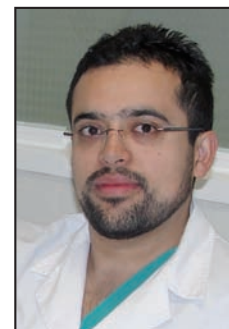


Abordaje quirúrgico de la elefantiasis escrotal a propósito de dos casos graves

Surgical management of scrotal elephantiasis: a two severe cases report



Recalde-Losada, C.

Recalde-Losada, C.*, Rubio-Verdú, R.**, Solesio-Pilarte, F**,
Lorda-Barraguer, E.***, Lobato, J.J.****

Resumen

El linfedema puede afectar a cualquier parte del cuerpo, incluido el escroto y el pene. Esta alteración en el drenaje linfático provoca en ocasiones grandes deformidades que conocemos como elefantiasis. El linfedema genital causa graves limitaciones funcionales y emocionales en los pacientes que lo padecen, pues a menudo sufren dolor debido a la irritación crónica, infecciones recurrentes, incapacidad para asearse, disfunción sexual, deformidad estética, llegando incluso a limitar la movilidad o la deambulación.

No existe un tratamiento médico o quirúrgico ideal para el linfedema genital masculino. En la literatura se hace referencia a colgajos fasciocutáneos de la cara interna de los muslos tras grandes resecciones de tejido escrotal, pero este tipo de cirugía altera la termorregulación testicular y puede producir esterilidad. También está descrito el uso de injertos laminares de piel, que no aportan una cobertura estable. Otra opción es la reconstrucción con colgajos perineales posteriores, que preservan los linfáticos perirectales para proveer un drenaje linfático adecuado a la zona.

Presentamos 2 casos de linfedema escrotal grave, elefantiasis, no infeccioso, en los cuales realizamos linfangiectomía, resección de todo el tejido linfedematoso y reconstrucción con colgajos perineales locales. En ambos pacientes los resultados fueron satisfactorios, mejorando significativamente su calidad de vida sin evidenciar signos de recurrencia 1 año después del tratamiento.

Abstract

The lymphedema may affect any part of the body including the scrotum and penis due to an alteration of the lymphatic drainage, causing great deformities known as elephantiasis. Genital lymphedema may cause severe functional and emotional limitations in patients because they often suffer pain caused by chronic irritation, recurrent infections, incapacity to clean themselves, sexual disfunction, aesthetic deformities and mobility impairment.

There is not an ideal medical or surgical treatment for masculine genital lymphedema. In the literature, there is reference to fasciocutaneous flaps from the inner side of the thighs after big resections of scrotal tissue, but thermoregulation may be altered causing sterility. Also skin grafts are described, but they do not supply a stable coverage. Another option is the reconstruction with posterior perineal flaps where perirectal lymphatic vessels are preserved to ensure a lymphatic drainage.

We present 2 cases of severe elephantiasis scrotal lymphedema, in which we practised lymphangiectomy and reconstruction with perineal local flaps. In both patients results were satisfactory, improving significantly life quality, with no signs of recurrence 1 year after the treatment.

Palabras clave Linfedema, Linfedema escrotal, Linfedema peneano, Elefantiasis escrotal, Colgajos perineales.

Nivel de evidencia científica V

Key words Lymphedema, Scrotal lymphedema, Penis lymphedema, Scrotal elephantiasis, Perineal flaps.

Level of evidence V

* Médico Interno Residente, Servicio de Cirugía Plástica.

** Médico Adjunto, Servicio de Cirugía Plástica.

*** Jefe del Servicio de Cirugía Plástica.

**** Jefe de Servicio de Urología.

Introducción

El linfedema es el resultado de la acumulación de fluido linfático rico en proteínas en el espacio intersticial de la piel y del tejido subcutáneo debida a una disfunción en el sistema linfático para su drenaje. En las formas crónicas se acumula gran cantidad de líquido, convirtiendo el tejido intersticial en tejido fibroadiposo, que le da una consistencia dura a la zona afectada; la piel sufre cambios distróficos y se producen grandes deformidades que clásicamente se denominan elefantiasis. Las extremidades son las áreas anatómicas más frecuentemente afectadas, pero el linfedema puede afectar a cualquier parte del cuerpo, incluidos los genitales.

El linfedema escrotal es muy común en países tropicales donde la infección por filarias es endémica, recogiendo una afectación de hasta un 20% entre la población masculina (1). En países como Estados Unidos, el linfedema escrotal es una entidad poco frecuente y su causa más común es la secundaria a cirugías pélvicas o a radioterapia (2). Están descritos casos provocados por inflamación crónica, como sucede en la infección por chlamydias o en las hidrosadenitis supurativas (3). Existen así mismo formas congénitas mucho menos frecuentes, como el síndrome de Meige, caracterizado por una aplasia congénita de los conductos linfáticos (4).

El linfedema genital produce graves limitaciones en los pacientes que lo padecen, tanto físicas como emocionales. A menudo, éstos manifiestan dolor por irritación crónica de la piel además de sufrir múltiples episodios de infección local, drenaje de exudado (linforrea) y disfunción sexual.

Si el linfedema en el pene y escroto es de larga evolución, se pueden llegar a producir importantes deformidades que hacen que el pene se retraiga en el escroto y la piel sufra engrosamiento y un abultamiento gigantesco que dificulta las funciones urinaria, sexual e incluso la deambulación.

En el linfedema de extremidades resultan muy útiles medidas tales como el uso de prendas de presoterapia y el drenaje linfático manual. Sin embargo, en el linfedema escrotal el uso de dispositivos de presión no resulta práctico ni confortable y el drenaje linfático manual solo funciona en los casos leves, pues la acumulación de tejido fibroadiposo limita su utilidad (5).

El tratamiento con fármacos tales como las benzopironas, que estimulan a los macrófagos a romper las proteínas de alto peso molecular para que puedan ser drenadas con mayor facilidad por el sistema linfático, tampoco ha mostrado efectividad (2,6).

En los casos de linfedema escrotal grave, la verdadera elefantiasis escrotal, el abordaje principal es quirúrgico mediante resección seguida de reconstrucción con colgajos o injertos. Tanto si la reconstrucción se hace con colgajos no escrotales, como con injertos de piel, la termorregulación testicular se verá afectada, lo cual puede

llevar potencialmente a sufrir infertilidad. Además, los injertos no aportan una cobertura estable a lo largo del tiempo (2).

Presentamos 2 casos de elefantiasis escrotal grave tratados quirúrgicamente mediante resección de la piel y del tejido subcutáneo afectados y reconstrucción con colgajos locales de periné posterior y avance de tejidos laterales.

Material y método

Caso 1. Varón de 48 años de edad que acude al Servicio de Cirugía Plástica por presentar una gran deformidad elefantiásica escrotal de 2 años de evolución, que le causa graves limitaciones. Refiere dolor moderado, múltiples episodios de infecciones, imposibilidad para mantener relaciones sexuales, incontinencia urinaria y grandes dificultades para caminar. Como antecedentes importantes, el paciente presenta obesidad mórbida con un índice de masa corporal (IMC) de 59, es fumador de 40 cigarrillos al día y como antecedente quirúrgico refiere la realización de una dermolipsectomía abdominal 2 años antes en otro centro por un equipo que no contaba con cirujanos plásticos.

En la exploración física apreciamos una cicatriz horizontal a nivel de la sínfisis púbica y una importante deformidad elefantiásica del escroto, delimitada por la cicatriz de la abdominoplastia. El escroto está indurado, alcanzando los 46 cm de diámetro, oculta el pene y no se palpan los testículos (Fig. 1 y 2).

Los estudios de imagen, ecografía y tomografía computarizada evidenciaron un importante edema y engrosamiento del tejido subcutáneo. El análisis de parásitos hematotísulares (Knott) descartó la presencia de microfíliarias.

En la intervención quirúrgica identificamos y preservamos los testículos con ayuda del Servicio de Urología, y resecamos una pieza de tejido escrotal de 66 x 26 x 12 cm, y 22 kg de peso. La reconstrucción del escroto se llevó a cabo con colgajos locales de periné posterior, avances laterales y una manga o tubo cutáneo para cubrir el pene (Fig. 3 y 4).

El paciente evolucionó favorablemente, no hubo signos de sufrimiento de los colgajos locales y fue dado de alta al séptimo día de postoperatorio. El estudio anatómopatológico e inmunohistoquímico de la pieza extirpada mostró un angiomioma de partes blandas, un tumor benigno extremadamente raro y con una elevada tasa de recurrencia, cuyo tratamiento requiere exéresis quirúrgica (7,8) (Fig. 5).

Debido a la obesidad mórbida que como hemos comentado sufría el paciente, 6 meses después de la intervención de reconstrucción escrotal fue sometido a una gastrectomía tubular por la Unidad de Cirugía Bariátrica, logrando llegar a un peso adecuado (IMC 28).



Fig. 1. Paciente de 48 años con elefantiasis inguinoscrotal severa. Vista anterior.



Fig. 2. Vista posterior.

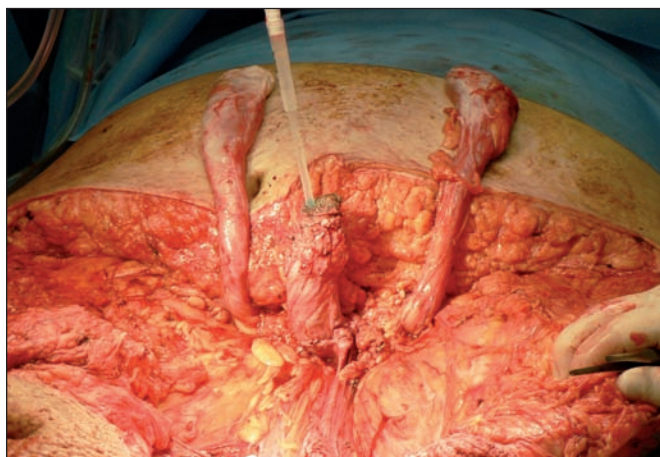


Fig. 3. Después de resecar todo el tejido inguinoscrotal afectado, podemos apreciar los testículos de aspecto normal.



Fig. 4. Reconstrucción del escroto con colgajos locales de periné posterior, avances laterales y una manga cutánea para cubrir el pene.

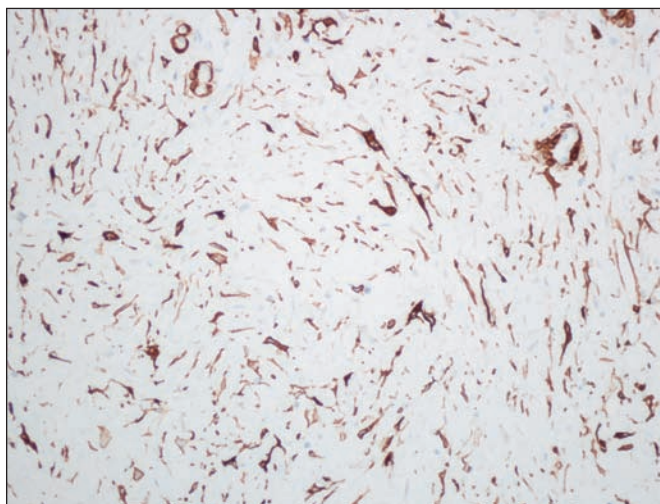


Fig. 5. Anatomía Patológica. Coloración: alfa actina + 100x. Matriz mixoide.

El seguimiento se hizo en la consulta externa de Cirugía Plástica. El paciente recuperó su independencia para las actividades básicas de la vida diaria como miccionar, asearse, caminar y presenta erecciones sin problemas; además refiere reinscripción en la vida social con total independencia y no muestra signos de recurrencia del linfedema 2 años después del procedimiento (Fig. 6-9).

Si bien inicialmente se discutió interdisciplinariamente la prioridad de las cirugías, finalmente intervinimos quirúrgicamente nosotros al paciente en primer lugar dada su mala calidad de vida por la elefantiasis.



Fig. 6. Postoperatorio al año. Vista anterior.



Fig. 7. Postoperatorio al año. Vista posterior.

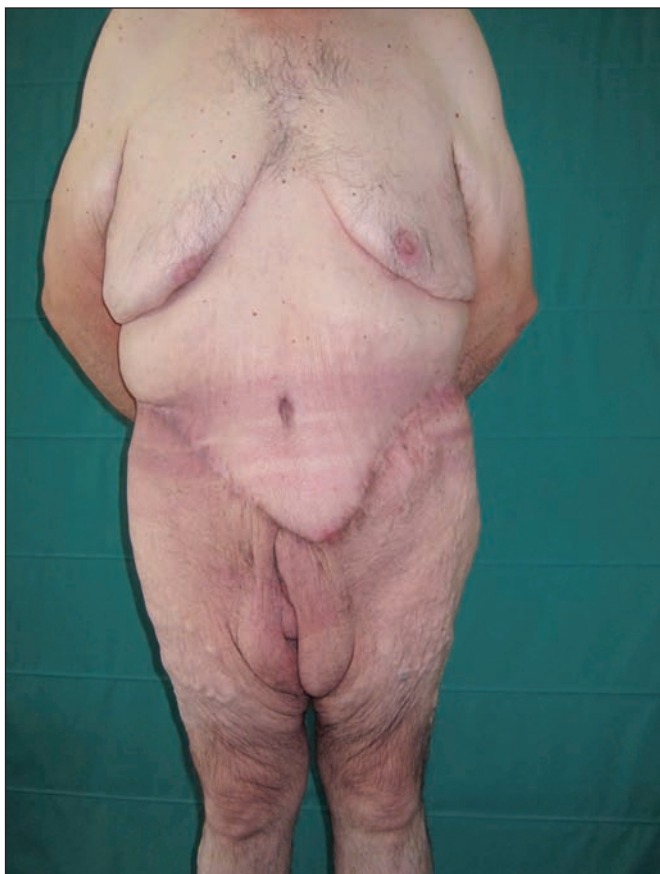


Fig. 8. Tras cirugía bariátrica y resección del exceso cutáneo abdominal, 2 años después. Vista anterior.



Fig. 9. Vista lateral.

Caso 2. Varón de 55 años de edad, valorado también por primera vez en nuestro Servicio, que presenta un gran faldón abdominal y linfedema grave, elephantiásico, en pubis y escroto que le impide realizar las actividades de la vida diaria, obligándolo a permanecer postrado en cama y que le ha causado episodios de infecciones que han requerido tratamiento con ingreso hospitalario. Como antecedentes presenta obesidad mórbida con IMC de 59, esquizofrenia y sin antecedentes quirúrgicos.

En el examen físico apreciamos un importante faldón abdominal y linfedema gigante del escroto, con cambios hiperqueratósicos. No se palpan los testículos y el pene está retraído y oculto en el escroto, que presenta un diámetro de 40 cm. El paciente apenas puede deambular con ayuda (Fig. 10 y 11).

La resonancia magnética evidenció cambios sugerentes de estasis linfático. El estudio de hemoparásitos fue también negativo para microfilarias

Intervinimos quirúrgicamente al paciente en colaboración con el Servicio de Urología, identificando los testículos y resecaando el tejido escrotal elephantiásico, de 19 kg de peso, y el faldón abdominal excedente. La re-

construcción se hizo con colgajos de avance de periné posterior y remanente cutáneo sano del escroto para cubrir los testículos; en el pene no fue necesario realizar colgajos ya que la piel no presentaba cambios de linfedema crónico, por lo que decidimos preservarla.

El paciente tuvo una evolución favorable durante su estancia en el hospital, los colgajos locales no presentaron signos de sufrimiento ni de infección, y fue dado de alta al quinto día de postoperatorio.

El estudio anatomopatológico de la pieza extirpada evidenció cambios típicos de estasis linfático y fibrosis, confirmando así el diagnóstico de linfedema.

El seguimiento postoperatorio se hizo en consultas externas de Cirugía Plástica. El paciente refiere que es capaz de caminar, asearse y miccionar de pie sin ayuda, mejorando significativamente su calidad de vida. No hay signos de recidiva 18 meses después de la cirugía. Por su esquizofrenia grave, fue rechazado para el programa de Cirugía Bariátrica (Fig. 12 y 13).



Fig. 10. Varón de 55 años con un faldón abdominal gigante y elephantiasis inguinoescrotal grave. Vista Lateral.



Fig. 11. Vista posterior.



Fig. 12. Postoperatorio al año. Vista anterior.



Fig. 13. Postoperatorio al año. Vista posterior.

Discusión

El linfedema escrotal tiene grandes repercusiones funcionales y psicológicas en los pacientes que lo padecen. Su principal causa en el mundo es la infestación por filarias, *W. Bancrofti*, por lo que es casi exclusiva de países donde la infección por este parásito es endémica, como sucede en África ecuatorial. En Estados Unidos y el resto de países desarrollados, se debe principalmente a cirugía pélvica o a radioterapia previa, aunque también existen formas idiopáticas secundarias a inflamación crónica y menos frecuentemente, existen también formas primarias (2). Estas últimas se expresan en la pubertad y su etiología sigue siendo desconocida, pero en la mayoría de los casos se aprecia una hipoplasia de los conductos linfáticos (4). Independientemente de cuál sea la causa de la afectación, su abordaje terapéutico es similar en todos los casos.

El drenaje linfático del pene y el escroto se realiza a través de los ganglios linfáticos inguinales superficiales y mediales, mientras que el drenaje linfático de los testículos llega directamente a los lumbares en el abdomen, saltando los sistemas superficial y profundo inguinales. Por esta razón, al lesionarse los linfáticos inguinales se produce un linfedema del pene y el escroto mientras que los testículos son normales (Fig. 14).

El diagnóstico del linfedema escrotal es clínico y se puede apoyar con una linfoescintigrafía con radiocoloides, que nos muestra la anatomía y función linfáticas (2,5). La resonancia magnética permite detectar procesos pélvicos malignos (2,9). Todas estas pruebas nos ayudan también en la planificación preoperatoria.

En los casos de linfedema escrotal grave, en los que existen grandes deformidades, está recomendado el tratamiento quirúrgico resecando todo el tejido anormal indurado y preservando los testículos, ya que en la mayoría de los casos son funcionales (10). En la reconstrucción es importante aportar una cobertura estable que a su vez mantenga la termorregulación testicular necesaria y restablezca el flujo linfático para curar así la enfermedad.

El uso de anastomosis linfático-venosas o linfático-linfáticas para poder puentear la zona afectada sería también una opción terapéutica en las formas con hiperplasia linfática, pero no en las formas congénitas, en las que existe una marcada hipoplasia linfática (2,4). Del mismo modo, también está desaconsejada en las formas crónicas, donde la fibrosis limita la utilidad de estas técnicas.

En la literatura médica existe poca información sobre las técnicas quirúrgicas para tratar el linfedema escrotal en estadios graves; se hace referencia a colgajos fasciocutáneos de la cara interna de los muslos después de grandes resecciones de tejido escrotal, pero se altera la

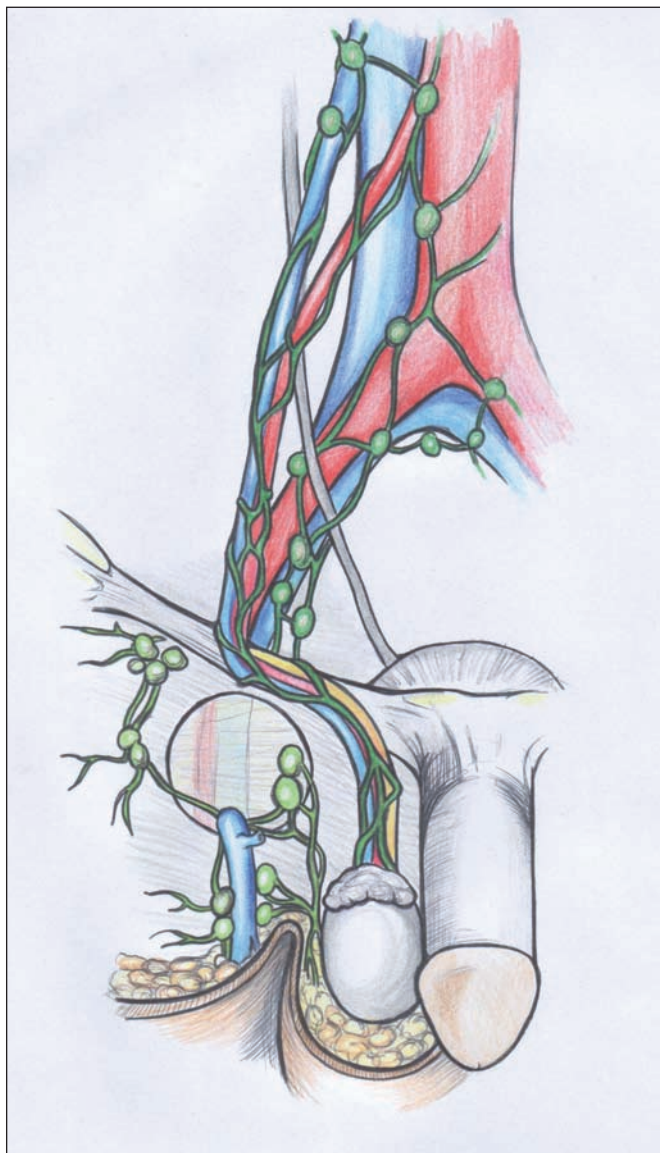


Fig. 14. Esquema que muestra el drenaje linfático del pene y del escroto a través de los ganglios linfáticos inguinales superficiales y mediales, mientras que el drenaje linfático de los testículos llega a través del cordón espermático a los linfáticos lumbares.

termorregulación testicular, y esto puede producir esterilidad, También está descrito el uso de injertos laminares de piel (11), que no aportan una cobertura estable y no restablece el flujo linfático. Otra opción es la reconstrucción con colgajos locales del escroto (12). Con ellos se podría tener una cobertura adecuada, pero las posibilidades de que el linfedema recidive son muy altas ya que realmente no se trata el problema. Creemos que la reconstrucción con colgajos perineales posteriores, mediante la cual se preservan los linfáticos perirrectales, es una buena opción de cobertura y además aporta una vía de drenaje linfático que evita así la recurrencia del linfedema.

En el primero de nuestros pacientes, la posible causa del linfedema podría ser el antecedente de dermolipectomía abdominal aunado a la existencia de un angiomioma, que aunque tiene un comportamiento benigno,

puede entorpecer el drenaje linfático al estar localizado en el escroto; por tratarse de un caso muy avanzado, consideramos que la opción terapéutica correcta era la exéresis del tejido linfedematoso. La reconstrucción que realizamos con colgajos locales en los cuales incluimos los tejidos del perine posterior, nos permitió aportar una vía de drenaje linfático.

En el segundo caso, aunque no sospechamos inicialmente una causa para el linfedema escrotal, dado que se trataba de un caso grave y que el paciente padecía una gran limitación funcional, consideramos que era prioritaria la resección del tejido afecto, realizando también para la cobertura colgajos de periné posterior que tuvieron un buen resultado, sin signos de recidiva en el seguimiento a corto y medio plazo.

Aunque el linfedema inguinoescrotal es una entidad poco frecuente, observamos una ligera tendencia a su incremento en nuestro medio debido al aumento de la incidencia de patología pélvica maligna que requiere cirugía o radioterapia asociadas. Sigue sorprendiéndonos la existencia de estos casos extremos, como los que presentamos, en un país desarrollado con un sistema sanitario extendido. Por ello consideramos oportuno publicar nuestra experiencia en el tratamiento de esta patología.

Conclusiones

La elephantiasis inguinoescrotal es un problema poco frecuente pero de difícil abordaje terapéutico, que provoca grandes limitaciones funcionales, psicológicas y físicas en los pacientes que la sufren. No hay muchas publicaciones al respecto, por lo que el tratamiento no está estandarizado.

Creemos importante la publicación de nuestra experiencia en aras de determinar cuál es el tratamiento idóneo de esta patología en el medio hospitalario de un país desarrollado como el nuestro.

En nuestra experiencia, el abordaje quirúrgico fue una buena opción para el tratamiento de la elephantiasis inguinoescrotal.

Agradecimientos

Al Dr. Lobato y al resto de miembros del Servicio de Urología del Hospital General Universitario de Alicante, cuya colaboración resultó de vital importancia para llevar a buen término las intervenciones quirúrgicas.

Dirección del autor

Dr. César Recalde Losada
C/ Tarragona 12, 3º F
03005, Alicante, España
e-mail: recaldeandres@yahoo.com

Bibliografía

1. **Capuano GP, Capuano C.:** Surgical management of morbidity due to lymphatic filariasis: the usefulness of a standardized international clinical classification of hydroceles. *Tropic. Biomed.* 29(1): (2012): 24-38.
2. **Halperin, T.J., Slavin, S.A., Olumi, A.F. and Borud, L.J.:** Surgical Management of Scrotal Lymphedema Using Local Flaps. *Ann. of Plast. Surg.* 2007, 59 (1) : 67-72.
3. **Nelson, R.A., Alberts G.I., and King, jr, Ll.:** Penile and scrotal elephantiasis caused by indolent Chlamydia trachomatis infection. *Urology*, 2003, 61 (1): .244i-244iii.
4. **Sánchez-Alvarado JP, Procuna-Hernández JN, Manzanilla-García HA, Gutiérrez-Godínez FA, Rosas-Ramírez A.:** Linfedema primario escrotal gigante (enfermedad de Meige) reporte de 2 casos *Rev Mex Urol* 2008; 68(6):p.344-347.
5. **Pramod Kumar, M.S., M.Ch., D.N.B., and Gurusamipalayam Periyasamy Navaneethan, M.B.B.S.:** Resection of Scrotal Lymphedema. *Plast Reconst. Surg.* 2005;116(2): 24-27.
6. **Rubio Hidalgo E, Lopez Garcia-Moreno A, Buendia Gonzalez E, Sampietro Crespo A.:** Surgical treatment in a case of giant scrotal lymphedema, *Arch. Esp. Urol.* 2011; 64 (2):.121-124.
7. **Xambre L, Cerqueira M, Guimaraes I, Carreira F, Galán T.:** Angiomixoma Agresivo Penoesrotal, *Act. Urol. Esp.* 2009;33(3):321-326.
8. **Moretti, A., Gallo, S., Savoré, M., Monti, J.:** Angiomixoma Cutáneo Primario. *Cir plást iberolatinoam* 2007, 33 (2): 129-132.
9. **Masia, P. Castus, G. Delia, et al.:** A case of iatrogenic scrotal elephantiasis: reconstruction of the scrotal purse and the cutaneous sleeve of the penis with local skin flaps. *Annales de chiru plast esthét* 2008 53:79-83.
10. **Kuepper D.:** Giant scrotal elephantiasis *Urology*, 2005, 65: 19-21.
11. **Carrasco López, C. et al.:** Linfedema escrotal gigante. *Cir. plást. iberolatinoam.*, 2013, 39 (2): 187-191.
12. **Fernández García, A., Fernández Pascual, C. and Santoyo Gil-López, F.:** Reconstrucción en linfedema peneano y escrotal secundario a hernia inguinal bilateral gigante. *Cir. plást. iberolatinoam.*, 2009, 35 (4): 311-316.