

ΕΝΔΙΑΦΕΡΟΥΣΑ ΠΕΡΙΠΤΩΣΗ**ΠΕΡΙΝΕΪΚΗ ΕΝΔΟΜΗΤΡΙΩΣΗ
ΑΝΑΦΟΡΑ ΜΙΑΣ ΠΕΡΙΠΤΩΣΗΣ ΚΑΙ ΑΝΑΣΚΟΠΗΣΗ ΤΗΣ ΒΙΒΛΙΟΓΡΑΦΙΑΣ****Ι. Θανασάς, Μ. Καλινδέρης, Π. Κεσκερίδης, Β. Σταυροπούλου,
Α. Αθανασίου, Σ. Καλαγασίδου, Μ. Ευαγγέλου****ΠΕΡΙΛΗΨΗ**

Η παρουσίαση του περιστατικού αφορά στην εμφάνιση ενδομητρίωσης στο περίνεο μετά από φυσιολογικό τοκετό και επούλωση του τραύματος της περινεοτομίας κατά δεύτερο σκοπό λόγω μερικής διάσπασής του. Η ασθενής μας, έξι μήνες μετά το φυσιολογικό τοκετό του δεύτερου παιδιού της, προσήλθε στο εξωτερικό ιατρείο της κλινικής μας αιτιώμενη πόνο, δυσπαρεύνια, αίσθημα καύσου στην περιοχή του περινέου, καθώς και παρουσία ενός επώδυνου οζιδίου στο σημείο της ουλής της περινεοτομίας. Μετά τη χειρουργική εξαίρεση της βλάβης, η ιστολογική εξέταση του εγχειρητικού παρασκευάσματος ανέδειξε σημεία ενδεικτικά ενδομητρίωσης. Μετεγχειρητικά, η ασθενής αναφέρει απαλλαγή από τα συμπτώματά της. Δε συστήθηκε περαιτέρω θεραπευτική παρέμβαση, μιας και θεωρήθηκε ότι έγινε πλήρης εκτομή της ενδομητρωσικής εστίας από το περίνεο. Στην παρούσα εργασία γίνεται παρουσίαση του περιστατικού και, με βάση τα σύγχρονα βιβλιογραφικά δεδομένα, επιχειρείται η ανασκόπηση της σπάνιας αυτής εξωπυελικής εντόπισης της νόσου, αναφορικά με την αιτιοπαθογένεια, τη διάγνωση και την αντιμετώπιση.

Όροι ευρετηρίου: ενδομητρίωση, ουλή περινεοτομίας, αιτιοπαθογένεια, διάγνωση, αντιμετώπιση

ΕΙΣΑΓΩΓΗ

Η ενδομητρίωση είναι μια διηθητική, μη νεοπλασματική πάθηση της αναπαραγωγικής ηλικίας της γυναίκας, η οποία χαρακτηρίζεται από την παρουσία και ανάπτυξη λειτουργικού ιστού παρόμοιου με το ενδομήτριο εκτός της φυσιολογικής κοιλότητας της μήτρας. Η συχνότητα εμφάνισης της νόσου δεν είναι εύκολο να προσδιοριστεί με ακρίβεια, λόγω της ανομοιογένειας των διαφόρων στατιστικών, η οποία οφείλεται κυρίως στις διαφορές των υπό εξέταση πληθυσμών. Γενικά, υπολογίζεται ότι αφορά περίπου στο 22% των γυναικών αναπαραγωγικής ηλικίας και στο 20%-30% των υπογόνιμων γυναικών¹.

Για την αιτιοπαθογένεση της ενδομητρίωσης, από το 1919 μέχρι σήμερα, έχουν προταθεί διάφορες θεωρίες, χωρίς όμως καμία να μπορεί να ερμηνεύσει πλήρως και ικανοποιητικά τους μηχανισμούς εκδήλωσης της νόσου. Οι παλαιότερες και επικρατέστερες κλασικές αιτιοπαθογενετικές θεωρίες, όπως της μεταπλασίας του ορογόνου πετάλου του περιτοναίου, της διασποράς και εμφύτευσης ενδομητρωσικού ιστού στην περιτοναϊκή κοιλότητα και της επαγωγής, αν και εξηγούν πολλές μορφές ενδομητρίωσης, δεν μπορούν ωστόσο να διαφωτίσουν πλήρως την αιτιοπαθογένεια της νόσου². Η ενδομητρίωση συνήθως εντοπίζεται στα σπλάχνα της πυέλου και το περιτόναιο. Σπανιότερα, είναι δυνατό να βρεθούν και εξωπυελικές εντοπίσεις σε κάθε ιστό και όργανο του γυναικείου οργανισμού, συμπεριλαμβανομένων της ουλής περινεοτομίας, ουλής λαπαροτομίας, του αιδοίου, του ουροποιητικού συστήματος κ.ά.³⁻⁵. Η ενδομητρίωση του περινέου θεωρείται μία από τις σπανιότερες εξωπυελικές εντοπίσεις της νόσου και υπολογίζεται ότι αφορά στο 0.3% του συνολικού αριθμού των περιπτώσεων ενδομητρίωσης⁶.

ΠΕΡΙΓΡΑΦΗ ΠΕΡΙΠΤΩΣΗΣ

Η περιγραφή της περίπτωσης αφορά σε ασθενή αναπαραγωγικής ηλικίας 29 ετών, η οποία προσέρχεται στο εξωτερικό ιατρείο της κλινικής μας αιτιώμενη πόνο, δυσπαρεύνια και αίσθημα καύσου στην ουρογεννητική περιοχή. Τα συμπτώματα χρονολογούνται από πέντε μηνών περίπου, ένα μήνα μετά τη γέννηση του δεύτερου παιδιού της με φυσιολογικό τοκετό. Με την πάροδο του χρόνου αναφέρει προοδευτική επιδείνωση της κατάστασής της, χωρίς να περιγράφει κνησμό ή κολπική υπερέκκριση. Οι πληροφορίες που λαμβάνονται από το ιστορικό πιστοποιούν την εκτέλεση φυσιολογικού τοκετού προ εξαμήνου με αριστερή μεσοπλάγια περινεοτομία και τη μερική διάσπαση του τραύματος τέσσερις ημέρες αργότερα, για την οποία αποφασίσθηκε η επούλωση κατά δεύτερο σκοπό υπό αντιβιοτική κάλυψη.

Κατά την κλινική εξέταση του γεννητικού συστήματος, το μόνο παθολογικό εύρημα ήταν ένα μικρό οζίδιο μέγιστης διαμέτρου περίπου μιού εκατοστό, στα όρια του πρόδρομου του κόλπου και του περινέου, χρώματος ερυθρού, σκληρής σύστασης και επώδυνο κατά την ψηλάφηση. Η εξέταση του κολπικού εκκρίματος ήταν αρνητική για παθογόνους μικροοργανισμούς. Η βλάβη αρχικά αποδόθηκε στην ανάπτυξη κοκκιοματώδους ιστού, λόγω του ιστορικού της επούλωσης του τραύματος και δόθηκε τοπική αντιβιοτική αγωγή, σύσταση για ήπια παυσίπονα, αποφυγή σεξουαλικών επαφών και επανεξέταση σε μία εβδομάδα. Δέκα ημέρες αργότερα, η μη βελτίωση της κατάστασης της ασθενούς οδήγησε στην απόφαση για την εξαίρεση της βλάβης υπό τοπική αναισθησία και συρραφή του τραύματος. Η ιστολογική εξέταση του χειρουργικού παρασκευάσματος ανέδειξε φυσιολογικό δέρμα, παρουσία κοκκιοματώδους ιστού και στοιχεία ενδεικτικά ενδομητρίωσης.

Μετεγχειρητικά, η ασθενής αναφέρει απαλλαγή των συμπτωμάτων της. Η επούλωση του τραύματος της περινεοτομίας ήταν αρίστη. Τα επίπεδα του καρκινικού αντιγόνου 125 ήταν εντός των φυσιολογικών ορίων. Ο υπερηχογραφικός έλεγχος της πυέλου δεν ανέδειξε σημεία συνυπάρχουσας πυελικής νόσου. Δε συστήθηκε περαιτέρω θεραπευτική παρέμβαση, καθώς θεωρήθηκε ότι έγινε πλήρης εκτομή της ενδομητριοειδούς εστίας από το περίνεο.

ΣΥΖΗΤΗΣΗ

Η ενδομητρίωση του περινέου αποτελεί μία από τις σπανιότερες εξωπυελικές εντοπίσεις της νόσου και σχεδόν πάντα σχετίζεται με προηγούμενη περινεοτομία. Εκτός από μια περίπτωση αυτόματης εκδήλωσης περινεϊκής ενδομητρίωσης που περιγράφηκε στη διεθνή βιβλιογραφία, σε όλες τις άλλες περιπτώσεις η ενδομητρίωση στο περίνεο φαίνεται να είναι ιατρογενούς προέλευσης, καθώς εντοπίζεται στην ουλή περινεοτομίας μετά από φυσιολογικό τοκετό⁷. Οι Zhu L και συν., στη μελέτη τους που περιελάμβανε το σύνολο των γεννήσεων για μια περίοδο 18 ετών (1983-2000), διαπίστωσαν ότι μετά από περινεοτομία για την αποπεράτωση του τοκετού, η περινεϊκή ενδομητρίωση αφορά στο 0.0087% των περιπτώσεων και στο 0.37% του συνολικού αριθμού των περιπτώσεων ενδομητρίωσης⁸. Η διάσπαση του τραύματος της περινεοτομίας (όπως και στη δική μας περίπτωση) και η συνεχής έκθεση του ανοικτού τραύματος στα λόγια είναι δυνατό να εξηγήσουν την ανάπτυξη ενδομητρίωσης στο περίνεο με τη θεωρία της διασποράς και εμφύτευσης των κυττάρων του ενδομητρίου που βρίσκονται στα λόγια. Επιπλέον, θεραπευτικοί χειρουργικοί χειρισμοί που είναι δυνατό να συνοδεύουν την επισιοτομία, όπως η μαιευτική απόξεση και η δακτυλική αποκόλληση του πλακούντα, φαίνεται να προδιαθέτουν στην εμφάνιση της νόσου⁹. Σε παλαιότερη μελέτη, οι Paull και συν., σε μια σειρά 2.028 φυσιολογικών τοκετών, ανέφεραν 15 περιπτώσεις περινεϊκής ενδομητρίωσης σε γυναίκες που υποβλήθηκαν σε περινεοτομία και μαιευτική απόξεση. Η αυξημένη επίπτωση της νόσου μετά από μαιευτική απόξεση πιθανότατα ερμηνεύεται από το γεγονός ότι περισσότερα βιώσιμα κύτταρα από τη βασική ζώνη του ενδομητρίου εμφυτεύονται στο σημείο της ανοικτής περινεοτομίας¹⁰.

Η διάγνωση δεν είναι εύκολη και πολλές φορές τίθεται καθυστερημένα. Τα συμπτώματα στην ενδομητρίωση του περινέου δεν είναι ειδικά και συχνά εμφανίζονται μετά από μήνες (δική μας περίπτωση) ή και χρόνια από τον τοκετό. Τα κυρίαρχα συμπτώματα είναι ο πόνος στο περίνεο και η δυσπαρεύνια, η ένταση και η διάρκεια των οποίων ποικίλει σημαντικά από περίπτωση σε περίπτωση. Ο πόνος μπορεί να είναι περιοδικός και, σπανιότερα, να συνοδεύεται από κνησμό στην περιοχή του περινέου. Η αιμορραγία από το σημείο της βλάβης ή η αιμορραγία από το ορθό σε περίπτωση συμμετοχής του σφιγκτήρα του πρωκτού αποτελούν σπανιότερες εκδηλώσεις της νόσου^{11,12}. Η βλάβη αναπτύσσεται αργά με τη μορφή ψηλαφητής επώδυνης μάζας ερυθρού χρώματος, στο σημείο της ουλής της περινεοτομίας, το μέγεθος της οποίας κυμαίνεται από λίγα χιλιοστά μέχρι 2-3 εκατοστά. Σε σπάνιες περιπτώσεις η νόσος είναι δυνατό να εκδηλωθεί κατά τη διάρκεια της εγκυμοσύνης¹³.

Παρόλο που η διάγνωση της περινεϊκής ενδομητρίωσης προεγχειρητικά βασίζεται αυστηρά στο γυναικολογικό/μαιευτικό ιστορικό και την κλινική εξέταση¹², δεν αμφισβητείται η χρησιμότητα των απεικονιστικών μεθόδων. Το διορθικό υπερηχογράφημα κυρίως, και ο υπερηχογραφικός έλεγχος της πυέλου συμπληρωματικά, αλλά και η αξονική τομογραφία και η μαγνητική τομογραφία αποτελούν χρήσιμα εργαλεία στη διαγνωστική διερεύνηση της νόσου. Με το διορθικό υπερηχογράφημα είναι δυνατό να διαπιστωθεί η παρουσία μάζας μικτής ηχογένειας που αντιστοιχεί στο σχηματισμό ενδομητριοειδούς, όταν η νόσος αφορά στην περιπρωκτική περιοχή, μετά από τη ρήξη του σφιγκτηριακού μηχανισμού κατά τον τοκετό¹⁴. Παρά το γεγονός ότι ο υπερηχογραφικός έλεγχος δεν μπορεί να ανιχνεύσει τις περιτοναϊκές ενδομητριοειδείς εμφυτεύσεις, η χρήση της διακολπικής υπερηχογραφίας σήμερα είναι χρήσιμη στη διερεύνηση των δομών της πυέλου, προκειμένου να διαπιστωθεί συνύπαρξη πυελικής νόσου¹⁵. Επιπλέον, τα υπερηχογραφικά ευρήματα της ενδομητρίωσης μη συχνής εντόπισης, όπως του κοιλιακού τοιχώματος, της σκωληροειδούς απόφυσης, του περινέου και της ουροδόχου κύστης μπορούν να βοηθήσουν στη δύσκολη διαγνωστική προσπάθεια της νόσου και το σχεδιασμό της καταλληλότερης θεραπευτικής αντιμετώπισης¹⁶.

Η ευρεία χειρουργική εκτομή της ενδομητριοειδούς εστίας του περινέου, στην πλειονότητα των περιπτώσεων, είναι αποτελεσματική και αποτελεί τη θεραπεία εκλογής. Επιπλέον, εξασφαλίζει την επιβεβαίωση της διάγνωσης

(δική μας περίπτωση) και αποκλείει τον κίνδυνο κακοήθους εξάλλαγής της βλάβης¹⁷. Τα αποτελέσματα από τη θεραπεία με ορμονικά σκευάσματα (νταναζόλη) που κατά καιρούς έχουν χρησιμοποιηθεί δεν είναι ενθαρρυντικά. Η συντηρητική θεραπεία φαίνεται να προσφέρει μόνο προσωρινή ανακούφιση από τα συμπτώματα της νόσου¹⁸. Σε περίπτωση εκτεταμένης βλάβης, με επέκταση στο ορθό και το σφιγκτηριακό μηχανισμό, η ανατομική αποκατάσταση του σφιγκτήρα μετά την εξαίρεση του ενδομητριομάτος από ειδική χειρουργική ομάδα κρίνεται απαραίτητη και φαίνεται να έχει πολύ καλά λειτουργικά αποτελέσματα¹⁹. Ο προσδιορισμός των επιπέδων του καρκινικού αντιγόνου 125 (Ca₁₂₅) δε φαίνεται να βοηθάει στη διάγνωση ή τη μετεγχειρητική παρακολούθηση της νόσου. Πρόσφατα, οι Wang και συν., στη μελέτη τους που περιελάμβανε 30 ασθενείς με περινεϊκή ενδομητρίωση, για μια περίοδο 25 ετών (1983-2006), δε διαπίστωσαν σε καμία περίπτωση αύξηση των επιπέδων του Ca₁₂₅ προ ή μετά της θεραπείας⁶. Παρόλ' αυτά όμως, τα αυξημένα επίπεδα του Ca₁₂₅ πρέπει να αποτελούν δείκτη κακοήθειας της νόσου που χρήζει άμεσης διερεύνησης, καθώς έχουν αναφερθεί στη βιβλιογραφία περιπτώσεις κακοήθους εξάλλαγής εκτοπικών ενδομητρίων ιστών στο περιεόν^{20,21}.

Τέλος, νέες θεραπευτικές τεχνικές που σκοπεύουν στη μείωση της αγγείωσης του έκτοπου ενδομητρίου ιστού έχουν προταθεί και αναμένεται μελλοντικά να διευρύνουν τις διαθέσιμες θεραπευτικές επιλογές ως προς την αποτελεσματικότερη αντιμετώπιση της ενδομητρίωσης και, ειδικότερα, της πυελικής μορφής της νόσου²².

SUMMARY

This is a case report of an incident perineal endometriosis after normal vaginal delivery and episiotomy scarring secondary to partial scar tissue disruption. Our patient presented to the outpatient department of our clinic 6 months after the normal delivery of her second child, complaining of pain, dyspareunia, a burning sensation in the perineal area and a painful nodule over the episiotomy scar. Following the surgical excision of the lesion, the histological examination of the surgical specimen provided evidence of endometriosis. The patient reported relief of symptoms after surgery. No additional therapeutic intervention was performed, as the excision of the focal endometriosis was considered complete. The present study demonstrates this case report and a review of this unusual non-pelvic localization of the disease regarding the causes, pathogenesis, diagnosis and management, on the basis of the current literature evidence.

Key words: endometriosis, episiotomy scar, etiopathogeny, diagnosis, management

BIBΛΙΟΓΡΑΦΙΑ:

1. Agarwal A, Fong YF. Cutaneous endometriosis. *Singapore Med J* 2008; 49:704-709.
2. Witz CA. Current concepts in the pathogenesis of endometriosis. *Clin Obstet Gynecol* 1999; 42:566-585.
3. Honore GM. Extrapelvic endometriosis. *Clin Obstet Gynecol* 1999; 42:699-711.
4. Gabriel A, Shores JT, Poblete, Victorio A, Gupta S. Abdominal wall endometrioma. Case report and review. *Ann Plast Surg* 2007; 58:691-693.
5. Uzma Yaqub, Sibt - e - Hassan, Zafar Yusaf, Ahmed Wasim Yusuf. Endometriosis in the renal area. *J Col Physic Surg Pakistan* 2008; 18:174-175.
6. Wang HB, Zhu L, Lang JH, Liu ZF, Sun DW, Leng JH, Fan QB. Clinical analysis of 30 patients with perineal endometriosis. *Zhonghua Yi Xue Za Zhi* 2007; 87:1181-1183.
7. Pollack R, Gordon PH, Ferenczy A, Tulandi T. Perineal endometriosis. A case report. *J Reprod Med* 1990; 35:109-112.
8. Zhu L, Lang J, Xin F, Liu H, Liu Z, Sun D, Leng J, Huang R. Clinical analysis of 11 cases with perineal endometriosis. *Zhonghua Fu Chan Ke Za Zhi* 2002; 37:80-81.
9. Heinz Bacher, Wolfgang Schweiger, Herwig Cerwenka, Hans-Jorg Mischinger. Use of anal endosonography in diagnosis of endometriosis of the external anal sphincter. Report of a case. *Dis Colon Rectum* 1999.
10. Paull T, Tedeschi LG. Perineal endometriosis at the site of episiotomy scar. *Obstet Gynecol* 1972; 40:28-34.
11. Kahraman K, Sonmezer M, Gungor M, Unlu C. Recurrent vulvar - perineal endometriosis. *Artemis* 2003; 4:77-79.
12. Nisolle M, Alvarez ML, Colombo M, Foidart JM. Endometriosis: from research to clinical practice. *Bull Mem Acad R Med Belg* 2007; 162:263-272.
13. McCarthy-Keith DM, Coggins A. Perineal endometrioma occurring during pregnancy: a case report. *J Reprod Med* 2008; 53:57-58.
14. McCormick JT, Read TE, Akbari KP, Sklow B, Papakonstantinou HT, Geyer S, O'Keefe L, Caushaj PF. Occult perineal endometrioma diagnosed by endoanal ultrasound and treated by excision: a report of 3 cases. *J Reprod Med* 2007; 52:733-736.
15. Brosens J, Timmerman D, Starzinski - Powitz A, Brosens I. Noninvasive diagnosis of endometriosis: the role of imaging and markers. *Obstet Gynecol Clin North Am* 2003; 30:95-114.
16. Sung Bin Park, Jeong Kon Kim, Kyoung - Sik Cho. Sonography of endometriosis in infrequent sites. *Inc J Clin Ultrasound* 2008; 36:91-97.
17. Adamo V, Di Natale W, Meola C, Gilio M, Cavalli S, Ferrari L, De Giuli P, Camera S. Endometriosis in an episiotomy scar: a case report. *Chir Ital* 2004; 56:735-738.
18. Nirula R, Greaney GC. Incisional endometriosis: an under appreciated diagnosis in general surgery. *J Am Coll Surg* 2000; 190:404-407.

19. Barisic GI, Krivokapic ZV, Jovanovic DR. Perineal endometriosis in episiotomy scar with anal sphincter involvement: report of two cases and review of the literature. *Int Urogynecol J Pelvic Floor Dysfunct* 2006; 17:646-649.
20. Kwon YS, Nam JH, Choi G. Clear cell adenocarcinoma arising in endometriosis of a previous episiotomy site. *Obstet Gynecol* 2008; 112:475-477.
21. Chene G, Darcha C, Dechelotte P, Mage G, Canis M. Malignant degeneration of perineal endometriosis in episiotomy scar, case report and review of the literature. *Int J Gynecol Cancer* 2007; 17:709-714.
22. Nisolle M, Alvarez ML, Clombo M, Foidart JM. Pathogenesis of endometriosis. *Gynecol Obstet Fertil* 2007; 35:898-903.