



Journal Homepage : - www.journalijar.com

INTERNATIONAL JOURNAL OF ADVANCED RESEARCH (IJAR)

Article DOI : 10.21474/IJAR01/10574

DOI URL : <http://dx.doi.org/10.21474/IJAR01/10574>



RESEARCH ARTICLE

GROSSESSE MOLAIRE TUBAIRE : A PROPOS DE 05 CAS ET REVUE DE LA LITTERATURE TUBAL HYDATIDIFORM MOLE: 05 CASES REPORT AND LITERATURE REVIEW

Rahaoui Mohamed, Zizi Hamza, Mamouni Nisrine, Errarhay Sanae, Bouchikhi Chahrazed and Banani
Abdelaziz

Service de Gynécologie Obstétrique 1, Hôpital Mère Enfant - CHU Hassan 2 Fès. Maroc.

Manuscript Info

Manuscript History

Received: 22 December 2019

Final Accepted: 25 January 2020

Published: February 2020

Key words:

Molar Pregnancy, Tubal Pregnancy,
Ectopic Pregnancy

Abstract

Gestational trophoblastic disease (GTD) include a broad spectrum of diseases ranging from benign precancerous lesions, partial and complete hydatidiform mole, malignant lesions, invasive moles, choriocarcinoma and tumors of the implantation site [1]. The incidence of hydatidiform mole is 1 in 1000-2000 pregnancies. The molar tubal pregnancy is extremely rare with an incidence of approximately 1.5 per 1 000 000 births [2]. We related in our series 5 cases of a tubular hydatiform mole collected in Obstetrics and Gynecology Department 1 of the Teaching Hospital Hassan II, Fez - Morocco, for a period of 7 years from 2010 to 2017. Three patients report an infertility history, with one secondary to polycystic ovary syndrome. The patients were submitted to gynecological emergencies for bleeding with pelvic pain, and in whom the dosage of β -hCG was positive with variable rates, and whose pelvic ultrasound performed was in favor of adnexal images with effusion. The ruptured EP was evoked in four cases hence the indications for exploratory laparotomy. One laparoscopic salpingectomy was performed for an unruptured ampullary EP. Surgical exploration revealed aspect of a ruptured tubal pregnancy appearance with in one case a vesicle appearance, with non-retainable tubes indicating salpingectomies with postoperative course was uneventful. The histopathological study mentioned the diagnosis of tubal hydatiform mole. The molar biological monitoring was satisfactory in all five cases.

Copy Right, IJAR, 2020, All rights reserved.

Introduction:-

La môle hydatiforme est une anomalie gestationnelle rare, définie par une dégénérescence kystique des villosités choriales associée à une prolifération tumorale du trophoblaste. Il n'y a, en général, pas d'embryon, et donc pas de grossesse vraie; on parle alors de môle hydatiforme complète. Cependant, il y a parfois le développement d'un embryon, qui est généralement non viable : on parle alors de môle hydatiforme partielle. Dans ce cas, la survenue d'une môle hydatiforme dans un site ectopique est très rare. Il est important de différencier une môle hydatiforme d'une grossesse extra-utérine, en particulier chez les femmes infertiles et surtout qui ont une histoire d'induction d'ovulation [3].

Corresponding Author:- Rahaoui Mohamed

Address:- Service de Gynécologie Obstétrique 1, Hôpital Mère Enfant - CHU Hassan 2 Fès. Maroc.

Patientes Et Observations:-**Observation 1 :**

Mme A.L, âgée de 37 ans, G2P2, avec notion de stérilité secondaire de 6 ans, admise aux urgences gynécologiques pour des métrorragies avec des algies pelviennes aiguës sur une aménorrhée de 06 semaines. Le dosage de β -hCG était positif à 22.000 UI/ml. L'examen clinique trouve une patiente désorientée, pâle, TA à 80/50 mmHg, FC à 100 bpm, température à 37°C, FR à 22 cycles/min, avec une sensibilité abdominale diffuse. L'examen gynécologique trouve au spéculum un col macroscopiquement normal avec saignement d'origine endo-utérine noirâtre et au toucher vaginal, le col est fermé et l'utérus est de taille difficile à apprécier vu le panicule adipeux et la sensibilité abdominale, avec une sensibilité latéro-utérine gauche, et au toucher rectal un cri de Douglas. Une échographie endovaginale réalisée objective la présence d'une formation échogène hétérogène latéro utérine droite (hématosalpinx droit) avec un épanchement péritonéal de grande abondance et un utérus vide. La culdocentèse a été réalisée ramenant un sang noirâtre incoagulable. L'indication d'une laparotomie a été posée en urgence pour suspicion de grossesse extra utérine rompue. L'exploration chirurgicale a trouvé une grossesse tubaire droite rompuesiège de multiples vésicules avec une trompe non conservable. Il a été décidé de réaliser une salpingectomie droite. L'étude anatomopathologique a démontré un tissu trophoblastique avec des caractéristiques compatibles avec une grossesse molaire partielle. Les suites post opératoires étaient simples. Le contrôle de taux de β -hCG plasmatique était en régression avec une négativation au bout de 1 mois. La patiente a adhéré à une contraception orale hormonale pendant 6 mois.

Observation 2 :

Mme R.R, âgée de 28 ans, mariée, nullipare, avec une stérilité primaire de 2 ans, secondaire à un syndrome des ovaires poly kystiques (SOPK), qui consulte aux urgences pour des algies pelviennes aiguës associées à des métrorragies. La patiente rapporte la notion d'aménorrhée de 4 semaines après induction par du Clomid®. Le dosage de β -hCG était positif à 2450 UI/ml. L'examen clinique trouve une patiente consciente, pâle, TA à 110/60 mmHg, FC à 80bpm, température à 36,8°C, FR à 16 cycles/min, l'abdomen était souple. Au toucher vaginal, le col est fermé avec un utérus de taille normal, avec une légère sensibilité latéro-utérine gauche. Pas du cri du Douglas au toucher rectal. L'échographie endovaginale réalisée a objectivé la présence d'une formation hypoéchogène hétérogène latéro utérine gauche multi-kystique mesurant 32x18 mm, sans épanchement au niveau du CDS de Douglas. L'utérus était vide avec une épaisseur endométriale mesurée à 10 mm. Il a été décidé une cinétique de β -hCG après 48 heures et de réévaluer la situation. Au bout de 48 heures ce taux était à 7.200 UI/ml. La patiente a présenté des algies pelviennes aiguës avec lipothymie et une hypotension à 08/05 mmHg, et le toucher vaginal objective du sang rougeâtre, et au toucher rectal on note la présence du cri du Douglas. Une échographie pelvienne réalisée en urgence a objectivé un épanchement de grande abondance d'où l'indication d'une laparotomie en urgence pour suspicion de grossesse extra utérine rompue. L'exploration a trouvé une grossesse tubaire gauche rompue sans visualisation de vésicules avec une trompe gauche non conservable. Il a été décidé de réaliser une salpingectomie gauche. Les suites post-opératoires étaient simples, avec une patiente déclarée sortante à J+3. L'étude anatomopathologique était en faveur d'une môle hydatiforme partielle de localisation tubaire. Le suivi biologique été marqué par une négativation des β -hCG au bout d'un mois. La patiente a été mise sous contraception orale hormonale pendant 1 an.

Observation 3 :

Mme K.M âgée de 28 ans, mariée avec notion de stérilité primaire de 4 ans, nullipare, sans antécédents notables, qui consulte aux urgences pour des algies pelviennes aiguës associées à des métrorragies noirâtres sépias sur une aménorrhée de 10 semaines. Le dosage de β -hCG était positif à 40.000UI/ml. L'examen clinique trouve une patiente consciente, stable sur le plan hémodynamique et respiratoire. A l'examen gynécologique, au spéculum le col était macroscopiquement normal avec saignement noirâtre d'origine endo-utérine, et au toucher vaginal le col était fermé et l'utérus de taille normale avec une douleur latéro-utérine gauche. Pas de cri du douglas au toucher rectal. L'échographie endovaginale réalisée a objectivé la présence d'un sac gestationnel extra utérin gauche de 8SA, avec un épanchement de moyenne abondance. L'utérus était vide avec un endomètre épaissi à 25 mm. L'indication d'une laparotomie exploratrice en urgence pour suspicion de grossesse extra utérine rompue a été posée. L'exploration a trouvé une grossesse tubaire gaucheinterstielle rompue, avec aspect de vésicules avec un embryon de 12mm, et une trompe non conservable [Figure 1 et 2]. Il a été décidé de réaliser une salpingectomie gauche. Les suites post opératoires étaient simples et la patiente a été déclarée sortante à J+3 du post-op. L'étude anatomopathologique était en faveur d'une môle hydatiforme partielle à localisation tubaire. La surveillance biologique du taux de β -hCG n'a pas été faite vu que la patiente était perdue de vu, mais la patiente est revue après 1 an avec un taux de β -hCG négatif.

Observation 4 :

Mme R.A, âgée de 32 ans, G1P0, ayant présenté des métrorragies sur aménorrhée de 06SA, sans notion d'expulsion de vésicules ou de membranes. L'examen a trouvé une patiente stable sur le plan hémodynamique, conjonctives normocolorées. A l'examen gynécologique, le col était macroscopiquement normal, utérus légèrement augmenté de taille sans masselatéro-utérine. L'échographie pelvienne a objectivé un utérus de taille normale vide, ligne de vacuité épaissie avec en latéro-utérin gauche un sac gestationnel avec activité cardiaque positive mesurant 20x15mm, pas d'épanchement. Le taux de β -hCG était de 3450UI/l. L'indication d'une cœlioscopie pour suspicion de grossesse extra utérine gauche non rompue a été posée. L'exploration a trouvé une grossesse extra-utérine gauche non rompue, pas vu de vésicules extra-tubaires [Figure3]. Une salpingectomie gauche a été réalisée. Les suites post opératoires étaient simples. L'analyse anatomopathologique était en faveur d'une môle hydatiforme partielle tubaire. La surveillance hebdomadaire sur 6 semaines a objectivé une négativation du taux de β -hCG. La patiente a suivi une contraception orale hormonale pendant 1 an.

Observation 5 :

Mme E.F, âgée de 42 ans, G4P4, sans antécédents pathologiques notables, qui a consulté pour des métrorragies sur aménorrhée de 08 SA. L'examen clinique a trouvé une patiente stable sur le plan hémodynamique avec métrorragies de faible abondance provenant de l'endocol, avec au toucher vaginal un utérus de taille normale, absence de sensibilité ou de masse latéro-utérine. L'échographie pelvienne a objectivé une image latéro- utérine droite échogène hétérogène de 50x40mm avec épanchement de moyenne abondance. Le dosage de β -hCG est revenu à 11 000 UI/ml. L'indication d'une laparotomie exploratrice pour suspicion de grossesse extra utérine rompue a été posée. L'exploration a trouvé une grossesse tubaire droite rompue, sans visualisation d'aspect de vésicules, avec une trompe non conservable. Il a été décidé de réaliser une salpingectomie droite. Les suites post opératoires étaient simples. L'étude anatomopathologique est en faveur d'une môle tubaire [Figure 4]. La surveillance hebdomadaire sur 4 semaines a objectivé une négativation du taux de β -hCG. La patiente a suivi une contraception orale hormonale pendant 1 an.

Discussion:-

La môle hydatiforme (ou grossesse molaire) est une anomalie rare de la grossesse, définie par la dégénérescence kystique des villosités choriales associée à une prolifération tumorale du trophoblaste [4]. Les môles résultent d'une anomalie de la fécondation avec excès de matériel chromosomique paternel. La môle complète dérive de la fécondation d'un ovule anucléé par un ou deux spermatozoïdes haploïdes. Son caryotype est 46XX (75% des cas) ou 46XY (25%). La môle complète est caractérisée par une hyperplasie du trophoblaste associée à une dégénérescence généralisée des villosités choriales et une absence de cavité amniotique et de tissu embryonnaire. La môle partielle résulte de la fécondation d'un ovule normal par deux spermatozoïdes ou un spermatozoïde anormal. Elle est caractérisée par une hyperplasie focalisée du trophoblaste, une dégénérescence localisée des villosités choriales, un tissu embryonnaire identifiable. Le caryotype est triploïde dans 99% des cas [5]. Cette complication rare concerne 1 à 3/1000 grossesses. Les très jeunes femmes, de moins de 20 ans et les femmes âgées entre 45 et 50 ans sont considérées comme les deux groupes à risques de grossesse molaire [6].

Dans notre série, le diagnostic évoqué est la grossesse extra-utérine sur la base des signes fonctionnels (aménorrhée secondaire, algie pelvienne aiguë et présence de métrorragies de sang noirâtre), des facteurs de risque (infertilité, ovaires poly-kystiques), des signes échographiques (masse latéro-utérine, utérus vide, lame d'épanchement pelvien) et d'un taux de β -hCG positif [Tableau]. Le taux de β -hCG anormalement élevé ou faible peut faire évoquer le diagnostic d'une grossesse molaire tubaire mais le diagnostic de certitude est posé après examen anatomopathologique de la pièce opératoire. Dans la littérature, le diagnostic de choriocarcinome tubaire est une découverte histologique après des interventions réalisées pour des tableaux cliniques variés. Il s'agit le plus souvent de grossesses extra-utérines rompues[5], mais d'autres diagnostics différentiels ont été évoqués : suspicion de kyste ovarien tordu [7], d'un myome pédiculé ou tumeur ovarienne [8], tableau d'avortement septique avec abcès tubo-ovarien [9]. Une association entre grossesse intra-utérine évolutive et môle tubaire diagnostiquée à 10 SA a été aussi décrite par Lu et al, en 2017 [10], avec salpingectomie et autorisation de poursuite de la gestation permettant l'issue d'un enfant normale à 39SA. Bien que l'apparition simultanée d'une grossesse intra-utérine et une grossesse molaire tubaire est rare, près de 40 cas de môle hydatiforme extra-utérine ont été rapportés dans la littérature [11].

Classification des môles hydatiformes :

- **Môle complète** : elle dérive de la fécondation d'un ovule anucléé (sans noyau) par un ou deux spermatozoïdes. Dans cette forme, il n'y a jamais d'embryon, seulement du placenta qui prolifère anormalement.

- **Môle partielle** : elle dérive de la fécondation d'un ovule normal par deux spermatozoïdes ou un spermatozoïde anormal. Dans ce cas le placenta grossit également de façon anormale mais en plus l'embryon se forme mal. La môle partielle est retrouvée dans 10 à 20% des avortements et est responsable d'un arrêt du développement embryonnaire [12].

Diagnostic :

La grossesse molaire s'identifie par des symptômes de grossesse amplifiés : saignements, nausées, vomissements, gonflement abdominal, hausse du niveau de l'hormone de grossesse (HCG). Le taux de BhCG dans les grossesses molaires tubaires peut être légèrement inférieur aux taux des môles intra utérines car l'implantation dans la trompe de Fallope pourrait empêcher une vascularisation adéquate [13]. Une grossesse molaire complète est diagnostiquée lors d'une échographie (images en nid d'abeille, sans cavité amniotique, ni embryon), mais une grossesse molaire partielle est plus difficile à diagnostiquer (le trophoblaste peut être focalement lacunaire, souvent associé à un sac gestationnel, voire à un embryon).

La rupture de la trompe de Fallope survient dans les grossesses molaires tubaires plus précocement que dans les grossesses extra-utérines normales, et cela peut être expliqué par le haut pouvoir d'invasion et de pénétration du tissu trophoblastique molaire dans l'épithélium tubaire par rapport au trophoblaste d'une grossesse normale.

Traitement :

Le traitement repose sur une salpingotomie ou une salpingectomie en fonction de l'état local de la trompe. Le risque majeur de cette maladie est la constitution d'une tumeur maligne trophoblastique gestationnelle de mauvais pronostic si elle n'est pas dépistée et traitée à temps. Ce risque est proche de 10 à 15 % pour les môles complètes et de 0,5 à 3 % pour les môles partielles. Le traitement se fait alors par chimiothérapie [14].

Surveillance et pronostic :

Toutes les grossesses molaires doivent bénéficier d'une surveillance hebdomadaire jusqu'à négativation, puis mensuelle, du taux de d'hormones de grossesse (HCG). Ce taux doit redevenir négatif en général dans les 2 à 3 mois après l'évacuation du contenu. Néanmoins la vérification du dosage se poursuivra pendant plusieurs mois selon les cas. Chez 90% des femmes ce taux passe complètement et définitivement en négatif sans aucun problème ultérieur.

Après une môle hydatiforme, une nouvelle grossesse est tout à fait possible même avec une seule trompe en cas de salpingectomie, mais il est généralement conseillé d'attendre entre 6 mois et 1 an pour ne pas gêner la surveillance. Cette nouvelle grossesse devra être très étroitement surveillée. Le risque de môle hydatiforme lors d'une nouvelle grossesse est très faible : entre 0,5 à 1 %. Le délai pour débuter une nouvelle grossesse est plus long lorsque la femme a dû subir un traitement par chimiothérapie.

Le pronostic des grossesses molaires tubaires est le même que pour d'autres formes de maladies trophoblastiques gestationnelles [15]. Ainsi, la grossesse molaire tubaire peut être compliquée par une tumeur trophoblastique gestationnelle (TTG), ou une transformation maligne comme dans la grossesse molaire intra-utérine.

Conclusion:-

La grossesse molaire tubaire est une entité rare, sans spécificités radio-cliniques, mimant souvent un tableau de GEU rompue rendant ainsi la présomption diagnostique difficile. L'exploration chirurgicale peut constater parfois un aspect de vésicules molaires. L'étude anatomopathologique est le Gold standard pour le diagnostic des grossesses molaires tubaires. La surveillance molaire postopératoire doit être stricte, rejoignant les protocoles standards de surveillance biologique pour guetter toute transformation maligne.

Conflits D'intérêts:

Tous les auteurs déclarent ne pas avoir un conflit d'intérêts.

Liste des Iconographies :

Figure 1 : Aspect peropératoire d'une GEU interstielle molaire rompue, avec aspect de vésicules.

Figure 2 : Pièce opératoire d'une grossesse extra-utérine rompue, avec aspect de vésicules et embryon de 12 mm.

Figure 3 : Aspect coelioscopique d'une môle tubaire gauche non rompue.

Figure 4 : Caractéristiques histologiques des môles tubaires. (HESx10)

Tableau : Caractéristiques de notre série de môles tubaires étudiées.

Iconographie:



Figure 1:- Aspect peropératoire d'une GEU interstielle molaire rompue, avec aspect de vésicules.



Figure 2:- Pièce opératoire d'une grossesse extra-utérine rompue, avec aspect de vésicules et embryon de 12 mm.

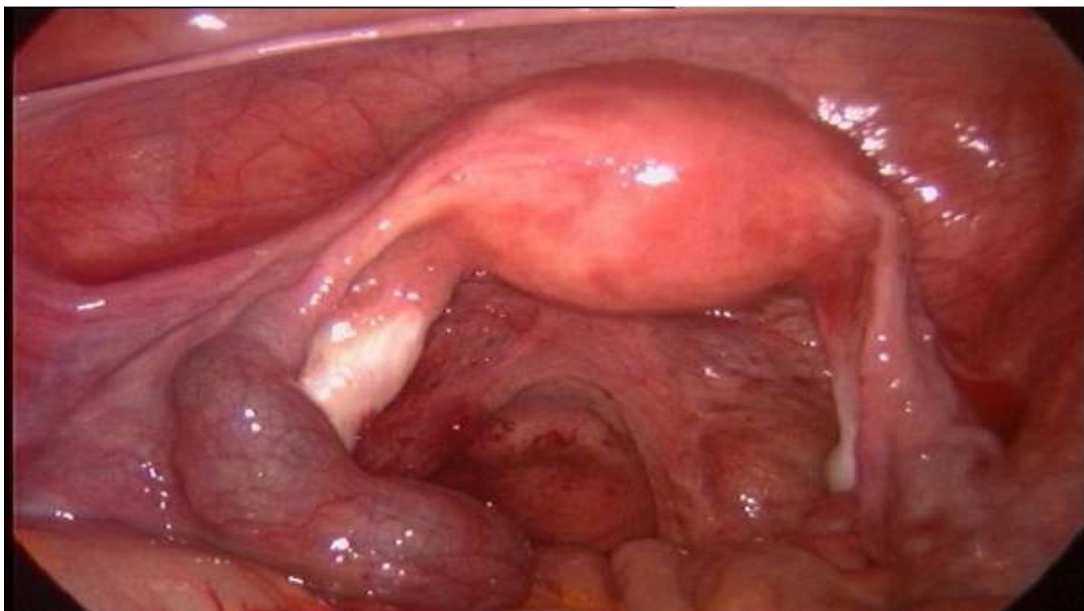


Figure 3:- Aspect coelioscopique d'une GEU tubaire molaire gauche non rompue.

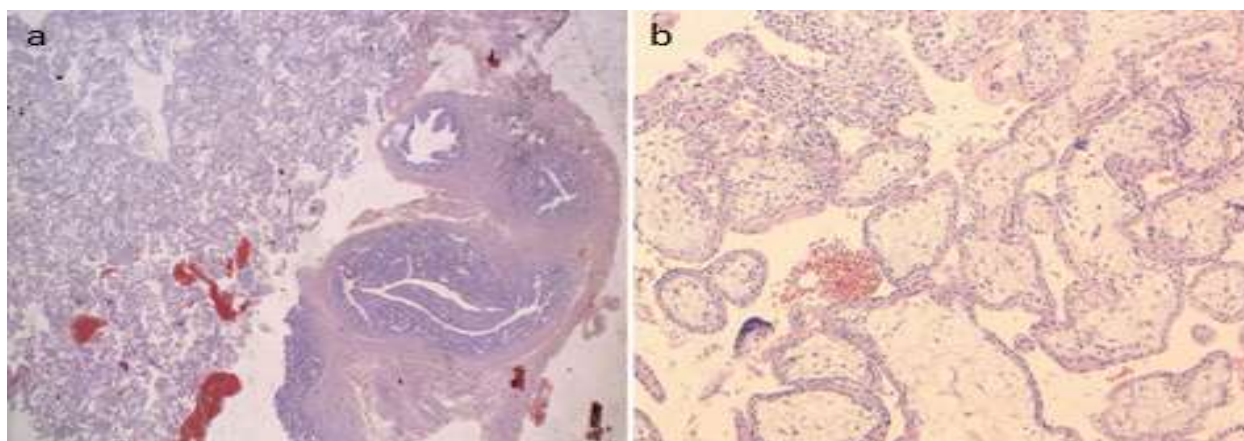


Figure 4:- Caractéristiques histologiques des môles tubaires (HESx10), a- Élargissement villositaire dans la lumière tubaire b- Élargissement villositaire avec œdème stromal et prolifération de cytotrophoblaste et deyncytiotrophoblaste.

Cas	Age	GxPx	Stérilité	Induction	Aménorrhée	β-hCG	Echographie	Culdo	Laparotomie	Surveillance β-hCG
1	37	G ₂ P ₂	II	Non	06 SA	22.000	Formation échogène hétérogène latéro utérine droite	+	Salpingectomie droite	Négativation / 4semaines
2	28	G ₀ P ₀	I	Oui	04 SA	7.200	Formation hypoéchogène hétérogène latéro utérine gauche multikystique de 33x18 mm	0	Salpingectomie gauche	Négativation / 4semaines
3	28	G ₀ P ₀	I	Non	10 SA	40.000	Sac gestationnel extra-utérin gauche de 8 SA	0	Salpingectomie gauche	Négativation
4	32	G ₁ P ₁	0	Non	06 SA	3.450	Sac gestationnel avec AC+ en latéro-utérin gauche	0	Salpingectomie gauche	Négativation/ 4semaines
5	42	G ₄ P ₄	0	Non	08 SA	11.000	Image latéro- utérine droite échogène hétérogène de 50/40 mm	0	Salpingectomie droite	Négativation / 4semaines

Tableau:- Caractéristiques de notre série de môles tubaires étudiées.

References:-

1. From the Centers for Disease Control and Prevention. Ectopic pregnancy--United States, 1990-1992. *JAMA*. 1995;273(7):533.
2. Lurain JR. Gestational trophoblastic disease I: epidemiology, pathology, clinical presentation and diagnosis of gestational trophoblastic disease, and management of hydatidiform mole. *Am J Obstet Gynecol*. 2010;203(6):531-539.
3. Soper JT. Gestational trophoblastic neoplasia. *Curr Opin Obstet Gynecol*. 1990;2(1):92-97.
4. Nowak-Markwitz E, Drews K, Spaczyński M. [Gestational trophoblastic disease: the epidemiological analysis of 342 cases]. *Ginekol Pol*. 2000;71(8):767-772.
5. Depypere HT, Dhont M, Verschraegen-Spae MR, Coppens M. Tubal hydatidiform mole. *Am J Obstet Gynecol*. 1993;169(1):209-210.
6. Hertig AT. Atlas of tumor pathology. In: Atlas of tumor pathology. 1956. Washington, D.C.
7. Bagshawe KD, Lawler SD, Paradinas FJ, Dent J, Brown P, Boxer GM. Gestational trophoblastic tumours following initial diagnosis of partial hydatidiform mole. *Lancet Lond Engl*. 1990;335(8697):1074-1076.
8. Pschera H. Hydropic degeneration resembling hydatidiform mole in tubal pregnancy. *Acta Obstet Gynecol Scand*. 1989;68(3):275-276.
9. Chase JS, Check JH, Nowroozi K, Wu CH. First-trimester serum levels of the beta-subunit of human chorionic gonadotropin in a tubal molar pregnancy. *Am J Obstet Gynecol*. 1987;157(4 Pt 1):910.
10. Lu D, Tang JJ, Zakashansky K, Berkowitz RS, Kalir T, Liu Y. Heterotopic Pregnancy Including Intrauterine Normal Gestation and Tubal Complete Hydatidiform Mole: A Case Report and Review of the Literature. *Int J Gynecol Pathol Off J Int Soc Gynecol Pathol*. 2017;36(5):428-432.
11. Burton JL, Lidbury EA, Gillespie AM, Tidy JA, Smith O, Lawry J, et al. Over-diagnosis of hydatidiform mole in early tubal ectopic pregnancy. *Histopathology*. 2001;38(5):409-417.
12. Candelier J-J. The hydatidiform mole. *Cell Adhes Migr*. 2016;10(1-2):226-235.
13. Chalmers JA. Hydatidiform mole in the fallopian tube. *J Obstet Gynaecol Br Emp*. 1948;55(3):322-324.
14. Adli AG. Hydatidiform mole in the fallopian tube. *Int Surg*. 1976;61(2):84-85.
15. Gillespie AM, Lidbury EA, Tidy JA, Hancock BW. The clinical presentation, treatment, and outcome of patients diagnosed with possible ectopic molar gestation. *Int J Gynecol Cancer Off J Int Gynecol Cancer Soc*. 2004;14(2):366-369.