

Localizzazioni atipiche dell' endometriosi: nostra esperienza

V. RAGUCCI, MARCELLO DI SERIO, MAURIZIO DI SERIO,
M.L. FALCO, A.E. PARETO, A. TOLINO

RIASSUNTO: Localizzazioni atipiche dell'endometriosi: nostra esperienza.

V. RAGUCCI, MARCELLO DI SERIO, MAURIZIO DI SERIO, M.L. FALCO,
A.E. PARETO, A. TOLINO

Obiettivo del nostro studio è quello di sottolineare le difficoltà diagnostiche legate a localizzazioni atipiche di una patologia dal sempre maggiore interesse ginecologico, quale l'endometriosi.

Lo studio è stato condotto dal dicembre 2005 al novembre 2008 su 5 casi di endometriosi cutanea ed inguinale. Tre delle cinque pazienti sono giunte alla nostra osservazione presentando una tumefazione, di dimensioni variabili, a livello dei margini cicatriziali della pregressa incisione secondo Pfannestiel (due per parto ed una per miomectomia); una paziente presentava tale tumefazione in corrispondenza del punto di infissione dell'ago dell'amniocentesi e la quinta paziente, infine, a livello inguinale. La diagnosi è stata effettuata, in prima istanza, su indicazione sintomatologica, in base ad un attento esame obiettivo e dalla successiva conferma istologica, da cui non sono risultate atipie cellulari. Dal nostro studio emerge la necessità di rivolgere maggiore attenzione alle pazienti che presentano noduli sui piani superficiali o sui margini cicatriziali con anamnesi positiva per pregressi interventi chirurgici sulla sfera genitale. Infine, è opportuno che il ricorso a pratiche chirurgiche sulla sfera genitale, che potrebbero avere come conseguenza una endometriosi da impianto chirurgico, vengano eseguite in seguito a scrupolose valutazioni.

SUMMARY: Atypical localization of endometriosis: our experience.

V. RAGUCCI, MARCELLO DI SERIO, MAURIZIO DI SERIO, M.L. FALCO,
A.E. PARETO, A. TOLINO

The aim of our study is to highlight the diagnostic difficulties related to atypical localization of endometriosis, a pathology with growing interest in gynecology.

The study was conducted from December 2005 to November 2008 on 5 cases of cutaneous endometriosis and inguinal. Three of the five patients came to our observation by presenting a nodule of variable size, at the margin of the previous incision scar Pfannestiel seconds (two for caesarean and one for myomectomy); one patient had a tumefaction at the point where the needle for amniocentesis was inserted, while the other patient had a tumefaction in the groin. The diagnosis was made at the first instance, on recommendation symptoms, according to a careful physical examination and a subsequent histological confirmation, it showed no atypical cells. From our study the necessity emerges to pay more attention to patients with nodules on the floor surface or on the margins of scarring with a history of past surgery on the genital sphere. Finally, it is appropriate that the use of surgical practices on the genital sphere, which could have resulted from an endometriosis implant surgery, are performed after thorough assessments.

KEY WORDS: Endometriosi - Endometriosi della parete addominale - Endometriosi inguinale.
Endometriosis - Endometriosis of the abdominal wall - Inguinal endometriosis.

Introduzione

Con il termine "endometriosi" si definisce una condizione in cui isole di endometrio risultano dissemina-

te al di fuori della cavità dell'utero, con la conseguente crescita di tessuto endometriale in sedi anomale.

Rappresenta una malattia sistemica degli epitelii colomati a prevalente localizzazione pelvica.

Viene differenziata in adenomiosi o endometriosi interna (quando si ha la metaplasia del miometrio in senso endometriotico) ed endometriosi esterna pelvica (quando l'endometrio ectopico si trova sul peritoneo pelvico o negli altri organi pelvici-ovaie, legamenti uterini, setto retto-vaginale, tube, vescica, sigma).

Dato che l'endometriosi si può repertare in organi e tessuti al di fuori e lontani dalla pelvi - vulva, ombel-

Università degli Studi di Napoli "Federico II"
Dipartimento Clinico di Emergenza Ostetrica e Ginecologica
e Medicina della Riproduzione, Urologia
(Direttore: A. Tolino)

© Copyright 2010, CIC Edizioni Internazionali, Roma

lico, cicatrici di interventi laparotomici, appendice, polmoni - si parla, anche, di endometriosi di quel determinato organo o tessuto. Questa condizione fa comunque parte della endometriosi esterna ed è molto più rara.

Si stima che nel mondo colpisca circa il 3-10% delle donne in età riproduttiva e che si trovi alla base del 25-35% dei problemi riproduttivi e del 20-40% dei casi di dolore pelvico cronico. Infatti, si ritiene che nel 53% delle adolescenti con dolore pelvico severo la causa possa essere proprio l'endometriosi.

Questa patologia, inoltre, rappresenta la prima causa di ricovero ospedaliero ginecologico tra le donne di età compresa tra i 15 ed i 44 anni. Non ha preferenze etniche o geografiche ma essendo rarissima prima del menarca e molto rara dopo la menopausa fa sì che le pazienti giungano, frequentemente, ad una prima diagnosi tra i 20 ed i 35 anni (1, 2).

Le cause di tale patologia non sono completamente chiarite: la teoria più antica riguarda quella del "reflusso mestruale"; seguono ipotesi metaplastiche a carico dei residui di epitelio celomatico; ipotesi immunologiche e ipotesi genetico-familiari.

Le sedi più frequentemente coinvolte dalla malattia sono: ovaie (nel 50% dei casi coinvolte bilateralmente), la sierosa dell'utero, le tube, i legamenti uterini (uterosacrali, rotondi, larghi), il peritoneo del Douglas, la plica vescico-uterina ed il setto retto-vaginale.

Spesso sono colpiti più di un tessuto o di un organo contemporaneamente e solo in un terzo dei casi le localizzazioni sono uniche (3).

A livello intestinale l'endometriosi si associa di solito a localizzazioni genitali e colpisce prevalentemente il retto, il sigma, l'appendice e più raramente il tenue, a volte l'omento.

Anche l'endometriosi toracica è di eccezionale riscontro e può essere reperita sia a livello pleurico che polmonare. Raramente risultano coinvolti anche: vagina, vulva, vescica, ureteri e parete addominale (in corrispondenza di cicatrici laparotomiche).

La sintomatologia è legata alla conservata capacità del tessuto endometriosico ectopico di rispondere agli stimoli ormonali. In pratica, ad ogni ciclo mestruale, alle normali modificazioni dell'endometrio uterino si associa la risposta del tessuto ectopico, con il rischio di sanguinamenti anomali, anemizzazione e successive reazioni fibrotiche (Tab. 1).

Dai dati presenti in letteratura, la sede addominale potrebbe essere inquadrata in due categorie principali: endometriosi primitiva ed endometriosi secondaria (endometriosi su cicatrice).

La più frequente localizzazione primitiva sembra essere l'ombelico, mentre le localizzazioni secondarie più frequenti riportate da molti Autori sono rappresentate dalle cicatrici da taglio cesareo (4, 5), o da altri interventi

TABELLA 1 - SINTOMATOLOGIA DELL'ENDOMETRIOSI.

Dismenorrea
Dolore pelvico
Dolore ai quadranti inferiori addominali o dolore lombare
Dispareunia
Dischezia (dolore alla defecazione)
Disuria

ginecologici e dai siti di introduzione di trocar per procedure laparoscopiche o aghi per amniocentesi.

La localizzazione vulvare, estremamente rara, può anch'essa avvenire per disseminazione ed impianto dell'endometrio durante interventi della zona pelvica (per ridurre un rettocele, un'incontinenza fecale, una lacerazione da parto) e, solitamente, si manifesta con noduli piuttosto piccoli in prossimità dell'orifizio inguinale esterno (origine metaplastica) oppure sotto la cute delle grandi labbra o nella regione della forchetta e del perineo (disseminazione chirurgica).

La nostra esperienza

Dal dicembre del 2005 al novembre del 2008 presso il nostro Dipartimento Clinico di Emergenza Ostetrica e Ginecologica e Medicina della Riproduzione, Urologia si sono verificati 5 casi di localizzazione anomala di endometriosi.

Due pazienti hanno presentato endometriosi di parete, a livello dei margini della precedente cicatrice da taglio cesareo; una paziente ha presentato endometriosi sulla cicatrice di una precedente miomectomia per via laparotomica; una su un nodulo endometriosico a livello del punto di infissione dell'ago della pregressa amniocentesi; ed una a livello inguinale.

Le pazienti avevano un'età compresa tra i 30 e i 45 anni, nessuno dei casi presentava dismenorrea, meno - metrorragia e/o anemizzazione significativa, sintomi, invece, solitamente associati ad endometriosi extra-pelvica.

In tutti i casi le pazienti presentavano noduli cutanei di dimensioni variabili, dalla consistenza duro-elastica, di colore bluastrò, soggetti a variazioni dimensionali e dolenti in accordo con le varie fasi del ciclo mestruale.

Caso n. 1 (dicembre 2005)

E.N., di 42 anni, giungeva alla nostra osservazione riferendo da circa un anno la presenza di una tumefazione nella sede di una pregressa incisione cutanea secondo Pfannenstiel da taglio cesareo, che diveniva dolente nei

primi 14 giorni del ciclo mestruale, con regressione spontanea della sintomatologia nell'arco dei 7 giorni successivi. La paziente riferiva di aver subito due tagli cesarei, rispettivamente a 29 e 36 anni ed un aborto spontaneo circa un anno prima. All'esame obiettivo (effettuato al 3° giorno del ciclo) la paziente presentava una tumefazione grossolanamente emisferica nella regione ipogastrica, sulla sede della cicatrice di Pfannenstiel, delle dimensioni di circa 6 cm di diametro, di colore rosso scuro, di consistenza dura, ricoperta da cute ecchimotica, dolente alla palpazione, non riducibile.

All'esame ecografico la massa risultava sovrafasciale, ipocogena, di diametro massimo di 60 mm, a limiti sfumati, con un quadro suggestivo, in considerazione del dato anamnestico, per processo endometrioso. Si decideva in un primo momento di soprassedere al trattamento chirurgico ed eseguire trattamento medico con Buserelin (400 µg per via sc. al giorno per 4 mesi). Dopo tale periodo, per la mancanza di una modifica rilevante del quadro clinico, veniva eseguito intervento chirurgico di asportazione a tutto spessore dell'endometrioma, con il risparmio della fascia posteriore della guaina dei retti e del peritoneo.

Caso n. 2 (aprile 2006)

M.B., di 42 anni, paziente in buono stato di salute, giungeva alla nostra osservazione riferendo la presenza di una tumefazione a livello addominale, dolente e variabile nelle dimensioni in determinati periodi del mese. All'anamnesi ostetrica risultavano un taglio cesareo nel 1999, un aborto spontaneo nel 2002 ed un taglio cesareo nel 2004. La paziente riferiva che nel corso dell'ultima gravidanza aveva effettuato amniocentesi.

All'esame obiettivo si rilevava la presenza a livello addominale, circa 1.5 cm dall'ombelicale trasversa e 2 cm a destra della linea alba, di un nodulo di circa 3.5 cm, di consistenza duro-elastica, poco mobile, non riducibile, di colorito bruno, ricoperto da cute ecchimotica, a superficie liscia.

Si procedeva ad exeresi chirurgica e l'esame istologico confermava la diagnosi di endometriosi di parete.

Caso n. 3 (gennaio 2007)

C.D., di 35 anni, in buono stato di salute, assenza di patologie degne di nota ed all'anamnesi ostetrica risultava un parto spontaneo avvenuto nel 1995. La paziente riferiva da circa tre anni dolori periferici di natura non ben definita e la presenza di una tumefazione a livello inguinale.

All'esame obiettivo (eseguito al 3° giorno del ciclo) si rilevava, in corrispondenza dell'orifizio esterno del canale inguinale di destra, la presenza di una tumefazione emisferica di circa 2 cm, di colorito rosso-bruno, di consistenza duro-elastica, ricoperta da cute ecchimoti-

ca, a superficie liscia, non riducibile, aderente ai piani profondi.

Si procedeva ad exeresi chirurgica che evidenziava i rapporti della neoformazione con il sottocute profondo e la guaina anteriore dell'obliquo esterno di destra, in corrispondenza dell'orifizio esterno del canale inguinale.

L'esame istologico, in accordo con il sospetto diagnostico, confermava la presenza di tessuto endometriale e margini di resezione chirurgica indenni.

Caso n. 4 (settembre 2008)

E.S., di 45 anni, giungeva alla nostra osservazione riferendo da circa 6 mesi la presenza di una tumefazione dolente e dalle dimensioni variabili a livello sovrapubico. Dall'anamnesi ostetrico-ginecologica risultavano due parti spontanei avvenuti, rispettivamente, nel 1998 e nel 2001 e un intervento di miomectomia per mioma della parete anteriore, a sede intramurale-sottosierosa, di dimensioni di circa 4 cm nel 2007.

All'esame obiettivo tale tumefazione, localizzata al margine laterale sinistro della cicatrice laparotomica secondo Pfannenstiel per miomectomia, appariva di colore bruno-rossastro, di consistenza duro-elastica, poco mobile con un diametro di circa 2 cm. Si procedeva ad exeresi chirurgica a tutto spessore del sottocute, fino alla superficie della guaina del retto dell'addome di sinistra. La conferma dell'origine endometriosa della lesione è stata data dal referto istologico.

Caso n. 5 (novembre 2008)

T.R., di 33 anni, giungeva alla nostra osservazione riferendo da circa 3 mesi la presenza di una tumefazione anteriormente alla vescica, a livello dell'angolo destro della sutura laparotomica. All'anamnesi la paziente non presentava patologie degne di nota, assenza di precedenti episodi di endometriosi, assenza di interventi chirurgici se non i due tagli cesarei avvenuti, rispettivamente, nel 2002 e nel 2006.

All'esame obiettivo (eseguito al 2° giorno del ciclo) si rilevava la presenza a livello addominale, lungo la cicatrice in corrispondenza del precedente taglio secondo Pfannenstiel, di una tumefazione grossolanamente emisferica, del diametro di circa 1,5 cm, di colorito bruno-rossastro, a superficie liscia e margini arrotondati che presentava un alone iperemico perilesionale, non riducibile e non spostabile sui piani profondi. L'aspetto clinico era suggestivo per formazione cutanea di tipo nevico. Si procedeva ad exeresi chirurgica a tutto spessore che evidenziava i rapporti della neoformazione col sottocute profondo e con la guaina anteriore del retto di destra.

L'esame istologico dimostrava la presenza di tessuto endometriale in continuità con i piani muscolo-fasciali e margini di resezione chirurgica indenni.

Discussione

Il primo caso di ectopia endometriale della parete addominale fu descritto nel 1886 da Villar, che riferì su un caso in sede ombelicale (6).

Sebbene l'endometriosi sia una affezione ginecologica estremamente diffusa (3-15% delle donne in età fertile) (7-9), l'incidenza della localizzazione addominale si attesta attorno allo 0,4% per il riscontro in sede di cicatrice chirurgica (10). Il taglio cesareo è l'intervento dopo il quale più frequentemente si osserva tale affezione (1% dei tagli cesarei) (11-12); da qualche anno cominciano ad essere segnalate le localizzazioni in sede di ingresso di trocar e di aghi per l'amniocentesi (13). L'impianto primitivo sulla parete addominale è, viceversa, da considerarsi di osservazione eccezionale (0,5-1% degli impianti extra-addominali) e le sedi più frequenti sembrano essere l'ombelico ed i muscoli retti (14), sebbene sia stata descritta anche la localizzazione nel canale inguinale che pone problemi di diagnosi differenziale con l'ernia strozzata (15-17).

La patogenesi dell'endometriosi è tutt'oggi oggetto di numerose ricerche. Tradizionalmente si dibattono tre teorie patogenetiche per giustificare le localizzazioni primitive: 1) *teoria della metaplasia dell'epitelio celomatico* (18); 2) *teoria della trasformazione mulleriana* (19); 3) *teoria dell'impianto celomatico per mestruazione retrograda* (20); *per disseminazione ematica* (21); e *disseminazione linfatica* (22). Per le forme secondarie (dopo chirurgia o manovre diagnostiche invasive tipo amniocentesi) ci si riferisce alla *teoria della disseminazione chirurgica* (23).

Dato che la sintomatologia non è ben chiara e l'esame obiettivo può facilmente indurre in inganno biso-

gnerebbe tenere sempre presente questa patologia, soprattutto in relazione all'anamnesi ostetrico-ginecologica della paziente.

Conclusioni

L'endometriosi si presenta molto spesso come una patologia "silente", ma non per questo bisogna considerarla rara. Purtroppo sia la nostra esperienza che quella di altri Autori rivela che esistono ancora delle difficoltà nella diagnosi di questa patologia, soprattutto quando l'endometriosi si manifesta in localizzazioni non proprio frequenti.

Dal nostro studio, anche se effettuato su un numero piuttosto esiguo di casi (5), si evince che una endometriosi della parete addominale deve comunque essere sempre presa in considerazione, come diagnosi differenziale, in ogni donna, in età riproduttiva, che presenta una massa dolorosa a livello della parete addominale e una storia pregressa di chirurgia o diagnostica invasiva sulla sfera genitale. Infatti, i casi di endometriosi in sedi atipiche stanno aumentando, vuoi per la maggiore diffusione di tecniche diagnostiche sulla sfera genitale, vuoi per la maggiore incidenza dei tagli cesarei, vuoi per la maggiore frequenza di patologie della sfera genitale (24).

Dal nostro studio, inoltre, emerge la necessità di rivolgere una maggiore attenzione nell'effettuare interventi sulla sfera genitale che potrebbero avere, come conseguenza, proprio un'endometriosi da impianto chirurgico.

Infine, c'è da dire che nonostante i vorticosi progressi tecnologici, e soprattutto scientifici, utili per indirizzare verso una diagnosi corretta, non si può dimenticare il prezioso ausilio dato dalla sintomatologia, da una scoperta casuale o da un'intuizione geniale.

Bibliografia

1. ACOG practice bulletin: Medical Management of endometriosis. Int J Gynecol Obstet, 71:183-96, 2000.
2. Acosta AA, Buttram VC Jr, Besch PK, Palinak LR, Franklin RR, Vanderheyden JD. A proposed classification of pelvic endometriosis. Obstet Gynecol 1973; 42:19.
3. Nappi C e coll.: Endometriosi 1153-1164. Ostetricia e Ginecologia Ed. Idelson-Gnocchi 2004.
4. Dwivedi A.J., Agrawal S.N., Silva Y.J.: *Abdominal Wall Endometriomas*. Dig Dis Sci, 47: 456-61, 2002.
5. Elabsi M., Lahlou M.K., Rouas L., Essadel H., Benamer S., Mohammadine A., Taghi A., Chad B., Zizi A., Chokoff L., Belmahi A.: *L'endometriose cicatricielle de la paroi abdominal*. Ann Chir, 127:65-7, 2002.
6. Miller W.B., Melson L.: Abdominal wall endometrioma. Am J Roentgen, 132:467-8, 1979.
7. Rawson J.M. Prevalence of endometriosis in asymptomatic women. J Reprod Med 1991;36:513-5.
8. Rickert VI and Kozlowski KJ (2000) Pelvic pain. A safe approach. Obstet Gynecol Clin North Am 27, 181-93.
9. Stevens T. G. Adenomyoma of the vaginal wall. Proc Roy Soc Med 1910;3:57-8.
10. Singh K.K., Lessels A.M., Adam D.J., Jordan C., Miles W.F., Macintyre I.M., Greig J.D.: Presentation of endometriosis to general surgeons: a 10 year experience. Br J Surg, 82:1349-51, 1995.
11. Esquivel-Estrada V., Briones-Guarduno J.C., Mondragon-Ballescros R.: Endometriosis implant in cesarean section surgical scar. Cir Cir 2004;26: 709-715.
12. Pellicano M., Lavitola G., Guida M., Cirillo D., Nappi C. (2002) Complicanze in chirurgia laparoscopica: analisi e commento della letteratura più recente. Gior It Endosc Ginecol, 2, 16-28.
13. Healy J.T., Wilkinson N.W., Sawyer M.: abdominal wall endometrioma in a laparoscopic trocar tract: A case report. Am Surg, 61:962-3, 1995.
14. Ledda S., Licheri S., Casu B., Martinasco L., Pulix N., Ambu R., Pisano G., Pomata M., Daniele G.M.: Endometriosi della cicatrice ombelicale: descrizione di un caso clinico e revisione della letteratura. Chir Ital, 54:405-8, 2002.

15. Miranda L., Settembre A., Capasso P., Piccoboldi D., De Rosa N., Corcione F.: Inguinal endometriosis or irriducibile hernia? A difficult preoperative diagnosis. *Hernia*, 5:47-9, 2001.
 16. Fimmarò A., Coppola Bottazzi E., Cirillo C., Tamaro P., Di Carlo R.: Le endometriosi del canale inguinale. *Chir Ital* 2005; 57, (N.2):211-214.
 17. Hagiwara Y., Hatori M., Katoh H., Kokubun S.: A case of inguinal endometriosis with difficulty in preoperative diagnosis. *Ups J Med Sci* 2002; 107:159-164.
 18. Gruenvald P.: Origin of endometriosis from the mesenchyme of celomic walls. *Am J Obstet Gynecol*, 44:470-4, 1942.
 19. Meyer R.: Über eine adenomatöse Wucherung der Serosa in einer Bauchnarbe. *Z Geburtsh Gynakol*, 49:32-41, 1903.
 20. Sampson J.A.: Peritoneal endometriosis due to menstrual dissemination of endometrial tissue into the peritoneal cavity. *Am J Obstet Gynecol*, 14:422-69, 1927.
 21. Halban Y.: Historoadenosis Metastica. *Wien Klin Wochenschr*. 37:1025-31, 1924.
 22. Merrill J.A.: Endometrial induction of endometriosis across millipore filters. *Am J Obstet Gynecol*, 94:780-2, 1966.
 23. Ridley J.H., Edwards K.: Experimental endometriosis in the human. *Am J Obstet. Gynecol*, 76:783-789, 1958.
 24. Smith G.C., Wood A.M., Pell J.P., Dobbie R.: First cesarean birth and subsequent fertility. *Fertil Steril* 2006; 85 (1):90-95.
-