

ΠΑΡΟΥΣΙΑΣΗ ΠΕΡΙΣΤΑΤΙΚΟΥ

Χειρουργική αντιμετώπιση σπάνιας περίπτωσης άτυπου πολυποειδικού αδеноμώματος της μήτρας σε ασθενή περιεμμηνοπαυσιακής ηλικίας: περιγραφή περίπτωσης

Ευθυμία Θανασά,¹ Άννα Θανασά,¹ Ιωάννης Παραουλάκης,² Ευάγγελος Καμαρέτσος,² Βασιλική Γραφίδη,² Ευάγγελος-Έκτορας Γεροκώστας,² Ιωάννης-Ραφαήλ Αντωνίου,² Γεράσιμος Κοντογεώργης,² Ευαγγελία Σιμοπούλου,³ Μαρία Μούσια,³ Ιωάννης Θανασάς²

¹ Τμήμα Επιστημών Υγείας, Ιατρική Σχολή, Αριστοτέλειο Πανεπιστήμιο Θεσσαλονίκης, Θεσσαλονίκη, ² Μαιευτική & Γυναικολογική Κλινική, Γενικό Νοσοκομείο Τρικάλων, Τρίκαλα, ³ Παθολογοανατομικό Εργαστήριο, Γενικό Νοσοκομείο Τρικάλων, Τρίκαλα, Ελλάδα

ΠΕΡΙΛΗΨΗ

Το άτυπο πολυποειδικό αδеноμώμα είναι ένας σπάνιος καλοήθης όγκος της μήτρας ο οποίος συνήθως αφορά σε γυναίκες αναπαραγωγικής ηλικίας και έχει αυξημένο κίνδυνο εξαλλαγής σε καρκίνωμα του ενδομητρίου. Ο παθογενετικός μηχανισμός δεν έχει απόλυτα διευκρινισθεί. Συνεπεία της σπανιότητας του όγκου, η τρέχουσα εμπειρία αναφορικά με τη διαγνωστική και θεραπευτική προσέγγιση είναι περιορισμένη. Για τις ασθενείς που βρίσκονται στην εμμηνοπαυση η υστερεκτομή φαίνεται να αποτελεί την κύρια θεραπευτική επιλογή. Η περίπτωση μας αφορά σε ασυμπτωματική ασθενή εμμηνοπαυσιακής ηλικίας με έναν φυσιολογικό τοκετό στο μαιευτικό ιστορικό της και χωρίς κληρονομικό ιστορικό γυναικολογικού καρκίνου η οποία προσήλθε στο εξωτερικό ιατρείο για γυναικολογική εξέταση. Με το διακολπικό υπερηχογράφημα διαπιστώθηκε εντός της ενδομήτριας κοιλότητας η παρουσία ευμεγέθους στρογγυλού συμπαγούς μορφώματος με αυξημένη αγγείωση. Εκτελέσθηκε διαγνωστική απόξεση του ενδομητρίου. Η ιστολογική εξέταση του ενδομητρίου υλικού έδειξε άτυπο πολυποειδικό αδеноμώμα και αποφασίσθηκε η εκτέλεση κοιλιακής ολικής υστερεκτομής μετά των εξαρτημάτων. Με την ιστολογική εξέταση του εγχειρητικού παρασκευάσματος της μήτρας δεν διαπιστώθηκε υπολειμματική νόσος, ούτε συνυπάρχουσες εστιές άτυπης υπερπλασίας του ενδομητρίου ή ενδομητρίου καρκινώματος. Η μετεγχειρητική πορεία ήταν ομαλή. Η ασθενής παραμένει μέχρι σήμερα υπό τακτική παρακολούθηση. Με την παρούσα περιγραφή περιστατικού τονίζονται οι σημαντικές δυσκολίες που αφορούν στην προεγχειρητική διάγνωση του άτυπου πολυποειδικού αδеноμώματος της μήτρας και η δύσκολη διαφορική διάγνωση από την άτυπη υπερπλασία του ενδομητρίου και τον καρκίνο του ενδομητρίου, ιδιαίτερα σε ασθενείς εμμηνοπαυσιακής ηλικίας. Ταυτόχρονα, επισημαίνεται ότι παρά τη σπανιότητά του, η έγκαιρη διάγνωση του άτυπου πολυποειδικού αδеноμώματος, ιδιαίτερα σε νεαρές γυναίκες πρέπει να αποτελεί κύριο μέλημα του σύγχρονου γυναικολόγου, προκειμένου να σχεδιαστεί η βέλτιστη αντιμετώπιση η οποία θα αποσκοπεί στη διατήρηση της γονιμότητας με ταυτόχρονη αποφυγή του κινδύνου υποτροπής της βλάβης ή κακοήθους εξαλλαγής σε καρκίνωμα του ενδομητρίου.

Λέξεις κλειδιά: άτυπο πολυποειδικό αδеноμώμα, υπερηχογραφικός έλεγχος, διαγνωστική απόξεση ενδομητρίου, αντιμετώπιση, περιγραφή περίπτωσης

Ε. Θανασιά, Α. Θανασιά, Ι. Παραουλάκης, Ε. Καμαρέτσος, Β. Γραψίδη, Ε. Γεροκώστας, Ι. Αντωνίου, Γ. Κοντογεώργης, Ε. Σιμοπούλου, Μ. Μούσια, Ι. Θανασιάς. Χειρουργική αντιμετώπιση σπάνιας περίπτωσης άτυπου πολυποειδικού αδενομύωματος της μήτρας σε ασθενή περιεμμηνοπαυσιακής ηλικίας: περιγραφή περίπτωσης. *Επιστημονικά Χρονικά* 2023; 28(2): 276-285

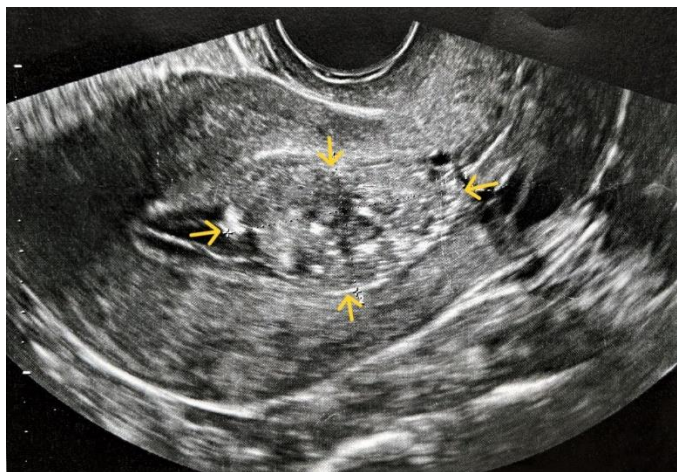
ΕΙΣΑΓΩΓΗ

Στην τρέχουσα ταξινόμηση του Παγκόσμιου Οργανισμού Υγείας για τους μικτούς επιθηλιακούς και μεσεγχυματικούς όγκους του σώματος της μήτρας, μεταξύ του καρκινοσαρκώματος, του αδενοσαρκώματος, του αδενοινώματος και του αδενομύωματος περιλαμβάνεται και το άτυπο πολυποειδικό αδενομύωμα της μήτρας [1]. Το άτυπο πολυποειδικό αδενομύωμα ή άτυπο πολυποειδικό αδενομυοίνωμα, όπως αλλιώς αναφέρεται στη βιβλιογραφία είναι ένας σπάνιος καλοήθης όγκος του σώματος της μήτρας, η ανάπτυξη του οποίου αφορά σε μείγμα κυττάρων επιθηλιακής και μεσεγχυματικής προέλευσης [2]. Μέχρι σήμερα, λιγότερες από 250 περιπτώσεις έχουν αναφερθεί στην παγκόσμια βιβλιογραφία [3]. Στο παρόν άρθρο, μετά την περιγραφή του περιστατικού, επιχειρείται μια σύντομη βιβλιογραφική ανασκόπηση του σπάνιου αυτού όγκου της μήτρας, επισημαίνοντας ότι, λόγω της σπανιότητάς του, η τρέχουσα εμπειρία αναφορικά με τη διαγνωστική και θεραπευτική προσέγγιση είναι περιορισμένη.

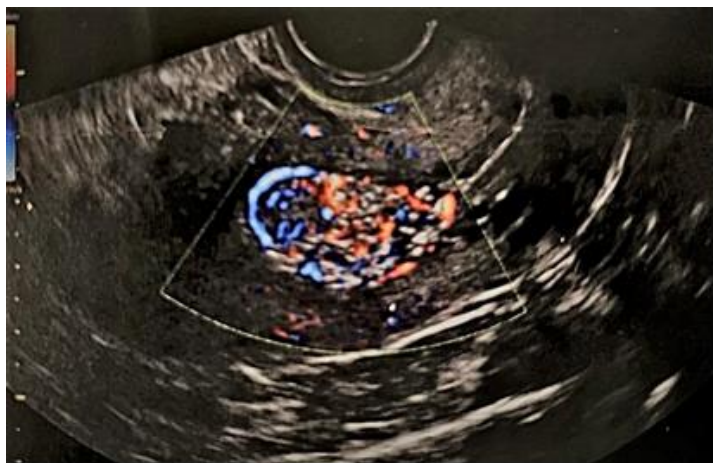
ΠΕΡΙΓΡΑΦΗ ΠΕΡΙΠΤΩΣΗΣ

Ασθενής εμμηνοπαυσιακής ηλικίας 53 ετών προσήλθε στο γυναικολογικό ιατρείο για να υποβληθεί σε γυναικολογική εξέταση ρουτίνας. Η ασθενής είχε έναν φυσιολογικό τοκετό στο μαιευτικό ιστορικό της και είχε

ατομικό αναμνηστικό αρτηριακής υπέρτασης, καλά ρυθμιζόμενη υπό φαρμακευτική αγωγή. Από τον τελευταίο προληπτικό γυναικολογικό έλεγχο προ τριετίας δεν αναφέρθηκαν παθολογικά ευρήματα. Η ασθενής δεν είχε κληρονομικό ιστορικό γυναικολογικού καρκίνου. Από το ατομικό της αναμνηστικό δεν αναφέρθηκε διαταραχή της εμμήνου ρύσεως κατά τη διάρκεια της αναπαραγωγικής της ηλικίας, ούτε ανώμαλη κοιλιακή αιμορραγία τα τελευταία τρία χρόνια που η ασθενής ήταν στην εμμηνόπαυση. Επιπλέον, η ασθενής δεν έλαβε ποτέ ορμονική αντισύλληψη, ούτε θεραπεία ορμονικής υποκατάστασης κατά την τελευταία τριετία. Η ασθενής μας ήταν ασυμπτωματική. Δεν ανέφερε αίσθημα βάρους στον κόλπο, ούτε ανέφερε επεισόδια πόνου στο υπογάστριο κωλικοειδούς ή άλλου χαρακτήρα. Κατά την γυναικολογική εξέταση της ασθενούς διαπιστώθηκε τράχηλος καλά επιθηλιοποιημένος, χωρίς παρουσία μακροσκοπικών αλλοιώσεων. Η κυτταρολογική εξέταση υλικού που λήφθηκε από τον εξωτράχηλο και τον ενδοτράχηλο της μήτρας ήταν αρνητική για κακοήθεια. Με το διακολπικό υπερηχογράφημα εντός της ενδομήτριας κοιλότητας διαπιστώθηκε η παρουσία ευμεγέθους στρογγυλού συμπαγούς μορφώματος, διαστάσεων 39x25mm (Εικόνα 1). Η εκτίμηση της αιματικής ροής του όγκου με τη βοήθεια της Doppler υπερηχογραφίας έδειξε αυξημένη αγγείωση (Εικόνα 2). Το μέγεθος της μήτρας ήταν φυσιολογικό για την ηλικία της ασθενούς και δεν απεικονίστηκαν παθολογικά ευρήματα από τις ωσθήκες. Από τον



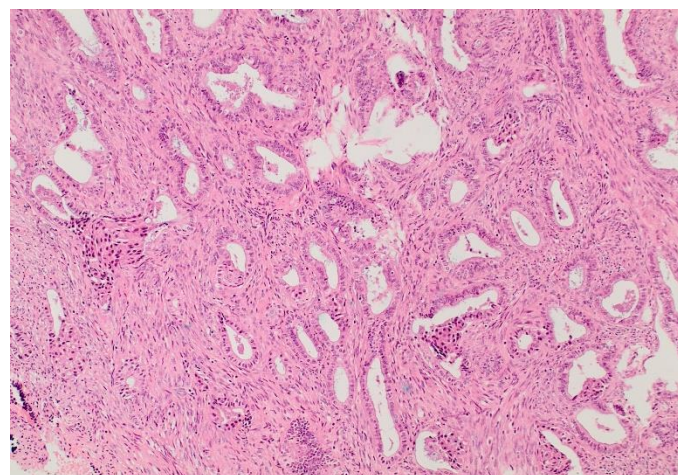
Εικόνα 1. Διακολπική υπερηχογραφική απεικόνιση άτυπου πολυποειδικού αδеноμώματος της μήτρας (δική μας περίπτωση): απεικονίζεται με ευκολία συμπαγές, στρογγυλού σχήματος, καλά περιγεγραμμένο μórφωμα (κίτρινα βέλη) εντός της ενδομήτριας κοιλότητας.



Εικόνα 2. Διακολπική Doppler υπερηχογραφική απεικόνιση άτυπου πολυποειδικού αδеноμώματος της μήτρας (δική μας περίπτωση): είναι χαρακτηριστική η απεικόνιση αυξημένης αγγείωσης της ενδομήτριας μάζας.

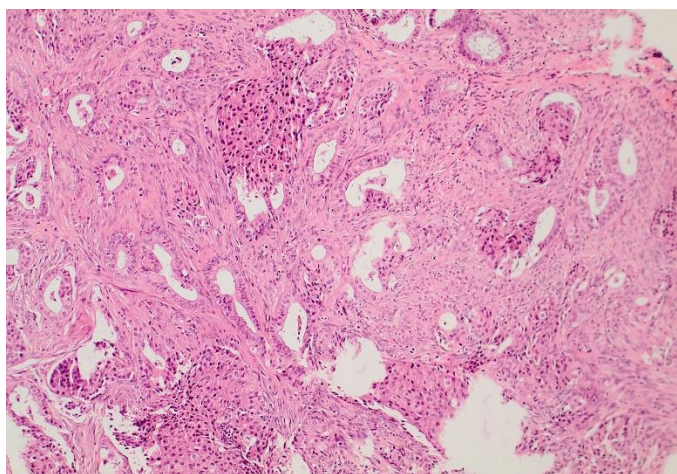
mg/dl, Cr 0.7 mg/dl, Na 138 mEq/l, K 4.1 mEq/l. Οι δείκτες φλεγμονής και η γενική εξέταση των ούρων ήταν εντός των φυσιολογικών ορίων. Οι δείκτες κακοήθειας (CA125, CA15-3, CA19-9) ήταν αρνητικοί.

Στη συνέχεια, μετά από την αναλυτική ενημέρωση της ασθενούς και των οικείων της σχετικά με την προτεινόμενη θεραπευτική προσέγγιση της νόσου, εκτελέστηκε διαγνωστική απόξεση του ενδομητρίου. Η ιστολογική εξέταση του υλικού της ενδομήτριας βιοψίας έδειξε άτυπο πολυποειδικό αδеноμώμα με παρουσία ινομυωματώδους στρώματος χωρίς κυτταρική ατυπία και ενδομητρικών αδένων ποικίλου μεγέθους με εστιακή πλακώδη μετάπλαση και στιβάδωση πυρήνων με ανισομεγέθεια ως επί ήπιες ατυπίες (Εικόνες 3 και 4).



Εικόνα 3. Ιστολογική εικόνα άτυπου πολυποειδικού αδеноμώματος της μήτρας (δική μας περίπτωση): είναι εμφανής η απεικόνιση ινομυωματώδους στρώματος χωρίς κυτταρική ατυπία και η παρουσία ενδομητρικών αδένων ποικίλου μεγέθους με στιβάδωση πυρήνων και ανισομεγέθεια ως επί ήπιες ατυπίες.

εργαστηριακό έλεγχο κατά την εισαγωγή της ασθενούς στην κλινική μας διαπιστώθηκε: Ht 40.1%, Hb 13.3 gr/dl, PLT 233x10³/ml, U 35



Εικόνα 4. Ιστολογική εικόνα άτυπου πολυποειδικού αδενομύωματος της μήτρας (δική μας περίπτωση): είναι εμφανής η απεικόνιση εστιακής πλακώδους μετάπλασης ενδομητρικών αδένων.

Στη συνέχεια αποφασίστηκε η εκτέλεση κοιλιακής ολικής υστερεκτομής μετά των εξαρτημάτων. Η μαγνητική τομογραφία που έγινε στο πλαίσιο του προεγχειρητικού ελέγχου, πριν από την εκτέλεση της υστερεκτομής δεν έδειξε παθολογικά ευρήματα από τη μήτρα και τα παραμήτρια, ούτε παθολογικά διογκωμένους λεμφαδένες. Δεν αναφέρθηκαν άμεσες επιπλοκές που να σχετίζονται με την χειρουργική επέμβαση. Στην ιστολογική εξέταση του εγχειρητικού παρασκευάσματος της μήτρας δεν βρέθηκε υπολειμματική νόσος, ούτε συνυπάρχουσες εστίες υπερπλασίας του ενδομητρίου με ατυπία ή καρκινώματος του ενδομητρίου. Μετά από ομαλή μετεγχειρητική πορεία, η ασθενής εξήλθε από την κλινική μας την τέταρτη μετεγχειρητική ημέρα. Η ασθενής μέχρι σήμερα βρίσκεται υπό τακτική παρακολούθηση στο εξωτερικό ιατρείο της κλινικής μας. Έξι μήνες μετά από την εκτέλεση της ολικής υστερεκτομής, τα ευρήματα από την κλινική και κυτταρολογική εξέταση του κοιλιακού θόλου παραμένουν φυσιολογικά.

ΣΥΖΗΤΗΣΗ

Το άτυπο πολυποειδικό αδενομύωμα περιγράφηκε για πρώτη φορά από τον Mazur το 1981 [4]. Πρόκειται για σπάνιο καλοήθη πολυποειδή όγκο της μήτρας ο οποίος συνήθως αφορά σε άτοκες γυναίκες αναπαραγωγικής ηλικίας και σχετίζεται με υπογονιμότητα [5]. Η εμφάνισή του στην εμμηνόπαυση, όπως και στη δική μας ασθενή είναι εξαιρετικά σπάνια. Το άτυπο πολυποειδικό αδενομύωμα συνήθως εντοπίζεται στο κατώτερο τμήμα της μήτρας ή στον ενδοτράχηλο ή στην ενδομήτρια κοιλότητα (δική μας περίπτωση) και μπορεί να συνυπάρχει με άτυπη υπερπλασία του ενδομητρίου και/ή αδenoκαρκίνωμα του ενδομητρίου [6]. Πρόσφατα έχει περιγραφεί στη διεθνή βιβλιογραφία μοναδική περίπτωση εντόπισης άτυπου πολυποειδικού αδενομύωματος στον κοιλιακό θόλο, μετά από εκτέλεση κοιλιακής ολικής υστερεκτομής για την αντιμετώπιση υπερπλασίας του ενδομητρίου με ατυπία [2].

Ο ακριβής παθογενετικός μηχανισμός δεν έχει απόλυτα διευκρινισθεί. Πολλές μελέτες σήμερα καταδεικνύουν πιθανή συσχέτιση μεταξύ του άτυπου πολυποειδικού αδενομύωματος της μήτρας και παραγόντων που σχετίζονται με τα οιστρογόνα. Πιο συγκεκριμένα, παράγοντες, όπως η παχυσαρκία, ο σακχαρώδης διαβήτης, η παρατεταμένη οιστρογονική διέγερση και η θεραπεία ορμονικής υποκατάστασης εκτιμάται ότι μπορεί να σχετίζονται με την παθογένεση της σπάνιας αυτής νοσολογικής οντότητας [7]. Επίσης, η δυσλειτουργία των ωθηκών που προκαλείται από υπερπρολακτιναιμία εκτιμάται ότι θα μπορούσε να εμπλέκεται στην

παθολογία του άτυπου πολυποειδικού αδενомуώματος της μήτρας [8]. Πιο πρόσφατα το 2015, η Němejcová et al. αναλύοντας τα αποτελέσματα ολοκληρωμένης ανοσοϊστοχημικής και μοριακής ανάλυσης σειράς περιπτώσεων της νόσου κατέληξαν στο συμπέρασμα ότι, δεδομένης της συσχέτισης με την άτυπη υπερπλασία του ενδομητρίου και το ενδομητριοειδές αδενοκαρκίνωμα και τα κοινά ανοσοϊστοχημικά και μοριακά χαρακτηριστικά, το άτυπο πολυποειδικό αδενомуώμα της μήτρας θα μπορούσε εννοιολογικά να θεωρηθεί καλύτερα ως ανάλογο με μια εντοπισμένη μορφή άτυπης υπερπλασίας [9].

Η σχετιζόμενη με τη σπανιότητα του όγκου διαγνωστική προσέγγιση είναι περιορισμένη. Η προεγχειρητική διάγνωση του άτυπου πολυποειδικού αδενомуώματος της μήτρας αποτελεί πρόκληση στη σύγχρονη χειρουργική κλινική πράξη. Το κύριο χαρακτηριστικό κλινικό γνώρισμα του άτυπου πολυποειδικού αδενомуώματος της μήτρας είναι η ανώμαλη κολπική αιμορραγία. Η ανώμαλη κολπική αιμορραγία συνήθως έχει τη μορφή της υπερμηνόρροιας (σχεδόν σε όλες τις περιπτώσεις) ή μπορεί να αφορά σε ακανόνιστη έμμηνο ρύση ή σε μη φυσιολογική αιμορραγία εκτός της εμμήνου ρύσεως [6]. Επιπλέον, η αναιμία και η στειρότητα συμπεριλαμβάνονται στα κύρια κλινικά γνωρίσματα που χαρακτηρίζουν το άτυπο πολυποειδικό αδενомуώμα της μήτρας [10]. Είναι περιεργό το γεγονός ότι η δικής μας ασθενής δεν είχε κανένα προδιαθεσικό παράγοντα ή κλινικό σύμπτωμα: η ασθενής μας χωρίς ιστορικό υπογονιμότητας δεν ήταν άτοκη, δεν ήταν παχύσαρκη (BMI = 25.31), δεν είχε αναιμία, δεν έλαβε ποτέ

ορμονική αντισύλληψη, ούτε έλαβε θεραπεία ορμονικής υποκατάστασης στην εμμηνόπαυση. Επιπλέον, ο εμμηνορυσιακός κύκλος κατά την αναπαραγωγική ηλικία ήταν κανονικός και ποτέ κατά το τελευταίο χρονικό διάστημα που βρισκόταν στην εμμηνόπαυση δεν εμφάνισε κολπική αιμορραγία.

Ο απεικονιστικός έλεγχος, συμπεριλαμβανομένων της υπερηχοτογραφίας, της αξονικής τομογραφίας και της μαγνητικής τομογραφίας μπορεί να χρησιμοποιηθεί στο πλαίσιο του προεγχειρητικού ελέγχου για την προκαταρκτική αξιολόγηση της κατάστασης της μήτρας και των παραμητρίων. Το διακολπικό υπερηχογράφημα και η Doppler υπερηχογραφική απεικόνιση μπορεί να δείξει ετερογενή πάχυνση του ενδομητρίου, με τα πολυποειδικά αδενомуώματα να απεικονίζονται ως συμπαγείς, καλά περιγεγραμμένες ενδομήτριες μάζες με κυστικές περιοχές και αλλαγές στη ροή του αίματος [11]. Είναι χαρακτηριστική στη δική μας ασθενή η υπερηχογραφική απεικόνιση εντός της ενδομήτριας κοιλότητας ευμεγέθους (μεγίστης διαμέτρου περίπου 40mm) καλά περιγεγραμμένου στρογγυλού συμπαγούς μορφώματος με αυξημένη αγγείωση (Εικόνες 1 και 2). Σε κάθε περίπτωση όμως, όπως και στη δική μας ασθενή κρίνεται απαραίτητη η διαφορική διάγνωση του άτυπου πολυποειδικού αδενомуώματος της μήτρας από τον καρκίνο του ενδομητρίου, την άτυπη υπερπλασία του ενδομητρίου, τους ενδομήτριους πολύποδες, την αδενомуώση και τους κακοήθεις μικτούς όγκους Mullerian [12].

Επιπλέον, η υστεροσκόπηση η οποία πρέπει να έχει ένδειξη κυρίως σε περιπτώσεις

υπογονιμότητας με ακανόνιστη αιμορραγία της μήτρας και παθολογικά υπερηχογραφικά ευρήματα μπορεί να βοηθήσει στη διαγνωστική προσέγγιση του άτυπου πολυποειδικού αδеноμύωματος της μήτρας. Παρά το γεγονός ότι η μέθοδος προσφέρει άμεση οπτική επαφή με τη βλάβη, η απουσία χαρακτηριστικής εμφάνισης του όγκου κατά την υστεροσκοπική εξέταση συχνά προκαλεί σύγχυση και λανθασμένη διάγνωση με τους ενδομήτριους πολύποδες ή τα υποβλεννογόνια ινομύωματα. Παρόλα αυτά όμως, η παρουσία ενδομήτριου όγκου με διάμετρο > 1 cm σε συνδυασμό με την παρουσία πολλών και μεγάλου εύρους αιμοφόρων αγγείων στην επιφάνειά του συνηγορεί υπέρ της διάγνωσης του άτυπου πολυποειδικού αδеноμύωματος της μήτρας. Τέλος, η τρισδιάστατη ηχοϋστερογραφία έχει αναφερθεί ότι είναι μια καλή μέθοδος προσυμπτωματικού ελέγχου για υστεροσκοπική επιβεβαίωση, ειδικά σε ασθενείς με ύποπτους πολύποδες, μύωμα, συσσωρευση βλέννας και ανωμαλίες Mullerian [13].

Παρόμοια, σήμερα εκτιμάται ότι ακόμη και με την ιστολογική εξέταση η διάκριση του άτυπου πολυποειδικού αδеноμύωματος από το διηθητικό αδenoκαρκίνωμα του ενδομητρίου παραμένει δύσκολη και μένει να διευκρινιστεί, καθώς το αδενικό συστατικό παρουσιάζει ενδομητριοειδή χαρακτηριστικά με ακανόνιστη αρχιτεκτονική και κυτταρολογική ατυπία. Ιστολογικά, το άτυπο πολυποειδικό αδеноμύωμα είναι μια διφασική ταχέως αναπτυσσόμενη βλάβη που αποτελείται από άτυπους ενδομήτριους αδένες με πλακώδη μοριακή διαφοροποίηση σε υπόβαθρο άφθονου μυοϊνώδους στρώματος [9]. Μικροσκοπικά, η χαρακτηριστική απουσία

κυτταροαρχιτεκτονικής ατυπίας του επιφανειακού επιθηλίου στο άτυπο πολυποειδικό αδеноμύωμα συμβάλλει σημαντικά στη διαφοροποίησή του από την άτυπη αδενική υπερπλασία και το καλά διαφοροποιημένο αδenoκαρκίνωμα του ενδομητρίου [4]. Στη δική μας ασθενή εμμηνοπαυσιακής ηλικίας η παρουσία ενδομητρικών αδένων ποικίλου μεγέθους με εστιακή πλακώδη μετάπλαση και στιβάδωση πυρήνων με ανισομεγέθεια ως επί ηπιας ατυπίας έθεσε δυσκολίες αναφορικά με τη διαφοροποίηση του όγκου από τον καρκίνο του ενδομητρίου. Επιπλέον, πρόσφατη μελέτη έδειξε ότι τα διακριτά χαρακτηριστικά του ινομυϊκού στρώματος μπορούν να βοηθήσουν στη διαφορική διάγνωση μεταξύ του άτυπου πολυποειδικού αδеноμύωματος της μήτρας και του καρκίνωματος του ενδομητρίου [14].

Συνεπεία της σχετιζόμενης με τη σπανιότητα του άτυπου πολυποειδικού αδеноμύωματος μη πραγματοποίησης προοπτικών κλινικών δοκιμών, μέχρι σήμερα δεν έχουν καθιερωθεί θεραπευτικά πρωτόκολλα και κατευθυντήριες οδηγίες για τη βέλτιστη αντιμετώπιση αυτών των ασθενών. Στις περιπτώσεις εκείνες που η νόσος αφορά σε γυναίκες αναπαραγωγικής ηλικίας που επιθυμούν μελλοντική τεκνοποίηση η ενδεικνυόμενη θεραπευτική επιλογή πρέπει να συνοδεύεται από τη διατήρηση της γονιμότητας. Η ορμονική θεραπεία με βάση την προγεστίνη, η υστεροσκοπική διατραχηλική εκτομή, η διαστολή του τραχήλου και απόξεση, ο συνδυασμός προγεστίνης με διαστολή του τραχήλου και απόξεση και ο συνδυασμός προγεστίνης με υστεροσκοπική διατραχηλική εκτομή αποτελούν βασικές συντηρητικές

θεραπείες για τις ασθενείς με άτυπο πολυποειδικό αδеноμώμα της μήτρας που δεν έχουν ολοκληρώσει την οικογένειά τους και επιθυμούν την επίτευξη μελλοντικής εγκυμοσύνης. Στα βασικά μειονεκτήματα των συντηρητικών θεραπευτικών προσεγγίσεων της νόσου συμπεριλαμβάνονται ο αυξημένος κίνδυνος υποτροπής της βλάβης και η αναγκαιότητα της διά βίου τακτικής παρακολούθησης της ασθενούς, με υπαρκτό τον κίνδυνο κακοήθους εξαλλαγής της νόσου [15,16]. Η υστεροσκοπική διατραχηλική εκτομή 4 σταδίων εκτιμάται σήμερα ότι αποτελεί τη συντηρητική θεραπευτική επιλογή πρώτης γραμμής. Η υστεροσκοπική διατραχηλική εκτομή φαίνεται να υπερέχει σημαντικά των άλλων συντηρητικών θεραπευτικών προσεγγίσεων αναφορικά με την αποτελεσματικότητα και την ασφάλεια [4,17].

Η υστερεκτομή αποτελεί την κύρια θεραπευτική επιλογή σε εμμηνοπαυσιακές ασθενείς και σε ασθενείς αναπαραγωγικής ηλικίας που δεν επιθυμούν διατήρηση της γονιμότητας [18]. Στη δική μας ασθενή, λαμβάνοντας υπόψη 1) το υψηλό ποσοστό υποτροπής της νόσου στην περίπτωση συντηρητικής αντιμετώπισης, 2) την σχετικά αυξημένη πιθανότητα συνύπαρξης άτυπης αδενικής υπερπλασίας και ενδομητριοειδούς καρκινώματος, 3) την ηλικία της ασθενούς και 4) την μη επιθυμία διατήρησης της γονιμότητας αποφασίστηκε η εκτέλεση κοιλιακής ολικής υστερεκτομής μετά των εξαρτημάτων, ως η καταλληλότερη και ασφαλέστερη θεραπευτική προσέγγιση, συνοδευόμενη από την τακτική παρακολούθηση της ασθενούς με κλινική και κυτταρολογική εξέταση του κολπικού

κολοβώματος. Η παρακολούθηση των ασθενών μετά από συντηρητική θεραπεία βασίζεται σε διακολπικό υπερηχογράφημα και ιστολογική εξέταση του ενδομητρίου κάθε 3 μήνες για τα πρώτα 2 χρόνια, κάθε 4 έως 6 μήνες για άλλα 3 χρόνια και στη συνέχεια μία φορά το χρόνο [17]. Το ποσοστό υποτροπής του άτυπου πολυποειδικού αδеноμώματος της μήτρας εκτιμάται ότι είναι υψηλό και κυμαίνεται από 28.9% έως 35.1% [12,17]. Πολυκεντρική μελέτη έδειξε ότι το ποσοστό κακοήθους μετασχηματισμού της βλάβης είναι πολύ υψηλότερο από αυτό των πολυπόδων του ενδομητρίου και εκτιμάται ότι μπορεί να φτάσει μέχρι και στο 0.8% των περιπτώσεων [19].

ΣΥΜΠΕΡΣΜΑΤΑ

Το άτυπο πολυποειδικό αδеноμώμα της μήτρας είναι εξαιρετικά σπάνιο στην εμμηνόπαυση. Στο σύνολο των περιπτώσεων η ακριβής προεγχειρητική διάγνωση αποτελεί πρόκληση στη Γυναικολογία σήμερα. Η προσεκτική ιστολογική διάγνωση και η διαφοροποίηση του άτυπου πολυποειδικού αδеноμώματος από τον καρκίνο του ενδομητρίου έχει μεγάλη αξία στην ορθή επιλογή των καταλληλότερων θεραπευτικών χειρισμών της νόσου, προκειμένου να διασφαλιστεί η καλύτερη υγεία αυτών των ασθενών. Η διατήρηση της μήτρας σε γυναίκες αναπαραγωγικής ηλικίας σε πολλές περιπτώσεις κρίνεται απαραίτητη, ενώ η υστερεκτομή φαίνεται να αποτελεί τη θεραπεία εκλογής σε ασθενείς που βρίσκονται στην εμμηνόπαυση.

ΒΙΒΛΙΟΓΡΑΦΙΑ

1. World Health Organization and Kurman R.J. WHO Classification of Tumours of Female Reproductive Organs: This Book Reflects the Views of a Working Group That Convened for a Consensus and Editorial Meeting at the International Agency for Research on Cancer. Agency for Research on Cancer; Lyon, France: 2014.
2. Mitranovici MI, Oală IE, Petre I, Craina ML, Floruț SN, Chiorean DM, Cocuz IG, Turdean SG, Cotoi OS, Pușcașiu L. Atypical Polypoid Adenomyoma of the Vagina: Follow Up and Subsequent Evolution: A Case Report and Update. *Diagnostics (Basel)*. 2022; 12(2): 368.
3. Protopapas A, Sotiropoulou M, Athanasiou S, Loutradis D. Endocervical Atypical Polypoid Adenomyoma. *J Minim Invasive Gynecol*. 2016; 23(1): 130-132.
4. Mazur MT. Atypical polypoid adenomyomas of the endometrium. *Am J Surg Pathol*. 1981; 5(5): 473-482.
5. Biasioli A, Londero AP, Orsaria M, Scrimin F, Mangino FP, Bertozzi S, Mariuzzi L, Cagnacci A. Atypical polypoid adenomyoma follow-up and management: Systematic review of case reports and series and meta-analysis. *Medicine (Baltimore)*. 2020; 99(26): e20491.
6. Javed L, Ashraf N, Sabqat M, Zareen A. Atypical Polypoid Adenomyoma (APAM). *J Coll Physicians Surg Pak*. 2021; 30(6): 719-721.
7. Fukunaga M, Endo Y, Ushigome S, Ishikawa E. Atypical polypoid adenomyomas of the uterus. *Histopathology*. 1995; 27(1): 35-42.
8. Nasu K, Miyazaki T, Takai N, Miyakawa I. Atypical polypoid adenomyoma in a patient with hyperprolactinemia. *Int J Gynecol Cancer*. 2001; 11(4): 326-328.
9. Němejcová K, Kenny SL, Laco J, Škapa P, Staněk L, Zikán M, Kleiblová P, McCluggage WG, Dunder P. Atypical Polypoid Adenomyoma of the Uterus: An Immunohistochemical and Molecular Study of 21 Cases. *Am J Surg Pathol*. 2015; 39(8): 1148-1155.
10. Maurizio G, Greco E, Di Spiezio Sardo A, Di Carlo C, Lavitola G, Tarsitano F, Nappi C. Successful pregnancy after four-step hysteroscopic technique for the treatment of atypical polypoid adenomyoma. *Fertil Steril*. 2008; 89(5): 1283-1284.
11. Huang C, Hong MK, Ding DC. Endometrial adenomyoma polyp caused postmenopausal bleeding mimicking uterine malignancy. *Gynecol Minim Invasive Ther*. 2017; 6(3): 129-131.
12. Mikos T, Tsolakidis D, Grimbizis GF. Clinical presentation and management of atypical polypoid adenomyomas: Systematic review of the literature. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol*. 2019; 236: 14-21.

13. Laganà AS, Ciancimino L, Mancuso A, Chiofalo B, Rizzo P, Triolo O. 3D sonohysterography vs hysteroscopy: a cross-sectional study for the evaluation of endouterine diseases. *Arch Gynecol Obstet*. 2014; 290(6):1173-8.
14. Lu B, Yu M, Shi H, Chen Q. Atypical polypoid adenomyoma of the uterus: A reappraisal of the clinicopathological and immunohistochemical features. *Pathol Res Pract*. 2019; 215(4): 766-771.
15. Grimbizis GF, Mikos T, Miliaras D, et al. Management of atypical polypoid adenomyomas. A case series. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol*. 2017; 215: 1-5.
16. Nomura H, Sugiyama Y, Tanigawa T, et al. Maintenance hormonal therapy after treatment with medroxyprogesterone acetate for patients with atypical polypoid adenomyoma. *J Clin Oncol*. 2018; 48(3): 255-258.
17. Raffone A, Travaglini A, Saccone G, Alviggi C, Mascolo M, De Placido G, Insabato L, Mollo A, Zullo F. Management of women with atypical polypoid adenomyoma of the uterus: A quantitative systematic review. *Acta Obstet Gynecol Scand*. 2019; 98(7): 842-855.
18. Ma B, Zhu Y, Liu Y. Management of atypical polypoid adenomyoma of the uterus: a single center's experience. *Medicine (Baltimore)*. 2018; 97(12): e0135.
19. Ferrazzi E, Zupi E, Leone FP, Savelli L, Omodei U, Moscarini M, Barbieri M, Cammareri G, Capobianco G, Cicinelli E, Coccia ME, Donarini G, Fiore S, Litta P, Sideri M, Solima E, Spazzini D, Testa AC, Vignali M. How often are endometrial polyps malignant in asymptomatic postmenopausal women? A multicenter study. *Am J Obstet Gynecol*. 2009; 200(3): 235.e1-6.

CASE REPORT

Surgical treatment of a rare case of atypical polypoid adenomyoma of the uterus in a perimenopausal patient: A case report

Efthymia Thanasa,¹ Anna Thanasa,¹ Ioannis Paraoulakis,² Evangelos Kamaretsos,² Vasiliki Grapsidi,² Evangelos-Ektoros Gerokostas,² Ioannis-Rafail Antoniou,² Gerasimos Kontogeorgis,² Evangelia Simopoulou,³ Maria Mousia,³ Ioannis Thanasas²

¹Department of Health Sciences, Medical School, Aristotle University of Thessaloniki, ²Department of Obstetrics and Gynecology of General Hospital in Trikala, ³ Department of Pathology of General Hospital in Trikala, Trikala, Greece

ABSTRACT

Atypical polypoid adenomyoma is a rare benign tumor of the uterus that usually affects women of reproductive age and has an increased risk of transformation into endometrial carcinoma. The pathogenetic mechanism has not been completely clarified. Due to the rarity of the tumor, current experience regarding the diagnostic and therapeutic approach is limited. For menopausal patients, hysterectomy appears to be the main treatment option. Our case concerns an asymptomatic menopausal patient with a normal delivery in her obstetric history and no hereditary history of gynecological cancer who came to the outpatient clinic for a gynecological examination. Transvaginal ultrasound revealed the presence of a large round solid mass with increased vascularity within the endometrial cavity. A diagnostic curettage of the endometrium was performed. Histological examination of the endometrial material showed an atypical polypoid adenomyoma and it was decided to perform a total abdominal hysterectomy after appendages. Histological examination of the surgical specimen of the uterus revealed no residual disease, no coexisting foci of atypical endometrial hyperplasia or endometrial carcinoma. The postoperative course was uneventful. The patient remains to this day under regular follow-up. The present case report highlights the significant difficulties involved in the preoperative diagnosis of atypical polypoid adenomyoma of the uterus and the difficult differential diagnosis from atypical endometrial hyperplasia and endometrial cancer, particularly in menopausal patients. At the same time, it is pointed out that despite its rarity, the early diagnosis of atypical polypoid adenomyoma, especially in young women, must be the main concern of the modern gynecologist, in order to design the optimal treatment aimed at preserving fertility while avoiding the risk of recurrence of damage or malignant transformation into endometrial carcinoma.

Keywords: atypical polypoid adenomyoma, ultrasound examination, diagnostic endometrial curettage, management, case report

E. Thanasa, A. Thanasa, I. Paraoulakis, E. Kamaretsos, V. Grapsidi, E. Gerokostas, I. Antoniou, G. Kontogeorgis, E. Simopoulou, M. Mousia, I. Thanasas. Surgical treatment of a rare case of atypical polypoid adenomyoma of the uterus in a perimenopausal patient: A case report. *Scientific Chronicles* 2023; 28(2): 276-285

Συγγραφέας αλληλογραφίας: Ιωάννης Κ. Θανασάς, E-mail: thanasasg@hotmail.com