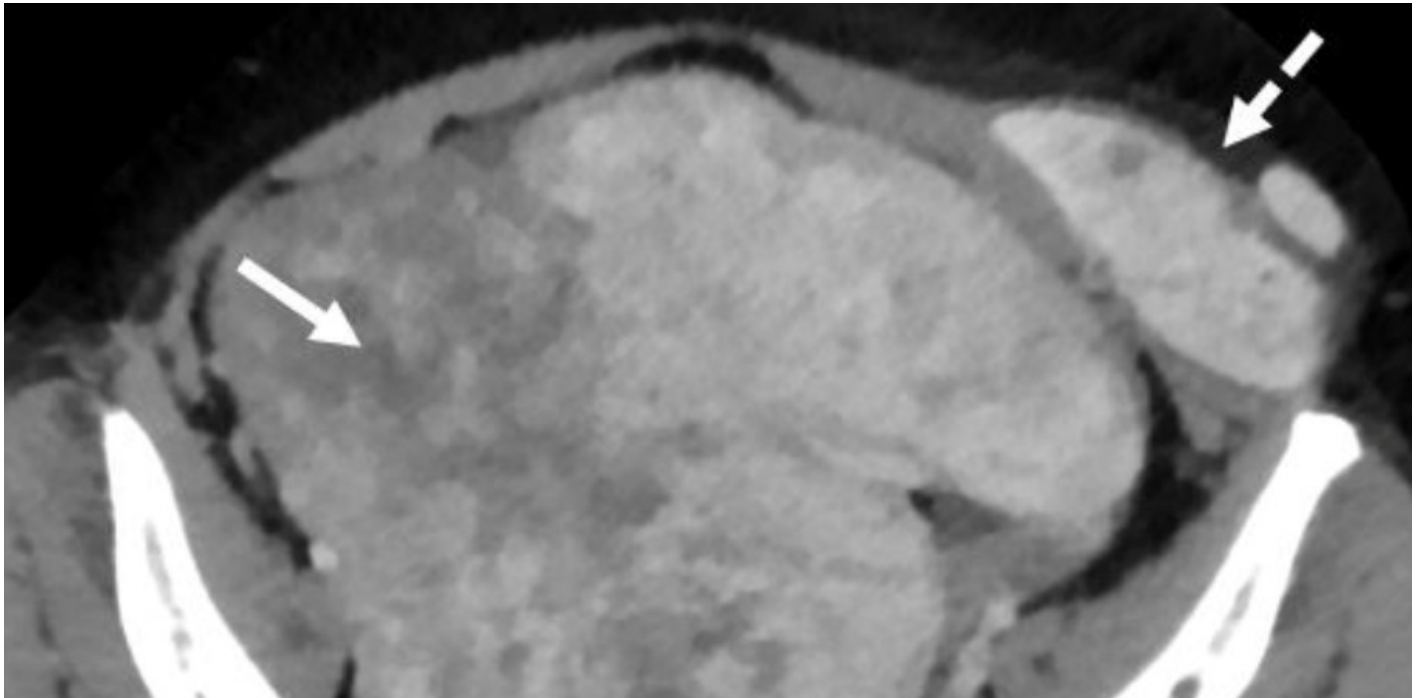




Une intervention avec des conséquences

Léiomyomatose parasite grotesque

Dr méd. Laura A. Theisinger^{a*}; Clara Müller^{b*}, médecin diplômée; Dr méd. Natalie Gabriel^b; Dr méd. Annelies Schnider Preisig^c; Dr méd. Gabriella Stocker^b

Stadtspital Zürich Triemli, Zürich: ^a Institut für Radiologie und Nuklearmedizin; ^b Frauenklinik; ^c Klinik für Viszeral-, Thorax- und Gefässchirurgie

* Co-premières auteures

Contexte

Les léiomyomes (en abrégé myomes) parasites sont une complication rare après une myomectomie avec morcellement. Les myomes sont des tumeurs histologiquement bénignes de l'utérus, disposées en tourbillon, proliférantes et formées de cellules musculaires lisses. Très rarement, des sarcomes utérins peuvent également se cacher derrière des myomes cliniquement considérés comme bénins, principalement chez les femmes ménopausées. Le morcellement est une technique d'incision transabdominale de myomes énucléés dans le cadre d'opérations conservatrices de l'utérus. Dans ce contexte, des amas de cellules, voire des fragments de myome, peuvent être disséminés dans l'espace intrapéritonéal, puis se néovasculariser et se développer sous forme de tumeurs monoclonales, appelées myomes parasites. L'incidence globale des myomes parasites après myomectomie avec morcellement est estimée à 0,12–0,95% [1]. Nous présentons le cas d'une

léiomyomatose grotesque chez une très jeune femme.

Présentation du cas

Anamnèse

Une femme de 27 ans nous a été adressée en raison d'une augmentation progressive de la circonférence abdominale et d'une hernie ombilicale symptomatique très protubérante. L'anamnèse personnelle a révélé une énucléation de myome (histologie bénigne) laparoscopique avec morcellement à l'âge de 20 ans. En raison de fortes douleurs dans le bas ventre, elle s'était rendue aux urgences trois ans plus tard. Une biopsie transcutanée avait été effectuée du fait d'une suspicion de tumeur maligne dans le petit bassin. Celle-ci avait révélé la présence de cellules musculaires lisses proliférantes correspondant à un léiomyome riche en cellules, sans signe de malignité. L'histologie de la myomectomie de l'époque avait été réévaluée et les récepteurs hormonaux correspondants avaient été redéterminés. La patiente n'ayant pas accepté

de subir une chimiothérapie ou une radiothérapie dans l'éventualité d'un diagnostic de tumeur maligne, il avait été renoncé, du fait de l'absence de conséquences, à une nouvelle biopsie, qui avait été recommandée dans le cadre de la réunion de concertation pluridisciplinaire (RCP) sur les sarcomes. La décision de ne pas pratiquer une nouvelle biopsie avait aussi été confortée par le fait qu'une infiltration marquée de la paroi abdominale s'était développée au niveau des anciens sites de trocart et de biopsie. Une laparotomie avait été recommandée pour retirer toutes les masses tumorales, mais la patiente l'avait refusée, en invoquant notamment des raisons religieuses. Au cours des trois années suivantes, au cours desquelles la patiente a suivi des méthodes de guérison alternatives, la tumeur a fortement grandi. En raison de la souffrance croissante causée par l'augmentation de la circonférence abdominale, de l'ordre d'une fin de grossesse, ainsi que de l'énorme hernie ombilicale, la patiente nous a été adressée pour la suite du traitement.

Résultats

Par rapport à l'examen externe préalable trois ans auparavant, la tomодensitométrie (TDM) a montré une augmentation massive de la taille des multiples nodules tumoraux hypervascularisés remplissant tout l'abdomen. La masse tumorale totale avait une extension d'environ $25 \times 12 \times$ cc 31 cm (axial $\times$ craniocaudal; fig. 1A, 1C). En outre, il y avait une infiltration de la paroi abdominale et des muscles abdominaux au niveau de l'ancien site de biopsie (fig. 1B).

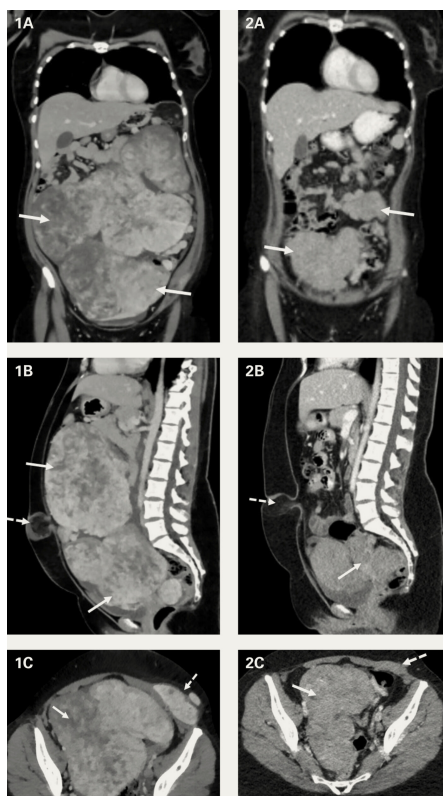


Figure 1: Tomodensitométrie avec produit de contraste lors de la présentation initiale. **A)** Coupe coronale: Volumineuse masse hypervascularisée et polylobée (flèches blanches) s'étendant de la partie supérieure centrale de l'abdomen jusqu'au petit bassin, avec une croissance repoussant clairement les structures adjacentes. Les masses tumorales présentent une prise de contraste hétérogène avec des zones isolées probablement nécrotiques ne prenant pas le contraste. **B)** Coupe sagittale: Extension clairement visible de la masse à partir de la hauteur de la sortie de l'artère mésentérique supérieure jusqu'à la hauteur du coccyx (flèches blanches); par ailleurs, nodules tumoraux dans la zone de la hernie ombilicale existante (flèche blanche en pointillés). **C)** Coupe axiale: À hauteur du petit bassin (flèche blanche), infiltration nette de la paroi abdominale dans la partie inférieure gauche de l'abdomen et des muscles abdominaux au niveau des anciens sites de trocart dans le cadre de l'énucléation du myome (flèche blanche en pointillés).

Figure 2: Tomodensitométrie de suivi après 10 mois. **A)** Coupe coronale: Suite au traitement endocrinien, nette réduction de la taille de la masse abdominale (mesure de référence environ $10 \times 5,8 \times$ cc 11 cm contre $25 \times 12 \times$ cc 31 cm lors de l'examen préalable, cf. fig. 1A). L'extension primaire ne se situait plus que dans la partie inférieure centrale de l'abdomen et le petit bassin (flèches blanches). **B)** Coupe sagittale: Suite au traitement endocrinien, nette régression de la taille de la masse et extension principale dans le bas-ventre et le petit bassin (flèche blanche). La hernie ombilicale ne présente qu'une faible imbibition du tissu adipeux responsable de la hernie, mais pas de nodules tumoraux résiduels (flèche blanche en pointillés). **C)** Coupe axiale: Suite au traitement endocrinien, extension principale des nodules tumoraux résiduels dans le petit bassin (flèche blanche). Des infiltrations minimes de la paroi abdominale et des muscles abdominaux les organes abdominaux sains en direction

cent, encore visibles (flèche blanche en pointillés). Dans ce contexte, la patiente était cliniquement asymptomatique. Par ailleurs, il n'y avait pas de métastases organiques, peu d'ascite ainsi qu'une gastroscopie et une coloscopie sans particularité.

Diagnostic

Il s'agissait d'un cas rare de léiomyomatose parasite étendue.

Traitement et évolution

À ce moment-là, les masses tumorales n'étaient pas résécables sans transfusion massive et multiples résections intestinales. Le cas a été discuté intensivement dans le cadre de la RCP sur les sarcomes, la RCP sur les tumeurs viscérales et gynécologiques, et a été jugé inopérable, notamment du fait de la néovascularisation prononcée dans la région de la racine du mésentère.

En raison de la positivité des récepteurs de 70% pour les œstrogènes et de 100% pour la progestérone, un traitement endocrinien avec des agonistes de la gonadolibérine (GnRH) en association avec un inhibiteur de l'aromatase (IA) a été recommandé lors de la RCP gynéco-oncologique. La patiente a accepté l'utilisation off-label. Nous avons administré la leuproréline par voie sous-cutanée initialement tous les mois, puis tous les trois mois en raison d'une tolérance relativement bonne au fil du temps. La patiente était réticente à l'idée d'un traitement combiné avec un IA. En l'espace d'un an, elle a présenté une réponse rapide et impressionnante.

De façon réjouissante, la TDM de suivi, réalisée dix mois après le début du traitement endocrinien, a globalement montré une nette régression de la taille des volumineux nodules tumoraux confluent (mesure de référence environ $10 \times 5,8 \times$ cc 11 cm par rapport à l'examen préalable avec $25 \times 12 \times$ cc 31 cm [axial $\times$ craniocaudal]), de même que des nodules tumoraux plus petits, des lésions résiduelles dans la paroi abdominale et des néovascularisations. De plus, aucune vascularisation atypique n'a été observée (fig. 2A–C).

Il a été estimé que la réduction de volume était d'environ 80%. Le site a alors été jugé opérable et, du fait de la stagnation de la réponse au traitement, l'ablation chirurgicale des nodules tumoraux résiduels a été recommandée.

Afin d'améliorer le pronostic de la maladie de base, il a finalement été convenu avec la patiente, outre l'ablation des nodules tumoraux, de procéder à une hystérectomie avec annexectomie bilatérale. Cette décision a bien entendu été prise avec l'accord de la patiente

et après avoir personnellement renoncé à son désir initial d'enfant, et a été renforcée par le succès visible de l'hormonothérapie.

Lors de la laparotomie longitudinale, trois nodules tumoraux isolés ont été détectés; le plus gros adhérait au mésosigmoïde, les deux autres, plus petits, étaient localisés au niveau pararectal et présacré. Les tumeurs étaient principalement alimentées par des vaisseaux intestinaux dilatés (fig. 3).

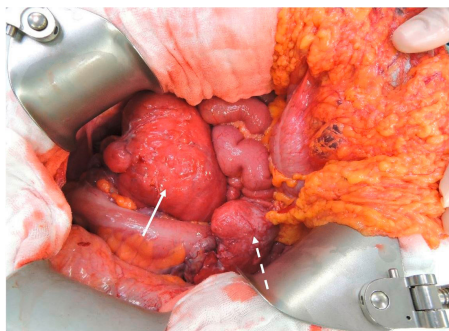


Figure 3: Photographie intra-opératoire du site. Volumineux nodule de myome reposant directement sur la racine mésentérique de l'intestin grêle (flèche blanche) ainsi que nodule de myome dans la région du sigmoïde avec légère sténose consécutive (flèche blanche en pointillés), cf. fig. 2A–C.

La métastase de la paroi abdominale était encore palpable. Finalement, un debulking tumoral complet avec hystérectomie, annexectomie bilatérale, péritonectomie présacrée, résection cunéiforme du sigmoïde et excision tumorale de la paroi abdominale avec mise en place d'un filet, ainsi qu'une plastie de la hernie ombilicale ont été réalisés. La perte de sang était minime, de sorte que le système d'autotransfusion Cell saver n'a pas dû être utilisé. Sur le plan histopathologique, les critères de malignité n'étaient toujours pas remplis. Il s'agissait de myomes avec une prolifération de cellules musculaires lisses hautement différenciées et riches en cellules.

En raison de l'annexectomie, un traitement endocrinien n'était plus nécessaire. La patiente fait l'objet d'un suivi clinique régulier et reçoit une prophylaxie de l'ostéoporose.

Discussion

Nous avons présenté un cas rare et extrême de complication tardive après morcellement électrique laparoscopique. Le cas est digne d'intérêt à plusieurs égards: d'une part, le jeune âge de la femme lors de la maladie initiale et la croissance massive de la récurrence laissaient supposer une origine sarcomateuse, qui n'a toutefois jamais pu être prouvée par l'histopathologie. D'autre part, la tumeur, bien que bénigne, était initialement inopé-

rable et aurait probablement eu une issue fatale en cas de non-réponse au traitement endocrinien.

Dans la littérature, les myomes parasites d'origine iatrogène ont été décrits pour la première fois en 1997 [2], huit ans après la première hystérectomie laparoscopique avec morcellement. Jusque-là, les myomes parasites étaient connus comme des fibromes sous-séreux pédiculés (type 7 selon la classification de la FIGO [«Fédération Internationale de Gynécologie et d'Obstétrique»]) [3], se connectant spontanément à un autre système vasculaire hors de l'utérus.

Le terme de myome parasite est utilisé comme terme générique dans l'article de Lete [4] et est divisé en différents groupes: myomes intraveineux, léiomyomatose péritonéale disséminée (LPD) se développant spontanément ou après morcellement et groupe des myomes métastatiques bénins, qui se développent par exemple dans les poumons ou les ganglions lymphatiques.

À la TDM morphologique, l'affection se présente souvent sous forme de masse tumorale extra-utérine, solide, homogène ou parfois hétérogène, avec prise de contraste individuelle des nodules. Les lésions sont souvent non spécifiques et apparaissent à l'imagerie par résonance magnétique avec une faible intensité de signal, similaire à la densité des cellules musculaires lisses [5, 6]. L'imagerie radiologique joue un rôle majeur dans la pose du diagnostic et dans l'évaluation de l'extension et des hypervascularisations ou néovascularisations qui permettent une pré-évaluation. Au final, un diagnostic définitif ne peut pas être posé radiologiquement, des examens complémentaires étant nécessaires, comme des biopsies pour une confirmation histologique ou un suivi de l'évolution, comme le montre notre cas.

La pathogenèse des myomes parasites est multifactorielle. La littérature fait état d'un certain nombre de myomes parasites chez des femmes non pré-opérées. Il est supposé qu'ils trouvent leur origine dans des cellules souches mésenchymateuses sous-péritonéales qui subissent une métaplasie [7], comme dans la théorie de la genèse de l'endométriose [8]. Cette genèse est présumée dans la LPD susmentionnée, notre cas ayant aussi montré une présentation disséminée, mais avec une cause iatrogène [1]. La pathogenèse exacte est toutefois incertaine. Entre-temps, des cas plus fréquents survenus après morcellement électrique ont été décrits [9].

L'incidence globale des myomes parasites après intervention laparoscopique avec morcellement de myomes utérins a été estimée à

0,12–0,95% dans une revue systématique de van der Meulen et al. [1]. Cette étude décrit des myomes parasites isolés dans la plupart des cas et une LPD dans deux cas seulement. L'intervalle de temps approximatif se situe entre 40 et 72 mois selon les études [1, 4, 10].

L'énucleation de myome par voie laparoscopique avec morcellement électrique sans système fermé est désormais controversée. Dans les nouvelles lignes directrices du «National Institute of Health and Care Excellence» britannique et du «College of Obstetricians and Gynecologists» américain, le morcellement des myomes est déconseillé non seulement en raison des complications tardives décrites ici, mais aussi de la malignité potentielle difficilement décelable en préopératoire. Si un morcellement est néanmoins pratiqué, la patiente doit être préalablement informée en détail des risques de malignité potentiellement occulte, de sa dissémination et de la détérioration du pronostic [11, 12]. En Suisse, il n'existe pour l'instant qu'une seule prise de position de Swissmedic et de la Société Suisse de Gynécologie et d'Obstétrique datant de 2015, qui exige une pose critique de l'indication du morcellement [13].

Le traitement préopératoire off-label que nous avons utilisé avec des agonistes de la GnRH est bien connu et était autrefois souvent utilisé dans le traitement des myomes, avant que l'acétate d'ulipristal (AUP) et le morcellement électrique ne soient disponibles [14]. Ironiquement, l'AUP et le morcellement électrique, qui avaient été loués comme de nouvelles options thérapeutiques révolutionnaires, sont aujourd'hui à nouveau délaissés en raison de leurs effets indésirables [15–18]. Dans notre cas, le traitement médicamenteux a donné d'excellents résultats, les masses tumorales ont nettement diminué et la patiente a été observante, malgré certains effets indésirables, sous notre étroite surveillance et celle du médecin de famille très engagé. Ce traitement préalable à lui seul a permis une résection complète sans morbidité. Des études sont actuellement en cours sur le traitement des myomes par antagonistes de la GnRH, comme Elagolix, qui est déjà autorisé aux États-Unis depuis 2018. L'avantage de ce traitement est sa forme d'administration orale et la possibilité d'adapter la dose [19].

L'essentiel pour la pratique

- Les complications tardives après morcellement électrique laparoscopique sans système fermé sont certes rares (0,12–0,95%), mais sont associées à une morbidité très élevée.
- Les léiomyomes sont en réalité des tumeurs bénignes qui, en cas d'atteinte étendue, peuvent être fatales en l'absence de traitement.
- Les agonistes de la de la gonadolibérine (GnRH), connus depuis longtemps, restent une option efficace pour la réduction préopératoire de la masse tumorale en cas de myomes utérins et parasites. Les possibilités offertes par les antagonistes de la GnRH, qui ne sont actuellement pas encore autorisés en Suisse, sont prometteuses.

Correspondance

Clara Müller
Frauenklinik
Spital Limmattal
Urdorferstrasse 100
CH-8952 Schlieren
[clara.mueller\[at\]spital-limmattal.ch](mailto:clara.mueller[at]spital-limmattal.ch)

Informed consent

Un consentement éclairé écrit est disponible pour la publication.

Conflict of Interest statement

Les auteurs ont déclaré ne pas avoir de conflits d'intérêts potentiels.

Author Contributions

LAT et CM ont écrit le manuscrit ensemble. LAT, NG et ASP ont recruté la patiente. LAT a interprété les clichés radiologiques. CM, NG, ASP et GS ont interprété les résultats intra-opératoires et ont évalué la patiente sur le plan clinique. CM, LAT et GS ont recherché et interprété la littérature. Toutes les auteures ont contribué à la révision critique. GS a supervisé le projet.

Références

- 1 Van der Meulen JF, Pijnenborg JM, Boomsma CM, Verberg MF, Geomini PM, Bongers MY. Parasitic myoma after laparoscopic morcellation: a systematic review of the literature. *BJOG*. 2016;123(1):69–75.
- 2 Ostrzenski A. Uterine leiomyoma particle growing in an abdominal-wall incision after laparoscopic retrieval. *Obstet Gynecol*. 1997;89(5 Pt 2):853–4.
- 3 Munro MG, Critchley HO, Fraser IS; FIGO Menstrual Disorders Working Group. The FIGO classification of causes of abnormal uterine bleeding in the reproductive years. *Fertil Steril*. 2011;95(7):2204–8,2208.e1–3.
- 4 Lete I, González J, Ugarte L, Barbadiño N, Lapuente O, Álvarez-Sala J. Parasitic leiomyomas: a systematic review. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol*. 2016;203:250–9.
- 5 Hiremath SB, Benjamin G, Gautam AA, Panicker S, Rajan A. Disseminated peritoneal leiomyomatosis: a rare cause of enigmatic peritoneal masses. *BJR Case Rep*. 2016;2(3):20150252.
- 6 Soto-Schütte S, Mendoza-Moreno F, Mínguez-García J, Ovejero-Merino E, Díez-Alonso M, Gutiérrez-Calvo A. Parasitic myomas: case report and literature review. *Surg Case Rep*. 2020;3(9):1–3.
- 7 Lausen I, Jensen OJ, Andersen E, Lindahl F. Disseminated peritoneal leiomyomatosis with malignant change, in a male. *Virchows Arch A Pathol Anat Histopathol*. 1990;417(2):173–5.
- 8 Awonuga AO, Shavell VI, Imudia AN, Rotas M, Diamond MP, Puschek EE. Pathogenesis of benign metastasizing leiomyoma. *Obstet Gynecol Surv*. 2010;65(3):189–95.
- 9 Al-Talib A, Tulandi T. Pathophysiology and possible iatrogenic cause of leiomyomatosis peritonealis disseminata. *Gynecol Obstet Invest*. 2010;69(4):239–44.
- 10 Chen X, Liu H, Shi H, Fan Q, Sun D, Lang J. Leiomyomatosis peritonealis disseminata following laparoscopic surgery with uncontained morcellation: 13 cases from one institution. *Front Surg*. 2021;8:788749.
- 11 National Institute for Health and Care Excellence (NICE). NICE Guidance. Interventional procedures guidance. Laparoscopic removal of uterine fibroids with power morcellation [Internet]. Manchester (GB): NICE; 2021 [consulté le 25.08.2021]. Disponible sur: <https://www.nice.org.uk/guidance/igp703>
- 12 American College of Obstetricians and Gynecologists' Committee on Gynecologic Practice. Uterine morcellation for presumed leiomyomas: ACOG committee opinion, number 822. *Obstet Gynecol*. 2021;137(3):e63–74.
- 13 Swissmedic. Morcellement (fragmentation) de l'utérus par laparoscopie – prise de position de Swissmedic en collaboration avec le Groupe de travail pour l'endoscopie gynécologique (GTE) de gynécologie suisse (SSGO) [Internet]. Berne: Swissmedic; 2015 [consulté le 25.06.2024]. Disponible sur: <https://www.swissmedic.ch/swissmedic/fr/home/dispositifs-medicaux/vue-d-ensemble-dispositifs-medicaux/archives/informationen-ueber-bestimmte-medizinprodukte.html>.
- 14 Friedman AJ, Hoffman DI, Comite F, Browneller RW, Miller JD. Treatment of leiomyomata uteri with leuprolide acetate depot: a double-blind, placebo-controlled, multicenter study. The Leuprolide Study Group. *Obstet Gynecol*. 1991;77(5):720–5.
- 15 Feghali EJ, Laganà AS, Daccache A, Bitar R, Garzon S, Uccella S, et al. Endobag use in laparoscopic gynecological surgeries: a systematic review. *Minim Invasive Ther Allied Technol*. 2022;31(5):698–703.
- 16 Cohen SL, Morris SN, Brown DN, Greenberg JA, Walsh BW, Gargiulo AR, et al. Contained tissue extraction using power morcellation: prospective evaluation of leakage parameters. *Am J Obstet Gynecol*. 2016;214(2):257.e1–6.
- 17 Ekanem E, Talaulikar V. Medical therapy for fibroids: what next for ulipristal acetate? *Adv Ther*. 2021;38(1):137–48.
- 18 Cucinella G, Granese R, Calagna G, Somigliana E, Perino A. Parasitic myomas after laparoscopic surgery: an emerging complication in the use of morcellator? Description of four cases. *Fertil Steril*. 2011;96(2):e90–6.

19 Sabry M, Al-Hendry A. Medical treatment of uterine leiomyoma. *Reprod Sci*. 2012;19(4):339–53.



Dr méd. Laura A. Theisinger
Institut für Radiologie und Nuklearmedizin,
Stadtspital Zürich Triemli, Zürich



Clara Müller, médecin diplômée
Frauenklinik, Stadtspital Zürich Triemli,
Zürich