

## Tumeur testiculaire bilatérale synchrones à cellules de Leydig : à propos d'un cas

### A case of synchronous bilateral testicular Leydig cell tumour

M.F. Tazi · Y. Ahallal · K. Znati · M.J. El Fassi ·  
M.H. Farih

Reçu le 9 décembre 2009 ; accepté le 12 février 2009  
© Springer-Verlag 2009

**Résumé** Les tumeurs testiculaires à cellules de Leydig sont rares, elles représentent entre 1 et 3 % de l'ensemble des tumeurs testiculaires. L'atteinte bilatérale synchrones est exceptionnelle. Découverte dans 20 % des cas lors de la première décennie, elle peut être retrouvée dans toutes les tranches d'âge, le diagnostic étant effectué après 50 ans dans 25 % des cas. Le diagnostic est classiquement suspecté devant une anomalie sécrétoire intéressant les hormones sexuelles et seule l'histologie confirme le diagnostic. Nous rapportons le cas d'un patient âgé de 25 ans qui présente une tumeur bilatérale synchrones à cellules de Leydig traité par orchidectomie unilatérale et tumorectomie controlatérale.

**Mots clés** Tumeur · Cellules Leydig · Bilatérale · Synchrones

**Abstract** Testicular Leydig cell tumours are rare, representing between 1% and 3% of all testicular tumours. Synchronous bilateral tumours are extremely unusual. Found in 20% of cases in under ten year olds, it appears in all age groups and 25% of cases are diagnosed in the over fifties. It should be suspected in cases of secretory abnormality concerning the sexual hormones and is confirmed by histology. We report the case of a 25-year-old patient who presented a synchronous bilateral Leydig cell tumour treated by unilateral orchidectomy and contralateral tumorectomy.

**Keywords** Tumour · Leydig cells · Bilateral · Synchronous

---

M.F. Tazi (✉) · Y. Ahallal · M.J. El Fassi · M.H. Farih  
Service d'urologie, CHU Hassan-II, 30000 Fès, Maroc  
e-mail : dryouness@gmail.com ; tazifadl@yahoo.fr

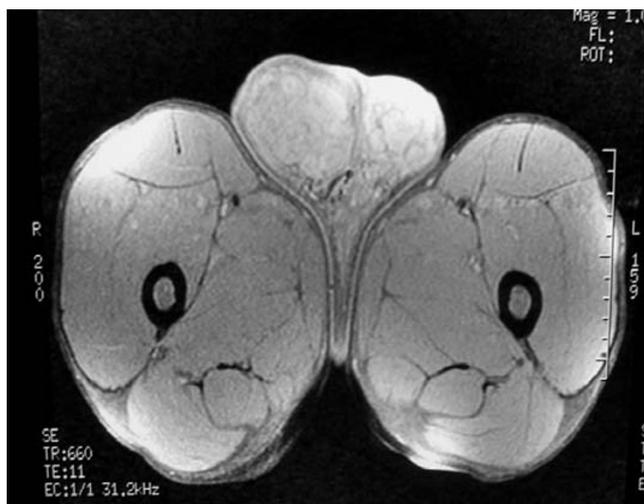
K. Znati  
Service d'anatomopathologie, CHU Hassan-II,  
30000 Fès, Maroc

### Introduction

Les tumeurs à cellules de Leydig représentent moins de 3 % de toutes les tumeurs testiculaires. Elles concernent le tissu interstitiel du testicule et se rencontrent à tout âge. Le diagnostic préopératoire de ce type histologique de tumeurs est très difficile ; cependant, une image hypoéchogène associée à des troubles hormonaux et des marqueurs tumoraux (Alpha foetoprotéine notée AFP, bêta-gonadotrophine gonadique humaine notée  $\beta$ -HCG, lactate déshydrogénase notée LDH) négatifs doivent faire suspecter ce type de tumeurs. Les atteintes bilatérales synchrones sont exceptionnelles et estimées à 0,7 %. Nous rapportons le cas d'une forme bénigne bilatérale synchrones chez un homme de 25 ans qui a bénéficié d'une orchidectomie unilatérale.

### Observation

M. K.R., âgé de 25 ans, sans antécédents pathologiques notables, pubère à l'âge de 13 ans, a accusé depuis huit ans l'apparition et l'augmentation d'une masse testiculaire bilatérale. La symptomatologie a évolué dans un contexte de conservation de l'état général. À l'examen clinique, les deux testicules étaient augmentés de volume, nodulaire, dur et indolore ; la peau scrotale n'était pas infiltrée et aucun signe inflammatoire n'était présent. L'examen général a retrouvé un patient en bon état général, un morphotype masculin et des caractères sexuels primaires et secondaires bien développés. L'échographie scrotale trouvait deux testicules augmentés de taille, avec de nombreux nodules hypoéchogènes bilatéraux de taille variable. Une IRM a montré une importante tuméfaction des deux testicules englobant les épидидymes, en isosignal T1 (Fig. 1) et hypersignal T2, rehaussés de manière hétérogène par le gadolinium. Les deux testicules mesurent 9 cm de grand axe chacun, sans signes d'envahissement des structures de voisinage. Les marqueurs tumoraux (AFP et  $\beta$ -HCG)



**Fig. 1** L'IRM testiculaire réalisée chez ce patient montre une importante tuméfaction des deux testicules avec une tumeur testiculaire bilatérale en isosignal T1

étaient normaux. L'exploration hormonale révélait une hypertestostéronémie à 13,9 ng/mL (avec une limite supérieure de la valeur normale à 8,32 ng/mL), avec des taux bas de folliculostimuline (FSH) à 2,1 mUI/mL et de l'hormone lutéinisante (LH) à 0,7 mUI/mL. Quant au spermogramme, il a retrouvé une azoospermie.

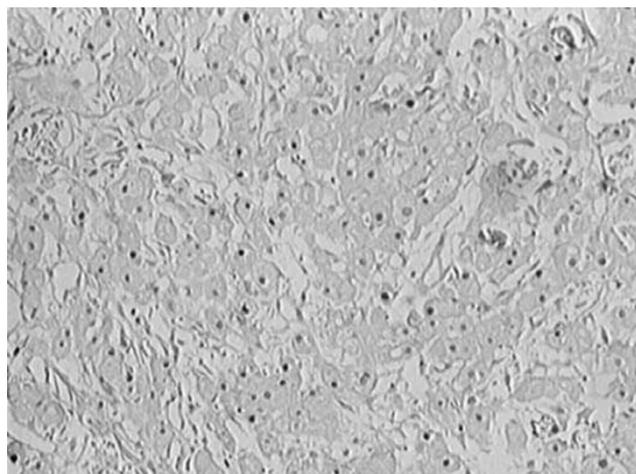
Devant ce faisceau d'arguments cliniques et paracliniques, le diagnostic de tumeur testiculaire sécrétante a été évoqué. Le caractère bénin ou malin ne pouvant être connu, un bilan d'extension comprenant une échographie abdominale et une tomodensitométrie thoracoabdominalopelvienne a été pratiqué, ne révélant ni adénopathies rétropéritonéales ou médiastinales ni métastases hépatiques ou pulmonaires.

Une orchidectomie droite par voie inguinale a été réalisée. Macroscopiquement, la présentation était une tumeur testiculaire de 9 cm de grand axe, de contours bosselés, multinodulaire, englobant l'épididyme et de couleur brune.

Histologiquement, il s'agissait d'une tumeur à cellules de Leydig sans atypies cellulaires. Il n'y avait pas de remaniement nécroticohémorragique (Fig. 2). Un traitement conservateur du testicule gauche a été réalisé, laissant une partie de la pulpe testiculaire. L'examen histologique trouvait le même aspect que celui du testicule droit. Les suites opératoires étaient simples et l'évolution à une année de recul est bonne sans apparition de masse et un taux normal de testostéronémie.

## Discussion

C'est en 1895 que Sacci a décrit les tumeurs de cellules de Leydig [1]. Il s'agit de tumeurs qui se développent à partir du stroma gonadique et constituent le type histologique le



**Fig. 2** L'examen histologique a montré des nappes de cellules éosinophiles régulières à noyaux arrondis sans remaniements nécroticohémorragiques

plus fréquent des tumeurs non germinales [2]. Les tumeurs à cellules de Leydig représentent 1 à 3 % de l'ensemble des tumeurs testiculaires [2,3]. L'atteinte bilatérale, quant à elle, se rencontre dans moins de 10 % des cas [4].

Ces tumeurs peuvent être à l'origine de manifestations endocriniennes à cause de leur caractère hormonosécrétant potentiel [3]. Il s'agit d'une pathologie dont la fréquence se caractérise par deux pics d'âge : le premier entre cinq et dix ans et le second entre 30 et 35 ans [5], cependant, elle peut survenir à n'importe quel âge [6,7]. La majorité de ces tumeurs est histologiquement bénigne, seuls 10 % peuvent contenir un contingent malin [8]. Chez l'enfant, elles provoquent le plus souvent une puberté précoce avec des caractères sexuels primaires et secondaires bien développés [2,3,9,10]. En revanche, chez l'adulte, elles peuvent entraîner une féminisation secondaire avec diminution de la libido, une dysfonction érectile et une gynécomastie [3,9,10]. Sur le plan hormonal, les données sont évocatrices avec souvent une hyperestrogénémie et une hypoandrogénémie chez l'adulte et l'inverse chez l'enfant à cause de l'absence d'aromatase, enzyme qui transforme la testostérone en estradiol [5,9]. Cependant, un bilan hormonal normal n'élimine pas le diagnostic [11].

L'échographie scrotale, premier examen d'imagerie à demander, permet ainsi la découverte de petits nodules hypoéchogènes homogènes classiquement avasculaires et bien limités. Le diagnostic différentiel s'avère néanmoins souvent difficile avec les séminomes aux caractéristiques échographiques proches [11]. L'échographie permet aussi d'explorer le testicule controlatéral et de mettre ainsi en évidence une atteinte bilatérale occulte [5].

L'IRM revêt toute son importance dans les tumeurs bilatérales ; ainsi elle permet de mettre en évidence une

tumeur qui est en isosignal T1 et en hypersignal en T2, rehaussée de manière hétérogène par le produit de contraste. Dans les formes bénignes, il n'y a pas d'invasion des structures de voisinage.

Histologiquement, l'atteinte testiculaire peut être multinodulaire ou uninodulaire, avec une taille variant entre 1 et 10 cm et un aspect lobulé rarement encapsulé [3]. La tumeur est de couleur classiquement jaune-brunâtre [2,3]. Microscopiquement, la tumeur est composée de grosses cellules hexagonales à cytoplasme éosinophile granuleux contenant dans 40 % des cas des cristalloïdes de Reinke [3,10]. Le noyau est petit, rond et nucléolé.

La majorité des tumeurs à cellules de Leydig sont bénignes ; les formes malignes sont décrites avec une fréquence de 10 % et touchent presque exclusivement l'adulte [3,5,12]. Il faut souligner le fait qu'il n'existe pas de limite nette entre tumeur bénigne et maligne, mais il existe des critères présomptifs de malignité qui sont définis par :

- la taille de la tumeur supérieure à 5 cm ;
- une infiltration lymphatique ou vasculaire ;
- une atypie nucléaire importante ;
- un taux de mitose supérieur à trois par dix champs à fort grossissement ;
- la présence de foyers de nécrose ou d'hémorragie, et enfin l'invasion des structures avoisinantes [2,3,10,13].

Le traitement de référence des tumeurs testiculaires à cellules de Leydig est l'orchidectomie inguinale en raison de l'absence de critères histologiques formels de bénignité. L'énucléation ou la tumorectomie est pratiquée par certaines équipes surtout chez les patients présentant une tumeur sur testicule unique ou dans les localisations bilatérales comme chez notre patient, mais au prix d'un suivi extrêmement étroit afin de dépister les récurrences et l'apparition de métastases [9,10,14].

## Conclusion

Les tumeurs à cellules de Leydig font partie des tumeurs testiculaires rares qui peuvent se rencontrer à tout âge. Elles se manifestent fréquemment chez l'enfant par des signes de puberté précoce et chez l'adulte par une féminisation secondaire.

Le diagnostic est histologique et difficile à affirmer. C'est seulement l'absence de métastases à long terme qui confirmera la bénignité ; de ce fait, une surveillance étroite couvrant une longue période est indispensable.

**Déclaration de conflit d'intérêt :** Les auteurs déclarent ne pas avoir de conflit d'intérêt.

## Références

1. Sacci E (1895) Di un caso di gigantismo infantile (pedomacrosomia) con tumore del testicolo. Riv Sper Freniat Med Leg Alien Ment 21:149–161
2. Chevillet JC (1999) Classification and pathology of testicular germ cell and sex cord-stromal tumors. Urol Clin North Am 26: 595–609
3. Mostofi FK, Price EB (1973) Tumors of the male genital system Atlas of tumor of pathology, 2<sup>nd</sup> series, fascicle 8. Washington: DC, Armed Forces Institute of Pathology pp. 86–99
4. Leung AC, Kogan SJ (2000) Focal lobular spermatogenesis and pubertal acceleration associated with ipsilateral Leydig cell hyperplasia. Urology 56:508–509
5. Marsot-Dupuch K, Martin-Lalardrie B, Conte J, et al (1985) Tumeurs à cellules de Leydig de l'adulte : intérêt de l'échotomographie à propos de sept tumeurs. J Radiol 66:91–97
6. Navarro FJ, Cozar JM, Nistal M, et al (1991) Tumor de células de Leydig : presentación de tres nuevos casos de evolución benigna. Arch Esp de Urol 44:145–150
7. Jorion JL, de Cooman SE, Dardenne AN, et al (1986) Leydig cell tumor of the testis. Acta Urol Belg 54:450–458
8. Pereira Arias JG, Ateca Diaz-Obregon R, Ullatte Jaime V, et al (2001) Testicular de células de Leydig controlateral metacronico: tratamiento conservador. Actas Urológicas Españolas 25 (2):133–138
9. Kalfon A, Abram F, Kirsch-Noir F, et al (1999) Les tumeurs à cellules de Leydig : à propos de dix observations. Prog Urol 9: 299–304
10. Rich MA, Keating MA (2000) Leydig cell tumors and tumors associated with adrenal hyperplasia. Urol Clin North Am 27:519–528
11. Houlgatte A, Iborra F (2006) Tumeurs non germinales du testicule. EMC 18-770-A-30
12. Danjou P, Cavrois G, Gilliot P, et al (1993) Tumeurs testiculaires à cellule de Leydig a priori bénignes : énucléation ou orchidectomie radicale ? Prog Urol 3:234–237
13. Schwarzman MI, Russo P, Bosl GJ, Whitmore WF Jr (1989) Hormone secreting metastatic interstitial cell tumor of the testis. J Urol 141:620–622
14. Heidenreich A, Bonfig R, Derschum W, et al (1995) A conservative approach to bilateral testicular germ cell tumors. J Urol 153:10–13