

Dobrosława L. Sikora-Szcześniak¹, Grzegorz Szcześniak²

Tłuszczakomięśniak więzadła szerokiego macicy – przegląd piśmiennictwa i opis sytuacji klinicznej

Lipoleiomyoma of the broad ligament of the uterus – a literature review and clinical situation report

¹ Oddział Ginekologiczno-Położniczy, Radomski Szpital Specjalistyczny im. dr. Tytusa Chałubińskiego, Radom, Polska. Kierownik Oddziału: lek. Mieczysław Szatanek

² Oddział Chirurgii Ogólnej, Radomski Szpital Specjalistyczny im. dr. Tytusa Chałubińskiego, Radom, Polska. Kierownik Oddziału: dr n. med. Robert Rojewski

Adres do korespondencji: Dobrosława L. Sikora-Szcześniak, Oddział Ginekologiczno-Położniczy, Radomski Szpital Specjalistyczny im. dr. Tytusa Chałubińskiego, ul. Tochtermana 1, 26-610 Radom, tel.: +48 48 361 51 23, faks: +48 48 361 52 33, e-mail: dosiass@wp.pl

¹ Department of Gynecology and Obstetrics, Dr Tytus Chałubiński Specialist Hospital, Radom, Poland. Head of the Department: Mieczysław Szatanek, MD

² Department of General Surgery, Dr Tytus Chałubiński Specialist Hospital, Radom, Poland. Head of the Department: Robert Rojewski, MD, PhD

Correspondence: Dobrosława L. Sikora-Szcześniak, Department of Gynecology and Obstetrics, Dr Tytus Chałubiński Specialist Hospital, Tochtermana 1, 26-610 Radom, Poland, tel.: +48 48 361 51 23, fax: +48 48 361 52 33, e-mail: dosiass@wp.pl

Streszczenie

Tłuszczakomięśniak (*lipoleiomyoma*) należy do łagodnych nowotworów kobiecych narządów płciowych. W tym podtypie histologicznym mięśniaka gładkokomórkowego (*leiomyoma*) wyróżnia się ponadto czystego tłuszczaka i włókniakotłuszczakomięśniaka. Tłuszczakomięśniak składa się z adipocytów, komórek mięśni gładkich i tkanki włóknistej. Celem pracy jest prezentacja przypadku *lipoleiomyoma* prawego więzadła szerokiego macicy – ze względu na niezwykle rzadkie występowanie tego nowotworu. Pięćdziesięcioletnia pacjentka została zakwalifikowana do histerektomii całkowitej z obustronnym usunięciem jajników i jajowodów z powodu stwierdzenia guza zlokalizowanego w podbrzuszu i miednicy mniejszej. Usunięto guz prawego więzadła szerokiego macicy i przydatków prawych, a następnie wykonano histerektomię z przydatkami lewymi. Przedoperacyjna diagnoza nowotworu o typie *lipoleiomyoma* więzadła szerokiego macicy została postawiona po analizie wyników badań obrazowych, tj. badania ultrasonograficznego i tomografii komputerowej, oraz klinicznego obrazu zespołu żyły głównej dolnej. Ostateczne rozpoznanie ustalono na podstawie badania mikroskopowego materiału pooperacyjnego. Z analizy dostępnego piśmiennictwa wynika, że dotychczas w literaturze angielskiej przedstawiono 10 przypadków *lipoleiomyoma* więzadła szerokiego macicy.

Słowa kluczowe: *lipoleiomyoma*, więzadło szerokie macicy, mięśniaki przymacicza

Abstract

Lipoleiomyoma is a benign tumor of the female reproductive organs. This histologic subtype of leiomyoma also includes pure lipoma and fibrolipomyoma. Lipoleiomyoma is composed of adipocytes, smooth muscle cells and fibrous tissue. The aim of the paper is to present a case of lipoleiomyoma of the right broad ligament of the uterus because of the extremely rare occurrence of this tumor. A fifty-year-old patient underwent total hysterectomy with bilateral salpingo-oophorectomy due to a tumor located in the lower abdomen and pelvis. A tumor of the right broad ligament of the uterus and the right adnexa was removed; subsequently, hysterectomy and left adnexectomy were performed. A preoperative diagnosis of lipoleiomyoma of the right broad ligament of the uterus was made following the analysis of the results of diagnostic imaging, i.e. ultrasound and computed tomography scans as well as of the clinical picture of inferior vena cava syndrome. The final diagnosis was made based on microscopic examination of the postoperative material. The analysis of available literature indicates that to date 10 cases of lipoleiomyoma of the broad ligament of the uterus have been presented in English-language medical literature.

Key words: lipoleiomyoma, broad ligament of the uterus, parametrial myomas

WSTĘP

Lipoleiomyoma (LL) wewnętrznych narządów płciowych jest rzadkim nowotworem łagodnym, rozpoznawanym głównie u otyłych kobiet w okresie okolomenopauzalnym i po menopauzie. LL macicy w 90% przypadków występuje u pacjentek powyżej 40. roku życia, najczęściej w wieku 50–70 lat⁽¹⁾.

W klasyfikacji histologicznej nowotworów mezenchymalnych trzonu macicy według Światowej Organizacji Zdrowia LL jest jednym z wariantów (8890/0) niezłośliwego nowotworu żeńskich narządów płciowych, mięśniaka. Składa się z mieszaniny (w różnych proporcjach) komórek mięśni gładkich i dojrzałej tkanki tłuszczowej⁽²⁾. LL w wewnętrznych narządach płciowych najczęściej występuje w trzonie macicy, rzadko – w szyjce macicy, jajnikach i jamie otrzewnej.

Salman i wsp.⁽³⁾, Kim i wsp.⁽⁴⁾ oraz Mishra i wsp.⁽⁵⁾ odnotowali odpowiednio 5, 6 i 8 pozycji w literaturze anglojęzycznej, w których opisano pojedyncze przypadki LL więzadła szerokiego macicy. Ostatni przypadek LL więzadła szerokiego macicy przedstawili Oh i wsp.⁽⁶⁾

Częstość występowania LL wśród mięśniaków macicy nie jest precyzyjnie określona, podawane wyniki wykazują duże zróżnicowanie (0,03–0,2%)⁽⁷⁾.

Wang i wsp. odnotowali LL aż u 2,1% pacjentek z mięśniakami macicy; 83% tych guzów było zlokalizowanych w trzonie macicy, a 13% – w szyjce macicy. Przypadek LL przymacicza stanowił 2,0% z opisanych przez tych autorów 50 przypadków LL (macicy, przymacicza i przestrzeni zaotrzewnowej)⁽²⁾.

Histologicznie LL składa się ze zmiennej ilości komórek mięśni gładkich, dojrzałych adipocytów i tkanki włóknistej^(8–10). W zależności od składu i proporcji poszczególnych tkanek występuje jeden z trzech podtypów histologicznych, określanych przez niektórych autorów jako „tłuszczakowate” nowotwory macicy. Jednym z nich jest tłuszczakomięśniak (*lipoleiomyoma*). W obrazie mikroskopowym tego nowotworu cechami charakterystycznymi są indeks mitotyczny równy zero oraz brak atypii komórkowej, martwicy, zwapnień i innych zmian zwyrodnieniowych⁽²⁾. Do tego podtypu histologicznego zaliczane są jeszcze „czysty” tłuszczak (*pure lipoma*) i włókniakotłuszczakomięśniak (*fibrolipomyoma*)⁽⁸⁾.

Inni autorzy wyróżniają w omawianym podtypie histologicznym następujące grupy: tłuszczaki czyste i mieszane (*lipoleiomyoma*, *angiomyolipoma*, *fibrolipomyoma*) oraz tłuszczakomięśniaki, które występują wyjątkowo rzadko^(2,11). Większość zgłoszonych i omawianych w piśmiennictwie przypadków tych nowotworów jest typu mieszanego i odpowiada rozpoznaniu LL⁽¹²⁾.

Rozpoznanie czystej postaci tłuszczaka – nowotworu bardzo rzadkiego w tej lokalizacji – może być ustalone w badaniu histopatologicznym, gdy tkanka włóknista przedziela tłuszczową tylko cienkimi warstwami, a komórki mięśni gładkich są ograniczone do obwodu guza⁽¹³⁾.

INTRODUCTION

Lipoleiomyoma (LL) of internal reproductive organs is a rare benign tumor diagnosed mainly in obese women in the peri- and postmenopausal period. In 90% of cases LL of the uterus occurs in patients over 40 years of age, usually between 50 and 70 years of age⁽¹⁾.

According to the World Health Organization histologic classification of mesenchymal tumors of the uterine body, LL is one of variants (8890/0) of a benign tumor of female reproductive organs – myoma. It is a mixture of smooth muscle cells and mature adipose tissue (in various proportions)⁽²⁾. Internal reproductive organ LL is usually found in the uterine body and rarely in the cervix, ovaries or peritoneal cavity.

Salman *et al.*⁽³⁾, Kim *et al.*⁽⁴⁾ and Mishra *et al.*⁽⁵⁾ recorded 5, 6 and 8 English-language literature sources, respectively, in which single cases of broad ligament of the uterus LL were reported. The last case of LL of the broad ligament was presented by Oh *et al.*⁽⁶⁾

The prevalence of LL among uterine myomas has not been precisely determined; the results reported show a high variability (0.03–0.2%)⁽⁷⁾.

Wang *et al.* recorded the presence of LL in as many as 2.1% patients with uterine myomas; 83% of these tumors were located in the uterine body and 13% in the uterine cervix. A case of LL of the parametrium accounted for 2.0% of the 50 LL cases (of the uterus, parametrium and retroperitoneal space) reported by these authors⁽²⁾.

Histologically, LL is composed of variable amounts of smooth muscle cells, mature adipocytes and fibrous tissue^(8–10). Depending on the composition and proportions of individual tissues there are three histologic subtypes, including the one which is termed by some authors as lipoma-like uterine tumors. One of them is lipoleiomyoma. The characteristic microscopic features of this tumor include a zero mitotic index and the lack of cellular atypia, necrosis, calcifications or other degenerative lesions⁽²⁾. This histologic subtype also includes pure lipoma and fibrolipomyoma⁽⁸⁾.

Other authors distinguish between the following groups within this histologic subtype: pure and heterogeneous lipomas (*lipoleiomyoma*, *angiomyolipoma*, *fibrolipomyoma*) as well as liposarcomas, which are extremely rare^(2,11). The majority of cases reported and discussed in the literature involve heterogeneous tumors consistent with LL⁽¹²⁾.

The diagnosis of a pure form of lipoma, a very rare tumor in this location, may be determined in a histopathological examination when fibrous tissue divides adipose tissue only with thin layers and smooth muscle cells are limited to the tumor perimeter⁽¹³⁾. Postoperative histopathological diagnosis of this form of tumor is particularly important since it allows for the exclusion of a reproductive organ malignancy^(14,15).

The complex histogenesis of LL is the subject of immunocytochemical studies. This tumor is considered to originate from immature embryonic mesenchymal adipose cells

Pooperacyjne rozpoznanie histopatologiczne tej formy nowotworu jest szczególnie ważne, pozwala bowiem wykluczyć nowotwór złośliwy narządów płciowych^(14,15). Złożona histogeneza LL jest przedmiotem badań immunocytochemicznych. Sądzi się, iż nowotwór ten może powstawać z embrionalnych mezenchymalnych niedojrzałych komórek tłuszczowych w wyniku metaplazji komórek mięśni gładkich lub tkanki łącznej w lipocyty⁽³⁾. Wykazano, że występowanie tego nowotworu w okresie około- i pomenopauzalnym związane jest z niedoborem estrogenów oraz zaburzeniami metabolicznymi, takimi jak hiperlipidemia, niedoczynność tarczycy i cukrzyca. Stąd hipoteza, iż zmiany w metabolizmie lipidów odgrywają pewną rolę w promowaniu wewnątrzkomórkowego magazynowania lipidów i rozwoju zmian tłuszczakowatych w mięśniakach⁽⁸⁾.

U większości pacjentek z LL narządów płciowych schorzenie przebiega bezobjawowo, a rozpoznanie jest przypadkowe. Objawy chorobowe – badalny guz w miednicy mniejszej z bólem lub bez niego, nieprawidłowe krwawienie maciczne lub miesiączkowe, częste oddawanie moczu, nietrzymanie moczu i uczucie parcia – są podobne do powodowanych przez obecność mięśniaków⁽²⁾. Rodzaj tych dolegliwości i ich nasilenie są niewątpliwie związane z wielkością LL przymacicza.

W literaturze przedmiotu prezentowany jest pogląd, że LL niedający objawów chorobowych nie wymaga leczenia; ważne, by odróżnić go od innych guzów, np. potworniaka jajnika, wymagających leczenia operacyjnego⁽¹⁶⁾. Jest to możliwe dzięki obecnym technikom obrazowania: tomografii komputerowej czy rezonansowi magnetycznemu⁽¹⁷⁾. Inni autorzy uważają, że tego typu guzy macicy powinny być resektowane – w celu wyeliminowania objawów chorobowych, ale przede wszystkim wykluczenia nowotworów złośliwych, takich jak *leiomyosarcoma* i *liposarcoma*^(10,15). W piśmiennictwie podkreślana jest rola badań obrazowych – badania ultrasonograficznego, tomografii komputerowej, a szczególnie rezonansu magnetycznego – w diagnostyce różnicowej i przedoperacyjnej. Badania te umożliwiają zdiagnozowanie LL narządów płciowych przed operacją, a także ustalenie bardziej precyzyjnego rozpoznania w innych rzadkich schorzeniach narządów płciowych^(9,11,13). W badaniu ultrasonograficznym w guzach LL widoczne są obszary hiperechogeniczne z hipoechogeniczną otoczką. W tomografii komputerowej może zostać uwidoczniowana niejednorodna masa guza o gęstości tkanki tłuszczowej. Rezonans magnetyczny wykazuje zaś wyraźnie niejednorodną masę o wysokiej intensywności sygnału w sekwencjach T1 i niskiej intensywności sygnału na obrazach T2-zależnych⁽¹⁸⁾.

OPIS PRZYPADKU

Pacjentka, lat 50, została skierowana przez lekarza podstawowej opieki zdrowotnej do Radomskiego Szpitala Specjalistycznego im. dr. Tytusa Chałubińskiego z rozpoznaniem:

as a result of metaplasia of smooth muscle cells or connective tissue into lipocytes⁽³⁾. It has been demonstrated that the occurrence of this tumor in peri- and postmenopausal period is associated with estrogen deficit and metabolic disorders such as hyperlipidemia, hypothyroidism and diabetes. This leads to the hypothesis that changes in lipid metabolism play a certain role in promoting intracellular storage of lipids and the development of lipoma-like lesions in myomas⁽⁸⁾.

In the majority of patients with LL of the reproductive organs the disease is asymptomatic and the diagnosis happens by chance. Disease symptoms – a palpable tumor in the pelvis with or without pain, abnormal uterine or menstrual bleeding, frequent urination, urinary incontinence and urge to urinate – are similar to the ones caused by myomas⁽²⁾. The type of complaint and its intensity are undoubtedly associated with the size of parametrial LL.

There is a view put forward in the literature that asymptomatic LL does not require treatment; it is important, however, to differentiate it from other tumors such as ovarian teratoma, for instance, which require surgical treatment⁽¹⁶⁾. It is possible thanks to the currently used imaging techniques: computed tomography and magnetic resonance imaging⁽¹⁷⁾. Other authors believe that such uterine tumors should be resected, not merely to eliminate symptoms, but primarily to exclude malignancies such as leiomyosarcoma and liposarcoma^(10,15).

The role of diagnostic imaging: ultrasound, computed tomography and magnetic resonance imaging in particular for differential and preoperative diagnosis is highlighted in the literature. These examinations allow for the diagnosis of LL of the reproductive organs before the surgery and a more precise diagnosis in other rare conditions of the reproductive system^(9,11,13). In ultrasound examination hyperechoic areas with a hypoechoic ring are visible in LL tumors. A computed tomography image may show a heterogeneous mass with the density of adipose tissue. Magnetic resonance imaging shows a distinctly heterogeneous mass with high signal intensity on T1-weighted images and low signal intensity on T2-weighted images⁽¹⁸⁾.

CASE REPORT

A 50-year-old patient was referred by her primary care physician to Dr Tytus Chałubiński Specialist Hospital of Radom, Poland, with the diagnosis of mid abdominal tumor. On 2.09.2012 the patient was admitted to the Department of Gynecology and Obstetrics with the preliminary diagnosis of right ovarian cyst.

According to the patient's history the first menstruation occurred at 13 years of age. Lately the patient had had irregular menstrual bleeding, every 28–40 days, lasting as long as 7 days, painful. The last menstruation was on 28.08–1.09.2012. The patient gave birth five times by natural delivery. She had a spontaneous abortion once.

Pain in the right lower abdomen and a sense of discomfort in the abdominal cavity appeared approximately 8 months

guz śródbrzusza. W dniu 2.09.2012 r. została hospitalizowana na Oddziale Ginekologiczno-Położniczym z rozpoznaniem wstępnym: torbiel jajnika prawego.

Według danych z wywiadu pierwsza miesiączka w 13. roku życia. Ostatnio miesiączki nieregularne, co 28–40 dni, przedłużające się do 7 dni, bolesne. Ostatnia miesiączka w dniach 28.08–1.09.2012 r. Pacjentka rodziła pięciokrotnie, drogami natury. Roniła jeden raz, samoistnie.

Dolegliwości bólowe w okolicy podbrzusza po stronie prawej i uczucie dyskomfortu w jamie brzusznej pojawiły się około 8 miesięcy przed zabiegiem operacyjnym. Wystąpiły nieregularne krwawienia maciczne, a przed ostatnim krwawieniem 3-miesięczna przerwa. W ciągu 3 miesięcy poprzedzających hospitalizację występowały także obrzęki kończyn dolnych, szczególnie kończyny dolnej prawej, oraz – według relacji pacjentki – „uczucie ciężkości” brzucha.

W chwili przyjęcia na oddział ogólny stan chorej był dobry. Masa ciała wynosiła 90,0 kg, wskaźnik masy ciała – 35,16 (otyłość II stopnia – otyłość kliniczna), ciśnienie tętnicze – 140/80 mm Hg, tętno – 80/min, temperatura – 36,6°C.

Wyniki badań laboratoryjnych, w tym CA-125 i CEA, mieściły się w granicach normy.

W badaniu ginekologicznym zestawionym stwierdzono przemieszczenie trzonu macicy (o wymiarach 70 × 50 mm) na stronę lewą. Ocena przydatków po stronie prawej była utrudniona z powodu guza zlokalizowanego w miednicy mniejszej, podbrzuszu i częściowo śródbrzuszu.

W badaniu ultrasonograficznym (3.09.2012 r.) stwierdzono trzon macicy w przodozgięciu o wymiarach 66 × 46 × 40 mm, endometrium grubości 6 mm o wyraźnych granicach, hiperechogeniczne. Jajnik lewy o wymiarach 29 × 20 mm i prawidłowej strukturze. Po stronie prawej widoczny jajnik z torbielą o średnicy 30 mm, nad macicą guz o niejednorodnej echogeniczności, z przestrzeniami płynowymi, o wymiarach 135 × 145 mm (ryc. 1).

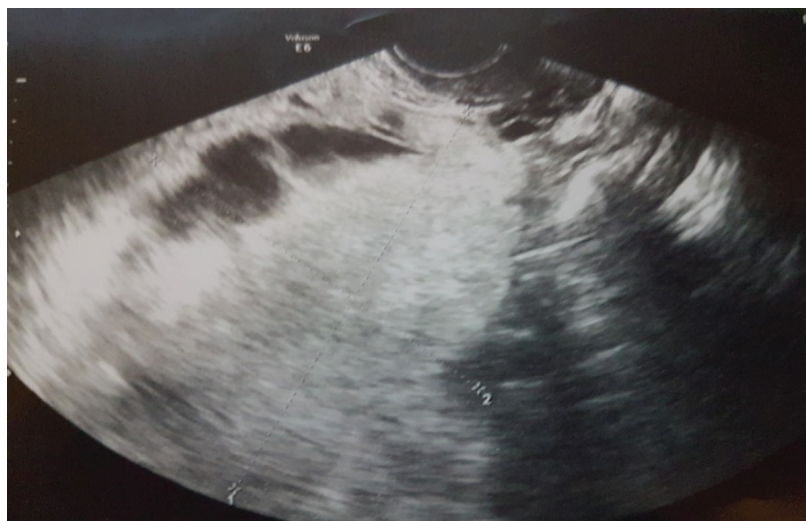
before the operation. Irregular uterine bleeding occurred and a 3-month interval preceded the last bleeding. Within the 3 months before the surgery lower limb edema also occurred, especially in the right leg, and, as the patient put it, “a sense of heaviness” of the abdomen.

Upon admission the patient was in a good general condition. The patient’s body mass was 90.0 kg, body mass index – 35.16 (class II obesity – clinical obesity), blood pressure – 140/80 mm Hg, pulse – 80/min, body temperature – 36.6°C. The results of laboratory tests, including CA-125 and CEA were within normal limits.

Bimanual gynecologic examination revealed displacement of the uterine body (of 70 × 50 mm) to the left. The assessment of the right parametria was difficult due to a tumor located in the pelvis, lower abdomen and partly in mid abdomen.

An ultrasound scan (3.09.2012) revealed an anteflexed uterus of 66 × 46 × 40 mm and endometrium 6 mm thick with distinct margins, hyperechoic. The left ovary was of 29 × 20 mm with a normal structure. On the right side an ovary with a cyst 30 mm in diameter and above the uterus a tumor with heterogeneous echogenicity, fluid spaces and dimensions of 135 × 145 mm were visible (Fig. 1).

A computed tomography scan (6.09.2012) revealed a tumor-like lesion of 188 × 102 × 170 mm, relatively well-separated from the surrounding area; the lesion enhanced irregularly (to a small extent) following intravenous administration of a contrast agent (Visipaque). Adipose and fluid components were evident in the lesion. The lesion was located in the lower abdomen and pelvis, involving the right parametria. The uterus was enlarged, slightly displaced by the tumor mass to the left. No enlarged abdominal lymph nodes were visualized. The morphology, location and pattern of enhancement of the tumor suggested the point of origin to be the right parametria to the most extent (Figs. 2 and 3).



Ryc. 1. Obraz ultrasonograficzny zmiany
Fig. 1. Ultrasound image of the lesion

W badaniu tomograficznym (6.09.2012 r.) stwierdzono guzową, dość dobrze odgraniczoną od otoczenia zmianę o wymiarach 188 × 102 × 170 mm, wzmacniającą się nieregularnie (w niewielkim stopniu) po dożylnym podaniu środka cieniującego (Visipaque). W jej obrębie widoczna komponenta tłuszczowa i płynowa. Zmiana zlokalizowana w podbrzuszu i miednicy mniejszej, obejmująca swoim zasięgiem przydatki prawe. Macica powiększona, nieznacznie przemieszczona przez masę guza na stronę lewą. Powiększenia węzłów chłonnych jamy brzusznej nie uwidoczniło. Morfologia, lokalizacja i sposób wzmacnienia guza sugerowały najbardziej punkt wyjścia z przydatków po stronie prawej (ryc. 2 i 3).

Na podstawie obu badań z zakresu diagnostyki obrazowej (badania ultrasonograficznego i tomografii komputerowej) oraz klinicznie manifestującego się zespołu żyły głównej dolnej przedoperacyjnie ustalono rozpoznanie guza przymacicza prawego o typie *lipoleiomyoma*.

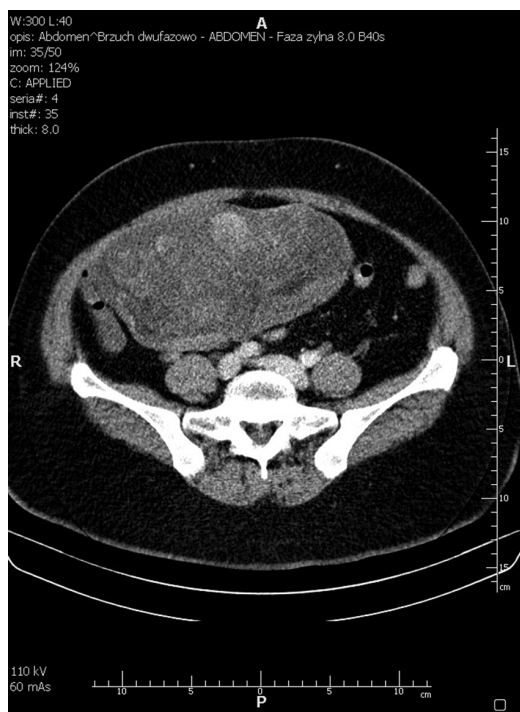
Pacjentkę zakwalifikowano do zabiegu laparotomii z cięcia pośrodkowego dolnego. Operację wykonano w dniu 10.09.2012 r. W więzadle szerokim prawym stwierdzono obecność elastycznego guza o wymiarach 220 × 210 × 110 mm, z rozpiętym nad nim jajnikiem i jajowodem. Trzon macicy był miernie powiększony (55 × 40 × 35 mm), przemieszczony na stronę lewą, o ograniczonej ruchomości z powodu litego zrostu ze ścianą pęcherza moczowego i siecią większą. Przydatki lewe znajdowały się w zroście z okrężnicą zstępującą, w jajniku

Based on both diagnostic imaging examinations (ultrasound and computed tomography scans) and the clinical manifestation of inferior vena cava syndrome, lipoleiomyoma of the right parametrium was diagnosed preoperatively.

Laparotomy using lower midline incision was planned. The surgery was performed on 10.09.2012. A pliable tumor of 220 × 210 × 110 mm was found in the right broad ligament with an ovary and fallopian tube extending over it. The uterine body was moderately enlarged (55 × 40 × 35 mm), displaced to the left, with limited mobility due to a solid adhesion to the urinary bladder wall and the greater omentum. The left adnexa were joined by adhesion with the descending colon and a serous cyst was found in the ovary. The remaining abdominal organs were unchanged macroscopically or on palpation. Using sharp and blunt surgical technique, after the adhesions were released the right parametrial and adnexal tumor was excised; subsequently, hysterectomy with left adnexectomy was performed using typical technique.

The final diagnosis was established at the Department of Anatomical Pathology of Dr Tytus Chałubiński Specialist Hospital of Radom based on microscopic examination of the postoperative material (Fig. 4 A, B). Histopathological examination revealed endometriosis of the uterine body and an encapsulated LL tumor of the right broad ligament of the uterus with the dimensions of 220 × 210 × 110 mm.

In the perioperative period antibiotic prevention was used (Biofazon 1.0 g). Subsequently, due to a body temperature



Ryc. 2. Tomografia komputerowa – widoczna zmiana lita w przymaciczu po stronie prawej
Fig. 2. Computed tomography: a solid lesion in the right parametrium



Ryc. 3. Tomografia komputerowa – widoczna zmiana przylegająca do prawej krawędzi macicy
Fig. 3. Computed tomography: a lesion adjacent to the right margin of the uterus

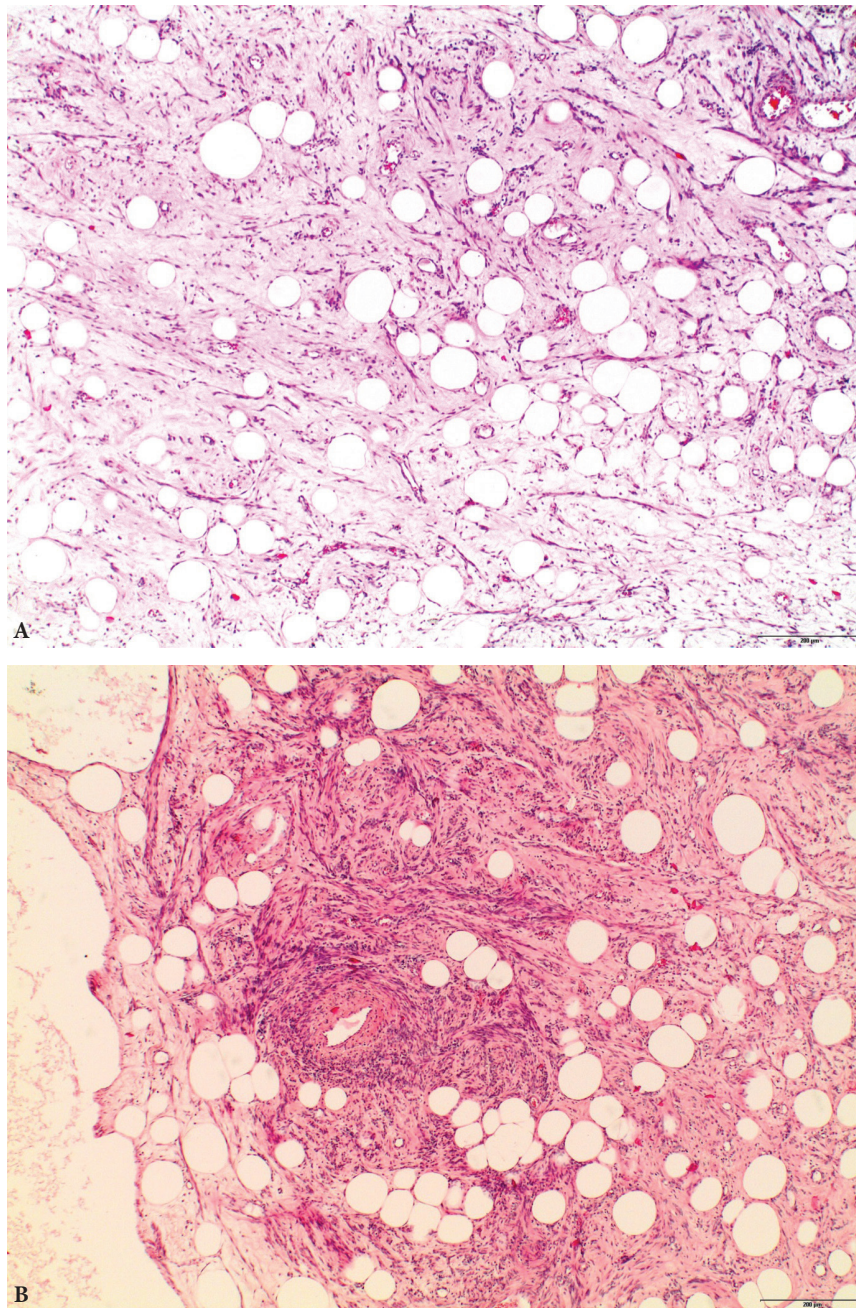
stwierdzono torbiel surowiczą. Pozostałe narządy jamy brzusznej makroskopowo i w badaniu palpacyjnym były niezmienione. Operując na ostro i na tępo, po uwolnieniu zrostów wykonano wycięcie guza przymacicza prawego i przydatków prawych, a następnie histerektomię z przydatkami lewymi w sposób typowy.

Ostateczne rozpoznanie ustalone zostało w Zakładzie Patomorfologii Radomskiego Szpitala Specjalistycznego im. dr. Tytusa Chałubińskiego na podstawie badania mikroskopowego materiału pooperacyjnego (ryc. 4 A, B). W badaniu histopatologicznym stwierdzono endometriozę trzonu

increase (periodically up to 38.0°C), Amoksiklav was administered until the 7th day after the operation. Clexane was used to prevent thromboembolism. The patient was discharged from the department on the 8th day after the operation.

DISCUSSION

The presence of LL in the broad ligament and round ligament of the uterus, ovary and peritoneal cavity was found in single cases^(3,19).



Ryc. 4 A, B. Mikroskopowy obraz guza składającego się z komórek mięśni gładkich i tkanki tłuszczowej, H-E $\times 200$
Fig. 4 A, B. Microscopic image of a tumor composed of smooth muscle cells and adipose tissue, H-E $\times 200$

macicy i guz otorebkowany prawego więzadła szerokiego macicy typu LL, o wymiarach 220 × 210 × 110 mm. Okołooperacyjnie profilaktycznie zastosowano antybiotyk (Biofazolin 1,0 g). Następnie, w związku ze wzrostem temperatury (okresowo do 38,0°C), do 7. doby po operacji podawano Amoksiklav. W profilaktyce choroby zakrzepowo-zatorowej stosowano Clexane. Pacjentka została wypisana z oddziału w 8. dobie po operacji.

OMÓWIENIE

Występowanie LL w więzadle szerokim macicy, więzadle obłym, jajnika, otrzewnej zostało odnotowane w pojedynczych przypadkach^(3,19).

W przeciwieństwie do zwykłych mięśniaków wariant LL wewnętrznych narządów płciowych rozpoznawany jest u kobiet w okresie około- i pomenopauzalnym. W opublikowanych zestawieniach przypadków LL więzadła szerokiego macicy średni wiek pacjentek wyniósł 55 lat (43–68 lat)^(3–6). W prezentowanym przypadku była to kobieta 50-letnia, w okresie okołomenopauzalnym, z nieregularnymi krwawieniami macicznymi. Występujące w tym okresie życia kobiety schorzenia, takie jak niedoczynność tarczycy, cukrzyca czy hiperlipidemia, powodują zmiany metaboliczne będące przyczyną rozwoju tkanki tłuszczowej w metamorfozie LL^(8,19). W przedstawionym przypadku stwierdzono otyłość (wskaźnik masy ciała 35,16), opisywaną także przez innych autorów u chorych z LL więzadła szerokiego macicy.

Najczęstsze symptomy LL to uczucie dyskomfortu w jamie brzusznej i ból brzucha. W omawianym przypadku dolegliwości te zlokalizowane były w okolicy podbrzusza po stronie prawej. Obrzęki kończyn dolnych – u opisywanej pacjentki szczególnie kończyny dolnej prawej – są objawem charakterystycznym zespołu żyły głównej dolnej występującym przy dużych guzach więzadła szerokiego macicy.

Przedoperacyjnie w większości przypadków LL prezentowanych w piśmiennictwie rozpoznawano guzy jajnika^(4–6). Związane było to zapewne z rzadkim występowaniem LL w tej lokalizacji oraz z tym, że nie zawsze wykonywano kompleksową diagnostykę obrazową: badanie ultrasonograficzne, tomografię komputerową i rezonans magnetyczny⁽¹⁹⁾.

W opisywanym przypadku wniosek – po badaniu tomografii komputerowej – iż zmiana ma punkt wyjścia z przydatków prawych, nie był spójny z wynikiem wykonanego wcześniej badania ultrasonograficznego, w którym stwierdzono niezmienny jajnik prawy. Na podstawie obu badań (ultrasonograficznego i tomografii komputerowej) oraz klinicznie manifestującego się zespołu żyły głównej dolnej przedoperacyjnie ustalono rozpoznanie guza przymacicza prawego o charakterze LL.

W czasie operacji stwierdzenie umiejscowienia guza w więzadle szerokim macicy i miękka konsystencja zmiany także przemawiały za ustalonym przedoperacyjnie rozpoznaniem LL przymacicza.

Unlike ordinary myomas, LL of the internal reproductive organs is diagnosed in women in the peri- and postmenopausal period. The mean age of patients in the published accounts of broad ligament LL cases was 55 years (43–68 years)^(3–6). In the present case the woman was 50 years old, in the perimenopausal period, with irregular uterine bleeding. Diseases which occur in women in this period of life such as hypothyroidism, diabetes or hyperlipidemia cause metabolic changes which result in the development of adipose tissue in the metamorphosis of LL^(8,19). In the present case obesity was diagnosed (body mass index of 35.16), also reported by other authors in patients with LL of the broad ligament of the uterus.

The most common symptoms of LL include a sense of discomfort in the abdominal cavity and abdominal pain. In the present case these complaints were located in the right mid abdomen area. Lower limb edema – particularly of the right leg in this patient – is a characteristic symptom of inferior vena cava syndrome associated with large tumors of the broad ligament of the uterus.

Before surgery in the majority of LL cases presented in the literature ovarian tumors were diagnosed^(4–6). This was probably due to the rare occurrence of LL in this location and the fact that comprehensive diagnostic imaging including ultrasound, computed tomography and magnetic resonance imaging scans was not always performed⁽¹⁹⁾.

In the present case the post-computed tomography conclusion that the lesion's point of origin was the right adnexa was not consistent with the result of the previously performed ultrasound scan in which an unchanged right ovary was observed. Based on both examinations (ultrasound and computed tomography scans) and the clinical manifestation of inferior vena cava syndrome, LL of the right parametrium was diagnosed preoperatively.

The intraoperative finding that the tumor was located in the broad ligament of the uterus and the soft consistency of the lesion also supported the preoperative diagnosis of parametrial LL.

The proportion of adipose cells to smooth muscles in the classification of a tumor as LL is not precisely defined. The proportion of adipose cells may range between 5% and 95% of the LL mass⁽²⁰⁾. In the removed parametrial LL tumor focal yellow areas of adipose cells were found. The coexistence of reproductive organ LL and other neoplasms as well as adenomyosis and endometriosis is frequently observed^(6,12). Endometriosis of the uterine body was diagnosed in the present case.

According to the literature, in one case myomectomy was performed and in the remaining ones hysterectomy with bilateral adnexectomy was conducted. The size of the excised LL tumors ranged between 8 and 40 cm^(4,5). In the present case both the extent of surgery and the size of excised parametrial LL were similar to those presented in the literature. Differential and preoperative diagnosis should primarily include benign and malignant teratoma as well as liposarcoma.

Proporcja komórek tłuszczowych do mięśni gładkich w klasyfikacji nowotworu jako LL nie jest wyraźnie zdefiniowana. Odsetek adipocytów może mieścić się w zakresie 5–95% masy LL⁽²⁰⁾. W usuniętym LL przymacicza stwierdzono ogniskowo żółtawe obszary komórek tłuszczowych. Współwystępowanie w przypadkach LL narządów płciowych innych nowotworów oraz adenomiozy i endometriozy jest często odnotowywane^(6,12). U opisywanej chorej rozpoznano endometriozę trzonu macicy.

Jak wynika z piśmiennictwa, wykonane operacje to w jednym przypadku miomektomia, a w pozostałych – histerektomia z przydatkami obustronnie. Wielkość usuniętych guzów LL mieściła się w przedziale 8–40 cm^(4,5). U prezentowanej pacjentki zarówno zakres operacji, jak i wielkość usuniętego LL przymacicza były podobne do przedstawianych w piśmiennictwie.

Diagnostyka różnicowa i przedoperacyjna powinna uwzględniać przede wszystkim łagodne i złośliwe postacię potworniaka oraz tłuszczakomięsaka.

W badaniach immunohistochemicznych tego nowotworu w komórkach mięśni gładkich stwierdza się ekspresję dla aktyny, desminy, h-kaldesmonu i wimentyny. Tkanka tłuszczowa wykazuje ekspresję wobec wimentyny i białka S-100⁽³⁾.

Ostateczne rozpoznanie ustalane jest na podstawie badania histopatologicznego materiału pooperacyjnego.

WNIOSKI

Ultrasonografia i tomografia komputerowa umożliwiły przedoperacyjne rozpoznanie typu guza przymacicza – lipoleiomyoma.

Pomimo łagodnego charakteru guza w badaniach obrazowych postępowaniem z wyboru w podobnych przypadkach pozostaje zabieg operacyjny.

Konflikt interesów

Autorzy nie zgłaszają żadnych finansowych ani osobistych powiązań z innymi osobami lub organizacjami, które mogłyby negatywnie wpłynąć na treść publikacji oraz rościć sobie prawo do tej publikacji.

Piśmiennictwo / References

1. Manimaran D, Khan DM, Yasmin S *et al.*: Lipoleiomyoma: a rare variant of uterine leiomyoma. *Int J Health Allied Sci* 2014; 3: 255–258.
2. Wang X, Kumar D, Seidman JD: Uterine lipoleiomyomas: a clinicopathologic study of 50 cases. *Int J Gynecol Pathol* 2006; 25: 239–242.
3. Salman MC, Atak Z, Usubutun A *et al.*: Lipoleiomyoma of broad ligament mimicking ovarian cancer in a postmenopausal patient: case report and literature review. *J Gynecol Oncol* 2010; 21: 62–64.
4. Kim HK, Kim JH, Hong SY *et al.*: A uterine lipoleiomyoma of the broad ligament mimicking an ovarian tumor. *Korean J Obstet Gynecol* 2012; 55: 787–790.
5. Mishra SS, Saha A, Mishra P *et al.*: Lipoleiomyoma of the left broad ligament with dermoid cyst in ipsilateral ovary and

Immunohistochemical examination of LL reveals expression for actin, desmin, h-caldesmon and vimentin in smooth muscle cells. Adipose tissue shows expression for vimentin and the S-100 protein⁽³⁾.

The final diagnosis is made based on histopathological examination of the postoperative material.

CONCLUSIONS

Sonography and computed tomography have allowed for the preoperative diagnosis of a type of parametrial tumor – lipoleiomyoma.

Despite the benign nature of the tumor in diagnostic imaging, surgery still remains the treatment of choice in similar cases.

Conflict of interest

The authors do not report any financial or personal affiliations to persons or organizations that could negatively affect the content of or claim to have rights to this publication.

synchronous multiple benign lesions of female genital tract: an unusual association. *Indian J Pathol Microbiol* 2016; 59: 355–358.

6. Oh SR, Cho YJ, Han M *et al.*: Uterine lipoleiomyoma in peri or postmenopausal women. *J Menopausal Med* 2015; 21: 165–170.
7. Bajaj P, Kumar G, Agarwal K: Lipoleiomyoma of broad ligament: a case report. *Indian J Pathol Microbiol* 2000; 43: 457–458.
8. Manjunatha HK, Ramaswamy AS, Kumar BS *et al.*: Lipoleiomyoma of uterus in a postmenopausal woman. *J Midlife Health* 2010; 1: 86–88.
9. Singh R, Kimar B, Bhat RV *et al.*: Uterine lipoleiomyomas: a report of two cases with a brief review of literature. *J Clin Diagn Res* 2012; 6 (Suppl 2), 6: 718–719.
10. Akbulut M, Soysal ME, Duzcan SE: Giant lipoleiomyoma of the uterine corpus. *Arch Gynecol Obstet* 2008; 278: 291–293.
11. Chu CY, Tang YK, Chan TSA *et al.*: Diagnostic challenge of lipomatous uterine tumors in three patients. *World J Radiol* 2012; 4: 58–62.
12. Kitajima K, Kaji Y, Imanaka K *et al.*: MRI findings of uterine lipoleiomyoma correlated with pathologic findings. *AJR Am J Roentgenol* 2007; 189: W100–W104.
13. Sudhamani S, Agrawal D, Pandit A *et al.*: Lipoleiomyoma of uterus: a case report with review of literature. *Indian J Pathol Microbiol* 2010; 53: 840–841.
14. Fernandes H, Naik CN, Swethadri GK *et al.*: Pure lipoma of the uterus: a rare case report. *Indian J Pathol Microbiol* 2007; 50: 800–801.
15. McDonald AG, Dal Cin P, Ganguly A *et al.*: Liposarcoma arising in uterine lipoleiomyoma: a report of 3 cases and review of the literature. *Am J Surg Pathol* 2011; 35: 221–227.
16. Nisa Z, Khandakar B, Dey S *et al.*: Uterine lipoleiomyoma in a premenopausal lady: rare presentation of an uncommon entity. *Sch J Med Case Rep* 2015; 3: 76–78.
17. Fujiwaki R, Ohnuma H, Miura H *et al.*: Uterine lipoleiomyoma in an elderly patient: a case report. *Arch Gynecol Obstet* 2008; 277: 471–474.
18. Loffroy R, Nezzal N, Mejean N *et al.*: Lipoleiomyoma of the uterus: imaging features. *Gynecol Obstet Invest* 2008; 66: 73–75.
19. Frackowiak L, Shafie D: Lipoleiomyoma of the uterus – a case report. *Pol Ann Med* 2011; 18: 139–145.
20. Bolat F, Kayaselçuk F, Canpolat T *et al.*: Histogenesis of lipomatous component in uterine lipoleiomyomas. *Turk J Pathol* 2007; 23: 82–86.