

Female adnexal Tumour of probable Wolffian Origin (FATWO): Literaturübersicht

Female Adnexal Tumour of Probable Wolffian Origin (FATWO): Review of the Literature



Autoren

Theresa Barbara Hübner¹, Michael Schwab¹, Elena Hartmann², Doris Mayr³, Annette Thurner⁴, Thorsten Bley⁴, Achim Wöckel¹, Daniel Herr¹

Institute

- 1 Department of Obstetrics and Gynaecology, Würzburg University Medical Centre, Würzburg, Germany
- 2 Department of Pathology, University of Würzburg and Comprehensive Cancer Center (CCC) Mainfranken, Würzburg, Germany
- 3 Institute of Pathology, Ludwig-Maximilians-University Munich, Munich, Germany
- 4 Department of Diagnostic Radiology, Würzburg University Medical Centre, Würzburg, Germany

Schlüsselwörter

FATWO, Adnextumor, Borderlinetumor

Key words

FATWO, adnexal tumour, borderline tumour

eingereicht 21.7.2018

revidiert 11.9.2018

akzeptiert 18.9.2018

Bibliografie

DOI <https://doi.org/10.1055/a-0746-8985>

Geburtsh Frauenheilk 2019; 79: 281–285 © Georg Thieme

Verlag KG Stuttgart · New York | ISSN 0016-5751

Korrespondenzadresse

Theresa Barbara Hübner

University Hospital

Josef-Schneider-Straße 4, 97080 Würzburg

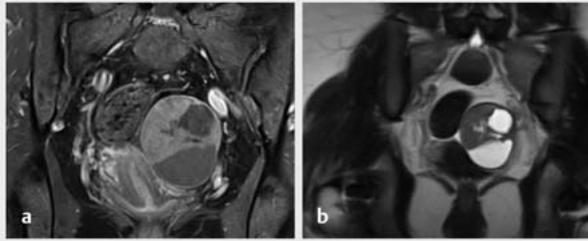
huebner_t1@ukw.de

ZUSAMMENFASSUNG

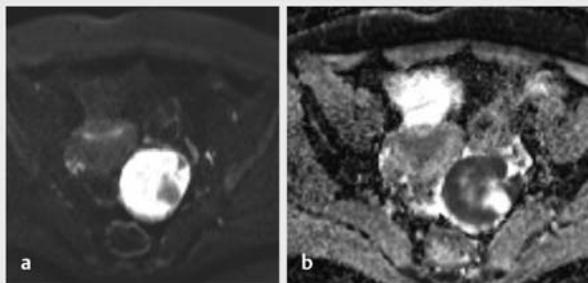
FATWO (female adnexal tumour of probable Wolffian origin) bezeichnet einen seltenen Tumor der weiblichen Adnexe, der weltweit in knapp 80 Fällen beschrieben wurde und dessen Ursprung vermutlich in den Residuen der Wolff'schen Gänge liegt. Bei 10 bis 20 Prozent der Patientinnen zeigte sich im Verlauf eine Metastasierung oder ein Rezidiv, weshalb dem FATWO ein malignes Potenzial zugeschrieben wird. Aufgrund der kleinen Fallzahl existiert keine klare Therapieempfehlung. Methode der Wahl ist derzeit eine operative Sanierung mit Hysterektomie und Adnexektomie. Der Nutzen von Radio- und Chemotherapien ist nicht eindeutig, vereinzelt wurden Therapieversuche mit Imatinib bei CD117-Positivität oder Therapieversuche auf endokriner Basis unternommen. Diese Arbeit zeigt eine Literaturübersicht über Epidemiologie, bildgebende und histopathologische Diagnosemerkmale sowie Therapieoptionen dieser seltenen Tumorform.

ABSTRACT

FATWO (female adnexal tumour of probable Wolffian origin) denotes a rare tumour of the female adnexa which has been described in nearly 80 cases worldwide and which presumably originates in the remains of the Wolffian ducts. In 10 to 20 percent of patients, a metastasis or recurrence was seen subsequently and for this reason, a malignant potential is attributed to the FATWO. Because of the small number of cases, there is no clear therapeutic recommendation. The method of choice currently is surgical treatment with hysterectomy and adnexectomy. The benefit of radio- and chemotherapies is not clear and a small number of treatment attempts with imatinib have been made in cases of CD117 positivity or treatment attempts on an endocrine basis. This work provides an overview of the literature on epidemiology, imaging and histopathological diagnostic features as well as therapeutic options of this same tumour form.



► **Abb. 1** MRT Becken in koronaler Ebene. Raumforderung im linken Unterbauch dorsolateral zwischen Uterus und linkem Ovar. Es zeigt sich das „Rim-Sign“ (signalarmer, den Tumor umrandender Saum). **a** koronale fettgesättigte T1-gew. Sequenz nach i. v. Kontrastmittelgabe; **b** koronale T2-gewichtete Sequenz.



► **Abb. 2** MRT Becken in transversaler Ebene. Raumforderung im linken Unterbauch, charakteristisch für die hohe Zellularität des FATWOs zeigt sich im linken Bild (a) der Tumor hyperintens in der DWI-Sequenz bei hohen b-Werten (b800); rechts (b) entsprechend niedriges Signal in der ADC-Map.

Einleitung

Bei dem sogenannten Female adnexal Tumour of probable Wolffian Origin (FATWO) handelt es sich um eine sehr seltene Form eines weiblichen Adnextumors. Weltweit sind bis heute nur circa 80 Fälle in der Literatur beschrieben [1]. Die meisten dieser Fälle zeigten ein benignes Verhalten, einige jedoch auch einen aggressiven klinischen Verlauf, sodass dem FATWO aktuell ein zumindest geringes malignes Potenzial zugeschrieben wird. Im Dezember 2016 stellte sich eine 33-jährige Patientin, Nulligravida mit bislang unerfülltem Kinderwunsch, mit unklarem Adnexbefund in unserer Klinik vor, der in der abschließenden Diagnostik einen FATWO zeigte. Anhand dieses klinischen Falles soll im Folgenden eine Literaturübersicht über Diagnostik, Therapie und Prognose dieser Erkrankung gegeben werden.

Epidemiologie und Lokalisation

1973 wurde von Kariminejad et al. erstmals eine Tumorform der weiblichen Adnexe beschrieben, deren Ursprung des morphologischen Aspekts wegen in den Residuen der Wolff'schen Gänge vermutet wurde. Diese finden sich embryologisch bedingt auf der

Strecke zwischen Ovarhilus über Mesosalpinx und laterale Uteruswand bis zum äußeren oberen Vaginaldrittel. Am häufigsten treten diese Tumoren parametran oder in der Tube auf [2], es wurden auch Fälle beschrieben, in denen ein FATWO im Ovar auftrat [3]. In einem Review von Heatly et al. aus dem Jahre 2009 wurden 63 Fälle weltweit untersucht. Bei 11,1% (7 Patientinnen) der Patientinnen kam es zu Rezidiven oder Residuen des Tumors, 3 Patientinnen (4,8%) verstarben an der Erkrankung [4]. Das Erkrankungsalter liegt zwischen 15 und 81 Jahren, der Median bei 50 Jahren [5].

Diagnostik

Eine japanische Veröffentlichung untersucht 5 Fälle eines FATWOs, in denen, retrospektiv ausgewertet, die präoperative Bildgebung mittels Magnetresonanztomografie (MRT) einen Hinweis auf die Tumorentität geben konnte. Hier liegen im FATWO histologisch glatte Muskelzellen vor, die sich in der T2-Wichtung der MRT-Bildgebung als signalarmer Saum darstellen, die zwar bei anderen benignen Ovarialprozessen auch vorliegen können, beim Ovarialkarzinom dahingegen nicht vorkommen [6]. Die MRT-Bildgebung unserer Patientin wurde nach Erhalt des histopathologischen Ergebnisses erneut auf die genannten Merkmale untersucht, die beschriebenen bildmorphologischen Kriterien ließen sich auch in unserem Fall finden.

Nach sonografischem Verdacht auf eine zystisch-solide Raumforderung der Adnexe bei unauffälligen Tumormarkern (Ca-125 bei 23,1 U/ml, CEA bei 0,3 µg/l) wurde aufgrund der ungewöhnlichen Struktur der Raumforderung zur operativen Planung eine MRT-Bildgebung des Beckens durchgeführt.

In der linken Adnexloge, dorsolateral zwischen einem unauffällig konfigurierten Uterus und linkem Ovar stellte sich eine 6,0 × 5,0 × 5,6 cm messende, lobulierte gemischt zystisch-solide Raumforderung dar. Es zeigte sich ein 1 mm breiter, in der T2-Wichtung hypointenser Randsaum mit starker Kontrastmittelanreicherung (► **Abb. 1** und **2**).

Die soliden Tumoranteile zeigten nach intravenöser Kontrastmittelgabe eine moderate Kontrastmittelaufnahme und stellten sich in der diffusionsgewichteten Aufnahme stark diffusionsgestört als Hinweis auf eine hohe Zellularität dar.

Es wurde die Indikation zur laparoskopischen Tumorentfernung und Chromopertubation gestellt. Intraoperativ zeigte sich im Bereich des kleinen Beckens eine halbf Faustgroße zystische paratubare Raumforderung links (► **Abb. 3**). Tuben und Ovarien beidseits zeigten sich indes beidseits unauffällig. Auf der rechten Seite erfolgte bei der Chromopertubation ein prompter Blauaustritt, links blieb dieser aus. Bei der laparoskopischen Exstirpation des Befundes unter Einsatz eines Bergesacks entleerte sich teilweise liquides, teilweise talgiges Sekret in den Bergebeutel.

Histologisch können FATWOs ein mannigfaltiges Bild zeigen; häufig beschrieben werden ein Nebeneinander verschiedener Komponenten, wie solide oder diffuse Wachstumsmuster mit einzelnen Vakuolen oder Tubuli (► **Abb. 4**). Kribriiforme Wachstumsmuster werden ebenso genannt wie tubuläre oder zystische Strukturen. Häufig umgibt eine fibröse Kapsel den Tumor, die von neoplastischen Zellen durchzogen sein kann. In „Blausteins Pathology of the female genital Tract“ finden sich für den FATWO

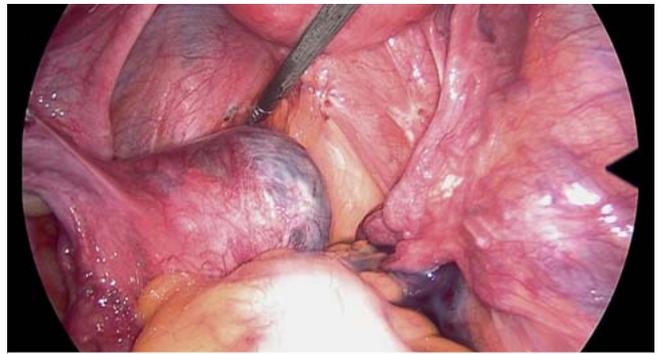
folgende immunhistochemische Merkmale: Positivität für CD10 und Zytokeratine (die Panzytokeratine Antikörper AE1/3 und Cam5.2 sowie auch Zytokeratin 7). Darüber hinaus sind auch Vimentin sowie als Marker des Keimstrangstromas Calretinin und Inhibin in den meisten Fällen positiv, wohingegen eine Reaktivität für den Östrogen- und Progesteronrezeptor seltener beschrieben wird [7, 8].

Im Hinblick auf die Zytomorphologie wirkten die Tumorzellen teils epitheloid, teils spindelzellig mit runden bis ovalären, relativ gleichmäßigen Zellkernen und nur fokal schwach erkennbaren Nukleoli. In den immunhistochemischen Zusatzuntersuchungen zeigte sich eine konsistente Positivität für Inhibin und eine unregelmäßige, diffuse Reaktivität für SF1 sowie eine partielle Positivität für Calretinin und CD56. In der Synaphophysin-Färbung zeigten allenfalls einzelne Tumorzellen eine ganz schwache Reaktivität und die Chromogranin-Immunhistochemie fiel negativ aus. Weiterhin zeigte sich eine Positivität der Tumorzellen für CD99 und WT1. Auch der Panzytokeratinmarker AE1/3 reagierte über größere Abschnitte in den Tumorzellen positiv, ferner fand sich auch eine deutliche Positivität für Zytokeratin 19, wohingegen die Färbungen gegen Zytokeratin 7 und EMA negativ ausfielen, wie auch für Actin. Darüber hinaus fand sich eine fokale Reaktivität des Tumors für CD10. Die Tumorzellen blieben negativ in der Färbung für den Östrogenrezeptor und die Färbung für den Progesteronrezeptor war nur an wenigen Stellen schwach positiv. Die proliferative Aktivität (Ki67-Immunhistochemie) war sehr niedrig (<5%). Eine zusätzlich noch durchgeführte Immunhistochemie für CD117/c-kit fiel in den Tumorzellen negativ aus.

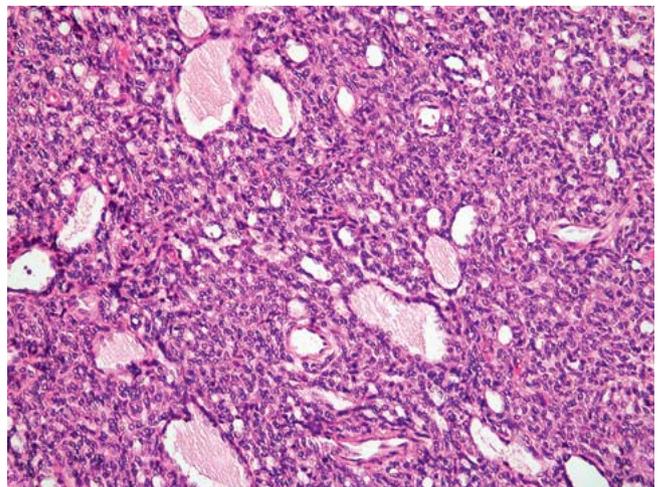
Weiterhin wurde zur Bestimmung des c-KIT-Mutationsstatus noch eine Mutationsanalyse mittels Next Generation Sequencing (Ion Torrent PGM) unter Verwendung des Ion AmpliSeq™ Cancer Hotspot Panel v2 durchgeführt. In den ausgewerteten Exonen des c-KIT-Gens (Exon 9, 11, 13 und 17) zeigten sich keine genetischen Alterationen, entsprechend wildtypischen, unmutierten Sequenzen.

Darüber hinaus wurde auch die für adulte GCT übliche (>90%) FOXL2-Mutation überprüft und konnte nicht nachgewiesen werden.

Differenzialdiagnostisch kommt wie in unserem Fall zunächst vermutet ein adulter Granulosazelltumor (GCT) in Betracht, welcher viele morphologische und immunhistochemische Parallelen zum FATWO aufweist. Wegweisend ist neben den bei GCTs histologisch häufig deutlicher zu findenden Kernkerben („nuclear grooves“) und der selteneren kräftigen Zytokeratin-Positivität insbesondere die Klinik, speziell die exakte Primärlokalisation des Tumors außerhalb des Ovars im Bereich des ehemaligen Wolff-Gang-Systems. Parametrane adulte Granulosazellumoren sind zwar vereinzelt in der Literatur beschrieben, hierbei handelt es sich jedoch um echte Raritäten mit 8 in der Literatur beschriebenen Fällen [9]. Ein negativer Befund in der FOXL2-Mutationsanalyse macht einen adulten Granulosazelltumor weiter unwahrscheinlich. In wenigen Fällen wurden FATWOs auf c-kit-Positivität (CD117) und Mutationen im c-kit-Gen untersucht, die keine einheitlichen Ergebnisse hervorbrachten [5, 10–12].



► **Abb. 3** Intraoperatives Bild des FATWOS: an der Spitze der Fasszange zeigt sich links parametran, dorsal der Tube die etwa halbf Faustgroße Raumforderung. Oben im Bild der Uterus.



► **Abb. 4** Mikroskopisches Bild des FATWO, HE-Färbung, Vergrößerung 1:200, gut erkennbar ist das netzartig-löcherige Wachstumsmuster des Tumors und die hohe Zellularität.

Therapie

Aufgrund der Seltenheit dieser Tumorform gibt es keine eindeutigen Therapieempfehlungen. Derzeit ist die chirurgische Tumorentfernung die Methode der Wahl. Dabei wird meist eine Hysterektomie mit beidseitiger Salpingo-Oophorektomie durchgeführt, aber auch je nach Alter und Lebenssituation der Patientin wurde teilweise ein fertilitätherhaltendes Vorgehen gewählt. Das Rezidivrisiko hier scheint jedoch höher zu sein. Die operative Therapie wurde nahezu in allen Fällen mittels Laparotomie durchgeführt [13].

Nach Erhalt des histologischen Ergebnis wurde bei unserer Patientin ein Staging mittels Computertomografie von Thorax und Abdomen durchgeführt. Hier zeigte sich kein Hinweis auf viszerale oder lymphogene Metastasenbildung. In der Leber zeigte sich eine hypodense Läsion, die in der weiteren Abklärung sonografisch als Hämangiom eingestuft wurde. Bei bestehendem ausgeprägten Kinderwunsch wurde mit der Patientin zunächst eine linksseitige Salpingektomie besprochen. Die Durchführung dieser

Operation ergab histopathologisch noch einen 1 mm großen Tumoranteil paratubar links im Bereich der Mesosalpinx. Der Patientin wurde zur engmaschigen Nachsorge sowie einer Komplettierungsoperation nach Abschluss der Familienplanung geraten. Anfang Juni 2017 stellte sich die Patientin mit spontan eingetretener intakter Frühschwangerschaft bei uns vor. Die Patientin wurde im Februar 2018 mit 41 + 0 Schwangerschaftswochen mittels Sponantpartus nach spontanem Wehenbeginn komplikationslos entbunden. Es wurde erneut die Komplettierungsoperation empfohlen, die bei aktuell noch nicht abgeschlossener Familienplanung derzeit jedoch von der Patientin noch nicht gewünscht wird.

Für nur wenige Fälle (jeweils 3 Patientinnen) ist eine adjuvante Radiotherapie oder platinbasierte Chemotherapie beschrieben, je 1 Patientin aus jeder Gruppe entwickelte ein Rezidiv [3].

In den wenigen berichteten Fällen eines lokalen Rezidivs scheint das operative Tumorbulking den höchsten Stellenwert zu besitzen, während der Nutzen einer Chemotherapie und Radiotherapie als gering angesehen wird, wobei die Kombination eines Platinderivats mit Paclitaxel am wirksamsten zu sein scheint [5, 10, 12].

Für eine Chemotherapie im Rezidivfall (10 berichtete Fälle) wurden Cisplatin/Cyclophosphamid, Etoposid/Ifosfamid/Carboplatin, Cisplatin/Paclitaxel, Carboplatin/Paclitaxel mit Leuprorelin sowie Irinotecan mono appliziert. Zu den Strahlentherapien finden sich in den veröffentlichten Fällen keine detaillierten Angaben.

Endokrine Therapieversuche mit Leuprorelin simultan zur Chemotherapie oder Medroxyprogesteronacetat (MPA) konnten trotz Hormonrezeptorpositivität einen Progress der Erkrankung nicht verhindern [14].

In 3 der 4 publizierten Fälle, in denen eine immunhistochemische c-kit-Positivität (CD117) nachgewiesen wurde, wurde analog zu c-kit-positiven gastrointestinalen Tumoren Imatinib ein Tyrosinkinaseinhibitor angewendet.

Steed et al. beschreiben den Fall einer Patientin, die nach wiederholten Rezidivoperationen und diversen Chemotherapieschemata ein radiologisches Ansprechen unter Imatinib zeigte. Aufgrund von unklaren Unterbauchschmerzen erfolgte eine erneute Exploration und Tumoresektion, die eine makroskopische Tumorfreiheit erzielte. Histopathologisch zeigten sich Nekroseareale im Tumorgewebe, die als potenzielles Therapieansprechen interpretiert wurden. Postoperativ wurde die Imatinibtherapie fortgeführt, im Follow-up zeigte sich die Patientin nach 10 Monaten klinisch rezidivfrei [5].

Bei einer weiteren Patientin konnte im Rezidivfall operativ keine Tumorfreiheit erreicht werden und nach 4 Monaten Imatinibtherapie zeigte sich ein Progress. Eine anschließende Chemotherapie mit Paclitaxel (180 mg/m²) und Carboplatin (AUC 5) q21d zeigte nach 10 Zyklen ein gutes Ansprechen und eine deutliche Reduktion der Tumorgroße [12].

Bei der 3. berichteten Patientin wurde nach Rezidivoperation für 6 Monate Imatinib angewendet, der weitere Verlauf wird in der Studie von Syriac et al. nicht berichtet [10].

Prognose

In der Literatur finden sich in 10–20% der Fälle Rezidive und Metastasenbildung, vor allem pulmonal und hepatisch. Ein wichtiges Kriterium zur Abschätzung des Rezidivrisikos scheint hierbei die vollständige Tumoresektion mit Salpingo-Oophorektomie und Hysterektomie zu sein. Der mediane Zeitpunkt des Rezidivs liegt bei circa 48 Monaten, beobachtet wurden Rezidive vor allem im Zeitraum von 13–96 Monaten, vereinzelt auch noch später [12].

Wie von Heatly et al. untersucht wurde, verstarben 3 der 7 Patientinnen, bei denen Rezidive oder Tumorresiduen auftraten (4,8% der 63 aufgeführten Fälle) an der Erkrankung [4].

Aktuellere Daten von Kwon et al. aus dem Jahr 2016 führen dagegen 21 Fälle weltweit auf, in denen von einem Tumorzidiv in Leber, Becken, Appendix [15], Peritoneum oder Omentum berichtet wird [1]. Von diesen aktuell bekannten 21 Fällen eines malignen FATWO findet sich in 15 Fällen eine dokumentierte Tumorumplantation in einem Zeitraum von bis zu 8 Jahren nach Ersterkrankung. Bei 8 Patientinnen lag bei Erstoperation bereits eine Tumorumplantation vor, 3 davon zeigten ein Rezidiv oder Metastasierung innerhalb des 1. Jahres nach OP. Die R0-resezierten Patientinnen ohne Tumorumplantate wiesen durchweg im Rahmen der Arbeit kein Rezidiv auf [14]. Eine Prädiktion hinsichtlich des Verlaufs ist derzeit weder aufgrund des klinischen Bildes noch mithilfe der histologischen Tumormerkmale möglich, obwohl es Hinweise auf eine Korrelation zwischen hoher mitotischer Aktivität und Rezidivrisiko gibt [3, 16].

Zusammenfassung

Der FATWO stellt eine seltene Form weiblicher Adnextumoren mit anzunehmendem Ursprung in Residuen der Wolff'schen Gänge dar. Nachdem bei einem Teil der beschriebenen Fälle eine Metastasierung oder Rezidive auftraten, wird dem FATWO ein gewisses Malignitätspotenzial zugeschrieben. Von histopathologischer Seite ist differenzialdiagnostisch ein adulter Granulosazelltumor in Betracht zu ziehen, der sich durch immunhistochemische Merkmale und Mutationsanalysen vom FATWO abgrenzen lässt. Auch bildgebende Hinweise können zur Diagnosestellung beitragen.

Durch die Seltenheit dieser Erkrankung existieren zwar Fallberichte und Reviews, die aber aufgrund der geringen Fallzahl keine allgemeingültigen Aussagen und Schlussfolgerungen ermöglichen, welche therapeutischen Maßnahmen zu empfehlen sind. Etabliert hat sich ein operatives Vorgehen, auch im Rezidivfall mit Tumoresektion inklusive Hysterektomie und beidseitiger Salpingo-Oophorektomie. Die Rolle einer Chemo- und Radiotherapie kann bisher nicht beurteilt werden, platin- und taxanbasierte Schemata scheinen einen Vorteil anderen Substanzen gegenüber zu haben. Ein individueller Therapieversuch mit Imatinib bei CD-117-Positivität des Tumors kann in Erwägung gezogen werden. Für weitere Erkenntnisse zu therapeutischen und diagnostischen Maßnahmen werden weitere Analysen von Fällen benötigt.

Der von uns berichtete Fall ergänzt die wenigen Fälle in der Literatur, in denen der c-Kit-Status sowohl immunhistochemisch als auch genomisch untersucht wurde und ein präoperatives MRT des Beckens erfolgte.

Interessenkonflikt

Die Autoren geben an, dass kein Interessenkonflikt besteht.

Literatur

- [1] Kwon MJ, Yun MJ, Kim MK. A female adnexal tumor of probable Wolffian origin showing positive O-6-methylguanine-DNA methyltransferase methylation. *Obstet Gynecol Sci* 2016; 59: 328–332
- [2] Kariminejad MH, Scully RE. Female adnexal tumor of probable Wolffian origin. A distinctive pathologic entity. *Cancer* 1973; 31: 671–677
- [3] Ramirez PT, Wolf JK, Malpica A et al. Wolffian duct tumors: case reports and review of the literature. *Gynecol Oncol* 2002; 86: 225–230
- [4] Heatley MK. Is female adnexal tumour of probable wolffian origin a benign lesion? A systematic review of the English literature. *Pathology* 2009; 41: 645–648
- [5] Steed H, Oza A, Chapman WB et al. Female adnexal tumor of probable wolffian origin: a clinicopathological case report and a possible new treatment. *Int J Gynecol Cancer* 2004; 14: 546–550
- [6] Sakai M, Abiko K, Matsumura N et al. Two cases of Wolffian tumor with novel magnetic resonance imaging findings reflecting characteristic pathology. *J Obstet Gynaecol Res* 2016; 42: 1046–1051
- [7] Nann D, Gahlen S, Keul HG et al. [Tumor of the mesosalpinx with unclear differentiation]. *Pathologe* 2016; 37: 84–87
- [8] Kurman RJ, Hedrick Ellenson L, Ronnett BM, eds. *Blaustein's Pathology of the female genital Tract*. Berlin, Heidelberg, New York: Springer; 2011
- [9] Czernobilsky B, Lifschitz-Mercer B, Trejo L et al. Granulosa cell tumor of the broad ligament: report of a case with emphasis on the differential diagnosis with female adnexal tumor of probable Wolffian origin. *Int J Surg Pathol* 2011; 19: 783–786
- [10] Syriac S, Durie N, Kesterson J et al. Female adnexal tumor of probable Wolffian origin (FATWO) with recurrence 3 years postsurgery. *Int J Gynecol Pathol* 2011; 30: 231–235
- [11] Harada O, Ota H, Takagi K et al. Female adnexal tumor of probable wolffian origin: morphological, immunohistochemical, and ultrastructural study with c-kit gene analysis. *Pathol Int* 2006; 56: 95–100
- [12] Wakayama A, Matsumoto H, Aoyama H et al. Recurrent female adnexal tumor of probable Wolffian origin treated with debulking surgery, imatinib and paclitaxel/carboplatin combination chemotherapy: A case report. *Oncol Lett* 2017; 13: 3403–3408
- [13] Seracchioli R, Mabrouk M, Solfrini S et al. One-Step Laparoscopic Management of a Female Adnexal Tumor of Wolffian Origin. *Case Rep Oncol* 2010; 3: 428–433
- [14] Deshimaru R, Fukunaga T, Sato T et al. A case of metastatic female adnexal tumor of probable Wolffian origin. *Gynecol Oncol Case Rep* 2014; 10: 22–24
- [15] Liu Y. Metastatic female adnexal tumor of possible wolffian origin (FATWO) of the appendix demonstrated by FDG PET/CT: the first reported case. *Clin Nucl Med* 2011; 36: 136–137
- [16] Lesin J, Forko-Ilic J, Plavec A et al. Management of Wolffian duct tumor recurrence without chemotherapy. *Arch Gynecol Obstet* 2009; 280: 855–857