

INTRALİGAMENTER ADENOMYOMA

INTRALIGAMENTARY ADENOMYOMA

Mine İslimye Taşkın¹ Ertan Adalı¹ Banu Güleç Başer¹ Engin Uzgören²

¹Balikesir Üniversitesi Tıp Fakültesi, Kadın Hastalıkları Ve Doğum Ana Bilim Dalı, Balikesir
²Uzgören Patoloji Laboratuvarı

Yazışma Adresi:

Mine İslimye Taşkın
Balikesir Üniversitesi Tıp Fakültesi Sağlık Uygulama Ve Araştırma Hastanesi Çağış Kampüsü 10020 Balikesir – Türkiye

E posta: minetaskin1302@yahoo.com.tr

Kabul Tarihi: 24 Mart 2015

Balikesir Sağlık Bilimleri Dergisi
ISSN: 2146-9601
e-ISSN: 2147-2238

bsbd@balikesir.edu.tr
www.bau-sbdergisi.com

doi: [10.5505/bsbd.2015.33154](https://doi.org/10.5505/bsbd.2015.33154)

ÖZET

Adenomyozis, endometrial gland ve stroma yapısının myometriyumda bulunması halidir. Lokalize formuna adenomyom denilir ve adenomyomlar leiomyomu taklit eder. Ekstrauterin adenomyom literatürde vaka sunumları olarak yer alan ve oldukça nadir görülen bir antitedir. Patolojilerinde endometrial mukoza ile döşeli santral bir kavite ve çevresinde myometrium dokusundan kalın bir duvar yapısı ile uterus benzeri kitle görünümü vardır. Ekstrauterin adenomyomlar, over, broad ligament, uterosakral ligamant ya da ekstrapelvik lokalizasyonlu olabilirler. Etyopatogenezinde müllerian kanal kapanma defekti ve subçöломik mezanşimal transformasyon sorumlu tutulmaktadır. Bu yazıda, 37 yaşında primer infertil hastada sol adneksiyal kitle nedeniyle yapılan laparoskopisi sırasında ligamentum latum yaprakları arasında tespit edilen ve histopatolojik olarak ekstrauterin adenomyom tanısı alan olgu tartışılmıştır. Ayırıcı tanıda endometrioma, leiomyomatozis peritonealis, leiomyomlar, maliniteler yer almalıdır. Nadir görülse de adneksiyal kitlelerin ayırıcı tanısında ekstrauterin adenomyomlar akla gelmelidir.

Anahtar Kelimeler: Adenomyozis, broad ligament, mezanşimal transformasyon.

SUMMARY

Adenomyosis is the presence of endometrial glands and stroma within the endometrium. Its localised form is called adenomyoma and adenomyomas mimic leiomyomas. An extrauterine adenomyoma is an extremely rare entity and take a place in the literature as case reports. Uterus like masses with thick muscle wall and endometrium-lined central cavity are seen in their pathology. Extrauterin adenomyomas can be located in ovary, broad ligament, uterosacral ligament or extrapelvic localisation. Müllerian duct fusion defect and subcoelomic mesenchyme transformation are two possible theory for etiopathogenesis of extrauterine adenomyoma. Herein, we discussed a patient 37 years old with primary infertility which was operated for left adnexial mass and detected intraligamentary mass during laparoscopy. The diagnosis was confirmed as extrauterine adenomyoma with histopathological examination. Differential diagnosis should be done with endometrioma, leiomyomatosis peritonealis, leiomyomas and malignancies. Although it is an extremely rare entity, extrauterine adenomyomas should be included in differential diagnosis of adnexal masses.

Key words: Adenomyosis, broad ligament, mesenchyme transformation.

GİRİŞ

Adenomyozis, endometriozis interna olarak da bilinir. Endometrial gland ve stromanın myometriyumda olması halidir¹. Adenomyom, endometriyal glandlar, endometriyal stroma ve düz kas içeren benign bir tümördür. Adenomyozisten çevresinde normal doku ile oluşturduğu keskin sınırlar ve daha çok intrensek endometriyal gland ve stroma içermesiyle ayrılır². Bu tümörler tipik olarak uterusda görülürler. Çok nadir olarak adenomyomlar uterusun dışında yerleşirler ve bazıları ince duvarları ve endometriyumla çevrelenmiş santral kaviteleri ile uterus benzeri kitle formunda gelişebilirler³. Ekstrauterin adenomyomlar genellikle over ve broad ligament yerleşimlidirler. Mülleriyan kanal kapanma

defekti ve subçöломik mezanşimal transformasyon, ekstrauterin adenomyom gelişiminde muhtemel iki patojenik mekanizmadır^{4,5}. Bu çalışmadaki amacımız, nadir görülen ekstra uterus adenomyom olgusuna dikkat çekmek, ayırıcı tanıları ve etyolojisini irdelemektir.

OLGU

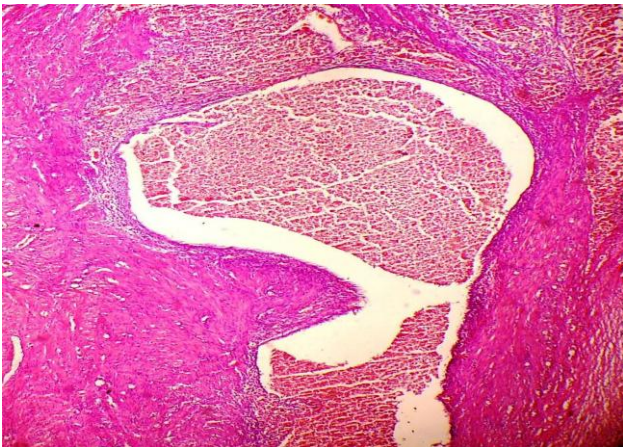
37 yaş GOP0 kadın hasta gebelik istemi ve uzun süren vajinal kanama şikayetleri ile kliniğimize başvurdu, açıklanamayan infertilite nedeniyle iki kez IUI bir kez IVF yapılan hastanın beş yıl önce yapılan IVF siklusunda gebelik elde edilmiş ancak sonrasında missed abortus gelişmesi nedeniyle terapötik küretaj yapılmıştı. Düzenli adet siklusları olan ancak menstrüasyon periyodu 10-15 gün süren hastanın adet öncesi 1 hafta kadar süren

lekelenme yine adet sonrasında 2-3 gün süren lekelenme şeklinde kanamaları mevcuttu. Hastanın muayenesinde vulva, vajen, serviks normal görünümde idi. Bimanuel pelvik muayenede uterus normal boyutta, sağ adneksiyal alanda 4 cm'lik kitle palpe edildi. Yapılan transvajinal ultrasonografisinde sağ adneksiyal alanda 39*31mm boyutunda kalın duvarlı, komplike kistik kitle tespit edildi ve hastaya laparoskopik kistektomi planlandı. CA-125 değeri normaldi. Laparoskopi sırasında sağda ligamentum latum yaprakları arasında yaklaşık 4*3 cm'lik düzgün sınırlı kesit yüzeyi leiomyoma benzer şekilde beyaz-gri renkli ve sert kitle lezyonu izlendi (Resim 1).



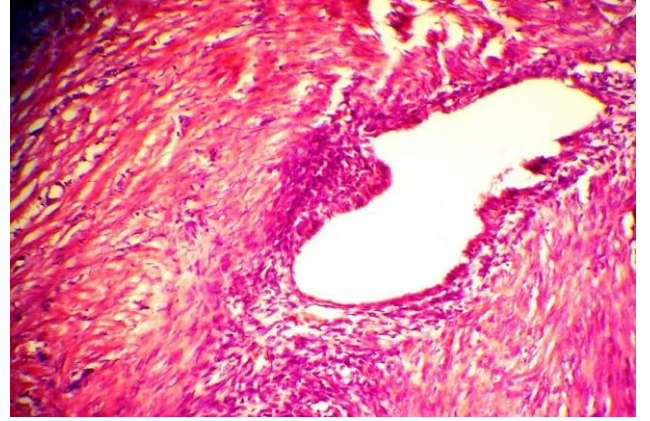
Resim 1: Kitlenin laparoskopik görüntüsü

Bilateral tubalar, sağ ve sol over, uterus normal olarak izlendi ve bilateral tubalardan metilen mavisi geçişi izlendi. Kitle laparoskopik olarak çıkarılarak histopatolojik inceleme için patoloji laboratuvarına gönderildi. Kitlenin makroskobik incelemesinde kalın kas tabakası içeren bir duvar ile çukolata mayi içeren santral kaviteden oluştuğu gözlemlendi. Mikroskobik bulgularda fusiform şekilli hücrelerin oluşturduğu paratipik düz kas hücrelerinden meydana gelmiş, çaprazlaşan demetler ve girdap yapıları halinde tümöral yapı izlendi (Resim 2A).

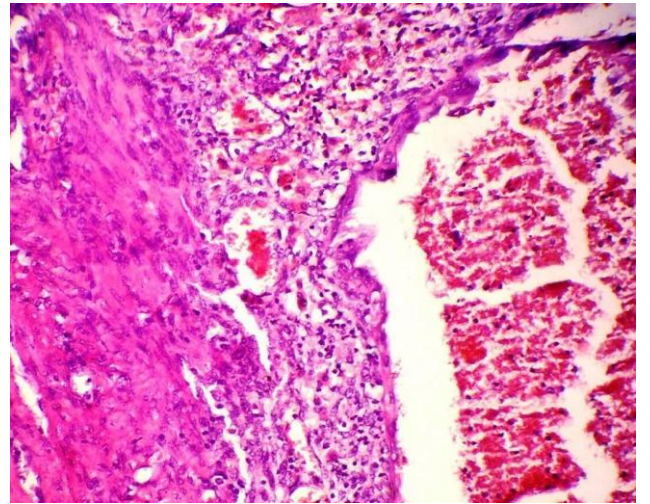


Resim 2A: Çaprazlaşan düz kas demetleri arasında mikrokistik endometrial bez yapıları H&E, 12x10.

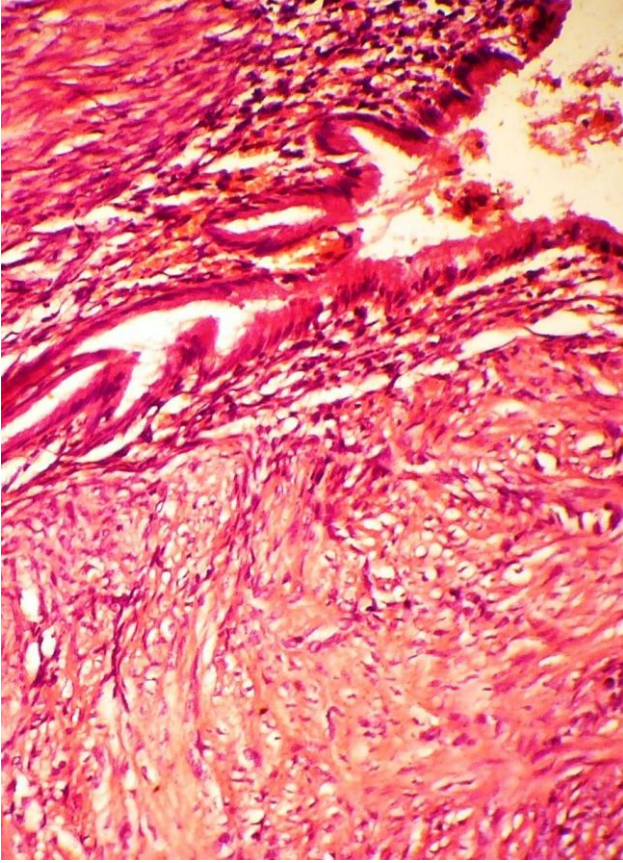
Ortada irili ufaklı adacıklar halinde hemosiderinle yüklü histiyosit kümeleri, tübüler yapıda, birkaç sıralı kübik silindirik özellikte epitelle döşeli endometrial bez yapıları ve çevrede hemosiderinle yüklü histiyosit kümeleri ve yer yer sellüler yapıda stroma görüldü (Resim 2B, 3A, 3B).



Resim 2B: Düz kas demetleri arasında mikrokistik endometrial bez yapıları ve hemosiderinle yüklü histiyosit, H&E, 12x10.



Resim 3A: Düz kas demetleri arasında tübüler yapıda endometrial bez yapısı ve bir kenarda sellüler stroma H&E, 12x20.



Resim 3B: Kistik yapıda endometrial bez yapısını döşeyen düzenli epitel örtüsü H&E, 12x20.

Hyalinizasyon alanları izlenmekle birlikte; mitoz artışı, pleomorfizm ve nekroz saptanmadı.

TARTIŞMA

Adenomyomlar, endometrial gland ve stromanın, gerçek bir kaviteden yoksun olarak düz kaslarla rastgele olarak yaptığı anastomozlarla karakterizedir. Bunlar genel olarak benign intrauterin tümörlerdir ve çok nadir olarak da ekstra uterin görülürler. Olgu raporları semptomolojik, dermografik ve lokasyon olarak çeşitlilik göstermektedir³⁻⁸. Ekstrauterin yerleşim bölgelerinden biri de broad ligament olup olgu sunumumuzda insidental olarak saptanan intraligamenter adenomyom tartışılmıştır.

Carinelli ve ark.⁷ 19 tane ekstra uterin adenomyom olgusunu rapor etmişlerdir. Bu uterus benzeri kitleler, over, broad ligament, uterosakral ligament gibi ekstra uterin yerlerde lokalize olmuşlardır. Bu ekstrauterin adenomyomlar bizim olgu sunumumuzda olduğu gibi, endometrial tip mukoza ile döşeli tek santral kavite ve bunu çevreleyen myometriyum benzeri dokudan meydana gelmiştir. Bu düzenlenme uterus benzeri kitle görünümü oluşturur. Nitekim bazı araştırmacılar alternatif bir

terminoloji olarak uterus benzeri kitle terimini kullanmışlardır^{5,7}.

Ayırıcı tanıda endometrioma, leiomyomatosis peritonealis disseminata, ekstrauterine leiomyom, konjenital bir malformasyon olarak görülebilen uterus benzeri kitleler (rudimenter horn, vb.), malinite düşünülmelidir. Nitekim bizim olgumuzda infertil hastada yoğun içerikli adneksiyal kistik kitle nedeniyle preoperatif ön tanıda endometrioma da düşünülmüştür. Adenomyoma, endometriomadan belirgin düz kas kitlesi; leiomyomatosis peritonealis disseminata ve leiomyomadan endometrial dokunun görülmesi ile ayırt edilir⁶. Stewart ve ark.⁹ ekstrauterin adenomyomların, endometriosis odağının düz kas hiperplazisi veya metaplazisi ile çevrenmesi, konjenital bir malformasyon olarak ortaya çıkan uterus benzeri kitle ya da ekstrauterin leiomyomların endometrium bez ve stroma yapısı tarafından atake edilmesi ile meydana gelebileceğini raporlamışlardır. Bizim olgumuzda bu mekanizmaları düşündürecek herhangi bir uterin anomali, pelvik yapışıklık görülmemiştir.

Ekstrauterin adenomyom etyolojisi için iki teori öne sürülmüştür; müllerian kanal füzyon defekti ve subçölojik mezanşim metaplazisi³. Müllerian kanal füzyon defekti uterus benzeri kitlelerin patojenezini açıklar. Dişi genital traktın gelişimi sırasındaki anormallikler, müllerian kanalın lokalize bir bölgede füzyon defektleri uterustaki atrezi, duplikasyon gibi malformasyonları meydana getirir¹⁰. Yine bazı ekstrauterin adenomyom olgularında renal ve üriner sistem anomalilerinin olması bu teoriyi desteklemektedir^{5,6,9}. Bizim vakamızda yapısal uterin anomali ve ürogenital tract anomalisi izlenmemesi müllerien füzyon defekti teorisi ile tutarsızdır; çünkü hasta morfolojik olarak normal uterus, serviks, fallop tüpleri, overler ve ürogenital trakta sahiptir.

Subçölojik mezanşim ya da sekonder müllerian sistem, peritonun mezotelyal yüzey tabakasının altında yer alır. Bu tabaka primitif çölojik, erken müllerien ve wolf kanalını oluşturacak yapıların mezanşimini oluşturur⁹. Bu mezanşim tabakasının proliferasyonu, endometrial stromal hücreler, desidua, düz kas içeren mezanşimal lezyonların gelişmesine neden olabilir^{3,5,7}. Lauchlan¹¹ ikincil müllerian sistemin aynı orjinli olan farklı dokulara (fallop tüpleri, endometrial kavite, endoserviks) dönüşebilecek potansiyeldeki peritoneal veya retroperitoneal dokuların birleşimi olduğunu ileri sürmüştür. İkincil müllerian sistemdeki hücreler multipotansiyel ve hormonal uyarıya proliferasyon şeklinde cevap verecek hücreler olarak düşünülmektedir¹². Bu sistemdeki epitelyal lezyonlar normal veya neoplastik (endometrioid, musinöz, seröz

veya transizyonel) diferansiasyon gösterebilirler. Redman ve ark.¹² rapor ettiği bir olgu sunumunda total abdominal histerektomi ve bilateral salpingoofektomi olmuş ve estrogen replasman tedavisi alan bir hastada 22 yıl sonra adenomyom saptanması bu teoriyi desteklemekte ve ektrauterin adenomyomların gelişiminde estrogenik stimülasyonunun rolü olabileceğini göstermektedir. Bizim olgu sunumumuzda da intraligamenter adenomyomun bu sekonder müllerian sistemden gelişmesi olası gözükmektedir.

Ektrauterin adenomyomların bir diğer önemi de nadir de olsa malign transformasyon olasılığıdır. Torres ve ark.¹³ broad ligament adenomyomunda gelişen clear cell karsinom olgusunu raporlamışlardır. Kanser in adenomyoma içerisindeki endometriotik odakta n kaynaklandığı saptanmıştır. Yine Huanwen ve ark.¹⁴ yayınladığı bir olguda karaciğerde tespit edilen ekstrapelvik adenomyomda adenokarsinom tespit edilmiştir. Bu olgu aynı zamanda ektrauterin adenomyoz gelişiminde subçölomik mezanşimal metaplazi teorisini desteklemesi açısından da önemlidir. Bizim olgumuzda malign transformasyonu düşündürecek atipi bulguları, mitoz, pleomorfizm, nekroz izlenmemiştir.

Sonuç olarak; intraligamenter adenomyom, nadir görülse de adneksiyel kitlelerin ayrıncı tanısında düşünölmelidir. Etyopatogenezinde subçölomik mezanşimal metaplazi en olası teori olarak gözükmektedir.

KAYNAKLAR

1. Bulun SE. Endometriosis. *N Engl J Med* 2009;360(3):268-279.
2. C Zaloudek, MR Hendrickson. Mesenchymal tumors of the uterus. *Blaustein's Pathology of the Female Genital Track*, R J Kurman, Ed., pp. 599-600, Springer, New York, NY, USA, 5th edition, 2002.
3. Liang YJ, Hao Q, Wu YZ, Wu B. Uterus-like mass in the left broad ligament misdiagnosed as a malformation of the uterus: a case report of a rare condition and review of the literature. *Fertility and Sterility* 2010;93(4):1347.e13-1347.e16.
4. Choudhrie L, Mahajan NN, Solomon MV, Thomas A, Kale AJ, Mahajan K. Ovarian ligament adenomyoma: a case report. *Acta Chirurgica Belgica* 2007;107(1):84-5.
5. Bulut AS, Sipahi TU. Abscessed uterine and extrauterine adenomyomas with uterus-like features in a 56-year-old woman. *Case Rep Obstet Gynecol* 2013;2013:238156.
6. Sisodia SM, Khan WA, Goel A. Ovarian ligament adenomyoma: report of a rare entity with review of the literature. *J Obstet Gynaecol Res* 2012;38(4):724-28.
7. Carinelli S, Motta F, Frontino G, Restelli E, Fedele L. Multiple extrauterine adenomyomas and uterus-like masses: case reports and review of the literature. *Fertility and Sterility* 2009;91(5):1956.e9-1956.e11.
8. Moghadamfalahi M, Metzinger DS. Multiple extrauterine adenomyomas presenting in upper abdomen and pelvis: a case report and brief review of the literature. *Case Rep Obstet Gynecol* 2012;565901.
9. Stewart CJ, Leung YC, Mathew R, McCartney AL. Extrauterine adenomyoma with atypical (symplastic) smooth muscle cells: a report of 2 cases. *Int J Gynecol Pathol* 2009;28(1):23-8.
10. Sadler TW. *Langman's Medical Embryology*, 6th edn. Baltimore, MD: Williams and Wilkins, 1990; 270-283.
11. Lauchlan SC. The secondary Mullerian system. *Obstet Gynecol Surv* 1972;27(3):133-146.
12. Redman R, Wilkinson EJ, Massoll NA. Uterine-like mass with features of an extrauterine adenomyoma presenting 22 years after total abdominal hysterectomy-bilateral salpingo-oophorectomy: a case report and review of the literature. *Arch Pathol Lab Med* 2005;129(8):1041-3.
13. Torres D, Parker L, Moghadamfalahi M, Sanders MA, Metzinger DS. Clear Cell Adenocarcinoma Arising in an Adenomyoma of the Broad Ligament. *Int J Surg Pathol* 2014;pii: 1066896914539550.
14. Huanwen W, Hui Z, Xiaowei X, Zhaohui L. Extrauterine adenomyoma of the liver with a focally cellular smooth muscle component occurring in a patient with a history of myomectomy: case report and review of the literature. *Diagn Pathol* 2013;5;8:131.