

CZU: 616.381-006-091.8-07-08

DOI: <https://doi.org/10.52692/1857-0011.2023.3-77.45>

TUMORILE MUCINOASE RETROPERITONEALE PRIMARE

Eugen GUȚU¹, dr. hab. în șt. med., prof. univer.,**Ana MIȘINA**², dr. hab. în șt. med.,**Igor MIȘIN**^{1,3}, dr. hab. în șt. med., prof. cerc.¹IP Universitatea de Stat de Medicină și Farmacie „Nicolae Testemițanu”,²IMSP Institutul Mamei și Copilului,³IMSP Institutul de Medicină Urgentă, Chișinău, Republica Moldova*e-mail: mishin_igor@mail.ru*

Rezumat.

Autorii prezintă o trecere în revistă a literaturii de specialitate cu privire la diagnosticul, tratamentul și caracteristicile morfologice ale tumorilor rare – tumorile mucinoase retroperitoneale primare.

Cuvinte cheie: tumori mucinoase chistice retroperitoneale primare, chistadenomul mucinos retroperitoneal, chistadenomul mucinos borderline, chistadenocarcinomul mucinos.

Summary. Primary retroperitoneal mucinous tumors.

The authors present a review of the literature on the diagnosis, treatment and morphological features of rare tumors – primary retroperitoneal mucinous tumors.

Keywords: primary retroperitoneal mucinous cystic neoplasm, retroperitoneal mucinous cystadenoma, borderline mucinous cystadenoma, mucinous cystadenocarcinoma.

Резюме. Первичные ретроперитонеальные муцинозные опухоли.

Авторами представлен обзор литературы по диагностике, лечению и морфологическим особенностям редких новообразований – первичных ретроперитонеальных муцинозных опухолей.

Ключевые слова: первичные ретроперитонеальные кистозные муцинозные опухоли, ретроперитонеальная муцинозная кистаденома, пограничная муцинозная кистаденома, муцинозная кистаденокарцинома.

Tumorile primare care provin din țesuturile moi ale spațiului retroperitoneal sunt neoplasme rare și reprezintă 0.01%–0.2% în structura tuturor neoplasmelor [1, 2]. Aproximativ 70%-80% dintre tumorile retroperitoneale primare demonstrează potențial malign [1]. Tumorile mucinoase retroperitoneale primare (TMRP) sunt neoplasme epiteliale destul de rare și în literatura mondială până în prezent au fost publicate mai puțin de 200 de cazuri [3, 4]. După criteriile patologice, TMRP sunt clasificate în trei categorii: (1) chistadenomul mucinos retroperitoneal; (2) chistadenomul mucinos retroperitoneal limitrof și (3) chistadenocarcinomul mucinos retroperitoneal [3, 4, 5, 6, 7]. Potrivit lui C. Danan C. și coaut. (2020) chistadenomele mucinoase retroperitoneale benigne reprezintă 35.7%, borderline – 13.4% și maligne – 50.9% în structura TMRP [8]. TMRP poate fi localizat oriunde în spațiul retroperitoneal, dar predominant, în 94% din cazuri, tumorile sunt localizate în regiunile laterale ale spațiului retroperitoneal pe ambele părți (1:1) [3, 6].

Histogenia TMRP nu a fost încă suficient studiată, întrucât în condiții normale nu există structuri epiteliale în spațiul retroperitoneal, iar astăzi în lite-

ratură există patru ipoteze ale originii lor: (i) Țesut ovarian ectopic; (ii) Metaplazia celomică (iii) Varianta de teratom monodermic; și (iv) chist de duplicare intestinală (enterogen) [9]. Cele mai frecvent acceptate teorii despre originea TMRP sunt primele două, care explică dezvoltarea lor din țesutul ovarian sau metaplazia epitelului celomic [8, 10]. Următoarele fapte mărturisesc în favoarea originii TMRP din țesutul ovarian: (1) În 94.6% din cazuri, aceste tumori sunt diagnosticate la femei [8]; (2) Din punct de vedere morfologic, tumorile sunt complet identice cu chistadenomele mucinoase ovariene [3, 9, 11, 12]; (3) Detectarea consecventă a exprimării pozitive a receptorilor de estrogen (ER) în țesutul tumoral [8]. A doua teorie cea mai citată este originea TMRP din invaginarea mezoteliului multipotențial și metaplazia mucinoasă ulterioară a acestuia [11, 13].

Chistadenomul mucinos retroperitoneal (CMR) a fost descris pentru prima dată de R.M. Handfield-Jones în 1924 [14] și după S. Frini și coaut. (2022) mai puțin de 60 de cazuri documentate sunt prezentate în literatura străină [15]. Vârsta medie a pacienților cu CMR este de 36 de ani și a variat între 14 și 85 de ani [8]. Principalele manifestări clinice la aceste tu-

mori au fost: dureri abdominale/de spate [9, 10, 11, 12, 15, 16, 17, 18, 19, 20, 21, 22] și masa palpabilă [11, 16, 19, 21]. Cu toate acestea, literatura descrie, de asemenea, depistarea incidentală a CMR în timpul ultrasonografiei programate [3, 6, 23].

Examinarea markerelor oncologice (CA 19-9, CA 125, β -HCG, α -FP, CEA), de regulă, demonstrează nivelul lor normal [6, 11, 12, 16, 18, 19, 21, 22]. Numai în cazuri izolate este o creștere a CEA [20] și CA 19-9 urmată de normalizare după înlăturarea tumorii [3, 18, 20].

La tomografia computerizată (TC), aceste tumori au fost vizualizate ca formațiuni lichide omogene, monocamerale, cu pereți subțiri, cu un contur clar, fără structuri interne și excrescențe papilare, absența unei componente solide, precum și absența semnelor de invazie în organele adiacente, limfadenopatie regională și ascita [3, 6, 9, 10, 11, 15, 16, 17, 19, 20, 21, 22, 23]. În cazuri rare, a fost vizualizată o formațiune chistică cu o singură cameră, cu pereți groși, cu o componentă parietală nodulară (20 mm), fără acumulare de contrast [18, 24]. De asemenea, în observații unice, CMR au fost vizualizate ca formațiuni chistice cu mai multe camere [12]. Conform lui Y.Zhang și coaut. (2020) în 50% din cazuri, la utilizarea metodelor de cercetare radiologică, în pereții CMR pot fi vizualizate calcificări periferice [6].

Imagistica prin rezonanță magnetică (IRM) a evidențiat CMR ca formațiuni chistice cu pereți subțiri, cu un semnal omogen ridicat pe T2W și scăzut pe T1W [9, 17, 20]. Dimensiunea medie a CMR este de 12.65 cm, dar în 19.6% din cazuri există și formațiuni gigantice care depășesc 20 cm [8].

Diagnosticul preoperator corect al CMR, precum și al altor TMRP, prezintă dificultăți semnificative asociate cu următoarele caracteristici clinice, de laborator și imagistice ale tumorilor: (1) Simptome nespecifice chiar și în cazul tumorilor mari; (2) Lipsa testelor de laborator specifice și a markerelor oncologice; (3) Absența anumitor semne radiologice, care determină o interpretare eronată a neoplasmelor vizualizate în favoarea chisturilor renale sau ovariene [3, 12, 19, 25].

Intervenția chirurgicală în CMR este indicată pentru a preveni malignizarea, infecția și complicațiilor compresive (cum ar fi hidronefroza), precum și pentru a stabili un diagnostic definitiv [10, 11, 19, 21]. În majoritatea cazurilor (71.4%), intervențiile chirurgicale pentru aceste tumori sunt efectuate prin laparotomie [8, 9, 15, 16, 18, 20, 21, 22]. În ultimii ani, au apărut tendințe către o utilizare mai largă a tehnologiilor minim invazive – laparoscopia chirurgicală [3, 6, 8, 10, 12, 17, 18, 19, 23]. Principiul principal al intervenției chirurgicale în CMR este excizia completă a unei tumori chistice fără a încălca integri-

tatea acesteia pentru a preveni pătrunderea lichidului intratumoral în țesuturile adiacente și implantarea celulelor tumorale [3, 6, 8, 11, 12, 19, 21, 23].

Macroscopic, CMR sunt formațiuni chistice cu o singură cameră, cu o suprafață netedă, cu conținut lichid vâscos, transparent, incolor sau gălbui [9, 12, 15, 19, 21, 24]. La examinarea lichidului din CMR pentru markerii tumorali, a fost observat un conținut ridicat de CEA și CA125 [17]. La examenul histopatologic, CMR sunt reprezentate de o formațiune chistică cu o capsulă fibroasă subțire (1-3 mm), a cărei suprafață interioară este acoperită cu un epiteliu mucinos columnar unistratificat, cu mucină intracelulară abundentă și nucleii mici localizați bazal în celulele epiteliale. [7, 8, 12, 15, 16, 18, 19, 20, 21, 22, 23, 24, 26], precum și zone de celule mezoteliale deprimate [9, 15, 261]. S-a remarcat absența atipiei, a activității mitotice și a invaziei în stromă. Un număr de rapoarte indică absența țesutului ovarian [8, 10, 18, 19].

Studiile imunohistochemice determină o expresie difuză pronunțată a receptorilor de estrogeni (ER) în epiteliu [8, 26] și pereții tumorii [8, 21] și expresia focală a calretininei în stromă [8]. În prezența celulelor mezoteliale, în ele se determină o reacție pozitivă a calretininei și WT1 [9, 15, 26]. Mai mult, au fost înregistrate expresia pronunțată a BerEP4 [9], MUC1 [16], MUC2 [16, 20], MUC5AC [16, 20], CDX2 [16], CK7 [7, 21, 24, 26], CK17 [26], CA125 [21] în epiteliul mucinos al tumorii. În cazul unui nivel seric crescut al markerului CA 19-9, imunohistochimia a evidențiat expresia sa pozitivă în celulele epiteliale a CMR [18].

Prognosticul pentru CMR este favorabil și nu se observă recidive după tratament chirurgical radical, iar rata de supraviețuire la 5 ani este de 100% [3, 4].

Chistadenomul mucinos retroperitoneal borderline (CMRB) a fost descris pentru prima dată de J. Nagata și coaut. în 1987 [27] și conform S.M. Son și coaut. (2023) în literatură au fost descrise 32 de cazuri ale acestei variante de CMRB [28]. Aceste tumori se caracterizează prin absența semnelor clinice și radiologice specifice care să determine un diagnostic preoperator adecvat, iar patogeneza neoplasmelor și gradul de agresivitate a acestora nu au fost stabilite [7]. CMRB a fost observată predominant la femei (n=26, 81.2%), cu o vârstă medie de aproximativ 40 de ani (de la 22 la 68 de ani) [28].

Principalele simptome clinice în CMRB sunt: dureri în abdomen sau spate [2, 5, 28, 29, 30, 31], mărirea abdomenului [5, 6, 30, 31, 32] și o masă palpabilă în cavitatea abdominală [2, 30, 31, 32; 33]. În cazuri rare, a fost observată o creștere a nivelului serologic al markerelor oncologice (CEA, CA 125, CA 19-9) [29, 33], dar nivelul acestora nu a avut valoare diagnostică sau prognostică [28].

Pentru CMRB, nu există semne radiologice caracteristice (TC, IRM), iar în cele mai multe cazuri aceste tumori sunt reprezentate de formațiuni chistice unice sau multicamerale [2, 5, 25, 29, 31, 32, 33, 34], cu cea mai mare dimensiune de la 3 la 28 cm, cu o componentă solidă (Fig.1 A, B) sau noduli parietali în observații unice [6, 30]. În unele cazuri, se vizualizează calcificarea periferică localizată în peretele tumoral [29]. Implanturile peritoneale, ascita și limfadenopatia sunt absente [2, 5, 29, 30].

Metoda terapeutică de elecție este înlăturarea completă a tumorii fără a încălca integritatea capsulei, pentru a preveni diseminarea celulelor tumorale în țesuturile adiacente [3, 29, 34]. Intervențiile chirurgicale se efectuează atât în mod deschis, prin laparotomie [2, 5, 25, 30, 31, 32, 33], cât și folosind laparoscopia chirurgicală [25, 28, 29, 34] și tehnologia robotică [25]. În unele cazuri, volumul intervenției chirurgicale a fost extins datorită histerectomiei cu salpingo-ovarectomie bilaterală [7].

Macropreparatul tumorii în secțiune este reprezentată de o formațiune chistică sau chistic-solidă cu conținut mucinos lichid sau păstos [2, 28, 29, 30, 31, 33, 34]. La examenul histologic al CMRB, peretele interior al tumorii chistice a fost căptușit cu epiteliu mucinos atipic de tip intestinal (2-3 straturi celulare), constând din celule columnare și caliciforme fără invazie stromală [2, 5, 28, 29, 30, 31, 32, 34]. Celulele tumorale sunt caracterizate prin atipii nucleare ușoare până la moderate, activitatea mitotică este absentă sau apar mitoze unice. Au fost determinate zone de calcificare și acumulări de extravazări de mucină în peretele tumoral [2, 28, 29, 33, 34].

Imunohistochimia arată expresie pozitivă în epitelul tumoral pentru CK7 [5, 6, 28, 29, 31, 34], CK19 [29], CK20 [2, 5, 6, 28, 29, 31, 33, 34], pankeratină [2], CEA [2, 6, 31], CDX2 [28, 33, 34] și Ki-67-30-50% [2]. În același timp, a fost observată o reacție negativă la receptorii WT1, PAX8, inhibină și estrogeni [29, 31, 33]. Din punct de vedere al tabloului histopatologic, CMRB este complet similar cu tumorile mucinoase ovariene borderline [28, 32].

Chimioterapia adjuvantă nu a fost utilizată din cauza rezecției R0 și lipsa recidivării tumorii. Prognosticul acestor tumori rămâne incert din cauza rarității patologiei și perioada de urmărire după tratamentul chirurgical este mai mică de doi ani în majoritatea cazurilor (75%) [28].

Cistadenocarcinomul mucinos retroperitoneal (CACMR) CACMR a fost descris pentru prima dată de GW Douglas și coaut. în 1965 [35] și conform lui Y. Morihisa și coaut. (2023) în literatura de specialitate au fost descrise 86 de cazuri ale acestei variante de CACMR [36]. CACMR au fost semnificativ mai frecvente la femei decât la bărbați - 77 (89.5%) față de 9 (10.5%) [36]. Pe baza unei meta-analize a 78 de cazuri de CACMR publicată de E. Myriokefalitaki și coaut. [37] au constatat că vârsta bărbaților o depășește semnificativ pe cea a femeilor - 62.2 ± 6.5 ani vs 42 ± 1.6 ani ($p=0,005$). Conform unei revizuirii sistematice a literaturii de către B. Pellegrino și coaut. [38] a constatat că 46% din observațiile CACMR provin din țările asiatice.

În literatura străină au fost publicate observații sporadice ale CACMR în timpul sarcinii [39, 40, 41, 42]. Aceste tumori au fost diagnosticate la 20 de săp-

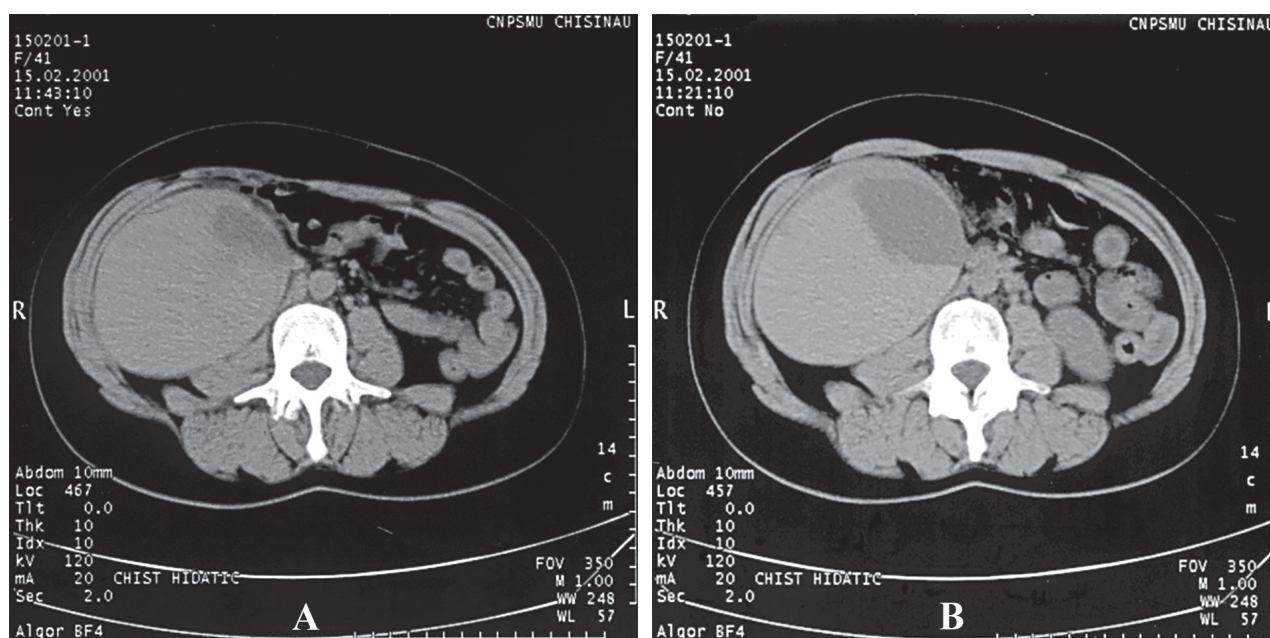


Figura 1 (A, B). Tomografie computerizată (proiecție axială): Formațiune chistică (21x16 cm, 25-60 HU) în spațiul retroperitoneal din dreapta. Publicat anterior [30]

tămâni de gestație [41], 28 de săptămâni [39] și 29 de săptămâni [40] în timpul ecografiei de rutină, precum și în timpul operației cezariene [42]. Intervențiile chirurgicale pentru aceste tumori au fost efectuate în timpul sarcinii [39, 40] și în perioada postpartum [41, 42].

Principalele manifestări clinice în CACMR au inclus mase tumorale palpabile (42.9%), dureri abdominale (23.8%) și mărirea abdomenului (21.4%) [37]. La determinarea markerelor tumorali (CEA, CA 125, CA 19-9), în unele cazuri s-a înregistrat creșterea acestora [36, 40, 43, 48, 50, 51]. Cu toate acestea, nivelul markerelor tumorali nu se corelează cu dimensiunea tumorii și, de asemenea, nu are valoare prognostică pentru dezvoltarea recidivelor tumorale și supraviețuirea [37]. Conform datelor CT, formațiunile chistice simple sau multiple cu pereți subțiri cu contururi clare au fost vizualizate cu noduri parietale solide sau chisturi fiice și calcificări în perete [36, 43, 46, 47, 48]. RMN-ul a evidențiat o tumoră chistică cu noduli parietali, un semnal izointens pe T1W și un semnal ridicat pe T2W [36, 43, 44, 50]. Tomografia cu emisie de pozitroni arată o absorbție crescută a 18F-FDG în tumoră și în special în nodulii solide parietali [50].

Principalele manifestări clinice în CACMR au inclus formațiuni tumorale palpabile (42.9%), dureri abdominale (23.8%) și mărirea abdomenului (21.4%) [37]. La determinarea markerelor tumorali (CEA, CA 125, CA 19-9), în unele cazuri s-a înregistrat creșterea acestora [36, 40, 43, 48, 50, 51]. Cu toate acestea, nivelul markerelor tumorali nu se corelează cu dimensiunea tumorii și, de asemenea, nu are valoare prognostică pentru dezvoltarea recidivelor tumorale și supraviețuirea [37]. Conform datelor TC, se vizualizează formațiuni chistice simple sau multiple cu pereți subțiri cu contururi clare cu noduli solizi parietali sau chisturi fiice și calcificări în perete [36, 43, 46, 47, 48]. La IRM se evidențiază o tumoră chistică cu noduli parietali, cu un semnal izointens pe T1W și un semnal înalt pe T2W [36, 43, 44, 50]. Tomografia cu emisie de pozitroni arată o absorbție crescută a 18F-FDG în tumoră și în special în nodulii solizi parietali [50].

Principiul de bază al tratamentului chirurgical este îndepărtarea completă a tumorii fără a-i încălca integritatea, în principal prin abord laparotomic [37, 38, 39, 40, 41, 42, 43, 44, 49]. Cu toate acestea, rupturi tumorale intraoperatorii au fost observate în 13% din cazuri [38]. Rolul diseceției ganglionilor limfatici în tratamentul chirurgical al CACMR nu a fost stabilit și se realizează după principiul *case-by-case* [50]. Doar publicațiile rare descriu utilizarea tratamentului laparoscopic al acestor tumori [45, 46, 50].

Dimensiunea maximă medie a tumorii la examenul histopatologic a fost de 15 cm [37, 38] sau a depășit 10 cm în 85.5% din cazuri [37]. La secțiunea unui

macropreparat, tumora îndepărtată este reprezentată de o formațiune unicamerală cu noduli parietali mari de până la 12 mm în diametru [43, 47]. Examenul histopatologic a evidențiat multiple formațiuni cavitare acoperite cu epiteliu de tip intestinal: de la adenom la o variantă invazivă de adenocarcinom [43]. O serie de rapoarte au remarcat prezența mitozelor de până la 19/10 HPF, precum și a mitozelor atipice [47].

Imunohistochimia a evidențiat expresia pozitivă a CK7 [36, 40, 43, 47, 48, 50, 51], CEA [43], CA 19-9 [44], AE1/3 [36], Ki67 \approx 15% [51], o reacție slabă la p53 [48] și reacție negativă la CK20 [36, 43, 48, 50] în celulele tumori. De asemenea a fost înregistrată o reacție negativă la receptorii de progesteron (PR) și estrogen (ER) în celulele stromale asemănătoare cu ovarele [43, 44].

Experiența colectivă acumulată în tratamentul CACMR ne permite să o considerăm o variantă agresivă a TMRP cu un potențial înalt de recidivă [43, 44]. Astfel, frecvența recidivei locale în această variantă de TMRP este \approx 40% și, în plus, sunt descrise cazuri de metastază tumorală la organe îndepărtate, inclusiv ficatul [7], coloana/oasele [36, 44], glanda suprarenală [7] și mediastinul [7].

Rolul chimioterapiei adjuvante în tratamentul CACMR nu a fost stabilit și, ca urmare, a fost efectuat selectiv. Cele mai frecvente scheme de chimioterapie au fost: ciclofosmidă + adriamicină, ciclofosmidă, adriamicină + cisplatină, cisplatină, carboplatină + paclitaxel, carboplatină [43, 44, 45, 49].

Recidivele CACMR au fost observate în 40% din cazuri și ratele de supraviețuire la 1, 2 și 5 ani au fost de 85.9%, 80.7% și, respectiv, 75.4% [37]. În același timp, H.Tokai și coaut. (2017) au descris observația unei paciente de 29 de ani cu o supraviețuire de 80 de luni după îndepărtarea chirurgicală a tumorii fără metastaze la distanță și fără recidivă locală ulterioară [43].

Astfel, TMRP aparțin patologiei orfane și includ o gamă largă de neoplasme: de la benigne (cistoadenom mucinos retroperitoneal) la maligne (cistadenocarcinom mucinos retroperitoneal). Semnele clinice și radiologice la aceste tumori sunt nespecifice, iar diagnosticul corect preoperator prezintă anumite dificultăți. Principala metodă de tratament este îndepărtarea chirurgicală cu rezecție R0 și păstrarea integrității tumorii. Rolul tratamentului adjuvant nu a fost încă stabilit și este necesară acumularea în continuare a materialului clinic suficient pentru a stabili regimuri de chimioterapie optime pentru această patologie.

Bibliografie

1. Sassa N. *Retroperitoneal tumors: Review of diagnosis and management*. Int J Urol. 2020;27(12):1058-1070.
2. Falidas E, Konstandoudakis S, Vlachos K, Archontovasilis F, Mathioulakis S, Boutzouvis S, Villias C.

- Primary retroperitoneal mucinous cystadenoma of borderline malignancy in a male patient. Case report and review of the literature.* World J Surg Oncol. 2011;9:98.
3. 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):433-40.
 4. Wolf B, Kunert C, Horn LC, Einkenkel J. *Management of primary retroperitoneal mucinous tumors: A retrospective meta-analysis.* Int J Gynecol Cancer. 2017;27(6):1064-1071.
 5. Kavanagh TR, Nwaoduah N, Richard SD, Bowne WB, Rosenblum NG. *Surgical resection of a rare primary retroperitoneal mucinous borderline tumor of Müllerian origin: A case report.* Gynecol Oncol Rep. 2022;44:101104.
 6. Zhang Y, Yang J, Chen Z, Sun J, Wang P. *Laparoscopic resection and pre-operative imaging of primary retroperitoneal mucinous neoplasms: A retrospective case series.* Cancer Manag Res. 2020;12:5451-5460.
 7. Roma AA, Malpica A. *Primary retroperitoneal mucinous tumors: a clinicopathologic study of 18 cases.* Am J Surg Pathol. 2009;33(4):526-33.
 8. Danen C, Leschke T, Bassi D, Sharma R. *First report of retroperitoneal mucinous cystadenoma in a patient with hirsutism.* Clin Med Res. 2020;18(1):27-32.
 9. Afzal Z, Stupalkowska W, Mahler-Araujo MB, Bowden D, Davies RJ. *A case of successful surgical management of primary retroperitoneal mucinous cystadenoma.* J Surg Case Rep. 2020;2020(3):rjaa045.
 10. Pesapane F, Van Renterghem S, Patella F, De Visschere P, Villeirs G. *A case report and a literature review of primary retroperitoneal mucinous cystadenoma: the importance of imaging in diagnosis and management.* Future Oncol. 2018;14(28):2923-2931.
 11. Nardi WS, Dezano P, Quildrian SD. *Primary retroperitoneal mucinous cystadenoma.* Int J Surg Case Rep. 2017;39:218-220.
 12. Lee SE, Oh HC, Park YG, Choi YS, Kim MK. *Laparoscopic excision of primary retroperitoneal mucinous cystadenoma and malignant predicting factors derived from literature review.* Int J Surg Case Rep. 2015;9:130-3.
 13. Tomisaki I, Matsuyama A, Jotatsu M, Yamamura S, Onishi R, Fujimoto N. *Primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma with transition from the mesothelium.* IJU Case Rep. 2020;3(4):137-140.
 14. Handfield-Jones R M. *Retroperitoneal cysts: Their pathology, diagnosis, and treatment.* Br J Surg. 1924;12(45):119-134.
 15. Frini S, Ben Hammouda S, Bellalah A, Chebanne C, Bchir S, Njim L, Zakhama A, Hadhri R. *Primary retroperitoneal mucinous cystadenoma: A case report with review of literature.* Ann Med Surg (Lond). 2022;84:104818.
 16. Knezevic S, Ignjatovic I, Lukic S, Matic S, Dugalic V, Knezevic D, Micev M, Dragasevic S. *Primary retroperitoneal mucinous cystadenoma: A case report.* World J Gastroenterol. 2015;21(17):5427-31.
 17. Koyama R, Maeda Y, Minagawa N, Shinohara T, Hamada T. *Laparoscopic resection of a primary retroperitoneal mucinous cystadenoma.* Case Rep Gastroenterol. 2019;13(1):159-164.
 18. Koyama R, Maeda Y, Minagawa N, Shinohara T, Hamada T. *A rare case of primary retroperitoneal cystadenoma with a mural nodule and high serum CA19-9 level.* Am J Case Rep. 2019;20:833-837.
 19. Lee SY, Han WC. *Primary retroperitoneal mucinous cystadenoma.* Ann Coloproctol. 2016;32(1):33-7.
 20. Nam YJ, Kim TN, Kim KH, Gu MG, Lee JY. *A case of primary retroperitoneal mucinous cystadenoma arising from the retropancreatic area.* Korean J Gastroenterol. 2014;63(3):187-90.
 21. Taherinezhad Ledari A, Kamrani G, Rouhi T, Nikbakhsh N. *Primary retroperitoneal mucinous cystadenoma in a female patient: A case report.* Int J Surg Case Rep. 2022;94:107099.
 22. Zevallos Quiroz JC, Toran Monserrat FJ, de Santiago Urquijo FJ, Cormenzana Lizarribar EP, Arrinda Yeregui JM. *Primary retroperitoneal mucinous cystadenoma.* Cir Esp. 2016;94(6):365-6.
 23. 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.
 24. Vicario FJ, Estalella L, Hermoso J, Díaz F, Gris P. *Primary retroperitoneal mucinous cistoadenoma. An uncommon tumour in a young woman.* Cir Esp. 2016;94(4):243-5.
 25. Zhang J, Zeng Q, Kang J, Chen J, Luo G, Liang Y. *Primary retroperitoneal mucinous cystic tumour of borderline malignancy mimicking kidney duplicate: cases report and literature review.* BMC Urol. 2023;23(1):32.
 26. Van Treeck BJ, Horton RK, Lee HE, Rosty C, Pai RK, Graham RP. *Mesenteric and retroperitoneal mucinous cystic neoplasms: A case series.* Int J Surg Pathol. 2021;29(6):606-614.
 27. Nagata J, Yamauchi M, Terabe K, Watanabe T, Ichihara H, Takagi H, Nakashima N. *A case of retroperitoneal mucinous cystadenoma of borderline malignancy.* Nihon Geka Gakkai Zasshi. 1987;88(4):489-92.
 28. Son SM, Woo CG, Yun SJ, Lee OJ. *Primary retroperitoneal mucinous cystic neoplasm of borderline malignancy with KRAS and GNAS co-mutation: a case report.* J Int Med Res. 2023;51(5):3000605231172469.
 29. Chaves MM, Castro R, Mota-Vieira L, Carneiro V. *A rare case of a primary retroperitoneal mucinous cystic tumour with borderline malignancy and literature review.* BMJ Case Rep. 2019;12(9):e230708.
 30. Gutsu E, Mishin I, Gagauz I. *Primary retroperitoneal mucinous cystadenoma. A case report and brief review of the literature.* Zentralbl Chir. 2003;128(8):691-3.
 31. Haeri H, Vosooghi B, Asadi Amoli F. *Primary retroperitoneal mucinous tumor of low malignant potential in a Persian woman.* Acta Med Iran. 2014;52(9):717-20.

32. Manrai M, Takesita N, Ishida H, Takashima A, Adachi T, Sasaki I, Yokokawa K, Tokuyama W, Hiruta N, Kinoshita T. *Primary retroperitoneal mucinous cystic tumors with borderline malignancy: a case report and literature review*. Clin Pract. 2015;5(1):722.
33. Vargas AC, Lam V, P'ng CH. *A rare case of primary retroperitoneal mucinous neoplasm in a male patient*. Pathology. 2015;47(4):384-6.
34. Mattei J, Kim FJ, Phillips J, Zhelnin KE, Said S, Sehr D, Molina WR. *Male primary retroperitoneal mucinous cystadenoma*. Urology. 2013;82(1):e1-2.
35. Douglas GW, Kastin AJ, Huntington RW Jr. *Carcinoma arising in a retroperitoneal muellerian cyst, with widespread metastasis during pregnancy*. Am J Obstet Gynecol. 1965;91:210-6.
36. Morihisa Y, Urai S, Iwagami H, Shimoyama M, Ogino S, Terashita T, Morimura H, Akamatsu T, Uenoyama Y, Yamashita Y. *A case of primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma during long-term administration of infliximab for the treatment of Crohn's disease*. Intern Med. 2023 May 10. doi: 10.2169/internalmedicine.1593-23.
37. Myriokefalitaki E, Luqman I, Potdar N, Brown L, Steward W, Moss EL. *Primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma (PRMCa): a systematic review of the literature and meta-analysis*. Arch Gynecol Obstet. 2016;293(4):709-20.
38. Pellegrino B, Sikokis A, Bersanelli M, Leonetti A, Leonardi F, Di Meglio G, Buti S. *Primary retroperitoneal cystoadenocarcinoma: A systematic review*. Gynecol Obstet Invest. 2016;81(5):385-93.
39. Kashima K, Yahata T, Fujita K, Tanaka K. *Primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma associated with pregnancy*. Int J Gynecol Cancer. 2008;18(5):908-12.
40. Hanhan HM, Gungorduk K, Ozdemir İA, Gokcu M, Sancı M, Ayaz D, Özeren M. *Primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma during pregnancy*. J Obstet Gynaecol. 2014;34(6):535-8.
41. 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.
42. Linter-Kapišinská M, Majernik J, Ryška A, Ninger V. *Primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma in pregnancy - case report*. Rozhl Chir. 2021;100(7):357-360.
43. Tokai H, Nagata Y, Taniguchi K, Matsumura N, Kitasato A, Tokunaga T, Takeshita H, Kuroki T, Maeda S, Ito M, Fujioka H. *The long-term survival in primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma: a case report*. Surg Case Rep. 2017;3(1):117.
44. Kamiyama H, Shimazu A, Makino Y, Ichikawa R, Hobo T, Arima S, Nohara S, Sugiyama Y, Okumura M, Takei M, Miura H, Namekata K, Tsumura H, Okada M, Takase M, Matsumoto F. *Report of a case: Retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma with rapid progression*. Int J Surg Case Rep. 2015;10:228-31.
45. Kurita T, Nakajima K, Koi C, Matsuura Y, Hachisuga T. *Management of a primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma: case report*. Eur J Gynaecol Oncol. 2014;35(2):163-6.
46. Shiau JP, Wu CT, Chin CC, Chuang CK. *Long-term survival after hand-assisted laparoscopic approach of primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma in male: case report and review of literature*. Eur Surg. 2013;45(2):106-109.
47. Park S, Kim HS. *Primary retroperitoneal mucinous carcinoma with carcinosarcomatous mural nodules: A case report with emphasis on its histological features and immunophenotype*. Diagnostics (Basel). 2020;10(8):580.
48. Zanoni D, Sikokis A, Bersanelli M, Gnetti L, Buti S. *Retroperitoneal cystoadenocarcinoma: a case report with a literature review*. Acta Biomed. 2015;86(1):97-105.
49. Cupp JS, Illeck J, Rahbar N, Rettenmaier MA, Goldstein BH. *A rare case of primary retroperitoneal mucinous adenocarcinoma: a case report*. J Reprod Med. 2013;58(1-2):85-8.
50. Dong A, Zhai Z, Wang Y, Zuo C. *MRI, enhanced CT, and FDG PET/CT in primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma*. Clin Nucl Med. 2015;40(1):50-3.
51. Khurana A, Mukherjee U, Singaravel S. *Primary retroperitoneal mucinous cystadenocarcinoma in a male patient*. Indian J Pathol Microbiol. 2016;59(2):229-231.