

ANA MIȘINA, V.PETROVICI

ADENOMIOZA CHISTICĂ INTRAUTERINĂ

¹Secția ginecologie chirurgicală,
²Secția patomorfologie, IMSP IMC, Chișinău, Moldova

SUMMARY

INTRAUTERINE CYSTIC ADENOMYOSIS

The authors described a rare variant of adenomyosis — intrauterine cystic adenomyosis. A review of the literature on the frequency, classification, features of diagnosis and surgical treatment of cystic adenomyosis is presented.

Key word: cystic adenomyosis • adenomyosis • adenomyoma • intrauterine

REZUMAT

ADENOMIOZA CHISTICĂ INTRAUTERINĂ

Autorii au descris o variantă rară a adenomiozei — adenomioza chistică intrauterină. Este prezentată o trecere în revistă a literaturii privind frecvența, clasificarea, caracteristicile diagnosticului și tratamentul chirurgical al adenomiozei chistice.

Cuvinte cheie: adenomioză chistică • adenomioză • adenomiom • intrauterin

INTRODUCERE

Adenomioza este o patologie frecventă la femeile de vârstă reproductivă, pentru care este caracteristică infiltrarea miometrului cu țesut endometrial care conține glande și stromă [1]. Focarele de adenomioză sunt înconjugate de miometru hipertrofiat și hiperplaziat și cea mai frecventă variantă este adenomioza difuză, ectopii <5mm și ca regulă se întâlnește la pacientele în vârstă mai mare de 30 de ani [2].

Adenomioza chistică intrauterină (ACIU) se referă la un tip special de endometrioză uterină (adenomioză) și este prezentată în literatură ca cazuri clinice separate [2-15] sau serii mici de cazuri [16-19]. ACIU localizată în cavitatea uterină este o variantă rară și doar observații sporadice ale acestei patologii au fost publicate în literatură [3, 14, 15, 17]. Având în vedere raritatea acestei patologii, vă prezentăm cazuistica personală al ACIU.

DESCRIEREA CAZULUI CLINIC

Pacienta S., 42 ani a fost internată pentru tratament chirurgical cu dureri în regiunea inferioară al abdomenului timp de mai mulți ani. La examenul USG – uterul 81x54x77 mm, mărit din cauza endometriozei gr. II. M-eco — 10 mm. În cavitatea uterină se depistează o formațiune chistică cu conținut neomogen cu caracter endometrioid 55x47 mm. În ovarul drept o formațiune lichidiană Ø 37 mm, neomogenă. Din anamneză:

menarha de la 14 ani, câte 4 zile, regulate, abundente, nedureroase. N-3, A-3, Gr.-6.

Anamneza somatică: gastrită cronică. La internare starea satisfăcătoare. Pielea curată, pal-roză. PS – 78 bătăi/min. TA 110/70 mmHg. M=80 kg, h -178 cm, BMI – 25.2 kg/m². Limba umedă, curată. Abdomenul moale, participă la respirație, indolor la palpate. Ficatul, splina nu se palpează. Micțiunea liberă.

P.V.: Organele genitale externe corect dezvoltate. Vaginel liber. Colul uterin – curat. Uterul mărit în dimensiuni până la 12 săptămâni, mobil, sensibil la palpate. Fornixurile indolare. Eliminări – seroase.

Cu diagnosticul: suspexție la adenomioză chistică intrauterină, pacienta se pregătește pentru intervenție chirurgicală.

Analiza sângelui: Hb-134 g/l, Er.-4.5x10⁹/l, L-6.6x10⁹/l, Tr.-253x10⁹/l, Ns – 3%, Segm.- 53%, Eoz. – 3%, Limf. – 37%, Mon. – 4%, VSH – 3. Coagulograma: înc. 3'00", sfârș. 3'40". Protrombina 80%, Fibrinogenul 2.4 g/l. Bilirubina 36.9 mg/dL, ALAT 22.3 Un/L, AsAT 23.7 Un/L, glucoza 5 mg/dL.

În condiții aseptice, sub anestezie epidurală a fost efectuată operația: Laparotomie Phannenstiell. Histerectomie subtotală cu anexele bilateral. În timpul intervenției s-a depistat: uterul mărit la 12-13 săpt. de sarcină din contul unei formațiuni tumorale intracavitară din corpul uterin de consistență moale. Ovarul bilateral macroscopic schimbate, intim aderat de corpul uterin. După înlăturarea uterului cu anexele s-a deschis cavi-

tea preparatului înlăturat unde s-au depistat în regiunea fundică a uterului două formațiuni chistice, endometriale de 5x6 cm. După incizia peretelui uterin anterior din cavitate prolabează o formațiune chistică cu suprafața netedă și lucioasă (Fig. 1), la incizia formațiunii –



Fig.1. Macropreparatul uterului înlăturat cu adenomioză chistică intrauterină (→)

La examenul de control peste 13 luni – pacienta asimptomatică, după datele examenului USG transvaginal careva patologie nu s-a constatat.

DISCUȚII

În anul 1908 Cullen TS. pentru prima dată a descris apariția formațiunilor chistice căptușite cu endometru în stratul submucos al uterului la pacientele cu adenomioză. În 1990, Parulekar SV. a prezentat pentru prima dată observația de ACIU (Ø 10cm) la o pacientă de 36 de ani, iar în 1996 Tamura M. a descris această patologie la o adolescentă de 16 ani [17, 20]. În literatura de specialitate anglo-saxonă, ACIU apare în diverse variante terminologice: „cystic adenomyoma” [6, 8, 10, 13, 16, 18, 19], „adenomyotic cyst” [2, 5, 7, 21] și „cystic adenomyosis” [4, 9, 11, 12, 15, 17, 20, 22].

Până în prezent, este unanim acceptat să se evalueze două tipuri de ACIU: juvenile [5, 6, 8, 10, 13, 16, 18, 19] și mature [2, 3, 7, 9, 11, 12, 14, 15, 17, 19]. Chun SS. și coaut. [6] au propus criteriile pentru tipul juvenil de ACIU: (1) dismenoree severă în decurs de 5 ani de la menarha sau vârsta <18 ani; (2) fără antecedente de intervenții la nivelul uterului (chiuretaj, naștere, miomectomie etc.); (3) diametrul cavității chistice ≥5 mm. Tipul matur de ACIU se caracterizează prin: vârsta pacienților >30 de ani și antecedente de intervenții chirurgicale uterine (întreruperea sarcinii, chiuretaj diagnostic al cavității uterine, operație cezariană) [9, 17]. Potrivit lui Kerbage Y. și coaut. (2022), care au descris cele mai numeroase serii de pacienți cu ACIU (n=18), au observat și alte localizări ale endometriozei pelvine, inclusiv endometriome ovariene

conținut lichidian de culoarea „ciocolatei”. La examenul histologic: ACIU, structuri glandulare endometriale chistic dilatate (Fig.2).

Perioada postoperatorie a decurs fără particularități. Externată la a 6 zi postoperator în stare satisfăcătoare.

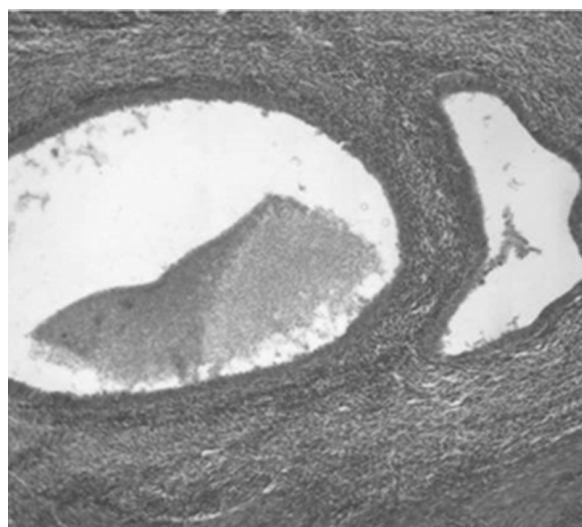


Fig.2. Adenomioză glandular-chistică a uterului. Structuri glandulare endometriale chistic dilatate (colorație H&E, x100)

(16.6%), focare de endometrioză în septul recto-vaginal (16.6%), ligamentul utero-sacral (11.1%), spațiul vezicouterin (5.55%) și focare superficiale (5.55%) [19].

Tabloul clinic al ACIU este similar cu cel al adenomiozei tipice și, odată cu progresarea patologiei, se manifestă prin dismenoree severă, hipermenoree, menoragie și durere pelvină cronică [2-20]. Un număr de studii indică un conținut crescut de oncomarker CA-125 în ACIU care a variat de la 38 la 1212 U/mL [2-4, 12, 16, 17]. În perioada postoperatorie după îndepărtarea ACIU, a fost observată normalizarea CA-125 [3, 12, 16].

Metodele contemporane imagistice se folosesc pe scară largă în diagnosticul adenomiozei, însă în cazul ACIU probabilitatea interpretării incorecte crește semnificativ în favoarea anomaliilor Mulleriene (corn uterin rudimentar, uter bicorporal), endometriome ovariene, miom uterin cu degenerație chistică [3, 7, 8, 10, 11, 16-18]. După datele USG 2D și 3D, ACIU se vizualizează ca o formațiune chistică de formă ovală cu conținut lichid hipocogen. Formațiunea chistică este separată de miometru de la cavitatea uteină normală și este situată în peretele uterin îngroșat [2, 3, 7, 9, 10, 12, 16, 18, 19]. În cazul tomografiei computerizate (TC), ACIU este vizualizată ca o formațiune chistică [5]. Cu imagistica prin rezonanță magnetică (IRM), ACIU este definită ca formațiuni chistice cu contururi clare și conținut hemoragic, hiperintense pe T1W și T2W [2, 3, 6-8, 11, 13, 16, 18, 19]. Se determină și hipertrofia miometrului în jurul formațiunii chistice și inelul hemosederin din interiorul ACIU [5, 7].

Dimensiunile ACIU au variat într-o gamă destul de largă și au fost de la 2 la 5.5 cm [2, 5-8, 10-13, 15, 16, 18, 19],

dar în același timp sunt descrise și ACIU gigantice, ajungând 8-10 cm [3, 9]. În funcție de localizare, ACIU au fost distribuite astfel: peretele anterior al uterului [7, 10, 14], peretele posterior al uterului [2, 3, 9, 15, 18], peretele lateral [15, 16], peretele lateral al uterului cu implicarea ligamentului lat al uterului [18], partea fundică, unghiul uterin [5, 11, 12, 16, 18]. Conform localizării și complexității leziunii Brosens I. și coaut. (2015) au clasificat ACIU în următoarele categorii: tip A1 — submucoasă sau intramurală; A2 — formațiuni intracavitare chistice; B1 — ACIU subseroasă; B2 — ACIU cu creștere exofită; C — cuprinde mase asemănătoare uterului [20].

Tratamentul medicamentos care vizează suprimarea funcției menstruale (contraceptive orale, analogi GhRH) și utilizarea medicamentelor antiinflamatoare nesteroidiene asigură ameliorarea temporară și parțială a durerii [3, 5, 6, 12, 15, 16, 18, 19]. În același timp, se consideră adecvată utilizarea analogilor GhRH [2, 12, 14, 19] sau a contraceptivelor orale [5, 13, 16, 17, 19] după ablația chirurgicală al ACIU.

Alegerea metodei de tratament chirurgical al ACIU depinde de vârsta pacienților, severitatea simptomelor, dimensiunea și localizare [20]. Intervențiile chirurgicale organomenajante pentru ACIU la adolescenți și femeile de vârstă reproductivă sunt considerate cea mai optimă metodă de tratament și opțiunile lor includ: excizia laparoscopică al ACIU [2, 6, 8-12, 18, 19], utilizarea unui complex robotic [18], rezecție histeroscopică al ACIU [3, 4, 14, 17, 19] și excizia ACIU prin laparotomie [5, 7, 17]. La efectuarea exciziei laparoscopice al ACIU, în cazul suspiciunii de deschidere a cavității uterine, se efectuează un test cu albastru de metilen sau se efectuează intervenții ulterioare în combinație cu histeroscopia [19]. La pacientele care nu doresc să-și păstreze funcția reproductivă și sunt în menopauză se efectuează histerectomia [17].

Ca alternativă la tratamentul chirurgical, literatura descrie cazuri sporadice de tratament al ACIU folosind metode de ablație fizico-chimică. Așa, Zhou XJ. și coaut. (2020) au prezentat rezultatele utilizării ultrasunetelor focalizate de mare intensitate (HIFU) la patru paciente cu ACIU și urmărirea timp de șase luni a arătat o regresie completă a dismenoreei, ceea ce a permis autorilor să formuleze concluzii preliminare despre avantajele clare ale acestei metode: non-invazivitate, siguranță, eficacitate și tolerabilitate bună [15]. În același timp, Minelli F. și coaut. (2021) au publicat un rezultat pozitiv al tratamentului ACIU juvenile la o pacientă de 19 ani cu folosirea scleroterapiei cu alcool 96% [13].

Macroscopic, ACIU sunt reprezentate de formațiuni chistice care conțin un lichid asemănător ciocolatei [2, 5, 8-11, 17-19] iar suprafața interioară este similară cu endometriomul ovarian [6]. Examenul histopatologic al ACIU s-a prezentat ca o formațiune chistică acoperită în interior cu glande endometriale și prezența macrofagelor care fagocitează hemosiderină [2, 4-7, 9-12, 14, 17-19]. Literatura anglo-saxonă descrie cazuri izolate

de transformare malignă al ACIU cu dezvoltarea carcinomului cu celule clare [21, 22].

La evaluarea rezultatelor la distanță ale tratamentului chirurgical al ACIU, în majoritatea rapoartelor s-a observat o regresie completă [7, 11, 16, 19] sau semnificativă a dismenoreei și a durerii pelvine [6, 8, 13]. Mai mult ca atât, în seria de observații al ACIU descrisă de Kerbage Y. și coaut. (2022) sarcina a apărut în 38.9% din cazuri după tratamentul chirurgical al ACIU [19].

CONCLUZII

Adenomioza chistică este o patologie orfană, cu un diagnostic preoperator corect destul de dificil. Tratamentul conservativ cu utilizarea medicamentelor hormonale nu este eficient. Alegerea tratamentului chirurgical trebuie să se bazeze pe vârsta pacienților, severitatea simptomelor, dimensiunea și localizarea adenomiozei chistice.

BIBLIOGRAFIE

1. Bourdon M, Santulli P, Marcellin L, Maignien C, Maitrot-Mantelet L, Bordonne C, Plu Bureau G, Chapron C. Adenomyosis: An update regarding its diagnosis and clinical features. *J Gynecol Obstet Hum Reprod.* 2021;50(10):102228.
2. Cucinella G, Billone V, Pitruzzella I, Lo Monte AI, Palumbo VD, Perino A. Adenomyotic cyst in a 25-year-old woman: case report. *J Minim Invasive Gynecol.* 2013;20(6):894-8.
3. Pontrelli G, Bounous VE, Scarperi S, Minelli L, Di Spiezio Sardo A, Florio P. Rare case of giant cystic adenomyoma mimicking a uterine malformation, diagnosed and treated by hysteroscopy. *J Obstet Gynaecol Res.* 2015;41(8):1300-1304.
4. Sun W, Guo X, Zhu L, Fei X, Zhang Z, Li D. Hysteroscopic treatment of a uterine cystic adenomyosis. *J Minim Invasive Gynecol.* 2018;25(3):374-375.
5. Ho ML, Ratts V, Merritt D. Adenomyotic cyst in an adolescent girl. *J Pediatr Adolesc Gynecol.* 2009;22(3):e33-8.
6. Chun SS, Hong DG, Seong WJ, Choi MH, Lee TH. Juvenile cystic adenomyoma in a 19-year-old woman: a case report with a proposal for new diagnostic criteria. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A.* 2011;21(8):771-4.
7. Kamio M, Taguchi S, Oki T, Tsuji T, Iwamoto I, Yoshinaga M, Douchi T. Isolated adenomyotic cyst associated with severe dysmenorrhea. *J Obstet Gynaecol Res.* 2007;33(3):388-91.
8. Protopapas A, Kypriotis K, Chatzipapas I, Kathopolis N, Sotiropoulou M, Michala L. Juvenile cystic adenomyoma vs blind uterine horn: Challenges in the diagnosis and surgical management. *J Pediatr Adolesc Gynecol.* 2020;33(6):735-738.

9. Li C, Xu Y, Cong L. Laparoscopic treatment of a large cystic adenomyosis of the uterus: A case report. *Int J Surg Case Rep.* 2020;71:179-182.
10. Strelec M, Banović M, Banović V, Sirovec A. Juvenile cystic adenomyoma mimicking a Mullerian uterine anomaly successfully treated by laparoscopic excision. *Int J Gynaecol Obstet.* 2019;146(2):265-266.
11. Koukoura O, Kapsalaki E, Daponte A, Pistofidis G. Laparoscopic treatment of a large uterine cystic adenomyosis in a young patient. *BMJ Case Rep.* 2015;2015:bcr2015210358.
12. Zhao CZ, Wang B, Zhong CY, Lu ST, Lei L. Management of uterine cystic adenomyosis by laparoscopic surgery: case report. *BMC Womens Health.* 2021;21(1):263.
13. Minelli F, Agostini A, Siles P, Gnisci A, Pivano A. Treatment of juvenile cystic adenomyoma by sclerotherapy with alcohol instillation: A case report. *J Gynecol Obstet Hum Reprod.* 2021;50(6):102081.
14. Yin W, Zhang J, Xu L, Luo L. Intrauterine endometrial cyst after low uterine incision: A case report with literature review. *Medicine (Baltimore).* 2018;97(15):e0376.
15. Zhou XJ, Zhao ZM, Liu P, Zhao CY, Lin YJ, Liu Y, Wang M, Tian C, Li HY, Hou CX, Li XM, Zhao ZY, Zhou YJ. Efficacy of high intensity focused ultrasound treatment for cystic adenomyosis: a report of four cases. *Ann Palliat Med.* 2020;9(6):3742-3749.
16. Arya S, Burks HR. Juvenile cystic adenomyoma, a rare diagnostic challenge: Case Reports and literature review. *F S Rep.* 2021;2(2):166-171.
17. Fan YY, Liu YN, Li J, Fu Y. Intrauterine cystic adenomyosis: Report of two cases. *World J Clin Cases.* 2019;7(5):676-683.
18. Said MR, Afaneh H, Zaghmout O, Moses K, Young OJ, Abuzeid MI. Minimally invasive management of juvenile cystic adenomyoma: report of three cases. *Facts Views Vis Obgyn.* 2021;13(3):267-272.
19. Kerbage Y, Dericquebourg S, Collinet P, Verpillat P, Giraudet G, Rubod C. Cystic adenomyoma surgery. *J Gynecol Obstet Hum Reprod.* 2022;51(3):102313.
20. Brosens I, Gordts S, Habiba M, Benagiano G. Uterine cystic adenomyosis: a disease of younger women. *J Pediatr Adolesc Gynecol.* 2015;28(6):420-426.
21. Baba A, Yamazoe S, Dogru M, Ogawa M, Takamatsu K, Miyachi J. Clear cell adenocarcinoma arising from adenomyotic cyst: A case report and literature review. *J Obstet Gynaecol Res.* 2016;42(2):217-223.
22. Gomez NF, Still MA, Akki AS, Carbajal-Mamani SL, Cardenas-Goicoechea J. Uterine clear cell carcinoma arising from cystic adenomyosis: a case report. *J Obstet Gynaecol.* 2021;41(7):1175-1177.