y únicos.

Figura 8
Se observa el testículo izquierdo remanente con vascularización normal y conducto deferente y epidídimo único.

Figura 9
Orquiectomía de teste supranumerario luego de torsión.

rior poseía su pedículo vascular, epidídimo y deferente de características habituales. Se realizó ligadura y sección del testículo superior con correcta hemostasia y se envió la pieza para el correspondiente estudio anatomopatológico. Se realizó un bolsillo subdartos fijando el testículo normal. Se realizó también fijación del teste contralateral. El paciente evolucionó favorablemente y a las 24 horas se otorgó el alta con control en policlínica. El resultado de anatomía patológica informó: necrosis isquémica del parénquima testicular vinculado a torsión sin elementos de malignidad.

DISCUSIÓN

La poliorquidia es una entidad rara que se debe tener presente cuando se nos presenta un paciente con una masa intraescrotal. Generalmente se encuentra asociada con otras afecciones como la hernia inguinal, criptorquidia y torsión testicular (8).

Se desconoce el mecanismo exacto de su producción, se han propuesto varias teorías: plegamiento peritoneal, segmentación de las gónadas primitivas, la división longitudinal o transversal de la cresta genital (3).

Berholz y colegas publicaron un meta-análisis (11) de 187 casos de los cuales 140 fueron confirmados histológicamente, la mayoría eran adultos jóvenes (media de 17 años). En general se presentaba a izquierda como una triorquia, las ubicaciones más frecuentes fueron la intraescrotal (66 %), el canal inguinal (23 %) y el retroperitoneo (9 %) (6).

La forma de presentación clínica más frecuente es como una masa escrotal indolora, no obstante puede sufrir complicaciones, por ejemplo su torsión (13 %) como en el caso de nuestro paciente. También presenta una mayor incidencia de cáncer (6,25 % según Giyanani et al (7)) donde el tejido tumoral displásico y la espermatogénesis alterada se postulan como sus precursores. Por último pueden existir anomalías asociadas como las malformaciones testiculares, hernia inguinal (30 %), hidrocele (9 %) o hipospadias (1 %) (3).

En la ecografía el testículo normal es ligeramente ecogénico con una estructura homogénea. La túnica albugínea habitualmente no se visualiza en ausencia de hidrocele, aunque se ve como una estructura ecogénica en el punto donde se invagina hacia el testículo para formar su mediastino (24).

El epidídimo en ecografía es iso o hipoecogénico con respecto al testículo y presenta igual o menor vascularización con el Doppler. La cabeza es su porción más voluminosa y más fácilmente identificable, se ubica cefálica y lateral al polo superior testicular. El cuerpo y cola normales son de menor tamaño y posición variable. (25).

Frente a una masa escrotal como fue el caso de nuestro paciente, es fundamental la diferenciación entre su origen intra y extratesticular; ya que las primeras son habitualmente malignas, mientras que las extratesticulares son generalmente benignas. En nuestro caso la ecografía

confirmó el origen extratesticular de la masa y permitió realizar el diagnóstico de poliorquidia debido a las características de ecogenicidad y ecoestructura iguales entre la masa y el testículo.

Se excluyeron de este modo otros diagnósticos de masas extra testiculares como las lesiones quísticas, (hidrocele, quistes epididimarios) procesos inflamatorios e infecciosos del epidídimo (no planteables en este caso por la clínica del paciente) o hernias inguinoescrotales. (23) (24). También se excluyeron masas extratesticulares neoplásicas. Dentro de ellas el lipoma la más frecuente existiendo otras menos comunes como los derivados de la túnica vaginal (tumor adenomatoide, mesotelioma o quiste intraepitelial benigno) (26) así como los leiomiomas, angiomiofibromas, pseudotumores fibrosos y la fusión esplenonogonadal; siendo esta entidad muy poco frecuente (26).

Los tumores malignos también pueden surgir en los tejidos blandos extratesticulares e incluyen el liposarcoma, leiomioma y hemangioma maligno.

La ecografía también juega un rol fundamental en el diagnóstico del cuadro agudo de bolsa escrotal. Frente a una masa escrotal dolorosa se debe diferenciar: orquiepididimitis, torsión, varicocele, espermatocele, quistes y tumor benigno o malignos en sufrimiento (2). En estos casos la complementación con el método Doppler es fundamental para la diferenciación entre procesos como la epidídimo orquitis, la torsión de apéndices testiculares y la torsión testicular; los cuales tienen manifestaciones clínicas similares pero su tratamiento es diferente (18). En nuestro caso el estudio confirmó el planteo clínico de torsión del testículo supranumerario.

Dada la alta precisión de la ecografía para el diagnóstico de poliorquidia y torsión testicular y debido a su rápida accesibilidad; habitualmente el ultrasonido es suficiente. La resonancia magnética rara vez es necesaria, reservándose para los casos de resultados no concluyentes en la ecografía.

En las imágenes de resonancia magnética el testículo normal tiene una intensidad de señal intermedia homogénea en imágenes ponderadas en T1 y una intensidad de señal alta (ligeramente menor que la del fluido) en imágenes ponderadas en T2. La túnica albugínea aparece como una banda delgada de baja intensidad de señal que rodea el testículo con ambas secuencias de pulsos. La arquitectura interna del testículo se ve mejor en imágenes ponderadas en T2 donde se pueden ver septos delgados de baja intensidad de señal que se irradian desde el mediastino, el que forma una banda a lo largo del margen posterior del testículo. El epidídimo es isointenso o ligeramente hipointenso en relación con el testículo en imágenes ponderadas en T1 e hipointenso en imágenes ponderadas en T2.

En los casos de anomalía palpable o sospecha de masa, (como en nuestro caso) se debe incluir al menos una secuencia de supresión grasa para ayudar a identificar la grasa macroscópica. Su uso también puede ayudar

a identificar colecciones de líquido o edema de tejidos blandos (3).

En el caso de nuestro paciente la resonancia magnética fue de utilidad para confirmar la relación entre el epidídimo y el testículo supranumerario.

En cuanto al tratamiento; existen varias clasificaciones en la literatura (10) (3), no obstante, nos referiremos a la clasificación de Singer (16) la cual algunos autores creen que es la más sencilla pues se basa en las dos características fundamentales para la toma de decisiones clínico terapéuticas: la funcionalidad y la localización del testículo. En el Tipo I el testículo accesorio tiene potencial reproductivo ya que presenta conexión de salida hacia el epidídimo y conducto deferente. En el tipo II el testículo carece de conducto de salida hacia el epidídimo y conducto defe-

rente. A su vez cada uno se divide en tipo A o B según su ubicación sea intraescrotal o ectópica. (10)

Se considera que los testículos ectópicos y los tipos II sin potencial reproductivo deben extraerse. Los tipos I A deben resecarse si hay cambios displásicos en la biopsia, espermatogénesis ausente, sospecha de malignidad en las imágenes o si el seguimiento periódico imagenológico del testículo es imposible de realizar (10).

En nuestro paciente basándonos en la posibilidad de malignización existente en los testículos supernumerarios se planteó la orquiectomía coordinada. En la evolución el paciente sufre la complicación ya mencionada (torsión) por lo tanto es intervenido de urgencia realizándose la orquiectomía del testículo torsionado.

CONCLUSIÓN

Se ha presentado un caso de poliorquidia, anomalía poco frecuente y hemos revisado el rol la ecografía y la resonancia magnética en su diagnóstico y seguimiento.

*Agradecemos a
Dra. Margarita García Fontes
Lic. Gabriela Cabrera Castroman
Prof. Dr. Luis Dibarhoure*

REFERENCIAS

1. Yalçinkaya S, Sahin C, Sahin AF. Polyorchidism: sonographic and magnetic resonance imaging findings. *Can Urol Assoc J*. 2011 Oct;5(5):E84-6. doi: 10.5489/cuaj.10077.
2. Hwang S, Aronof DR, Leonidas, JC. Polyorchidism with Torsion: case 82. May 1 2005, *Radiology*. <https://doi.org/10.1148/radiol.2351030604>
3. Garza-Montufar ME, Olvera-Posada D. Polyorchidism: a case presentation and review of the literature. *Rev Mex Urol*. 2017;77(2):143-150.
4. Olano Grasa I, Llarena Ibaguren R, García-Olaverri Rodríguez J, et al. Polyorchidism. *Arch Esp Urol*. 2009; 62: 59-62.
5. Berholz R, Wenke K. Polyorchidism: a meta-analysis. *J. Urol* 2009, 182(5): 2422-2427.
6. Bhogal RH, Palit A, Prasad KK Conservative management of polyorchidism in a young man: a case report and review of literature. *Pediatr Surg Int*. 2007; 23: 689-91.
7. Giyanani VL, McCarthy J, Venable DD, Terkeurst J, Fowler M. Ultrasound of polyorchidism: case report and literature review. *J Urol* 1987; 138:863-864.
8. Vela Guzman MJ, Arias Llórente A, Cisneros Jiménez R. Triorchidia y hernia inguinal. Presentación de un niño de 6 años. *Rev. Cubana Cir* 1985; 24:424.
9. Fiona Hughes Cassidy, Kevin M Ishioka, et al. MR Imaging of scrotal tumors and pseudotumors. *Radiographics*, May 2010, 30(3):665-683. <https://doi.org/10.1148/rg.303095049>
10. Singer BR, Donaldson JC, Jackson DS. Polyorchidism: functional classification and management strategy. *Urology*. 1992;39:384-388. doi: 10.1016/0090-4295(92)90220-Q.
11. Beiko D, MacNeily AE†. Torsion of bilobed testis and biopsy-proven ipsilateral supernumerary testis in an adolescent. *Can Urol Assoc J* 2010;4(3):E67-E70 .
12. Duymuş M, Menzilioğlu MS, Çetinçakmak M, Avcu S. A Rare Case of Polyorchidism: Four Testes. *Pol J Radiol*. 2016 Feb 5;81:39-41. doi: 10.12659/PJR.895568.
13. Abduljabbar AH. A case report: Triorchidism; is a rare mistaken cause for extra testicular neoplasm. *Urol Case Rep*. 2015; 3:89-91

14. Hassan A, El-Mogy S, Mostafa T. Triorchidism: informe de un caso y revisión de condiciones similares. *Andrologia*. 2008; 40: 265-9.
15. Bayraktar A, Olcucuoglu E, Sahin I, Bayraktar Y, Tas-temur S, Sirin E. Management of polyorchidism: Surgery or conservative management? *J Hum Reprod Sci*. 2010 Sep;3(3):162-3. doi: 10.4103/0974-1208.74166.
16. Wu G, Yuan JJ, Wu Q, Du T, Zhou RJ, Yang L. [High-frequency color Doppler ultrasonography: valuable for diagnosis of polyorchidism]. *Zhonghua Nan Ke Xue*. 2010 Aug;16(8):716-20. Chinese. PMID: 21090347.
17. Repetto P, Ceccarelli P, Bianchini A, Durante V, Biondini D, et al. Three small testes in left hemiscrotum: a rarer case of polyorchidism. *J Pediatr Surg*. 2010; 45 : e21-3.
18. Aso C, Enríquez G, Fité M, Torán N, Piró C, Piqueras J, Lucaya J. Gray-scale and color Doppler sonography of scrotal disorders in children: an update. *Radiographics*. 2005 Sep-Oct;25(5):1197-214. doi: 10.1148/rg.255045109.
19. Martínez Huertas C, Martín Mellado R, Muñoz AM, et al. Estudio ecográfico de los tumores testiculares. <https://piper.espacio-seram.com/index.php/seram/article/view/1921>
20. Seminoma *RadioGraphics* 2002 22(1): 188 <https://doi.org/10.1148/radiographics.22.1.g02ja29188>.
21. Rodríguez-Patron Rodríguez Rafael, Mayayo Dehesa Teodoro, García González Ricardo, Arias Fúnez Fernando, Lennie Zuccarino Alberto, Sanz Mayayo Enrique. Biopsia transrectal ecodirigida de próstata: aportación de una unidad urológica de diagnóstico ecográfico tras 10 años de experiencia. *Arch. Esp. Urol.* [Internet]. 2006 Mayo [citado 2021 Mayo 12] ; 59(4): 397-406. Disponible en: http://scielo.isciii.es/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0004-06142006000400009&lng=es.
22. Woodward PJ, Schwab CM, Sesterhenn IA. From the archives of the AFIP: extratesticular scrotal masses: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics*. 2003 Jan-Feb;23(1):215-40. doi: 10.1148/rg.231025133.
23. Wolfman DJ, Marko J, Gould, CF, Sesterhenn, I. A., Lattin, G. E. Mesenchymal extratesticular tumors and tumorlike conditions: From the Radiologic Pathology Archives. *RadioGraphics*, 35(7), 1943–1954. doi:10.1148/rg.2015150179.
24. Kim, W., Rosen, M. A., Langer, J. E., Banner, M. P., Siegelman, E. S., & Ramchandani, P. (2007). US–MR Imaging Correlation in Pathologic Conditions of the Scrotum. *RadioGraphics*, 27(5), 1239–1253. doi:10.1148/rg.275065172
25. Garriga V, Serrano A, Marín A, et al. US of the tunica vaginalis testis: anatomic relationships and pathologic conditions. *RadioGraphics*, 29(7), 2017–2032. doi:10.1148/rg.297095040
26. Giorgio Pomara G. Splenogonadal Fusion: A Rare Extratesticular Scrotal Mass. Letter to the Editor *RadioGraphics* Mar 2004. doi.org/10.1148/rg.242035171

