

Omdlenia u pacjentki z potworniakiem dojrzałym – opis przypadku

Syncope of a patient with maturite teratoma – case report

© GinPolMedProject 1 (19) 2011

Opis przypadku/Case report

RADOSŁAW BLOK, JOANNA GAWĘŁ

I Katedra i Klinika Ginekologii i Położnictwa Akademii Medycznej we Wrocławiu
Kierownik: dr hab. n. med. Marian Gryboś, prof. AM

Adres do korespondencji/Address for correspondence:

Radosław Blok

I Katedra i Klinika Ginekologii i Położnictwa AM we Wrocławiu
ul. Chałubińskiego 3, Wrocław

tel. +48 71 784 23 47, fax.: +48 71 327 09 02, e-mail: radblok@o2.pl

Statystyka/Statistic

Liczba słów/Word count	908/1065
Tabele/Tables	0
Ryciny/Figures	0
Piśmiennictwo/References	10

Received: 26.07.2010

Accepted: 30.08.2010

Published: 05.03.2011

Streszczenie

W pracy opisano przypadek 33-letniej pacjentki hospitalizowanej w I Klinice Ginekologii i Położnictwa AM we Wrocławiu z powodu guza jajnika prawego. U pacjentki występowały od dłuższego czasu incydenty nagłych omdleń, krótkotrwałych napadów drgawek oraz patologicznej senności i przewlekłego uczucia zmęczenia. Przeprowadzona diagnostyka internistyczna, endokrynologiczna oraz neurologiczna nie wykazała żadnych nieprawidłowości. Po usunięciu guza jajnika prawego objawy zgłaszane przez pacjentkę całkowicie ustąpiły. Badanie histopatologiczne wykazało zmianę łagodną – potworniak dojrzały.

Słowa kluczowe: jajnik, potworniak dojrzały, omdlenia

Summary

Case report describes 33 years old woman who was hospitalised in I st Department and Clinic of Gynecology and Obstetrics Medical University in Wrocław due to right ovarian tumor. Patient suffered from sudden incidents of syncope, short-time incidents of convulsion, pathological sleepiness and chronic fatigue syndrome. Internal, endocrinological and neurological diagnostics didn't show any deficiency. Since extraction of ovarian tumor patient didn't notify any medical problems. Histopathological examination showed result- benign change- maturite teratoma.

Key words: ovarium, adult teratoma, syncope

WSTĘP

Omdlenie (*syncope*) jest to przejściowa i nagła utrata przytomności oraz napięcia mięśni szkieletowych spowodowana zmniejszeniem perfuzji mózgu. Incydenty omdlenia pojawiają się nagle i zwykle ustępują samistnie i szybko (poniżej 20s) [1,2]. Omdlenia w znacznym stopniu utrudniają codzienną aktywność, 6% doznaje złamań kości, 64% ogranicza z tego powodu prowadzenie pojazdów mechanicznych, a 39% jest zmuszona zmienić pracę. Nawracające omdlenia mają duży wpływ na jakość życia i mają inne psychosocjalne konsekwencje. Omdlenia można sklasyfikować (ze względu na etiologię) na 3 grupy: sercowe, pozasercowe, oraz nieznanego pochodzenia. Największą śmiertelność obserwujemy w grupie pierwszej, a grupa druga i trzecia jest najbardziej skomplikowana diagnostycznie [2].

Narkolepsja to choroba neurologiczna, której początki występują typowo w 2 i 3 dekadzie życia. Ze swojej natury jest to choroba przewlekła i mająca duży wpływ na jakość życia pacjentów. Charakteryzuje się czterema głównymi objawami: sennością w ciągu dnia, katapleksją, zwiótczeniem jak podczas snu oraz hypnagogicznymi halucynacjami. Narkolepsja może być następstwem udaru, ciężkiego urazu mózgu, guzów CUN oraz chorób wrodzonych. Coraz częściej mówi się o neurodegeneracyjnym podłożu choroby, ponieważ zauważono, że w przebiegu dochodzi do zaniku neuronów. Swoistym markerem narkolepsji jest zmniejszenie poziomu hipokretyny-1 w płynie mózgowo-rdzeniowym. Hipokretyna-1 jest neuropeptydem wchodzącym w skład neuronów, które degenerując powodują swoiste dla narkolepsji objawy [3]. Niektóre psychiatryczne i somatyczne choroby manifestują się objawami podobnymi do narkolepsji, co może wprowadzać lekarza w błąd [4].

Potworniak dojrzały (*mature teratoma*) zwany również torbielą skórzastą (*cystis dermoidalis*) jest jednym z najczęstszych łagodnych guzów jajnika u młodych kobiet. Charakteryzuje się – w odróżnieniu od potworniaka niedojrzałego – zwykle łagodnym przebiegiem i dobrym rokowaniem, jednak może się zdarzyć, że w jego obrębie powstają ogniska nowotworu o charakterze złośliwym [5].

OPIS PRZYPADKU

Pacjentka, lat 33, w dobrym stanie ogólnym, przewlekłe nie chorująca (wzrost 168cm, waga 65kg, BMI 23) zgłosiła się do I Kliniki Ginekologii i Położnictwa AM we Wrocławiu z powodu guza jajnika prawego i została zakwalifikowana do leczenia operacyjnego. W epikryzie zwracały uwagę podawane przez pacjentkę objawy ogólnego osłabienia, patologicznej senności, krótkotrwałych incydentów drgawkowych oraz licznych omdleń. Omdlenia pojawiały się zarówno w domu, jak i w miejscach publicznych, kobieta wiązała je z wysiłkiem fizycznym oraz z występowaniem krwawienia

INTRODUCTION

A syncope is a transient and sudden loss of consciousness and loss of skeletal muscles tension caused by the reduction of cerebral perfusion. Syncopal episodes are sudden and usually withdraw spontaneously and rapidly (below 20 s) [1,2]. Syncopes make normal daily activity much harder – 6% of patients suffer from bone fractures, in 64% the ailment limits the ability to drive and 39% of patients have to change their job. Recurrent syncopes significantly affect quality of life and have other psychological consequences. Syncopes can be classified into 3 groups according to their etiology: cardiac, non-cardiac and idiopathic. The highest mortality rate is observed in the first group, while second and third groups are the hardest to diagnose [2].

Narcolepsy is a neurological disorder with first symptoms observed typically in the 2nd and 3rd decade of life. The nature of the disease is chronic and largely influencing patients' quality of life. It is characterized by four major symptoms: somnolence during a day, cataplexy, loss of muscle tone similar to that during sleeping and hypnagogic hallucinations. Narcolepsy might result from stroke, severe brain injury, CNS tumors and hereditary disorders. More and more authors claim that narcolepsy might be caused by neurodegenerative lesions, because neuron degeneration was observed in the course of the disease. Decreased level of hypocretin-1 in cerebrospinal fluid is known as a specific narcolepsy marker. Hypocretin-1 is a neuropeptide that can be found in neurons that cause typical narcolepsy symptoms [3]. A potential diagnostic error can be caused by the fact that some psychiatric and somatic ailments can manifest themselves with similar symptoms as narcolepsy [4].

Mature teratoma also known as cystis dermoidalis is one of the most common benign ovarian tumors in young females. Unlike immature teratoma, mature tumor usually manifests with benign course of the disease and has good prognosis. However, it is possible that malignant neoplastic foci develop within benign mature teratoma.

CASE REPORT

A female patient, aged 33, in good general condition, with no chronic ailments (height 168 cm, weight 65 kg, BMI 23) was admitted to the Obstetrics and Gynecology Ward of the Medical University of Wrocław because of tumor of the right ovary. The patient was qualified for surgical treatment. In medical history, careful attention was paid to the following symptoms: malaise, pathological somnolence, short-time seizures and frequent syncopes. Syncopal episodes were observed both at home and in public. The patient associated the episodes with physical exertion and menstrual periods. After syncopal episodes, the patient had fallen into deep sleep for 30 minutes to 2 hours, and during this time it was impossible to wake the patient up.

miesiączkowego. Po epizodach omdleń pacjentka zapadała w głęboki sen trwający od około 30 minut do 2 godzin, z którego nie udawało się jej wybudzić. Podczas pobytu w klinice również występowały kilkakrotnie epizody głębokiego snu w sytuacjach nagłych, bez objawów zwiastunowych trwające kilkadziesiąt minut z samoistnym wybudzeniem. Na oddziale monitorowano parametry życiowe (RR, tętno liczbę oddechów) nie stwierdzając odstępstw od normy. Matka pacjentki zmarła z powodu tętniaka naczyń mózgowych. U pacjentki wystąpiła depresja - leczona w Poradni Zdrowia Psychicznego.

Z powodu występujących dolegliwości pacjentka była kilkakrotnie hospitalizowana na oddziale neurologicznym (2006 r.), gdzie wykonano badania obrazowe (TK głowy) oraz badania elektrofizjologiczne (EEG, wzrokowe potencjały wywołane). Wykluczono padaczkowe podłoże dolegliwości, stwierdzając jedynie zawierającą zwapnienia torbiel szyszynki oraz hipomagnezemię (poziom Mg 0,6mmol/l). U pacjentki wykonano dodatkowo w trybie ambulatoryjnym MRI głowy nie stwierdzając zmian poza uwidocznioną wcześniej zmianą w szyszynce. Pacjentka była również kilkakrotnie hospitalizowana w oddziałach ratunkowych z powodu opisywanych incydentów omdleń (często z urazem głowy). Z uwagi na poprawę stanu pacjentki po dożylnym podaniu wapnia wysunięto podejrzenie tężyczki hipokalcemicznej. Podjęto także próbę leczenia lekami przeciwpadaczkowymi – bez efektu.

W 2007 roku hospitalizowana na oddziale endokrynologicznym, gdzie wykluczono anemię, tężyczkę hipokalcemiczną i hipoglikemię hiperinsulinową. Na podstawie EKG i badania echokardiograficznego wykluczono także kardiologiczne tło dolegliwości. Z powodu obciążonego wywiadu psychiatrycznego pacjentka była hospitalizowana na oddziale psychiatrycznym Centrum Terapii Nerwic, gdzie nie stwierdzono zaburzeń nerwicowych. Nie stwierdzono też, aby utraty przytomności miały podłoże psychogenne. W wykonanym w czasie kontrolnej wizyty ginekologicznej badaniu ultrasonograficznym głowicą przezpochwową stwierdzono u pacjentki guz jajnika prawego o średnicy około 6cm o charakterze torbielowato-litym. Z tego powodu operowana w I Klinice Położnictwa i Ginekologii AM we Wrocławiu w 2008r. Podczas zabiegu usunięto w całości guz jajnika prawego o bardzo charakterystycznym obrazie makroskopowym - wewnątrz zmiany torbielowatej znajdowała się lita, kulista struktura o średnicy około 3cm o równych obrysach i ciemnożółtym zabarwieniu. Pobrano również fragment jajnika lewego do badania histopatologicznego. W otrzymanych wynikach badania śródoperacyjnego rozpoznano zmianę łagodną jajnika prawego – *cystis dermoidalis*; jajnik lewy – *pseudocystis*. Przebieg zabiegu operacyjnego i hospitalizacja po zabiegu przebiegła bez powikłań. Od czasu wykonania zabiegu usunięcia potworniaka jajnika pacjentka nie zgłasza żadnych dolegliwości, nie występują omdlenia, ani też zaburzenia o charakterze narkolepsji.

During her stay at the Department, the patient suffered from a few, sudden episodes of deep sleep lasting approximately an hour, with no prodromal symptoms. The episodes subsided spontaneously. During patient's stay in the hospital, vital signs were monitored (BP, heart rate, breath rate) and no abnormalities were found. Patient's mother died because of cerebral aneurysm. In addition to the observed symptoms, the patient suffered from depression treated in Psychiatric Clinic.

Because of the symptoms the patient was repeatedly admitted to the neurologic ward (2006). During her stay at the ward diagnostic imaging, including head CT scan and electrophysiological tests, including EEG and visual evoked potentials, were performed. Epilepsy was excluded. The only abnormality found was a calcified pineal gland cyst and hypomagnesemia (Mg level 0.6 mmol/l). Additionally, in outpatient clinic head MRI was performed. The examination did not reveal any abnormalities, apart from the pineal gland lesion described above. Moreover, the patient was repeatedly hospitalized in emergency departments because of syncopal episodes (often with concomitant head injury). Patient's state was improved after intravenous administration of calcium and hence, a suspicion of hypocalcemic tetany was made. The attempt to treat patient's ailments with anticonvulsants did not bring any results.

In 2007 the patient was admitted to the endocrinology department, where anemia, hypocalcemic tetany and hyperinsulinemic hypoglycemia were excluded. Cardiac background of patient's problems was excluded on the basis of ECG and echography. As patient had positive history of psychiatric diseases, she was admitted to the psychiatric ward of Neurosis Therapy Center, however, no neurotic disorders were found. Moreover, psychogenic basis underlying syncopal episodes was also excluded. Routine transvaginal ultrasound scan revealed cyst solid tumor of the right ovary measuring approximately 6 cm in diameter. Because of that, in 2008, the patient underwent surgical removal of the tumor in the I Department of Obstetrics and Gynecology at the Medical University of Wrocław. During the surgical procedure, complete removal of right ovary tumor was performed. The tumor had very characteristic macroscopic image - solid, round, smoothly-edged, dark yellow structure measuring approximately 3 cm in diameter localized inside the cyst. Additionally, a part of left ovary was sampled for histopathologic examination. The results of intraoperative examination revealed benign tumor of the right ovary (*cystis dermoidalis*); in left ovary *pseudocystis* was diagnosed. The course of surgical procedures and hospitalization were uncomplicated. Since ovarian teratoma removal the patient did not suffer from any ailments, no syncopes or narcoleptic episodes were observed

DYSKUSJA

Przeszukując bazy Medline, Ovid, Pubmed w dostępnej literaturze nie znaleziono podobnego w przebiegu przypadku medycznego. Potworniak dojrzały może złośliwiec w różny sposób w zależności od tego, jaka komórka będąca jego składową wejdzie na tor przemiany nowotworowej. Może więc dokonać przemiany w kierunku raka płaskonabłonkowego (najczęściej), w kierunku raka gruczołowego, czerniaka złośliwego, pierwotnego guza neuroektodermalnego, raka drobno-komórkowego oraz różnych typów mięsaka. W literaturze znaleziono opisany przypadek raka rdzeniastego tarczycy oraz oponiaka (*meningioma*) będącego częścią potwornika dojrzałego jajnika [5,6]. Komórki ścian torbieli skórzastej mogą również wydzielać hormony. Znaleziono przypadek ACTH-oma i prolactinoma w ścianie potwornika dojrzałego [7,8]. Być może w opisanym przypadku guz jajnika również był czynny hormonalnie wywołując wyżej wymienione objawy. Zwraca uwagę ścisły związek pomiędzy zabiegiem operacyjnym, podczas którego usunięto w całości guz jajnika prawego, a całkowitym ustąpieniem zgłaszanych dolegliwości przez pacjentkę. Należy nadmienić, że incydenty omdleń i patologicznej senności występowały dużo wcześniej, niż postawiona diagnoza guza jajnika, a więc wyklucza to podłoże psychogenne zgłaszanych objawów (jako reakcja na wiadomość o guzie jajnika) Zwraca również uwagę fakt, że zgłaszane dolegliwości pacjentka wiązała z wystąpieniem krwawienia miesięczkowego. Coraz częściej w literaturze opisywane są zespoły paranowotworowe, jako wczesna manifestacja zmiany neoplastycznej w tkankach [9].

WNIOSKI

Potworniak dojrzały to zmiana łagodna mogąca incydentalnie powodować niespecyficzne objawy o charakterze neurologicznym.

DISCUSSION

No similar case report was found in the available literature (after search in Medline, Ovid and Pubmed databases). There are various patterns of cancerogenesis in mature teratoma depending on the type of cell that undergo malignant transformation. Teratoma may transform into planoepithelial carcinoma (most commonly), adenocarcinoma, malignant melanoma, primary neuroectodermal tumor, small cell carcinoma and various types of sarcoma. In literature, there is one case report concerning medullary carcinoma and meningioma as a part of ovarian mature teratoma [5,6]. Additionally, dermoid cyst wall cells are able to release hormones. There are reports of ACTH-releasing and PRL-releasing tumor localized in mature teratoma wall [7,8]. It is possible, that in our case the tumor was hormonally active and hence was responsible for the development of the observed symptoms. Strong correlation between the surgical removal of the right ovary and complete withdrawal of the symptoms seems to be significant. It might be useful to mention that narcoleptic and syncopal episodes were observed long before the diagnosis of ovarian tumor, so psychogenic source of the symptoms (as a reaction to the diagnosis of ovarian tumor) should be excluded. Interestingly, the patient associated the symptoms with menstrual bleeding. The increasing number of reports concern paraneoplastic syndromes as an early manifestation of a tumor [9].

CONCLUSIONS

Mature teratoma is a benign tumor that is able to occasionally induce unspecific neurological symptoms.

Piśmiennictwo / References:

1. **Szczeklik A i wsp.** Choroby wewnętrzne. Kraków. 2005; vol.I., wyd 1:441-446.
2. **Vaddadi G, Lambert E, Corcoran SJ et al.** Postural syncope: mechanisms and management. *Med J Aust* 2007;Sep 3;187(5):299-304.
3. **Arias-Carrión O.** Hypocretin system and narcolepsy. *Rev Med Chil* 2009;Sep;137(9):1209-16.
4. **Peacock J, Benca RM.** Narcolepsy: clinical features, comorbidities and treatment. *Indian J Med Res* 2010;Feb;131:338-49.
5. **Gryboś M, Murawski M, Jagielski L, Rabczyński J.** Rzadki przypadek rozwoju raka tarczycy w obrębie dojrzałego potwornika torbielowatego jajnika. *Adv. Clin. Exp. Med.* 2005;14,4A:277-280.
6. **Yukio T, Mayumi K, Osamu F et al.** Meningioma in mature cystic teratoma of the ovary. *Pathology International* 2004;54: 543-548.
7. **Aiotti CA, Lippes HA, Merino MJ et al.** Corticotroph cell pituitary adenoma within an ovarian teratoma. A new cause of Cushing's syndrome. *Am J Surg Pathol* 1987; 11: 218-24.
8. **Palmer PE, Bogojavlensky S, Bhan AK et al.** Prolactinoma in wall of ovarian dermoid cysts with hyperprolactinemia. *Obstet Gynecol* 1990;75:540-43.
9. **Graus F, Dalmau J.** Paraneoplastic neurological syndromes: diagnosis and treatment. *Current Opinion in Internal Medicine.* 2008;7(1):82-87.
10. **Overeem S, Dalmau J, Bataller L et al.** Hypocretin - 1 CSF levels in anti-Ma2 associated encephalitis. *Neurology.* 2004;Jan 13,62(1):138-40.