

# Współwystępowanie mięśniaka gładkokomórkowego jajnika z obustronnym gruczolakowłóknikiem torbielowatym surowicznym – opis przypadku

Dobrośława L. Sikora-Szcześniak<sup>1</sup>, Grzegorz Szcześniak<sup>2</sup>, Waław Sikora<sup>1</sup>

<sup>1</sup> Oddział Ginekologiczno-Położniczy, Radomski Szpital Specjalistyczny w Radomiu

<sup>2</sup> Oddział Chirurgii Ogólnej, Radomski Szpital Specjalistyczny w Radomiu

Sikora-Szcześniak DL, Szcześniak G, Sikora W. Współwystępowanie mięśniaka gładkokomórkowego jajnika z obustronnym gruczolakowłóknikiem torbielowatym surowicznym – opis przypadku. Med Og Nauk Zdr. 2013; 19(3): 238–241.

## Streszczenie

Mięśniak gładkokomórkowy jajnika (leiomyoma ovarii) należy do rzadkich łagodnych nowotworów tego narządu. Częstość występowania – wśród wszystkich nowotworów łagodnych jajnika – wynosi od 0,5 do 1,0%. Współistnienie nowotworów jajnika o różnych typach histologicznych (leiomyoma i adenofibroma cysticum serosum) jest również niezwykle rzadkie. Celem pracy jest prezentacja przypadku mięśniaka gładkokomórkowego jajnika prawego współistniejącego synchronicznie z obustronnym gruczolakowłóknikiem torbielowatym surowicznym.

Materiał do analizy stanowiły protokoły z zabiegów operacyjnych, wykonanych w Oddziale Ginekologiczno-Położniczym SP ZOZ w Lipsku w latach 1985–2001 oraz wyniki badań histopatologicznych (doraźnych i ostatecznych). Pacjentka lat 60 zakwalifikowana została do operacji (histerektomii z przydatkami) z powodu stwierdzenia licznych mięśniaków trzonu macicy i obustronnych torbieli jajników. Wykonano śródpowięziowe wycięcie macicy z przydatkami sp. Aldridge'a. Ostateczne rozpoznanie postawione zostało w Zakładzie Patomorfologii R. Sz. S. w Radomiu na podstawie badania mikroskopowego materiału pooperacyjnego. W 17-letnim materiale klinicznym Oddziału stwierdzono tylko jeden przypadek mięśniaka gładkokomórkowego jajnika, wśród pacjentek operowanych powodu schorzeń narządów płciowych. Synchroniczne współistnienie mięśniaka gładkokomórkowego jajnika z gruczolakowłóknikiem torbielowatym surowicznym obu jajników jest przypadkiem kazuistycznym.

## Słowa kluczowe

mięśniak gładkokomórkowy jajnika, rzadkie nowotwory łagodne jajnika, leczenie operacyjne

## WSTĘP

Mięśniak jajnika stanowi od 0,5 do 1% wszystkich łagodnych nowotworów jajnika [1, 2].

Leiomyoma jest nowotworem mezenchymalnym wywodzącym się z tkanki mięśniowej gładkiej. Komórki mięśniaka jajnika pochodzących mogą między innymi z komórek mięśni gładkich naczyń krwionośnych, możliwe jest również ich pochodzenie z komórek mięśni gładkich więzadeł jajnika lub wielopotencjalnych komórek zrębu jajnika, a także z nieróżnicowanych komórek zarodkowych [3, 4, 5].

Natomiast adenofibroma cysticum serosum należy do nowotworów surowicznych wywodzących się z nabłonka pokrywającego i podścieliska jajnika.

Mięśniaki jajnika – z powodu bezobjawowego przebiegu – wykrywane są podczas operacji, a ostateczne rozpoznanie stawiane jest podczas badania histopatologicznego [1, 5, 6, 7, 8]. W przypadkach objawowych guz może być stwierdzony badaniem fizykalnym, występują bóle brzucha, wymioty, może wystąpić wodonercze, objawy zespołu Meigsa, podwyższona wartość CA-125 [9, 10].

W większości przypadków mięśniak jajnika występuje zwykle u kobiet w okresie okołomenopauzalnym, zazwyczaj

jednostronnie, i nie jest dużych rozmiarów (zwykle mniejszy niż 3 cm) [1, 8]. Z mięśniakiem jajnika odnotowano również występowanie – po tej samej i/lub po stronie przeciwnej – innych zmian chorobowych jajników [11, 12, 13].

U pacjentek z mięśniakiem jajnika stwierdza się często zaburzenia miesiączkowania i płodności, a w związku z tym zachodzi konieczność oszczędzającego leczenia operacyjnego w tych przypadkach [4, 14].

Dwustronne występowanie tych nowotworów (często dużych rozmiarów) odnotowano u dziewczynek i młodych kobiet w wieku rozrodczym [2, 7, 8].

Zarówno u dziewcząt, jak i dorosłych kobiet wśród przypadków mięśniaka jajnika odnotowano występowanie zespołu Meigsa (wodobrzusze i wysięk do opłucnej) [9, 15].

Obserwowano również inne powikłania towarzyszące mięśniakom jajnika, takie jak: obustronne wodonercze z objawami ostrego brzucha, wodobrzusze z podwyższonym poziomem CA 125, wodobrzusze z towarzyszącym obrzękiem sromu (określone jako nietypowy zespół Meigsa) [10, 16, 17]. W jednym przypadku odnotowano współistnienie obustronnego mięśniaka jajnika z rakiem jajnika [5].

Różnicowanie histologiczne guzów mięśni gładkich w jajnikach jest podobne jak w macicy [1, 18].

Adres do korespondencji: Waław Sikora, Oddział Ginekologiczno-Położniczy, Radomski Szpital Specjalistyczny, ul. Tochtermiana 1, 26-600 Radom  
e-mail: sikorawa@wp.pl

Nadesłano: 11 grudnia 2012; zaakceptowano do druku: 22 kwietnia 2013

## CEL PRACY

Celem pracy jest prezentacja przypadku mięśniaka jajnika prawego współwystępującego synchronicznie z gruczolakowłóknakiem torbielowatym surowiczym obu jajników.

## MATERIAŁ I METODY

W 17-letnim materiale klinicznym – lata 1985–2001 – Oddziału Ginekologiczno-Położniczego SP ZOZ w Lipsku poddano analizie zabiegi operacyjne związane z usunięciem przydatków. Materiał do analizy stanowiły protokoły z zabiegów operacyjnych, wyniki badań histopatologicznych (doraźnych i ostatecznych), karty informacyjne leczenia szpitalnego, wyniki badań laboratoryjnych zawarte w historiach chorób. Przypadek mięśniaka jajnika był jedynym stwierdzonym wśród operowanych, z powodu schorzeń narządów płciowych, w tym okresie pacjentek. Ostateczne rozpoznanie postawione zostało w Zakładzie Patomorfologii R. Sz. S. w Radomiu na podstawie badania mikroskopowego materiału pooperacyjnego.

## OPIS PRZYPADKU

Pacjentka W. K., l. 60 (historia choroby nr 587/2001), została hospitalizowana w Oddziale Chirurgii Ogólnej Szpitala Rejonowego w Lipsku w dniu 20.01.2001 r. W badaniach laboratoryjnych patologicznych wyników nie odnotowano. Po konsultacji ginekologicznej została przeniesiona do Oddziału Ginekologiczno-Położniczego z rozpoznaniem wstępnym: *Tumores ovariorum*.

**Badanie podmiotowe.** Pierwsza miesiączka w 14. roku życia. Miesiączki co 28 dni, trwające 3 dni, mierne, z bólami w początku miesiączki. Ostatnia miesiączka w 50. roku życia. Rodziła 2-krotnie, drogami i siłami natury, nie roniła.

Przy przyjęciu stan ogólny dobry. RR 135/85, mm Hg, tętno 76/min, temperatura 36,7°C. Masa ciała 50,0 kg, wsk. BMI 19,8.

W badaniu ginekologicznym: we wziernikach – część pochwoła walcowata, sformowana, ujście zewnętrzne szparowate zamknięte, tarcza szyjki macicy – bez zmian chorobowych, treść śluzowo-surowicza, fizjologiczna. Badanie zestawione: trzon macicy w całości powiększony w przodzie, o wymiarach 100 × 80 mm i nierównej powierzchni. W rzucie prawych przydatków badalny lity guz o średnicy około 80 mm, nieruchomy. Lewostronnie badalny guz również o litej konsystencji i średnicy około 40 mm.

W badaniu USG stwierdzono: trzon macicy powiększony – 100 × 80 mm – z obecnością licznych zmian hyperechogenicznych. Endometrium o grubości 5 mm. W przydatkach prawych zmiana o mieszanej echostrukturze o średnicy 45 mm oraz druga zmiana hyperechogenna o obwodowym skąpym unaczynieniu, średnicy 35 mm. W przydatkach lewych zmiana o mieszanej echostrukturze, o średnicy 40 mm.

Z powodu stwierdzenia mięśniaków trzonu macicy i obustronnych guzów jajników pacjentka została zakwalifikowana do operacji (histerektomii z przydatkami).

Zabieg operacyjny (nr oper. 11/2001) – histerektomię z przydatkami obustronnie sp. Aldridge'a w modyfikacji Woytonia – wykonano w dniu 25.01.2001 r. Śródoperacyjnie

stwierdzono w jamie otrzewnowej obecność płynu koloru słomkowego w objętości około 250 ml. W przydatkach prawych dwa guzy lite o średnicy 50 mm każdy, w przydatkach lewych również lity guz o średnicy 40 mm. Ściany guzów gładkie, lśniące, niezmięnione. Macica zniekształcona przez obecność licznych mięśniaków śródściennych i podsurowiczkowego o średnicy 40 mm.

Ostateczne rozpoznanie postawione zostało w Zakładzie Patomorfologii R. Sz. S. w Radomiu na podstawie badania mikroskopowego materiału pooperacyjnego.

**Rozpoznanie histopatologiczne.** Nr badania – 598817–20: Przydatki prawe – *Adenofibroma cysticum serosum ovarii. Leiomyoma partim hyalinisans. Salpingitis chronica*. Przydatki lewe – *Adenofibroma cysticum serosum ovarii. Oviductus*. Nr badania – 599001–03: Trzon macicy – *Leiomyomata intramuralia et leiomyoma hyalinisans corporis uteri*. Szyjka macicy – *Endocervicitis chronica*.

## DYSKUSJA

W większości przypadków mięśniaki jajnika występują jednostronnie, okres ich występowania określaną jest jako przed i po menopauzie [7, 8]. Jednak – tak jak w opisywanym przypadku – diagnozowane i operowane z tym schorzeniem były również pacjentki po 60 i 70 roku życia [15, 19, 20].

Z mięśniakami jajnika często współwystępują mięśniaki macicy [1, 8]. Doss i wsp.[1] stwierdzili to aż w 78%. Odnotowano to również w prezentowanym przypadku. Nie ma to miejsca w przypadku dzieci i młodych kobiet [7].

Stwierdzony przypadek *leiomyoma ovarii* może być mięśniakiem przerzutowym – *benign metastazing leiomyoma* (wg klasyfikacji WHO z 2003 r. – 8898/1).

W przypadku macicy mięśniakowatej może istnieć dodatkowe zaopatrzenie mięśniaka w krew z naczyń jajnikowych, a tym samym możliwość wystąpienia przerzutu. W wykrywaniu takich zmian naczyniowych przydatne jest wykorzystanie różnych technik obrazowych MR. Badania te, z uwagi na znaczne koszty, rzadko są stosowane w rutynowej ocenie mięśniaków macicy [21].

Występowanie mięśniaków w narządach miednicy mniejszej, jamy brzusznej lub otrzewnej i współistniejących z mięśniakami trzonu macicy tłumaczone jest także hipotezą o *mięśniakach pasożytniczych (parasitic leiomyoma)*. Sytuacja taka może mieć miejsce w przypadku oddzielenia się mięśniaka posurowiczkowego macicy [22].

Z mięśniakiem jajnika wiąże się występowanie – po tej samej lub przeciwnej stronie, a wyjątkowo rzadko obustronnie – innych schorzeń jajnika. Wśród współistniejących z mięśniakami jajników schorzeń jajników w piśmiennictwie odnotowano obecność: *cystis endometriotica* (w tym samym jajniku) [11], *cystadenofibroma serosum* (w tym samym jajniku) – przedstawiony jako pierwszy opis współistnienia tych nowotworów [13], *cystadenoma mucinosum* (w tym samym jajniku) [6].

Z różnych podtypów histologicznych mięśniaka gładkokomórkowego w jajniku odnotowano występowanie mięśniaka komórkowego, aktywnego mitotycznie, atypowego, śluzowego, natomiast z nowotworów złośliwych – mięśniakomięsaka gładkokomórkowego (*leiomyosarcoma*) [1, 18].

W przypadku nowotworów wywodzących się ze sznurów płciowych i zębłu jajnika oraz nowotworów złośliwych jaj-

nika, ich jednoczesne występowanie obserwuje się z rakiem endometrium. Zazwyczaj przypadki te wykrywane są we wczesnych stadiach zaawansowania i dlatego osiągnięte są dobre wyniki leczenia onkologicznego [23, 24].

W dostępnym piśmiennictwie nie natrafiono na opis synchronicznego współwystępowania mięśniaka jajnika z gruczolakowłóknikiem torbielowatym surowicznym w obu jajnikach.

W badaniach laboratoryjnych pacjentek z mięśniakami jajnika odnotowano przypadki z wysokim poziomem CA-125, a także przypadek z wysokim poziomem inhibiny B oraz hormonu luteinizującego (LH) [14, 15, 16].

U wszystkich pacjentek z zespołem Meigsa lub nietypowym zespołem Meigsa, wodobrzusze i wysięk do opłucnej ustępowały po leczeniu operacyjnym [9, 15, 16, 17].

W przypadku naszej pacjentki w czasie zabiegu operacyjnego również stwierdzono w jamie otrzewnowej obecność płynu – koloru słomkowego – w objętości około 250 ml. Obecność wolnego płynu w jamie otrzewnowej stwierdzali także inni z autorów [11].

Gut i wsp. odnotowali, że do 1997 roku opisano w literaturze światowej niewiele ponad 50 przypadków mięśniaków jajnika i brak opisu tego schorzenia w literaturze polskiej. Mięśniak jajnika, z uwagi na rzadkość występowania, rozpoznawany jest zazwyczaj dopiero w badaniach śród- i/lub pooperacyjnych, bądź podczas autopsji [20]. Koo i wsp. [4] podają, że wśród dziewięciu pacjentek, u których rozpoznano mięśniaki jajnika po zabiegu operacyjnym, wszystkie przypadki były źle zdiagnozowane przed operacją (jako uszypułowany mięśniak jajnika, włókniak jajnika, endometriozja jajnika).

Inni z autorów podali, że w badaniach przedoperacyjnych, nawet z wykorzystaniem tomografii komputerowej (CT) i rezonansu magnetycznego (MRI), rozpoznawano torbielakogruczolaką śluzowego jajnika, włóknia i/lub otoczkowiaka [6, 17, 16, 25].

W diagnostyce różnicowej uwzględnia się guzy typu fibroma/thecoma, a także leiomyosarcoma [1, 18]. W ustalaniu rozpoznania histopatologicznego i różnicowaniu przydatne i wykorzystywane są badania immunohistochemiczne – m. in. desmina, alfa-inhibina i calretinina [26].

## WNIOSKI

1. W 17-letnim materiale klinicznym Oddziału Ginekologiczno-Położniczego SP ZOZ w Lipsku przypadek mięśniaka gładkokomórkowego jajnika był jedynym stwierdzonym wśród operowanych pacjentek z powodu schorzeń narządów płciowych.
2. Synchroniczne współwystępowanie mięśniaka gładkokomórkowego jajnika z gruczolakowłóknikiem torbielowatym surowicznym obu jajników jest przypadkiem kazuistycznym.

## PIŚMIENICTWO

1. Doss BJ, Wanek SM, Jacques SM, Qureshi F, Ramirez NC, Lawrence WD. Ovarian leiomyomas: clinicopathologic features in fifteen cases. *Int J Gynecol Pathol.* 1999; 18: 63–68.

2. van Esch EM, van Wijngaarden SE, Schaafsma HE, Smeets MJ, Rhemrev JP. The diagnostic and therapeutic approach of a primary bilateral leiomyoma of the ovaries: a case report and a literature review. *Arch Gynecol Obstet.* 2011; 283: 1369–1371.
3. Güney M, Özsoy M, Oral B, Mungal T, Kapucvuoğlu N. Unilateral primary ovarian leiomyoma in adolescent: a case report. *Arch Gynecol Obstet.* 2007; 275(6): 507–510.
4. Koo YJ, Cho YJ, Kim JY, Lee JE, Kim ML, Kim JM. et al. Ovarian leiomyoma as a potential cause of compromised fertility. *Fertil Steril.* 2011; 95(3): 1120.e11–14.
5. Emovon UE, Cahill DJ, Joels LA, Stegmann MH. Bilateral primary ovarian leiomyoma: a rare cause of ovarian tumour in a young woman. *J Obstet Gynaecol.* 1999; 19(6): 676.
6. Kim JC, Nam SL, Suh KS. Leiomyoma of the ovary mimicking mucinous cystadenoma. *Clin Imaging.* 2000; 24(1): 34–37.
7. Wei C, Lilic N, Shorter N, Garrow E. Primary ovarian leiomyoma: a rare cause of ovarian tumor in adolescence. *J Pediatr Adolesc Gynecol.* 2008; 21: 33–36.
8. Lim SC, Jeon HJ. Bilateral primary ovarian leiomyoma in a young woman: case report and literature review. *Gynecol Oncol.* 2004; 95: 733–735.
9. Nicoll JJ, Cox PJ. Leiomyoma of the ovary with ascites and hydrothorax. *Am J Obstet Gynecol.* 1989; 161: 177–178.
10. Khaffaf N, Khaffaf H, Wuketich S. Giant ovarian leiomyoma as a rare cause of acute abdomen and hydronephrosis. *Obstet Gynecol.* 1996; 87: 872–873.
11. Tomas D, Leniček T, Tučkar N, Puljiz Z, Ledinsky M, Krušlin B. Primary ovarian leiomyoma associated with endometriotic cyst presenting with symptoms of acute appendicitis: a case report. *Diagn Pathol.* 2009; 4: 25.
12. Hameed A, Ying AJ, Keyhani-Rofagha S, Xie DL, Copeland LJ. Ovarian mucinous cystadenoma associated with mural leiomyomatous nodule and massive ovarian edema. *Gynecol Oncol.* 1997; 67(2): 226–229.
13. Eren F, Akpulat S, Gokaslan H. Primary leiomyoma of the ovary co-existing with serous cystadenofibroma: Case report. *APMIS.* 2005; 113(2): 145–147.
14. Abdel-Gadir A, Francis ND, Oyawoye OO, Chander BP. Secondary amenorrhoea with high inhibin B level caused by parasitic ovarian leiomyoma. *Gynecol Endocrinol.* 2010; 26: 93–95.
15. Kurai M, Shiozawa T, Noguchi H, Konishi I. Leiomyoma of the ovary presenting with Meigs' syndrome. *J Obstet Gynaecol Res.* 2005; 31(3): 257–262.
16. Erdemoğlu E, Kamaci M, Bayram I, Güler A, Sahin HG. Primary giant leiomyoma of the ovary-case report. *Eur J Gynaecol Oncol.* 2006; 27(6): 634–635.
17. Choi SY, Park JS, Lee JW, Kim BG, Bae DS. A rare case of primary ovarian leiomyoma with atypical Meigs' syndrome. *Korean J Obstet Gynecol.* 2012, 55(4): 285–289.
18. Lerwill MF, Sung R, Oliva E, Prat J, Young RH. Smooth muscle tumors of the ovary: a clinicopathologic study of 54 cases emphasizing prognostic criteria, histologic variants, and differential diagnosis. *Am J Surg Pathol.* 2004; 28(11): 1436–1451.
19. Murakami M, Uehara H, Nishimura M, Iwasa T, Ikawa H. A huge ovarian smooth muscle tumor: a case report. *J Med Invest.* 2010; 57(1–2): 158–162.
20. Gut R, Woźniak F, Listos T. Rzadki przypadek mięśniaka gładkokomórkowego jajnika. *Ginekol Pol.* 1997; 68(6): 308.
21. Victory R, Romano W, Bennett J, Diamond MP. Mięśniaki macicy. W: Bieber EJ, Sanfilippo JS, Horowitz IR, (red.). *Ginekologia kliniczna.* Wyd. 1. Tom 1. Wrocław. Elsevier Urban & Partner; 2009: 187–213.
22. Kempson M, Hendrickson M. smooth muscle, endometrial stromal, and mixed Mullerian tumors of the uterus. *Mod Pathol.* 2000; 13: 328–342.
23. Rzepka-Górska I, Kupryjańczyk J. Nowotwory gonadalne jajnika (nowotwory wywodzące się ze sznurów płciowych i zrębu). W: Markowska J, (red.). *Ginekologia onkologiczna, t. 2.* Wrocław: Wydawnictwo Medyczne Urban&Partner; 2006: 959–966.
24. Signorelli M, Fruscio R, Lissoni AA, Pirovano C, Perego P, Mangioni C. Synchronous early-stage endometrial and ovarian cancer. *Inter J Gynecol Obstet.* 2008; 102(1): 34–38.
25. Ozcimen EE, Oktem M, Zeyneloğlu HB, Ozdemir BH, Kuscü E. Primary leiomyoma of the ovary in a young women: literature review and report of a case. *Eur J Gynaecol Oncol.* 2006; 27(3): 310–312.
26. Deavers MT, Malpica A, Liu J, Broaddus R, Silva EG. Ovarian sex cord-stromal tumors: an immunohistochemical study including a comparison of calretinin and inhibin. *Mod Pathol.* 2003; 16: 584–590.

## Coexistence of ovarian leiomyoma with bilateral ovarian adenofibroma cysticum serosum – a case report

### ■ Abstract

Ovarian leiomyoma is a rare benign cancer affecting the ovary with an incidence of 0.5–1.0% of all benign ovarian cancers. Concomitant occurrence of ovarian cancers of various histology, e.g. leiomyoma and adenofibroma cysticum serosum, is extremely rare.

The purpose was to present the case of leiomyoma of the right ovary concomitant with bilateral ovarian adenofibroma cysticum serosum. The material analysed were surgical reports carried out in the Gynaecological-Obstetric Ward, SP ZOZ, Lipsko in 1985–2001, and histopathological results (tentative and definitive). A 60-year-old female was qualified for surgery (hysterectomy with adnexia) for numerous uterine myomas and bilateral ovarian cysts. Intrafascial hysterectomy with adnexia was performed by the Aldridge technique. Final diagnosis was made in the Department of Pathomorphology at the Regional Hospital in Radom following microscopic assessment of the postoperative material. Only one case of ovarian leiomyoma was noted among the patients operated on for various pathologies of the sex organs during 17 years of collecting clinical material in the ward. Concomitant occurrence of ovarian leiomyoma and bilateral ovarian adenofibroma cysticum serosum is a casual case.

### ■ Key words

ovarian leiomyoma, rare benign ovarian cancers, surgical treatment