

Редкий случай сочетания рака шейки матки с односторонней полной аплазией придатков

Чернышова А.Л., Коломиец Л.А., Кишкина А.Ю., Очиров М.О.

Научно-исследовательский институт (НИИ) онкологии, Томский национальный исследовательский медицинский центр (НИМЦ) Сибирского отделения Российской академии наук (СО РАН)
Россия, 634050, г. Томск, пер. Кооперативный, 5

РЕЗЮМЕ

В статье представлен случай редкого сочетания рака шейки матки с врожденной патологией придатков – полной односторонней аплазией маточных придатков. Пороки развития женских половых органов составляют около 4% всех врожденных аномалий развития, при этом пороки развития придатков очень редки (менее 0,5%). В данном случае это была случайная находка при оперативном вмешательстве по поводу рака шейки матки. При проведении медико-генетического консультирования сделано заключение о наличии изолированной врожденной патологии.

Ключевые слова: рак, шейка матки, пороки эмбрионального развития, гонады.

Конфликт интересов. Авторы декларируют отсутствие явных и потенциальных конфликтов интересов, связанных с публикацией настоящей статьи.

Источник финансирования. Авторы заявляют об отсутствии финансирования при проведении исследования.

Для цитирования: Чернышова А.Л., Коломиец Л.А., Кишкина А.Ю., Очиров М.О. Редкий случай сочетания рака шейки матки с односторонней полной аплазией придатков. *Бюллетень сибирской медицины*. 2019; 18 (2): 299–303. <https://doi.org/10.20538/1682-0363-2019-2-299-303>.

Combination of cervical cancer and unilateral complete aplasia of the adnexa: a case report

Chernyshova A.L., Kolomiets L.A., Kishkina A.Yu., Ochirov M.O.

Cancer Research Institute, Tomsk National Research Medical Center (TNRMC) SO RAS
Kooperativny lane, 634050, Tomsk, Russian Federation

ABSTRACT

We present a rare case of the combination of cervical cancer and unilateral complete aplasia of the uterine adnexa. Female genital tract anomalies account for about 4% of all congenital malformations.

Congenital malformations of the adnexa are very rare, accounting for less than 0.5%. In the presented case, this abnormality was found incidentally during surgery for cervical cancer. Medical genetic counseling confirmed the presence of the isolated congenital pathology.

Key words: cervical cancer, malformations in the embryonic development, gonads.

Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest.

Source of financing. The authors state that there is no funding for the study.

For citation: Chernyshova A.L., Kolomiets L.A., Kishkina A.Yu., Ochirov M.O. Combination of cervical cancer and unilateral complete aplasia of the adnexa: a case report. *Bulletin of Siberian Medicine*. 2019; 18 (2): 299–303. <https://doi.org/10.20538/1682-0363-2019-2-299-303>.

ВВЕДЕНИЕ

Анализ современной литературы показал, что пороки развития женских половых органов составляют 0,23–4% всех врожденных аномалий развития. При этом за последние 5 лет отмечено почти 10-кратное увеличение частоты пороков развития половых органов у девочек [1]. По данным мировой статистики гинекологической патологии, частота встречаемости пороков развития гениталий составляет 3,4%. В общей популяции это один случай на 4 000–5 000 новорожденных девочек, при этом чаще встречается аплазия влагалища или матки [2].

Одностороннее отсутствие придатков при нормальной матке – достаточно редкая патология, которая не часто описывается в литературе [3–5]. Выявление данной патологии значительно затруднено из-за бессимптомного течения. Также достаточно трудно определить частоту встречаемости данной аномалии. По данным различных авторов, она составляет 1: 11 240 [6]. Первый случай одностороннего отсутствия яичников был описан в 1923 г. [7]. За последнее десятилетие описан целый ряд клинических наблюдений с данной патологией, что может быть связано с широким использованием диагностической лапароскопии, однако общее число случаев остается небольшим [6–11].

Ряд авторов предполагает две возможные этиопатогенетические причины развития данной аномалии: во-первых, это бессимптомный перекрут одного или обоих придатков с ишемией органов во взрослой жизни или детстве или даже на стадии развития плода. Вторая причина может заключаться в том, что отсутствие придатков является следствием врожденного дефекта в развитии структур мюллерова протока и гонад [12].

К возникновению аномалий развития женских половых органов приводят наследственные, экзогенные, мультифакториальные причины. Возникновение пороков развития гениталий относят к критическому периоду внутриутробного развития. В основе лежат отсутствие слияния каудальных отделов парамезонефральных мюллеровых протоков, отклонения в преобразованиях урогенитального синуса, а также патологическое течение органогенеза гонад, который зависит от развития первичной почки. Эти отклонения составляют 16% всех аномалий. Аномалии развития половых органов чаще возникают при патологическом течении беременности у матери в разные сроки беременности. Это ранние и поздние гестозы, инфекционные заболевания, интоксикация, эндокринные нарушения в организме матери. Помимо этого, аномалии развития женских половых органов могут возникать под влиянием вредных факторов внешней среды, профессиональных вредных воздействий у матери, отравлениях токсическими веществами. При этом наряду с аномалиями гениталий, в 40% случаев встречаются аномалии мочевыделительной системы (односторонняя агенезия почки), кишечника (атрезия заднего прохода), костей (врожденный сколиоз), а также врожденные пороки сердца.

Исследования зарубежных авторов показали, что этиология яичникового и трубного перекрута многочисленна и связана с анатомическими (измененный мезосальпикс, удлиненная яичниковая ножка, трубные аномалии), физиологическими (аномальная перистальтика маточной трубы), гемодинамическими аномалиями (венозные застои в мезосальпиксе), внезапными изменениями положения тела, травмами, операциями или заболеваниями (перевязка маточных труб, воспалительное заболевание таза) и беременностью [13].

В литературе имеется целый ряд случаев, подтверждающих гипотезу о перекруте придатков, когда в дугласовом пространстве находились кальцинированные яичники [14]. Другие исследования также подтвердили гипотезу о перекруте придатков, поскольку отдельные остатки тканей маточной трубы и яичника наблюдались в брюшной полости [15, 16].

Некоторые исследования показали, что одностороннее отсутствие яичника может рассматриваться как возможный фактор бесплодия, если имеется функциональная контралатеральная маточная труба [17]. Ранее сообщалось о пациентке с такой аномалией, у которой было четыре нормальные беременности, завершившиеся нормальными влагалищными родами [18, 19]. У этой пациентки диагностированы отсутствие левого яичника и окклюзия правой маточной трубы во время лапароскопического исследования, однако матка и правый яичник были нормальными. Предположено, что патология контралатеральной маточной трубы может способствовать бесплодию. Однако неясно, могут ли односторонние врожденные аномалии маточной трубы и яичника влиять на функцию контралатеральной маточной трубы. Также неизвестно: может ли данная врожденная патология влиять каким-либо образом на развитие патологии шейки матки, в том числе рака шейки матки. Сочетание данных патологий в литературе не описано.

КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ

Пациентка К., 58 лет, обратилась в гинекологическое отделение НИИ онкологии Томского НИМЦ в феврале 2018 г. с жалобами на мажущие выделения из половых путей в течение 2 мес на фоне менопаузы 10 лет. В женской консультации по месту жительства пациентке были выполнены конусовидная резекция шейки матки и раздельное диагностическое выскабливание полости матки и цервикального канала. По результатам гистологического заключения и данных пересмотра гистологических препаратов в условиях Томского НИИ онкологии получены данные за плоскоклеточную карциному шейки матки умеренной степени дифференцировки без ороговения, с инвазией на всю толщу биоптата (до 5 мм). При бимануальном исследовании наружные половые органы развиты правильно, оволосение по женскому типу. Влагалище емкое, своды эластичные. Шейка матки цилиндрической формы, эрозирована, контактно кровоточит. Матка увеличена до 5–6 нед, плотная, безболезненная. Придатки без особенностей. В анамнезе три беременности:

одни роды и два аборта. В ходе дополнительных методов исследования (магнитно-резонансная томография органов малого таза) определены инфильтративное утолщение в шейке матки, лимфаденопатия паховых лимфатических узлов. По ультразвуковому исследованию органов малого таза и брюшной полости – диффузные изменения печени, деформация желчного пузыря, хронический холецистит. Миома матки, серозометра, диффузные изменения миометрия шейки матки, объемное образование шейки матки, эхоскопически крупный левый яичник с диффузными изменениями. По результатам фиброгастродуоденоскопии – недостаточность кардии, хронические гиперпластические эрозии антрального отдела желудка, папиллома пищевода. По результатам колоноскопии – смешанный геморрой. Инфекционные и аллергические заболевания отрицает, наследственность неотягощена. Пациентке выставлен предварительный диагноз: «Рак шейки матки». Общеклинические анализы без патологии. Маркер SCC – 1 нг/мл (норма до 0,3 нг/мл).

Пациентке было выполнено оперативное вмешательство в объеме лапароскопии, расширенной экстирпации матки с придатками, в ходе операции выявлено полное отсутствие правой маточной трубы и правого яичника (рис. 1).



Рис. 1. Вид операционной раны
Fig. 1. View of the surgical wound

На макропрепарате (рис. 2) на разрезе в области внутреннего зева определялся эрозивный участок с папиллярными разрастаниями. По результатам гистологического исследования операционного материала данные за плоскоклеточный неороговевающий рак умеренной степени дифференцировки, глубина инвазии 5 мм, горизонтальная распространенность 8 мм. Без лимфоваскулярной инвазии. В лимфоузлах – очаговый

фиброз. Лейомиома матки. В яичнике белое тело. В трубе – хроническое воспаление. Послеоперационный период протекал без осложнений.



Рис. 2. Макропрепарат

Fig. 2. Gross specimen

Далее пациентке была проведена консультация генетика в условиях НИИ медицинской генетики Томского НИМЦ, по результатам которой данных за наследственную отягощенность не выявлено. Вероятнее всего, имеет место изолированная врожденная патология.

Пациентке выставлен заключенный диагноз: «Рак шейки матки IV₁ стадии». Полная односторонняя аплазия придатков. Состояние после оперативного лечения: лапароскопия, экстирпация матки с придатками, тазовая лимфодиссекция.

Больная была выписана с рекомендациями о проведении консультации и лечения в радиологическом отделении НИИ онкологии Томского НИМЦ.

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

В представленном клиническом случае аномалия половых органов в виде полной аплазии правых придатков была диагностирована во время оперативного вмешательства. Можно утверждать, что она является врожденной патологией. Данная аномалия не выявлялась при различных методах исследования и никак не влияла на репродуктивную функцию пациентки. Описанный случай можно отнести к тем редким случаям, при которых полная аплазия придатков с одной стороны не стала причиной бесплодия и дала возможность пациентке реализовать свою репродуктивную функцию. Сочетание врожденной аномалии и онкологического процесса здесь, ве-

роятнее всего, имеет случайный характер и не влияет как на развитие, так и на дальнейшее течение онкогинекологического процесса.

ЛИТЕРАТУРА / REFERENCES

1. Адамян Л.В., Кулаков В.И., Хашукоева А.З. Пороки развития матки и влагалища. М., 1998: 328. [Adamyan L.V., Kulakov V.I., Hashukoeva A.Z. Malformations of the uterus and vagina. M., 1998: 328 (in Russ.).]
2. Гинекология. Национальное руководство; под ред. В.И. Кулакова, Г.М. Савельевой, И.Б. Манухина. 2009: 1088. [Gynecology. National guidance; edited by V.I. Kulakov, G.M. Saveleva, I.B. Manukhin. 2009: 1088 (in Russ.).]
3. Eustace D.L. Congenital absence of fallopian tuba and ovary. *Eur. J. Obstet. Gynecol. Reprod. Biol.* 1992; 46 (2–3): 157–159.
4. Paternoster D.M., Costantini W., Uglietti A., Vasile C., Bocconi L. Congenital or torsion-induced absence of Fallopian tubes. Two case reports. *Minerva Ginecol.* 1998; 50 (5): 191–194.
5. Dahan M.H., Burney R., Lathi R. Congenital interruption of the ampullary portion of the fallopian tube. *Fertil. Steril.* 2006; 85 (6): 1820–1821.
6. Rapisarda G., Pappalardo E.M., Arancio A., La Greca M. Unilateral ovarian and fallopian tube agenesis. *Arch. Gynecol. Obstet.* 2009; 280 (5): 849–850. DOI: 10.1007/s00404-009-1018-z.
7. Alexander H.D. True unicornuate uterus and total absence of left broad ligament, round ligament, salpinx, ovary, kidney and ureter. *Can. Med. Assoc. J.* 1947; 56 (5): 539.
8. Rapisarda G., Pappalardo E.M., Arancio A., La Greca M. Unilateral ovarian and fallopian tube agenesis. *Arch. Gynecol. Obstet.* 2009; 280 (5): 849–850. DOI: 10.1007/s00404-009-1018-z.
9. Vaiarelli A., Luk J., Patrizio P. Ectopic pregnancy after IVF in a patient with unilateral agenesis of the fallopian tube and ovary and with endometriosis: search of the literature for these associations. *J. Assist Reprod. Genet.* 2012; 29 (9): 901–904. DOI: 10.1007/s10815-012-9819-6.
10. Gursoy A.Y., Akdemir N., Hamurcu U., Gozukucuk M. Incidental diagnosis of unilateral renal and adnexal agenesis in a 46-year-old multiparous woman. *Am. J. Case Rep.* 2013; 14: 238–240. DOI: 10.12659/AJCR.883970.
11. Muppala H., Sengupta S., Martin J.E. Unilateral absence of tube and ovary with renal agenesis and associated pyloric stenosis: communication. *Eur. J. Obstet. Gynecol. Reprod. Biol.* 2008; 137 (1): 123.
12. Spirina L.V., Bochkareva N.V. et al. Regulation of insulin-like growth NF-κB proteasome system in endometrial cancer. *Molecular Biology.* 2012; 46 (3): 407–413.
13. Kondakova I.V., Spirina L.V., Koval V.D. et al. Chymotrypsin-like activity and subunit composition of proteasomes in human cancers. *Molecular Biology.* 2014; 48 (3): 384–389.

14. Duelholm M., Praest J. Isolated torsion of the normal fallopian tube. *Acta Obstet. Gynecol. Scand.* 1987; 66 (1): 89–90.
15. Yunusova N.V., Spirina L.V. et al. Relationship between the expression levels of PAPP-A metalloproteinase and growth and transcriptional factors in endometrial cancer. *Biology Bulletin.* 2013; 40 (3): 253–259.
16. Yunusova N.V., Kondakova I.V. et al. Serum adipokines and their receptors in endometrial and colon cancer patients: Relationship with tumor invasion and metastasis. *Voprosy Onkologii.* 2015; 61 (4): 619–623.
17. Uckuyu A., Ozcimen E.E., Sevinc Ciftci F.C. Unilateral congenital ovarian and partial tubal absence: report of four cases with review of literature. *Fertil. Steril.* 2009; 91 (3): 936 e5–e8. DOI: 10.1016/j.fertnstert.2008.09.022.
18. Vaiarelli A., Luk J., Patrizio P. Ectopic pregnancy after IVF in a patient with unilateral agenesis of the fallopian tube and ovary and with endometriosis: search of the literature for these associations. *J. Assist. Reprod. Genet.* 2012; 29 (9): 901–904. DOI: 10.1007/s10815-012-9819-6.
19. Gursoy A.Y., Akdemir N., Hamurcu U., Gozukucuk M. Incidental diagnosis of unilateral renal and adnexal agenesis in a 46-year-old multiparous woman. *Am. J. Case Rep.* 2013; 14: 238–240. DOI: 10.12659/AJCR.883970.

Сведения об авторах

Чернышова Алена Леонидовна, д-р мед. наук, вед. науч. сотрудник, отделение гинекологии, НИИ онкологии, Томский НИМЦ, г. Томск. ORCID iD 0000-0002-8194-2811.

Коломиец Лариса Александровна, д-р мед. наук, профессор, руководитель отделения гинекологии, НИИ онкологии, Томский НИМЦ, г. Томск. ORCID iD 0000-0002-6854-8940.

Кишкина Анастасия Юрьевна, аспирант, отделение гинекологии, НИИ онкологии Томский НИМЦ, г. Томск.

Очиров Максим Олегович, аспирант, отделение гинекологии, НИИ онкологии, Томский НИМЦ, г. Томск.

(✉) **Чернышова Алена Леонидовна**, e-mail: alacher@list.ru.

Author information

Chernyshova Alyona L., DM, Senior Research Scientist, Gynecology Department, Cancer Research Institute, TNRMC, Tomsk, Russian Federation.

Kolomiets Larisa A., DM, Professor, Head of Gynecology Department, Cancer Research Institute, TNRMC, Tomsk, Russian Federation.

Kishkina Anastasia Yu., Postgraduate Student, Gynecology Department, Cancer Research Institute, TNRMC, Tomsk, Russian Federation.

Ochirov Maxim O., Postgraduate Student, Gynecology Department, Cancer Research Institute, TNRMC, Tomsk, Russian Federation.

(✉) **Chernyshova Alyona L.**, e-mail: alacher@list.ru.

Поступила в редакцию 03.05.2018
Подписана в печать 14.12.2019

Received 03.05.2018
Accepted 14.12.2019