



## RELATO DE CASO

# Esquistossomose Pseudotumoral Mimetizando Recidiva de Câncer de Pênis: Um Relato de Caso e Revisão de Literatura

## *Pseudotumoral Schistosomiasis Mimicking Penile Cancer Recurrence: A Case Report and Literature Review*

Luiz Eduardo Café Cardoso Pinto<sup>1\*</sup>, Benedita Débora Aguiar<sup>2</sup>, Bruno Suffredini Figueiredo<sup>2</sup>, Jailton Campos Araújo<sup>2</sup>, Marcei Pereira de Oliveira<sup>2</sup>, Merson Silva de Almeida<sup>2</sup>, Thiago Aragão Silva Trabuco<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Coordenador da Residência de Urologia Hospital Santa Izabel - Santa Casa de Misericórdia da Bahia; <sup>2</sup>Médico Residente do Serviço de Urologia. Hospital Santa Izabel, Santa Casa de Misericórdia da Bahia; Salvador, Bahia, Brasil

**Correspondence addresses:**

Dr. Luiz Eduardo Café  
eduardocafe@gmail.com

**Received:** September 17, 2021

**Revised:** October 20, 2021

**Accepted:** November 25, 2021

**Published:** December 28, 2021

**Data Availability Statement:**

All relevant data are within the paper and its Supporting Information files.

**Funding:** This work was the result of authors' initiative. There was no support of research or publication funds.

**Competing interests:** The authors have declared that no competing interests exist.

**Copyright**

© 2021 by Santa Casa de Misericórdia da Bahia.  
All rights reserved.  
ISSN: 2526-5563  
e-ISSN: 2764-2089  
DOI: 10.35753

A esquistossomose é uma doença parasitária crônica, considerada um problema de saúde pública mundial, principalmente nos países em desenvolvimento, situados em áreas tropicais e subtropicais. O carcinoma de pênis é um cancer agressivo, caracterizado por ser invasivo e de disseminação metastática precoce, ocorrendo principalmente nos países em desenvolvimento, como o Brasil. Relato de caso de paciente de 48 anos com diagnóstico de carcinoma espinocelular de pênis, estágio clínico IIIA, submetido a penectomia parcial. No seguimento, foi submetido a linfadenectomia retroperitoneal e pélvica, tendo como resultado linfonodos pélvicos comprometidos, sendo encaminhado para quimioterapia adjuvante. Durante seguimento, PET-TC evidenciou linfonodomegalias discretamente hipermetabólicas em cadeias retroperitoneais de aspecto suspeito para acometimento neoplásico. A nova linfadenectomia retroperitoneal resultou em anatomopatológico de linfadenite granulomatosa associada a ovos de *Schistosoma mansoni*. A associação de câncer de pênis e esquistossomose é rara. Ambas são doenças que afetam mais preponderantemente países em desenvolvimento. O caso relatado demonstra a necessidade de se considerar a esquistossomose no diagnóstico diferencial de tumorações linfonodais ao exame de imagem, uma vez que o Brasil está entre os países de maior prevalência da doença.

**Palavras-chave:** Câncer de Pênis; Esquistossomose; Linfonodomegalia Retroperitoneal.

Schistosomiasis is a chronic parasitic disease and is considered a worldwide public health problem, especially in developing countries located in tropical and subtropical areas. Penile carcinoma is aggressive cancer characterized by being invasive and early metastatic spread, occurring mainly in developing countries, such as Brazil. A case report of a 48-year-old patient diagnosed with penile squamous cell carcinoma, clinical-stage IIIA, submitted to partial penectomy due to moderately differentiated squamous cell carcinoma. In the follow-up, retroperitoneal and pelvic lymphadenectomy was performed, with the diagnosis of compromised pelvic lymph nodes, and the patient was referred for adjuvant chemotherapy. A PET-CT scan showed mildly hypermetabolic lymph node enlargement in retroperitoneal chains with a suspicious aspect for neoplastic involvement. The new retroperitoneal

lymphadenectomy resulted in an anatomopathological examination of granulomatous lymphadenitis associated with *Schistosoma mansoni* eggs. The association between penile cancer and schistosomiasis is rare. Both are diseases that most affect developing countries. The case reported here demonstrates the need to consider schistosomiasis in the differential diagnosis of lymph node tumors on imaging tests, since schistosomiasis has a significant prevalence in some countries, such as Brazil.

**Keywords:** Penile Cancer; Schistosomiasis; Retroperitoneal Lymph Node Enlargement.

## Introdução

A esquistossomose é uma doença parasitária crônica causada pelo trematódeo digenético do gênero *Schistosoma*. Acredita-se que a esquistossomose foi introduzida no Brasil em meados do século XVI, com o comércio de escravos africanos portadores da infecção.<sup>1</sup>

Apesar da esquistossomose ser considerada um problema de saúde pública mundial, principalmente nos países em desenvolvimento, situados em áreas tropicais e subtropicais, o número de internamentos hospitalares para tratamento da esquistossomose e suas complicações foi reduzido drasticamente. Entretanto, a esquistossomose continua sendo uma doença infecciosa de importância clínica.<sup>2</sup> Em casos com grande carga parasitária pode ocorrer a forma pulmonar micronodular com disseminação dos ovos nos pulmões ou a infecção pode tornar-se invasiva, inclusive com acometimento linfonodal.

O carcinoma de pênis é um câncer agressivo, caracterizado por ser invasivo e de disseminação metastática precoce. Apresenta baixa prevalência mundial, ocorrendo principalmente nos países em desenvolvimento. Ainda mantém uma incidência relativamente alta no Brasil e em alguns países da África podendo representar até 10% dos cânceres em homens.<sup>2,3</sup> É mais comum em quem vive em áreas rurais, homens solteiros, início precoce da atividade sexual e histórico de múltiplos parceiros sexuais.<sup>4</sup>

A detecção de linfonomegalia em contexto de quimioterapia e câncer de pênis deve ser questionada quanto aos diagnósticos diferenciais, como recidiva do câncer. Em revisão de literatura, não se verificou

qualquer relato de esquistossomose simulando linfonomegalia neoplásica.

## Relato de Caso

Este relato de caso trata do paciente do sexo masculino, 48 anos, hipertenso e diabético, com diagnóstico de carcinoma espinocelular de pênis estágio clínico IIIA (23\11\15). Foi submetido a penectomia parcial em novembro de 2015. A anatomia patológica evidenciou um carcinoma espinocelular moderadamente diferenciado, sem invasão angiolinfática. Em janeiro de 2016, foi submetido à linfadenectomia retroperitoneal e pélvica tendo como resultado patológico: linfonodos pélvicos esquerdos comprometidos com extensão para tecido mole e pele. Realizou quimioterapia adjuvante (início em 18/04/2016).

Em 23/08/16 foi submetido a ressecção de massa tumoral em raiz da coxa esquerda e de linfonodos inguinais, sendo também realizada nova linfadenectomia pélvica retroperitoneal com template em vasos ilíacos externos desde a sua bifurcação e estendendo-se até os vasos femorais. Durante seguimento (2018 e 2019), foram realizadas tomografias que evidenciaram redução de dimensões dos linfonodos, sendo adotada conduta conservadora. Entretanto, em 2020, houve aumento significativo de dimensões dos linfonodos nas cadeias ilíaca comum, interilíaca e ilíaca externa à direita, sendo solicitado um exame de PET-TC para estadiamento. O PET-TC acusou linfonomegalias discretamente hipermetabólicas em cadeias ilíacas externas bilaterais, notadamente à direita, com aspecto suspeito para acometimento neoplásico, além

de linfonodos proeminentes e hipercaptantes em cadeias ilíacas comuns e retroperitoneal para-aórtica. O paciente foi submetido então a nova linfadenectomia pélvica e retroperitoneal na qual foi realizada dissecação e ressecção de conglomerado linfonodal a nível de bifurcação aórtica, para-aorto-caval, ilíaca comum e externa bilaterais. Resultado patológico: linfadenite granulomatosa associada a ovos de *Schistosoma mansoni* em um dos linfonodos, demais linfonodos com hiperplasia linfoide reacional, ausência de neoplasia. Paciente foi então encaminhado para consulta com a infectologia para tratamento de esquistossomose com praziquantel.

## Discussão

A infecção pelo *S. mansoni* pode induzir diferentes manifestações clínicas no hospedeiro definitivo, o que é dependente de alguns fatores como, localização do parasito, intensidade do parasitismo e resposta imune do indivíduo contra a infecção. Do ponto de vista clínico, a maioria dos indivíduos residentes em área endêmica para a esquistossomose são portadores de infecção crônica que ocorre por volta do sexto mês após a exposição, podendo evoluir para as diferentes formas clínicas da doença.

É de amplo conhecimento que o principal fator causador das formas graves da esquistossomose é o ovo depositado nos tecidos do hospedeiro. Dessa forma, quando ocorre ovoposição em grande quantidade, a reatividade imunológica pode ser muito intensa causando lesões graves nos tecidos. A reação inflamatória granulomatosa, em resposta aos antígenos do ovo de *S. mansoni* é progressivamente substituída por uma reação fibrótica, e esses eventos são vistos como principal fator envolvido na patogênese da esquistossomose.<sup>4</sup>

O *S. mansoni* afeta, dentre outros, os órgãos urológicos, o que é bem documentado

na literatura. Radstake e colaboradores encontraram ovos de *S. mansoni* na parede da bexiga de 22,5% dos pacientes autopsiados com câncer de bexiga.<sup>5</sup> Ovos de *S. mansoni* são encontrados na próstata de 7% dos pacientes com esquistossomose. Em um estudo realizado em pacientes necropsiados com esquistossomose, a próstata e a bexiga foram afetadas em 6,5% e 22% dos casos, respectivamente.<sup>6</sup> Há também relato de associação de esquistossomose com o câncer de próstata.<sup>7</sup>

O diagnóstico do câncer de pênis é baseado no exame físico da lesão primária, avaliação dos linfonodos regionais e biopsia da lesão. O rastreamento de linfonodos pélvicos e metástases a distância é indicada na presença de gânglios inguinais palpáveis e pode ser realizado através da tomografia computadorizada ou com PET-TC que apresenta alta sensibilidade (88-100%) e especificidade (98-100%).<sup>8,9</sup>

O principal tipo histológico do câncer de pênis é o carcinoma de células escamosas. Os principais fatores de risco relacionados são infecção pelo HPV, infecção pelo HIV, baixo nível socioeconômico, higiene precária, fimose e tabagismo.<sup>2,3</sup> O status nodal é o principal fator determinante de sobrevida no câncer de pênis. A sobrevida câncer específica em 5 anos para pN0= 85-100%, pN1 = 79-89%, pN2 = 17-60% e pN3 = 0-17% (6, 10).

Em pacientes com tumores de baixo grau ( $\leq T1a$ ), a incidência de metástase de linfonodo é de 0 a 30%, enquanto se aproxima de 50% naqueles com tumores  $\geq T1b$  ou invasão linfovascular. Em pacientes com tumores de alto grau, 50-70% dos homens com tumores T2 e 50-100% dos homens com tumores T3 têm envolvimento linfonodal.<sup>10</sup> O paciente com linfonodos pélvicos ou metástases a distância tem de 0-33% de sobrevida em 5 anos.<sup>8</sup> A invasão linfonodal segue uma lógica de acometimento, dos linfonodos inguinais superficiais para os profundos e posteriormente os linfonodos pélvicos.<sup>8,11</sup>

Via de regra a linfadenectomia pélvica estará indicada se dois ou mais linfonodos inguinais estiverem envolvidos em um lado (pN2) ou se houver metástase nodal extracapsular (pN3).<sup>8</sup>

A linfadenomegalia é uma entidade radiológica que traduz inúmeras possibilidades clínicas, inclusive doenças linfoproliferativas, neoplásicas e infecciosas, fato que torna imperiosa uma conduta diagnóstico-terapêutica eficaz. A linfadenomegalia indeterminada deve ser submetida à ressecção para elucidação diagnóstica e tratamento adequado, como ocorreu no presente caso. Em contexto de paciente já com diagnóstico prévio de entidade neoplásica (câncer de pênis), a linfadenomegalia é de alta suspeição para recidiva tumoral em linfonodos. Tanto as entidades de esquistossomose e linfadenomegalia neoplásica são vistas à tomografia computadorizada de abdome como aumento significativo da densidade após infusão de contraste venoso. Da mesma forma, o PET-TC mostrou linfonodomegalias discretamente hipermetabólicas e hipercaptantes, sendo indeterminados ao método, podendo ser de origem neoplásica ou infecciosa. Assim sendo, apenas a anatomia patológica conseguiu definir com exatidão o diagnóstico histopatológico de esquistossomose linfonodal, após observação dos ovos de *Schistosoma mansoni* na peça cirúrgica linfonodal.

O tratamento específico pode ser efetuado com os antimoniais oxaminiquine ou praziquantel. Nenhum dado existe em relação ao efeito da droga em doença linfonodal. No entanto, há muitas razões a favor do tratamento. Primeiro, os efeitos colaterais da droga são leves, e o tratamento elimina o verme adulto, reduzindo a ovoposição e, portanto, a progressão da doença.<sup>7</sup> A nossa opção pelo tratamento foi buscando justamente interromper a progressão da doença, uma vez que o paciente não apresentava comprometimento de outros órgãos.

## Conclusão

A associação de câncer de pênis e esquistossomose é rara. Ambas são doenças que afetam mais preponderantemente países em desenvolvimento. É necessário maior foco no combate à esquistossomose em regiões endêmicas como método de melhoria da saúde pública. Também é necessário ao médico assistente que atende paciente de regiões endêmicas e àqueles que atendem pacientes oncológicos e imunodeprimidos, estar atento à possibilidade desta infecção e seu adequado tratamento para redução efetiva do risco de recidiva. O caso relatado demonstra a necessidade de considerar-se a esquistossomose no diagnóstico diferencial de tumorações linfonodais ao exame de imagem, uma vez que o Brasil está entre os países de maior prevalência da doença.

## Referências

1. Lambertucci JR, Da Silva RA, Gerspacher-Lara R, Barata CH. Acute Manson's schistosomiasis: sonographic features. *Trans R Soc Trop Med Hyg* 1994;88:76-87.
2. El-Garem AA. Schistosomiasis. *Digestion*. 1998;59:589-605.
3. Andrade ZA. The situation of hepatosplenic schistosomiasis in Brazil today. *Mem Inst Oswaldo Cruz* 1998;93(Suppl 1):313-6.
4. Homeida M, Abdel-Gadir AF, Cheever AW, Bennett JL, Arbah BMO, Ibrahim SZ, AbdelSalam IM, Dafalla AA, Nash T. Diagnosis of pathologically confirmed Symmers' periportal fibrosis by ultrasonography: A prospective blinded study. *Am J Trop Med Hyg* 1988;38:86-91.
5. Bacelar A, Larissa G M, de Queiroz AC, Café E. Association between prostate cancer and schistosomiasis in young patients: a case report and literature review. *Brazilian Journal of Infectious Diseases* 2007.
6. Radstake HN, Collenteur JC, Herderschee D, Smit AM. Bladder involvement in schistosomiasis *Schistosoma mansoni*. *Trop Geogr Med* 1973;25:84-7.
7. Hakenberg OW, Dräger DL, Erbersdobler A, Naumann CM, Jünemann KP, Protzel C: The diagnosis and treatment of penile cancer. *Dtsch Arztebl Int* 2018; 115: 646–52. DOI: 10.3238/arztebl.2018.0646.

8. O.W. Hakenberg (Chair), E. Compérat, S. Minhas, A. Necchi, C. Protzel, N. Watkin (Vice chair) Guidelines Associate: R. Robinson. Guidelines on Penile Cancer. EAU Guidelines. Edn. presented at the EAU Annual Congress Amsterdam, 2020. ISBN 978-94-92671-07-3.
9. Marchioni M, Berardinelli F, De Nunzio C, Spiess P, Porphiglia F, Schips L, et al. New insight in penile cancer. *Minerva Urol Nefrol* 2018;70:559-69. Doi: 10.23736/S0393-2249.18.03215-0).
10. Leone A, Diorio GJ, Pettaway C, Master V, Spiess PE. Contemporary management of patients with penile cancer and lymph node metastasis. *Nat Rev Urol* 2017;13:335.
11. Leijte JA, Kirrander P, Antonini N, Windahl T, Horenblas S. Recurrence patterns of squamous cell carcinoma of the penis: recommendations for follow-up based on a two-centre analysis of 700 patients. *Eur Urol* 2008;54:161–168.