



PREZENTARE DE CAZ

Chistadenom seros paraovarian borderline la adolescentă: prezentare de caz

Ana Mișina¹, Patricia Harea¹, Diana Madan¹,
Liliana Fuior-Bulhac², Virgil Petrovici³

¹Secția de ginecologie chirurgicală, Institutul Mamei și Copilului, Chișinău, Republica Moldova;

²Secția de imagistică, Institutul Mamei și Copilului, Chișinău, Republica Moldova;

³Secția de morfologie, Institutul Mamei și Copilului, Chișinău, Republica Moldova.

Data primirii manuscrisului: 10.09.2018

Data acceptării spre publicare: 19.11.2018

Autor corespondent:

Patricia Harea, doctorand

Secția de ginecologie chirurgicală

Institutul Mamei și Copilului

str. Burebista, 93, Chișinău, Republica Moldova, MD-2028

e-mail: quadricia@gmail.com

CASE REPORT

Borderline paraovarian serous cystadenoma at a teenager: case presentation

Ana Mishina¹, Patricia Harea¹, Diana Madan¹,
Liliana Fuior-Bulhac², Virgil Petrovici³

¹Surgical gynecology department, Mother and Child Institute, Chisinau, Republic of Moldova;

²Imaging department, Mother and Child Institute, Chisinau, Republic of Moldova;

³Morphology department, Mother and Child Institute, Chisinau, Republic of Moldova.

Manuscript received on: 10.09.2018

Accepted for publication on: 19.11.2018

Corresponding author:

Patricia Harea, PhD fellow

Department of surgical gynecology

Mother and Child Institute

Burebista str., 93, Chisinau, Republic of Moldova, MD-2028

e-mail: quadricia@gmail.com

Ce nu este cunoscut, deocamdată, la subiectul abordat

Tumorile paraovariene sau paratubare borderline se întâlnesc extrem de rar. În literatura din străinătate sunt publicate un număr limitat de cazuri izolate sau cu serii mici de paciente.

Ipoteza de cercetare

Ținând cont de raritatea extremă a tumorilor borderline paraovariene, prezentăm cazul clinic propriu.

Noutatea adusă literaturii științifice din domeniu

Cazul clinic prezentat este cel de-al patrulea caz de tumoare borderline paraovariană/paratubară la pacientele pediatricice, documentat în literatura de specialitate. Intervențiile organ menajante, cu păstrarea maximală a funcției fertile, actualmente, reprezintă tactica unanim acceptată.

Rezumat

Introducere. Tumorile paraovariene sau cele paratubare borderline se întâlnesc extrem de rar. În literatura din străinătate sunt publicate un număr limitat de cazuri izolate sau cu serii mici de paciente.

Material și metode. Autorii prezintă o observație clinică proprie a unei tumoră rare – chistadenom paraovarian borderline la o adolescentă.

Rezultate. Este prezentat cazul unei paciente cu vîrstă de 15 ani, cu tumoare paraovariană borderline și revista literatu-

What is not known yet, about the topic

Paraovarian or paratubal borderline tumors are rarely encountered. In foreign literature a limited number of isolated cases or small series of patients are published.

Research hypothesis

Taking into account the extreme rarity of paraovarian borderline tumors, we present our own clinical case.

Article's added novelty on this scientific topic

The presented clinical case is the fourth case of paraovarian/paratubar borderline tumor in pediatric patients, documented in the literature. Organ-preserving interventions, with maximum preservation of fertile function, are currently the unanimously accepted tactics.

Abstract

Introduction. Paraovarian or paratubal borderline tumors are rarely encountered. In foreign literature a limited number of isolated cases or small series of patients are published.

Material and methods. The authors presents a clinical observation of a rare tumor – borderline paraovarian cystadenoma at a teenager.

Results. The case of a 15-year-old patient with a borderline paraovarian tumor and the literature review on the diag-

rii referitoare la diagnosticul, tratamentul chirurgical, caracteristicile morfologice și prognosticul acestor formațiuni chistice.

Concluzii. Cazul clinic prezentat este cel de-al patrulea caz de tumoare borderline paraovariană/paratubără la pacientele pediatrice, documentat în literatura de specialitate. Intervenții organ menajante, cu păstrarea maximală a funcției fertile, actualmente, reprezintă tactica unanim acceptată.

Cuvinte cheie: tumoare paraovariană, borderline, malignitate, adolescentă.

Introducere

Chisturile paraovariene sau paratubare (PO/PT) constituie circa 5-20% din structura formațiunilor chistice ale anexelor uterine [1, 2]. Chisturile PO/CPT provin din: (1) mezoteliu sau sunt reziduuri; (2) ductul paramezonefric (Müllerian); (3) ductul mezonefric (Wolffian). De regulă, aceste chisturi au origine benignă, sunt asimptomatice și se depistează incidental [1-3]. Mai frecvent, aceste formațiuni se întâlnesc în decada a treia și a patra a vieții [2, 3]. În unele cazuri, conform datelor metodelor radiologice, în chisturile PO/PT se observă结构uri papilare, care proeminentă din peretele chistului în lumen [3]. Este unanim acceptat faptul că prezența acestui semn și a componentului solid, în cazul tumorilor ovariene, indică la potențialul lor malign [4]. Apariția structurilor papilare se întâlnește și în cazul tumorilor benigne și borderline paraovariene sau paratubare [3].

Tumorile paraovariene sau paratubare borderline se întâlnesc extrem de rar. În literatura din străinătate sunt publicate un număr limitat de comunicări referitoare la cazurile respective, fie sub formă de prezenteri unice [1, 5-15], fie pe serii mici de paciente [16, 17]. Deoarece aceste formațiuni tumorale sunt foarte rare, diagnosticul lor preoperator este destul de dificil [1, 14]. Mai mult decât atât, volumul optimal al intervenției chirurgicale în cazul chisturilor paraovariene, până în prezent, nu este standardizat [7, 8, 14-16]. Având în vedere raritatea extremă a tumorilor borderline paraovariene, prezentăm cazul clinic propriu.

Prezentare de caz

Pacienta M. C., de 15 ani, a fost internată în mod programat în secția de ginecologie chirurgicală a Institutului Mamei și Copilului în legătură cu depistarea unui chist ovarian pe dreapta. La internare, acuză dureri moderate în regiunea inferioară a abdomenului. La palpare abdomenul moale, participă la respirație, sensibil în regiunea inferioară. Semne de excitare a peritoneului lipsesc. Supravezical, se palpează o formătire de volum de cca 10 cm. Pacienta dezvoltată normal, conform vârstei, indexul de dezvoltare după Tunner – stadiul IV, indexul masei corporale – 20 kg/m². Pentru precizarea diagnosticului, s-a efectuat examen USG transabdominal: uterus – ax longitudinal 39 mm, transversal 39 mm, antero-posterior 30 mm. Endometru – 7,4 mm, omogen. Spațiul Douglas – lichid liber, în cantitate moderată. Pe dreapta, în proiecția ovarului drept – o formătire chistică de 103×94×87 mm (volumul – 440,5 cm³), cu conținut neomogen, cu vegetații parietale pe bază lată de

nosis, surgical treatment, morphological characteristics and prognosis of these cystic formations is presented.

Conclusions. The clinical case presented is the fourth case of paraovarian/paratubular borderline tumor in pediatric patients, documented in the literature. Organ-preserving interventions, with maximum preservation of fertile function, are currently the unanimously accepted tactics.

Key words: paraovarian tumor, borderline, malignancy, adolescent.

Introduction

Paraovarian/paratubular cysts (PO/PT) is about 5-20% of the cystic formations of uterine annexes [1, 2]. PO/PT cysts are derived from: (1) mesothelioma or are residues; (2) the paramesonephric duct (Müllerian); (3) mesonephric duct (Wolffian). As a rule, these cysts have benign origin, are asymptomatic and incidentally detected [1-3]. More often, these formations meet in the third and fourth decades of life [2, 3]. In some cases, according to the radiological methods, in PO/PT cysts, there are observed papillary structures, which pass through the cyst wall in the lumen [3]. It is widely accepted, that the presence of this sign and of the solid component, in the case of ovarian tumors, indicates their malignant potential [4]. The appearance of papillary structures also occurs in benign and paraovarian border or paratubular tumors [3].

Paraovarian or paratubular borderline tumors are rarely encountered. A limited number of communications on these cases are published in foreign literature, either in the form of single presentations [1, 5-15], or in small series of patients [16, 17]. Because these tumor formations are very rare, their preoperative diagnosis is quite difficult [1, 14]. Moreover, the optimal volume of surgery for paraovarian cysts has so far not been standardized [7, 8, 14-16]. Considering the extreme rarity of paraovarian borderline tumors, we present our own clinical case.

Case presentation

The 15-year-old patient M.C., was hospitalized in the surgical gynecology department of the Mother and Child Institute, in connection with the detection an ovarian cyst on the right side. Upon admission, she accuses moderate pain in the lower abdomen. Soft abdomen on palpation, participates in breathing, sensitive in the lower region. Peritoneal excitation signs are missing. Above bladder, at palpation there are a volume formation of about 10 cm. The patient developed normally according to age, development index by Tunner – stage IV, body mass index – 20 kg/m².

To establish the diagnosis, was performed transabdominal USG examination: uterus – longitudinal axis 39 mm, transverse 39 mm, antero-posterior 30 mm. Endometrium – 7.4 mm, homogeneous. Douglas space – free liquid in moderate amount. On the right, in the right ovary projection – a cystic formation of 103×94×87 mm (volume – 440.5 cm³), with non-homogeneous content, with parietal vegetation on insertion wide basis, up to 38 mm, non-vascularized. The ovary shifted

inserție, până la 38 mm, nevascularizate. Ovarul deplasat spre stânga. Indexul morfologic ultrasonografic (după Jeoung H. Y. et al., 2008) – 7 puncte (Figura 1a, 1b). Ovarul stâng: ax longitudinal 34 mm, antero-posterior 20 mm, cu foliculi mici.

Valorile markerilor oncologici: CA-125 – 34,5 U/ml (referința: 0-35 U/ml); CA-19,9 – 35,9 U/ml (referința: 0-33 U/ml); CEA – 1,3 ng/mL (referința: 0-6 ng/mL); α -fetoproteina – 0,7 IU/mL (referința 0-7 IU/mL); hormonul anti-Mullerian (AMH) – 1,8 ng/mL.

Sub anestezie generală, s-a efectuat intervenție chirurgicală cu incizie transversală după Phannenstiel. Examinarea organelor pelvine a constatat un uter de dimensiuni normale, anexele stângi cu aspect normal, ovarul drept de dimensiuni normale. În regiunea paraovariană, pe dreapta, s-a determinat o formațiune chistică, dur-elastică, cu diametrul de cca 10 cm, care nu afecta ovarul ipsilateral, însă implica trompa uterină. S-a luxat preparatul în plagă și s-a extirpat tumora, cu păstrarea ovarului (Figura 2).

La încercarea de a păstra trompa uterină, s-a efectuat incizia foitei posterioare a ligamentului lat în zona minim vasculară, paralel trompei. Însă, din cauza concreșterii capsulei cu foitele ligamentului lat, tentativa a eşuat și s-a luat decizia de a efectua tubectomy. Prin aplicarea penselor pe partea uterină a trompei și mesosalpinx, aceasta s-a înălăturat. Cavitatea abdominală restabilită pe straturi. Pe piele a fost aplicat pansament aseptic. Perioada postoperatorie a decurs fără particularități, pacienta a fost externată la a 5-ea zi postoperator.

Macroscopic: piesa anatomo-chirurgicală a reprezentat un conglomerat, constituit din trompa uterină și o formațiune chistică cu suprafață neregulată, elastică, cu dimensiunile de $9,0 \times 8,0 \times 4,5$ cm (Figura 3). În secțiune, suprafața internă avea structuri papiliforme, proeminente în lumen, cu aspect de platouri cu suprafete de „conopidă” și/sau în „struguri”. Consistență – variabilă, elastică, unele fiind mai fragile, și culoare pal-gălbui. Pe unele arii, structurile papiliforme obliterăză complet cavitatea chistică.

La examinarea histologică au fost constatate particularitățile morfologice ale unui chist de tip chistadenom papilar, caracterizat prin structuri papilifere, cu aspect arborizat, pornit de la limita seroasei, acestea fiind de diverse dimensiuni, cu stroma fină din țesut conjunctiv. Unele structuri prezintă o pseudomixomatoză din contul edemului. În majoritatea probelor prelevate din diverse zone, nu s-au constatat aspecte de invazie în capsulă (Figurile 4 și 5). Majoritatea structurilor au prezentat suprafete proliferative epiteliale celulare și prezență infiltrației discrete limfocitare; unele papile manifestau o stromă mai mult sau mai puțin sclerogenă. Epitelul cu aspecte celulare proliferative, pe alocuri fiind observate mitoze unice.

Componenta celulară epitelială fiind cuboidală sau în coloane, cu nuclei rotunde sau ovale, situate bazal, pe unele arii fiind prezente structuri micropapilare celulare. Pe unele arii adiacente, erau structuri din pseudoclaster celulare, fără atipie. În aria capsulei, spre marginea internă, s-au atestat mici insulițe de stromă ovariană incert diferențiată. Procesele descrise sunt caracteristice pentru un cistadenom papilar proliferativ, la limita malignității sau, mai bine zis, de tip borderline, seros.

to the left. Ultrasound morphological index (after Jeoung H. Y. et al., 2008) – 7 points (Figure 1a, 1b). Left ovary: longitudinal axis 34 mm, antero-posterior 20 mm, with small follicles.

Values of oncological markers: CA-125 – 34.5 U/ml (reference: 0-35 U/ml); CA-19.9 – 35.9 U/ml (reference: 0-33 U/ml); CEA – 1.3 ng/mL (reference: 0-6 ng/mL); α -fetoprotein – 0.7 IU/mL (reference 0-7 IU/mL); anti-Mullerian hormone (AMH) – 1.8 ng/mL.

Under general anesthesia, Phannenstiel transverse incision surgery was performed. The examination of the pelvic organs revealed a normal uterus, the left-annexes with normal appearance, and the right ovary of normal size. In the paraovarian region, on the right, was determined a cystic formation, hard-elastic, diameter of about 10 cm, that did not affect the ipsilateral ovary, but involved the uterine tube. The preparation was exuded in the plaque and the tumor was extirpated, with the ovary being kept (Figure 2).

In the attempt to keep the uterine tube, was performed the incision of the posterior part of the ligamentum in the minimal vascular region, parallel to the tube. However, because of the concretion of the capsule with the posterior side of the ligamentum, the attempt failed and the decision was made to perform tubectomy. By applying the forceps on the uterine side of the tube and mesosalpinx, it was removed. Abdominal cavity restored on layers. An aseptic dressing was applied to the skin. The postoperative period was without any particularities, the patient was discharged on the 5th postoperative day.

Macroscopic: the anatomical-surgical part represents a conglomerate consisting of a uterine tube and a cystic formation with an irregular, elastic surface with dimensions $9.0 \times 8.0 \times 4.5$ cm (Figure 3). In the section, the internal surface had papilliform structures, protruding in the lumen, looking like plates of “cauliflower” and/or “grapes”. Consistency – variable, elastic, some fragile, pale-yellow color. In some areas, the papilloma structures completely obliterate the cystic cavity.

The histological examination revealed the morphological peculiarities of a papillary cystadenoma, characterized by papillary structures, tree shaped, starting from the serous limit, these being of various dimensions, with fine stroma of connective tissue. Some structures had a pseudomixomatosis due to edema. In most of the samples, taken from different areas, no invasion aspects were found in the capsule (Figures 4 and 5). Most of the structures exhibited cell epithelial proliferative surfaces and the presence of discrete lymphocytic infiltration; some papules showed a more or less sclerogenic stroma. The epithelium with proliferative cellular aspects, with some mitoses observed.

The epithelial cellular component is cuboidal or in columns, with round or oval nuclei, located basal, in some areas are present cellular micro papillary structures. In some adjacent areas, there were pseudo-cellular structures, without any atypia. In the area of the capsule, to the inner edge, were viewed small island clusters of uncertain ovarian stroma. The described processes are characteristic of a proliferative papillary cystadenoma at the limit of malignancy or, more preferably, of the borderline type, serous.

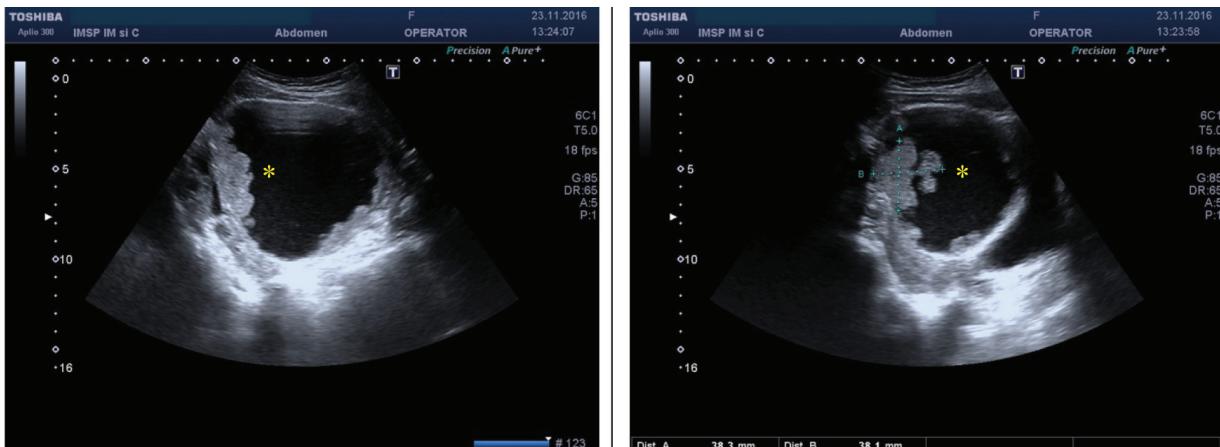


Fig. 1 (a, b) Ultrasonografie transabdominală: chistadenom papilar paraovarian pe dreapta (*).
Fig. 1 (a, b) Transabdominal echography: paraovarian papillary ovarian cystadenoma on the right (*).

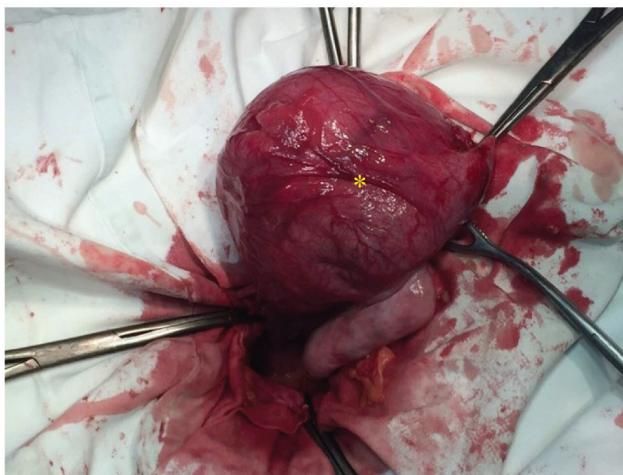


Fig. 2 Chistadenom paraovarian (*): aspect intraoperator.
Fig. 2 Paraovarian cystadenoma (*): intraoperative view.

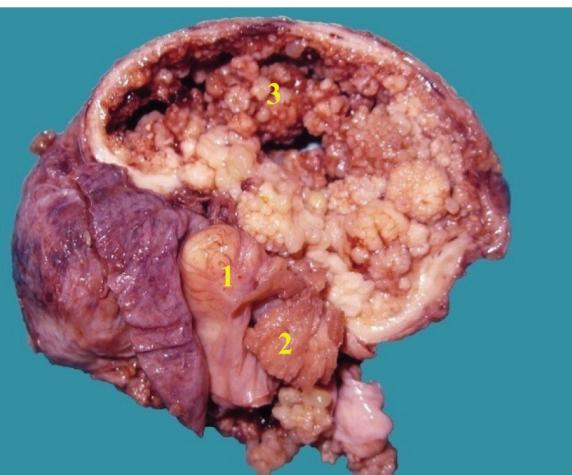


Fig. 3 Chistadenom papilar. Macropreparat: (1) trompa; (2) parteampulară a trompei; (3) structuri papiliforme cu obliterarea cavitatei chistului.
Fig. 3 Papillary cystadenoma. Macropreparat: (1) tube; (2) tubar ampullar part; (3) papilliform structures obliterating cyst cavity.

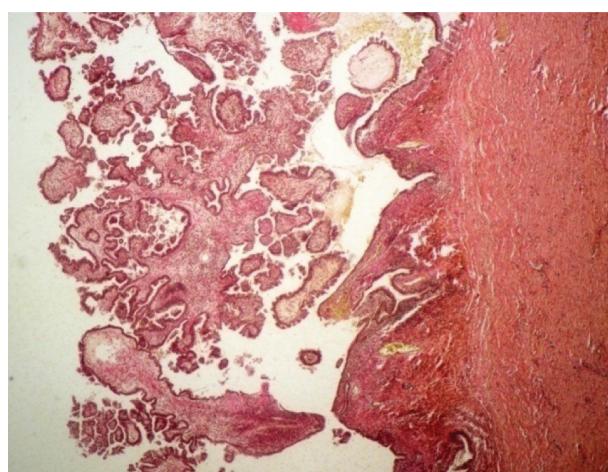


Fig. 4 Multiple structuri papilifere cu baza conjunctivă densă hiper celularizată, stroma conjunctivă fină cu fibre colagene nesemnificative, aspecte proliferative (colorație VG x25).
Fig. 4 Multiple papillary structures with hypercellular dense connective tissue, fine connective stroma with insignificant collagen fibers, proliferative aspects (VG x 25 staining).

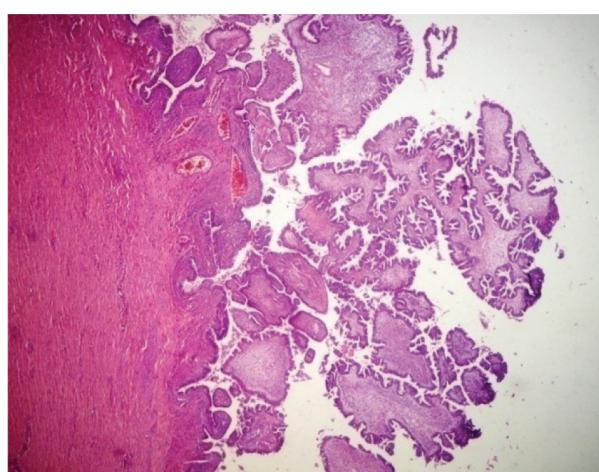


Fig. 5 Structuri papiliforme cu aspecte de simplas, pseudomixomatoză a stromei, unele cu proliferări active (colorație H&E x25).
Fig. 5 Papilliform structures with simples, pseudo-mixomatosis aspect of the stroma, some with active proliferation (H&E x 25 staining).

Pacienta a fost redirecționată la Institutul Oncologic pentru consultație și tratament. Peste 21 de luni după intervenție, pacienta a rămas asimptomatică.

Discuții

În literatura de specialitate se întâlnesc contradicții referitor la numărul publicațiilor la subiectul tumorilor paraovariene borderline. Astfel, în articolul lui Lee S. et al. (2016), se furnizează date referitor la doar 8 cazuri de tumori PO/PT borderline, descrise în literatură [14]. În același timp, într-un articol publicat mai recent de Suzuki S. et al. (2013), sunt prezentate date despre 13 cazuri de tumori borderline PO/PT, publicate în revistele de specialitate japoneze și aproape 40 de cazuri din literatura mondială [13]. Date analogice, referitoare la numărul total de cazuri publicate, sunt raportate și într-un articol publicat mai târziu [15]. Pentru precizarea numărului de cazuri de tumori PO/PT care au fost publicate în literatura anglo-saxonă (2004-2018), a fost efectuată căutarea în baza de date PubMed, utilizând cuvintele cheie (*MeSH Terms*): "paraovarian", "paratubal", "borderline", "cyst" și "tumor". În consecință, s-au identificat 19 cazuri de tumori borderline PO/PT, raportate în literatura anglo-saxonă în perioada de referință [1, 5-17].

Vârsta pacientelor a variat de la 17 [1, 14] până la 75 de ani [17]. Trebuie de menționat că, în majoritatea cazurilor, tumorile PO/PT borderline s-au întâlnit la pacientele de vîrstă fertilă [5-10, 12, 13, 15, 17] și numai în trei cazuri – la adolescente [1, 11, 14]. Caracteristica generală a pacientelor adolescente cu tumori PO/PT borderline este prezentată în Tabelul 1. Cazul clinic prezentat de tumoare PO/PT borderline, de menționat, descrie cea mai Tânără pacientă din toate publicațiile anterioare.

În majoritatea cazurilor, aceste tumori sunt asimptomatice și se depistează incidental, în cadrul examenului ultrasonografic de rutină și în timpul intervențiilor chirurgicale (operația cezariană) [1, 2, 8, 13]. Aceste tumori devin simptomatice în cazul creșterii lor exagerate și apariției complicațiilor (torsiune) [7, 11], sau după ruptura spontană a formațiunii [15]. Simptomele tumorilor PO/PT sunt nespecifice și au inclus: dureri abdominale [5, 7, 10, 11, 15], mărirea volumului abdominalului [5], prezența formațiunii tumorale în pelvis [7, 10, 14, 17], menoragii [17], dereglaři ale ciclului menstrual [1, 14].

Diagnosticul corect al tumorilor PO/PT borderline este destul de dificil din cauza rarității acestei patologii și, adeseori, este diagnosticat drept tumoare ovariană [1, 14]. În cazurile clinice publicate anterior ale chisturilor PO/PT, erau testați un spectru larg de markeri oncologici (CA-125, AFP, CEA, și CA-19.9), dar concentrația lor s-a dovedit a fi în limite normale [1, 5, 10, 13, 14]. Si numai în câteva studii au fost menționate nivele ridicate de CA-125 [15, 17]. Astfel, Zhao F. et al. [17] au constatat mărirea CA-125 (324,1 U/mL) în cazul endometriozei concomitente, iar Kajiyama A. et al. (2017), au descris mărirea nivelului de CA-125 (28,831 U/mL) în cazul rupturii spontane a tumorii PO/PT borderline [15].

Pentru diagnosticul tumorilor PO/PT, în studiile publicate au fost utilizate ultrasonografia (USG), tomografia computa-

The patient was referred to the Oncological Institute for consultation and treatment. Twenty-one months after surgery, the patient remained asymptomatic.

Discussion

There are contradictions in the literature concerning the number of publications on the subject of paraovarian borderline tumors. Thus, in Lee S. et al. (2016), are provided data on only 8 cases of PO/PT borderline tumors, described in the literature [14]. At the same time, in an article published more recently by Suzuki S. et al. (2013), are presented data on 13 cases of borderline PO/PT tumors, published in Japanese journals and nearly 40 cases from world literature [13]. Similar data on the total number of published cases is also reported in an article published later [15]. To determine the number of cases of PO/PT tumors has been published in the Anglo-Saxon literature (2004-2018), were made searches in the PubMed database, using *MeSH Terms*: "paraovarian", "paratubal", "borderline", "cyst", and "tumor". Consequently, were identified 19 cases of borderline PO/PT tumors, reported in the Anglo-Saxon literature during the reference period [1, 5-17].

The age of the patients ranged from 17 [1, 14] to 75 years [17]. It should be noted that in most cases, PO/PT borderline tumors occurred in fertile age [5-10, 12, 13, 15, 17] and only in three cases in adolescents [1, 11, 14]. The general characteristic of adolescent patients with PO/PT borderline tumors is presented in Table 1. The clinical case presented by the PO/PT borderline tumor, to be mentioned, describes the youngest patient in all previous publications.

In most cases, these tumors are asymptomatic and are incidentally detected in routine ultrasound and surgical (caesarean) surgery [1, 2, 8, 13]. These tumors become symptomatic in case of exaggerated growth and complications (torsion) [7, 11], or after the spontaneous rupture of the formation [15]. Symptoms of PO/PT tumors are nonspecific and included: abdominal pain [5, 7, 10, 11, 15], abdominal enlargement [5], pelvic tumor [7, 10, 14, 17], menorrhagia [17], menstrual cycle disorders [1, 14].

The correct diagnosis of PO/PT borderline tumors is quite difficult due to the rarity of this pathology and is often diagnosed as ovarian tumor [1, 14]. In the previously published clinical cases of PO/PT cysts, a wide range of oncological markers (CA-125, AFP, CEA, and CA-19.9) were tested, but their concentration was found to be within normal range [1, 5, 10, 13, 14]. And only in a few studies were high levels of CA-125 [15, 17]. Thus, Zhao F. et al. [17] found CA-125 increased (324,1 U/mL) in concomitant endometriosis, and Kajiyama A. et al. (2017), described the increase in the level of CA-125 (28,831 U/mL) in spontaneous rupture of the PO/PT borderline tumor [15].

For the diagnosis of PO/PT tumors, were used in published studies ultrasonography (USG), computed tomography (CT) and magnetic resonance imaging (MRI) [1, 5-17]. In all cases, after the radiological examination of the PO/PT borderline tumors, there were found cystic formations with thin walls and papillary structures that were projected inside the tumor and

rizată (TC) și imagistica prin rezonanță magnetică (IRM) [1, 5-17]. În toate cazurile, după datele examenului radiologic în tumorile PO/PT borderline, au fost depistate formațiuni chisticce cu pereții subțiri și structuri papilare, care se proiectau în interiorul tumorii și lipsa semnalului dopplerografic (fluxul sanguin) la suprafața lor [1, 7, 11, 15]. Totodată, în una din ultimile publicații, a fost constatată prezența semnalului dopplerografic deasupra structurilor papilare în două din cele trei cazuri [17]. Într-un sir de cazuri, după datele examenului radiologic, s-a reușit vizualizarea ovarului ipsilateral, neimplicat în tumoarea PO/PT [15, 17].

Dimensiunile tumorilor PO/PT borderline au fost de la 3 [6] până la 19 cm [14], iar în 3 (15,8%) cazuri, au atins dimensiuni gigante (>15 cm) [5, 10, 14]. În toate cazurile de tumori PO/PT borderline, s-au observat formațiuni chisticce unilaterale, cu localizarea preponderentă pe dreapta [1, 5-7, 10, 12-15, 17], decât pe stânga [8, 9, 11].

Până în prezent, lipsește un consens internațional referitor la metoda optimă de tratament al tumorilor PO/PT borderline [1, 7, 14-16]. Totodată, s-au format două principii de tratament al tumorilor PO/PT borderline: (1) de a aplica recomandările tratamentului tumorilor ovariene seroase; și (2) de a efectua, pe cât posibil, operații organ menajante la pacientele de vîrstă reproductivă [1, 8-11, 13, 14]. În cadrul intervențiilor chirurgicale ce țin de tumorile PO/PT borderline, au fost folosite laparotomia [1, 5, 8, 10, 11] sau tehnologiile laparoscopice [6, 7, 12-15, 17]. Volumul operațiilor a variat într-un diapazon destul de larg și a inclus: chistectomie [5, 9, 10-13, 15, 17], chistectomie cu rezecția cuneiformă a ovarului [1] și tubectomie [14], salpingoovarectomie [6, 7], histerectomie totală, în combinare cu salpingoovarectomie bilaterală [17], omentectomie

lack of Dopplerography signal (blood flow) at their surface [1, 7, 11, 15]. At the same time, in one of the latest publications, the presence of the Dopplerography signal over the papillary structures, was found in two of the three cases [17]. In a number of cases, after the radiological examination, was achieved visualization of the ipsilateral ovary, unrelated to the PO/PT tumor [15, 17].

The dimensions of the PO/PT borderline tumors were from 3 [6] to 19 cm [14], and in 3 (15.8%) cases they reached giant size (>15 cm) [5, 10, 14]. In all cases of PO/PT borderline tumors, were observed unilateral cystic formations, with predominant right-handed localization [1, 5-7, 10, 12-15, 17] than on the left [8, 9, 11].

So far, there is no international consensus on the optimal method of treatment of PO / PT borderline tumors [1, 7, 14-16]. At the same time, two principles of treatment of PO/PT borderline tumors have been formed: (1) to apply recommendations for the treatment of serum ovarian tumors; and (2) to perform, as far as possible, minor organ operations in reproductive age patients [1, 8-11, 13, 14]. In PO/PT borderline surgery, were used laparotomy [1, 5, 8, 10, 11] or laparoscopic technologies [6, 7, 12-15, 17]. The volume of operations varied in a rather broad range and included: cystectomy [5, 9, 10-13, 15, 17], cystic ovarian resection [1] and tubectomy [14], salpingectomy [6, 7], total hysterectomy, in combination with bilateral salpingectomy [17], subtotal or total omentectomy [7, 13]. It should be noted, that in single cases (gr. IC after FIGO), repeated surgical interventions were performed, including peritoneal lavage with cytology, multiple peritoneal biopsies, para-aortal and pelvic lymphodissection, omentectomy [8, 15]. However, the lack of stromal invasion in PO/PT ovarian tu-

Tabelul 1. Caracteristica generală a cazurilor de tumori PO/PT borderline la pacientele pediatrice.

Table 1. The overall feature of PO/PT borderline tumors in pediatric patients.

Autorul, anul Author, year	Vârstă Age	Manifestările clinice Clinical manifestations	Intervenția chirurgicală Surgical intervention	Dimensiuni, cm Dimensions, cm	Morfopatologie Morphopathology	Durata supravegherii Follow up
Terek M. et al. (2011) [11]	19	dureri abdominale, tumoare pelviană, grețuri (torsiune) <i>abdominal pain, pelvic tumor, nausea (torsion)</i>	laparotomie, chistectomie sinistra + lavaj peritoneal <i>laparotomy, sinister cystectomy + peritoneal lavage</i>	8,9×8,0	tumoare seroasă borderline <i>serous borderline tumour</i>	7 luni, fără recidivă <i>7 mo, no recidive</i>
Kiseli M. et al. (2012) [1]	17	oligomenoree + formațiune complexă al anexelor drepte <i>oligomenorrhea + complex formation on the right annexes</i>	laparotomie, chistectomie + rezecția ovarului <i>laparotomy, cystectomy + ovarian resection</i>	7,0×4,9	tumoare seroasă borderline <i>serous borderline tumour</i>	12 luni, fără recidivă <i>12 mo, no recidive</i>
Lee S. et al. (2016) [14]	17	dismenorree + formațiune gigantă al anexelor drepte <i>dysmenorrhea + giant formation of the right annexes</i>	chistectomie laparoscopică (uniport) + rezecție ovariană + tubectomie <i>laparoscopic cystectomy (uniport) + ovarian resection + tubectomy</i>	19,0	tumoare seroasă borderline <i>serous borderline tumour</i>	3 luni, fără recidivă <i>3 mo, no recidive</i>
Mișina A. et al. (actual case)	15	dureri pelviene + tumoare al anexelor drepte <i>pelvic pain + tumor of right attachments</i>	laparotomie, chistectomie + tubectomie ipsilaterală <i>laparotomy, cystectomy + ipsilateral tubectomy</i>	10,3×9,4	tumoare seroasă borderline <i>serous borderline tumour</i>	21 luni, fără recidivă <i>21 mo, no recidive</i>

subtotală sau totală [7, 13]. Trebuie de menționat că, în cazuri unice (gr. IC după FIGO), au fost efectuate intervenții chirurgicale repetitive (l. engl. *restaging surgery*), care au inclus lavajul peritoneal cu citologie, biopsii multiple ale peritoneului, limfodisecție paraaortală și pelviană, omentectomie [8, 15]. Însă, lipsa invaziei stromale în cazul tumorilor ovariene PO/PT și datele contradictorii despre necesitatea efectuării unor astfel de intervenții, nu permit de a recomanda această tactică [1]. Analizând datele literaturii, trebuie de subliniat faptul că nu sunt date publicate referitor la noduli limfatici pozitivi, implantelor peritoneale sau apariția metastazelor în cazul tumorilor borderline PO/PT.

Din punct de vedere morfopatologic, tumorile borderline se caracterizează prin proliferare epitelială fără invazie stromală [1, 7, 8, 11, 13, 15]. Ceea ce se referă la subcategoria histologică ale acestor tumori, trebuie de menționat că, în majoritatea cazurilor, se întâlnește varianta seroz-papilară (78,9%) [1, 5, 7-11, 14-17] și doar în cazuri unice, a fost descrisă varianta mucinoasă [12, 13, 16] și cea endometrială [6]. După datele lui Suzuki S. et al. [13], varianta seroz-papilară a tumorilor PO/PT s-a întâlnit la 12 din 13 cazuri, descrise în literatura japooneză și în 33 din 40 de cazuri, descrise în literatura mondială.

În toate cazurile descrise, s-a menționat lipsa recidivei lor [1, 5-17]. În acest aspect, rămâne destul de controversat faptul că durata supravegherii acestor paciente a fost de la 3 [14] până la 49 de luni [17], iar supravegherea pe parcursul unui an este destul de limitată [1, 6-8, 10, 13, 15]. Trebuie să fim de acord cu părerea lui Terek M. et al. [11] referitor la faptul că, în pofida necesității supravegherii acestor paciente pe parcursul la 10 ani, pentru a obține date mai exacte despre potențiala recidivă a tumorii după operațiile organ menajante, tactica respectivă trebuie să fie una standard al tratamentului tumorilor PO/PT borderline.

Așadar, tumorile PO/PT borderline se referă la cele rare ale tractului genital feminin, în special, la adolescente. Cazul clinic prezentat de tumoare borderline PO/PT la paciente pediatrice este cel de-al patrulea documentat și publicat în literatura de specialitate. Operațiile organ menajante, cu păstrarea maximală a funcției fertile, actualmente, este tactica unanim acceptată în cazul supravegherii acestor paciente pe o perioadă îndelungată. Recomandări definitive referitoare la tactica tratamentului tumorilor PO/PT borderline ar putea fi formulate, numai după acumularea unui număr suficient de cazuri.

Declarația conflictului de interes

Nimic de declarat.

Contribuția autorilor

Conceptia și design-ul studiului: AM, PH, DM, LF-B, VP; achiziția de date: AM, PH, DM, LF-B, VP; analiza și interpretarea datelor: AM, PH, DM, LF-B, VP; elaborarea manuscrisului: AM, PH, DM, LF-B, VP; revizuirea semnificativă a manuscrisului, cu implicare intelectuală importantă: AM, PH, DM, LF-B, VP. Toți autorii au citit și aprobat versiunea finală a manuscrisului.

mors and contradictory data on the need for such interventions, do not allow to recommend this tactic [1]. Analyzing the literature data, it should be lined that there are no published data on positive lymph nodes, peritoneal implants, or the occurrence of metastasis in borderline PO/PT tumors.

From a morphopathological point of view, borderline tumors are characterized by epithelial proliferation without stromal invasion [1, 7, 8, 11, 13, 15]. Concerning the histological subcategory of these tumors, it should be noted that in most cases, were described the serosal-papillary variant (78.9%) [1, 5, 7-11, 14-17] occurs and only in single cases, the mucinous variant [12, 13, 16] and the endometrial [6]. According to Suzuki S. et al. [13], the serum/papillary variant of PO/PT tumors occurred in 12 of the 13 cases described in the Japanese literature and in 33 of the 40 cases described in the world literature.

In all described cases, there was no recurrence [1, 5-17]. In this aspect, it remains quite controversial that the duration of these patients' surveillance, was from 3 [14] to 49 months [17], and surveillance over a year is rather limited [1, 6-8, 10, 13, 15]. We have to agree with Terek M. et al. [11] that, despite the need of supervision these patients over 10 years, to obtain more accurate data on the potential recurrence of the tumor after organo-preserving surgery, the tactic should be a standard treatment for PO/PT borderline tumors.

Therefore, PO/PT borderline tumors refer to the rare genital tract, especially in adolescents. The clinical case presented by the borderline PO/PT tumor, in pediatric patients, is the fourth documented and published in the literature. Preserving organ operations, with maximum preservation of fertile function, is currently the unanimously accepted tactic in the surveillance of these patients over a long period of time. Final recommendations regarding the PO/PT borderline tumor treatment tactics could only be formulated after a sufficient number of cases have been accumulated.

Declaration of conflicting interests

Nothing to declare.

Authors` contribution

Concept and study design: AM, PH, DM, LF-B, VP; data acquisition: AM, PH, DM, LF-B, VP; data analysis and interpretation: AM, PH, DM, LF-B, VP; elaboration of the manuscript: AM, PH, DM, LF-B, VP; significant revision of the manuscript with important intellectual involvement: AM, PH, DM, LF-B, VP. All authors read and approved the final version of the manuscript.

Referințe / references

1. Kiseli M., Caglar G., Cengiz S., Karadag D., Yilmaz M. Clinical diagnosis and complications of paratubal cysts: review of the literature and report of uncommon presentations. *Arch. Gynecol. Obstet.* 2012; 285 (6): 1563-1569.
2. Savelli L., Ghi T., De Iaco P., Ceccaroni M., Venturoli S., Cacciatore B. Paraovarian/paratubal cysts: comparison of transvaginal sonographic and pathological findings to establish diagnostic criteria. *Ultrasound Obstet. Gynecol.*, 2006; 28 (3): 330-334.
3. Gupta A., Gupta P., Manaktala U., Khurana N. Clinical, radiological, and histopathological analysis of paraovarian cysts. *J. Midlife Health*, 2016; 7 (2): 78-82.
4. Zhao S., Qiang J., Zhang G., Boyko O., Wang S., Cai S., Wang L. MRI appearances of ovarian serous borderline tumor: pathological correlation. *J. Magn. Reson Imaging*, 2014; 40 (1): 151-156.
5. De Areia A., Frutuoso C., Amaral N., Dias I., De Oliveira C. Paraovarian tumor of borderline malignancy – a case report. *Int. J. Gynecol. Cancer*, 2004; 14 (4): 680-682.
6. Salamon C., Tornos C., Chi D. Borderline endometrioid tumor arising in a paratubal cyst: a case report. *Gynecol. Oncol.*, 2005; 97 (1): 263-265.
7. Seamon L., Holt C., Suarez A., Richardson D., Carlson M., O'Malley D. Paratubal borderline serous tumors. *Gynecol. Oncol.*, 2009; 113 (1): 83-85.
8. Kumbak B., Celik H., Cobanoglu B., Gurates B. Paratubal borderline tumor incidentally found during cesarean section: case report and review of literature. *Eur. J. Surg. Oncol.*, 2010; 36 (8): 789-791.
9. Terada T. Borderline serous papillary tumor arising in a paraovarian cyst. *Eur. J. Obstet. Gynecol. Reprod. Biol.*, 2010; 150 (2): 215-216.
10. Shin Y., Kim J., Lee H., Park J., Nam J. Paratubal serous borderline tumor. *J. Gynecol. Oncol.*, 2011; 22 (4): 295-298.
11. Terek M., Sahin C., Yeniel A., Ergenoglu M., Zekioglu O. Paratubal borderline tumor diagnosed in the adolescent period: a case report and review of the literature. *J. Pediatr. Adolesc. Gynecol.*, 2011; 24 (5): e115-116.
12. Im H., Kim J., Lee S., Lee Y., Park E. Borderline mucinous tumor arising in a paratubal cyst: a case report. *Eur. J. Gynaecol. Oncol.*, 2011; 32 (2): 206-207.
13. Suzuki S., Furukawa S., Kyozuka H., Watanabe T., Takahashi H., Fujimori K. Two cases of paraovarian tumor of borderline malignancy. *J. Obstet. Gynaecol. Res.*, 2013; 39 (1): 437-441.
14. Lee S., Ahn K., Park H., Hong S., Lee Y., Kim I., Kim T. Paratubal borderline malignancy: a case of a 17-year-old adolescent female treated with laparo-endoscopic single-site surgery and a review of the literature. *J. Pediatr. Adolesc. Gynecol.*, 2016; 29 (1): 74-76.
15. Kajiyama A., Edo H., Takeya C., Kubushiro K., Oharaseki T., Gomi T. Spontaneously ruptured paraovarian tumor of borderline malignancy with extremely elevated serum carbohydrate antigen 125 (CA125) levels: a comparison of the imaging and pathological features. *Am. J. Case Rep.*, 2017; 18: 919-925.
16. Song M., Lee C., Park E., Lee A., Park J., Hur S. Paraovarian tumors of borderline malignancy. *Eur. J. Gynaecol. Oncol.*, 2011; 32 (4): 445-447.
17. Zhao F., Zhang H., Ren Y., Kong F. Transvaginal sonographic characteristics of paraovarian borderline tumor. *Int. J. Clin. Exp. Med.*, 2015; 8 (2): 2684-2688.