

Lipogranuloma Esclerosante Escrotal Primario. Reporte de caso y revisión de la literatura

Diana Lucía Garzón Correa *
Ana María Ortiz-Zableh **
Alfredo Ortiz Azuero ***
Isabel Bolívar ****
Catalina de Valencia *****

* Médica Residente de Urología de I año. Universidad Autónoma de Bucaramanga. Bucaramanga. Santander. Colombia

** Médica Residente de Urología de II año. Universidad Autónoma de Bucaramanga. Bucaramanga. Santander. Colombia

*** Médico Urologo. Centro urológico FOSCAL. Docente post grado de Urología. Universidad Autónoma de Bucaramanga. Bucaramanga. Santander. Colombia

**** Médica Patóloga. Clínica FOSCAL. Bucaramanga. Santander. Colombia

***** Médica Radióloga. Clínica FOSCAL. Bucaramanga. Santander. Colombia

Correspondencia: Dra. Diana Lucía Garzón Correa. Correo electrónico: dianalu.garzon@gmail.com

Resumen

El lipogranuloma esclerosante es una condición extraña y benigna que puede afectar cualquier órgano, especialmente los genitales externos masculinos. Se suele presentar como masas subcutáneas en escroto, periné y pene. Aunque la mayoría de los casos son secundarios a aplicación de cuerpos extraños como parafina, vaselina o silicona con propósitos estéticos para aumentar el tamaño del pene, también puede deberse a degeneración lipídica endógena, secundaria a trauma, infecciones o reacciones alérgicas. No existe consenso en cuanto a su manejo ni datos sobre su prevalencia al ser una entidad poco reportada; se ha descrito el manejo con ciclos cortos de corticoides sistémicos, y cirugía en los casos recidivantes. El objetivo de este trabajo es reportar el caso de un paciente que acudió con induración y eritema en pene y escroto, quien negaba la aplicación de sustancias exógenas y que fue llevado a biopsia de la lesión, con diagnóstico de lipogranuloma esclerosante. **MÉD.UIS.2021;34(2): 97-102.**

Palabras clave: Lipogranuloma esclerosante. Escroto. Pene. Piel. Neoplasias testiculares. Urología.

Primary Scrotal Sclerosing Lipogranuloma. Case report and literature review

Abstract

Sclerosing lipogranuloma is a noncommon and benign disease that could affect any system in the body, especially the male external genitalia. It is usually presented as a subcutaneous mass in scrotum, perineum and penis. Although, most cases are secondary to the injection of foreign bodies such as paraffin, petrolatum or silicone for cosmetic purposes to increase penis size, it could also be due to endogenous lipid degeneration, secondary to trauma, infections or allergic reactions. There is no unanimity regarding its management or data on its prevalence as it is a poorly reported entity. Management with short cycles of systemic corticosteroids and surgery in relapsing cases have been described. The purpose of this article is to present a case of a patient with induration and erythema in penis and scrotum, who denied the application of exogenous substances and has a reported biopsy of the lesion with diagnosis of sclerosing lipogranuloma. **MÉD.UIS.2021;34(2): 97-102.**

Keywords: Sclerosing lipogranuloma. Scrotum. Penis. Skin. Testicular neoplasms. Urology.

¿Cómo citar este artículo? Garzón D, Ortiz-Zableh A, Ortiz A, Bolivar I, Valencia C. Lipogranuloma Esclerosante Escrotal Primario. Reporte de caso y revisión de la literatura. MÉD.UIS.2021;34(2): 97-102 . doi: 10.18273/revmed.v34n2-2021010

Introducción

El lipogranuloma esclerosante (LGE) es una condición rara y benigna, reportada por primera vez por Smetana y Bernhard en 1950^{1,2}, que puede afectar cualquier órgano, pero que tiene especial predilección por los genitales externos masculinos^{3,4}. Se suele presentar como masas subcutáneas en el escroto, el periné y el pene. La mayoría de los casos son secundarios a la aplicación de cuerpos extraños como parafina o aceite mineral⁵, con el propósito de aumentar el tamaño del pene, sin embargo, han sido reportados otros casos en los que los pacientes niegan la aplicación de dichas sustancias, considerando entonces la etiología primaria, que ocurre secundaria a degeneración lipídica endógena por procesos inflamatorios, alérgicos o traumáticos. No se conoce la prevalencia al ser una afección poco diagnosticada y reportada, y si bien suele tener un comportamiento benigno, es de gran importancia conocerla, sospecharla y diagnosticarla, pues el lipogranuloma esclerosante debe ser incluido en los diagnósticos diferenciales de las patologías genitales para evitar sobre tratamientos innecesarios.

El objetivo de este trabajo es reportar el caso clínico de un paciente diagnosticado con esta condición, quien fue tratado satisfactoriamente con corticoides sistémicos.

Presentación de Caso

Paciente masculino de 46 años, sin antecedentes patológicos, quien acude al servicio de urgencias por cuadro clínico de 3 días de evolución consistente en sensación de peso escrotal, asociado a edema, eritema y sensación de masa en el escroto y la base del pene, con dolor tipo punzada a este nivel. Negaba fiebre, síntomas irritativos urinarios o secreción uretral, sin historia de trauma o inyección de sustancias exógenas.

En el examen físico se encontró pene con edema, sin eritema, con induración a nivel del dorso, en la base y el cuerpo, que se extendía hasta el tercio medio, sin comprometer el glande. Escroto con edema y eritema (Ver Figura 1), al tacto piel indurada a nivel anterior,

que se extendía a la base del pene. Testículos sin lesiones, no sugestivos de orquidoepididimitis.



Figura 1. Hallazgos al examen físico.

Fuente: autores.

Paraclínicos con leucocitosis y neutrofilia, urocultivo negativo. Ecografía escrotal con testículos de tamaño y forma normal, con aumento del espesor escrotal, asociado a disminución de la ecogenicidad de la túnica vaginalis en ambas bolsas escrotales, y aumento de la ecogenicidad y del espesor de la piel, y el tejido celular subcutáneo tanto a nivel de las bolsas escrotales como en la base del pene, con área heterogénea de 21 x 12 x 22 mm, sin identificarse masa clara o colecciones circunscritas.

Debido a los hallazgos inespecíficos en la ecografía, se solicitó una resonancia magnética donde se evidenció un marcado engrosamiento circunferencial de la piel peneana y de la piel escrotal, isointensa en T1 e hiperintensa en T2, con realce marcado en la señal de la piel tanto del escroto como del pene con la inyección del contraste, sin observarse colecciones o masas en la región perineal o peneana. No se evidenciaron adenopatías, masas o colecciones pélvicas (Ver Figuras 2 y 3).

Se decidió iniciar manejo antibiótico con ceftriaxona y doxiciclina por 8 días, sin que el paciente tuviera mejoría clínica.

Mayo-agosto

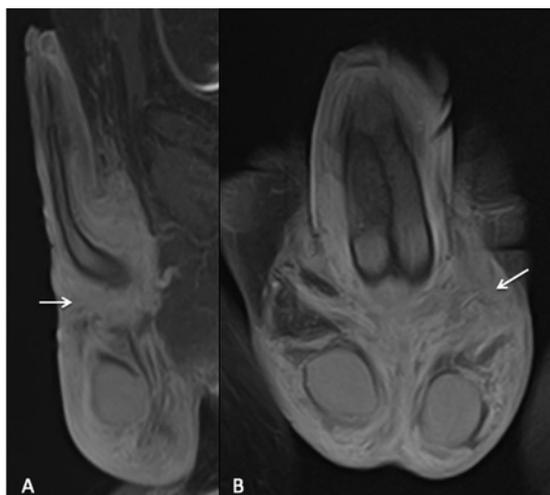


Figura 2. Resonancia magnética nuclear.

Imágenes T1 contrastadas sagital (A) y coronal (B). Se identifica un extenso realce (flecha) de la piel y el plano graso subcutáneo del escroto, pene y del prepucio, así como del glande.

Fuente: Departamento de Radiología e imágenes diagnósticas, clínica Foscal.

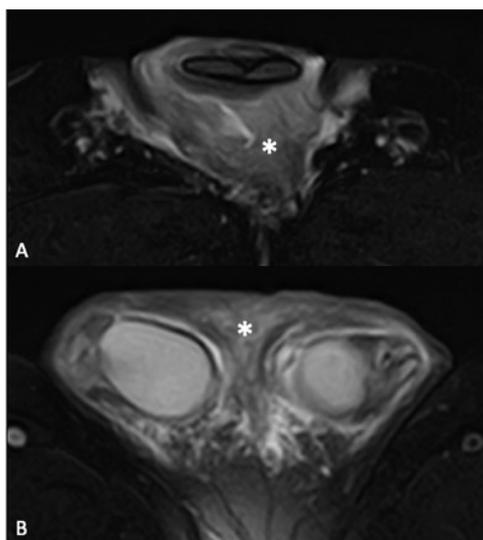


Figura 3. Resonancia magnética nuclear.

Imágenes axiales STIR a nivel de la base del pene (A) y a nivel del escroto (B). Hiperintensidad del plano graso subcutáneo y la piel del pene y del escroto (*), sin extensión del proceso inflamatorio a los cuerpos cavernosos, cuerpo esponjoso o testículos.

Fuente: Departamento de Radiología e imágenes diagnósticas, clínica Foscal.

Frente a estos resultados clínicos y radiológicos, y ante la falta de diagnóstico se consideró necesario realizar biopsia por incisión, la cual reportó en dermis media y profunda, vacuolas lipídicas sobre un

estroma esclerosado asociado a infiltrado inflamatorio linfocitario con presencia de células gigantes tipo cuerpo extraño, con infiltrado neutrofilico asociado, compatibles con lipogranuloma (Ver Figura 4).

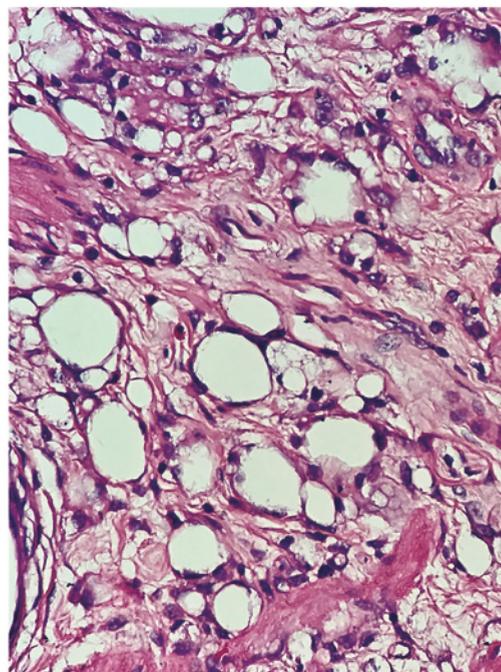
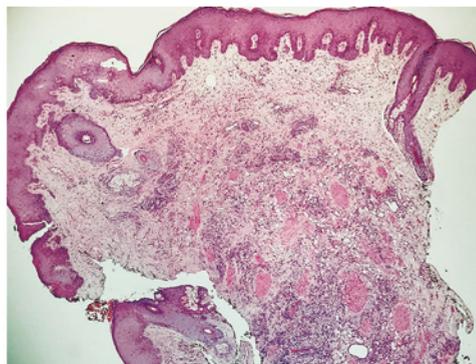


Figura 4. Histopatología de biopsia escrotal.

Se evidencian vacuolas lipídicas de tamaño variable sobre un estroma esclerosado asociado a infiltrado inflamatorio en la dermis que corresponden a sustancias exógenas. Células gigantes multinucleadas y abundante fibrosis se ven alrededor de las vacuolas con infiltrado neutrofilico. Tinción con Hematoxilina eosina. A) 10x B) 100x

Fuente: Laboratorio de Patología Isabel Bolívar

Con el diagnóstico histopatológico se realiza una revisión de la literatura, y se decide iniciar manejo con corticoide oral por 30 días, con adecuada respuesta al tratamiento médico y mejoría de la induración a nivel del pene y el escroto.

Discusión

El lipogranuloma esclerosante genital suele presentarse tras la aplicación de sustancias exógenas como parafina, vaselina, silicona o aceite mineral con propósitos estéticos (LGE secundaria)^{5,6}. Ante la aplicación de estas sustancias, el cuerpo humano carece de las enzimas necesarias para metabolizar los aceites exógenos, en consecuencia, se produce una reacción a cuerpo extraño⁷.

Debe aclararse que también se han reportado casos de LGE en pacientes que niegan la aplicación de dichas sustancias, por lo que a pesar de no existir causas bien determinadas, se ha visto relacionado con degeneración de grasa endógena idiopática en pacientes con antecedente de trauma⁸ (ejercicio intenso, equitación, bicicleta), infecciones, temperaturas extremas o reacciones alérgicas, denominándose LGE primario^{3,6}. Su fisiopatología, sea primaria o secundaria, se ha visto relacionada con una reacción inflamatoria en el tejido graso, con la subsecuente degeneración lipídica y la formación de tejido granulomatoso³.

A pesar de ser una condición extraña, debe considerarse como diagnóstico diferencial ante una induración subcutánea de los genitales masculinos, ya que puede simular un carcinoma⁹, y plantea un desafío diagnóstico en pacientes que no admiten haberse inyectado sustancias exógenas⁵. Aunque el paciente de este caso clínico negó el uso de sustancias exógenas, en el estudio histopatológico se evidencian vacuolas lipídicas de tamaño variable sobre un estroma esclerosado asociado a infiltrado inflamatorio en la dermis que corresponden a sustancias exógenas.

Se ha observado una presentación clínica variable tanto en síntomas como en gravedad. Generalmente la edad de presentación es de 40 años (27-61 años)¹⁰ en hombres sexualmente activos. El tiempo de presentación puede ser de semanas, meses o años, posterior a la aplicación de la sustancia, como una masa indolora a nivel genital¹¹⁻¹³. Adicionalmente puede presentarse con hiperpigmentación y cambios en la textura de la piel, o como nódulos firmes, profundos e irregulares, que pueden formar placas infiltradas, profundas, mal limitadas y dolorosas, o inclusive hasta deformidad escrotal y del pene, con edema, eritema, necrosis y ulceración, causando

erecciones dolorosas, disfunción eréctil¹⁴ o gangrena de Fournier^{5,12}.

Las lesiones surgen a lo largo del rafé medio del pene, dentro del escroto, y rodean simétricamente el pene en su raíz. Esta morfología característica puede explicarse anatómicamente por la distribución de la grasa subcutánea en el escroto adulto¹³. Histológicamente se observa una lesión granulomatosa, que contiene células epitelioides, eosinófilos, células gigantes multinucleadas, linfocitos y macrófagos, con marcados infiltrados de células inflamatorias en el intersticio^{2,4,6,15}.

Se ha sugerido un mecanismo alérgico debido a la infiltración eosinofílica de la lesión observada en muchos de estos pacientes¹⁰, así como la presencia de eosinofilia en sangre periférica; sin embargo, ésta no fue encontrada en el paciente del presente caso clínico. Otras teorías que apoyan este postulado es el curso clínico rápido, y la regresión espontánea de la lesión, sin especificar el tiempo que se debe esperar la regresión espontánea¹⁵.

En el diagnóstico diferencial se deben descartar enfermedades infecciosas y no infecciosas, así como algunas neoplasias. Dentro de las enfermedades infecciosas se debe diferenciar con la filiaris ocasionada por *Wuchereria bancrofti*, aunque esto es más común en pacientes asiáticos, y raro en otras localizaciones³. Algunas bacterias como *Klebsiella* se deben excluir mediante análisis de orina y cultivo como posible causa de LGE primario^{3,6}.

Con relación a las enfermedades no infecciosas, el LGE puede generar un cuadro histológico parecido al de la malacoplaquia, sarcoidosis o pseudotumor inflamatorio, así como algunas enfermedades neoplásicas como el liposarcoma esclerosante, el carcinoma con células en anillo de sello, el linfangioma quístico o el tumor adenomatoide⁶.

La ecografía es la modalidad de imagen de elección; sin embargo, muchas veces no es concluyente, y la resonancia magnética es la modalidad más útil para diferenciar patología benigna de maligna, así como para delimitar la extensión de la afectación de los tejidos blandos y la anatomía circundante^{16,17}. En la mayoría de casos se reportan lesiones con forma de “Y” simétrica, situada justo debajo del cuerpo esponjoso, donde los brazos de la “Y” rodean el eje

Mayo-agosto

del pene^{10,18}. Las lesiones generalmente muestran una intensidad de señal similar y moderadamente alta en comparación con los músculos en las imágenes en T1 y T2. Principalmente isoíntensa en T1, con realce fuerte, con intensidad de señal baja en T2; esta última relacionada con la presencia de tejido fibroso. La detección y caracterización de la lesión en el DWI depende principalmente de la extensión de la celularidad del tejido, y la celularidad aumentada se asocia con una difusión restringida y un ADC reducido¹⁸.

En el paciente en cuestión, la resonancia magnética mostraba evidencia de marcado engrosamiento circunferencial de la piel peneana y de la piel escrotal, isoíntensa en T1 e hiperíntensa en T2, con realce marcado en la señal de la piel tanto del escroto como del pene con la inyección del contraste, en este caso, no se identificaron áreas de difusión restringida dentro de la masa, hallazgos fuertemente sugestivos de benignidad, sin observarse colecciones o masas en la región perineal o peneana.

Al ser una afección poco frecuente no existe consenso en cuanto al tratamiento médico; sin embargo, se ha visto una mejoría significativa del cuadro con el uso de esteroides intralesionales y sistémicos como prednisolona a dosis variable por una duración de 6 semanas, como primera línea de tratamiento^{2,12,16}. El paciente en cuestión recibió manejo con un ciclo corto de corticoides vía oral, con respuesta al manejo y regresión de las lesiones induradas a nivel de pene y escroto. Otros reportes de caso refieren el uso de antibioticoterapia y antiinflamatorios no esteroideos, por 1-2 meses con regresión completa de la lesión¹³.

El LGE generalmente autolimita, por lo que puede tratarse de forma conservadora¹⁹. La escisión quirúrgica se recomienda sólo en casos de lesiones pequeñas donde no hay mejoría clínica con el uso de corticoides, cuando hay recidiva⁹ o cuando hay deformidad importante del pene²⁰. Sin embargo, en algunos casos de resección incompleta se ha visto que presenta una recurrencia rápida, imitando una lesión neoplásica^{2,3,5,12}.

Conclusiones

El LGE es un reto diagnóstico dada su similitud con múltiples patologías tanto benignas como malignas y a su amplio espectro clínico. En la actualidad existe

un auge en el empleo de agentes tópicos con fines cosméticos a nivel genital, por lo que es necesario conocer este tipo de patología que se desarrolla secundario a su uso. Cuando los pacientes niegan la aplicación de sustancias exógenas, es necesario orientar el diagnóstico mediante la historia clínica, el examen físico e imagenológico con ecografía o resonancia magnética si la primera no es conclusiva. Su confirmación se obtiene por la histopatología y el tratamiento es inicialmente médico, con buen pronóstico, evitando modalidades de tratamiento innecesarias.

Consideraciones éticas

Los autores declaramos que seguimos los protocolos de nuestro centro de trabajo sobre la publicación de datos, imágenes y fotografías del paciente, el cual ha recibido información sobre la publicación y ha proporcionado su consentimiento informado por escrito para participar en este artículo.

Conflicto de interés

Los autores declaramos que no existen conflictos de interés.

Referencias Bibliográficas

1. Smetana HF, Bernhard W. Sclerosing lipogranuloma. Arch Pathol (Chic). 1950;50(3):296-325.
2. Mungan S, Karagüzel E, Turan C, Reis A. A Giant Primary Sclerosing Lipogranuloma of the Scrotum. Turk Patoloji Derg. 2014;30(1):78-80.
3. Singam P, Suriyani L, Ho C, Hong GE, Zainuddin Z. Primary sclerosing lipogranuloma: an unusual scrotal mass. Libyan J Med. 2010;5(1):1-3.
4. Jung SE, Lee JM, Kang CS, Cho YH. Sclerosing lipogranuloma of the scrotum sonographic findings and pathologic correlation. J Ultrasound Med. 2007;26(9):1231-1233.
5. Bjurlin MA, Carlsen J, Grevious M, Jordan MD, Taylor A, Divakaruni N, et al. Mineral Oil-induced Sclerosing Lipogranuloma of the Penis. J Clin Aesthet Dermatol. 2010;3(9):41-44.
6. López-Soto MV, López ASP, Martínez AP, Gago MM, Prieto J, Machado I. Lipogranuloma esclerosante escrotal primario simulando un tumor testicular. Presentación de un caso. Rev Esp Patol. 2015;48(4):240-244.
7. Foxtan G, Vinciullo C, Tait CP, Sinniah R. Sclerosing lipogranuloma of the penis. Australas J Dermatol. 2011 Aug;52(3):12-4.
8. Galbraith BT, Young JM. Sclerosing Lipogranuloma; Report of two cases. J Am Med Assoc [Internet]. 1952;150(13):1295-7. Disponible en: <https://doi.org/10.1001/jama.1952.63680130001008>
9. Claudy A, Garcier F, Schmitt D. Sclerosing lipogranuloma of the male genitalia: ultrastructural study. Br J Dermatol. 1981;105(4):451-6.
10. Matsuda T, Shichiri Y, Hida S, Okada Y, Takeuchi H, Nakashima Y, et al. Eosinophilic sclerosing lipogranuloma of the male genitalia not caused by exogenous lipids. J Urol. 1988;140(5):1021-4.

11. Matsushima M, Takanami M, Tajima M, Ando K, Atobe T. Primary lipogranuloma of male genitalia. *Urology*. 1988;31(1):75-7.
12. Merino JE, Alcalá Pérez D, González González KI, Garcilazo CA. Lipogranuloma esclerosante por modelantes. *Rev Cent Dermatol Pascua*. 2007;16(1):19-23
13. Takihara H, Takahashi M, Ueno Ishihara TT, Naito K. Sclerosing Lipogranuloma of the Male Genitalia: Analysis of the Lipid Constituents and Histological Study. *Br J Urol*. 1993;71(1):58-62
14. Newcomer VD, Graham JH, Schaffert RR, Kaplan L, Angeles L. Sclerosing Lipogranuloma Resulting from Exogenous Lipids. *AMA Arch Derm*. [Internet]. 1956;73(4):361-72. Disponible en: <https://doi.org/10.1001/archderm.1956.01550040055008>
15. Watanabe K, Hoshi N, Baba K -i, Fukuda T, Hakozaiki H, Suzuki T. Immunohistochemical profile of primary sclerosing lipogranuloma of the scrotum: Report of five cases. *Pathol Int*. 1995;45(11):854-9.
16. Lawrentschuk N, Angus D, Bolton DM. Sclerosing lipogranuloma of the genitalia treated with corticosteroids. *Int Urol Nephrol*. 2006 Feb;38(1):97-9.
17. Motoori K, Takano H, Ueda T, Ishihara M. Sclerosing lipogranuloma of male genitalia: CT and MR images. *J Comput Assist Tomogr*. 2002;26(1):138-40.
18. Tsili A, Xiropotamou O, Nomikos M, Argyropoulou M. Silicone-induced Penile Sclerosing Lipogranuloma: Magnetic Resonance Imaging Findings. *J Clin Imaging Sci*. 2016 Jan 1;6(1):1-4.
19. Ricchiuti VS, Richman MB, Haas CA, Desai D, Cai DX. Sclerosing lipogranuloma of the testis. *Urology*. 2002;60(3):515
20. Santucci RA, Zehring RD, McClure D. Petroleum jelly lipogranuloma of the penis treated with excision and native skin coverage. *Urology*. 2000;56(2):331