

NON-PUERPERAL UTERINE INVERSION IN A YOUNG WOMAN: A CASE REPORT

INVERSION UTERINE NON PUERPERALE CHEZ UNE JEUNE FEMME : A PROPOS D'UN CAS

*KOUAMÉ A, KOFFI SV, ADJOBY R, DIOMANDÉ FA, EFOH D, OUSSOU C, KOUAKOU F.

Abstract

Background: Uterine inversion is an uncommon complication in the non-puerperal period. Submucosal myoma is more frequently involved usually among women above 45 years old.

Case presentation: A 28 year-old patient was admitted to the gynaecology emergency room in Cocody Teaching Hospital, Abidjan, Cote D'Ivoire with a large lobulated fleshy mass in the vulval area. She had been having pelvic pain, heaviness in the pelvis and bleeding per vaginam intermittently for 6 months for which she had been treated conservatively without improvement. The clinical examination was consistent with uterine inversion secondary to a mass in the fundus of the uterus. The uterus with the mass in the fundus was excised by a combined vaginal and abdominal (abdominal hysterectomy) approach. Histopathology confirmed the mass to be a sub-mucosal uterine leiomyoma. She has been followed up for 12 months without complaints.

Conclusion: We have presented a young woman with an unusual non-puerperal, total and chronic uterine inversion as a result of uterine leiomyoma managed successfully by a combined abdominal and vaginal approach.

Key words: Uterine inversion, Submucosal leiomyoma, Hysterectomy, Good outcome

Résumé

L'inversion utérine est une complication exceptionnelle en dehors de la période puerpérale. Le myome sous-muqueux est fréquemment en cause, mais chez les femmes à partir de 45ans.

Observation: Une patiente âgée de 28 ans a été admise aux urgences gynécologiques du Centre Hospitalier Universitaire (CHU) de Cocody à Abidjan en Côte d'Ivoire avec une volumineuse masse charnue lobulée dans la région vulvaire. Elle avait rapporté des douleurs pelviennes et lombaires, et des saignements vaginaux intermittents depuis 6 mois pour lesquels un traitement médical lui avait été administré sans succès. L'examen clinique était compatible avec inversion utérine secondaire à une masse dans le fond de l'utérus. L'exérèse première de la masse utérine a été pratiquée, suivie d'une hystérectomie abdominale après une approche vaginale. L'examen histologie de la pièce opératoire avait objectivé un fibrome utérin sous-muqueux. Les suites opératoires ont été simples pendant 12 mois sans plaintes.

Conclusion: Nous avons présenté un cas exceptionnel d'inversion utérine non puerpérale totale évoluant sous un mode chronique due à un léiomyome chez une jeune femme. Le traitement chirurgical (Hystérectomie) a combiné la voie vaginale et abdominale.

Mots-clés: Inversion Utérine, Léiomyome sous-muqueux, Hystérectomie

Introduction

Uterine inversion is defined as the invagination of the fundus by "glove finger" exteriorization up to the vulva¹. It is an uncommon clinical condition which comprises of 2 types: puerperal uterine inversion and non-puerperal uterine inversion². Non-puerperal uterine inversion is an uncommon complication of a benign or malignant uterine mass. The diagnosis is mainly clinical when it presents in complete

Introduction

Inversion utérine est définie comme l'invagination du fond en "doigt de gant" avec extériorisation jusqu'à la vulve¹. C'est un état clinique rare qui se compose de 2 types: inversion utérine puerpérale et inversion utérine non puerpérale². L'inversion utérine non puerpérale est une complication exceptionnelle d'une masse utérine bénigne ou maligne¹. Le diagnostic est essentiellement clinique quand elle se présente sous sa forme complète avec confirmation histologique du diagnostic. Cependant, l'examen radiologique (IRM, échographie) est nécessaire dans sa forme incomplètes^{3,4}.

Kouamé A, Koffi SV, Adjoby R, Diomandé FA, Effoh D, Oussou C, Kouakou F.

Department of Obstetrics and Gynaecology, CHU of Cocody, Abidjan, Cote d'Ivoire. E-mail: arthur.kouame@mail.huji.ac.il

Correspondence

Conflict of interest: None
Funding: Aucun

Conflict of interest: None
Conflict d'intérêts: Aucun

form with histopathological confirmation of the diagnosis. However, radiology examination (MRI, ultrasonography) is necessary in its incomplete form^{3,4}.

Case presentation

The patient was a 28 years old G²P¹ housemaid of African descent; her last confinement was 10 years ago. However, she had been having pelvic pain, heaviness in the pelvis and bleeding per vaginam intermittently for 6 months for which she had been treated conservatively without improvement. Her last menstrual period was 3 weeks before her presentation. On the day of her admission to our gynaecological emergency, she had had a feeling of a vaginal mass accompanied by an intense urge to push. The need became more and more urgent, and when she pushed a large fleshy mass extruded from her vagina. She was found to be anxious and pale with a low-grade fever. Pelvic examination revealed a bilobed firm mass as shown in Fig. 1. The proximal part was mostly pink in colour and 15 cm in diameter while the distal part was dark and 10 cm in diameter. The proximal lobe was tender while the distal lobe was painless. The cervix was not seen. Bimanual palpation

Observation

La patiente était une femme de chambre 2^{ème} geste primipare de 28 ans d'origine africaine. Son dernier accouchement remonte à 10 ans. Dans ses antécédents, elle avait des douleurs pelviennes, une pesanteur pelvienne et des saignements vaginaux intermittents durant 6 mois pour lequel elle avait reçu un traitement médical sans succès. Ses dernières règles remontaient à 3 semaines avant sa présentation. Le jour de son admission aux urgences gynécologiques, elle avait eu la sensation d'une masse vaginale accompagnée d'une envie intense de pousser. Le besoin est devenu de plus en plus pressant. Et quand elle a poussé, une grande masse charnue s'était extériorisée à la vulve. Elle était anxieuse et pâle avec un fébricule. L'examen pelvien a révélé une masse ferme et bilobée (voir Fig. 1). La partie proximale était rose et mesurait 15 cm de diamètre, tandis que la partie distale noirâtre mesurait 10 cm de diamètre. Le lobe proximal était sensible tandis que le lobe distal était indolore. Le col de l'utérus n'avait pas été vu. Le palper bi-manuel avait retrouvé le col haut situé dans le pelvis alors que le corps de l'utérus n'avait pas été palpable. Le diagnostic d'inversion utérine secondaire à une tumeur utérine avait été posé. L'état général de

Fig. 1: The patient with complete uterine inversion

Fig. 1: La patiente avec une inversion utérine totale



showed the cervix to be elevated while the body of the uterus was not palpable and a diagnosis of uterine inversion secondary to uterine tumor was made. The patient was fully evaluated and resuscitated. Her haemoglobin was 5.8 g/dl with neutrophile leukocytosis of 23,700/ml. However, her renal function and coagulation profile were normal. The patient was promptly transfused. After full evaluation and resuscitation, an abdominal hysterectomy was performed after initial excision of the tumor per vaginam. The postoperative course was uneventful. The patient was discharged after four days of hospitalization. Histopathological examination confirmed the mass to be a submucosa leiomyoma of the uterine fundus.

Discussion

Non-puerperal uterine inversion is uncommon^{5,6,7} and affects women above 45 years old and it is often associated with benign tumors of the uterus. According to De Vries et al⁶ and Lupovitch et al⁹, the cases that presented in the reproductive age were mostly associated with a malignant tumor of the uterus. However, in this case we report a 28 years old patient with a benign uterine tumor (leiomyoma). Ataley et al described a similar case of non-puerperal uterine inversion caused by a submucous myoma in a 42 year-old Caucasian woman.

The pathophysiology of non-puerperal uterine inversion is not yet clearly understood. But some authors suggest it could be associated with these conditions: thin uterine wall, rapid growth of the tumor, the size of tumor, the location of the tumor at the fundus, pedunculated tumor, dilatation of the cervix by distension of the uterine cavity and a sudden expulsion of the tumor through the vagina. In the current case, we observed that the tumor implanted widely on the uterine fundus.

Two classifications have been proposed for non-puerperal uterine inversion: partial or total inversion and acute or chronic inversion. Based on the first classification, the index case

la patient avait été évalué et des mesures de réanimation entreprises. Le taux d'hémoglobine était de 5,8 g/dl avec une hyperleucocytose à 23 700 éléments/ml. Cependant, sa fonction rénale et le bilan de l'hémostase étaient normaux. La patiente avait été rapidement transfusée. Après un bilan pré opératoire, une hystérectomie par voie abdominale avait été réalisée après excision première de la tumeur par voie vaginale. Les suites opératoires ont été simples. Le patient avait été libéré après quatre jours d'hospitalisation. L'examen histologique de la pièce opératoire avait révélé la masse comme étant un fibrome sous-muqueux du fond de l'utérus.

Discussion

L'inversion utérine non puerpérale (IUNP) est exceptionnel^{5,6,7}. Elle affecte les femmes de 45 ans et plus^{6,8}. Elle est souvent associée à des tumeurs bénignes de l'utérus^{6,9}. Selon De Vries et coll.⁶ et Lupovitch et coll.⁹, les cas d'IUNP chez les femmes en âge de procréer ont été associés principalement à une tumeur maligne de la uterus¹⁰. Cependant, dans ce cas que nous rapportons, la patiente était âgée de 28 ans et présentait une tumeur utérine bénigne (fibrome). Ataley et coll.¹¹ décrivent un cas similaire d'inversion utérine non puerpérale causée par un myome sous-muqueux dans un de 42 ans femme de race blanche.

La physiopathologie de l'IUNP n'est pas encore clairement élucidé⁸. Certains auteurs^{6,12,13} suggèrent que l'IUN pourrait survenir dans certaines conditions: paroi utérine mince, croissance rapide de la tumeur, taille de la tumeur, localisation de la tumeur au fond, tumeur pédiculée, dilatation du col de l'utérus par distension la cavité utérine et une expulsion brusque de la tumeur par le vagin. Dans le cas en présence, nous avons observé que la base d'implantation de la tumeur était large dans le fond de l'utérus.

Deux classifications ont été proposées pour l'IUNP: L'inversion utérine partielle ou totale⁸ et l'inversion utérine aiguë ou chronique^{1,14}. Sur la base de la première classification, le cas en présence était une inversion totale. Le diagnostic d'IUNP est plus difficile lorsque

was a total inversion. The diagnosis of non-puerperal uterine inversion is more difficult when the inversion is partial. In the case of partial inversion, ultrasonography and more especially MRI are required for accurate diagnosis.

Acute non-puerperal uterine inversion is dramatic. It is characterized by a higher intensity of the pain and a heavy menorrhagia. The chronic non-puerperal uterine inversion is characterized by a pelvic discomfort, vaginal discharge, minimal menorrhagia and severe anaemia; we therefore classify this index case as chronic non-puerperal uterine inversion.

The most effective treatment is total abdominal hysterectomy, which was performed in this case. Increasingly, authors practice vaginal hysterectomy with great caution after returning the uterus to its anatomical position, followed by conventional vaginal hysterectomy as an emergency. This procedure could be done as a laparoscopic surgery while the uterus could be preserved especially if the patient is young, nulliparous with the need for preservation of fertility.

Conclusion: We have presented a young woman with an unusual non-puerperal, total and chronic uterine inversion as a result of uterine leiomyoma managed successfully by a combined abdominal and vaginal approach.

Acknowledgment

We wish to acknowledge Professor O. Paltiel, Dr M. Elami, Mr L. Zornisky and the clinical staff as well as the pathology laboratory staff for their support in the preparation of this manuscript.

References

1. Moulding F, Hawnaur JM. MRI of non-puerperal uterine inversion due to endometrial carcinoma. Clin Radiol [Internet]. 2004 Jun [cited 2015 Jan 6];59(6):534–7. Available from: <http://www.sciencedirect.com/science/article/pii/S0009926003005099>

l'inversion est partielle. Dans le cas d'inversion partielle, l'échographie et surtout l'IRM sont nécessaires pour un diagnostic précis^{3-5,13,15,16}.

L'IUNP aiguë est dramatique. Elle se caractérise par une intensité plus élevée de la douleur et des ménorragies plus importantes¹². L'IUNP chronique est caractérisée par une douleur pelvienne, des pertes vaginales, des ménorragies de petite abondance et anémie sévère^{7,12,14}. Alors, nous classons ce cas en présence comme une IUNP chronique.

Le traitement le plus efficace est hystérectomie totale par voie abdominale^{1,4,7,15,17,18}. C'est ce qui a été réalisée dans ce cas. De plus en plus, certains auteurs^{7,12,17} pratiquent l'hystérectomie par voie vaginale. Après avoir pratiqué un repositionnement prudent de l'utérus dans sa position anatomique, une hystérectomie par voie vaginale classique termine l'intervention. Une chirurgie conservatrice par voie vaginale Celio-assistée peut être pratiquée permettant de préserver l'utérus¹⁴. La chirurgie conservatrice pourrait être envisagée pour préserver la fertilité chez la femme jeune, nullipare et dans un contexte de désir de maternité¹⁴.

Conclusion:

Nous avons présenté un cas d'Inversion Utérine Non Puerpérale total exceptionnelle chez une femme jeune évoluant sous un mode chronique due à un fibrome utérin. Le traitement chirurgical radical combinant une approche vaginale et abdominale a été un succès.

Remerciements

Nous remercions le Professor O. Paltiel, le Dr M. Elami, Mr L. Zornisky et tant l'équipe clinique du service de Gynécologie Obstétrique que l'équipe du laboratoire d'Anatomie-Pathologique du CHU de COCODY pour son soutien dans la préparation de cet article.

Références

1. Moulding F, Hawnaur JM. MRI of non-puerperal uterine inversion due to endometrial carcinoma. Clin Radiol, 2004; 59(6):534–7. <http://www.sciencedirect.com/science/article/pii/S0009926003005099>

2. De Vries M, Perquin DAM. Non-puerperal uterine inversion due to submucous myoma in a young woman : a case report. *J Med Case Rep*. 2010;4:21–3.
3. Turhan N, Simavli S, Kaygusuz I, Kasap B. Totally inverted cervix due to a huge prolapsed cervical myoma simulating chronic non-puerperal uterine inversion. *Int J Surg Case Rep . Surgical Associates Ltd*; 2014 Jan; 5(8):513–5. Available from:<http://www.pubmedcentral.nih.gov/articlerender>.
4. Lupovitch A, England ER, Chen R. Non-puerperal uterine inversion in association with uterine sarcoma: case report in a 26-year-old and review of the literature. *Gynecol Oncol*. 2005 Jun; 97(3):938–41. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/1588576>
5. Souza KT, Negrão MV, da Silva Rocha LS, Di Favero G, da Costa SCS, Diz MDPE. Immature uterine teratoma associated with uterine inversion. *Rare Tumors*. 2014 Jul 30; 6(3):111–3. Available from: <http://www.pubmedcentral.nih.gov/articlerender>
6. Atalay MA, Demir BÇ, Solak N, Atalay FO, Küçükkömürcü S. An unusual presentation of a submucous leiomyoma accounting to a non-puerperal uterine inversion: A case report. *J Turkish Ger Gynecol Assoc*. 2013 Jan; 14(2):116–8. Available from:<http://www.pubmedcentral.nih.gov/articlerender>.
7. Fofie CO, Baffoe P. NON-PUERPERAL UTERINE INVERSION : A CASE REPORT. *GHANA Med J*. 2010;44(2):97–9.
8. Takano K, Ichikawa Y, Tsunoda H, Nishida M. Uterine Inversion Caused by Uterine Sarcoma : A Case Report. *Jpn J Clin Oncol*. 2001;31(1):39–42.
9. Kilpatrick CC, Chohan L, Maier RC. Chronic nonpuerperal uterine inversion and necrosis: a case report. *J Med Case Rep. BioMed Central Ltd*; 2010 Jan; 4(1):381. Available from: <http://www.pubmedcentral.nih.gov/articlerender>
10. Pelissier-Komorek A, Lucereau-Barbier M, Diab J, Gavillon N, Graesslin O. Acute non-puerperal uterine inversion the third degree. *Gynécologie, Obs Fertil. Elsevier Masson SAS*; 2013 Feb; 41(2):130–2. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/23375988>
2. De Vries M, Perquin DAM. Non-puerperal uterine inversion due to submucous myoma in a young woman : a case report. *J Med Case Rep*. 2010;4:21–3.
3. Turhan N, Simavli S, Kaygusuz I, Kasap B. Total inverted cervix due to a huge prolapsed cervic myoma simulating chronic non-puerperal uterine inversion. *Int J Surg Case Rep . Surgical Associates Ltd*; 2014; 5(8):513–5. <http://www.pubmedcentral.nih.gov/articlerender>.
4. Lupovitch A, England ER, Chen R. Non-puerperal uterine inversion in association with uterine sarcoma: case report in a 26-year-old and review of the literature. *Gynecol Oncol*. 2005 Jun; 97(3):938–41. <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/1588576>
5. Souza KT, Negrão MV, da Silva Rocha LS, Di Favero G, da Costa SCS, Diz MDPE. Immature uterine teratoma associated with uterine inversion. *Rare Tumors*. 2014 Jul 30; 6(3):111–3. <http://www.pubmedcentral.nih.gov/articlerender>.
6. Atalay MA, Demir BÇ, Solak N, Atalay FO, Küçükkömürcü S. An unusual presentation of submucous leiomyoma accounting to a non-puerperal uterine inversion: A case report. *Turkish Ger Gynecol Assoc*. 2013 Jan; 14(2):116–8. <http://www.pubmedcentral.nih.gov/articlerender>
7. Fofie CO, Baffoe P. NON-PUERPERAL UTERINE INVERSION : A CASE REPORT. *GHANA Med J*. 2010;44(2):97–9.
8. Takano K, Ichikawa Y, Tsunoda H, Nishida M. Uterine Inversion Caused by Uterine Sarcoma : Case Report. *Jpn J Clin Oncol*. 2001;31(1):39–42.
9. Kilpatrick CC, Chohan L, Maier RC. Chronic nonpuerperal uterine inversion and necrosis: case report. *J Med Case Rep. BioMed Central Ltd* 2010 Jan; 4(1):381. <http://www.pubmedcentral.nih.gov/articlerender>
10. Pelissier-Komorek A, Lucereau-Barbier M, Diab J, Gavillon N, Graesslin O. Acute non-puerperal uterine inversion the third degree. *Gynécologie Obs Fertil. Elsevier Masson SAS*; 2013 Feb; 41(2):130–2. <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/23375988>

11. Occhionero M, Restaino G, Ciuffreda M, Carbone a, Sallustio G, Ferrandina G. Uterine inversion in association with uterine sarcoma: a case report with MRI findings and review of the literature. *Gynecol Obstet Invest.* 2012 Jan; 73(3):260–4. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/22377482>
12. Tuckett JD, Yeung A, Timmons G, Hughes T. Non-puerperal uterine inversion secondary to uterine sarcoma and ascites demonstrated on CT and MRI. *Eur J Radiol Extra.* Elsevier Ireland Ltd; 2010 Sep; 75(3):e119–23. Available from: <http://linkinghub.elsevier.com/retrieve/pii/S1571467510000490>
13. Oguri H, Maeda N, Yamamoto Y, Wakatsuki A, Fukaya T. Non-puerperal uterine inversion associated with endometrial carcinoma--a case report. *Gynecol Oncol.* 2005 Jun; 97(3):973–5. Available from: <http://www.sciencedirect.com/science/article/pii/S0090825805001563>
14. Zhang X, Sun L, Chen X, Hua K. Uterus Preserving Reposition of Non-Puerperal Uterine Inversion under Laparoscope: A Case Report and Literature Review. *Gynecol Obstet Invest.* 2015;1–4. Available from: <http://www.karger.com?doi=10.1159/000366475>
15. Umeononihu OS, Adinma JI, Obiechina NJ, Eleje GU, Udegbumam OI, Mbachu II. Uterine leiomyoma associated non-puerperal uterine inversion misdiagnosed as advanced cervical cancer: A case report. *Int J Surg Case Rep.* Surgical Associates Ltd; 2013 Jan; 4(11):1000–3. Available from: <http://www.pubmedcentral.nih.gov/articlerender>
16. Auber M, Darwish B, Lefebure A, Ness J, Roman H. Management of nonpuerperal uterine inversion using a combined laparoscopic and vaginal approach. *Am J Obstet Gynecol.* Elsevier Inc.; 2011;204(6):e7–9. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.ajog.2011.01.024>
17. Case AS, Kirby TO, Conner MG, Huh WK. A case report of rhabdomyosarcoma of the uterus associated with uterine inversion. *Gynecol Oncol.* 2005 Mar; 96(3):850–3. Available from:
11. Occhionero M, Restaino G, Ciuffreda M, Carbone a, Sallustio G, Ferrandina G. Uterine inversion in association with uterine sarcoma: a case report with MRI findings and review of the literature. *Gynecol Obstet Invest.* 2012 Jan; 73(3):260–4. Available from: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/22377482>
12. Tuckett JD, Yeung A, Timmons G, Hughes T. Non-puerperal uterine inversion secondary to uterine sarcoma and ascites demonstrated on CT and MRI. *Eur J Radiol Extra.* Elsevier Ireland Ltd; 2010 Sep; 75(3):e119–23. <http://linkinghub.elsevier.com/retrieve/pii/S1571467510000490>
13. Oguri H, Maeda N, Yamamoto Y, Wakatsuki A, Fukaya T. Non-puerperal uterine inversion associated with endometrial carcinoma--a case report. *Gynecol Oncol.* 2005 Jun; 97(3):973–5. <http://www.sciencedirect.com/science/article/pii/S0090825805001563>
14. Zhang X, Sun L, Chen X, Hua K. Uterus Preserving Reposition of Non-Puerperal Uterine Inversion under Laparoscope: A Case Report and Literature Review. *Gynecol Obstet Invest.* 2015;1–4. <http://www.karger.com?doi=10.1159/000366475>
15. Umeononihu OS, Adinma JI, Obiechina NJ, Eleje GU, Udegbumam OI, Mbachu II. Uterine leiomyoma associated non-puerperal uterine inversion misdiagnosed as advanced cervical cancer: A case report. *Int J Surg Case Rep.* Surgical Associates Ltd; 2013 Jan; 4(11):1000–3. <http://www.pubmedcentral.nih.gov/articlerender>
16. Auber M, Darwish B, Lefebure A, Ness J, Roman H. Management of nonpuerperal uterine inversion using a combined laparoscopic and vaginal approach. *Am J Obstet Gynecol.* Elsevier Inc. 2011;204(6):e7–9. <http://dx.doi.org/10.1016/j.ajog.2011.01.024>
17. Case AS, Kirby TO, Conner MG, Huh WK. A case report of rhabdomyosarcoma of the uterus associated with uterine inversion. *Gynecol Oncol.* 2005 Mar; 96(3):850–3. <http://www.sciencedirect.com/science/article/pii/S0090825804009059>