

¹ANA MIȘINA , ²PETROVICI V.

ANGIOLEIOMIOM AL LIGAMENTULUI LARG AL UTERULUI

¹Secția ginecologie chirurgicală,

²Secția morfofpatologie, IMSP Institutul Mamei și Copilului, Chișinău, Republica Moldova

SUMMARY

ANGIOLEIOMYOMA OF THE BROAD UTERINE LIGAMENT

Key words: angioleiomyoma, broad ligament, myomectomy

The authors describe a rare pathology - true angioleiomyoma of the broad ligament of the uterus. A review of the literature on the frequency, classification, characteristics of diagnosis and surgical treatment of broad ligament leiomyomas of the uterus is presented.

РЕЗЮМЕ

АНГИОЛЕЙОМИОМА ШИРОКОЙ СВЯЗКИ МАТКИ

Ключевые слова: ангиолейомиома, широкая связка, миомэктомия

Авторами описана редкая патология – истинная ангиолейомиома широкой связки матки. Представлен обзор литературы по частоте, классификации, особенностям диагностики и хирургического лечения лейомиом широкой связки матки.

Introducere

Miomul (leiomiomul, fibromul) uterin (MU) este cea mai frecventă tumoră benignă de origine mezenchimală și se întâlnește la 70% din femeile de vârstă reproductivă [1, 2]. Leiomiomul ligamentului larg al uterului sau miomul intraligamentar (MI) se referă la o localizare destul de rară și constituie <1% [3, 4].

Angioleiomiomul (angiomiomul, leiomiomul vascular) – este o tumoră benignă rară, care provine din celulele musculare netede ale tunicii medii (*tunica media*) a vaselor de sânge [5]. Angioleiomiomul (ALM) se caracterizează prin prezența vaselor cu pereți groși și, de regulă, este localizat pe pielea extremităților inferioare, iar dimensiunea nu depășește 2 cm [6-8]. ALM sunt destul de rare în cavitatea pelviană, iar în literatura anglo-saxonă sunt descrise doar observații unice ale localizării acestor tumori în uter [7, 9-11] sau în ligamentul larg al uterului [5, 6, 8, 12]. Datorită rarității ALM în ligamentul larg al uterului, vă prezentăm propria noastră observație clinică.

Caz clinic

Pacienta K. M., 31 de ani a fost spitalizată în secția ginecologie chirurgicală al IMSP Institutul Mamei și Copilului pentru tratament chirurgical cu miom uterin depistat timp de un an. Acuză distensie abdominală

asimetrică timp de câteva luni, împreună cu dureri abdominale ușoare. Dereglări dizurice, constipații, anorexie sau pierderea în greutate nu au fost raportate. Din anamneză: menarha 14 ani, câte 3-4 zile, regulate, moderate, ultimul an abundente. Gravidați-1, nașteri-1. La examenul USG: uterul 54x40x37 mm, posterior de uter formațiune hipoecogenă, vascularizată moderat, periferic și intern cu degenerare chistică, cu vascularizare mai pronunțată în segmentul degenerării chistice, de dimensiuni 200x66 mm. Ovarul drept 42x33 cu foliculi până la 13 mm. Ovarul stâng nu se vizualizează. Diagnoza: miom uterin.

La examenul vaginal: organele genitale externe corect formate. Colul uterin curat. Uterul de dimensiuni normale, din stânga se palpează o formațiune tumorală dur-elastică de mobilitate limitată, indoloră 20x15 cm care se palpează mai sus de ombilic. Anexele nu se palpează. Eliminări – seroase. Analiza generală a sângelui : Hb- 153 g/L, Er. – 4.0x10¹²/L, L- 5.0x10⁹/L, Tr.- 289x10⁹/L. Protrombina – 70%, Fibrinogenul – 290 mg/dl.

S-a luat decizia de a efectua miomectomie. Intraoperator s-a depistat: uter de dimensiuni normale, în ligamentul lat stâng se determină un nodul miomatos 20x15 cm (fig.1.). Au fost secționare și deschise foițele ligamentului larg, tumoarea a fost fixată cu pensa de tip Boys-Allis. Tumoarea enucleată cu folosirea tehnicii miomectomiei

intracapsulare (fig.2), legătură cu uterul nu s-a depistat. Hemostaza efectuată cu coagulare monopolară. Volumul hemoragiei intraoperatorii – minimal. S-a drenat loja tumorii. S-a suturat defectul ligamentului larg al uterului. S-a efectuat drenarea cavității abdominale. Suturarea în straturi anatomiche.



Fig.1. Angioleiomiom (ALM) al ligamentului larg al uterului din stânga (U)



Fig.2. Miomectomie din ligamentul larg al uterului

Macropreparatul: tumoarea înlăturată de o formă neregulată, suprafața netedă, se vizualizează vase venoase (fig.3), în secțiune - albicioase cu multe cavități chistice de diferite dimensiuni și pline cu sânge. Rezultatul histologic: angioleiomiom (fig.4).



Fig.3. Macropreparatul înlăturat al angioleiomiomului ligamentului larg al uterului

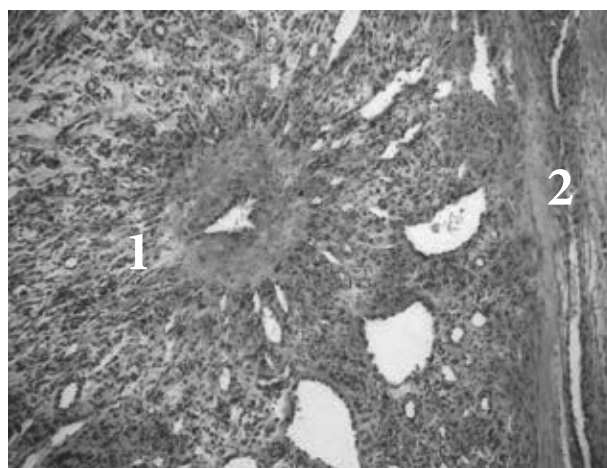


Fig.4 Angioleiomiom: (1) spații sinusoidale-cavernoase vasculare orientative radiar de la vase de calibrul mediu cu proliferări mici endoteliale și redus în miocite, la periferie de capsulă fibro-vasculară densă (2) x 75. Colorația H&E

Perioada postoperatorie a decurs fără particularități, pacienta fiind externată în stare satisfăcătoare la a 6 zi postoperator. Examen repetat peste 14 luni – pacienta este asimptomatică, după datele examenului USG – recidiva tumorii lipsește.

Discuții

Miomul uterin este cea mai frecventă tumoră și se localizează preponderent în corpul uterului. În cazuri rare miomul apare din fibrele musculare netede ale ligamentului larg al uterului, ligamentul rotund al uterului și ligamentul ovarian [4]. MI se împart în (1) veritabile (20%), care provin din fibrele musculare netede a ligamentului larg al uterului și false (80%) – care provin din peretele uterin și cresc lateral în ligamentul larg al uterului [3, 4].

De regulă, MI de dimensiuni mici sunt asimptomatice și dacă ajung la dimensiuni semnificative se manifestă prin mărirea volumului abdomenului, formațiune palpabilă în cavitatea abdominală, dureri cronice pelvine, senzație de greutate în regiunea inferioară a abdomenului, disfuncția vezicii urinare și intestinului în rezultatul compresiei lor [3-6, 8, 12-20]. Într-un singur caz de MI s-a remarcat prezența paresteziilor în zona femurală ipsilaterală, care au dispărut în câteva zile după miomectomie, iar acest lucru s-a datorat prevalenței tumorii în spațiul retroperitoneal și compresiei structurilor neurovasculare [19].

Diagnosticul preoperator corect al MI este o problemă destul de complicată [3-5, 13, 14, 17]. După datele USG organelor pelviene MI se vizualizează ca formațiuni solide, hipocogene cu contur regulat, iar la atingerea dimensiunilor mari se determină structura heterogenă a tumorii [5, 6, 14, 16, 17, 20]. Variabilitatea ecogenității tumorii depinde de gradul de degenerare, fibroză și calcificare [17, 18, 21]. În baza ecografiei Doppler, El-

Agwany AS. (2018), a determinat prezența unui semn al unui „cerc de foc” în jurul MI, care este similar cu caracteristicile Doppler în miomul uterin [14]. Mai mult ca atât, Ambrosio M. și coaut. (2020) în baza studiului ecografic și a caracteristicilor Doppler a 19 cazuri de MI, au constatat că gradul de vascularizare al MI este semnificativ mai mare decât în miomele localizate în corpul uterin [21].

Conform datelor tomografiei computerizate, MI au fost vizualizate ca formațiuni solide, solid-chistice sau formațiuni chistice [3-6, 22]. La imagistica prin rezonanță magnetică, MI au fost definite ca formațiuni solide sau semi-solide cu intensitate scăzută a semnalului la T1W și intensitate mare la T2W [8, 13, 17]. În cazul unui MI mare și gigantic, a fost determinată compresia organelor abdominale și retroperitoneale din jur [4, 13]. Creșterea progresivă a MI cu aport insuficient de sânge a tumorii duce la modificări degenerative până la transformarea chistică [3, 4, 19]. Aceste caracteristici ale MI contribuie la interpretarea preoperatorie în favoarea neoplasmelor maligne ale ovarului și uterului [3, 4, 13, 17].

S-a observat că MI au tendința de a forma tumori de dimensiuni mari și gigantice [3-6, 12-14, 17, 19, 20]. Cea mai mare dimensiune a MI a fost înregistrată de la 12 cm la 48 cm și o greutate maximă de 19 kg [4, 6, 8, 13, 14, 19]. În majoritatea cazurilor, miomele ligamentului larg al uterului sunt reprezentate de o tumoră unilaterală [3, 4, 6, 8, 12-14, 19, 20, 22] și doar o publicație descrie tumori bilaterale [5]. De regulă, MI sunt reprezentate de o singură tumoră [3, 4, 6, 8, 12-14, 19, 20, 22] și în singurul caz a fost descrisă leiomiomatoză în ligamentul larg drept al uterului, numerotând > 400 MI cu o dimensiune de la 1 mm la 1 cm [16].

În mod tradițional, pentru tratamentul chirurgical al MI, s-a folosit abordul laparotomic [3-6, 8, 12-14, 17, 20] și doar într-un caz a fost utilizat abordul transvaginal pentru histerectomie pentru astfel de tumoare (5x4 cm) [18]. Recent, au existat tendințe în tratamentul chirurgical al MI folosind tehnologii laparoscopice și complexul robotic da Vinci [15, 16, 19, 22, 23]. MI gigantic nu este considerat o contraindicație pentru chirurgia laparoscopică și este confirmat de raportul lui Song JY. (2015) privind îndepărtarea cu succes a MI de 36 cm a ligamentului larg drept al uterului [19].

În baza experienței tratamentului laparoscopic a 83 de cazuri de MI, Huang PS. și coaut. (2016) au propus ca miomul intraligamentar să se clasifice în: (1) MI anterior – situat înaintea ligamentului rotund împingând foița anterioară a ligamentului larg al uterului, adânc concresc spațiul paravezical și ajung spațiul vezicocervical (28%); (2) MI posterior – marea majoritate a tumorii este situată posterior de trompele uterine, împingând foița posterioară a ligamentului larg, concresc adânc în spațiul pararectal și ating peretele intestinului rect (32%); și (3) MI lateral – situat dintr-o parte de uter între trompa uterină și ligamentul rotund (40%) [15].

La revizia intraoperatorie se stabilește absența conexiunii

tisulare sau vasculare între MI și uter [4, 6, 13, 20, 22] și doar câteva articole indică prezența acestei conexiuni [5]. De Brakeleer E. și coaut. (2021) pentru MI care nu este legat cu uterul și cu un flux sanguin alternativ au permis ca această opțiune să fie considerată ca leiomiom parazitar [13]. Într-un șir de rapoarte s-a stabilit combinația de MI cu miom uterin unic sau multiplu [3, 5, 13].

Volumul intervenției chirurgicale în cazul MI a variat de la miomectomie (ME) [6, 15, 16, 23, 19, 22] până la histerectomie cu anexectomie bilaterală și extirparea MI [3, 4, 5, 8, 12, 13, 14, 17, 20]. După părerea experților în cazul înlăturării MI disecția trebuie efectuată foarte minuțios din cauza situării adiacente a structurilor anatomice foarte importante, inclusiv ureterul, vasele iliace interne și structurile neurovasculare [3, 13, 14, 17, 19, 20]. Pentru determinarea planului de disecție în MI se recomandă de aplicat tehnica ME intracapsulare [14]. Atunci când se decide să se efectueze o histerectomie cu anexectomie bilaterală, se consideră oportună efectuarea unei extirpări a MI în prima etapă pentru a facilita implementarea celei de-a doua etape [3, 5, 14, 17]. În cazurile dificile în efectuarea hemostazei în loja nodulului intraligamentar, se recomandă efectuarea ligaturării vaselor iliace interne [14].

Examenul morfologic al MI a stabilit următoarele variante histopatologice: leiomiom [13-18, 22], leiomiom celular [4, 20] și angioliomiom [5, 6, 8, 12]. ALM sunt clasificate în mai multe tipuri histologice: (1) solide, (2) venoase și (3) cavernoase [4, 6, 9]. ALM sunt reprezentate de tumori bine încapsulate, formate din celule fusiforme sau epitelioid și prezența vaselor dilatate și cu pereți groși cu simptome de congestie [5, 6, 12]. La evaluarea activității mitotice a MI, s-a precizat absența mitozelor sau cantitatea nesemnificativă a acestora (2-3 / 10 HPF) [4-6]. În unele cazuri, a fost determinată degenerarea hialină și mixoidă [3, 5, 6, 13] și calcificarea severă [18].

La examenul imunohistochimic în ALM s-a determinat expresia actinei musculare netede (SMA) [4-6, 8], desmina [5], receptorilor de progesteron [5], receptorilor de estrogen [5], CD31 [5, 6] și CD34 [6].

Supravegherea acestor paciente la distanță după tratamentul chirurgical nu relevă recurența miomului intraligamentar [5, 6, 23], iar într-un caz s-a constatat sarcină după 6 luni de la înlăturarea laparoscopică a miomului intraligamentar [19].

Așa dar, miomele situate în ligamentul larg al uterului sunt de o frecvență foarte rară și trebuie incluse în diagnosticul diferențiat în cazul prezenței formațiunilor solide și solid-chistice ale anexelor uterine. Tehnica miomectomiei intracapsulare este cea mai optimală pentru micșorarea hemoragiei intraoperatorii și prevenirea lizării ureterelor, vezicii urinare și a structurilor neurovasculare.

BIBLIOGRAFIE

1. Stewart EA, Cookson CL, Gandolfo RA, Schulze-Rath R. Epidemiology of uterine fibroids: a systematic review. *BJOG*. 2017;124(10):1501-1512.
2. Giuliani E, As-Sanie S, Marsh EE. Epidemiology and management of uterine fibroids. *Int J Gynaecol Obstet*. 2020;149(1):3-9.
3. Jha S, Singh A, Singh S, Murmu S. Huge broad ligament leiomyoma with cystic degeneration: A diagnostic and surgical challenge. *J Obstet Gynaecol Res*. 2020;46(5):791-794.
4. Sharma P, Zaheer S, Yadav AK, Mandal AK. Massive broad ligament cellular leiomyoma with cystic change: A diagnostic dilemma. *J Clin Diagn Res*. 2016;10(4):ED01-2.
5. Chen X, Zhang X, Zhang S, Lü B. Angioleiomyomas in the bilateral broad ligaments. *Int J Gynecol Pathol*. 2010;29(1):39-43.
6. Agarwal S, Gupta SK, Tejwani N. Angioleiomyoma of broad ligament. *J Gynecol Endosc Surg*. 2009;1(2):116-117.
7. Gorginzadeh M, Tahermanesh K, Hanjani S, Khorshidzadeh A, Allahqoli L, Sadeghipour A, Anvari-Yazdi AF. Uterine intracavitary angioleiomyoma. *J Obstet Gynaecol*. 2020;40(8):1186-1188.
8. Güven D, Erdogan O, Koçak I, Ustün C. Giant angioleiomyoma of the broad ligament. *J Obstet Gynaecol*. 2009;29(3):261-3.
9. Gupta M, Suryawanshi M, Kumar R, Peedicayil A. Angioleiomyoma of uterus: A clinicopathologic study of 6 cases. *Int J Surg Pathol*. 2018;26(1):18-23.
10. Hong JA, Heo GE, Kwak JJ, Chung SH. A case report of angioleiomyoma of uterus. *Obstet Gynecol Sci*. 2017;60(5):494-497.
11. Kim H, Lee JJ, Choi Y, Lee M, Hwang HJ, Chung YJ, Cho HH, Kim MR. Successfully removed uterine angioleiomyoma by robot-assisted laparoscopic myomectomy. *Obstet Gynecol Sci*. 2018;61(3):425-429.
12. Cobellis L, Pecori E, Rigatti F, Scaffa C, Rotondi M, Messalli EM. A rare case of female pelvic mass: angioleiomyoma of the broad ligament. *Eur J Gynaecol Oncol*. 2007;28(5):418-20.
13. De Brakeleer E, Van Eeckhout E, Sahebali S, Cosyns S. Gigantic parasitic leiomyoma of 19kg in a postmenopausal woman: A case report and review of the literature. *J Obstet Gynaecol Res*. 2021;47(8):2777-2781.
14. El-Agwany AS. Huge broad ligament fibroid with paracervical extension: A safe approach by same setting myomectomy before hysterectomy. *J Med Ultrasound*. 2018;26(1):45-47.
15. Huang PS, Sheu BC, Huang SC, Chang WC. Intraligamentary myomectomy strategy using laparoscopy. *J Minim Invasive Gynecol*. 2016;23(6):954-61.
16. Huang KG, Adlan AS, Lee CL, Lertvikool S. Isolated broad ligament leiomyomatosis. *J Obstet Gynaecol Res*. 2011;37(10):1510-4.
17. Katke RD. Huge (9 Kg) Broad ligament fibroid mimicking sarcoma of uterus: A case report and review of literature. *J Midlife Health*. 2017;8(4):191-193.
18. Pal S, Mondal S, Mondal PK, Raychaudhuri G, Pradhan R, Banerjee S. Severely calcified leiomyoma of broad ligament in a postmenopausal woman: Report of a rare case. *J Midlife Health*. 2016;7(3):147-149.
19. Song JY. Laparoscopic resection of a rare, large broad ligament myoma. *J Minim Invasive Gynecol*. 2015;22(4):530-1.
20. Sikora-Szczeńniak DL. Leiomyoma cellulare in the broad ligament of the uterus. *Prz Menopauzalny*. 2018;17(1):49-52.
21. Ambrosio M, Raimondo D, Savelli L, Salucci P, Arena A, Borghese G, Mattioli G, Giaquinto I, Scifo MC, Meriggiola MC, Casadio P, Seracchioli R. Transvaginal ultrasound and Doppler features of intraligamentary myomas. *J Ultrasound Med*. 2020;39(7):1253-1259.
22. Tsai YM. A postmenopausal woman with sciatica from broad ligament leiomyoma: a case report. *J Med Case Rep*. 2016;10(1):304.
23. Choi EJ, Rho AM, Lee SR, Jeong K, Moon HS. Robotic single-site myomectomy: Clinical analysis of 61 consecutive cases. *J Minim Invasive Gynecol*. 2017;24(4):632-639.