

Dobrosława L. Sikora-Szcześniak¹,
Grzegorz Szcześniak², Wacław Sikora¹

Received: 12.03.2013

Accepted: 08.04.2013

Published: 31.05.2013

Angioleiomyoma wśród mięśniaków narządów rodnych – opis dwóch przypadków

Angioleiomyoma – a rare variant of genital myomas: report of two cases

Ангиолейомиома фиброзных опухолей репродуктивных органов –
доклад о двух случаях

¹ Oddział Ginekologiczno-Położniczy, Radomski Szpital Specjalistyczny im. dr. Tytusa Chałubińskiego.

Ordynator Oddziału: lek. med. Zenon Michalak

² Oddział Chirurgii Ogólnej, Radomski Szpital Specjalistyczny im. dr. Tytusa Chałubińskiego.

Ordynator Oddziału: dr n. med. Robert Rojewski

Correspondence to: Dobrosława L. Sikora-Szcześniak, Oddział Ginekologiczno-Położniczy, Radomski Szpital Specjalistyczny im. dr. Tytusa Chałubińskiego, ul. Tochtermana 1, 26-610 Radom, tel.: 48 361 51 95, e-mail: dosiass@wp.pl

Source of financing: Department own sources

Streszczenie

Wstęp: *Angioleiomyoma (leiomyoma angiogenes)* jest niezłośliwym nowotworem pochodzenia mezenchymalnego. Jego występowanie w trzonie macicy określane jest jako niezwykle rzadkie, a w okolicy więzadła szerokiego macicy – jako skrajnie rzadkie (opisano jedynie pojedyncze przypadki). **Celem pracy** jest przedstawienie przypadków *angioleiomyoma* – trzonu macicy i okolicy więzadła szerokiego macicy – potwierdzonych wynikiem mikroskopowym w pooperacyjnych badaniach histopatologicznych. Określono częstość występowania tego podtypu mięśniaka gładkokomórkowego wśród przypadków operowanych z powodu mięśniaków narządów rodnych. **Materiał i metody:** Do zabiegu operacyjnego kwalifikowano pacjentki na podstawie badania ginekologicznego, badania ultrasonograficznego oraz oceny histologicznej wyskrobiny z jamy macicy. Ostateczne rozpoznanie było ustalane w Zakładzie Patomorfologii Radomskiego Szpitala Specjalistycznego im. dr. Tytusa Chałubińskiego na podstawie badania mikroskopowego materiału pooperacyjnego. Analizę kliniczną przeprowadzono w odniesieniu do przypadków opisanych w dostępnym piśmiennictwie światowym. Określono częstość występowania *leiomyoma angiogenes* wśród przypadków z rozpoznanymi – w badaniach pooperacyjnych – mięśniakami oraz mięśniakami i współistniejącą gruczolistością śródmaciczną narządów rodnych. **Wyniki:** Spośród operowanych kobiet z powodu mięśniaków ($n = 179$; 60,9%) oraz mięśniaków i gruczolistości śródmaciczej ($n = 115$; 39,1%) narządów rodnych – razem 294 przypadki – utkanie *angioleiomyoma* mięśniaka gładkokomórkowo-mięśniowego rozpoznano w pooperacyjnych badaniach histopatologicznych dwukrotnie. Stanowiło to 0,68% grupy kobiet z mięśniakami oraz mięśniakami i gruczolistością śródmaciczną macicy. Z kolei w grupie z mięśniakami i gruczolistością śródmaciczną macicy, które współistniały z *angioleiomyoma*, odsetek ten był ponad dwukrotnie wyższy i wyniósł 1,74%. **Omówienie:** U obu pacjentek odnotowano wartości wskaźnika BMI świadczące o otyłości (54,6 kg/m² i 36,6 kg/m² – klasa III i II), a także powikłania związane z gojeniem rany pooperacyjnej. **Wnioski:** Rozpoznanie *angioleiomyoma* narządów

rodnych umożliwia wyłącznie badanie histopatologiczne. Występowanie *leiomyoma angiogenes* dotyczyło w pierwszym przypadku trzonu macicy, a w drugim okolicy więzadła szerokiego macicy. Odsetek występowania tego nowotworu wśród pacjentek operowanych z powodu mięśniaków narządów rodnych wyniósł 0,68%.

Słowa kluczowe: mięśniaki macicy, *angioleiomyoma* macicy, *angioleiomyoma* więzadła szerokiego macicy, mięśniak komórkowy, mięśniaki przymacicza

Summary

Background: Angioleiomyoma (*leiomyoma angiogenes*) is a benign tumor of mesenchymal origin. Its location in the uterine body is extremely rare and in the broad ligament is considered exceptional (to date, only isolated cases have been described). **The aim of this paper** is to present two histologically verified cases of angioleiomyoma – of the uterine body and of the broad ligament. Incidence of this subtype of leiomyoma among patients operated on for genital myomata is discussed. **Material and methods:** Patients were qualified for surgery based on gynecologic examination, sonographic study and histological assessment of uterine scrapings. Final diagnosis was made in Department of Pathology of the Doctor Tytus Chałubiński Specialized Hospital in Radom based on microscopic study of surgical specimens. Clinical analysis included cases reported in available world literature. Determined were both incidence of *leiomyoma angiogenes* among patients with a postoperative diagnosis of myoma and those with myoma coexisting with intrauterine genital endometriosis. **Results:** Among women operated on for myoma ($n = 179$; 60.9%) and for myoma with intrauterine genital endometriosis ($n = 115$; 39.1%) – a total of 294 cases – angioleiomyoma was found twice in postoperative histological studies. This accounted for 0.68% of the entire group of women with myoma. On the other hand, among those with myoma and endometriosis, this proportion was twice as high, reaching 1.74%. **Discussion:** Both patients had BMI value indicating obesity (54.6 kg/m² and 36.6 kg/m² – class III and II) and poor healing of their surgical wounds. **Conclusions:** Diagnosis of genital angioleiomyoma is possible only based on histological studies. The tumor was located in the uterine body and in the broad ligament, respectively. Incidence rate of this tumor among patients operated on for genital myoma is 0.68%.

Key words: uterine leiomyoma, uterine angioleiomyoma, angioleiomyoma in the broad ligament of the uterus, cellular myoma, parametrial myoma

Содержание

Введение: Ангиолейомиома (*leiomyoma angiogenes*) это доброкачественная опухоль мезенхимального происхождения. Его присутствие в теле матки считается чрезвычайно редким, а в области широкой связки матки – крайне редко (описаны лишь отдельные случаи). **Цель работы** заключается в представлении случаев ангиолейомиома – тела матки и области широкой связки матки – подтвержденных результатом микроскопического исследования в послеоперационных гистопатологических исследованиях. Определена частота высткпления данного подтипа гладкомышечной саркомы среди случаев оперированных по поводу матки репродуктивных органов. **Материал и методы:** На операцию направлялись пациентки на основании гинекологического исследования, ультразвука, а также гистологической оценки соскобов из полости матки. Окончательный диагноз был установлен в Отделении патологии Радомской специализированной больницы им. д-р Тутиса Халубинского на основании микроскопического исследования послеоперационного материала. Клинический анализ был проведен для случаев, описанных в доступной мировой литературе. Определена частота выступления *leiomyoma angiogenes* среди случаев с подтвержденными, в послеоперационных исследованиях, миомами, а также миомами и сопутствующим внутриматочным эндометриозом репродуктивных органов. **Результаты:** Среди оперированных женщин в связи с миомой ($n = 179$; 60,9%), а также миомой исопутствующим внутриматочным эндометриозом ($n = 115$, 39,1%) репродуктивных органов – вместе 294 случая – ангиолейомиома гладкомышечной миомы обнаружена в послеоперационных гистопатологических исследованиях дважды. Это представляло 0,68% группы женщин с миомами, а также миомами и внутриматочным эндометриозом матки. В свою очередь, в группе с миомами и внутриматочным эндометриозом матки, которые сопровождающим ангиолейомиому, этот процент был вдвое выше и составлял 1,74%. **Анализ:** У обеих пациенток зафиксированы значения показателя ВМІ, свидетельствующие о ожирении (54,6 кг/м² и 36,6 кг/м² – класс III и II), а также осложнения, связанные с заживлением послеоперационной раны. **Выводы:** Диагноз ангиолейомиома репродуктивных органов может подтвердиться исключительно в гистопатологическом исследовании. Выступление *leiomyoma angiogenes* касалось в первом случае тела матки, а во втором случае области широкой связки матки. Процент выступления этого вида опухоли среди пациенток, оперируемых на миому репродуктивных органов составил 0,68%.

Ключевые слова: миома матки, ангиолейомиома матки, ангиолейомиома широкой связки матки, клеточная миома, миома параметритом

WSTĘP

Angioleiomyoma (*leiomyoma angiogenes*) jest niezłośliwym nowotworem pochodzenia mezenchymalnego. Nowotwory te zbudowane są z komórek mięśni gładkich ścian tętnic lub żył i zawierają grubościenne naczynia krwionośne, występują najczęściej w kończynach dolnych, górnych oraz w okolicy głowy i szyi⁽¹⁾. Spośród szerokiego repertuaru wariantów mięśniaka gładkokomórkowego (*leiomyoma*) macicy występowanie *leiomyoma angiogenes* w trzonie macicy określane jest jako niezwykle rzadkie, a w okolicy wężadła szerokiego macicy – jako skrajnie rzadkie (opisano jedynie pojedyncze przypadki). Byun i wsp.⁽²⁾ oraz Handler i wsp.⁽³⁾ znaleźli w dostępnej literaturze angielskiej odpowiednio 10 i 11 opisów przypadków *angioleiomyoma uteri*.

CEL PRACY

Celem pracy jest:

- prezentacja dwóch przypadków *angioleiomyoma* narządów rodnych;
- określenie częstości występowania tego podtypu mięśniaka gładkokomórkowego w odniesieniu do stwierdzonych w tym czasie przypadków mięśniaków oraz mięśniaków i gruczolistości śródmaciczej ($n = 294$) macicy oraz – oddzielnie – przypadków mięśniaków współistniejących z gruczolistością śródmaciczną ($n = 115$) macicy.

MATERIAŁ I METODY

Analizie retrospektywnej poddano dokumentację medyczną dwóch chorych spośród 294 operowanych pacjentek, u których w badaniach pooperacyjnych stwierdzono mięśniaki oraz mięśniaki ze współistniejącą gruczolistością śródmaciczną macicy.

Do zabiegu operacyjnego kwalifikowano pacjentki na podstawie badania ginekologicznego, badania ultrasonograficznego oraz oceny histologicznej wyskrobów z jamy macicy. Ostateczne rozpoznanie było ustalane w Zakładzie Patomorfologii Radomskiego Szpitala Specjalistycznego im. dr. Tytusa Chałubińskiego na podstawie badania mikroskopowego materiału pooperacyjnego.

WYNIKI

W materiale własnym na Oddziale Ginekologiczno-Położniczym w Lipsku wśród 294 przypadków z mięśniakami ($n = 179$) oraz mięśniakami i gruczolistością śródmaciczną ($n = 115$) macicy – stwierdzonymi w badaniach pooperacyjnych – odnotowano dwa przypadki *leiomyoma angiogenes*. W pierwszym przypadku był to mięśniak podsurowiczny (*leiomyoma angiogenes partim epithelioides*) umiejscowiony w przedniej ścianie trzonu macicy, w drugim – w okolicy przymacicza lewego (*leiomyoma*

INTRODUCTION

Angioleiomyoma (*leiomyoma angiogenes*) is a benign tumor of mesenchymal origin. These lesions are composed of smooth muscle cells originating in arterial and venous wall and contain thick-walled blood vessels. They usually develop in lower and upper extremities and in head and neck area⁽¹⁾. Among a vast repertoire of variants of smooth-muscle uterine myomata (*leiomyoma*), angiogenic *leiomyoma* of the uterine body is considered very rare and in the broad ligament – extremely rare (to date, single cases only have been described). Byun *et al.*⁽²⁾ and Handler *et al.*⁽³⁾ have found in available English literature 10 and 11 reports of uterine angioleiomyoma, respectively.

AIM OF THE PAPER

The purpose of this paper is:

- to present two cases of genital angioleiomyoma;
- to determine incidence rate of this subtype of smooth-muscle myoma in the context of concomitantly diagnosed myomas and intrauterine endometriosis ($n = 294$) and, separately, of myoma coexisting with endometriosis ($n = 115$).

MATERIAL AND METHODS

Retrospective analysis included hospital records of two patients out of 294 women undergoig surgery, where postoperative histological study revealed myoma and myoma coexisting with intrauterine endometriosis.

Patients were qualified for surgery based on gynecologic examination, sonography and histological study of uterine scrapings. Final diagnosis was determined by Department of Pathology of the Doctor Tytus Chałubiński Specialized Hospital in Radom, based on microscopic study of surgical specimens.

RESULTS

Own material collected over 17 years includes 294 cases of myoma, thereof myoma alone was present in 179 cases and myoma coexisting with intrauterine endometriosis in 115. Among these patients, 2 cases of *leiomyoma angiogenes* were found based on postoperative histological verification. The first was a subserous myoma (*leiomyoma angiogenes partim epithelioides*) located at the anterior wall of the uterine body, and the second – a *leiomyoma angiogenes cellulare oedematosum* located in the left parametrium. In both cases, uterine body harbored lesions consistent with myomata and intrauterine endometriosis. Both cases of *leiomyoma angiogenes* accounted for 0.68% of the group of women with myoma. On the other hand, among women with both myoma and endometriosis, this proportion was twice as high, reaching 1.74%.

angiogenes cellulare oedematosum). W obu przypadkach w trzonie macicy stwierdzono ponadto obecność mięśniaków i gruczolistości śródmacicznej. Dwa przypadki *leiomyoma angiogenes* stanowiły 0,68% grupy kobiet z mięśniakami oraz mięśniakami i gruczolistością śródmaciczną macicy. Z kolei w grupie tylko z mięśniakami i gruczolistością śródmaciczną macicy odsetek ten był ponad dwukrotnie wyższy i wyniósł 1,74%.

OPIS PRZYPADKÓW

PRZYPADEK 1.

Pacjentka 51-letnia, hospitalizowana na Oddziale Ginekologiczno-Położniczym w Lipsku w dniu 20.01.1998 roku celem leczenia operacyjnego z powodu mięśniaków macicy. Przed 6 miesiącami wykonano u niej diagnostyczną abrazję jamy macicy. Wynik badania histopatologicznego: strzępy śluzówki trzonu macicy o cechach zanikowych.

Badanie podmiotowe: Pierwsza miesiączka w 12. roku życia. Miesiączki regularne – co 28 dni, trwające 4 dni, ostatnio obfite, bolesne. Pacjentka rodziła czterokrotnie, drogami i siłami natury, ostatni poród przed 23 laty.

Badanie przedmiotowe: masa ciała – 136 kg, wskaźnik masy ciała (*body mass index*) BMI – 54,6 kg/m² (otyłość superpatologiczna; klasa III). Naciskięcie tętnicze: RR 210/100 mm Hg.

Po konsultacjach specjalistycznych wdrożono leczenie celem normalizacji ciśnienia tętniczego krwi.

W badaniach laboratoryjnych nie stwierdzono odchyłań od stanu prawidłowego. W wymazie z pochwy odnotowano obecność *Staphylococcus saprophyticus* (metycylino-wrażliwy) i *Escherichia coli*.

Chora operowana w dniu 29.01.1998 roku. Jamę brzuszną otwarto cięciem pośrodkowym dolnym. Stwierdzono powiększenie trzonu macicy w całości oraz obecność mięśniaka podsurowicówkowego przedniej ściany trzonu macicy o średnicy około 6,0 cm. W przydatkach lewych niewielka torbiel surowicza okołojajnikowa. Wykonano amputację trzonu macicy z przydatkami obustronnie, w sposób typowy. Kikut szyjki macicy umocowano do więzadeł obłych.

W przebiegu pooperacyjnym odnotowano – w dolnym biegunie – częściowe rozejście rany pooperacyjnej i gojenie częściowo przez rychłozrost, a częściowo przez ziarninowanie. Chora została wypisana z Oddziału w 12. dobie po operacji.

Wynik badania histopatologicznego:

- Trzon macicy: *Leiomyomata duo et endometriosis corporis uteri. Endometrium in stadio proliferacionis.*
- Przydatki lewe: *Atrophia ovarii. Cystoma serosum simplex paraovarialis. Oviductus.*
- Przydatki prawe: *Atrophia ovarii. Oviductus.*
- Mięśniak podsurowicówkowy macicy: *Leiomyoma angiogenes partim epithelioides.*

CASE REPORTS

CASE 1

Patient, aged 51, admitted to our facility on 20.01.1998 for surgical treatment of uterine myoma, with a history of diagnostic uterine abrasion 6 months before. Histological study performed by then revealed atrophic endometrium.

Medical history was unremarkable: menarche at the age of 12, regular periods of 28 days, lasting for 4 days, recently turning more profuse and painful. The patient gave birth four times, always by physiological route; last labour took place 23 years ago.

Physical examination revealed body mass 136 kg (BMI 54.6 kg/m², consistent with suprapathologic obesity, class III), arterial hypertension 210/100 mm Hg.

After consultation by respective specialists, treatment aiming at lowering blood pressure was instituted.

Laboratory tests were within normal range. Vaginal smear revealed the presence of *Staphylococcus saprophyticus* (methicillin-sensitive) and *Escherichia coli*.

The patient underwent surgery on 29.01.1998. Abdominal cavity was opened by low-midline incision. Inspection revealed enlarged uterus with a subserous myoma on the anterior wall, measuring about 6.0 cm and a small serous periovarian cyst on the left. Amputation of the uterine body with bilateral adnexectomy was performed by the standard technique. Uterine stump was affixed to *ligamentum teres uteri* bilaterally.

Postoperative course was complicated by partial dehiscence and healing by granulation and by first intention of the inferior part of surgical wound. The patient was discharged home on the 12th postop day.

Histological study of surgical specimens revealed:

- Uterine body: *Leiomyomata duo et endometriosis corporis uteri. Endometrium in stadio proliferacionis.*
- Left adnexae: *Atrophia ovarii. Cystoma serosum simplex paraovarialis. Oviductus.*
- Right adnexae: *Atrophia ovarii. Oviductus.*
- Subserous myoma of the uterus: *Leiomyoma angiogenes partim epithelioides.*

CASE 2

Patient, aged 47, admitted on 25.02.1999, presenting signs of "acute abdomen". Ailments (abdominal pain, nausea and vomiting) lasted for 3 days, exacerbating on the day of admission.

Medical history was unremarkable, with menarche at the age of 14, periods regular, every 28 days, recently more prolonged, profuse and painful. Last menses on 12.02.1999 roku. The patient gave birth three times, always by natural route. She suffered one spontaneous abortion in the first trimester of pregnancy, terminated by curettage of the uterine cavity.

PRZYPADEK 2.

Chora 47-letnia, przyjęta do szpitala w dniu 25.02.1999 roku. Hospitalizowana z powodu stwierdzenia objawów ostrego brzucha. Dolegliwości chorobowe – w postaci bólów brzucha, nudności, wymiotów – utrzymywały się od 3 dni, w dniu hospitalizacji nasiliły się.

Badanie podmiotowe: Pierwsza miesiączka w 14. roku życia. Miesiączki co 28 dni, ostatnio przedłużone, obfite, bolesne, ostatnia 12.02.1999 roku. Pacjentka rodziła trzykrotnie, drogami i siłami natury. Przeżyła jedno poronienie, samoistne – w pierwszym trymestrze ciąży, zakończone wyłęczkowaniem jamy macicy.

Badanie przedmiotowe: Stan ogólny pacjentki średnio ciężki, RR – 130/100 mm Hg, tętno – 92/min, temperatura ciała – 36,8°C. Masa ciała – 98 kg, wskaźnik BMI – 36,6 kg/m² (otyłość; klasa II). Objawy otrzewnowe dodatnie.

Badanie ginekologiczne: We wziernikach w pochwie treść krwisto-ropna, widoczna nić spirali antykoncepcyjnej. Sklepienie tylne pochwy uwypuklone, żywo bolesne w czasie wziernikowania.

Badanie zestawione: Trzon macicy w przodozgięciu, w całości powiększony, w ścianie tylnej badalny guz o średnicy około 5,0 cm. W okolicy przymacicza lewego badalny lity opór o wymiarach 8,0 × 6,0 cm, pozostający w łączności z lewą krawędzią macicy. Badanie utrudnione ze względu na objawy zapalenia otrzewnej. Usunięto spiralę antykoncepcyjną, wykonano diagnostyczną abraję jamy macicy (ściany jamy macicy nierówne), długość jamy macicy 8 cm. Wykonano punkcję zatoki Douglasa; uzyskano treść ropną.

W badaniach laboratoryjnych stwierdzono nieprawidłowe wartości WBC – 12,8 × 10³/μl, AST – 55 IU/l (wartości referencyjne 0–32).

Pacjentka została zakwalifikowana do laparotomii w trybie nagłym. Jamę brzuszną otwarto cięciem pośrodkowym dolnym. W jamie otrzewnowej stwierdzono obecność około 1000 ml cuchnącej treści ropnej. W przydatkach lewych ujawniono ropień jajowodowo-jajnikowy i pęknięcie jajnika. Jajnik i jajowód prawy powiększony, z odczynem zapalnym. Trzon macicy w całości powiększony, z obecnością licznych mięśniaków śródściennych, w ścianie tylnej uszypułowany mięśniak podsurowiczy o średnicy 5,0 cm. W okolicy przymacicza lewego owalny guz, o litej konsystencji i wymiarach 8,0 × 6,0 × 5,0 cm, przylegający do lewej krawędzi macicy. Usunięto zrosty przydatków lewych z tylną ścianą macicy i prostopadłą oraz mięśniaka tylnej ściany macicy – przez ukręcenie. Operując naprzemiennie w sposób typowy, usunięto obustronnie przydatki oraz guza okolicy przymacicza lewego, a następnie wykonano amputację trzonu macicy. Kikut szyjki zszyto pojedynczymi szwami hemostatycznymi. Kontrola hemostazy. Drenaż jamy otrzewnowej. Warstwowa rekonstrukcja powłok.

Przebieg pooperacyjny: Dren z jamy otrzewnowej usunięto w 3. dobie po operacji. Antybiotyki (Amikin i Dalacin)

Physical examination revealed moderately severe general condition, BP – 130/100 mm Hg, P – 92/min, temperature – 36.8°C, body mass – 98 kg, BMI – 36.6 kg/m² (obesity class II). Positive peritoneal signs.

Gynecologic examination using a speculum revealed bloody-purulent vaginal discharge, visible thread of a contraceptive spiral. Bulging posterior vaginal fornix, exquisitely painful to palpation.

Bimanual examination revealed uterine body in antero-flexion, enlarged and a palpable tumor of about 5.0 cm in the posterior wall. In the left adnexae, a palpable solid resistance measuring about 8 by 6 cm, adherent to the pelvic ridge. Examination complicated by coexisting signs of peritonitis. Contraceptive spiral was removed and diagnostic abrasion of uterine walls was performed. Walls of the uterus were uneven and uterine cavity measured about 8 cm. Puncture of the Douglas cavity yielded pus. Laboratory tests revealed elevated WBC (12.8 × 10³/μl) and AST (55 IU/L; reference value: 0–32).

The patient was qualified for emergency laparotomy. Abdominal cavity was opened by low-midline incision. Peritoneal cavity contained about 1000 ml of stinking pus. Left adnexae contained an oviductal-ovarian abscess with ruptured ovary. Right oviduct and right ovary were enlarged with visible inflammatory reaction. Uterine body was entirely enlarged, harboring numerous intramural myomata and a pedunculated myoma on the posterior wall, the size of about 5 cm. An oval tumor was found in the left parametrium, solid to palpation, measuring 8 × 6 × 5 cm, adherent to the left pelvic ridge. Adhesions between left adnexae and posterior wall of the uterus and the rectum were freed, and posterior wall myoma was removed by twisting. Operating alternatingly, bilateral adnexectomy was done in the usual way, including the tumor of the parametrium and then the uterine body was amputated. Cervical stump was closed by interrupted hemostatic sutures. Control of hemostasis, peritoneal drainage. Reconstruction of abdominal wall observing anatomical layers.

Postoperative course: Peritoneal drain was removed on the 3rd postop day. Antibiotics (Amikin and Dalacin) were administered to the 6th postop day. Wound healing was complicated by dehiscence of skin and subcutaneous tissue, necessitating secondary suture of the wound on the 8th postop day. Ultimately, the patient was discharged home in a good general condition on the 12th postop day. Histological study revealed:

- Uterine scrapings: *Endometritis et endocervicitis chronica.*
- Uterine body: *Leiomyomata partim hyalinisantia et endometriosis superficialis corporis uteri. Endometritis interstitialis chronica exacerbata.*
- Uterine myoma: *Leiomyoma partim hyalinisans.*
- Left adnexae: *Corpus luteum haemorrhagicum et pyo-ovarium. Pyosalpinx.*
- Right adnexae: *Cystis corporis lutei et follicularis ovarii. Periovaritis acuta fibrinosa. Salpingitis chronica exacerbata. Atrophia ovarii. Oviductus.*

stosowano do 6. doby po operacji. Gojenie rany pooperacyjnej powikłane rozejściem skóry i tkanki podskórnej. W związku z tym powikłaniem w 8. dobie po operacji założono szwy wtórne. W stanie ogólnym dobrym pacjentka została wypisana w 12. dobie po operacji.

Wynik badania histopatologicznego:

- Wyskrobiny z jamy macicy: *Endometritis et endocervicitis chronica*.
- Trzon macicy: *Leiomyomata partim hyalinisantia et endometriosis superficialis corporis uteri. Endometritis interstitialis chronica exacerbata*.
- Mięśniak trzonu macicy: *Leiomyoma partim hyalinisans*.
- Przydatki lewe: *Corpus luteum haemorrhagicum et pyoovarium. Pyosalpinx*.
- Przydatki prawe: *Cystis corporis lutei et follicularis ovarii. Periovaritis acuta fibrinosa. Salpingitis chronica exacerbata. Atrophia ovarii. Oviductus*.
- Guz okolicy więzadła szerokiego macicy: *Leiomyoma angiogenes cellulare oedematosum*.

OMÓWIENIE

Angioleiomyoma występuje zwykle w okolicy głowy, szyi i kończyn dolnych⁽³⁾. Byun i wsp.⁽²⁾ podają, że w dostępnej literaturze angielskiej zarejestrowano tylko 10 przypadków *angioleiomyoma* macicy. Z kolei Handler i wsp.⁽³⁾ w piśmiennictwie angielskim z lat 1966–2007 znaleźli opisy 11 przypadków *angioleiomyoma* macicy.

Z reguły – ze względu na rzadkość występowania tego nowotworu w narządach rodnych – prezentowane są tylko pojedyncze przypadki^(2,4-7). Wyjątkiem są doniesienia autorów chińskich, którzy przedstawili analizę kliniczną kilkudziesięciu pacjentek z tego rodzaju patologią^(8,9).

Leiomyoma angiogenes w narządach płciowych kobiet występuje głównie w trzonie macicy, wykrywany jest zazwyczaj między 4. a 6. dekadą życia⁽¹⁾.

Mięśniaki w przestrzeni zaotrzewnowej wykrywane są bardzo rzadko, niemal wyłącznie u kobiet^(5,10). Paal i Miettinen⁽¹⁰⁾ wśród 56 pacjentów (51 kobiet i 5 mężczyzn), u których stwierdzono guzy przestrzeni zaotrzewnowej, odnotowali tylko jeden przypadek *angioleiomyoma*, u kobiety.

W literaturze przedstawiono tylko kilka przypadków *angioleiomyoma* w przestrzeni zaotrzewnowej^(10,11).

W 2003 roku Hsieh i wsp.⁽⁴⁾ podali, że do tego czasu w języku angielskim opublikowano opisy jedynie 5 przypadków *angioleiomyoma* okolicy więzadła szerokiego macicy. Pojedyncze przypadki występowania *angioleiomyoma* w okolicy więzadła szerokiego macicy odnotowali Agarwal i wsp.⁽¹⁾, Lazović i wsp.⁽¹¹⁾, Cobellis i wsp.⁽¹²⁾ oraz Özkavukcu i wsp.⁽¹³⁾

Przypadek izolowanego *angioleiomyoma* okolicy więzadła szerokiego macicy określony został jako skrajna rzadkość⁽¹²⁾.

Obustronny *angioleiomyoma* w więzadłach szerokich – jako niezwykle przypadek – opisali Chen i wsp.⁽¹⁴⁾

- Tumor of the broad ligament of the uterus: *Leiomyoma angiogenes cellulare oedematosum*.

DISCUSSION

Angioleiomyoma usually occurs in head, neck and legs⁽³⁾. Byun *et al.*⁽²⁾ report only 10 documented cases of uterine *angioleiomyoma* in the available English literature. Handler *et al.*⁽³⁾ have found 11 reports thereof in their survey of papers published between 1966 and 2007.

As a rule, due to extreme rarity of this lesion in the female genitals, only isolated cases are usually presented^(2,4-7). An exception to this are reports by Chinese authors, who presented clinical analysis of several dozens of patients with this pathology^(8,9).

Leiomyoma angiogenes in the female genitals develops mainly in the uterine body and is most often diagnosed between the 4th and 6th decade⁽¹⁾.

Retroperitoneal myomas are detected very rarely and nearly always in women^(5,10). Paal and Miettinen⁽¹⁰⁾ denoted a single case of *angioleiomyoma* in a female among 56 patients with retroperitoneal myomata (51 females and 5 males).

Overall, there is only a handful of retroperitoneal *angioleiomyomata* reported in available literature^(10,11).

In 2003, Hsieh *et al.*⁽⁴⁾ report on only 5 published cases of *angioleiomyoma* of the broad ligament of the uterus in the English literature. Single cases of *angioleiomyoma* in the area of the broad ligament were described by Agarwal *et al.*⁽¹⁾, Lazović *et al.*⁽¹¹⁾, Cobellis *et al.*⁽¹²⁾ and Özkavukcu *et al.*⁽¹³⁾ A case of isolated *angioleiomyoma* of the broad ligament has been called “an extreme rarity”⁽¹²⁾.

A case of bilateral *angioleiomyoma* in both broad ligaments – as entirely unusual – was reported by Chen *et al.*⁽¹⁴⁾ A case of *angioleiomyoma* of the uterine cervix was reported by Ye *et al.*⁽¹⁵⁾

Presence of *angioleiomyoma* tissue in a cellular myoma (*leiomyoma cellulare*) – as seen in our case – to date has been reported by Chinese authors only⁽⁹⁾.

Thomas *et al.*⁽¹⁶⁾ reported on a case of *angioleiomyoma* in a 47 years old woman with cellular atypia, elevated CA-125 and pseudo-Meigs syndrome.

Development of tumors of the *angioleiomyoma* type was associated in some cases with genital tract bleeding, resulting in severe anemia, threatening both health and life of the patients^(2,4,15). Denoted was also rupture of uterus caused by presence of an *angioleiomyoma*⁽¹⁷⁾. In our second case, life-threatening situation resulted from infectious complications, undoubtedly associated with type of contraception used.

Handler *et al.*⁽³⁾ observed a case of coagulopathy caused by large, necrotic uterine *angioleiomyoma*. Degenerative alterations in *angioleiomyoma* result from ischemia and hypoxia, in turn dependent on severity and speed of progression of vascular insufficiency⁽¹⁾.

Przypadek naczyniowego mięśniaka szyjki macicy przedstawili Ye i wsp.⁽¹⁵⁾

Występowanie *angioleiomyoma* w mięśniaku komórkowym (*leiomyoma cellulare*) – jak w opisanym przez nas przypadku – odnotowali jedynie autorzy chińscy⁽⁹⁾.

Thomas i wsp.⁽¹⁶⁾ opisali przypadek *angioleiomyoma* u 47-letniej kobiety z atypią komórkową, podwyższonym stężeniem CA-125 i zespołem pseudo-Meigsa.

Występowanie guzów typu *angioleiomyoma* wiązało się w kilku przypadkach z krwotokami z narządów płciowych, prowadzącymi do ciężkiej niedokrwistości, zagrażającej zdrowiu i życiu chorych^(2,4,15). Odnotowano również pęknięcie macicy spowodowane obecnością *angioleiomyoma*⁽¹⁷⁾. W naszym drugim przypadku zagrożenie zdrowia i życia pacjentki było następstwem powikłań zapalnych narządów płciowych, które niewątpliwie miały związek z rodzajem stosowanej przez nią antykoncepcji.

Handler i wsp.⁽³⁾ zaobserwowali przypadek koagulopatii spowodowany dużym, martwiczo zmienionym *angioleiomyoma* macicy. Obserwowane zmiany zwyrodnieniowe w *angioleiomyoma* wynikają z niedokrwienia i degeneracyjnych zmian zależnych od stopnia i szybkości postępu niewydolności naczyń⁽¹⁾.

Markerami immunohistochemicznymi wykorzystywanymi do potwierdzenia diagnozy *angioleiomyoma* są aktywna mięśni gładkich (SMA), marker CD34 i CD31. Z kolei ujemny wynik badania w kierunku markerów dla wimentyny i desminy pozwala na różnicowanie z takimi nowotworami, jak *angiofibroma*, *angiomyolipoma* i *angiofibroblastoma*⁽¹⁷⁾.

Według opinii prezentowanych w piśmiennictwie nowotwory *angioleiomyoma* powinny być uwzględniane w diagnostyce różnicowej schorzeń macicy i przestrzeni zaotrzewnowej. Przedoperacyjnie ten rodzaj nowotworu rzadko daje się odróżnić od nowotworów złośliwych, również gdy wykorzystywane są najnowocześniejsze metody diagnostyki obrazowej. Rozpoznanie *angioleiomyoma* macicy, jak również okolicy więzadła szerokiego macicy ustala się dopiero w badaniu histopatologicznym pooperacyjnym^(2,13).

Han i wsp.⁽⁸⁾ uważają, że operacje w przypadkach *angioleiomyoma* narządów płciowych są trudniejsze i powinny być wykonywane w zabezpieczeniu preparatami krwi. Dotąd nie opisano nawrotu schorzenia po leczeniu – drogą laparotomii lub laparoskopii – pacjentek ze stwierdzonym w badaniach pooperacyjnych *angioleiomyoma* narządów płciowych⁽¹⁾. Podobne są wyniki dotychczasowej obserwacji operowanych przez nas pacjentek.

W przedstawianych przypadkach – podobnie jak w opisanych w piśmiennictwie *angioleiomyoma* narządów rodnych – diagnoza została postawiona na podstawie badania histopatologicznego. Wykonane zabiegi operacyjne (amputacja trzonu macicy z przydatkami oraz histerektomia z przydatkami) były adekwatne do stwierdzonej śródoperacyjnie sytuacji klinicznej.

Immunohistochemical markers used to confirm the diagnosis of an *angioleiomyoma* are smooth muscle actin (SMA), CD34 and CD31. On the other hand, negative result of tests for vimentin and desmin enables differentiation with such tumors as *angiofibroma*, *angiomyolipoma* and *angiofibroblastoma*⁽¹⁷⁾.

Literature data indicate that *angioleiomyoma* should be included in differential diagnosis of pathologies of the uterus and retroperitoneal space. Without surgery, this tumor type can rarely be differentiated from malignant tumors, even using most modern imaging techniques. Diagnosis of uterine or broad ligament *angioleiomyoma* can be made only based on postoperative histological examination^(2,13).

Han *et al.*⁽⁸⁾ consider that surgical intervention in the case of genital *angioleiomyoma* is more difficult and should be performed under full coverage of blood preparations. To date, there are no reports on cases of recurrence after treatment, be it by laparotomy or laparoscopy⁽¹⁾. Similar impression may be drawn based on the follow-up of our patients.

In our cases, similar to those presented in the literature, genital *angioleiomyoma* was diagnosed based on histological examination. Surgery performed (amputation of uterine body with adnexectomy and formal hysterectomy with adnexectomy) were adequate considering intraoperative findings and overall clinical situation.

Until now, no surgery-related complications have been noticed in our patients.

Both had BMI consistent with obesity (class III and class II, respectively) and the same blood group (B Rh+).

Obesity and inflammation of the genital tract were the underlying causes of complications related with compromised healing of the surgical wound.

In the available literature, no data have been found concerning incidence of tumors of the *angioleiomyoma* kind. In our material encompassing the past 17 years, incidence of this tumor among patients operated on for genital myomas was 0.68%.

CONCLUSIONS

1. Diagnosis of genital *angioleiomyoma* is possible only based on histological study of surgical specimens.
2. Two reported cases of *leiomyoma angiogenes* were located in the uterine body and in the broad ligament.
3. Incidence rate of this tumor among patients operated on for genital myoma is 0.68%.

Jak dotąd u naszych chorych nie odnotowano powikłań związanych z przeprowadzonym leczeniem operacyjnym. U obu pacjentek odnotowano wartości BMI świadczące o otyłości (klasa III i II) oraz tę samą (B Rh+) grupę krwi.

Z otyłością, a także z zapalnymi schorzeniami narządów płciowych należy wiązać stwierdzone powikłania wynikające z gojenia rany pooperacyjnej.

W dostępnym piśmiennictwie nie natrafiono na informacje o częstości występowania nowotworu typu *angioleiomyoma*. W naszym materiale z okresu 17 lat odsetek występowania tego nowotworu wśród pacjentek operowanych z powodu mięśniaków narządów rodnych wyniósł 0,68%.

WNIOSKI

1. Rozpoznanie *angioleiomyoma* narządów rodnych umożliwia wyłącznie badanie histopatologiczne.
2. Występowanie dwóch przypadków *leiomyoma angio-genes* dotyczyło trzonu macicy i okolicy więzadła szerokiego macicy.
3. Odsetek występowania tego nowotworu wśród pacjentek operowanych z powodu mięśniaków narządów rodnych wyniósł 0,68%.

PIŚMIENNICTWO:

BIBLIOGRAPHY:

1. Agarwal S., Gupta S.K., Tejwani N.: Angioleiomyoma of broad ligament. J. Gynecol. Endosc. Surg. 2009; 1: 116–117.
2. Byun J.H., Choi J.H., Kim Y.O. i wsp.: A case of uterine angioleiomyoma causing severe anemia. Korean Journal of Obstetrics and Gynecology 2008; 51: 1203–1209.
3. Handler M., Rezaei F., Fless K.G. i wsp.: Uterine angioleiomyoma complicated by consumptive coagulopathy. Gynecol. Oncol. Case Rep. 2012; 2: 89–91.
4. Hsieh C.H., Lui C.C., Huang S.C. i wsp.: Multiple uterine angioleiomyomas in a woman presenting with severe menorrhagia. Gynecol. Oncol. 2003; 90: 348–352.
5. McCluggage W.G., Boyde A.: Uterine angioleiomyomas: a report of 3 cases of a distinctive benign leiomyoma variant. Int. J. Surg. Pathol. 2007; 15: 262–265.
6. Hakverdi S., Dolapçioğlu K., Güngören A. i wsp.: Multiple uterine angioleiomyomas mimicking an ovarian neoplasm: a case report. Eur. J. Gynaecol. Oncol. 2009; 30: 592–594.
7. Sahu L., Tempe A., Agrawal A.: Angioleiomyoma of uterus. J. Obstet. Gynaecol. 2012; 32: 713–714.
8. Han X.Y., Qie M.R., Yang K.X. i wsp.: Clinical pathologic analysis of 26 cases of uterine vascular leiomyoma. Chinese Journal of Obstetrics and Gynecology and Pediatrics 2005; (1): 23–26.
9. Yuan Y., Tan Y., Zhou P., Zhao F.X.: Analysis of 29 cases of rare uterine angioleiomyoma. China Journal of Modern Medicine 2005; (20): 3162–3163, 3166.
10. Paal E., Miettinen M.: Retroperitoneal leiomyomas: a clinicopathologic and immunohistochemical study of 56 cases with a comparison to retroperitoneal leiomyosarcomas. Am. J. Surg. Pathol. 2001; 25: 1355–1363.
11. Lazović G., Miličević S., Atanacković J. i wsp.: Leiomyoma of the uterus and retroperitoneal angioleiomyoma: case report. Clin. Exp. Obstet. Gynecol. 2007; 34: 257–258.
12. Cobellis L., Pecori E., Rigatti F. i wsp.: A rare case of female pelvic mass: angioleiomyoma of the broad ligament. Eur. J. Gynaecol. Oncol. 2007; 28: 418–420.
13. Özkavukcu E., Aygün S., Erden A., Savaş B.: Pelvic retroperitoneal angioleiomyoma mimicking a uterine mass. Diagn. Interv. Radiol. 2009; 15: 262–265.
14. Chen X., Zhang X., Zhang S., Lü B.: Angioleiomyomas in the bilateral broad ligaments. Int. J. Gynecol. Pathol. 2010; 29: 39–43.
15. Ye M.Z., Xue M., Cheng C.X.: A case of massive vaginal hemorrhage caused by cervical vascular leiomyoma. Modern Medicine and Health 2009; 25: 1927–1929.
16. Thomas S., Radhakrishnan L., Abraham L., Matthai A.: Uterine angioleiomyoma with atypia, raised CA-125 levels, and pseudo-Meigs syndrome: an alarming presentation. Case Rep. Pathol. 2012; 2012: 519473.
17. Culhaci N., Ozkara E., Yüksel H. i wsp.: Spontaneously ruptured uterine angioleiomyoma. Pathol. Oncol. Res. 2006; 12: 50–51.

Szanowni Autorzy!

Uprzejmie przypominamy, że zgodnie z rozporządzeniem Ministra Zdrowia z dn. 6 października 2004 roku w sprawie sposobów dopełnienia obowiązku doskonalenia zawodowego lekarzy i lekarzy dentyistów publikacja artykułu w czasopiśmie „**Current Gynecologic Oncology**” – indeksowanym w Index Copernicus – umożliwia doliczenie 20 punktów edukacyjnych za każdy artykuł do ewidencji doskonalenia zawodowego. Podstawą weryfikacji jest notka bibliograficzna z artykułu.