

**TUMEUR ADENOMATOÏDE MULTINODULAIRE DE L'UTERUS CHEZ UNE
PATIENTE AVEC ALLOGREFFE RENALE**

**MULTINODULAR ADENOMATOID TUMOR OF THE UTERUS IN A PATIENT
WITH A RENAL ALLOGRAFT**

Hélène Duval ¹, Nathalie Rioux-Leclercq ¹, Estelle Bauville ², Mansour Al Jaradi ¹, Florence Burtin ¹.

1 : Département d'Anatomie et de Cytologie Pathologiques, CHU Pontchaillou, Rennes, France.

2 : Département d'Obstétrique, Gynécologie et Médecine de la Reproduction, CHU Hôpital Sud, Rennes, France.

Correspondant : Dr DUVAL Département d'Anatomie et de Cytologie Pathologiques CHU Pontchaillou, 2 rue Henri Le Guillou, 35033 RENNES, FRANCE.

Telephone : 33-2-99-28-41-25

Fax : 33-2-99-28-42-84

E-mail: helene.duval@chu-rennes.fr

Titre courant : Tumeur adénomatoïde multinodulaire de l'utérus et allogreffe rénale.

Résumé : Un cas de tumeur adénomatoïde multinodulaire de l'utérus est rapporté chez une patiente de 43 ans aux antécédents d'allogreffe rénale. Bien que la symptomatologie, l'échographie pelvienne et l'examen macroscopique fussent en faveur d'un utérus polyyomateux, le diagnostic de tumeur adénomatoïde multinodulaire associée à des léiomyomes typiques a été établi sur les aspects histologiques adénomatoïdes et angiomatoïdes ainsi que sur le profil immuno-histochimique. Les tumeurs adénomatoïdes diffuses ou multinodulaires de l'utérus sont des lésions rares et bénignes, rapportées presque uniquement chez des patientes traitées par immunosuppresseurs dans le cadre d'une transplantation rénale.

Abstract : A case of a diffuse adenomatoid tumor of the uterus occurring in a 43-year-old patient with a renal allograft transplant is reported. Grossly, the lesions thought to be multiple leiomyomas. The diagnosis was supported by the adenomatoid and angiomatoid histologic patterns and the mesothelial immuno-phenotype. Diffuse adenomatoid tumor of the uterus is a rare and benign lesion, usually reported in patient with immunodeficiency and renal transplant.

Mots clés : tumeur adénomatoïde, mésothéliome bénin, transplantation rénale, utérus.

Keywords : adenomatoid tumor, uterus, benign mesothelial tumor, renal transplant.

INTRODUCTION : Les tumeurs adénomatoïdes ou tumeurs mésothéliales bénignes, initialement décrites par Masson et al, surviennent généralement au niveau des voies génitales féminines et masculines [1]. Il s'agit de lésions bénignes, souvent isolées, dont l'origine mésothéliale a été démontrée. Leur incidence sur les pièces d'hystérectomie a été estimée à 1% environ et leur diagnostic est souvent fortuit [2]. A notre connaissances, les tumeurs adénomatoïdes diffuses ou multinodulaires sont exceptionnelles, rapportées précédemment chez trois patientes greffées rénales [3-5].

OBSERVATION : La patiente âgée de 43 ans, caucasienne, consultait pour des métrorragies sur utérus polymyomateux d'après les données de l'échographie pelvienne. L'absence de régression de la symptomatologie sous traitement médical aboutit à la réalisation d'une hystérectomie. Cette patiente avait bénéficié d'une transplantation rénale 3 ans auparavant pour une néphropathie tubulo-interstitielle compliquant un reflux vésico-urétéral. Depuis, elle était traitée par immunosuppresseurs associant mycophenolate mofetil, tacrolimus et corticothérapie, notamment prednisolone.

L'utérus pesait 166 g et mesurait 10,5 cm x 6 cm x 6,5 cm. Le dôme utérin était déformé par 3 nodules assez bien limités, légèrement fasciculés et jaunâtres à la coupe, mesurant entre 2 et 3 cm de plus grand axe. Cinq myomes interstitiels typiques infra centimétriques étaient également notés. Les trois nodules du dôme, histologiquement identiques, correspondaient à un réseau complexe d'interstices et de tubes répartis entre des faisceaux de cellules musculaires lisses, sans interposition de stroma (figure 1). Les structures tubulaires étaient tapissées par une assise de cellules aplaties ou cubiques avec des noyaux réguliers et uniformes comportant une chromatine finement dispersée et des cytoplasmes abondants et éosinophiles (figure 2). De rares cellules multi nucléées étaient présentes. L'activité mitotique était inférieure à une mitose pour 10 champs étudiés au plus fort grossissement. Les cellules tumorales exprimaient fortement les pancytokératines AE1-AE3, la calrétinine (figure 3) et l'antigène HBME1. Il n'était pas observé d'expression significative des marqueurs musculaires lisses (actine musculaire lisse et h-caldesmon), des récepteurs aux oestrogènes et à la progestérone. Moins de 5 % des cellules présentaient une positivité nucléaire avec l'anticorps anti-Ki-67. Les cinq autres nodules correspondaient à des léiomyomes classiques. Le diagnostic retenu était celui de tumeur adénomatoïde multinodulaire du corps utérin associée à cinq léiomyomes.

DISCUSSION : A notre connaissance, il s'agit du 4ème cas de tumeur adénomatoïde multi nodulaire rapporté dans la littérature [3-5]. Les tumeurs adénomatoïdes de l'utérus sont des néoplasies bénignes d'origine mésothéliale. Cette origine a été démontrée par diverses études ultra-structurales et immunohistochimiques, avec notamment l'expression de l'antigène HBME1 et de la calrétinine [6-7]. Au niveau des voies génitales féminines, ces tumeurs de siège sous séreux se situent par ordre de fréquence dans l'utérus, les trompes et le hile ovarien [8]. Leur incidence réelle n'est pas connue, notamment du fait de leur découverte souvent fortuite sur les pièces d'hystérectomie. Les tumeurs adénomatoïdes ont été rapportées chez la femme entre 28 et 65 ans (âge médian : 45 ans) et correspondent le plus souvent à une lésion nodulaire unique, mal limitée, contrairement aux léiomyomes, de petite taille, mesurant entre 0,2 et 3,5 cm (moyenne : 2 cm) [9]. Quatre aspects histologiques ont été définis, parfois associés : adénomatoïde, angiomatoïde, solide et kystique [10]. Les structures glanduliformes sont irrégulièrement réparties entre des faisceaux de cellules musculaires lisses, sans stroma adjacent. Elles sont tapissées par une seule assise de cellules cubiques ou aplaties. Sur le plan immunohistochimique, il existe une expression de la calrétinine et de l'antigène HBME1 ainsi que des pancytokératines AE1-AE3 et de la vimentine. Les immunomarquages sont négatifs avec les anticorps anti-EMA, anti-alpha actine muscle lisse et anti-facteur VIII. L'expression nucléaire de Ki67 est généralement faible, représentant moins de 5 % des cellules. [6,9].

Le diagnostic de tumeur adénomatoïde est parfois difficile à évoquer, tant macroscopiquement qu'histologiquement. En effet, sur le plan macroscopique, ces lésions nodulaires peuvent être confondues avec des léiomyomes bien qu'elles présentent généralement des limites moins nettes. De plus, microscopiquement, l'identification des tubules peut être difficile lorsque ceux-ci n'apparaissent que sous-forme d'espaces optiquement vides, répartis dans le tissu musculaire lisse et tapissés par de rares cellules aplaties. Dans les formes kystiques, les cavités peuvent être tapissées par des cellules aplaties,

endothéliiformes, faisant alors discuter une tumeur vasculaire de type lymphangiome compte-tenu de leur aspect. Dans ces situations, l'étude immunohistochimique est déterminante pour le diagnostic : expression des pancytokératines AE1/AE3, de la vimentine, de la calrétinine et de l'antigène HBME1, sans expression associée des marqueurs vasculaires.

Les tumeurs adénomatoïdes sont considérées comme des lésions bénignes, sans cas de récurrence ou de transformation maligne dans la littérature. Les cas de tumeurs adénomatoïdes diffuses ou multi nodulaires de l'utérus ont uniquement été rapportés chez des patientes ayant bénéficié d'une transplantation rénale et traitées par immunosuppresseurs durant plus de dix années, notamment par prednisolone [3-5]. Toutefois, à notre connaissance, il n'a pas été établi de lien entre la transplantation rénale et ce type de pathologie, au demeurant peu fréquente. Les pathologies rénales initiales des patientes étaient différentes et le geste chirurgical pratiqué n'intéresse théoriquement pas la région pelvienne. L'hypothèse la plus couramment proposée est que le caractère multinodulaire ou diffus pourrait être en rapport avec les effets des traitements immunosuppresseurs qui diminueraient la capacité de l'organisme à limiter l'extension tumorale.

REFERENCES :

- 1- Masson P, Riopelle JL, Simard LC. Le mésothéliome bénin de la sphère génitale. *Rev Canc Biol.*1942;1:720-25.
- 2- Tiltman AJ. Adenomatoid tumours of the uterus. *Histopathology.*1980; 4:437-43.
- 3- Bülent Tiras M, Noyan V, Süer O, Bali M, Edali N, Yildirim M. Adenomatoid tumor of the uterus in a patient with chronic renal failure. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol.*2000;92: 205-7.
- 4- Leong Cheng C, Wee A. Diffuse uterine adenomatoid tumor in an immunosuppressed renal transplant recipient. *Int J Gynecol Pathol.*2003;22:198-201.
- 5- Livingston EG, Guis MS, Pearl M, Stern J, Brescia RJ. Diffuse adenomatoid tumor of the uterus with a serosal papillary cystic component. *Int J Gynecol Pathol.*1992;11:288-92.
- 6- Said JW, Nash G, Lee M. Immunoperoxidase localization of keratin proteins, carcinoembryonic antigen, and factor VIII in adenomatoid tumors. Evidence of mesothelial derivation. *Human Pathol.*1982;13:1106-8.
- 7- Salazar H, Kanbour A, Burgess F. Ultrastructure and observations on the histogenesis of mesotheliomas “adenomatoid tumors” of the female genital tract. *Cancer.*1972;29:142-51.
- 8- Christensen C. Adenomatoid tumors of the uterus. *Eur J Gynecol Oncol.*1990;2:85-89.
- 9- Nogales F, Isaac MA, Hardisson D et al. Adenomatoid tumors of the uterus : an analysis of 60 cases. *Int J Gynecol Pathol.*2002;21: 34-40.
- 10- Quigley JC, Hart WR. Adenomatoid tumor of the uterus. *Am J Clin Pathol.*1981;76: 627-35.

LEGENDES DES FIGURES :

Figure 1. Structures tubulaires (aspect adénomatoïde) réparties entre des faisceaux de cellules musculaires lisses, sans interposition de stroma (HES, grandissement initial x 200). *Tubular adenomatoid spaces (adenomatoid pattern) among smooth muscle fibers, without fibrous stroma (original magnification x 200).*

Figure 2. Présence d'une assise de cellules cuboïdes au cytoplasme éosinophile, sans atypies (HES, grandissement initial x 400). *Adenomatoid tubules covered by a single layer of cuboidal cells, with eosinophilic cytoplasm (original magnification x400).*

Figure 3. Expression de la calrétinine par les cellules néoplasiques en faveur de leur origine mésothéliale (grandissement initial x 200). *Immunohistochemical stain for Calretinin highlighting the neoplastic cells and supporting their mesothelial origin (original magnification x 200).*