

## CARTAS CIENTÍFICO-CLÍNICAS

### Angioqueratoma de Fordyce unilateral

#### Unilateral Angiokeratoma of Fordyce

Sr. Director:

Presentamos el caso de un varón de 66 años con antecedentes de cardiopatía isquémica, hipertensión arterial y diabetes mellitus tipo 2 que consultó por la aparición de múltiples lesiones en el área testicular izquierda. Desde su aparición, 8 meses antes, habían ido aumentando en número y tamaño.

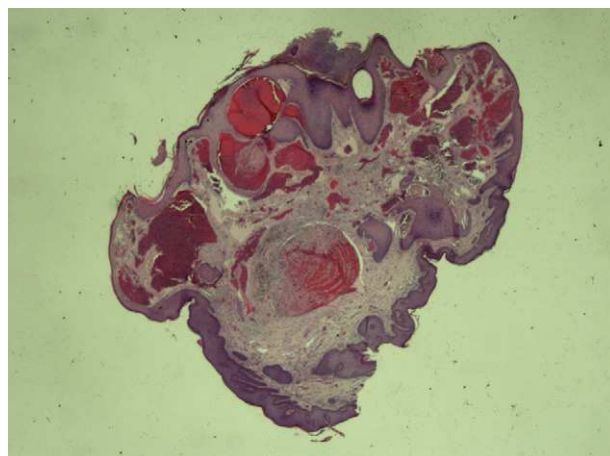
A la exploración presentaba múltiples pápulas sésiles uniloculares, eritematopurpúricas, de aspecto vascular que afectaban única y exclusivamente la mitad izquierda del escroto, sin sobrepasar la línea media. En algunas áreas se agrupaban para formar lesiones arracimadas. Se apreciaban además cordones azulados que reflejaban la dilatación de los vasos sanguíneos superficiales (fig. 1).

Se realizaron varias biopsias de las lesiones. Todas ellas mostraron la presencia de luces vasculares dilatadas en la dermis papilar en íntimo contacto con la epidermis, que asociaban una hiperqueratosis y una hiperplasia epidérmica. Algunos vasos mostraban fenómenos de trombosis y recanalización (fig. 2).

Pudimos obtener una pequeña muestra de sangre de los vasos escrotales dilatados que nos permitió comparar los niveles de cortisol en el escroto con los de la circulación general. Así, la concentración escrotal de cortisol fue de



**Figura 1** Aspecto clínico de las lesiones, donde se observa que afecta únicamente la mitad izquierda del escroto, respetando la mitad derecha.



**Figura 2** Aspecto histopatológico de la lesión donde se aprecia una pápula pediculada con marcada dilatación vascular, en la que se observan fenómenos de trombosis y recanalización. A nivel epidérmico se aprecia acantosis e hiperqueratosis. Algunos vasos parecen incluidos en la epidermis (hematoxilina-eosina  $\times 40$ ).

20,6 mcg/dl, bastante superior a los niveles en la circulación general 15,3 mcg/dl (normal: 6,2-19,4).

El Servicio de Urología confirmó la existencia de un varicocele izquierdo de grado II.

Los angioqueratomas de Fordyce fueron descritos por este autor en 1896 en un varón de 60 años con varicocele bilateral<sup>1</sup>. Es la variante de angioqueratomas más frecuente. Se localizan en el escroto de forma bilateral, aunque se han descrito en otras localizaciones como la vulva<sup>1</sup> y el cuerpo del pene<sup>2</sup>.

La etiopatogenia de los angioqueratomas escrotales no está dilucidada. Se ha postulado que el aumento de presión venosa favorecería la aparición de angioqueratomas, lo que explicaría su asociación con varicoceles<sup>1,3</sup>. Sin embargo, un estudio de Orvieto et al.<sup>4</sup> no encontró asociación entre varicocele y angioqueratomas. Una crítica a este estudio es que la edad máxima de inclusión en el mismo fue de 55 años y que la obtención de datos fue a través de cuestionario. De forma no excluyente se ha sugerido que sería necesaria una alteración de la pared vascular para el desarrollo de los angioqueratomas<sup>1</sup>.

El varicocele afecta principalmente al testículo izquierdo. Esto se atribuye a las diferencias anatómicas

**Tabla 1** Casos de angioqueratomas de Fordyce de distribución unilateral

| Cita          | Edad/Sexo  | Tiempo de evolución | Lateralidad | Varicocele/estudios                      | Tratamiento                          |
|---------------|------------|---------------------|-------------|--|--------------------------------------|
| 9             | 21 a/varón | 6 años              | Izquierdo   | Subclínico/diagnosticado por eco-doppler | Láser CO <sub>2</sub> y láser Nd:YAG |
| 8             | 32 a/varón | 2 años              | Izquierdo   | No/examen físico                         | Cauterización                        |
| Presente caso | 66 a/varón | 8 meses             | Izquierdo   | Varicocele grado 2/ecografía             | Afeitado de las lesiones mayores     |

en cuanto al drenaje venoso de ambos testículos. Así, mientras la vena testicular (vena espermática interna) derecha drena directamente y de forma oblicua en la vena cava, la izquierda desemboca verticalmente en vena renal izquierda<sup>5</sup>, de forma que es de 8 a 10 cm más larga. Todo ello conlleva un drenaje venoso más dificultoso en el lado izquierdo. El varicocele se asocia con disfunción testicular que puede llevar a problemas de esterilidad. Esta alteración se atribuye a la hipertermia testicular que acompaña al varicocele<sup>5</sup>. Otro factor que podría influir sería un reflujo de sangre procedente de la vena renal izquierda<sup>5,6</sup>, aunque los estudios al respecto muestran resultados contradictorios<sup>6,7</sup>.

El caso presentado mostró unos niveles de cortisol superiores en la zona testicular que en la circulación general. Dado que los testículos no producen cortisol, estos valores apoyarían la presencia de un flujo retrógrado en este caso.

Las glándulas suprarrenales secretan distintos tipos de hormonas, entre ellas estrógenos y adrenomulina, un potente vasodilatador<sup>6</sup>. Es posible que debido al flujo retrógrado en casos de varicocele los niveles hormonales en el testículo sean superiores a la circulación general y favorezcan una dilatación vascular, y por ende la aparición de angioqueratomas.

La presencia de angioqueratomas de distribución unilateral es excepcional; solo hemos encontrado 2 referencias al respecto<sup>8,9</sup>. Los datos de los mismos se exponen en la tabla 1. Aunque el paciente descrito por Pande et al.<sup>8</sup> no presentaba un varicocele clínicamente evidente, si tenemos en cuenta que hasta un 60% de los varicoceles pasan desapercibidos al estudio clínico y precisan de estudio ecográfico para su diagnóstico<sup>10</sup>, no podemos descartar que presentara un varicocele subclínico.

La circulación testicular tiene conexiones entre el lado izquierdo y el derecho<sup>5</sup>. En el caso que esta elevación de los niveles hormonales influya en la aparición de angioqueratomas, estas interconexiones entre ambos lados explicarían la aparición de lesiones bilaterales. Una posible explicación para la unilateralidad de estos casos sería una alteración de estas interconexiones entre ambos testículos. Otra posible explicación sería la presencia de un mosaicismo, que en asociación con otros factores, como el aumento de presión y los niveles hormonales altos, provocara la aparición de angioqueratomas solo en la zona genéticamente predispuesta a ello.

En resumen, hemos presentado un caso de angioqueratomas de Fordyce unilaterales en el que hemos demostrado unos niveles de cortisol superiores a los hallados en la

circulación sistémica. Se precisan estudios con un mayor número de pacientes para verificar si un flujo retrógrado con altas concentraciones hormonales procedentes de las suprarrenales desempeña algún papel en la etiopatogenia de los angioqueratomas.

## Bibliografía

- Imperial R, Helwig EB. Angiokeratoma of the vulva. *Obstet Gynecol.* 1967;29:307-12.
- Bechara FG, Huesmann M, Stucker M, Altmeyer P, Cansen T. An exceptional localization of angiokeratoma of Fordyce on glans penis. *Dermatology.* 2002;205:187-8.
- Agger P, Osmundsen E. Angiokeratoma of the scrotum (Fordyce). *Acta Dermatovenereol.* 1970;50:221-4.
- Orvieto R, Alcalay J. Lack of association between varicocele and angiokeratoma of the scrotum (Fordyce). *Military Med.* 1994;159:523-4.
- Fretz PC, Snadow JI. Varicocele: current concepts in pathophysiology, diagnosis and treatment. *Urol Clin N Am.* 2002;29:921-37.
- Ozbek E, Yurekli M, Soylu A, Davarci M, Blabay MD. The role of adrenoledullin in varicocele and impotence. *BJU Int.* 2000;86:694-8.
- Steen O, Koumans J, De Moor P. Adrenal cortical hormones in the spermatic vein of 95 patients with left varicocele. *Andrologia.* 1976;8:101-4.
- Pande SY, Kharkar D, Mahajan S. Unilateral angiokeratoma of Fordyce. *Indian J Dermatol Venereol Leprol.* 2004;70:377-9.
- Bechara FG, Altmeyer P, Jansen T. Unilateral angiokeratoma scroti: a rare manifestation of a vascular tumor. *J Dermatol.* 2004;31:39-41.
- Pierik FH, Dohle GR, van Muiswinkel JM, Vreeburg JT, Weber RF. Is routine ultrasound advantageous in fertile men. *J Urol.* 1999;162:1618-20.

E. Piqué-Duran<sup>a,\*</sup>, J.A. Pérez-Cejudo<sup>b</sup>,  
D. Cameselle-Martínez<sup>b</sup> y O. García-Vázquez<sup>b</sup>

<sup>a</sup> Servicio de Dermatología, Hospital Dr. José Molina Orosa, Lanzarote, España

<sup>b</sup> Servicio de Patología, Hospital Dr. José Molina Orosa, Lanzarote, España

\* Autor para correspondencia.  
Correo electrónico: epiqued@medynet.com  
(E. Piqué-Duran).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.ad.2012.02.013>