



DOI: 10.5281/zenodo.7830791

UDC: 616.381-006:618.3-07

TUMORILE RETROPERITONEALE PRIMARE DESCOPERITE ÎN TIMPUL SARCINII

PRIMARY RETROPERITONEAL TUMORS DISCOVERED DURING PREGNANCY

Tatiana Malcova^{1,2}, Ana Mișina³, Elina Șor^{1,4}, Igor Mișin^{2,4}

¹ Catedra de chirurgie nr. 1 „Nicolae Anestiadi”, Universitatea de Stat de Medicină și Farmacie „Nicolae Testemițanu”, Chișinău, Republica Moldova

² Laboratorul Chirurgie Hepato-Pancreato-Biliară, Universitatea de Stat de Medicină și Farmacie „Nicolae Testemițanu”, Chișinău, Republica Moldova

³ Secția Ginecologie Chirurgică, Institutul Mamei și Copilului, Chișinău, Republica Moldova

⁴ IMSP Institutul de Medicină Urgentă, Chișinău, Republica Moldova

Rezumat

Introducere. Datorită rarității patologiei, literatura actuală în privința tumorilor retroperitoneale este limitată la câteva rapoarte de caz și serii de cazuri foarte mici.

Scopul. Realizarea unei revizui a literaturii referitoare la diagnosticul, tratamentul și prognosticul materno-fetal al tumorii retroperitoneale primare în timpul sarcinii.

Materiale și metode. Pentru executarea acestui articol am studiat sursele bibliografice din bazele de date on-line PubMed, Google Scholar. Analiza a fost efectuată după următoarele cuvinte cheie: „pregnancy”, „retroperitoneal neoplasm” și „retroperitoneal tumor”. A fost colectată și procesată informația despre cazurile clinice raportate, manifestările clinice caracteristice, metodele de diagnostic și opțiunile de tratament, datele obținute fiind analizate, comparate și sintetizate.

Rezultate. Cercetarea literaturii de specialitate pentru perioada anilor 2000-2022 a permis identificarea a 40 de cazuri clinice de tumori retroperitoneale asociate sarcinii. Au fost analizate datele obținute cu descrierea posibilelor simptome ale acestei patologii, evaluarea informativității diferitelor metode de diagnostic aplicabile în timpul sarcinii și a opțiunilor terapeutice optime în funcție de perioada gestațională. Predominant, tumora este descoperită accidental în timpul celui de-al doilea trimestru (50.0%), majoritatea pacienților (57.5%) fiind asimptomatici. Din cauza impactului negativ și a riscurilor asociate cu expunerea la radiații, tomografia computerizată a fost rar indicată, formațiunea retroperitoneală fiind descoperită la ecografie sau Imagistică prin Rezonanță Magnetică. Tratamentul se bazează pe rezecție chirurgicală (87.5% dintre paciente au suportat rezecție chirurgicală în timpul sarcinii sau după naștere), iar probabilitatea rezecției complete depinde de biologia tumorii și de invazia organelor și a structurilor vasculare adiacente.

Concluzii. Tumorile retroperitoneale primare în timpul sarcinii sunt rare și dificil de diagnosticat preoperator. Rezecția tumorii reprezintă principala metodă de tratament. Monitorizarea ulterioară și managementul adecvat bazat pe aspectul histologic sunt cruciale (esențiale).

Cuvinte cheie: tumori retroperitoneale primare, sarcina

Summary

Introduction. Due to the rarity of the pathology, the actual literature on the topic of retroperitoneal tumors is limited to single cases or reports of a small group of cases.

The aim. Conducting a review of the literature pertaining to the diagnosis, treatment and maternal-fetal prognosis of primary retroperitoneal tumor during pregnancy.

Materials and methods. To create this article, the bibliographic sources from the PubMed, Google Scholar online database were studied. The search was performed using the following keywords: „pregnancy”, „retroperitoneal neoplasm” and „retroperitoneal tumor”. Information on characteristic clinical manifestations, diagnostic methods and treatment options was researched and processed, and the collected data were analyzed and compared.

Results. The literature search for the time period 2000-2022 allowed us to identify 40 clinical cases on pregnancy-associated retroperitoneal tumors. Data analysis permitted description of the possible symptoms of this pathology, to evaluate the informativity of different diagnostic methods applicable during pregnancy, and the optimal therapeutic options depending on the gestational period. Predominantly, the tumor is discovered accidentally during the second trimester (50.0%), most patients (57.5%) being asymptomatic. Because of negative impact and risks associated with radiation exposure, Computer Tomography was rarely indicated, retroperitoneal mass being discovered on ultrasound or Magnetic Resonance Imaging. Treatment is based on surgical resection (87.5% of patients underwent surgical resection during the pregnancy or after delivery) and the likelihood of complete resection depends on tumor biology and invasion of adjacent organs and vascular structures.

Conclusions. Primary retroperitoneal tumors during the pregnancy is rare and difficult to diagnose preoperatively. Tumor resection is the mainstay of treatment. Close follow-up and appropriate management based on histological appearance are crucial.

Keywords: primary retroperitoneal tumors, pregnancy

Introducere

Spațiul retroperitoneal (retroperitoneul) reprezintă un spațiu anatomic, care se află între peritoneul parietal intern și fascia peretelui abdominal posterior, extern; și conține abundent țesut conjunctiv și adipos lax [1]. Țesutul retroperitoneal fie umple spațiul dintre mușchi și organe, cum ar fi duodenul, colonul ascendent și colonul descendent, fie încapsulează rinichiul, vasele renale, ureterul, aorta abdominală, vena cavă inferioară, artera iliacă, trunchiul simpatic lombar, ganglionii limfatici, etc. Deoarece tumorile retroperitoneale pot implica structurile sus-menționate,

tratamentul chirurgical al acestor tumori devine extrem de dificil [1].

Conform datelor literaturii de specialitate, tumorile retroperitoneale, inclusiv cele localizate în retroperitoneul pelvin (datorită faptului că împărtășesc caracteristici biologice și strategii terapeutice cu excepția tumorilor din vezica urinară și prostată), reprezintă mai puțin de 0,5% din toate neoplasmele [1]. Respectiv, până în prezent, studiile clinice de tumori retroperitoneale în graviditate sunt limitate la câteva rapoarte de caz și serii de cazuri foarte mici [2-41].

Tabelul 1

Caracteristica lotului de cercetare

Vârsta (ani)	
<20	2(5.0%)
20 – 29	18(45.0%)
30 – 39	19(47.5%)
NR*	1(2.5%)
Vârsta gestațională la momentul detectării (săptămâni)	
Primul trimestru	7(17.5%)
Al doilea trimestru	20(50.0%)
Al treilea trimestru	12(30.0%)
NR	1(2.5%)
Metodele imagistice	
Ecografia	28(70.0%)
Tomografia computerizată a abdomenului vs toracelui	9 vs 2(22.5% vs 5.0%)
Imagistica prin rezonanță magnetică	23(57.5%)
Tratamentul	
Chirurgical, momentul aplicării	35(87.5%)
• Primul trimestru	• 1(2.8%)
• Al doilea trimestru	• 7(20.0%)
• Al treilea	• 3(8.6%)
• Simultan intervenției cezariene	• 3(8.6%)
• Postpartum	• 20(57.2%)
• NR	• 1(2.8%)
Chimioterapie sistemică	1(2.5%)
Radioterapie	2(5.0%)
Chimioterapie sistemică + Radioterapie	1(2.5%)
NR	1(2.5%)
Rezultatul obstetrical	
Naștere per <i>vias naturalis</i>	13 (32.5%)
Cezariana	22 (55.0%)
Avortul medical	3(7.5%)
NR	2(5.0%)
Biologia (tipul histologic) TRP	
Benignă	24(60.0%)
Malignă	16(40.0%)
*NR - nu este raportat	

Materiale și metode

Pentru realizarea acestui articol au fost studiate surse din literatura internațională cu o atenție deosebită pentru cercetările cu elucidarea rezultatelor acoperind perioada aa. 2000-2022. Căutarea în baze de date *PubMed* și *Google Scholar* a fost efectuată după următoarele cuvinte cheie (*MeSH Terms*): „*pregnancy*”, „*retroperitoneal neoplasm*” și „*retroperitoneal tumor*”. A fost colectată și procesată informația despre etiopatogeneza, manifestările clinice, metodele de diagnostic și opțiunile de tratament, datele colectate fiind analizate, comparate și sintetizate.

Rezultate și discuții

Prelucrarea articolelor din bazele de date sus-menționate, în concordanță cu criteriile de căutare, au evidențiat 49 de surse din literatura de specialitate, care au fost utilizate pentru dezvoltarea și realizarea ideilor principale ale acestei tematici cu detectarea a 39 de rapoarte de caz de tumori retroperitoneale asociate sarcinii [2-37, 39-41] și o serie de cazuri de tumori retroperitoneale mucinoase primare care a inclus 1 caz în graviditate [38] (datele fiind relatate în tabelul nr.1).

Tumori retroperitoneale primare (TRP) sunt drept definite ca neoplasme ce se dezvoltă în spațiul retroperitoneal, care provin din structuri non-parenchimatoase, precum țesutul adipos, muscular, conjunctiv, limfatic, nervos și urogenital, cu variații histologice mari [1, 2]. Fiind o condiție extrem de rară în sarcină, sunt frecvent confundate cu tumori ovariene, chisturi renale, tumori suprarenale și limfoame [2, 33]. Prin urmare, există puțină experiență în managementul acestor afecțiuni [8, 16]; diagnosticul și tratamentul lor sunt provocatoare și necesită o abordare multidisciplinară individualizată pentru un prognostic materno-fetal îmbunătățit, în special atunci când sunt prezente caracteristici atipice [2, 7, 11, 12, 33, 39].

Histogeneza. Conform literaturii de specialitate, în cadrul categoriilor histopatologice, tumori localizate în retroperitoneu sunt divizate în benigne și maligne în funcție de comportamentul lor biologic [2, 18]. Cele *benigne* seamănă mai mult cu țesutul normal și au o capacitate limitată de creștere autonomă; ele prezintă o tendință mică de a invada local și au o incidență scăzută a recidivei locale după excizia completă [1]. Tumori *maligne* sunt agresive la nivel local și capabile de creștere invazivă sau distructivă, recidivă și metastaze la distanță. După Aragón-Mendoza RL et al. majoritatea (80%) TRP reprezintă tumori maligne, dintre care cele mai frecvente fiind sarcoamele, în special liposarcoamele (45%). Este menționat faptul că descrierea gradului de diferențiere (gradul histologic) reprezintă factorul esențial [1]. Tumori benigne reprezintă restul de 20%, cele mai frecvente fiind lipoamele, fibroamele și tumori neurogenice [2, 42]. Condițiile speciale în sarcină includ hemangiomul retroperitoneal cu expansiune potențial semnificativă, în urma factorilor vasoactivi secretați în timpul gestației, rezultând vasodilație periferică; și angioliom cu creștere semnificativă, indicând dependența hormonală datorită prezenței receptorilor de estrogen și progesteron în celulele musculare netede [2]. În timpul

creșterii, fie benigne sau maligne, ele provoacă compresia sau deplasarea țesuturilor sau organelor adiacente [1]. Prin urmare, chirurgia radicală este necesară pentru a asigura îndepărtarea relativ completă a unor astfel de tumori [1, 2].

Etiopatogeneza tumorilor retroperitoneale rămâne incertă [33]. Deoarece retroperitoneul este lipsit de celule epiteliale, sunt descrise mai multe teorii cu privire la originea acestor tumori [33]. Asemănarea lor histologică cu stroma ovariană și prezența receptorilor de estrogeni în unele cazuri a condus la dezvoltarea celei mai comune teorii: că tumorile sunt țesut ovarian heterotopic [33, 38, 43]. Pe de altă parte, țesutul ovarian heterotopic nu este întotdeauna confirmat [33]. În plus, teoria țesutului ovarian ectopic este contestată în continuare de TRP diagnosticate la bărbați [33]. O a doua ipoteză a metaplasiei celomice a câștigat o largă acceptare: se sugerează că depunerea grupată a celulelor epiteliale celomice în retroperitoneu duce la dezvoltarea chisturilor de incluziune care, în cele din urmă, suferă modificări metaplasice și capătă un fenotip malign [33, 44]. Tahmasebi F et al. au propus că mezoteliul peritoneal posedă potențialul de diferențiere Müllerian, similar tuturor tumorilor ovariene epiteliale [33]; conceptul care a fost susținut pe baza evaluării imunohistochimice și electron-microscopice a tumorilor [33, 44]. Hansmann și Budd au respins teoria histogenezei ovariene și au sugerat că dezvoltarea formațiunilor retroperitoneale benigne este legată de resturile aparatului urogenital embrionar atât la bărbați, cât și la femei [45]. Conform datelor lor, a fost stabilit că majoritatea tumorilor sunt „cistoadenoame pseudomucinoase” de origine mezonefrică, datorită prezenței histologice a unor tipuri de țesut foarte variate [45]. Această ipoteză a fost susținută și de alți autori care au raportat prezența chisturilor mulleriene ale retroperitoneului [33, 45].

Factorii de risc recunoscuți includ factori fizici și chimici, expunerea la radiații ionizante și imunodeficiența genetică/moștenită și dobândită [1]. TRP pot apărea la orice vârstă, însă cel mai frecvent sunt observate la vârsta de 50-60 de ani. Cu toate acestea, 15% din tumori retroperitoneale apar la copii mai mici de 10 ani. Este necesar de menționat faptul că majoritatea (50-67%) pacienților cu TRP sunt bărbați, prin urmare, detectarea tumorilor retroperitoneale primare la femei în timpul sarcinii reprezintă o raritate științifică [9, 28, 31, 38].

Tumori retroperitoneale sunt rareori diagnosticate în timpul sarcinii și deseori confundate cu neoplasme ovariene, chisturi renale, tumori suprarenale și limfoame [2, 33]. Astfel, la detectare accidentală a formațiunilor în regiunea anexelor în graviditate, este importantă abordarea multidisciplinară complexă dacă diagnosticul este neclar [9, 21, 28, 31]. În plus, o tumoare retroperitoneală diagnosticată în timpul sarcinii prezintă o provocare, având în vedere potențialul său malign puternic [8].

Aspect epidemiologic. Revizuirea literaturii anglofone cu evaluarea vârstei raportate detectă că în 5.0% (n=2) de cazuri sunt observate paciente cu vârsta sub 20 de ani [2, 3], 45.0% (n=18) cu vârsta cuprinsă între 20 și 29 de ani [4-20, 40], 47.5% (n=19) – între 30 și 39 de ani [21-37, 39, 41]; într-un caz datele nu a fost prezentate [38]. Este constatat faptul că

momentul stabilirii diagnosticului de TRP este variabil: în primul trimestru în 7(17.5%) cazuri [4, 21, 22, 24, 28, 35, 38], în al doilea trimestru în 20(50.0%) [2, 5-8, 10-14, 16, 19, 20, 23, 29, 31, 33, 36, 37, 40] și în al treilea trimestru în 12(30.0%) [3, 9, 15, 17, 18, 25-27, 30, 32, 39, 41]; într-un studiu nu a fost raportat momentul confirmării diagnosticului [34].

Aspect clinic. TRP sunt în general asimptomatice în stadiul lor incipient și cresc la o dimensiune semnificativă înainte de a fi diagnosticate sau de a produce simptome [3, 5, 6, 9, 10, 13, 14, 16-18, 21, 22, 24, 25, 27, 29-35, 41]. Astfel, tumorile mici, fiind extrem de dificil de diagnosticat, sunt detectate prin examen paraclinic incidental [23]. Tumorile de dimensiuni mari provoacă simptome ca urmare a compresiei, deplasării sau invaziei organelor adiacente, însă sunt lipsite de specificitate [1, 2, 8, 33].

Conform literaturii de specialitate, cel mai frecvent simptom (44-75%) cauzat de tumorile retroperitoneale reprezintă durerea, determinată de compresia directă de către tumoră sau invadarea rădăcinii sacrale sau plexului lombar (dureri abdominale, lombare sau pelvine, cu iradierea în extremitățile inferioare, etc.) [2, 8, 11, 12, 15, 23, 36, 38, 40]. De asemenea, sunt raportate simptomele gastrointestinale, cum ar fi greață, vome [2], balonare [8, 37], și constipație [2, 8, 37]. Anorexia, pierderea în greutate, slăbiciune și oboseală sunt observate la 40-50% dintre pacienții cu tumori maligne retroperitoneale mai frecvent în stadiul avansat, comparativ cu doar 3% dintre cei cu boală în stadiul incipient. La fel TRP pot provoca o serie de simptome ale tractului urinar, cum ar fi: hematurie, urinare frecventă, disurie), în special cele localizate în pelvis, adiacent rinichiului sau ureterelor. Compresia măduvei spinării cauzată de infiltrarea tumorală a foramenului intervertebral duce la incontinență și paralizia membrelor inferioare. Edemul perineal și al extremităților inferioare, venele varicoase rezultă din obstrucția venelor pelvine și a fluxului limfatic la răspândirea procesului neoplazic în regiunea pelvină. Obstrucția indusă de tumoră a venei cave inferioare duce la detectarea edemului la nivelul extremităților inferioare. Sindromul febril este raportat cu frecvența redusă până la 10% de pacienți. Aproximativ 30% din bolnavi cu TRP prezintă inițial o formațiune abdominală asimptomatică [2, 46].

Astfel, revizuirea literaturii de profil confirmă că 23 (57.5%) de cazuri au fost asimptomatice [3, 5, 6, 9, 10, 13, 14, 16-18, 21, 22, 24, 25, 27, 29-35, 41], 9 pacienți (22.5%) au prezentat acuze la dureri abdominale [2, 8, 11, 12, 15, 23, 36, 38, 40] sau senzație de masă abdominală (n=3; 7.5%) [4, 7, 26], distensie abdominală (n=3; 7.5%) [8, 10, 37], vomă (n=2; 5.0%) [2, 40], sângerare vaginală (n=1; 2.5%) [36] sau (n=1; 2.5%) limfadenopatie supraclaviculară pe stânga [19], iar la o pacientă a fost descrisă criza hipertensivă asociată cu palpitații, tinitus, transpirație și dureri de cap intense [39].

Cu toate acestea, examenul fizic reprezintă pasul cheie în diagnosticarea tumorilor retroperitoneale. Conform literaturii de specialitate majoritatea tumorilor (90%) detectate sunt cele abdominale față de doar 5% din regiunea pelvină [2, 46].

Aspect diagnostic. Atingerea unui diagnostic preoperator precis al TRP reprezintă o provocare [33]. Semnele radiologice

specifice sunt importante pentru a identifica cu acuratețe o TRP. Ecografia, tomografia computerizată (TC) și imagistica prin rezonanță magnetică sunt considerate instrumente vitale pentru diagnosticul și aprecierea tacticii de tratament a TRP [1], care permit caracterizarea leziunii, oferind informații despre localizarea acestora, dimensiunea, relația cu organele adiacente și prezența sau absența metastazelor și evaluarea opțiunilor de tratament chirurgical [2, 8, 13, 18, 39].

Ecografia abdominală-pelvină sau transvaginală, ca investigație imagistică simplă, rapidă și neinvazivă se utilizează pe scară largă [33]. Însă, din punct de vedere tehnic, la sfârșitul sarcinii cu uter gravid mărit, vizualizarea poate fi redusă [39]. În plus, TRP benigne și maligne au aspect ecografic similar [33, 47]. Conform datelor de cercetare în majoritatea cazurilor clinice pentru identificarea patologiei a fost utilizată ecografia (n=28; 70.0%) [2-5, 9, 10, 12-16, 18, 20-25, 27-29, 31-33, 35-37, 41] cu constatări de formațiuni chistice sau solide abdominale sau retroperitoneale cu dimensiuni cuprinse între 5.0 cm [32] și 32.0 cm în diametru [27], care au persistat în scanările de urmărire. Ecografia *Doppler* a evidențiat o formațiune cu vascularizare pronunțată în două cazuri (5.0%) [17, 31].

Tomografie computerizată ale abdomenului și bazinului mic (n=9; 22.5%) [4, 9, 10, 15, 17, 21, 29, 30, 37] sau toracică (n=2; 5.0%) [11, 19] au fost utilizate mai rar, luând în considerație acțiunea negativă asupra sarcinii.

Imagistica prin rezonanță magnetică (IRM), luând în considerare lipsa radiației ionizante în timpul scanării pentru gravide, este considerată metoda cea mai optimă pentru detectarea tumorilor retroperitoneale în timpul sarcinii [29, 39]. În studiul de cercetare IRM a fost efectuată în 23 de cazuri (57.5%) [2, 3, 5, 6, 8, 11-13, 16, 19, 21-23, 27, 31-35, 39, 40].

Cu toate acestea, TC sau IRM nu sunt în măsură să determine originea exactă a tumorii sau să aprecieze potențialul malign. Conform datelor de cercetare, TC și IRM sunt utile pentru planificarea chirurgicală, dar nu sunt eficiente în excluderea malignității [33, 46]. Astfel, diagnosticul definitiv se confirmă prin *analiza histopatologică* [2, 21, 33].

Biopsia percutanată este recomandată la pacienții cu tumori cu aspect radiologic incert care să permită determinarea naturii tumorii și să ofere diagnosticul definitiv sau sugestiv al unei patologii în care tratamentul neoadjuvant poate fi adecvat ca terapie de inducție [2]. Aragón-Mendoza RL et al. consideră biopsia percutanată o metodă sigură în timpul sarcinii [2], însă efectuarea acesteia în sarcină prezintă riscuri pentru făt, precum decesul fătului și/sau nașterea prematură [8]. Este necesar de remarcat faptul, că riscul biopsiei crește odată cu înaintarea vârstei gestaționale, ceea ce confirmă necesitatea diagnosticului precoce a TRP în sarcină [8]. În lotul de cercetare biopsia percutanată a tumorilor retroperitoneale a fost efectuată în timpul sarcinii în 4 (10.0%) cazuri [2, 8, 12, 21], fără detectarea complicațiilor postprocedurale, și într-un caz (2.5%) - în perioada postpartum [22].

Aspirația lichidului tumorii chistice pentru citologie preoperatorie în tumorile mucinoase retroperitoneale poate

dezvăluie tipul de celule epiteliale ce permite determinarea subtipului histologic, cu toate acestea, sensibilitatea și specificitatea sa au fost raportate scăzute [47]. În plus, prezintă riscul de scurgere a conținutului de chist în spațiul peritoneal, ducând la însămânțarea celulelor în caz de malignitate [47, 48].

Există controverse în ceea ce privește *evaluarea markerilor tumorali*. Unii autori recomandă aprecierea CA 19-9; alfa-fetoproteina, CA-125 la suspjecția TRP, pe de altă parte, acești markeri nu permit diferențierea naturii tumorilor retroperitoneale, deoarece valorile pot fi modificate din cauza sarcinii și sunt nespecifice [2, 13, 27]. În plus, markerii tumorali nu sunt elevați în mod constant și prin urmare ajută rareori la diagnostic [33, 47]. Conform datelor de cercetare, evaluarea markerilor tumorali a fost raportată în 17(42.5%) cazuri [2, 3, 6, 10, 15, 16, 18, 21, 22, 25, 27, 29-33, 36], dintre care la 9(52.9%) au fost în limitele normale [2, 6, 15, 16, 22, 29, 31, 33, 36]. Elevarea markerilor a fost detectată prin creșterea CA19-9 (n=3; 17.6%) [25, 27, 32]; alfa-fetoproteina (n=4; 23.5%) [3, 15, 18, 30], însă este necesar de remarcat, că într-un caz [3] această creștere poate fi explicată prin prezența gastroschizisului; și CA125 (n=2; 11.76%) [10, 21]. Într-un caz (2.5%), s-a testat metanefrinele urinare în considerare feocromocitomul [44].

Managementul. Din cauza rarității tumorilor retroperitoneale primare asociate cu sarcină, nu există linii directe stabilite privind managementul sau supravegherea până în prezent [33]. Pentru paciente diagnosticate cu malignitate în timpul sarcinii, decizia de tratament trebuie să echilibreze managementul oncologic optim cu riscurile intervenționale materne și perinatale [1, 33].

Decizia de a rezeca neoplasmele retroperitoneale în timpul sarcinii ar trebui să fie ghidată de simptomele pacientei și starea generală, vârsta gestațională, cinetica și aspectul radiologic al tumorii, iar momentul nașterii trebuie determinat prin discuții multidisciplinare [10, 11, 29]. Tumorile retroperitoneale mici, fără restricție intrauterină și fără risc iminent atât pentru mamă, cât și pentru făt, pot fi urmărite îndeaproape și rezecate chirurgical cu păstrarea și monitorizarea gestației. Cu toate acestea, orice perturbare a acestui echilibru neted ar trebui să fie o indicație pentru o abordare terapeutică urgentă [29].

Colegiul American de Obstetrică și Ginecologie recomandă amânarea intervenției chirurgicale cel puțin până în trimestrul al doilea, când contraindicațiile și avortul spontan sunt considerabil mai puțin probabile [8]. Conform Mitchell K. *et al.* [8], dacă malignitatea este mai puțin probabilă, tumora nu prezintă un comportament agresiv (histopatologie benignă), majoritatea procedurilor chirurgicale la pacientele gravide trebuie să fie amânate până în perioada postpartum pentru a preveni vătămările secundare ale fătului. În absența simptomelor majore tumorile de dimensiuni mari nu necesită rezecție chirurgicală imediată [8, 22, 40]. Pierderea de sânge în timpul intervenției chirurgicale urgente este periculoasă atât pentru gravidă, cât și pentru făt [8, 22, 40]. La paciente simptomatice cu tumora masivă ce provoacă restricție intrauterină, intervenția chirurgicală în timpul sarcinii reprezintă cea mai bună

opțiune, mai ales în prezența riscului de malignitate [23, 29, 39]. Tratamentul se bazează pe rezecția chirurgicală (prin abordul deschis sau cel laparoscopic) cu potențial curativ, iar probabilitatea rezecției complete depinde de biologia tumorii și de invazia organelor și structurilor vasculare adiacente [2, 23], abordarea cea mai frecvent raportată fiind laparotomia [2, 20, 25, 33, 37].

Chirurgia urgentă sau electivă depinde de o multitudine de factori, cum ar fi marcajul clinic, rata de creștere, trimestrul și preferința pacientei [8]. Pacienta trebuie să fie informată pe deplin cu privire la riscul intervenției chirurgicale în timpul sarcinii [8]. În momentul intervenției chirurgicale, majoritatea tumorilor retroperitoneale implică sau invadează vasele, nervii, sistemul digestiv, sistemul urinar, sistemul reproducător și mușchii scheletici, ceea ce duce la creșterea volumului chirurgical intraoperator, incluzând rezecția de organe multiple, etc. [1].

Revizuirea literaturii în privința tratamentului chirurgical confirmă că rezecția formațiunii tumorale prin abordul chirurgical laparoscopic sau intervenție chirurgicală deschisă a fost efectuată la majoritatea semnificativă (n=35; 87.5%) a cazurilor raportate (p<0,0001) [2-11, 13-18, 20, 21, 23-33, 35-38, 39, 41]. Evaluarea termenului aplicării tratamentului chirurgical detectă: 1(2.8%) caz în primul trimestru [29], 7(20.0%) - în al doilea trimestru [5, 10, 13, 16, 23, 24, 36], 3(8.6%) - în al treilea trimestru [6, 27, 39], 3(8.6%) cazuri simultan intervenției cezariene [3, 18, 32] și 20(57.2%) de cazuri după naștere [2, 4, 7-9, 11, 14, 15, 17, 21, 25, 26, 28, 30-33, 35, 37, 40, 41]. Într-un caz (2.5%) perioada efectuării tratamentului chirurgical nu a fost indicată [38]. Drenajul percutanat eco-ghidat al masei chistice a fost descris în al doilea trimestru la o pacienta [37]. De asemenea, au fost cercetate cauzele de excludere a tratamentului chirurgical în 4(10.0%) cazuri [12, 22, 34, 38]: tumoră nerezecabilă (n=1) [12], observație clinică în tumorile benigne (n=2) [34, 38], refuzul pacientei (n=1) [22]. Într-un caz (2.5%) nu sunt oferite date privind tratamentul aplicat [19]. Conform datelor literaturii în majoritatea cazurilor (60.50%; n=24) au fost identificate TRP asociate sarcinii de origine benignă [2-4, 8, 9, 13-15, 17, 18, 20-25, 28, 31, 34-36, 38-40], iar în 38.4% (n=16) - malignă [5-7, 10-12, 16, 19, 26, 27, 29, 30, 32, 33, 37, 41].

Revizuirea literaturii în privința evoluției și rezolvării gravidității a detectat că sarcina a fost întreruptă în trei cazuri (7.5%) pentru a trata tumora retroperitoneală [4, 21, 34]. În 21(55.90%) cazuri au fost efectuate operații cezariene [2, 3, 5, 7, 9, 12-14, 17, 18, 22, 26, 28-33, 35, 37, 40, 41], ținând cont de prezența în masă susceptibilă de a împiedica progresul travaliului [22], în 13 (32.5%) cazuri naștere a trecut *per vias naturalis* [6, 10, 11, 15, 16, 20, 23, 27, 24, 39].

Conform datelor literaturii de specialitate majoritatea preparatelor utilizate pentru *chimioterapie sistemică* nu măresc riscul de complicații materne și fetale dacă sunt administrate după primul trimestru de gestație și nu au efecte pe termen lung asupra copiilor care au fost expuși *in utero*, ceea ce permite obținerea rezultatelor optime oncologice, precum și pentru făt și mama copilului [1, 7, 11]. Astfel, chimioterapia sistemică se recomandă pentru

tratamentul tumorilor maligne în timpul sarcinii, în special în perioada celui de-al doilea și al treilea trimestru după încheierea organogenezei [1, 7]. Cu toate acestea, sunt descrise riscuri de complicații obstetricale, cum ar fi: nașterea prematură, restricția creșterii fetale și moartea antenatală [1, 11]. Prin urmare, se subliniază importanța monitorizării fetale în timpul tratamentului pentru a detecta potențialele complicații obstetricale și pentru a modifica planificarea nașterii conform indicațiilor [2, 11]. În lotul de cercetare au fost documentate 4 cazuri de tumori retroperitoneale dintre care cu aplicarea radioterapiei (n=1) [10], chimioterapiei (n=2) [7, 11], tratamentul combinat radioterapie plus chimioterapie (n=1) [30]. Chimioterapia în timpul sarcinii a fost utilizată într-un caz de tumoră neuroectodermică primitivă urmată de chimioterapie postpartum plus radioterapie [12] și într-un caz un ciclu de chimioterapie cu doxorubicină și ifosfamidă la 29 de săptămâni de gestație cu continuarea în perioada postpartum, în total fiind aplicate 6 cure de terapie neoadjuvantă [11]. *Radioterapia* a fost descrisă doar în contextul metastazelor osoase și peripancreatice [10, 12, 47].

În TRP asociate cu sarcina, *prognosticul* depinde de natura tumorii, dimensiunile ei, gradul de malignizare, localizare, datele histopatologice și volumul intervenției chirurgicale [2, 8, 14, 16, 29]. Conform datelor literaturii de specialitate, sarcoamele sunt cele mai frecvente tumori, însă sarcina nu afectează prognosticul sau supraviețuirea globală, deși aceste tumori pot crește într-un ritm foarte rapid în timpul gestației [2, 49] și într-un caz a fost descris asocierea lor cu mortalitatea maternă [49].

Complicațiile asociate raportate ale TRP sunt: sindrom febril, distocie mecanică (datorită localizării și dimensiunii tumorii retroperitoneale), mortalitatea maternă, întreruperea sarcinii, avorturile spontane, nașterile premature spontane, ruptura membranelor sau nașterea prematură [2]. În timp ce supraviețuirea la 5 ani pentru chistadenoame mucinoase sau tumori cu potențial malign scăzut se apropie de 100%,

supraviețuirea la 5 ani pentru carcinoame mucinoase este de aproximativ 68% [47].

Complicațiile materne au fost detectate în 3 cazuri: cele prenatale au inclus sindrom febril (n=1), rezolvat după rezecția chirurgicală a tumorilor retroperitoneale [23] și teratom chistic matur retroperitoneal abcedat (n=1) ce a necesitat tratament chirurgical în timpul gestației [15]; complicație maternă prin distocie mecanică (n=1) în timpul nașterii din cauza dimensiunii și localizării tumorii retroperitoneale care a necesitat operație cezariană [9].

Dintre complicațiile obstetricale s-au înregistrat două (5.0%) nașteri premature spontane [10, 15], un caz (2.5%) de ruptură prematură a membranelor la 34 de săptămâni [9], un caz (2.5%) de gestație neviabilă [20] și o naștere prematură (2.5%) la 27 de săptămâni cu restricție de creștere intrauterină [12]. Au fost raportate 2 cazuri (5.0%) de naștere prematură la 29 și 32 de săptămâni din cauza suspiciunii de tumoră retroperitoneală malignă cu întreruperea precoce a sarcinii după ce s-a atins maturizarea pulmonară fetală pentru a efectua îndepărtarea chirurgicală a tumorii [11, 30] sau continuarea chimioterapiei neoadjuvante. Într-un caz (2.5%) rezecția chirurgicală a fost complicată de leziunea diafragmatică [2]. Recidiva bolii a fost înregistrată în două (5.0%) cazuri [11, 33] care au necesitat terapie specializată.

Concluzii

Tumori retroperitoneale primare asociate sarcinii sunt extrem de rare, iar diagnosticul se bazează pe ecografie ca primă abordare a neoplasmelor retroperitoneale, completat de IRM, fiind metoda imagistică preoperatorie de elecție. Actualmente nu există o abordare terapeutică unificată în timpul sarcinii, deși se consideră că eliminarea chirurgicală a TRP cu un plan individualizat, în funcție de starea generală a pacientei, vârsta gestațională, cinetica tumorii și aspectul imagistic al tumorii ameliorează rezultatele materne și perinatale, iar momentul și modul nașterii este determinat prin decizii multidisciplinare.

Bibliografia

1. Luo CH. Retroperitoneal tumors: Clinical management. Dordrecht The Netherlands: Springer; 2018.
2. Aragón-Mendoza RL, Arenas-Gamboa J, Vieira-Serna S, Sierra IAJ. Primary retroperitoneal tumor during pregnancy: Case report and review of the literature. *Rev Colomb Obstet Ginecol*. 2020;71(2):195-207. doi:10.18597/rcog.3477
3. Morris A, Lanthier CA. Large primary retroperitoneal mucinous tumor in pregnancy: A case report. *J Pediatr Adolesc Gynecol*. 2019;32(2):230-231. doi:10.1016/j.jpog.2019.02.090
4. Goel S, Aeron R, Goel A, Singhai A. Retroperitoneal teratoma simulating giant adrenal myelolipoma: a diagnostic puzzle. *BMJ Case Rep*. 2017;2017:bcr2017221762. Published 2017 Sep 28. doi:10.1136/bcr-2017-221762
5. Huo D, Liu L, Tang Y. Giant retroperitoneal liposarcoma during pregnancy: a case report. *World J Surg Oncol*. 2015;13:145. Published 2015 Apr 10. doi:10.1186/s12957-015-0555-0
6. Kashima K, Yahata T, Fujita K, Tanaka K. Primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma associated with pregnancy. *Int J Gynecol Cancer*. 2008;18(5):908-912. doi:10.1111/j.1525-1438.2007.01130.x
7. Li RSO, Maglangit SACA, Cartagena-Lim JT, Dofitas RB. Case of a huge recurrent retroperitoneal liposarcoma diagnosed in the second trimester of pregnancy. *BMJ Case Rep*. 2021;14(7):e243639. Published 2021 Jul 5. doi:10.1136/bcr-2021-243639
8. Mitchell K, Fuller K, Thomay A, Shapiro R. Diagnosis and surgical management of a retroperitoneal lipoma in pregnancy. *Case Rep Obstet Gynecol*. 2020;2020:6309417. Published 2020 Jul 16. doi:10.1155/2020/6309417
9. Nithya J, Banumathy M, Radha A. Retroperitoneal pelvic schwannoma in pregnancy: a case report. *Int J Reprod Contracept Obstet Gynecol* 2017;6(8):3689-3691. doi:10.18203/2320-1770.ijrcog20173515

10. Paul DP, Garg K. Giant retroperitoneal liposarcoma during pregnancy: Case report. *Int J Reprod Contracept Obstet Gynecol*. 2018;7(11):4768-4771. doi:10.18203/2320-1770.ijrcog20184231
11. Sipe BH, Običan SG, Henderson-Jackson E, et al. A Case of Retroperitoneal Synovial Sarcoma in Pregnancy Treated with Antepartum Doxorubicin plus Ifosfamide Chemotherapy. *Case Rep Oncol Med*. 2021;2021:9982171. Published 2021 Jul 16. doi:10.1155/2021/9982171
12. Sivarajan S, Roy M, Pattwardan S, Steele J, Sanghi A. A primitive neuroectodermal tumour of the retroperitoneum treated with chemotherapy in pregnancy: case report and review of the literature. *J Obstet Gynaecol*. 2004;24(5):598-599. doi:10.1080/01443610410001722888
13. Sousa-Santos R, Coelho D, Oliveira P. 1st trimester incidental abdominopelvic mass: ganglioneuroma in pregnancy. *J Obstet Gynaecol*. 2012;32(3):307-309. doi:10.3109/01443615.2011.647733
14. Subramony C, Habibpour S, Hashimoto LA. Retroperitoneal mucinous cystadenoma. *Arch Pathol Lab Med*. 2001;125(5):691-694. doi:10.5858/2001-125-0691-RMC
15. Talwar N, Andley M, Ravi B, Kumar A. Subhepatic abscess in pregnancy - an unusual presentation of infected primary retroperitoneal teratoma. *Acta Obstet Gynecol Scand*. 2005;84(11):1127-1128. doi:10.1111/j.0001-6349.2005.00120d.x
16. Ulker V, Gungorduk K, Numanoglu C, et al. Complete surgical resection of retroperitoneal leiomyosarcoma in pregnancy: a case report. *Arch Gynecol Obstet*. 2008;277(4):353-356. doi:10.1007/s00404-007-0457-7
17. Wang X, Yang L, Shi M, Liu X, Liu Y, Wang J. Retroperitoneal ganglioneuroma combined with scoliosis: A case report and literature review. *Medicine (Baltimore)*. 2018;97(37):e12328. doi:10.1097/MD.00000000000012328
18. Wei D, Shen L, Yang K, Fang F. Giant retroperitoneal lipoma in a pregnant patient. *J Obstet Gynaecol*. 2013;33(5):522. doi:10.3109/01443615.2013.788621
19. Ogura K, Hosono A, Yoshida A, Beppu Y, Kawai A. A retroperitoneal mass, systemic lymphadenopathy, and pulmonary nodules in a pregnant woman. Diagnosis: Lymphangioleiomyomatosis (LAM). *Skeletal Radiol*. 2011;40(5):631-658. doi:10.1007/s00256-010-1091-1
20. Karapinar OS, Gözükarı I, Hakverdi A U, Hürriyetoglu S. A rare clinical case of primary retroperitoneal dermoid cyst during pregnancy. *J Turk Ger Gynecol Assoc*. 2016;17(1):286.
21. Acín-Gándara D, Carabias A, Bertomeu A, Giménez-Alvira L, Colao L, Limones M. Giant retroperitoneal ganglioneuroma. *Rev Esp Enferm Dig*. 2010;102(3):205-207. doi:10.4321/s1130-01082010000300008
22. Allen R, Lakasing L. Retroperitoneal schwannoma mimicking an adnexal mass in pregnancy. *BMJ Case Rep*. 2019;12(8):e229438. Published 2019 Aug 4. doi:10.1136/bcr-2019-229438
23. Berczi C, Osvath P, Flasko T. Large benign retroperitoneal tumour in pregnancy. *Can Urol Assoc J*. 2015;9(7-8):E551-E553. doi:10.5489/cuaj.2908
24. Chen CH, Chiu LH, Lin JY, Liu WM. Pelvic retroperitoneal cyst during pregnancy. *Taiwan J Obstet Gynecol*. 2013;52(1):117-119. doi:10.1016/j.tjog.2012.07.041
25. Dayan D, Abu-Abeid S, Klausner JM, Sagie B. Primary Retroperitoneal Mucinous Cystic Neoplasm: Authors' Experience and Review of the Literature. *Am J Clin Oncol*. 2016;39(5):433-440. doi:10.1097/COC.0000000000000298
26. Dueñas-García OF, Díaz-Sotomayor M, Rico-Olvera H. Well differentiated giant retroperitoneal liposarcoma during the pregnancy. *Rev Esp Enferm Dig*. 2011;103(12):657-658. doi:10.4321/s1130-01082011001200012
27. Hanhan HM, Gungorduk K, Ozdemir İA, et al. Primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma during pregnancy. *J Obstet Gynaecol*. 2014;34(6):535-538. doi:10.3109/01443615.2014.910501
28. Ibraheim M, Ikomi A, Khan F. A pelvic retroperitoneal schwannoma mimicking an ovarian dermoid cyst in pregnancy. *J Obstet Gynaecol*. 2005;25(6):620-621. doi:10.1080/01443610500243752
29. Lopes RI, Machado M, Paz C, Santos AC, Rezende WW. Successful outcome of a surgically treated giant retroperitoneal liposarcoma during pregnancy. *Arch Gynecol Obstet*. 2009;280(6):1067-1069. doi:10.1007/s00404-009-1061-9
30. Oh SE, Kim HJ, Choi SJ, Oh SY, Roh CR, Kim JH. A case of huge retroperitoneal liposarcoma in pregnancy. *Obstet Gynecol Sci*. 2014;57(3):236-239. doi:10.5468/ogs.2014.57.3.236
31. Parveen S, Gonsalves R, Feroz AS, Rogers J. Retroperitoneal schwannoma presenting as an ovarian tumour in pregnancy. *J Obstet Gynaecol*. 2007;27(4):429-430. doi:10.1080/01443610701327222
32. Sonntag B, Lellé RJ, Steinhard J, Brinkmann OA, Hungermann D, Kiesel L. Retroperitoneal mucinous adenocarcinoma occurring during pregnancy in a supernumerary ovary. *J Obstet Gynaecol*. 2005;25(5):515-516. doi:10.1080/01443610500193478
33. Tahmasebi F, Morje M, Jamall H, Polson A, Deo N. Primary Retroperitoneal Mucinous Tumours Diagnosed in Pregnancy: A Case Report and Literature Review. *Int J Womens Health*. 2019;11:649-653. Published 2019 Dec 20. doi:10.2147/IJWH.S176219
34. Yadav Y, Onon T, Sukumar S. Conservative management of a pelvic Schwannoma presenting as an adnexal mass. *J Obstet Gynaecol*. 2008;28(3):364-365. doi:10.1080/01443610802066265
35. Haakova L, Krofta L, Kucerova I, Stefanovicova H. Retroperitoneal schwannoma in pregnancy: A case report. *Ultrasound in Obstetrics and Gynecology*. 2009;34(1):212-212. doi: 10.1002/uog.7131
36. Karaman ÖE, Kılıççı Ç, Önder PÖ. A rare disease with pregnancy: Castleman case report. *Malawi Med J*. 2021;33(4):300-302. doi:10.4314/mmj.v33i4.12
37. Sun L, Li Q, Niu C, Du S, Wang H, Yang D. The valid evidence to reveal the effect of sex hormone on primary retroperitoneal malignant mixed müllerian tumor: a case report. *Eur J Gynaecol Oncol*. 2019;40(2):321-324. doi:10.12892/ejgo4321.2019
38. Roma AA, Malpica A. Primary retroperitoneal mucinous tumors: a clinicopathologic study of 18 cases. *Am J Surg Pathol*. 2009;33(4):526-533. doi:10.1097/PAS.0b013e3181909018
39. Mabrouk MY, Jabı R, Bouzayan L, Yassin K, Bouziane M. Management of a Left Lateral Aortic Paraganglioma During Pregnancy: A Rare Case Report. *Cureus*. 2021;13(11):e19221. Published 2021 Nov 2. doi:10.7759/cureus.19221
40. Hassan B, Fatteh M, Abiad M, Khalifeh M, Chamsy D. Retroperitoneal lipoma in pregnancy: Between surgical intervention and postpartum deferral. *Int J*

- Gynaecol Obstet. 2022;158(3):762-763. doi:10.1002/ijgo.14287
41. Linter-Kapišinská M, Majerník J, Ryška A, Ninger V. Primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma in pregnancy - case report. Primární retroperitoneální mucinózní cystadenokarcinom v těhotenství - kazuistika. Rozhl Chir. 2021;100(7):357-360. doi:10.33699/PIS.2021.100.7.357-360
42. Strauss DC, Hayes AJ, Thomas JM. Retroperitoneal tumours: review of management. Ann R Coll Surg Engl. 2011;93(4):275-280. doi:10.1308/003588411X571944
43. Hiroshi I. A case of retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma thought to be derived from ectopic ovary. Cancer Chemother. 2015;42(10):1265-1267.
44. Balat O, Aydin A, Sirikci A, Kutlar I, Aksoy F. Huge primary mucinous cystadenoma of the retroperitoneum mimicking a left ovarian tumor. Eur J Gynaecol Oncol. 2001;22(6):454-455.
45. Hansmann GH, Budd JW. Massive unattached retroperitoneal tumors: an explanation of unattached retroperitoneal tumors based on remnants of the embryonic urogenital apparatus. Am J Pathol. 1931;7(6):631-674.19.
46. Knezevic S, Ignjatovic I, Lukic S, et al. Primary retroperitoneal mucinous cystadenoma: A case report. World J Gastroenterol. 2015;21(17):5427-5431. doi:10.3748/wjg.v21.i17.5427
47. Wolf B, Kunert C, Horn LC, Eienkel J. Management of Primary Retroperitoneal Mucinous Tumors: A Retrospective Meta-Analysis. Int J Gynecol Cancer. 2017;27(6):1064-1071. doi:10.1097/IGC.0000000000001013
48. Foula MS, AlQattan AS, AlQurashi AM, AlShaqqaq HM, Mirza Gari MK. Incidentally discovered huge retroperitoneal mucinous cystadenoma with successful laparoscopic management: Case report. Int J Surg Case Rep. 2019;61:242-245. doi:10.1016/j.ijscr.2019.07.023
49. Jeng CJ, Tzen CY, Huang WC, Yang YC, Shen J, Tzeng CR. Recurrent retroperitoneal myxoid liposarcoma during pregnancy: a case report and literature review. Int J Gynecol Cancer. 2005;15(6):1235-1238. doi:10.1111/j.1525-1438.2005.00180.x

Recepționat – 14.12.2022, acceptat pentru publicare – 07.04.2023

Autor corespondent: Elina Șor, e-mail: elina.sor@usmf.md

Declarația de conflict de interes: Autorii declară lipsa conflictului de interes.

Declarația de finanțare: Studiul a fost realizat în cadrul proiectului de cercetare nr. 20.80009.8007.11 "Patologia chirurgicală și trauma la gravide și postpartum: optimizarea strategiei managementului în diagnostic și tratament"

Citare: Malcova T, Mișina A, Șor E, Mișin I. Tumorile retroperitoneale primare descoperite în timpul sarcinii [Primary retroperitoneal tumors discovered during pregnancy]. Arta Medica. 2023;86(1):25-32.