

Rare cystadénofibrome ovarien de 5,5 kilogrammes

Rare ovarian cystadenofibroma of 5.5 kilograms

DABIN E.¹ et BOGNE KAMDEM V.²

¹Service de Gynécologie-Obstétrique, Iris Sud / Etterbeek - Ixelles, Bruxelles

²Service de Gynécologie-Obstétrique, Hôpital Erasme, Université libre de Bruxelles (ULB)

RÉSUMÉ

Une patiente de 53 ans, nullipare, ménopausée et sans antécédent notable, s'est présentée pour un inconfort du flanc droit. L'abdomen était distendu par une grande masse palpable de la région sus-pubienne à la région épigastrique. L'exploration échographique a révélé une masse kystique, septée de 25 cm de plus grand axe de composante majoritairement liquide et minoritairement solide. La résonance magnétique nucléaire a confirmé l'origine annexielle et a mis en évidence une hydronéphrose droite. Le dosage du CA 125 était de 760kU/l. Ensemble, ces données impliquaient un risque élevé de malignité (tant les scores IOTA Simple Rules à 17 % et RMI à 2.280). La stadification de la pathologie ainsi qu'une résection complète de la masse ont été réalisés via laparotomie médiane. L'analyse anatomo-pathologique de la pièce de 5,5 kg a révélé un cystadéfibroadénome sans signe de malignité entraînant une hydronéphrose droite par compression extrinsèque.

Rev Med Brux 2021 ; 42 : 194-196

Doi : 10.30637/2021.20-054

ABSTRACT

A fifty-three years old woman, nulliparous and postmenopausal, with no gynecological history presented with a right flank discomfort. The abdomen was distended by a large and palpable mass spreading from the supra-pubically area up to the epigastric area. An ultrasound exploration revealed a twenty-five centimeters cystic and septated mass, mostly liquid and partially solid. Investigations by MRI confirmed the adnexal origin and revealed a right hydronephrosis. The CA 125 was elevated at 760kU/l. Together, the findings implied a high risk of malignancy (both IOTA Simple Rules at minimum 17% and RMI at 2280). We performed a median laparotomy in order to stage and remove the mass. The anatomo-pathological analysis of this 5.5 kilograms mass revealed a cystadenofibroma with no sign of malignancy causing hydronephrosis by external compression.

Rev Med Brux 2021 ; 42 : 194-196

Doi : 10.30637/2021.20-054

Key words : adnexal mass, cystadenofibroma

INTRODUCTION

L'incidence des masses annexielles est de 5 à 17 % chez les femmes ménopausées¹. Celles-ci sont en grande majorité bénignes (jusqu'à 95 %)¹. Leur découverte pose cependant toujours la question d'une origine maligne vu la mortalité des néoplasies ovariennes et doit mener à des investigations complémentaires.

OBSERVATION

Une patiente de 53 ans s'est présentée pour un inconfort du flanc droit évoluant depuis un mois. La patiente était nullipare et ménopausée, sans traitement hormonal substitutif. L'examen clinique trouvait une énorme masse palpable jusqu'à la région épigastrique. L'échographie a révélé une masse kystique de 25 cm de plus grand axe, majoritairement liquidienne et minoritairement solide,

d'origine probablement ovarienne. Une IRM (imagerie par résonance magnétique) pelvienne a confirmé une masse kystique ovarienne droite de 24 x 16 x 23 cm dont les nombreux septa captaient modérément le gadolinium. Le CA 125 était de 760 kU/l. Le score RMI (*Risk of Malignancy Index*) a été calculé à 2.280 (3 x 1 x 760). Le IOTA (*International Ovarian Tumor Analysis*) Simple Rules calculé montrait un risque de malignité de minimum 17 %.

Vu la suspicion préopératoire d'une néoplasie, une exploration abdominale et la résection intacte de cette masse étaient nécessaires. Vu le volume, une laparotomie médiane ombilico-pubienne a été pratiquée. La cavité abdominale et le pelvis étaient sans particularité. La masse d'origine ovarienne droite dont la capsule était lisse et sans implant entraînait une torsion complète de l'annexe sur elle-même. Une hystérectomie totale avec annexectomie bilatérale a été réalisée dans le même temps opératoire (figure).



L'analyse anatomo-pathologique décrit une masse biloculaire de 5,495 kg et de 35 x 24 x 15 cm. Les kystes contenaient un liquide citrin et la partie solide était composée d'une substance mucineuse et séreuse. Aucune anomalie tubaire n'a été trouvée. Des zones de prolifération de cellules atypiques avec un Ki67 augmenté n'ont été repérées que sur moins de 10 % de la pièce. Aucune lésion invasive ou micro-invasive n'a été mise en évidence. La cytologie péritonéale était négative également. Le diagnostic définitif est un cystadénofibrome.

DISCUSSION

Les cystadénofibromes annexiels sont des masses complexes composées de septa, de composants kystiques et de composants solides ayant une origine épithéliale et stromale. Ce diagnostic représente seulement 1,7 % des masses annexielles².

La taille des cystadénofibromes ovariens est variable (de 6 à 55 cm de plus grand axe selon les cas décrits dans la littérature)^{3,4} tout comme leur présentation clinique qui peut être frustrante allant de l'inconfort abdominal⁵ à des symptômes aigus en cas de phénomène obstructif (contexte d'occlusion digestive⁶ ou de torsion annexielle⁷). Ces masses sont retrouvées aussi bien chez des femmes jeunes⁷ que des patientes ménopausées⁶. Malgré son très grand volume et la torsion sur son axe, notre masse était très peu symptomatique, la croissance sans doute lente de la masse ayant permis à l'abdomen de s'adapter. L'hydronéphrose droite, seul signe obstructif, n'était pas non plus symptomatique.

La mise au point radiologique des masses annexielles se base sur l'échographie et la résonance magnétique. Les cystadénofibromes sont souvent présumés malins à cause de leur composante solide. A l'imagerie, la pré-

sentation de ces masses est diverse : masses mixtes solides et liquides mais aussi kystiques pures uni- ou multiloculaires. Néanmoins, en échographie, leur représentation la plus fréquente est celle d'un kyste solide uniloculaire présentant une ou plusieurs projections papillaires⁸. A l'inverse, la présence de nodules hyperéchogènes et avasculaires entraînant une ombre acoustique permet d'évoquer un diagnostic de cystadénofibrome⁹. L'IRM complète l'imagerie des masses annexielles où l'aspect le plus fréquent des cystadénofibromes est celui d'une masse kystique multiloculée comprenant une composante fibreuse solide d'intensité faible en séquence T2, se rehaussant de manière comparable au muscle et d'aspect d'« éponge noire »¹⁰.

Le pronostic de malignité des masses annexielles est calculé en échographie selon les critères IOTA dont des critères péjoratifs sont notamment la présence mixte d'une composante solide associée à une composante irrégulière multikystique de plus de 10 cm¹¹. Un seuil de risque de malignité de 5 % avant 43 ans, et 10 % après cet âge, est retenu comme indiquant une exploration chirurgicale des masses annexielles¹². Le score RMI, plus ancien, est composé du dosage du Ca125, du statut ménopausal de la patiente (1 en pré-ménopausée et 3 en post-ménopause) et des caractéristiques échographiques de la masse (de 0 à 3 en fonction de la complexité de la masse). Le seuil indicateur de risque élevé de malignité est fixé entre 153 et 200¹³.

Les biomarqueurs sériques peuvent permettre d'affiner le diagnostic préopératoire mais ne sont seuls jamais pertinents. En post-ménopause, un taux élevé de CA 125 (*Cancer Antigen 125*) > 95 U/mL est un marqueur de néoplasie ovarienne épithéliale¹⁴, mais peut également être retrouvé dans d'autres pathologies telles que l'endométriose et les PID (*pelvic inflammatory disease*). L'HE4 (*Human Epididymal Protein 4*) peut être utilisé afin d'améliorer la sensibilité du CA 125 et permettre de réaliser le score ROMA (*Risk of Ovarian Malignancy Algorithm*)¹⁵.

La prise en charge chirurgicale des cystadénofibromes consiste en une résection chirurgicale complète. Leur diagnostic peropératoire étant difficile, spécialement chez les femmes pré-ménopausées, une analyse extemporanée de la pièce permettant une résection limitée conservant la fertilité est recommandée^{3,5,7}.

L'analyse anatomopathologique a pu exclure le diagnostic de tumeur borderline (tumeur à critère de malignité intermédiaire ayant un potentiel d'évolution maligne) vu un Ki67 bas (marqueur de prolifération cellulaire inférieur à 10-14 %) ¹⁶. L'absence d'invasion stromale, d'effraction capsulaire et d'atypies nucléaires permettent d'exclure une tumeur maligne.

CONCLUSION

Malgré le statut post-ménopausique et nullipare de la patiente, le volume de la masse, la présence de septa et d'une composante solide, le taux de CA 125 élevé et le phénomène obstructif sur l'uretère droit, facteurs concordant avec une nature néoplasique, la masse s'est finalement révélé être un cystadénofibrome bénin, tumeur rare d'autant plus de par sa taille.

Conflits d'intérêt : néant.

BIBLIOGRAPHIE

1. National Institute for Health and Clinical Experience (NICE) Royal College of Obstetrics and Gynaecology. The Management of Ovarian Cysts in Postmenopausal Women. Green-top Guideline no.34. July 2016. Available on: https://www.rcog.org.uk/globalassets/documents/guidelines/green-top-guidelines/gtg_34.pdf
2. Cho SM, Byun JY, Rha SE, Jung SE, Park GS, Kim BK *et al.* CT and MRI findings of cystadenofibromas of the ovary. *Eur Radiol.* 2004;14(5):798-804.
3. Lee DH. A case of mucinous cystadenofibroma of the ovary. *Case Rep Obstet Gynecol.* 2014;2014:130530.
4. Sills ES, Kaplan CR, Perloe M, Tucker MJ. Laparoscopic approach to an uncommon adnexal neoplasm associated with infertility: serous cystadenofibroma of the fallopian tube. *J Am Assoc Gynecol Laparosc.* 2003;10(4):545-7.
5. Cho DH. Serous cystadenofibroma misdiagnosed as an ovarian malignancy. *BMJ Case Rep.* 2018;11(1):e228223.
6. Mechera R, Menter T, Oertli D, Hoffmann H. Large ovarian cystadenofibroma causing large bowel obstruction in a patient with Klippel-Feil syndrome-A case report. *Int J Surg Case Rep.* 2016;20:17-20.
7. de Silva TS, Patil A, Lawrence RN. Acute presentation of a benign cystadenofibroma of the fallopian tube: a case report. *J Med Case Rep.* 2010;4:181.
8. Virgilio BA, De Blasis I, Sladkevicius P, Moro F, Zannoni GF, Arciuolo D *et al.* Imaging in gynecological disease (16): clinical and ultrasound characteristics of serous cystadenofibromas in adnexa. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2019;54(6):823-30.
9. Timor-Tritsch IE, Yoon E, Monteagudo A, Ciaffarano J, Brandon C, Mittal KR *et al.* Ultrasound and Histopathologic Correlation of Ovarian Cystadenofibromas: Diagnostic Value of the "Shadow Sign". *J Ultrasound Med.* 2019;38(11):2973-8.
10. Montoriol PF, Mons A, Da Ines D, Bourdel N, Tixier L, Garcier JM. Fibrous tumours of the ovary: aetiologies and MRI features. *Clin Radiol.* 2013;68(12):1276-83.
11. Timmerman D, Testa AC, Bourne T, Ameye L, Jurkovic D, Van Holsbeke C *et al.* Simple ultrasound-based rules for the diagnosis of ovarian cancer. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2008 Jun;31(6):681-90.
12. Joyeux E, Miras T, Masquin I, Duglet PE, Astruc K, Douvier S. Prédicibilité préopératoire de la malignité des tumeurs ovariennes à partir du score ADNEX et utilisation en pratique clinique [Before surgery predictability of malignant ovarian tumors based on ADNEX model and its use in clinical practice]. *Gynecol Obstet Fertil.* 2016;44(10):557-64.
13. Ulusoy S, Akbayir O, Numanoglu C, Ulusoy N, Odabas E, Gulkilik A. The risk of malignancy index in discrimination of adnexal masses. *Int J Gynaecol Obstet.* 2007;96(3):186-91.
14. Sölétormos G, Duffy MJ, Othman Abu Hassan S, Verheijen RH, Tholander B, Bast RC Jr *et al.* Clinical Use of Cancer Biomarkers in Epithelial Ovarian Cancer: Updated Guidelines From the European Group on Tumor Markers. *Int J Gynecol Cancer.* 2016;26(1):43-51.
15. Prise en Charge des Cancers Gynécologiques Pelviens et Mammaires. Consensus OncoGF 5^e édition 2016. Groupement des Gynécologues Obstétriciens de Langue française de Belgique.
16. Guadagno E, Pignatiello S, Borrelli G, Cervasio M, Della Corte L, Bifulco G *et al.* Ovarian borderline tumors, a subtype of neoplasm with controversial behavior. Role of Ki67 as a prognostic factor. *Pathol Res Pract.* 2019;215(11):152633.

Travail reçu le 7 juillet 2020 ; accepté dans sa version définitive le 9 octobre 2020.

CORRESPONDANCE :

E. DABIN
Iris Sud / Etterbeek – Ixelles
Service de Gynécologie-Obstétrique
Rue Jean Paquot, 63 - 1050 Bruxelles
E-mail : elsa.dabin@gmail.com