




Disponible en ligne sur
 ScienceDirect
www.sciencedirect.com

Elsevier Masson France
 EM|consulte
www.em-consulte.com



CAS CLINIQUE

Léiomyosarcome veineux mimant une thrombose veineuse profonde : intérêts de la tomographie par émission de positrons[☆]

Venous leiomyosarcoma mimicking deep venous thrombosis: Contribution of positron emission tomography

C. Durant^{a,*}, J. Connault^a, A. Moreau^b, C. Bodet-Milin^c, E. Letessier^d,
B. Planchon^a, M. Hamidou^a

^a Médecine interne, CHU Hôtel-Dieu, 1, place Alexis-Ricordeau, 44093 Nantes cedex 1, France

^b Laboratoire d'anatomo-pathologie, CHU Hôtel-Dieu, Nantes, France

^c Médecine nucléaire, CHU Hôtel-Dieu, Nantes, France

^d Clinique chirurgicale digestive et endocrinienne, CHU Hôtel-Dieu, Nantes, France

Reçu le 4 août 2008 ; accepté le 15 octobre 2008

Disponible sur Internet le 17 décembre 2008

MOTS CLÉS

Léiomyosarcome vasculaire ;
Tomographie par émission de positrons ;
Thrombose veineuse localisée

Résumé Les léiomyosarcomes sont des tumeurs mésoenchymateuses malignes rares du tissu conjonctif spécialisé. Nous rapportons l'observation d'un patient de 55 ans présentant un léiomyosarcome iliofémoral gauche métastatique au niveau pulmonaire mimant une thrombose veineuse profonde (TVP) inexpliquée. Le léiomyosarcome vasculaire est une tumeur exceptionnelle. Il se développe aux dépens des gros vaisseaux se présentant classiquement comme une TVP inexpliquée. De rares cas d'atteinte périphérique sont retrouvés dans la littérature. Cette observation illustre l'intérêt de la tomographie par émission de positrons (TEP) dans une indication non-onco-hématologique, et tout particulièrement dans le bilan étiologique des thromboses veineuses profondes inexpliquées. Dans notre observation, la TEP a permis de redresser le diagnostic de thrombose en montrant un aspect « en cocarde » inhabituel. La TEP semble apporter des renseignements complémentaires à ceux de l'imagerie classique.

© 2008 Elsevier Masson SAS. Tous droits réservés.

[☆] Communication affichée, présentée au congrès de la SNFMI de juin 2008 au Luxembourg

* Auteur correspondant.

Adresse e-mail : cecile.durant@chu-nantes.fr (C. Durant).

KEYWORDS

Vascular
leiomyosarcoma;
Positron Emission
Tomography;
Venous thrombosis

Summary Leiomyosarcomas are rare malignant mesenchymal tumors. We report the case of a 55-year-old man with a lung metastasis from an iliofemoral leiomyosarcoma mimicking a deep venous thrombosis (DVT). Vascular leiomyosarcoma occurs in the wall of large vessels, and usually presents as unexplained DVT. To date, few cases of peripheral leiomyosarcomas have been described in the literature. This observation demonstrates the usefulness of Positron Emission Tomography (PET), beyond oncologic staging, in such indications as the workup of an unexplained DVT. In this report, PET prevented a misdiagnosis of DVT by showing a peculiar cockade appearance of the vessel. Compared with conventional imaging, PET can provide complementary information. The specificity of such information still needs to be assessed.

© 2008 Elsevier Masson SAS. All rights reserved.

Observation

Un homme de 55 ans sans antécédent particulier, était hospitalisé pour un œdème du membre inférieur gauche. L'écho-doppler veineux objectivait une thrombose veineuse profonde (TVP) fémorale commune gauche. Le patient ne présentait pas de facteur de risque thrombotique veineux, le bilan biologique ne retrouvait ni syndrome inflammatoire ni trouble rhéologique. La radiographie thoracique et le scanner thoraco-abdominopelvien étaient normaux. Le bilan de thrombophilie s'avérait négatif. Le patient était alors traité par une héparine de bas poids moléculaire, secondairement relayée par antivitamine K, et bénéficiait d'une compression par bandes élastiques. Dans les mois suivants, le patient présentait une altération de l'état général fébrile, des sueurs nocturnes, et une majoration d'un volumineux œdème du membre inférieur gauche. On palpait une tuméfaction inguinale gauche mesurant 8 × 4 cm. La CRP était à 112 mg/l, les prélèvements

bactériologiques et mycobactériologiques étaient stériles. La radiographie thoracique retrouvait des nodules intra-parenchymateux confirmés par le scanner thoracique. La fibroscopie bronchique et les biopsies transbronchiques étaient négatives, avec au lavage broncho-alvéolaire des cellules suspectes. L'écho-doppler veineux objectivait une extension du « thrombus » à la veine iliaque externe gauche. Devant l'évolution atypique, une TEP était réalisée et montrait plusieurs nodules pulmonaires hyperfixants, un infiltrat hypermétabolique intense iliaque externe gauche, s'étendant dans la région inguinale gauche avec un aspect « en cocarde », infiltrant les masses musculaires de la cuisse jusqu'au territoire fémoral (Fig. 1). Cet aspect n'évoquait pas celui d'une TVP, et motivait la réalisation d'une biopsie inguinale gauche. L'histologie retrouvait un léiomyosarcome peu différencié, de grade III de la Fédération nationale des centres de lutte contre le cancer (FNCLCC) (Fig. 2 et 3), vraisemblablement d'origine veineuse. Le patient bénéficiait d'une chimiothérapie et d'une radiothérapie locale,

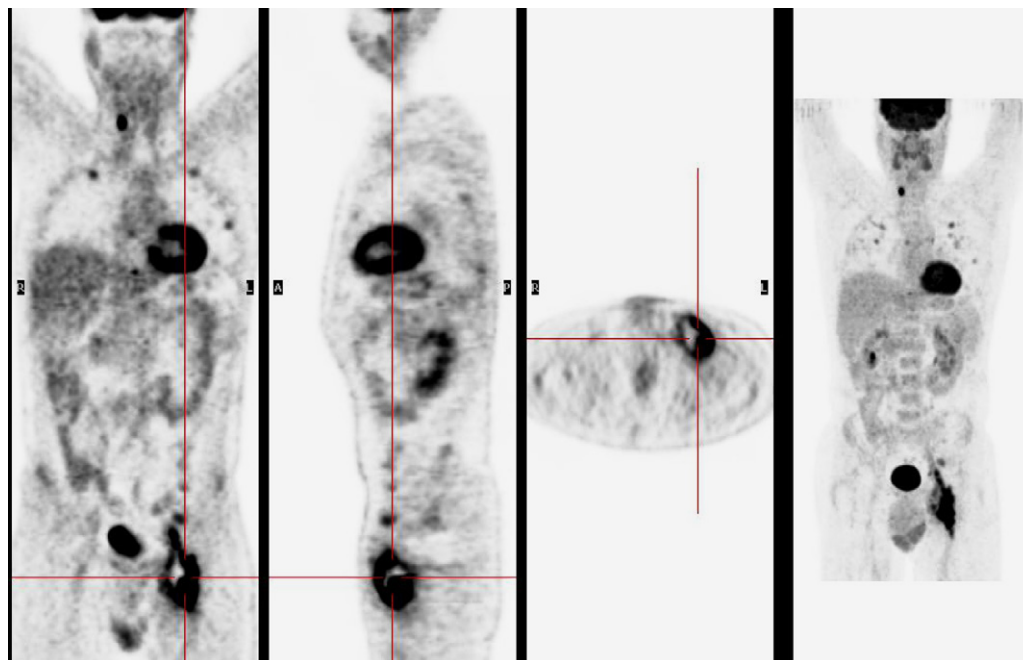


Figure 1 Pet-scaner avec fixation hypermétabolique du creux inguinale, prenant un aspect « en cocarde », avec infiltration des parties molles.

Pet-scan with an inguinal hypermetabolic fixation, infiltrating the soft tissues, one in cockade.

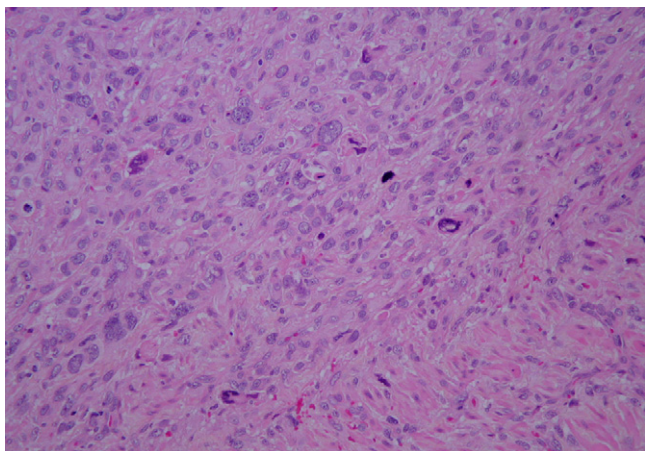


Figure 2 Léiomyosarcome de grade III : prolifération de cellules fusiformes et pléomorphes, organisées en faisceaux, présentant des atypies nucléaires marquées et un index mitotique élevé, infiltrant la média du vaisseau (en bas et à droite) (HPS $\times 200$).

Grade III leiomyosarcoma: fusiform and pleomorph cells proliferation with high mitotic index and unusual nuclear forms, infiltrating the vessel (down on the right) (HPSx200).

et d'une anticoagulation préventive par héparine de bas poids moléculaire en raison du risque thrombotique, avec une rémission partielle de 12 mois. Il décédait brutalement d'une probable localisation cardiaque de sa tumeur.

Discussion

Les sarcomes ont une incidence annuelle avoisinant 38 cas par million en 2003 [1] et représentent 2% des cancers dans la population générale. Cette proportion peut être augmentée chez l'enfant atteignant jusqu'à 12% des

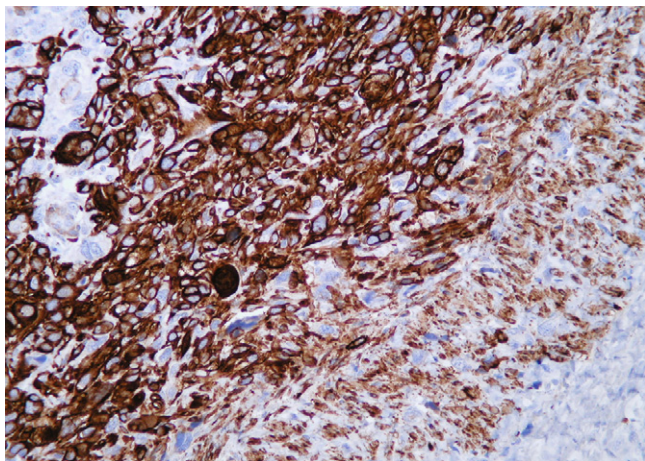


Figure 3 Immunohistochimie : marquage diffus et intense des cellules tumorales avec l'anticorps anti-h-caldesmon, marqueur musculaire lisse spécifique (média vasculaire en bas et à droite) ($\times 200$).

Immunohistochemistry with high positivity of tumoral cells for h-caldesmon marker, specific for smooth muscle cells (vascular media down on the right) ($\times 200$).

tumeurs malignes. On distingue plusieurs types de sarcome en fonction de leur ligne de différenciation histogénétique (fibrosarcomes, angiosarcome, chondrosarcome, léiomyosarcome, liposarcome, rhabdomyosarcome...).

Les léiomyosarcomes sont des tumeurs mésenchymateuses malignes à différenciation musculaire lisse peu fréquentes chez l'adulte, à haut pouvoir métastatique. Les léiomyosarcomes des tissus mous sont le plus souvent localisés au rétropéritoine. Le léiomyosarcome d'origine vasculaire est particulièrement rare, représentant moins de 1% de tous les sarcomes [2]. Il peut se développer aux dépens des gros troncs vasculaires (veine cave inférieure, veines pulmonaires et tronc de l'artère pulmonaire) [3] mais aussi des cavités cardiaques. La plupart des observations sont des faits cliniques. L'étude de Mingoli et al. dans une revue de la littérature regroupe 141 observations de léiomyosarcome de la veine cave inférieure [4]. Les atteintes vasculaires périphériques sont beaucoup plus rares (veines saphènes, poplitées, fémorales...) [5,6]. On peut retenir des différentes études que la présentation initiale classique est souvent celle d'une pseudo-TVP inexplicable isolée des gros troncs. Les signes généraux (asthénie, fièvre...), les phénomènes compressifs, l'extension de continuité aux parties molles ou la survenue de lésions secondaires doivent faire rechercher une étiologie paranéoplasique. Il est souvent difficile de trancher entre l'existence isolée de la tumeur dans la lumière vasculaire ou son association à une TVP par contiguïté au contact de la tumeur vasculaire.

Seul l'examen anatomopathologique permet un diagnostic de certitude. Les sarcomes sont classés selon la classification de l'OMS et sont gradés selon le système français de la FNLCC, qui a une forte valeur pronostique. La prise en charge thérapeutique est complexe [7] dans la mesure où le diagnostic est posé à un stade avancé avec déjà un envahissement locorégional et métastatique, comme dans notre observation.

Dans notre situation, le diagnostic de tumeur vasculaire a été orienté par la TEP qui montrait une fixation inhabituelle pour une TVP, avec un aspect « en cocarde ». De plus, l'examen objectivait une infiltration de continuité des parties molles non suspectée malgré plusieurs examens écho-doppler réalisés par des opérateurs différents et expérimentés. Les données de la littérature sont insuffisantes sur l'intérêt de la TEP dans cette indication rare. Fort des résultats apportés par la TEP au cours des pathologies inflammatoires et des syndromes paranéoplasiques [8], cette observation nous conforte dans l'indication de la TEP en deuxième intention au cours des TVP inexplicables et récidivantes afin de rechercher une origine néoplasique.

Conclusion

Cette observation illustre l'intérêt de la TEP au cours des TVP inexplicables ou atypiques, permettant dans notre cas de redresser le diagnostic.

Conflits d'intérêts

Aucun.

Références

- [1] Gutierrez JC, Perez EA, Franceschi D, Moffat Jr FL, Livingstone AS, Koniaris LG. Outcomes for soft-tissue sarcoma in 8249 cases from a large state cancer registry. *J Surg Res* 2007;141:105–14.
- [2] Mayer F, Aebert H, Rudert M, Königsrainer A, Horger M, Kann L, et al. Primary malignant sarcomas of the heart and great vessels in adult patients—A single-center experience. *Oncologist* 2007;12:1134–42.
- [3] Subramaniam MM, Martinez-Rodriguez M, Navarro S, Rosaleny JG, Bosch AL. Primary intravascular myxoid leiomyosarcoma of the femoral vein presenting clinically as deep vein thrombosis: a case report. *Virchows Arch* 2007;450:235–7.
- [4] Mingoli A, Feldhaus RJ, Cavallaro A, Stipa S. Leiomyosarcoma of the inferior vena cava: Analysis and search of world literature on 141 patients and report of three new cases. *J Vasc Surg* 1991;14:688–99.
- [5] Brassens S, Chevalier JM, Leblainvaux M. A strange case of phlebitis. *Ann Cardiol Angeiol* 2003;52:375–8.
- [6] Joyeux A, Moreau P, Senac JP, Thévenet A. Leiomyosarcoma of the femoral vein. A propos of a case. *J Mal Vasc* 1984;9:211–4.
- [7] Bonnet S, Eggenspieler P, Vedrine L, Camparo P, Baranger B. Leiomyosarcoma of the middle segment of the inferior vena cava: tactical problems raised by renal and caval revascularization. *J Mal Vasc* 2006;31:79–84.
- [8] Linke R, Voltz R. FDG-pet in paraneoplastic syndromes. *Recent Results Cancer Res* 2008;170:203–11.