

Apéndices testiculares y epididimarios. Contribución a la embriología y a la patogénesis*

E. Blesa¹, C. Moreno¹, A. Blesa¹, L. Rodríguez², R. Núñez¹, R. Cabrera¹

¹Servicio de Cirugía Pediátrica. ²Cátedra de Biología Celular.
Hospital Universitario Materno-Infantil «Infanta Cristina». Badajoz.

RESUMEN: Objeto: Los apéndices testiculares son estructuras con actividad biológica y capacidad de isquemia o degeneración ante determinados estímulos. Hemos observado un aparente incremento en nuestro ámbito de torsión de apéndices testiculares. Ello, junto con dudas relacionadas con la embriogénesis y patogenidad de estas estructuras nos induce a la realización del presente trabajo.

Pacientes y Métodos: 1. Estudio clínico retrospectivo de pacientes intervenidos por torsión de apéndices testiculares desde Enero de 1984 a Diciembre de 2001. Valoramos edad, año de intervención y características clínicas. 2. Estudio clínico prospectivo de pacientes intervenidos desde Marzo de 1999 a Marzo de 2000 por torsión de apéndices. Valoramos edad, tiempo de evolución, grado de isquemia, estado nutricional, estadio de maduración sexual y volumen testicular. 3. Estudio inmunohistoquímico de apéndices testiculares y epididimarios. Se identifican los receptores estrogénicos.

Resultados: Existe un incremento evidente en la incidencia anual de isquemia de apéndices testiculares, siendo la edad media, de $9,3 \pm 2,5$ años, similar a lo largo de todo el estudio. En los pacientes del grupo 2, el tiempo medio de evolución fue de $49,2 \pm 46,6$ horas. Los apéndices de estos pacientes mostraban edema y diferentes grados de isquemia, en ausencia de torsión en 14 de 21 pacientes. Su índice de masa corporal fue de $19,5 \pm 3,7$, y el 90% de ellos presentaban un estadio I/II de Tanner. La media del volumen testicular fue de $2,1 \pm 1,6$ ml. Mediante inmunohistoquímica se identificaron receptores estrogénicos en 7 de los 8 apéndices testiculares estudiados y ausencia de ellos en los 2 epididimarios.

Conclusiones: El síndrome clínico de escroto agudo en la mayoría de los casos es producido por edema e isquemia de los apéndices en ausencia de torsión, probablemente producido como respuesta a estimulación hormonal (en mayor o menor grado) en el periodo prepuberal, o a otros agentes ambientales. Las diferencias encontradas en los receptores estrogénicos sugieren un origen diferente para los apéndices testiculares y epididimarios.

PALABRAS CLAVE: Apéndices testiculares; Torsión; Estrógenos; Periodo prepuberal.

Correspondencia: Emilio Blesa Sánchez, Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Materno-Infantil «Infanta Cristina», Avda. Damián Téllez Lafuente s/n, 06010 Badajoz.

*Trabajo presentado en el IV Congreso Ibérico de Cirugía Pediátrica. XLI Congreso de la Sociedad Española. XI Congresso Da Sociedade Portuguesa. Salamanca, 22-25 de Mayo de 2002.

Recibido: Mayo 2002

Aceptado: Agosto 2002

TESTICULAR AND EPIDIDYMAL APPENDAGES. CONTRIBUTION ABOUT ITS EMBRIOLOGY AND PATHOGENESIS

ABSTRACT: Objective: The testicular appendages are structures with biologic activity and with the possibility to become ischaemic or to degenerate before determined stimulus. Latterly we have seen an apparent increase in our cases of torsion of testicular appendages. The said, together with the questions about embryology and pathogenesis of this structures, encourage us to do this work.

Patients and methods: 1- Retrospective clinical study of patients operated of torsion of testicular appendages, from January 1984 to December 2001. We asses age, year of operation and clinical features. 2- Prospective clinical study of patients operated of torsion of testicular appendages, between March 1999 and March 2000. We asses age, time of evolution, degree of ischaemia, nutritional status, sexual maturity stage and testicular volume. 3- Immunocytochemical study of testicular and epididymal appendages. We identified the oestrogen receptors.

Results: There is a meaningful increase in the yearly incidence of ischaemia of testicular appendages. The mean age of the patients was $9,3 \pm 2,5$ years, similar alone of the study. In the patients of group 2, the mean time of evolution was $49,2 \pm 46,6$ hours. The appendages showed oedema and several degrees of ischaemia in the absence of torsion (14/21). The body mass index was $19,5 \pm 3,7$, and 90% of patients had stages I and II of Tanner. The mean of testicular volume was $2,1 \pm 1,6$ ml. By means of immunocytochemical study we identified oestrogen receptors in 7 of all testicular appendages studied and absence of oestrogen receptors in all epididymal appendages.

Conclusions: The clinical syndrome of the acute scrotum in the majority of cases is due to oedema and ischemia of the appendages, in absence of torsion, probably related to its enlargement in response to hormonal stimulation, at least in some grade, in prepubertal boys. The difference found, related to oestrogen receptors, suggest a different origin for testicular and epididymal appendages.

KEY WORDS: Testicular appendages; Torsion; Oestrogen; Prepubertal boys.

INTRODUCCIÓN

Con el término apéndices testiculares se designan distintas estructuras que se consideran restos embrionarios de go-

naductos. La variedad de su localización y aspecto ha sido causa de confusión y ha conducido a que fuesen denominadas de formas distintas desde su descripción inicial hasta la actualidad^(1,2).

De los distintos apéndices descritos, los situados en la unión del testículo con el epidídimo (testiculares) y los localizados en la cabeza de éste (epididimarios) son en la práctica los únicos a tener en cuenta, dada su prevalencia y patogenicidad^(3,4).

Estudios como los de Jones⁽⁵⁾ y Rolnik⁽⁶⁾, considerados clásicos sobre este tema, establecen la alta frecuencia de la incidencia de apéndices testiculares en la población normal, así como la mayor incidencia de los localizados en testículo que los situados en epidídimo, y la frecuente bilateralidad.

En general, se consideran estructuras no útiles y aparte del cuadro clínico de escroto agudo que suele provocar su torsión, el interés científico despertado por ellos ha sido muy reducido, a pesar de los excelentes aunque muy escasos trabajos publicados con anterioridad sobre varios de sus aspectos. Se ha demostrado que los apéndices testiculares son estructuras biológicamente activas, capaces de responder a estímulos estrogénicos con hiperplasia de sus células e incluso con su degeneración tumoral^(1,7-9).

El objeto de este trabajo de investigación es intentar dar respuesta a las siguientes interrogantes que nos hemos planteado tanto a nivel clínico como en cuanto a la embriogénesis y patogénesis de estas estructuras:

- ¿Existe un aumento de la frecuencia en la torsión de apéndices?
- ¿Tiene la torsión de apéndices una edad típica de presentación?
- ¿Tiene más incidencia en pacientes con mayor índice de masa corporal?
- ¿Se correlaciona con estadios de desarrollo sexual determinado?
- ¿Es siempre una auténtica torsión?
- ¿Tienen ambos apéndices distinto origen embrionario?
- ¿Son igualmente reactivos a hormonas sexuales?
- ¿Pueden existir factores distintos a estímulos de hormonas sexuales causantes de isquemia en los apéndices?

PACIENTES, MATERIAL Y MÉTODOS

Dividimos nuestro trabajo en tres fases, cada una con la finalidad de procurar información sobre algunas de las interrogantes planteadas:

Estudio clínico retrospectivo: revisamos las historias clínicas de los 138 pacientes intervenidos en nuestro Hospital, desde Enero de 1984 hasta Diciembre de 2001 por presentar un cuadro de escroto agudo y en los que el diagnóstico durante la intervención quirúrgica, confirmado en todos los pacientes por el estudio anatomopatológico, fue de lesión de hidátide de Morgagni, por presentar inflamación, hemorragia,

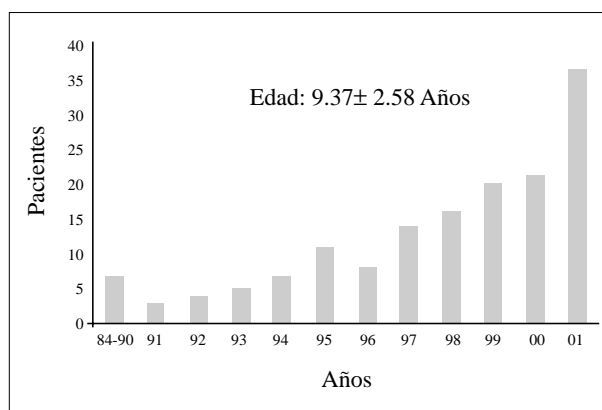


Figura 1. Grupo 1. Incidencia anual y edad media de pacientes intervenidos por isquemia de apéndices testiculares.

infarto o necrosis. Se valoran: edad, año de intervención y características clínicas sugerentes de escroto agudo.

Estudio clínico prospectivo: en los 21 pacientes intervenidos desde Marzo de 1999 a Marzo del 2000 por escroto agudo producido por torsión de apéndices. Se valoran distintas variables clínicas relacionadas con la torsión, junto a una estimación del estado nutricional de los pacientes (Índice de Masa Corporal), el estadio de maduración del vello pubiano (según Tanner), así como el volumen testicular y el diferente grado de isquemia de los apéndices extirpados.

Estudio inmunohistoquímico: de los 23 apéndices testiculares y epididimarios obtenidos de pacientes intervenidos de criptorquidia, hidrocele y hernia inguinal. Se identifican los receptores estrogénicos presentes en cada tipo de apéndices empleando el anticuerpo ER (MC-20). La limitación de este estudio a apéndices no patológicos se debe a que sólo pretendemos con él mostrar si existen o no diferencias entre los apéndices que permitan sospechar un distinto origen embrionario, independientemente que estén o no torsionados.

RESULTADOS

En la figura 1 exponemos la incidencia anual y edad de los 138 pacientes integrados en el estudio clínico retrospectivo. La edad media ha sido similar a lo largo de toda la muestra (de entre 9 y 10 años).

Las características clínicas sugerentes de escroto agudo han sido, en todos los pacientes, una o más de las siguientes: tumefacción escrotal, dolor testicular, punto azul y detección de un nódulo intensamente doloroso en polo superior con testículo aparentemente normal.

El estudio clínico prospectivo se realizó en 21 pacientes con una edad media de $9,83 \pm 3,03$ años. El índice de masa corporal ($19,58 \pm 3,77$), aunque superior en un 16% al medio para la edad de los pacientes, presentó amplias diferencias individuales (rango: 14,41-27,40). Ningún paciente su-



Figura 2. Edema de apéndice testicular sin torsión en un paciente intervenido de escroto agudo.

peró el estadio III de Tanner de desarrollo de vello pubiano, siendo el más frecuente el estadio I/II (90%). El volumen testicular ($2,16 \pm 1,66$) también fue variable, aunque su dispersión fue relativamente escasa.

Sólo pudo ser comprobada la existencia de torsión en 7 de los 21 pacientes. En los 14 restantes, los cambios detectados lo fueron en ausencia de torsión. Casi todos los apéndices torsionados presentaban un grado de isquemia avanzado o necrosis, como evidenciaba su color oscuro, mientras la práctica totalidad de los no torsionados tenían un componente edematoso y un color rosado o violáceo, sin llegar a tener isquemia grave o necrosis (Fig. 2).

De los 21 pacientes en los que realizamos estudio inmunohistoquímico, todos presentaban apéndices testiculares y 2 de ellos además, apéndices epididimarios. Pudo ser evidenciado un revestimiento epitelial interno, resto que corresponde a la luz gonaductal, en 8 testiculares y en 2 epididimarios. En 7 de los 8 testiculares se detectó una tinción intensa epitelial como consecuencia de su alto contenido en receptores estrogénicos, al contrario que en los 2 epididimarios, que carecían de ellos (Fig. 3).

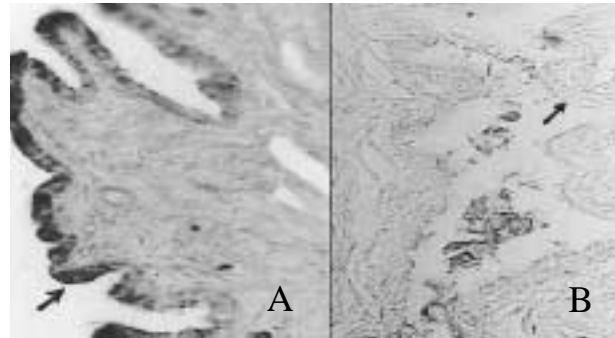


Figura 3. A) Apéndice testicular +. B) Apéndice epididimario -Estudio inmunohistoquímico de receptores estrogénicos.

DISCUSIÓN

Los resultados obtenidos evidencian un incremento importante durante los últimos años, de la incidencia de escroto agudo secundario a isquemia de los apéndices testiculares, con frecuencia en ausencia de torsión demostrable. Estos son hechos que no hemos encontrado en la bibliografía consultada.

Dado que la edad en que aparece el cuadro clínico en nuestra muestra y sus características son similares a las aportadas por otros autores⁽¹⁰⁾, debemos admitir que pueden estar actuando factores desencadenantes de la isquemia o torsión de los apéndices similares a los hasta ahora aceptados, fundamentalmente hormonales, pero presentes en mayor cantidad en el organismo.

Puesto que la isquemia se produce típicamente en pacientes prepúberes⁽¹¹⁾, dada su edad y estadio de maduración sexual, desarrollo testicular y del vello pubiano, parece obligado pensar que puedan mediar estímulos hormonales en su desencadenamiento.

A pesar de que algunos autores^(1, 4) crean que no está claro el origen de los apéndices testiculares y epididimarios en gonoductos embrionarios distintos, la detección en nuestros pacientes de mayor cantidad de receptores estrogénicos en las testiculares (restos müllerianos) hace pensar que este origen diferente es probable, de acuerdo con el pensamiento de la mayoría de los autores consultados^(7, 12). No obstante, lo exiguo de nuestra muestra, con sólo 2 apéndices epididimarios estudiados mediante inmunohistoquímica, nos hace ser prudentes y esperar a que estudios posteriores confirmen nuestros datos.

De acuerdo con Brook⁽¹¹⁾, pensamos que el incremento de estrógenos circulantes en niños que inician la pubertad puede ser responsable de que los restos de conductos müllerianos reaccionen aumentando su tamaño, y predisponiendo de este modo a su torsión. Pero esto no explicaría que los apéndices epididimarios (wolffianos), de comprobarse su casi ausencia de receptores estrogénicos, reaccionasen de forma similar, ni por qué se está produciendo un incremento en la frecuencia de escroto agudo secundario a isquemia de los apéndices testiculares en nuestro medio.

Lo anterior nos obliga a pensar en la existencia de otros factores, hormonales o no, capaces de producir una «activación biológica» de los apéndices testiculares. Estrictamente como hipótesis posible, aunque carecemos de base científica contrastada, la leptina podría ser una candidata a posible imputada, dado su incremento en suero en niños prepúberes hasta estadio II de Tanner⁽¹³⁾, a que se forma en grasa subcutánea⁽¹⁴⁾, más abundante en niños con isquemia de apéndices testiculares y a la coincidencia entre sus tasas bajas en suero con amenorrea en niñas con anorexia nerviosa, que parece relacionar niveles de leptina con estímulo de derivados de los conductos de Müller⁽¹³⁻¹⁶⁾.

BIBLIOGRAFÍA

- Zuckerman S, Krhon PL. The hydatids of Morgagni under normal and experimental conditions. *Phil Trans Roy Soc* 1937;**228**:147-171.
- Nöske H-D, Kraus SW, Altinkilic BM, Weidner W. Historical milestones regarding torsion of the scrotal organs. *J Urol* 1998; **159**:13-16.
- Skandalakis JE, Gray SW, Parrot TS, Ricketts RR. Vestigial organs of the testis and avary. En: Skandalakis JE, Gray SW, eds. *Embriology for surgeons*. 2ª edición. Baltimore; Williams and Wilkins, 1994;747-750.
- Skandalakis JE, Gray SW, Broecker B. The male reproductive tract. En: Skandalakis JE, Gray SW eds. *Embriology for surgeons*. 2ª edición. Baltimore: Williams and Wilkins, 1994;773-780.
- Jones P. Torsion of the testis and its appendages during childhood. *Arch Dis Chil* 1962;**37**:214-226.
- Rolnik D, Kawanowe S, Szanto P, Bush IR. Anatomical incidence of testicular appendages. *J Urol* 1968;**100**:755-756.
- Sundarasivarao D. The müllerian vestiges and benign epithelial tumor of the epididymis. *J Pathol Bact* 1953;**66**:417-432.
- Bailey GN, Willis RA, Wilson JV. A case of adenocarcinoma of the appendix testis. *J Pathol Bact* 1995;**69**:326-328.
- Young RH, Scully RE. Testicular and paratesticular tumors and tumor-like lesions of ovarian common epithelial and müllerian types. A report of four cases and review of the literature. *An J Clin Pathol* 1986;**86**:146-152.
- Ruiz AM, Jiménez C, Núñez R., Cabrera R, Blesa E. Características clínicas en pacientes con torsión de los apéndices testiculares y epididimarios. *Cir Pediatr* 1994;**7**:140-142.
- Brook C. The physiology of puberty. *Clin Peadiatr Endoc* 1995; **24**:380.
- Stenberg I, Stephen S. Histology. New York: Raven Press, 1992;744-746.
- Puiglevall V, Lando C, Fernández A. Leptina y pubertad. *An Esp Pediatr* 1998;**49**:561-567.
- Hessing SE, Shesbow DV, de Lancey E, Opentanova I, Considine RV, Caro JF. Serum leptin in children with obesity: relationship to gender and development. *Pediatrics* 1998;**98**:201-203.
- Maldonado GF. Leptina: dos caras de la misma moneda. *Nutr Clin* 1999;**19**:37-49.
- Spinedi E, Gaillard RC. A regulatory loop between the hypothalamo-pituitary-adrenal (HPA) axis and circulating leptin. A physiological role of ACTH. *Endocr* 1998;**139**:4016-4020.