

Torbiel skórzasta jajnika – możliwe powikłania

Dermoid cyst of the ovary – possible complications

© GinPolMedProject 2 (24) 2012

Opis przypadku/Case report

IZABELA ULMAN-WŁODARZ¹, ANETA DZIEWIDEK², KATARZYNA KOPYTO²,
MICHAŁ DZIEWIDEK², DARIA TUCHOLSKA²

¹ Katedra i Oddział Kliniczny Ginekologii i Położnictwa w Tychach,
Śląskiego Uniwersytetu Medycznego w Katowicach

Kierownik: prof. zw. dr hab. n. med. Ryszard Poręba

² Studenckie Towarzystwo Naukowe Katedry Ginekologii i Położnictwa
w Tychach, SUM

Opiekun Koła: dr hab. n. med. Izabela Ulman-Włodarz

Adres do korespondencji/Address for correspondence:

Izabela Ulman-Włodarz

Katedra i Oddział Kliniczny Ginekologii i Położnictwa w Tychach

ul. Edukacji 102, 43-100 Tychy

tel. +48 32 3254336, e-mail: sekretariat@ginekologia.tychy.pl

Statystyka/Statistic

Liczba słów/Word count 1158/1382

Tabele/Tables 0

Ryciny/Figures 0

Piśmiennictwo/References 17

Received: 15.08.2011

Accepted: 21.03.2012

Published: 15.06.2012

Streszczenie

W pracy przedstawiono przypadek pacjentki ze zdiagnozowaną torbielą skórzastą hospitalizowaną w Oddziale Klinicznym Ginekologii i Położnictwa w Tychach. Zmiana tego typu często przebiega bezobjawowo, ale może też powodować bóle, dodatkowe krwawienia czy niespecyficzne objawy gastryczne. W jej przebiegu należy obawiać się szczególnie skrętu szypuły torbieli czy też pęknięcia z wylaniem treści i w konsekwencji zapalenia otrzewnej. Powikłania mogą być na tyle niebezpieczne iż wskazana jest, jak najszybsza interwencja operacyjna jako stanu nagłego w ginekologii.

Słowa kluczowe: torbiel skórzasta jajnika, skręt szypuły torbieli, zapalenie otrzewnej.

Summary

The study presents the case of a female patient with a diagnosed dermoid cyst, hospitalized at the Clinical Department of Gynaecology and Obstetrics in Tychy. The lesion is usually asymptomatic but it may also cause pain, additional bleeding or non-specific gastric symptoms. The most feared complication is the torsion of the cyst pedicle or cyst rupture with spillage of its content resulting in peritonitis. The complications may be so dangerous that an earliest possible surgical intervention is recommended in that urgent gynaecological condition.

Key words: dermoid cyst of the ovary, cyst pedicle torsion, peritonitis.

WSTĘP

Torbiel skórzasta jajnika uznawana jest za rodzaj potworniaka dojrzałego (*teratoma maturum*). Potworniaki to nowotwory zarodkowe (germinalne; *germ cell tumours*). Nowotwory germinalne różnicują się w kierunku struktur nabłonka rozrodczego. Stanowią one 20-30% nowotworów jajnika. Potworniaki wywodzące się z wielopotencjalnej komórki płciowej są najczęściej kompozycją prekursorów komórek z trzech listków zarodkowych. U osób dorosłych często stanowią składnik innych histologicznie niejednorodnych guzów terminalnych [1]. Nazwę *teratoma* po raz pierwszy użył Virchow w pierwszej edycji książki o guzach opublikowanej w 1863 roku [2].

Torbiel skórzasta jajnika jest najczęstszym z potworniaków dojrzałych. Składa się z mieszaniny komórek wywodzących się głównie z ektodermy, nie ze wszystkich 3 listków zarodkowych, jak typowe potworniaki. Dla niektórych badaczy jest to powodem do uznania jej za zupełnie odrębny guz.

OPIS PRZYPADKU

Pacjentka lat 27 przyjęta do oddziału ginekologicznego 18 marca 2003 roku. Torbiel zdiagnozowano w październiku 2002 roku. Podczas przyjęcia w badaniu ultrasonograficznym uwidoczniiono cystę w lewym jajniku. Pierwsza miesiączka wystąpiła w 13 roku życia. Ostatnia miesiączka 12 marca 2003 roku. 20 marca 2003 roku wykonano laparoskopię celem usunięcia cysty. Usunięto 15 centymetrową cystę z masami łożowymi i fragmentami włosów. Laparoscopia przebiegała bez komplikacji. Pacjentka została wypisana do domu w dobrym stanie.

DYSKUSJA

Potworniaki najczęściej występują w okolicy krzyżowej (57%). Dosty często znajdują się w gonadach (29%). Najczęściej jest to jajnik. Okazjonalnie spotyka się je także w linii pośrodkowej ciała, zaotrzewnowo, w odcinku szyjnym oraz wewnątrzczaszkowo [2]. Około 90% potworniaków występuje jednostronnie. Potworniaki makroskopowo uznawane są za duże guzy. Ich wielkość sięga około 10cm [1].

Cystis dermoidalis w 8-15% występuje w jajniku obustronnie. Najczęściej diagnozowana jest przypadkowo podczas rutynowego badania obrazowego USG miednicy, czasami podczas zabiegów operacyjnych z innych powodów [1]. Radiolodzy określają dokładność diagnostyczną USG w przypadku torbieli jajnika na 90% [3].

Cystis dermoidalis makroskopowo jest torbielą wypełnioną żółtawymi, tłustymi masami, często z domieszką włosów. Mikroskopowo wyścielona jest nabłonkiem wielowarstwowym płaskim rogowaciejącym z obecnością włosów, gruczołów łożowych i innych przydatków skórnych. Opisywane były przypadki zawierające gruczoły potowe, a także fragmenty tkanki

INTRODUCTION

Dermoid cyst of the ovary is considered to be a type of mature teratoma (*teratoma maturum*). Teratomas are germ cell tumours. Germinal tumours differentiate towards structures of germinal epithelium. They constitute 20-30% of ovarian neoplasms. Teratomas derived from pluripotent germ cells are usually a composition of cell precursors of all three germ layers. In adults they often form a component of histologically different non-homogenous terminal tumours [1]. The term teratoma was used for the first time by Virchow in the first edition of the book on tumours published in 1863 [2].

Dermoid ovarian cyst is the most frequent of mature teratomas. It consists of a mixture of cells derived mostly from ectoderm, not from all 3 germ layers as is the case with typical teratomas. For some scientists this gives grounds to consider it to be a completely separate type of tumour.

CASE DESCRIPTION

A female patient aged 27 was admitted to the gynaecological department on 18 March 2003. The cyst was diagnosed in October 2002. On admittance, an ultrasonographic examination revealed a cyst in the left ovary. The first menstruation occurred at the age of 13. The latest menstruation was on 12 March 2003. On 20 March 2003, laparoscopy was performed in order to remove the cyst. A 15-centimeter cyst was removed, together with sebum masses and hair fragments. The laparoscopy was performed without complications. The patient was released from hospital in good condition.

DISCUSSION

Teratomas occur most frequently in the sacral area (57%). They are relatively frequently located in the gonads (29%), usually in ovaries. Occasionally they are also encountered in the median line of the body, retroperitoneally, in the cervical section and intracranially [2]. Approximately 90% of teratomas occur unilaterally. Teratomas macroscopically appera as large tumours, reaching 10 cm in size [1].

Cystis dermoidis in 8-15% occurs bilaterally in the ovaries. Most frequently it is diagnosed accidentally in the course of routine ultrasonographic imaging of the pelvis, sometimes - during surgical procedures performed for other reasons [1]. Radiologists estimate the diagnostic accuracy of ultrasonographic imaging in the case of ovarian cyst to be 90% [3].

Cystis dermoidis is macroscopically a cyst filled with yellowish, fatty mass, often with hair fragments. Microscopically it is lined with cornifying stratified squamous epithelium, with the presence of hair, sebaceous glands and other skin appendages. There have been reports of cysts containing sweat glands or fragments of bone tissue [1]. As far as the origin of the

kostnej [1]. Obecnie większość badaczy mówiąc o pochodzeniu tych zmian skłania się do uznania teorii partenogenetycznej, wg której powstają one z pojedynczej komórki płciowej po pierwszym podziale mejoetycznym [2]. Torbiele dermoidalne mogą występować w każdym wieku, ale najczęściej występują między 20 a 40 rokiem życia. Istnieje możliwość rodzinnej predyspozycji do występowania torbieli skórzastych jajnika [4]. Przebieg często bywa bezobjawowy, co jest przyczyną niewiedzy pacjentki i lekarza o zmianie torbielowatej w jajniku. Aż 65% przypadków jest asymptomatycznych. Jeżeli występują objawy to najczęściej są to bóle podbrzusza, rzadko krwawienia między miesiączkami. Znacznie rzadziej mogą występować problemy gastryczne, a nawet ból w okolicy pleców. Charakter bólu w przebiegu torbieli dermoidalnej jest najczęściej stały, którego nasilenie oscyluje od wartości minimalnych do średnich. Niektórzy autorzy mówią o bólu imitującym ostre zapalenie wyrostka robaczkowego. Istnieje także możliwość infekcji torbieli dermoidalnej. Nie są to jednak częste przypadki, mniej niż 1-2% [2].

Jeżeli występuje ostry ból i objawy otrzewnowe należy podejrzewać skręt szypuły torbieli. Skręt szypuły torbieli uznaje się za jedno z najgroźniejszych powikłań w przypadku torbieli skórzastej. Może doprowadzić do martwicy przypadków i w dalszej kolejności do konieczności ich usunięcia. Skręt szypuły guza uznaje się za najczęstszą statystycznie możliwość powikłań. Częstość tego powikłania szacowana jest na 3-11% przypadków. Stan ten obserwowany jest szczególnie u pacjentek w młodszym wieku, ciąży i połogu. Ryzyko powikłań w przebiegu torbieli skórzastej związane jest także z możliwością jej pęknięcia i wydostania się treści do otaczających tkanek. Pęknięcie torbieli bywa spontaniczne, może być także konsekwencją uprzedniej torsji. Objawy mogą pojawić się nagle prowadząc do wstrząsu lub krwotoku z towarzyszącym ostrym zapaleniem otrzewnej. Możliwe jest także długotrwałe, przewlekłe krwawienie i w efekcie zapalenie granulocytarne otrzewnej [2]. Opisano przypadki przebiccia torbieli do światła pęcherza moczowego [5,6], a także przebiccie torbieli po uprzednim zropieniu jej treści [7].

Niektórzy autorzy są zdania, iż do pęcherza moczowego mogą przebić się jedynie torbiele z sąsiedztwa i negują występowanie torbieli skórzastej w samym pęcherzu moczowym. Znany jest jednak opis podobnego przypadku u 47. letniej pacjentki z objawami częstomoczu i bolesnego parcia na mocz [8]. Znany jest także przypadek współwystępowania torbieli skórzastej z niedokrwistością hemolityczną [9]. Obserwowano także ryzyko zmian torbieli dermoidalnej podczas ciąży. Postawiono tezę, iż cysty poniżej 6 cm nie powiększają się podczas ciąży i nie utrudniają porodu [10].

Za standardowe postępowanie w przypadku *cystis dermoidalis* uznaje się laparoskopię. Z obserwacji prowadzonych statystyk zabiegów laparoskopowych w przypadku tego schorzenia wynika, iż jest to postępowanie bezpieczne. Koçak i wsp. podali, że na 47 pacjentek,

changes is concerned, most researchers adhere nowadays to the parthenogenetic theory, stating that the cysts are created from a single germ cell after its first meiotic division [2]. Dermoid cysts may occur at any age but they are most frequent between the age of 20 and 40. There is a possibility of family predispositions for developing dermoid ovarian cysts [4]. They often display no symptoms, therefore neither the patient nor the doctor are aware of a cystic lesion in the ovary. As much as 65% of the cases are asymptomatic. If symptoms do occur, they usually take the form of pain in the underbelly, rarely - bleeding between menstruations. Still less frequent are gastric problems or even pain in the back area. The character of pain accompanying dermoid cysts is usually continuous, with intensity oscillating from minimal to medium values. Some authors speak of pain that imitates acute appendicitis. There is also a possibility of dermoid cyst infection. These are, however, not frequent cases - less than 1-2% [2].

If sharp pain and peritoneal symptoms occur, cyst pedicle torsion may be suspected. The torsion is considered to be one of the most serious complications in the case of dermoid cyst. It may lead to the necrosis of the adnexa and, consequently, to their resection. The torsion of the tumor pedicle is regarded as the statistically most frequent complication. Its rate is estimated to be 3-11% of cases. The condition is reported particularly frequently in younger patients, in pregnancy or puerperium. The risk of complications of dermoid cyst is also associated with the possibility of its rupture and spillage of its contents into the surrounding tissues. The rupture may be spontaneous, it may also follow a torsion. The symptoms may occur suddenly, leading to a shock or haemorrhage accompanied by acute peritonitis. Also, long-lasting chronic bleeding is possible, resulting in granulocytic peritonitis [2]. There have been descriptions of cyst perforation into the bladder [5,6] and of cyst perforation after its content had suppured [7].

Some authors believe that only cysts from the neighbouring areas may perforate into the bladder and they negate the occurrence of dermoid cysts in the bladder itself. Still, the latter case was reported in a 47-year-old female patient with symptoms of pollakiuria and painful vesical tenesmus [8]. There has also been a case of dermoid cyst co-occurring with haemolytic anaemia [9]. The risk of dermoid cyst changes was observed in pregnancy. It is presumed that cysts smaller than 6 cm do not grow in pregnancy and do not interfere with the delivery [10].

Laparoscopy is considered to be the standard procedure in the case of *cystis dermoidis*. The statistics of laparoscopic treatment of the disease indicate that the procedure is safe. Koçak et al. reported that of 47 patients in whom laparoscopic removal of a dermoid cyst was performed, in 42.5% minimal spillage of its content was noticed: however, that did not lead to peritonitis in any of the patients. Only 2 cases eventu-

u których przeprowadzano laparoskopowe usunięcie torbieni skórzastej w 42,5% obserwowano minimalne rozlewanie się jej treści, które u żadnej pacjentki nie doprowadziło do zapalenia otrzewnej. Jedyne u 2 pacjentek należało wykonać ostatecznie laparotomię. Średni czas zabiegu wyniósł 80 minut (35 - 180 min) [11]. Ryzyko rozlewania treści torbieni podczas zabiegu laparoskopowego i wiążącego się z tym zapalenia otrzewnej szacowane jest na 0,2% [2]. Najczęściej przy laparoskopii torbieni dermoidalnej usuwa się samą torbiel, natomiast powszechne są także przypadki, w których konieczne jest usunięcie jajnika częściowo lub całkowicie. Należy brać także pod uwagę ryzyko wznowy po przebytej laparoskopii, określane na 4% [2]. 95% potworniaków dojrzałych nie wykazuje zaburzeń chromosomowych [1]. Ogniska transformacji nowotworowej zawiera 1-2% potworniaków. W torbieni skórzastej to najczęściej *carcinoma planoepitheliale*. TMT (*teratoma with malignant transformation*) jest nazwą przyjętą dla rzadkiej formy potworniaków, które zawierają elementy somatycznych guzów złośliwych, takich jak: mięsaki, raki czy białaczka [12]. Prowadzone są statystyki obrazujące przemiany złośliwe w potworniakach, na 641 pacjentek 9 miało TMT, 5 raka, 2 zwojaka a 2 *embryonal carcinoma* [13].

Transformacja złośliwa szczególnie często występuje u pacjentek w wieku pomenopauzalnym. Diagnozując torbiel jajnika w badaniach obrazowych nie zawsze istnieje całkowita pewność, czy jest to na pewno zmiana łagodna. Zaleca się oznaczania markera CA 125 w celu różnicowania torbieni z rozrostem nowotworowym. Należy pamiętać, iż marker ten może być podwyższony także w stanach zapalnych czy w przebiegu endometriozy. W jednej z publikacji sugerowano korelację podwyższonego poziomu CA 125 oraz Ca 19-9 z obustronnym występowaniem potworniaków dojrzałych [14]. Ponad 90% potworniaków to guzy łagodne. Rozwijające się w pierwszych dekadach życia wykazują większe prawdopodobieństwo zezłośliwienia. Zwraca się uwagę na znaczenie korelacji wieku pacjentki, rozmiaru torbieni, a także poziomu antygenu SCC. Teza ta opiera się na spostrzeżeniu iż najczęściej obserwuje się transformacje w kierunku raka płaskonabłonkowego, więc można by badać poziom antygenu raka płaskonabłonkowego [15]. Obecnie naukowcy poszukują podstaw molekularnych patogenezy zezłośliwienia potworniaków dojrzałych [16]. Zwraca się uwagę na udział zaburzeń genu PTCH 1, który ma związek z zespołem Gorlina. Sam Zespół Gorlina predysponuje do rozwoju torbieni jajnika. Niepodważalny wpływ szlaku Hh/Patched na formowanie szczególnie włosów, gruczołów łojowych, gruczołów potowych oraz zębów przyciąga uwagę naukowców, jako że wymienione elementy są głównymi składowymi torbieni skórzastej. Torbiel skórzasta jajnika częściej ulega zezłośliwieniu w zmianach jednostronnych [17].

ally required laparotomy. The average duration of the procedure was 80 minutes (35 - 180 minutes) [11]. The risk of cyst content spillage in laparoscopic operation and of resulting peritonitis is estimated to be 0.2% [2]. Usually, in the course of laparoscopy of a dermoid cyst the cyst itself is removed, but frequently a partial or complete resection of the ovary is also necessary. The risk of recurrence after laparoscopic surgery, estimated to be 4%, must also be taken into consideration [2]. 95% of mature teratomas do not display chromosomal disorders [1]. 1-2% of teratomas contain foci of neoplastic transformation. In dermoid cyst these are usually *carcinoma planoepitheliale*. Teratoma with malignant transformation (TMT) is the term adopted for a rare form of teratomas, containing elements of malignant somatic tumours, such as sarcomas, carcinomas or leukaemia [12]. Statistics show the rate of malignant transformations in teratomas: of 641 patients, 9 had TMT, 5 - carcinoma, 2 - ganglioma, and 2 - embryonal carcinoma [13].

Malignant transformation is particularly frequent in postmenopausal women. When dermoid cyst is diagnosed in imaging examinations, it is not always certain whether the lesion is benign. It is recommended to determine the CA 125 marker in order to differentiate a cyst from a neoplastic proliferation. It should be remembered that the marker may have an increased value in inflammatory conditions or in endometriosis, too. In one of publications, a correlation was suggested between increased levels of CA 125 and Ca 19-9 and bilateral occurrence of mature teratomas [14]. Over 90% of teratomas are benign tumours. Those developing in the first decades of life display a higher risk of turning malignant. Emphasis has been placed on the correlation between the patient's age, the size of the cyst, and the level of SCC antigen. The hypothesis is based on an observation that the most frequent transformations are those towards squamous epithelial carcinoma, therefore determining the level of squamous epithelial carcinoma antigen would be advisable [15]. Scientists are currently seeking molecular basis for the pathogenesis of mature teratomas turning malignant [16]. Emphasis is placed on the contribution of the disorders of PTCH 1 gene, which is associated with Gorlin syndrome. The Gorlin syndrome itself predisposes for the development of ovarian cysts. Scientists pay attention to an indisputable effect of Hh/Patched pathway, particularly in the formation of hair, sebaceous glands, sweat glands and teeth, as these elements are the main components of dermoid cyst. Dermoid ovarian cyst turns malignant more frequently in unilateral lesions [17].

WNIOSEK

Torbiel dermoidalna mimo iż należy do grupy nowotworów łagodnych nie powinna być bagatelizowana. Jej występowanie wiąże się z ryzykiem skrętu szypuły torbieli prowadzącego do niedokrwienia przydatków, a także niesie ryzyko pęknięcia ściany torbieli, co prowadzi do wylania jej treści i możliwością rozwoju zapalenia otrzewnej. Tym samym zdiagnozowanie torbieli skórzastej powinno wiązać się z zachowaniem szczególnej ostrożności i skierowaniem pacjentki do operacyjnego usunięcia torbieli.

CONCLUSION

Even though dermoid cyst belongs to benign tumours, it should not be underestimated. Its occurrence involves the risk of cyst pedicle torsion resulting in ischaemia of the adnexa and poses a threat of cyst wall rupture, which leads to the spillage of its contents and the danger of developing peritonitis. Therefore, a diagnosed dermoid cyst should be treated with extreme caution and the patient should be referred for a surgical cyst removal.

Piśmiennictwo / References:

1. **Stachura J, Domagała Z.** Patologia znaczy słowo o chorobie, Kraków 2003.
2. **Chad A.Hamilton, Ellison MC.** Teratoma Cystic, *Medicine Oncology* <http://emedicine.medscape.com/article/281850-overview>
3. **Pruszyński B.** Radiologia. Diagnostyka obrazowa. Warszawa 2008.
4. **Caspi B, Lerner-Geva L, Dahan M et al.** A possible genetic factor in the pathogenesis of ovarian dermoid cysts. *Gynecol Obstet Invest* 2003;56:203–206.
5. **Ciosowa L.** Przebiecie torbieli skórzastej z sąsiedztwa do pęcherza moczowego. *Pol Przegl Chir* 1960; 32:267.
6. **Cisło M, Reszczyński A.** Przebiecie się torbieli skórzastej jajnika do pęcherza moczowego. *Gin Pol* 1962; 33:595.
7. **Sass K.** Przebiecie zropiałej torbieli skórzastej jajnika do pęcherza moczowego. *Przeg Lek* 1957; 13:247.
8. **Dobrucki W, Dembowski J.** Rzadki przypadek przebiccia torbieli skórzastej do pęcherza moczowego *Urologia Polska* 1972;32:3.
9. **Payne D, Muss HB, Homesley HD et al.** Autoimmune hemolytic anemia and ovarian dermoid cysts: Case report and review of the literature. *Cancer* 1981; 48:721–724.
10. **Caspi B, Levi R, Appelman Z et al.** Conservative management of ovarian cystic teratoma during pregnancy and labor. *Am J Obstet Gynecol.*2000; 182(3): 503-5.
11. **Koçak M; Dilbaz B, Ozturk N et al.** Laparoscopic management of ovarian dermoid cysts: a review of 47 cases. *Ann Saudi Med.* 2004;24(5):357-60.
12. **Harms D, Zahn S, Göbel U, Schneider DT.** Pathology and molecular biology of teratomas in childhood and adolescence. *Klinische Pädiatrie* 2006;218 (6): 296–302.
13. **Biskup W, Calaminus G, Schneider DT et al.** Teratoma with malignant transformation: experiences of the cooperative GPOH protocols MAKEI 83/86/89/96. *Klinische Pädiatrie* 2006;218(6):303–8.
14. **Dede M, Gungor S, Yenen MC et al.** CA19-9 may have clinical significance in mature cystic teratomas of the ovary. *Int J Gynecol Cancer* 2006;16:189–193.
15. **Mori Y, Nishii H, Takabe K et al.** Preoperative diagnosis of malignant transformation arising from mature cystic teratoma of the ovary. *Gynecol Oncol* 2003; 90:338–341.
16. **Bal J, Gabryś MS, Jalocho I.** Wybrane szlaki molekularne komórki w patogenezie potworniaków jajnika *Postępy Hig Med Dosw.* (online), 2009;63: 242-249 www.phmd.pl
17. **Mathios A.** Basal cell carcinoma originating in a benign cystic teratoma of the ovary. *Obstet Gyn* 1973;42:892.