

## Diagnostic Inattendu devant une Masse Kystique Pelvienne : Mésothéliome Bénin de l'Utérus. A Propos d'un Cas.

Mechaal Mourali, Zied Kedous, Chiraz El Fekih, Amine Bel Hadj Hassine, Aida Ayadi\*, Nabil Ben Zineb

*Service De Gynecologie Obstetrique – Hopital Mahmoud El Matri - Ariana*

*\*Service D'anatomopathologie – Hopital Abderrahman Mami - Ariana*

---

*M. Mourali, Z. Kedous, C. El Fekih, A. Bel Hadj Hassine, A. Ayadi, N. Ben Zineb*

*M. Mourali, Z. Kedous, C. El Fekih, A. Bel Hadj Hassine, A. Ayadi, N. Ben Zineb*

Diagnostic Inattendu devant une Masse Kystique Pelvienne : Mésothéliome Bénin de l'Utérus. A Propos d'un Cas.

Unexpected Diagnosis Of A Cystic Pelvic Mass: Benign Mesothelioma Of The Uterus: Case report.

LA TUNISIE MEDICALE - 2010 ; Vol 88 (n°08) : 605 - 609

LA TUNISIE MEDICALE - 2010 ; Vol 88 (n°08) : 605 - 609

### R É S U M É

**Prérequis :** Le mésothéliome bénin est une tumeur solide rare, de découverte le plus souvent fortuite et touchant principalement la sphère uro-génitale. La forme kystique est encore plus rare

**Observation :** Nous rapportons le cas d'une femme âgée de 30 ans qui a consulté pour des douleurs pelviennes; une masse kystique pelvienne a été découverte à l'échographie. L'exploration chirurgicale a objectivé une formation de la face postérieure de l'utérus. Une résection du dôme saillant a été réalisée. L'examen histologique associé à une étude immunohistochimique conclut à un mésothéliome kystique bénin.

**Conclusion :** Le mésothéliome bénin de l'utérus est une tumeur de découverte histologique. Pour les formes solides, le diagnostic différentiel peut se poser avec un léiomyome ou un adénomyome, tandis que les formes kystiques, plus rares, peuvent donner le change essentiellement avec un kyste de l'ovaire. La positivité des marqueurs mésothéliaux en immunohistochimie améliore le diagnostic. Cette est une tumeur d'évolution favorable, sans risque de récurrence ni de transformation maligne.

### S U M M A R Y

**Background:** Benign mesothelioma is a rare tumour mostly found in the genital tract.

**Case:** We report the case of 30-years old woman presenting pelvic pain. The ultrasound scan revealed a cystic pelvic mass. Laparoscopic exploration showed a uterine posterior formation. The resection of the dome was performed. Histologic exam and immunochemistry concluded to a benign cystic mesothelioma.

**Conclusion:** The benign mesothelioma of the uterus is usually discovered in histology, differential diagnosis for solid forms can be made with leiomyoma or adenomyoma, whereas the cystic forms can be discussed essentially with the ovarian cysts. The presence of mesothelial immunophenotype in immunochemistry improves diagnosis. Clinical outcome is always favourable without recurrence or malignant transformation.

---

### Mots - clés

mésotéliome bénin, tumeur adénomatoïde, utérus

### Key - words

benign mesothelioma, adenomatoid tumor, uterus

---

Le mésotéliome bénin est une tumeur, relativement rare, du tractus génital féminin. Il est le plus souvent asymptomatique et de découverte fortuite. Cette tumeur est le plus souvent rencontrée au niveau de la trompe et de l'utérus, et plus rarement au niveau de l'ovaire et du tissu para ovarien. Elle est connue aussi pour être la tumeur bénigne la plus fréquente de la trompe. Environ 130 cas ont été publiés dans la littérature [1]. Généralement, le mésotéliome bénin apparaît comme un petit nodule unique et solide ; sa fréquence se trouve alors sous-estimée car il est pris souvent pour un léiomyome ou un adénomyome [2]. Le diagnostic est souvent de découverte histologique. La forme kystique du mésotéliome bénin de l'utérus est beaucoup plus rare, elle a été décrite pour la première fois en 1987 [3].

À partir de cette observation, nous allons aborder la clinique, les divers aspects histopathologiques, le traitement ainsi que le pronostic du mésotéliome bénin de l'utérus

### OBSERVATION

Mme A., âgée de 30 ans, sans antécédents pathologiques particuliers, deuxième geste primipare, consulte pour douleurs pelviennes. L'examen clinique est normal, n'objectivant pas de masse pelvienne ni abdominale. L'échographie montre une image kystique anéchogène uniloculaire de 6,15 cm de grand axe de siège rétro-utérin. Une échographie de contrôle faite après deux mois retrouve le même aspect [Photo n°1].

Devant cette masse kystique, plusieurs diagnostics différentiels peuvent être évoqués [Tableau n°1]: la plus fréquente étant le kyste de l'ovaire mais d'autres diagnostics doivent aussi être évoqués tels que la dégénérescence kystique d'un leiomyome utérin, un kyste adénomyosique, un kyste utérin congénital (vestige embryonnaire), un œuf de Naboth ou un kyste hydatique de l'utérus [13]...

**Tableau 1 :** Diagnostics différentiels d'une masse kystique pelvienne

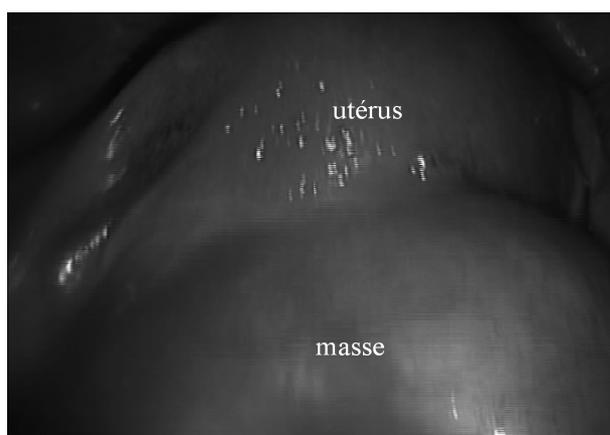
Masses kystiques de l'appareil génital féminin	Autres masses kystiques pelviennes
Kyste fonctionnel de l'ovaire	Vessie neurologique
Kyste organique bénin de l'ovaire	Diverticule vésical
Cancer de l'ovaire	Tumeur urothéliale
Kyste para-ovarien	kystique
Hydatide de Morgani	Kyste de l'ouraque
Grossesse extra-utérine	Abcès appendiculaire
Hydrosalpinx	Diverticulite colique
Pyosalpinx	Kyste du mésentère
Abcès tubo-ovarien	Duplication rectale
Léiomyome en dégénérescence kystique	Faux kystes
Kyste utérin congénital (vestige embryonnaire)	Actinomycose
Kyste hydatique de l'utérus	Abcès pelvien
Hémi-utérus borgne	Abcès du psoas
Hémi-vagin borgne	Kyste hydatique pelvien
Hématomètre	
Hématocolpos	
Mésotéliome kystique	

**Figure 1 :** Image kystique retro- utérine à l'échographie pelvienne

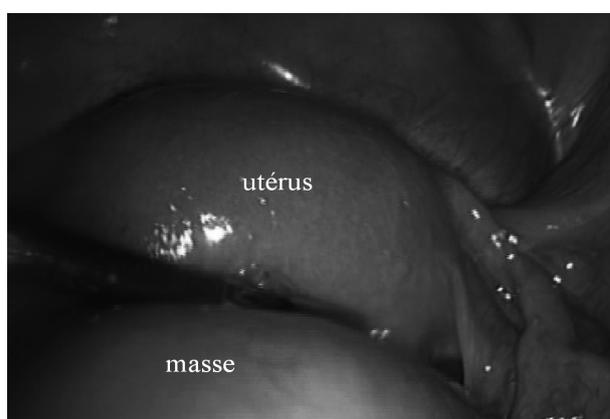


Devant ce tableau de masse kystique pelvienne persistante, une exploration chirurgicale par voie laparoscopique a été indiquée. En peropératoire, on trouve une masse de 7 cm à paroi vascularisée, dépendante de la face postérieure de l'utérus, à contenu liquidien eau de roche, sans autres anomalies associées [Photos n°2,3]. Le geste réalisé était une résection du dôme saillant après aspiration du contenu [Photos n°4-7].

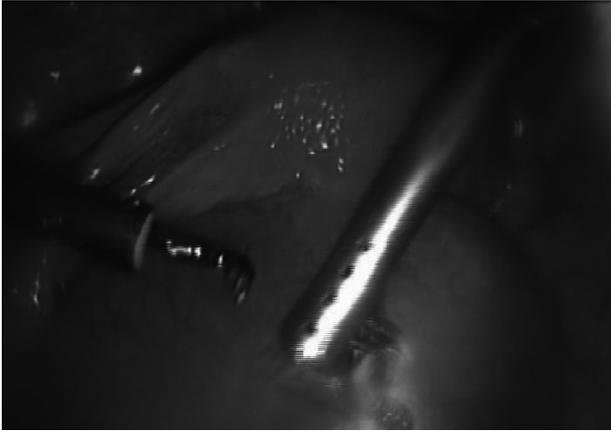
**Figure 2 :** Mésotéliome kystique de la face postérieure de l'utérus



**Figure 3 :** Mésotéliome kystique de la face postérieure de l'utérus



**Figure 4 :** Ponction, aspiration du contenu du mésothéliome et son ouverture



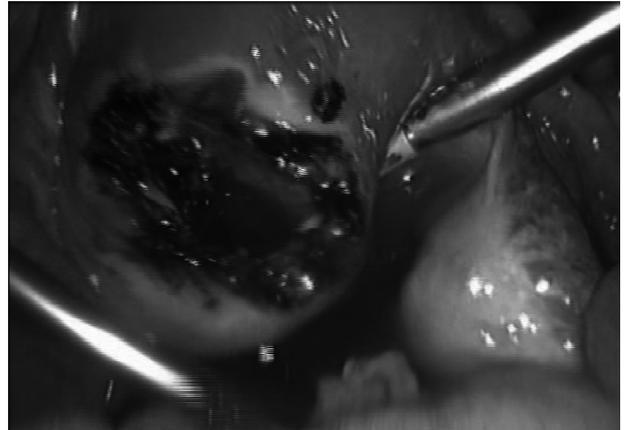
**Figure 5 :** Ponction, aspiration du contenu du mésothéliome et son ouverture



**Figure 6 :** Résection du dôme saillant du mésothéliome kystique de l'utérus avec hémostase des berges



**Figure 7 :** Résection du dôme saillant du mésothéliome kystique de l'utérus avec hémostase des berges



L'analyse histologique montre un tissu musculaire lisse bordé par une assise de cellules endothéliiformes. En immunohistochimie, les cellules de revêtement présentent un marquage intense à la calrétinine et à la cytokératine permettant de retenir le diagnostic de mésothéliome kystique bénin de l'utérus.

#### DISCUSSION

Le mésothéliome bénin de l'utérus a été décrit pour la première fois en 1942 [4]. L'appellation ancienne de tumeur adénomatoïde relevait du fait de la présence de structures pseudoglandulaires faisant évoquer un adénome [5].

Le mésothéliome bénin touche généralement l'appareil génital. Cette tumeur est plus fréquemment observée chez l'homme au niveau de l'épididyme [6], mais elle touche aussi l'appareil génital féminin, siégeant au niveau de la trompe (48 %), de l'utérus (42 %) ou encore de l'ovaire (7 %). Elle constitue la tumeur bénigne la plus fréquente de la trompe [7].

Cependant, de rares cas de mésothéliome bénin ont été rapportés au niveau du cœur, de la glande surrénale, du mésentère, de la plèvre et du rétro-péritoine [8].

L'histogénèse de ces tumeurs a été longuement débattue. Des hypothèses d'origine épithéliale, endothéliale, müllérienne ou mésothéliale ont été évoquées. Les études immunohistochimiques et ultrastructurales plus récentes ont maintenant établi l'origine mésothéliale de ces tumeurs justifiant le terme de mésothéliome bénin [7,9].

L'incidence du mésothéliome bénin de l'utérus sur pièce d'hystérectomie est de 0,37% dans la série de Huang et al.[10] et de 1,2% selon Mainguené [2]. Cependant, la véritable fréquence de cette tumeur est probablement plus importante car elle passe souvent inaperçue du fait de sa petite taille ou de sa ressemblance avec les leiomyomes et adénomyomes [6].

L'âge moyen de survenue est de 41 ans, avec des extrêmes allant de 20 à 85 ans [10]. Notre patiente, âgée de 30 ans, était relativement jeune.

Il est le plus souvent de découverte fortuite mais peut se révéler, comme dans notre cas, par des douleurs abdominales [11], des troubles du cycle le plus souvent dus à des lésions concomitantes (endométriose ou léiomyome). L'évaluation préopératoire ne permet pas de suspecter le diagnostic. En effet, l'aspect échographique est celui d'un léiomyome ou d'un adéomyome utérin [12]. Cependant, l'IRM pourrait avoir un apport certain dans les formes kystiques [13].

La plupart des mésotéliomes bénins de l'utérus sont sous séreux ou bien situés au niveau des couches externes du myomètre. La face postérieure de l'utérus, notamment près des cornes ou du fond, est une localisation de prédilection [9]. Dans notre cas, le mésotéliome avait une localisation classique : sous séreux, au niveau de la face postérieure de l'utérus.

Le mésotéliome bénin de l'utérus se présente le plus souvent comme un nodule unique. L'aspect macroscopique est proche de celui du léiomyome. Il s'agit d'une masse ferme, bien circonscrite mais de façon moins nette qu'un léiomyome, blanc jaune à la coupe, plus ou moins fasciculée. Le diamètre moyen est proche de 2 cm [9]. Cependant, d'autres formes diffuses ou multinodulaires de l'utérus ont été décrites ; ce sont des lésions rares et bénignes, rapportées presque uniquement chez des patientes traitées par immunosuppresseurs dans le cadre d'une transplantation rénale [5,14].

Le mésotéliome bénin de l'utérus est souvent associé à d'autres tumeurs utérines, le plus souvent bénignes (leiomyomes dans 59 à 80% des cas, adénomyomes dans 16,6% des cas) [10]. La coexistence de cette tumeur avec un cancer du col ou un adénocarcinome de l'endomètre a été rapportée dans la littérature [10,15].

Plusieurs formes histologiques ont été trouvées. Quigley et Hart [16] ont décrit quatre formes : adénoïde, angiomatoïde (les plus fréquentes), solide et kystique. Une combinaison entre deux ou plusieurs composantes est possible.

La forme kystique du mésotéliome bénin de l'utérus est la plus rare [3,6,13] et elle est localisée en sous séreux ou en intramural. Deux des cinq cas de mésotéliome kystique rapportés dans la littérature ont des tumeurs multiloculaires avec présence d'une composante solide [3,6]. Les trois autres cas, à l'instar de notre patiente, possèdent des tumeurs purement kystiques sans contingent solide ni de cloisons [13]. Histologiquement, la lésion est constituée d'une prolifération de cellules cubiques ou aplaties, agencées en structures glanduliformes, pseudo-vasculaires ou trabéculaires, enchâssées entre des faisceaux de fibres musculaires lisses hyperplasiques. L'étude immunohistochimique met en évidence une co-expression des cytokératines et de la vimentine

témoignant d'une origine mésotéliale [17]. En microscopie électronique, les cellules possèdent les caractères ultrastructuraux des cellules mésotéliales : microvillosités, faisceaux de tonofilaments, desmosomes nombreux entre les cellules, mais absents le long de la membrane basale qui est par ailleurs épaissie [12]. Le diagnostic de tumeur adénomatoïde multinodulaire repose sur les aspects histologiques adénomatoïdes et angiomatoïdes, ainsi que sur le profil immunohistochimique [14]. Les études immunohistochimiques et ultrastructurales ont maintenant établi l'origine mésotéliale de ces tumeurs justifiant le terme de mésotéliome bénin [9].

L'adénocarcinome est un diagnostic différentiel du mésotéliome bénin utérin. Sur le plan histologique, le mésotéliome bénin de l'utérus se distingue de par une architecture plus régulière, des cellules dépourvues d'atypies et une tumeur qui refoule tout au plus l'endomètre, sans l'infiltrer. De plus, l'adénocarcinome n'exprime pas la vimentine [18]. De même, les proliférations vasculaires comme les lymphangiomes, hémangiomes ou angiomyomes peuvent poser de difficiles problèmes de diagnostic différentiel échographique avec les formes angiomateuses ou kystiques des mésotéliomes bénins. En microscopie optique l'immunohistochimie montre dans le cas des tumeurs d'origine vasculaire des anticorps anti-cytokératines négatifs [7].

L'évolution du mésotéliome bénin de l'utérus est toujours favorable, sans risque de récurrence ni de transformation maligne. Toutefois, il peut évoluer vers une augmentation progressive de taille avec des tumeurs dépassant 10 cm.

Dans les rares cas où le diagnostic de mésotéliome bénin est porté en pré-opératoire, l'exérèse chirurgicale limitée est indiquée. Une hystérectomie peut être pratiquée en raison d'autres lésions utérines (adénomyose et/ou léiomyome) associées [2,5,9]. Dans notre cas, la résection du dôme saillant semble être suffisante vu l'absence de risque de récurrence et de transformation maligne.

---

## CONCLUSION

---

Le mésotéliome bénin de l'utérus est une tumeur de diagnostic histologique. L'évaluation préopératoire ne permet pas de suspecter ce diagnostic en raison de la ressemblance échographique avec un léiomyome. La forme kystique rapportée dans notre travail est très rare. Son origine mésotéliale est maintenant bien établie. L'évolution du mésotéliome bénin de l'utérus est toujours favorable, sans risque de récurrence ni de transformation maligne. Le traitement électif est l'exérèse chirurgicale limitée.

## Références

1. Leaha C, Opris I, Macé P, Resch B et al. Tumeur adénomatoïde kystique utérine. *Annales de Pathologie* 2009 ; 29 : 134-37.
2. Mainguéné C, Hugol D, Hofman P, Clément N et al. Tumeurs adénomatoïdes de l'utérus. Étude de cinq cas avec confirmation immunohistochimique et ultrastructurale de l'origine mésotéliale. *Arch Anat Cytol Pathol* 1996 ; 44 : 174-79.
3. Bisset DL, Moris JA, Fox H. Giant cystic adenomatoid tumor (mesothelioma) of the uterus. *Histopathology* 1987 ; 12: 555-58.
4. Masson P, Piopelle JS. Le mesotheliome bénin de la sphere genitale. *Rev Can Biol* 1942 ; 1: 720-25.
5. Di Stefano D, Faticanti Scucchi L, Covello R, Martinazzoli A, et al. Uterine diffuse adenomatoid tumor. Does it represent a

- different biological entity ? *Gynecol Obstet Invest* 1998; 46 : 68-72.
6. Livingston EG, Guis MS, Pearl ML, Stern JL. Diffuse adenomatoid tumor of the uterus with a serosal papillary cystic component. *Int J Gynecol Pathol* 1992; 11 : 288-92.
  7. Battifora H, Mc Caughey WTE. Tumors of the serosal membranes. *Atlas of tumor pathology*. Washington DC : Armed Forces Institute of Pathology ; 1995. 3rd series ; Fascicle 15.
  8. Terry E, Fowler C. Benign cystic mesothelioma in a child. *Journal of Pediatric Surgery* 2009; 44 : 9-11
  9. Otis CN. Uterine adenomatoid tumors: immunohistochemical characteristics with emphasis on Ber-EP4 immunoreactivity and distinction from adenocarcinoma. *Int J Gynecol Pathol* 1996; 15 : 146-51.
  10. Huang et al. Adenomatoid tumor of the female genital tract. *International Journal of Gynecology & Obstetrics* 50;1995; 275-80
  11. Pollack C, and Jordan R. Benign cystic mesothelioma presenting as acute abdominal pain in a young woman. *The Journal of Emergency Medicine* 1991; 9 : 21-25.
  12. Roux J, Fermeaux V, Gilquin M, Labrousse F. Le mésothéliome bénin de l'utérus. Aspects cliniques, histopathologiques et évidences de son origine mésothéliale. À propos d'un cas *Gynécologie Obstétrique Fertilité* 2002 ; 30 : 50-53
  13. Kim, Jung, Sung and al. Cystic Adenomatoid Tumor of the Uterus. *AJR* 2002;179:1068-70
  14. Duval H <mailto:helene.duval@chu-rennes.fr>, Rioux-Leclercq N, Bauville E, Al Jaradi M. Tumeur adénomatoïde multinodulaire de l'utérus chez une patiente avec allogreffe rénale. *Annales de Pathologie* 2008; 28 : 308-10.
  15. Cserni G, Kocsis L, Pusztai Z, Godo G. Endometrial adenocarcinoma with coexisting adenomatoid tumor of the uterus. *Gynecologic Oncology* 2003; 90 : 207-10.
  16. Quigley JC, Hart WR. Adenomatoid tumor of the uterus. *Am J Clin Pathol* 1981;76:627-35
  17. Nogales F, Isaac M, Hardisson D, Bosincu L. Adenomatoid Tumors of the Uterus: An Analysis of 60 Cases. *International Journal of Gynecological Pathology* 2002; 21 : 34-40.
  18. Gaffey MJ, Mills SE, Swanson PE, Zarbo RJ et al. Immunoreactivity for Ber-EP4 in adenocarcinomas, adenomatoid tumors, and malignant mesotheliomas. *Am J Surg Pathol* 1992; 16: 593-99.