

Angioléiomyome rétropéritonéal abdominal: à propos d'une observation Marocaine

[Abdominal retroperitoneal angioleiomyoma: about a Moroccan observation]

Kenza Oqbani¹, Mariame Chraïbi¹, Nawal Harchichi², and Sanae Abbaoui¹

¹Service d'Anatomie et de Cytologie Pathologiques, CHU Mohammed VI, Université Mohammed I, Oujda, Maroc

²Service d'Anatomie et de Cytologie Pathologiques, Hôpital Al Farabi, Oujda, Maroc

Copyright © 2016 ISSR Journals. This is an open access article distributed under the **Creative Commons Attribution License**, which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original work is properly cited.

ABSTRACT: We report a case of an abdominal retroperitoneal angioléiomyoma in a 46-year-old woman who was admitted for abdominal volume increase. An abdominal CT scanner was performed. A retroperitoneal well-demarcated, heterogeneous, solid and cystic mass measuring up to 35x 30 cm was seen. The retroperitoneal location of this tumor is exceptional and only a few cases are reported in the literature.

Through this observation, we study the clinical, radiological and pathological criteria of this rare entity.

KEYWORDS: angioleiomyoma, retroperitoneal, histology, leiomyosarcoma, mitotic index.

RESUME: Nous rapportons le cas d'un angioléiomyome de siège rétropéritonéal abdominal chez une patiente âgée de 46 ans. La patiente est admise pour augmentation du volume abdominal faisant découvrir au scanner abdominal une masse rétropéritonéale bien limitée, hétérogène et solido-kystique mesurant 35 cm de grand axe. La localisation rétropéritonéale de cette entité histologique reste exceptionnelle et n'est rapportée que dans de rares cas dans la littérature.

A travers cette observation, nous mettons le point sur les critères cliniques, radiologiques et anatomopathologiques de cette entité rare.

MOTS-CLEFS: Angioléiomyome, rétropéritonéal, histologie, léiomyosarcome, index mitotique.

1 INTRODUCTION

L'angioléiomyome est une entité histologique rare appartenant aux léiomyomes [1]. Le siège rétropéritonéal reste exceptionnel et n'est rapporté que dans quelques cas dans la littérature [2].

Notre objectif à travers notre observation clinique est de mettre le point sur les critères cliniques, radiologiques et anatomopathologiques de cette entité rare.

2 OBSERVATION CLINIQUE

Nous rapportons l'observation clinique d'une patiente âgée de 46 ans, péri-ménopausique, sans antécédents pathologiques notables, admise aux urgences pour une augmentation du volume abdominal sans signe clinique associé.

L'examen clinique trouvait une masse volumineuse au niveau de l'hypochondre droit. Le scanner abdominal objectivait la présence d'une masse rétropéritonéale bien limitée, hétérogène et solido-kystique de 30 cm de grand axe.

La patiente était opérée. L'exploration per-opératoire retrouvait une masse rétropéritonéale hétérogène et bien encapsulée de 35 cm de grand axe, appendue au foie et refoulant l'intestin grêle et le rein droit à gauche. Une exérèse chirurgicale complète de la masse était indiquée.

L'examen macroscopique de la pièce opératoire mettait en évidence une masse assez bien limitée et encapsulée, pesant 4 kg et mesurant 33x 30x 9cm. Elle était de consistance ferme, homogène blanchâtre et fasciculée. Les zones périphériques comportaient des dilatations kystiques gorgées de sang (Cf. fig. 1).



Fig. 1. Etude macroscopique. Masse blanchâtre fasciculée assez bien limitée et encapsulée. Noter en périphérie la présence de dilatations kystiques gorgées de sang

L'examen histologique objectivait une prolifération tumorale mésenchymateuse à double composante (Cf fig 2). La partie ferme correspondait à une prolifération musculaire lisse faite de longs faisceaux entrecroisés à angle droit. Les cellules musculaires sont pourvues d'un noyau allongé finement nucléolé, sans atypies cytonucléaires ni figures de mitoses. Le cytoplasme est abondant éosinophile et fibrillaire. La deuxième composante était constituée d'une prolifération vasculaire faite de larges vaisseaux dilatés délimités par un endothélium régulier.

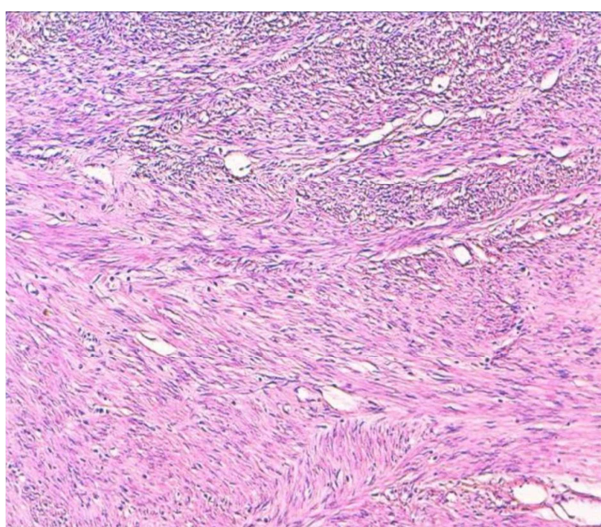


Fig. 2. Prolifération tumorale bénigne à double composante vasculaire et musculaire lisse faite de longs faisceaux musculaires entrecroisés à angles droits. (Histologie H&E x100)

On avait noté aussi des remaniements œdémateux et congestifs (Cf. fig 3). Vu l'absence d'atypies cytonucléaires et de mitose, le diagnostic retenu était un angioléiomyome de siège rétropéritonéal (Cf. fig 4).

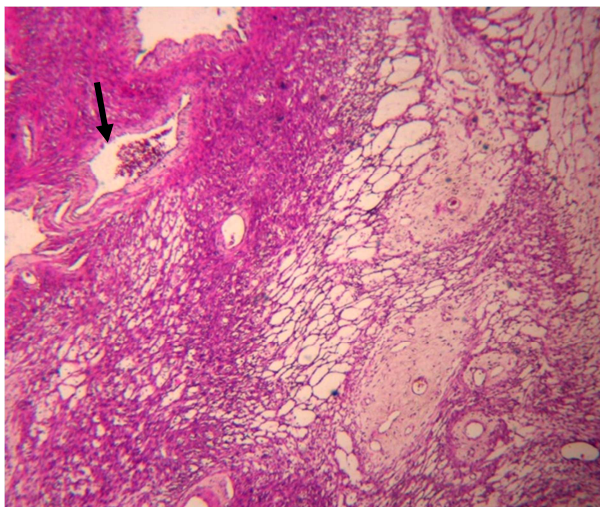


Fig. 3. Noter les remaniements kystiques et congestifs avec un vaisseau gorgé de sang (flèche). (Histologie H&E x 100)

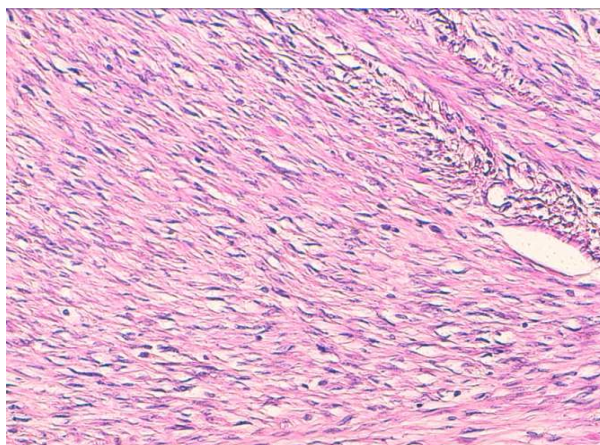


Fig. 4. Noter l'absence d'atypies cytonucléaires et de mitose. (Histologie H&E x 200)

Une étude immunohistochimique avait révélé un marquage positif à l'anticorps anti-muscle lisse (Cf. fig 5). Les anticorps anti HMB45, anti-CD117 et anti PS100 étaient négatifs. Cette étude immunohistochimique avait permis d'éliminer respectivement un angiomyolipome, une tumeur stromale gastro-intestinale (GIST) et une tumeur nerveuse périphérique. Les vaisseaux étaient marqués par l'anticorps anti CD34.

Après un recul de 2 ans, aucune récurrence n'était observée.

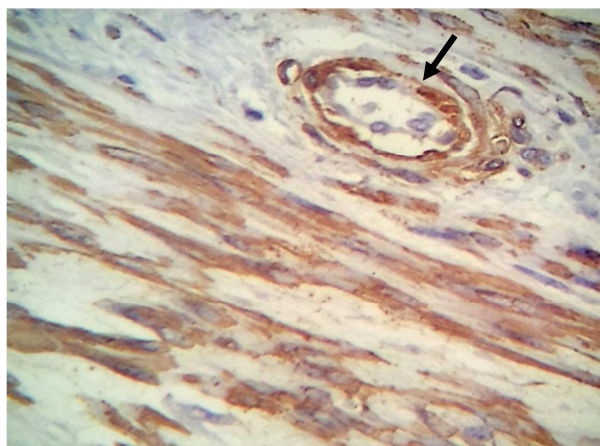


Fig. 5. Marquage membranaire intense des cellules musculaires lisses par l'anticorps anti muscle lisse (AML). Témoin interne positif au niveau des cellules musculaires lisses du vaisseau (flèche) (Immunohistochimie x 400).

3 DISCUSSION

L'angioliomyome est une forme particulière de léiomyome contenant des vaisseaux à paroi épaisse [1]. Il survient chez l'adulte entre 40 et 60 ans exclusivement de sexe féminin [3]. Cette tumeur représente 5% des lésions bénignes des tumeurs des tissus mous. Elle prédomine au niveau sous-cutané des extrémités inférieures sous la forme d'une petite masse indolore ou douloureuse spontanément ou à la pression, et d'évolution lente [1]. La localisation profonde, rétropéritonéale ou abdominale reste exceptionnelle [2], [4], [5]. L'angioliomyome de localisation profonde se présente comme une lésion isolée et indolore.

Radiologiquement, aucune série dans la littérature n'avait décrit l'aspect radiologique de l'angioliomyome rétropéritonéal en dehors de données radiologiques restreintes de quelques cas reportés [6].

Macroscopiquement, l'angioliomyome est un nodule hypodermique ou plus rarement dermique surélevant la peau, bien limité, gris-blanchâtre ou luisant parfois bleuté ou rougeâtre. L'angioliomyome profond est de plus grande taille dépassant 30 cm de grand axe, le cas de notre patiente. C'est une tumeur bien circonscrite et de couleur blanc-grisâtre.

Histologiquement, l'angioliomyome correspond à une prolifération tumorale à double composante musculaire lisse et vasculaire faite de vaisseaux dilatés. La composante musculaire lisse est faite de longs faisceaux entrecroisés à angle droit. Les cellules musculaires sont pourvues d'un noyau allongé en bout de cigare et finement nucléolé. Le cytoplasme est abondant éosinophile et fibrillaire. Les atypies cytonucléaires sont absentes ou discrètes. L'index mitotique est faible et reste inférieur à 5 mitoses par 50 CFG.

La plupart de ces tumeurs sont pauci-cellulaires et dégénératives. On n'y trouve des calcifications, de la fibrose et une dégénérescence myxoïde. Comme le cas de notre patiente qui présentait un angioliomyome avec des remaniements kystiques, myxoïdes et œdémateux.

Ces léiomyomes de siège abdominal ou rétropéritonéal des femmes présentent des aspects morphologiques similaires aux léiomyomes utérins. A savoir une architecture macro ou microtrabéculaire, une hyalinisation et des dégénérescences kystiques et myxoïdes. La présence d'atypie cyto-nucléaires doit faire rechercher des mitoses atypiques.

Sur le plan immunohistochimique, les cellules tumorales expriment l'AML, la desmine, l'H-caldesmone et sont négatives pour la PS100.

Ces léiomyomes de siège rétro-péritonéal ou abdominal sont positifs de façon uniforme aux récepteurs hormonaux (RH)-progestéroniques et oestrogéniques- ainsi que WT1. Par contre, les léiomyosarcomes n'expriment pas ces (RH) ni WT1.

Le diagnostic différentiel se pose en priorité avec le léiomyosarcome, étant fréquent au niveau rétropéritonéal [7]. Les aspects radiologiques de cette tumeur maligne sont aspécifiques et parfois ne distinguant pas un léiomyome d'un léiomyosarcome [8]. L'étude anatomopathologique est l'examen de choix pour différencier entre ces deux tumeurs où le critère essentiel de malignité est représenté par le nombre élevé de mitoses. Ainsi l'absence de mitoses atypiques permet d'éliminer ce diagnostic de LMS.

Le pronostic est bon avec un faible potentiel de récurrence locale après exérèse chirurgicale complète [2].

4 CONCLUSION

Le diagnostic préopératoire d'un angioléiomyome rétropéritonéal est rarement possible et il peut généralement ne pas être différencié des tumeurs malignes. L'examen histologique est nécessaire pour confirmer le diagnostic.

L'angioléiomyome devrait être inclus dans le diagnostic différentiel des masses rétropéritonéales à composante solidokystique.

CONFLIT D'INTERET

Les auteurs ne déclarent aucun conflit d'intérêts concernant cet article.

REFERENCES

- [1] Weiss SW, Goldblum JR. Benign tumors of smooth muscle. In: Weiss SW, Goldblum JR. Enzinger and Weiss's soft tissue tumors. 4th ed. St Louis: Mosby, 2001; 699–700.
- [2] Paal E, Miettinen M. Retroperitoneal leiomyomas. A clinicopathologic and immunohistochemical study of 56 cases with comparison to retroperitoneal leiomyosarcomas. *Am J Surg Pathol* 2001; 25:1355–1363.
- [3] McCluggage WG, Boyde A. Uterine angioleiomyomas: a report of 3 cases of a distinctive benign leiomyoma variant. *Int J Surg Pathol* 2007; 15:262–265.
- [4] Barth PJ, Adler G. Vascular leiomyoma (angiomyoma) of the retroperitoneum. Clinical presentation as a cystic upper abdominal tumor. *Med Klinik (Munich)* 1993; 88:57–59.
- [5] Lazović G, Milićević S, Atanacković J, Milosevic V, Bozanović T, Gojnić M. Leiomyoma of the uterus and retroperitoneal angioleiomyoma: case report. *Clin Exp Obstet Gynecol* 2007; 34:257–258.
- [6] Agorastos T, Dinas K, Patsiaoura K. Cystic degenerated angioleiomyoma mimicking ovarian pathology. *Acta Obstet Gynecol*
- [7] McLeod AJ, Zornoza J, Shirkhoda A. Leiomyosarcoma: computed tomographic findings. *Radiology* 1984; 152:133–136.
- [8] Arakawa A, Yasunaga T, Yano S, et al. Radiological findings of retroperitoneal leiomyoma and leiomyosarcoma: report of two cases. *Comput Med Imaging Graph* 1993; 17:125–131.