

## Case Report = Спостереження з практики = Наблюдение из практики

UDC 616-006.363.04:616-006.6-033.2:616.711.5

### Metastatic leiomyosarcoma of the thoracic spine: case report

*Cherkaoui Mandour, Adil Belhachmi, Jawad Laaguili, Brahim El Mostarchid*

Department of Neurosurgery, Military Hospital Mohammed V, Rabat, Morocco

Received, November 1, 2015.  
Accepted, November 27, 2015.

**Address for correspondence:**  
Cherkaoui Mandour, Department of Neurosurgery, Military Hospital Mohammed V, Rabat, PC: 10000 Morocco, e-mail: mandour1978@hotmail.com

Leiomyosarcoma is a rare malignant mesenchymal tumor arising from smooth muscle cells. Metastatic spreading is possible, which even rarely metastasize to the bone being the latter localization a delayed manifestation of its natural progression. Spinal metastases represent the most common bone localizations with prevalence in the thoracic and lumbar spine.

We present a 55-year-old female, operated there's 2 years for a hysterectomy of uterine leiomyosarcoma, admitted in our department with a flaccid paraplegia. Spine magnetic resonance imaging showed an extradural mass, iso-intense on T2, enhancing after gadolinium administration; placed at T5-T6 level with a severe cord compression. The patient underwent a decompressive laminectomy T5 and a total removal of the tumor. The histological examination revealed a metastatic leiomyosarcoma.

The prognosis of patients with leiomyosarcoma is variable depending on the resectability and existence of metastasis. The essential treatment is surgery but an additional therapy, such as radiotherapy and/or chemotherapy, may be required to improve local control.

**Key words:** leiomyosarcoma; metastasis; thoracic spine.

**Ukrainian Neurosurgical Journal. 2015;(4):76-8.**

### Метастатична лейоміосаркома грудного відділу хребта (спостереження з практики)

*Cherkaoui Mandour, Adil Belhachmi, Jawad Laaguili, Brahim El Mostarchid*

Відділення нейрохірургії, Військовий госпіталь Мохаммеда V, Рабат, Марокко

Надійшла до редакції 01.11.15.  
Прийнята до публікації 27.11.15.

**Адреса для листування:**  
Cherkaoui Mandour, Department of Neurosurgery, Military Hospital Mohammed V, Rabat, PC: 10000 Morocco, e-mail: mandour1978@hotmail.com

Лейоміосаркома є рідкісною злоякісною мезенхімальною пухлиною гладеньких м'язів. Можливе метастазування. Метастази в кістки - край рідкісні, спостерігають в пізньому періоді природного перебігу лейоміосаркоми. Серед кісткових метастазів найчастіше виявляють метастази в хребет з переважною їх локалізацією в грудному та поперековому відділах.

Ми представляємо 55-річну жінку, яку госпіталізували з млявою параплегією через 2 роки після гістеректомії з приводу лейоміосаркоми матки. Магніторезонансна томографія хребта показала екстрадуральне вогнище з ізоінтенсивним сигналом на T<sub>II</sub>, котрий посилюється після введення гадолінію; розташоване на рівні T<sub>V</sub>-T<sub>VI</sub> з важким здавленням спинного мозку. Пацієнту проведена декомпресивна ламінектомія на рівні T<sub>V</sub> і повне видалення пухлини. Гістологічне дослідження виявило метастаз лейоміосаркоми.

Прогноз для пацієнтів з лейоміосаркомою залежить від резектабельності пухлини і наявності метастазів. Основним методом лікування є хірургічний, але можливе застосування додаткової терапії, такої як променева та / або хіміотерапія, з метою поліпшення контролю над пухлиною.

**Ключові слова:** лейоміосаркома; метастази; грудний відділ хребта.

**Укр. нейрохірург. журн. — 2015. — №4. — С.76-78.**

### Метастатическая лейомиосаркома грудного отдела позвоночника (наблюдение из практики)

*Cherkaoui Mandour, Adil Belhachmi, Jawad Laaguili, Brahim El Mostarchid*

Отделение нейрохирургии, Военный госпиталь Мохаммеда V, Рабат, Марокко

Поступила в редакцию 01.11.15.  
Принята к публикации 27.11.15.

**Адрес для переписки:**  
Cherkaoui Mandour, Department of Neurosurgery, Military Hospital Mohammed V, Rabat, PC: 10000 Morocco, e-mail: mandour1978@hotmail.com

Лейомиосаркома является редкой злокачественной мезенхимальной опухолью гладких мышц. Возможно метастазирование. Метастазы в кости – крайне редки, наблюдаются в позднем периоде естественного течения лейомиосаркомы. Спинальные метастазы представляют собой наиболее встречающуюся локализацию костных метастазов с преобладанием в грудном и поясничном отделах позвоночника.

Мы представляем 55-летнюю женщину, которая поступила в отделение с вялой параплегией через 2 года после гистерэктомии по поводу лейомиосаркомы матки. Магниторезонансная томография позвоночника показала экстрадуральный очаг с изоинтенсивным сигналом на T<sub>II</sub>, усилившийся после введения гадолиния; расположенный на уровне T<sub>V</sub>-T<sub>VI</sub> с тяжелым сдавлением спинного мозга. Пациентке проведена декомпрессионная ламинэктомия на уровне T<sub>V</sub> и полное удаление опухоли. Гистологическое исследование выявило метастаз лейомиосаркомы.

Прогноз для пациентов с лейомиосаркомой зависит от резектабельности опухоли и наличия метастазов. Основным методом лечения является хирургический, но возможно применение дополнительной терапии, такой как лучевая и/или химиотерапия, с целью улучшения контроля над опухолью.

**Ключевые слова:** лейомиосаркома; метастазы; грудной отдел позвоночника.

**Укр. нейрохірург. журн. — 2015. — №4. — С.76-78.**

**Introduction:** Leiomyosarcoma is a rare mesenchymal malignant tumor arising from smooth muscle cells [1]. The most common localization of this neoplasm, which accounts from 7% of soft tissue sarcomas [2; 3]. Metastatic spreading is possible, the most commonly reported sites of metastasis from leiomyosarcoma are the lungs, liver, kidney, brain and skin. Spinal metastases of leiomyosarcoma have rarely been reported [4]. We report a case of leiomyosarcoma metastasizing to the thoracic spine.

**Case report:** A 55-year-old female, operated there's 2 years for a hysterectomy for uterine leiomyosarcoma and chemotherapy, admitted in our department with a 01 month history of gradually worsening back pain and weakness in the lower limbs with urinary leakage and constipation. Neurological examination revealed a flaccid paraplegia, sensitive level T5-T6 with signs of pyramidal irritation. Spine magnetic resonance imaging (figure A; B) showed an extradural mass, hypo-intense on T1-weighted and iso-intense on T2-weighted, enhancing after gadolinium administration; placed at T5-T6 level with a severe cord compression. The patient underwent a decompressive laminectomy T5 and a total removal of the tumor (figure C). The histological examination revealed a clear evidence of a metastatic leiomyosarcoma.

After surgery, the patient did not present any neurological improvement and she benefited from a functional reeducation with chemo-radiotherapy.

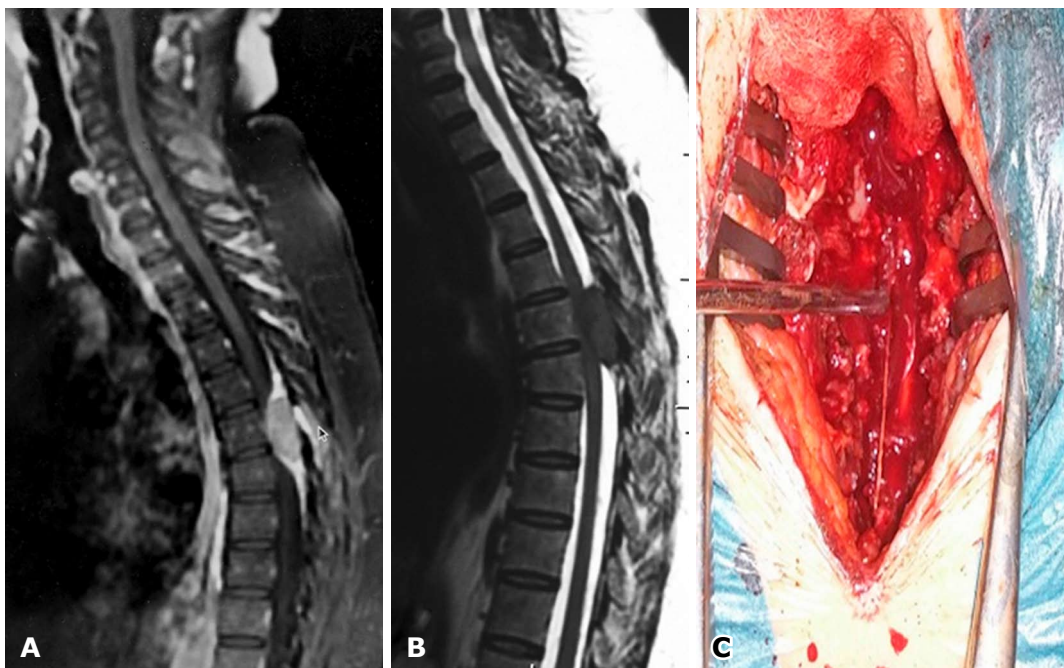
**Discussion:** Leiomyosarcoma is a rare malignant tumor; but it has a strong potential for metastasis to

distant sites due to propensity for hematogenous spread [5]. Osseous metastases are rare and spinal metastases represent the most common bone localizations [6; 7] with prevalence in the thoracic and lumbar spine [5].

Histological examination is a reliable and important method for the confirmation of the diagnosis. Leiomyosarcoma present a wide range of atypia extending from a well differentiated pattern to an extremely anaplastic one, the latter typical of the most aggressive sarcomas. Cell morphology is quite similar to the benign leiomyoma, consisting in bundles of spindle-shaped, smooth cells with oval nucleus and long, slender bipolar cytoplasmic processes. Nuclear atypia, high mitotic index and zonal necrosis confirm the malignant nature of the neoplasm [8; 9]. Usually, leiomyosarcoma cells are positive for smooth muscle actin, weakly positive for desmin and negative for S100 protein [10].

From a review of the literature, we found that primary leiomyosarcoma arising from the spine and paravertebral muscles are very rare entities with only 14 cases reported according to the best of our knowledge [5; 11; 12]. Similarly, metastatic Leiomyosarcoma with spinal localization represent very uncommon findings with just few cases described in literature as either first presentation or secondary recurrence [13; 14]. In our case, the diagnosis was easy, because the patient had a history of hysterectomy for uterine leiomyosarcoma.

On magnetic resonance imaging, it presents as a hypo-iso-intense homogeneous signal on T1-weighted whereas a hyper-intense signal is generally evident in T2-weighted [15]. Differential diagnosis includes neu-



**Figure A:** Sagittal section of spine magnetic resonance imaging, showed an extradural mass, enhancing after gadolinium administration; placed at T5-T6 level with a severe cord compression.

**Figure B:** Sagittal section of spine magnetic resonance imaging, showed an extradural mass, iso-intense on T2-weighted with a severe cord compression.

**Figure C:** per-operative image showing laminectomy and tumor.

rinomas, neurofibromas, meningiomas, lymphomas, fibrous tumors, ependymomas and other metastatic tumors [11].

The prognosis of patients with leiomyosarcoma is variable depending on the resectability and existence of metastasis. Survival times range from weeks to 13 years [15]. Radiotherapy and/or chemotherapy after surgery may be required to improve local control, despite its relative resistance to this therapy.

**Conclusion:** Metastatic leiomyosarcoma represents an exceptionally rare finding among the metastatic spinal lesions. Surgery (decompression; spinal fixation) is recommended to reduce pain symptomatology and prevent from worsening of myelopathy.

### References

- Ducimetière F, Lurkin A, Ranchère-Vince D, Decouvelaere AV, Péoc'h M, Istier L, Chalabreysse P, Muller C, Alberti L, Bringuier PP, Scoazec JY, Schott AM, Bergeron C, Cellier D, Blay JY, Ray-Coquard I. Incidence of sarcoma histotypes and molecular subtypes in a prospective epidemiological study with central pathology review and molecular testing. *PLoS One*. 2011;6(8):e20294.
- Russell WO, Cohen J, Enzinger F, Hajdu SI, Heise H, Martin RG, Meissner W, Miller WT, Schmitz RL, Suit HD. A clinical and pathological staging system for soft tissue sarcomas. *Cancer*. 1977 Oct;40(4):1562-70.
- Benabdejilil Y, Elmarjany M, Babahabib A, Elhassani M, Chahdi H, Kouach J, Moussaoui DR, Dehayni M. [Relapsing uterine leiomyosarcoma: report of a case]. *Pan Afr Med J*. 2014 Sep 24;19:74. French.
- Nanassis K, Alexiadou-Rudolf C, Tsitsopoulos P. Spinal manifestation of metastasizing leiomyosarcoma. *Spine (Phila Pa 1976)*. 1999 May 15;24(10):987-9.
- Maimone G, Nicassio N, Malik I, Cambria M. Metastatic Leiomyosarcoma of the Spine Updates in Management and Surgical Strategy. *Open Journal of Modern Neurosurgery*. 2013;03(04):98-103.
- Ido K, Matsuoka H, Yoshida M, Urushidani H. Paraparesis due to spinal leiomyosarcoma lesion in the thoracic spine accompanied by two leiomyosarcoma lesions in the back and the thigh over an interval of 4 years. *J Clin Neurosci*. 2002 May;9(3):325-8.
- Shapiro S. Myelopathy secondary to leiomyosarcoma of the spine. Case report. *Spine (Phila Pa 1976)*. 1992 Feb;17(2):249-51.
- Buscema J, Carpenter SE, Rosenshein NB, Woodruff JD. Epithelioid leiomyosarcoma of the uterus. *Cancer*. 1986 Mar 15;57(6):1192-6.
- Bell SW, Kempson RL, Hendrickson MR. Problematic uterine smooth muscle neoplasms. A clinicopathologic study of 213 cases. *Am J Surg Pathol*. 1994 Jun;18(6):535-58.
- Fornasier VL, Paley D. Leiomyosarcoma in bone: primary or secondary? A case report and review of the literature. *Skeletal Radiol*. 1983;10(3):147-53.
- Lo TH, van Rooij WJ, Teepen JL, Verhagen IT. Primary leiomyosarcoma of the spine. *Neuroradiology*. 1995 Aug;37(6):465-7.
- Krepler P, Windhager R, Bretschneider W, Toma CD, Kotz R. Total vertebrectomy for primary malignant tumours of the spine. *J Bone Joint Surg Br*. 2002 Jul;84(5):712-5.
- Robbins LL. Roentgenologic Demonstration of Spinal Metastases from Leiomyosarcoma of the Uterus. *Arch Surg*. 1943 Nov 1;47(5):463.
- Schjött-Rivers E. Sarcoma of the uterus. *Acta Obstet Gynecol Scand*. 1949;28(3-4):418-25. PMID:18148645.
- Sun Z, Wang H, Yang H, Jiang W. Leiomyosarcoma metastatic to the cervical spine causing a C6 compression fracture: A case report. *Oncol Lett*. 2014 Jul;8(1):263-265.