

TÉRATOME IMMATURE RÉCIDIVÉ DE L'OVAIRE

RECURRENT IMMATURE TERATOMA OF OVARY

NIASSE A¹, MANE M², NDIAYE A³, DIENG P.S², FAYE SM¹, MBODJ M⁴, SECK NF⁵, NDONG A⁵,
FAYE P.M⁶, CISSE M⁷, DIENG M⁸, KONATE I⁹

1. Service de chirurgie générale, hôpital Cheikh Ahmadoul Khadim de TOUBA (Diourbel, Sénégal) niasseabdou30@gmail.com
2. Service d'oncologie et de radiothérapie, hôpital Cheikh Ahmadoul Khadim de TOUBA (Diourbel, Sénégal) maimouna.mane@hotmail.fr
3. Service de chirurgie générale, hôpital Cheikh Ahmadoul Khadim de TOUBA (Diourbel, Sénégal) docteurndiaye23@gmail.com
4. Service de pédiatrie, hôpital Cheikh Ahmadoul Khadim de TOUBA (Diourbel, Sénégal) drmandiayembodj@gmail.com
5. Service de chirurgie générale, hôpital régional de Saint-Louis (Saint-Louis, Sénégal) abdourahmane.ndong@ugb.edu.sn
6. Service de chirurgie générale, hôpital Dalal Jamm (Dakar, Sénégal) vieuxfaye18@gmail.com
7. Service de chirurgie générale, hôpital Dalal Jamm (Dakar, Sénégal) macisse22@gmail.com
8. Service de chirurgie générale, hôpital Aristide Le Dantec (Dakar, Sénégal) madiengd@hotmail.com
9. Service de chirurgie générale, hôpital régional de Saint-Louis (Saint-Louis, Sénégal) ibrahima.konate@ugb.edu.sn

Résumé

Le tératome immature de l'ovaire est une tumeur maligne rare fortement récidivante.

But de notre travail était de rapporter un cas de tératome immature de l'ovaire récidivé après chimiothérapie chez une adolescente de 13 ans.

Observation : un tératome immature ovarien gauche a été diagnostiqué à l'examen histopathologique d'une pièce de kystectomie ovarienne pour kyste ovarien hémorragique. Le bilan d'extension ne retrouvait pas des lésions métastatiques. Pour minimiser le risque de récurrence, le traitement a été complété par 3 cures de chimiothérapie selon le protocole Bléomycine-etoposide-cisplatine. Devant la récurrence tumorale survenue 8 mois après la chimiothérapie, une chirurgie d'exérèse totale des nodules péritonéaux et de l'ovaire gauche a été réalisée. Avec un recul de 18 mois et sans chimiothérapie adjuvante, aucune récurrence n'a été retrouvée.

Conclusion : le tératome immature de l'ovaire peut récidiver après un traitement chirurgical. L'association de la chimiothérapie à la chirurgie peut améliorer ce résultat.

Mots-clés : tératome immature, tumeur ovarienne, bléomycine.

Summary

Immature ovarian teratoma is a rare, highly recurrent malignant tumor.

Aim of our study was to report a case of immature ovarian teratoma that recurred after chemotherapy in a 13-year-old girl.

Observation: a left ovarian immature teratoma was diagnosed by histopathological examination of a cystectomy specimen for a hemorrhagic ovarian cyst. The extension assessment did not find metastatic lesions. To minimize the risk of recurrence, treatment was supplemented by 3 courses of chemotherapy according to the Bleomycin-etoposide-cisplatin protocol. Given the tumor recurrence that occurred 8 months after chemotherapy, surgery for total excision of the nodules and the left ovary was performed. There was no recurrence after 18 months of follow-up without adjuvant chemotherapy.

Conclusion: immature ovarian teratoma may recur after surgical treatment. The combination of chemotherapy with surgery may improve this outcome.

Keywords: immature teratoma, ovarian tumor, bleomycin

Correspondance : Dr Abdou Niasse, Département de médecine, Université Alioune Diop de Bambey, Service de chirurgie générale, Hôpital Cheikh Ahmadoul Khadim de TOUBA, niasseabdou30@gmail.com, 00221778084873

Soumis

Revisé le 30 Décembre 2023

Accepté le 2 Janvier 2024

INTRODUCTION

Tumeur germinale non séminomateuse, le tératome immature de l'ovaire est une affection rare décrite pour la première fois en 1960 par Thürlbeck et Scully [1]. Contrairement au tératome mature ou kyste dermoïde qui est le plus fréquent surtout chez la femme jeune, la rareté du tératome immature explique le manque de consensus dans le diagnostic et la prise en charge. La résection chirurgicale reste largement défendue ainsi qu'une chimiothérapie adjuvante [2, 4]. Nous rapportons l'observation d'une adolescente qui a fait l'objet d'une récurrence.

OBSERVATION

Il s'agissait d'une adolescente de 13 ans, sans antécédents pathologiques personnels et familiaux. Elle a consulté dans un hôpital péri-périphérique pour des douleurs abdomino-pelviennes chroniques avec des poussées aiguës associées à des vomissements, sans troubles uro-génitaux. L'échographie réalisée en urgence mettait en évidence un kyste organique hémorragique de l'ovaire gauche motivant une kystectomie gauche avec conservation de l'ovaire. Deux mois plus tard, l'évolution a été marquée par la récurrence des douleurs pelviennes associées à des douleurs lombaires gauches et à une augmentation progressive du volume de l'abdomen. L'examen physique notait une patiente en bon état général (OMS 1), une anémie clinique et une masse pelvienne remontant à l'ombilic, dure peu mobile, indolore, de 10 cm de grand axe, et une cicatrice de laparotomie médiane sous ombilicale. L'examen d'anatomie pathologique de la pièce opératoire retrouvait à la macroscopie une masse kystique entourée de capsule à surface lisse, et une zone de rupture de consistance rénitente. La tranche de section était charnue et blanchâtre avec la présence de poils et de calcifications. À la microscopie, on notait un assemblage pluritissulaire mature et immature formé de tissus nerveux périphériques, des lobules adipocytaires, des foyers cartilagineux et des kystes revêtus d'épithéliums malpighiens organisés en tubules et en rosettes. L'immunohistochimie objectivait une positivité focale de PCK, NSE et PS100, confirmant le diagnostic de tératome immature ovarien. Le scanner thoraco-abdomino-pelvien montrait une masse ovarienne gauche mixte de 121 mm x 77 mm x 129 mm, se rehaussant de façon hétérogène et présentant des zones de nécrose et une calcification de 70 mm. La masse exerçait un effet de masse sur les uretères, occasionnant une urétéro-hydronéphrose bilatérale, plus marquée à gauche (figure 1).

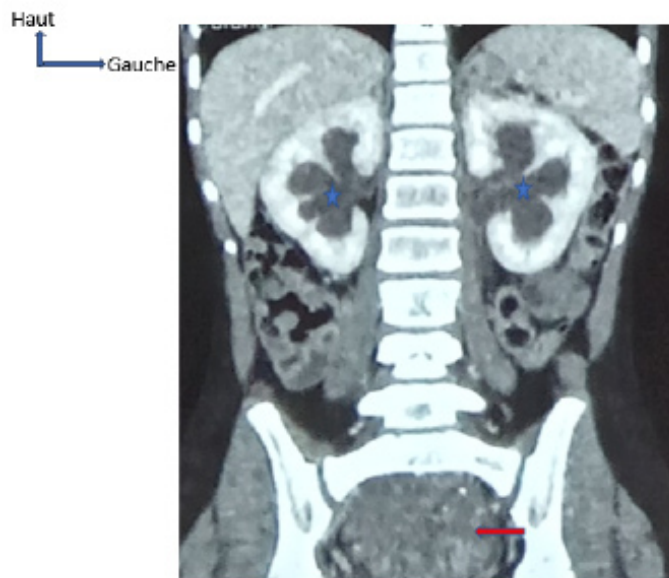
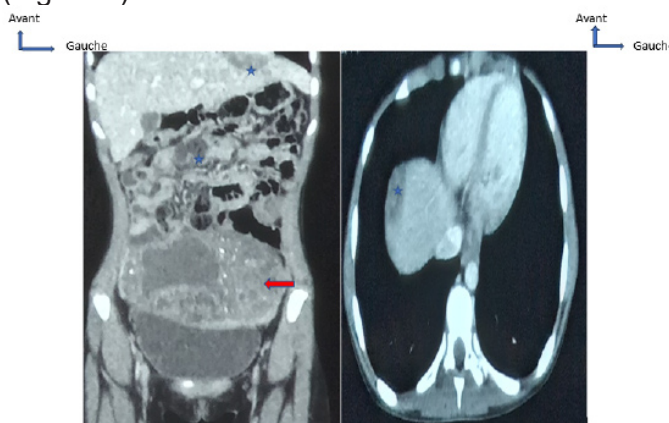


Figure 1 : Tératome ovarien (flèche rouge) avec urétérohydronéphrose bilatérale (étoile bleue) témoignant de la compression des uretères

On notait 2 nodules de 17 et 32 mm, situés respectivement sur les segments III et VIII du foie (Figure 2).



Masses tumorales ovarien gauche hétérogène avec des calcifications correspondant à un tératome immature de l'ovaire (flèche rouge) ; Nodules péritonéaux satellites (étoiles bleues)

Figure 2 : Scanner abdominal au temps artériel tardif avec coupe frontale (A) et axiale (B) montrant le tératome ovarien et des nodules péritonéaux

Les marqueurs tumoraux (Ca 125, Beta HCG et alpha-fœto-protéine) étaient légèrement élevés avec des valeurs respectives de 120 ui/ml, 8 ui/ml et 55 ng/l. Le diagnostic de tératome immature localement avancé et métastatique de l'ovaire a été retenu. Elle a bénéficié d'une montée de sonde JJ bilatérale et de 4 cures de chimiothérapie à base de bléomycine, d'etoposide et de cisplatine avec une bonne tolérance. Le scanner de contrôle montrait une légère diminution de taille de la lésion ovarienne. On notait une persistance et une augmentation de taille des deux lésions qui semblaient être de localisation hépatique. Une chirurgie a été indiquée après une concertation pluridisciplinaire. L'exploration par laparotomie xypho-pubienne retrouvait une volumineuse tumeur mixte ovarienne gauche comprimant sans les infiltrer, la face postérieure de l'utérus, le ligament large

gauche, l'uretère gauche et le côlon sigmoïde (figure 3).



Figure 3 : Vue per-opératoire du tératome ovarien gauche et des nodules épiploïques

L'utérus, l'annexe droit, la trompe gauche, les anses intestinales et le côlon étaient sans particularités. Ils existaient 5 nodules péritonéaux dont l'un mesurait 3 cm et siégeait sur la coupole diaphragmatique droite au contact du segment VIII, sans l'infiltrer, un nodule de 2 cm sur la coupole gauche au contact du segment III, sans l'infiltrer, un nodule de 1 cm en regard du petit épiploon et 2 nodules épiploïques de 2 cm et 4 cm, sans ascite (figures 4 et 5).

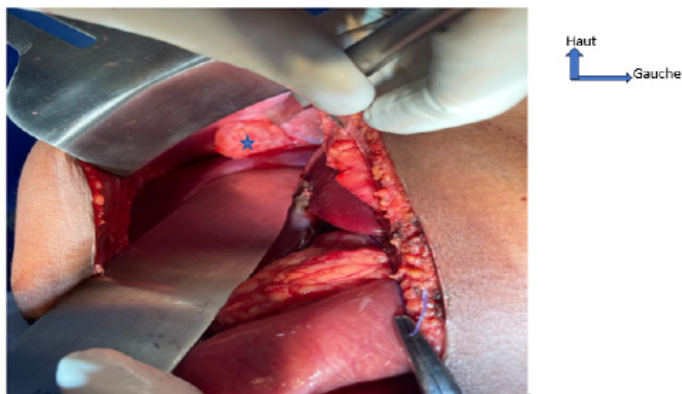
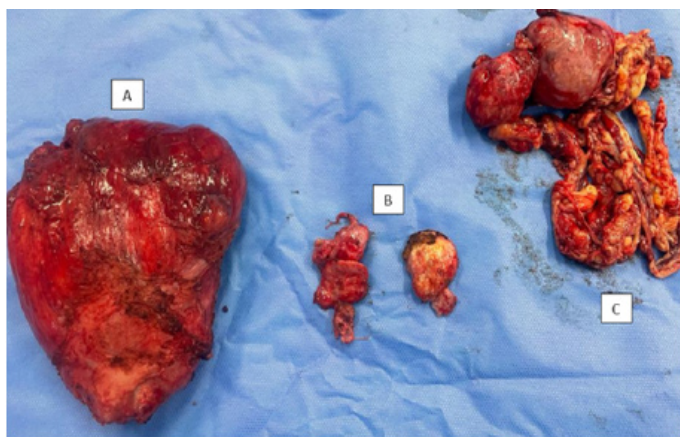


Figure 4 : Vue peropératoire des nodules diaphragmatiques (étoile bleue)



A=Pièce d'ovariectomie gauche emportant le tératome ; B=Nodules péritonéaux qui étaient situés au niveau du diaphragme ; C=Pièce d'omentectomie emportant les nodules épiploïques

Figure 5 : Pièces opératoires du tératome et des nodules péritonéaux.

Une ovariectomie gauche et une résection des nodules, une omentectomie et une appendicectomie ont été réalisées.

Elle n'avait pas bénéficié de chimiothérapie complémentaire. Les suites opératoires étaient simples. Les sondes JJ ont été retirées 3 mois après l'intervention. Avec un recul de 18 mois, elle n'a pas présenté de récurrence et les symptômes se sont amendés. Le suivi était fait sur la base d'une surveillance clinique, biologique (dosage de la Béta HCG, de l'alpha-fœto-protéine (AFP) et du CA 125) et radiologique par un scanner thoraco-abdomino-pelvien tous les 6 mois.

DISCUSSION

Le tératome mature (kyste dermoïde) est la tumeur la plus fréquente de la femme jeune. En revanche, le tératome immature est très rare. Il représente moins de 1% des tumeurs malignes de l'ovaire. Comme notée chez notre jeune adolescente de 13 ans, le tératome immature de l'ovaire touche préférentiellement la femme jeune au cours de la deuxième décennie et les adolescentes [3]. Plusieurs théories expliquent l'étiopathogénie de ces tumeurs [4]. Les travaux de Linder et al. ont initialement démontré que les tératomes provenaient d'une cellule germinale unique, isolée dont l'anomalie survient dès la première division méiotique [5]. À partir de l'analyse des caryotypes de tératomes immatures ovariens, Ohama et al. ont confirmé cette première hypothèse, mais ont également montré que pour un certain nombre de tumeurs, l'anomalie survenait plus tardivement au cours de la deuxième division méiotique, voire à partir d'un ovocyte mature [6]. Chez notre patiente, nous n'avons pas réalisé de caryotype.

Le tableau clinique est celui d'une masse pelvienne augmentant de taille, associée à des troubles menstruels et à des douleurs pelviennes. Elle expose aux complications des kystes organiques de l'ovaire, notamment la torsion, l'hémorragie et la compression. Chez notre patiente, la circonstance de découverte a été une hémorragie. En effet, le risque de torsion ou d'hémorragie est corrélé à la taille de la tumeur. Ce risque est plus important à partir de 4 cm [7, 8].

L'aspect échographique des tératomes immatures est peu spécifique. La lésion est hétérogène, mixte (contient du solide et du liquide), piquetée de calcifications éparses. Les images en tomographie et à l'imagerie par résonance magnétique sont plus caractéristiques. Elles mettent en évidence une volumineuse tumeur irrégulière, d'aspect mixte, la partie solide étant constituée de nombreuses calcifications aux contours grossiers associées à du tissu graisseux disséminé [4]. Une hémorragie intra-tumorale est souvent présente [9]. D'autres recommandent le PET-scan qui montre une

absence d'hypermétabolisme en cas de tératome immature [8]. Ces examens ne permettent cependant pas de préjuger du grade histologique [9].

Le diagnostic histologique est établi par la biopsie de nodules péritonéaux ou de la masse par voie coelioscopique ou sur pièce opératoire. La détermination du caractère immature peut nécessiter un recours à l'immunohistochimie. Néanmoins, l'histologie permet de classer les tératomes immatures en 3 grades comme proposés initialement par Thurlbeck et Scully et modifiée en 1976 par Norris et O'Connor afin de mieux définir les indications thérapeutiques [1, 2]. Le grade 1 englobe des cellules bien différenciées, le grade 2 une quantité modérée de cellules embryonnaires et le grade 3 une grande quantité de cellules embryonnaires (tableau I). Le dosage des marqueurs tumoraux sériques est habituel en cas de découverte d'une tumeur ovarienne. Les principaux marqueurs dosés sont le CA 125, l'alpha-fœto-protéine et le bêta-HCG. Le dosage des CA 19-9 est très controversé, car n'ont pas de valeur diagnostique mais témoignent d'un risque d'évolution péjorative en cas de valeur très élevée [4, 10].

Notre patiente serait classée grade 2. Elle a bénéficié d'une chimiothérapie suivie d'une chirurgie conservatrice par ovariectomie complétée par l'ablation des nodules péritonéaux, de l'épiploon et de l'appendice. L'évolution est sans récurrence tumorale après un suivi de 18 mois.

Étant une pathologie de la femme jeune, le traitement du tératome immature de l'ovaire doit être conservateur autant que possible afin de préserver la fertilité. La chirurgie constitue généralement le premier temps du traitement. Il consiste à réaliser une ovariectomie unilatérale ou une annexectomie initiale par laparotomie médiane permettant dans le même temps une exploration de la cavité abdominale, un prélèvement de liquide péritonéal pour la cytologie et des biopsies péritonéales multiples. La voie coelioscopique est rarement utilisée en raison de la taille de la tumeur [9, 10]. Pour les tumeurs de grade 1, la surveillance clinique semble suffisante après traitement chirurgical conservateur seul. Cette attitude est confirmée par Carinelli sur une grande série de 245 tératomes immatures de l'ovaire dans laquelle il y avait une absence de récurrence à long terme dans ce sous-groupe de tératome immature de l'ovaire après annexectomie unilatérale [1, 10]. En cas de tératome immature de grade 2 ou 3, le choix entre chimiothérapie adjuvante et chirurgie de stadification reste controversé. La chimiothérapie adjuvante est habituellement réservée aux tumeurs de grade 3, voire de grade 2. Il s'agit habituellement de 3 à 4 cures de chimiothérapie. Le protocole le plus utilisé comporte trois molécules empruntées aux chimiothérapies du cancer testiculaire : BEP comprenant bléomycine, étoposide et sel de platine (cisplatine) [8, 9, 10]. Le

bléomycine expose au risque de fibrose pulmonaire au-delà de 4 cures. Baranzelli et al. estiment que le tératome immature de l'ovaire, tumeur germinale non séminomateuse et non sécrétante, est une tumeur à malignité exclusivement locorégionale qui est peu ou pas chimiosensible [10]. Donc, la chimiothérapie doit être réservée aux récurrences après chirurgie dans le but d'éviter les effets néfastes de la chimiothérapie chez des patientes le plus souvent très jeunes [3, 7, 10].

Le suivi n'est pas standardisé. Chez notre patiente, le suivi était fait par un scanner thoraco-abdomino-pelvien et un dosage des marqueurs tumoraux qui sont AFP, Ca 125 et Beta-HCG tous les 6 mois. La plupart des auteurs font un suivi identique à celui des cancers de l'ovaire, à savoir un examen clinique complet associé à un dosage de ces 3 marqueurs et une imagerie tous les 3 mois pendant les 2 premières années, tous les 6 mois pendant les 3 années suivantes, et annuellement pendant les 5 années suivantes [4, 9, 10].

CONCLUSION :

la chirurgie conservatrice est une attitude acceptable dans le traitement des tératomes immatures et récidivés de l'ovaire chez la femme jeune lorsqu'elle est précédée de 3 à 4 cures de chimiothérapie selon le protocole BEP (bléomycine, étoposide et Platine).

Conflits d'intérêt :

Les auteurs déclarent ne pas avoir de conflit d'intérêt pour ce travail

Consentement :

La patiente a accordé son consentement éclairé pour la publication de ce cas clinique

RÉFÉRENCES

- 1- Umekawa T, Tabata T, Tanida K, Yoshimura K, Sagawa N. Growing teratoma syndrome as an unusual cause of gliomatosis peritonei: a case report. *Gynecol Oncol.* 2005;99(3):761-763.
- 2- Rezk Y, Sheinfeld J, Chi DS. Prolonged survival following salvage surgery for chemorefractory ovarian immature teratoma: a case report and review of the literature. *Gynecol Oncol.* 2005;96(3):883-887.
- 3-Wu X, Han LY, Xu X, Li Z. Recurrent immature teratoma of the ovary: a case report of radical secondary cytoreduction with replacement of the aortic bifurcation. *Gynecol Oncol.* 2004;95(3):746-749.
- 4-M. Noun, M. Ennachit, H. Boufettal, K. Elmouatacim, N. Samouh. Tératome immature de l'ovaire avec gliomatose péritonéale : À propos d'un cas et revue de la littérature. *J Gynecol Obst et Biol de la Reprod.* 2007;36 :595-601.
- 5-Iha T, Kano M, Nakayama M, Nagai Y, Moromizato

- H, Kanazawa K. Restoration of menstruation after chemotherapy-induced amenorrhoea in a patient with ovarian immature teratoma. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol.* 2001;98(2):249-250.
- 6-Baker BA, Frickey L, Yu IT, Hawkins EP, Cushing B, Perlman EJ. DNA content of ovarian immature teratomas and malignant germ cell tumors. *Gynecol Oncol.* 1998;71(1):14-18.
- 7- Lea Bonfiglio, Marie Blouet, Pierre Alexis Gauci, Madleen Chassang. La torsion ovarienne chez l'enfant. *J Imag diag et intervent* 2023;6(4):269-278.
- 8- S. Mensi, R. Sfar, M. Kraiem, H. Boudrigua, T. Dardouri, G. Baazoug et al. Récidive d'un tératome immature de l'ovaire : apport de la TEP/TDM au 18F-FDG (+ Running poster). *Médecine Nucléaire.* 2021;45(4):221-225.
- 9- Li H, Hong W, Zhang R, Wu L, Liu L, Zhang W. Retrospective analysis of 67 consecutive cases of pure ovarian immature teratoma. *Chin Med J. (Engl)* 2002;115(10):1496-1500.
- 10- AM, Söndgen D, Stunz R, Müller KM. Gliomatosis peritonei: a report of two cases and review of the literature. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol.* 2002;100:213-222.