

VZÁCNÝ PŘÍPAD EOSINOFILNÍ FUNIKULITIDY

A rare case of eosinophilic funiculitis

Michael Nekula¹, Marek Babjuk¹, Renata Chmelová², Marcela Čechová¹

¹Urologická klinika 2. LF UK a FN Motol, Praha

²Ústav patologie a molekulární medicíny 2. LF UK a FN Motol, Praha

Došlo: 11. 4. 2018

Přijato: 20. 5. 2018

Kontaktní adresa:

MUDr. Michael Nekula

Urologická klinika 2. LF UK a FN Motol, Praha

V Úvalu 84, 150 06 Praha 5

e-mail: michael.nekula@fnmotol.cz

Střet zájmů: žádný

Prohlášení o podpoře:

Autor prohlašuje, že zpracování článku nebylo podpořeno farmaceutickou firmou.

SOUHRN

Nekula M, Babjuk M, Chmelová R, Čechová M. Vzácny prípad eosinofilní funikulitidy.

Prezentujeme kazuistiku 28letého muže s třítydenní anamnézou hmatné rezistence vycházející z levého semenného provazce. Vzhledem k nejasné povaze rezistence byl pacient indikován k operační revizi. Výsledek histologického vyšetření extirpovaného útvaru byl překvapivý – eosinofilní funikulitida. Eosinofilní funikulitida představuje extrémně vzácné onemocnění benigního charakteru, nejasné etiologie. V dostupné literatuře byly popsány pouze tři kazuistiky tohoto onemocnění.

KLÍČOVÁ SLOVA

Semenný provazec, nádor, eosinofilní funikulitida.

SUMMARY

Nekula M, Babjuk M, Chmelová R, Čechová M. A rare case of eosinophilic funiculitis.

We report a case of a 28 year old patient examined for a 3 week history of palpable mass originating from his left spermatic cord. Due to unclear etiology we recommended surgical resection. Histopathological examination revealed an uncommon diagnosis of eosinophilic funiculitis. Eosinophilic funiculitis represents a benign condition of unknown etiology. To date only three cases have been described.

KEY WORDS

Spermatic cord, tumour, eosinophilic funiculitis.

.....

ÚVOD

Patologické změny semenného provazce jsou poměrně vzácné a bývají převážně benigního charakteru. Mimo afekce vycházející přímo z provazce je třeba pomyslet i na extrafunikulární patologii jako je tříselná kýla, cysta nadvarlete nebo funikulární hydrokéla (1). Tumory semenného provazce před-

stavují heterogenní skupinu nádorů histologicky vycházející z kterékoliv struktury provazce a jsou raritní. Ve většině případů se jedná o benigní nádory, nejčastěji se vyskytují fibromy a lipomy. Vždy je ovšem nutno pomýšlet na možnost maligního nádoru, ať již primárního nebo metastatického původu (1). V naprosté většině případů je diagnóza stanovena až histologickým vyšetřením preparátu.

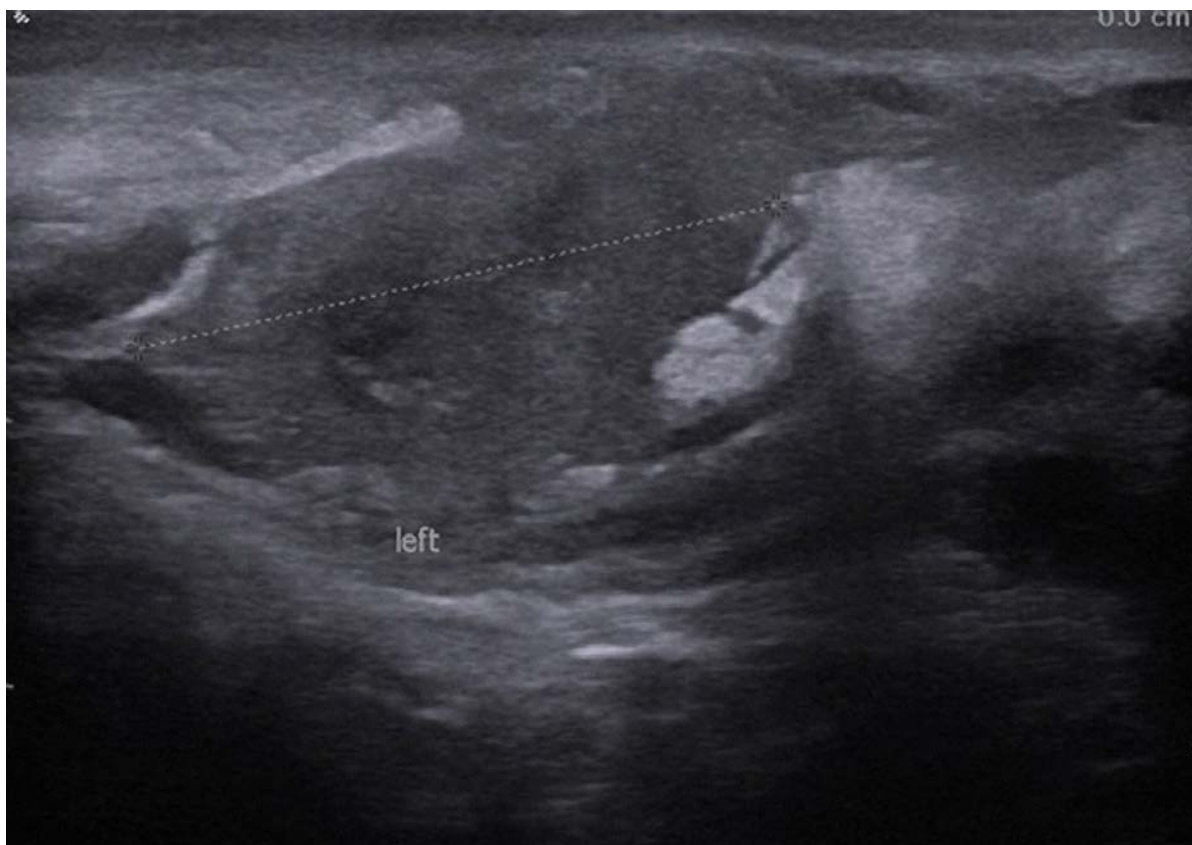
Tumory se většinou diagnostikují jako hmatný útvar v průběhu semenného provazce. Při suspektním palpačním nálezů je primární zobrazovací metodou ultrasonografie. Jen v ojedinělých případech si nález vyžádá doplňující zobrazovací metodu. Léčba je primárně chirurgická, pro další postup je rozhodující histologické vyšetření preparátu.

Cílem našeho sdělení je prezentace kazuistiky mladého muže vyšetřovaného pro rezistenci vycházející z levostranného semenného provazce. Pro suspekci na tumor jsme indikovali operační revizi. Z histologického vyšetření odstraněné rezistence byla popsána raritní eosinofilní funikulitida.

KAZUISTIKA

Muž, 28 let, navštívil urologickou ambulanci na doporučení praktického lékaře pro suspektní útvar nad levým varletem. Osobní anamnéza nemocného byla bez pozoruhodností, byl doposud zdravý, urologicky nikdy nevyšetřen, operace žádné neabsolvoval, kuřák, bez známých alergií.

Pacient udával tři týdny trvající bolesti nad levým varletem s hmatnou rezistencí v oblasti provazce. Teploty neměl, mikční obtíže také ne. Úraz zevního genitálu či větší fyzickou námahu negoval. Při fyzikálním vyšetření jsme zjistili nebolestivou tuhou rezistenci přibližně 3 cm nad levým nadvarletem, pravděpodobně vycházející ze semenného provazce. Varlata i nadvarlata byla palpačně bez patologie. Sonografické vyšetření ukázalo heterogenní hyperechogenní útvar o velikosti 3 x 2 cm, se zvýšenou perfuzí vycházející z funikulu (obr. 1). Obě varlata byla homogenní echogenity s přiměřeným prokrvením, bez suspekce na malignitu, nadvarlata



Obr. 1. Ultrazvuk – eosinofilní funikulitida

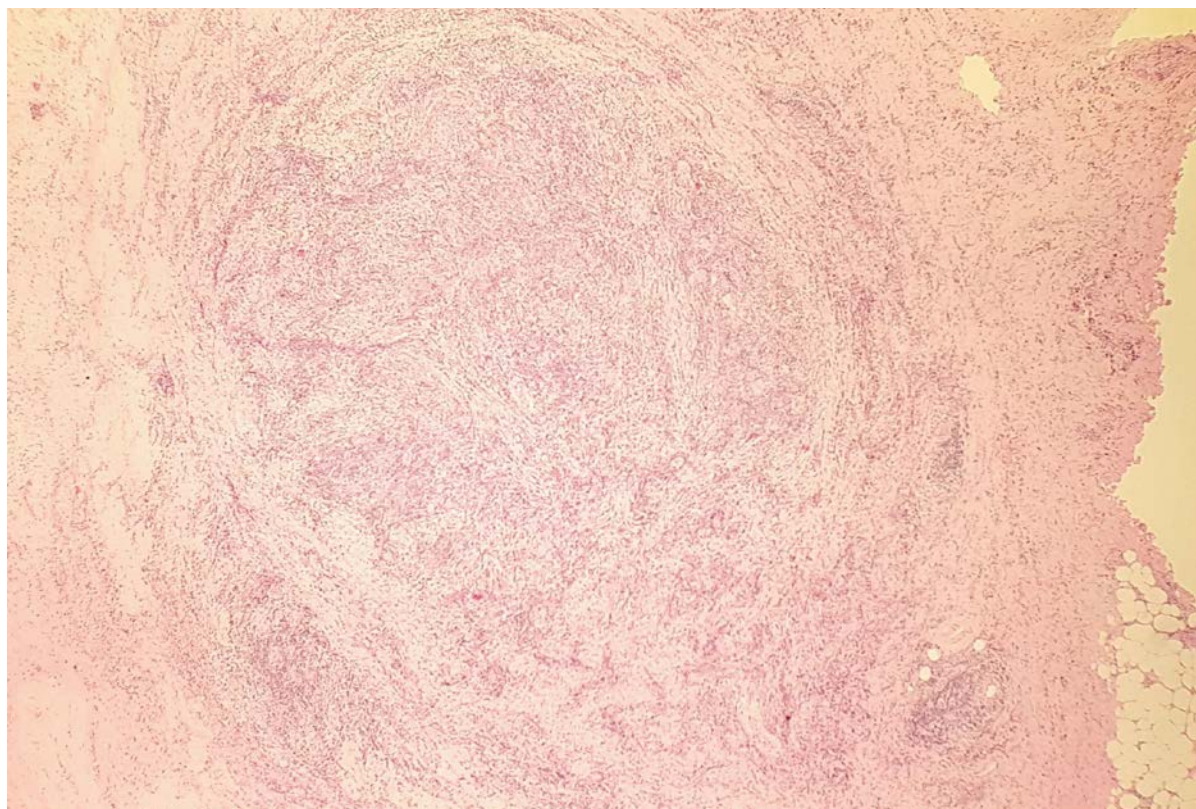
Fig. 1. Ultrasound – eosinophilic funiculitis

byla štíhlá taktéž s normální perfuzí. V diferenciální diagnostice jsme zvažovali malignitu, proto jsme doplnili kompletní odběry včetně markerů nádorů varlat (alfa-fetoprotein, laktátdehydrogenáza a beta-choriový gonadotropin) a indikovali časnou operační revizi. Pacienta jsme poučili o průběhu operačního výkonu včetně eventuální nutnosti provedení radikální orchiektomie při nemožnosti záchovného výkonu a současně jsme mu nabídli možnost kryoprezervace spermatu. Nádorové markery zvýšeny nebyly, zánětlivé parametry byly nízké.

Operační výkon byl veden z tříselného řezu. Semenný provazec s varletem i obaly jsme luxovali před operační ránu a provazec jsme zajistili u vstupu do tříselného kanálu svorkou. Identifikovali jsme rezistenci vycházející z provazce a postupnou tupou i ostrou preparací jsme tuto strukturu postupně izolovali od dalších složek provazce a z větší části odstranili. Místy však rezistence pronikala hluboko do struktur provazce a kompletní odstranění s ohledem na cévní struktury nebylo možné. Resekát jsme odeslali na peroperační histologii. Dle

sdělení patologů se jednalo o preparát s ne zcela jasnou povahou, mikroskopicky s hojnou příměsí eosinofilů, bez průkazu maligních buněk. Patolog vyslovil podezření, že by se mohlo jednat o vzácný případ eosinofilní funikulitidy. Za této situace jsme se rozhodli ustoupit od zvažované radikální orchiektomie a výkon ukončili. Pooperační průběh byl klidný a první den po výkonu byl pacient propuštěn do domácí péče s termínem kontroly k definitivnímu výsledku histologie.

Mikroskopicky se jednalo o tukově vazivovou tkáň v centru s nodulárně stavěným fibrotickým procesem s četnými aktivovanými fibroblasty. Ve stromatu byla popsána smíšená T- i B-lymfocytární zánětlivá celulizace s nápadnou hojnou příměsí eosinofilů. Maligní struktury nebyly ve vyšetřované tkáni prokázány. Vzhledem k nejasné povaze preparátu bylo provedeno imunohistochemické vyšetření s prokázanou pozitivitou těchto markerů – CD20, CD3, CD30, CD1a, langerin, S100, CD34 a CD31. V diferenciální diagnostice patologové zvažovali lymfom Hodgkinova typu, Langerhansovu histio-



Obr. 2. Histologický preparát eosinofilní funikulitidy (hematoxylin-eosin, 25x)

Fig. 2. Histological specimen of eosinophilic funiculitis (hematoxylin-eosin, 25x)

cytózu či epiteloidní hemangiom, které však při imunohistochemickém vyšetření nebyly potvrzeny. Při porovnání s odbornou literaturou se tento případ svým mikroskopickým obrazem nejblíže podobal kazuistice eosinofilní funikulitidy (obr. 2, obr. 3). Při plánované kontrole byl pacient bez obtíží. Fyzikální nález na skrotu byl přiměřený, pouze v místě původní léze semenného provazce bylo hmatné ztuhnutí způsobené pooperačními změnami. V mezidobí pacient absolvoval vyšetření na hematologii, včetně PET-CT, s negativním nálezem. Vzhledem k benigní povaze léze jsme další dispenzární kontrolu naplánovali s odstupem šesti měsíců.

DISKUZE

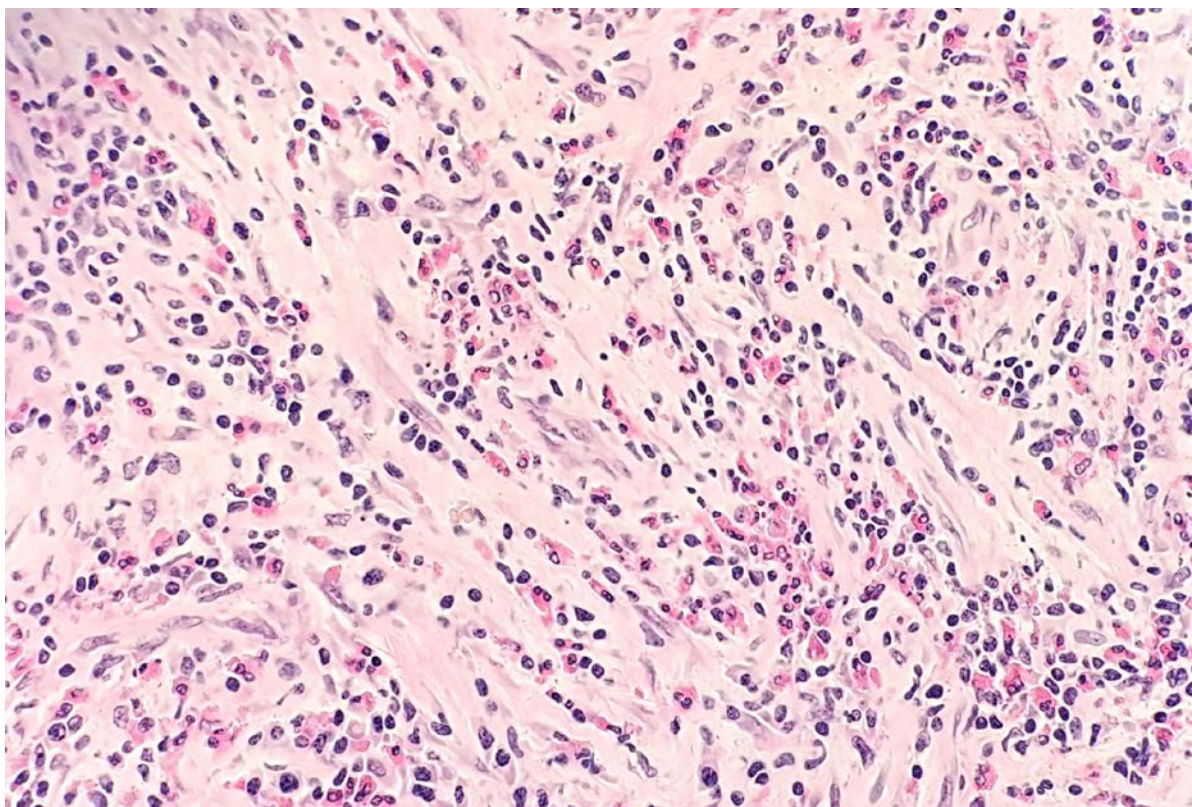
V klinické praxi se s expanzí v oblasti třísla můžeme setkat poměrně často. Nejčastější patologií tříselného kanálu představuje kýla, která bývá příčinou tříselné rezistence ve více než 84 % případů (2). Dále se můžeme setkat s cystou nadvarlete, hydrokélou

semenného provazce, hematodem po traumatu či operaci nebo vzácně s trombózou spermatické žíly (1, 3).

V diferenciální diagnostice je potřeba vždy myslet na nádory semenného provazce, přesto, že jsou velice raritní. Tyto nádory představují heterogenní skupinu, která může vycházet z jakékoliv struktury provazce (pojivo, svalovina, tukové vazivo, cévy či lymfatické tkáně) (4). Mezi nejčastější benigní nádory řadíme lipom, adematoidní nádor, angioleiomyom či neurofibrom.

Maligních nádorů provazce je v dohledatelné odborné literatuře popsáno pouze asi 200 případů (5, 6). Nejčastěji popsaným maligním nádorem funikulu a zároveň nádorem s nejmaligntějším potenciálem je sarkom (4), se kterým jsme se jednou setkali i na našem pracovišti. Z dalších maligních nádorů pak lymfom Hodgkinova typu, adenokarcinom provazce, maligní Schwannom nebo Langerhansova histiocytóza (4, 7).

Eosinofilní funikulitida je extrémně vzácné onemocnění. V odborné literatuře jsme našli



Obr. 3. Detail eosinofilní funikulitidy (hematoxylin-eosin, 200x)

Fig. 3. Detail of eosinophilic funiculitis (hematoxylin-eosin, 200x)

pouze tři kazuistiky popisující toto onemocnění, všechny tři práce pocházely z Japonska (2, 7, 8). Etiopatogeneze eosinofilní funikulitidy není dosud objasněna. Eosinofilní proliferace je často přítomna při alergických či parazitárních onemocněních, laboratorně mohou být zvýšené IgE protilátky. U našeho pacienta se souvislost s alergií nepotvrdila, epidemiologická souvislost s parazitárním onemocněním rovněž ne.

Pečlivé fyzikální vyšetření je v diagnostice tříselných změn zásadní. Primární zobrazovací metodou bývá, i vzhledem ke své široké dostupnosti, ultrasonografie. Při nejasném nálezů je vhodné doplnit další zobrazovací vyšetření jako CT nebo magnetickou rezonanci. Léčba při podezření na expanzi vycházející z provazce je primárně chirurgická. Rozsah operačního zákroku závisí nejenom na lokální pokročilosti nálezů, zejména pak na výsledku histologického vyšetření. K definitivnímu určení diagnózy je důležité i imunohistochemické vyšetření materiálu a úzká spolupráce s patologií.

Výsledek histologie je pak zásadní pro další léčebný postup.

ZÁVĚR

Eosinofilní funikulitida je extrémně vzácné benigní onemocnění nejasné etiologie, nicméně v diferenciální diagnostice expanzí provazce je na něj třeba myslet. Při patologických změnách provazce je třeba vždy pomýšlet na možnost nádorového onemocnění. Léčba je primárně chirurgická a v naprosté většině případů je definitivní diagnóza stanovena až histologickým vyšetřením preparátu. Před operačním výkonem je nutné dostatečně pacienta informovat o rozsahu zamýšleného výkonu i o možné nutnosti provedení orchiektomie. V tomto případě je vhodné nabídnout kryoprezervaci spermatu. Pokud je to možné, je vždy s výhodou opřít rozhodnutí o rozsahu chirurgického výkonu o peroperační histologii.

LITERATURA

1. Ramanathan S, Palaniappan Y, Sheikh A, et al. Crossing the canal: looking beyond hernias – spectrum of common, uncommon and atypical pathologies in the inguinal canal. Clin Imaging 2017; 42: 7–18.
2. Yamada K, Ikubo A, Ikeda S, et al. Eosinophilic funiculitis initially diagnosed as irreducible inguinal hernia: a case report. Int J Surg Case Rep. 2017; 35: 44–48.
3. Bolat D, Gunlusoy B, Yarimoglu S, et al. Isolated thrombosis of right spermatic vein with underlying Factor V Leiden mutation. Can Urol Assoc J. 2016; 10(9–10): E324–E327.
4. Dagur G, Gandhi J, Kapadia K, et al. Neoplastic diseases of spermatic cord: an overview of pathological features, evaluation and management. Transl Androl Urol. 2017; 6(1): 101–110.
5. Gregorio MD, D'Hondt L, Lorge F, Nollevaux MC. Liposarcoma of the spermatic cord: an infrequent pathology. Case Rep Oncol. 2017; 10(1): 136–142.
6. Li F, Tian R, Yin C, et al. Liposarcoma of the spermatic cord mimicking a left inguinal hernia: a case report and literature review. World J Surg Oncol. 2013; 11: 18.
7. Araki A, Yanagisawa M, Nagasima M, et al. A case report of eosinophilic funiculitis difficult to distinguish from incarceration of inguinal hernia. Hinyokika Kiyo. 2013; 59(2): 141–143.
8. Yumura Y, Yamashita Y, Hamano A, et al. A case report of eosinophilic vasculitis in the spermatic cord difficult to distinguish from incarceration of inguinal hernia. Jpn. Urol. Surg. 2004; 17(5): 425–428.