

\*KAROLINA PASZTALENIEC-IGLIK<sup>1</sup>, MAŁGORZATA KOŁODZIEJCZAK<sup>2</sup>, JACEK BIERCA<sup>1</sup>, IWONA SUDOŁ-SZOPIŃSKA<sup>2-4</sup>

## Nietypowa lokalizacja mięśniaka w lewym dole kulszowo-odbytniczym – opis przypadku

Atypical location of leiomyoma in the left ischioirectal fossa – a case report

<sup>1</sup>Department of General Surgery, Hospital in Ostrów Mazowiecka  
Head of Department: Jacek Bierca, MD, PhD

<sup>2</sup>Warsaw Proctology Centre, Saint Elizabeth's Hospital, Mokotów Medical Centre  
Head of Centre: Associate Professor Małgorzata Kołodziejczak, PhD

<sup>3</sup>Department of Radiology, Eleonora Reicher National Institute of Geriatrics, Rheumatology and Rehabilitation, Warsaw  
Head of Department: Professor Iwona Sudoł-Szopińska, MD, PhD

<sup>4</sup>Department of Diagnostic Imaging, Second Faculty of Medicine, Medical University of Warsaw  
Head of Department: Professor Wiesław Jakubowski, MD, PhD

### Streszczenie

Mięśniak gładkokomórkowy jest nowotworem łagodnym wywodzącym się z komórek mięśniowych gładkich. U kobiet najczęstszą lokalizacją mięśniaka jest macica. Często lokalizacją tych zmian jest także warstwa mięśniowa właściwa przewodu pokarmowego, w tym przede wszystkim żołądka i jelita cienkiego. Umieszczenie mięśniaka w okolicy anorektalnej jest rzadkie. Autorzy przedstawiają przypadek pacjentki z bezobjawowym mięśniakiem gładkokomórkowym zlokalizowanym w lewym dole kulszowo-odbytniczym, który został wykryty podczas tomografii komputerowej miednicy mniejszej i potwierdzony w przezodbytniczym badaniu ultrasonograficznym. Obraz zmiany w tych badaniach nie był charakterystyczny i wymagał różnicowania z innymi patologiami, łącznie z nowotworem złośliwym. Guz został wycięty w całości z dostępu kroczonego. Przebieg pooperacyjny był niepowikłany, nie stwierdzono wznowu odległej po pół roku od zabiegu.

**Wnioski.** 1. Mięśniak gładkokomórkowy może lokalizować się w dole kulszowo-odbytniczym. 2. Tomografia komputerowa i ultrasonografia przezodbytnicza pozwalają na jego wykrycie, określenie wielkości, morfologii i lokalizacji, w tym stosunku do odbytnicy i kanału odbytu. 3. Obraz mięśniaka w badaniach obrazowych nie pozwala na określenie jego typu histopatologicznego, decyduje ocena patomorfologa. W różnicowaniu należy wziąć pod uwagę również nowotwory złośliwe.

### Słowa kluczowe

mięśniak odbytnicy,  
guz w dole kulszowo-odbytniczym,  
ultrasonografia transrektalna

### Summary

Leiomyoma is a benign tumour originating from smooth muscle cells. The uterus is the most common location for leiomyoma in women. The muscle layer of the digestive tract, stomach and small intestine in particular, is also a common location for these lesions. Anorectal location is very rare. We present a case of a female patient with asymptomatic leiomyoma located in the left ischioirectal fossa, which was found in pelvic CT and confirmed by transrectal ultrasound. The presentation of the lesion was nonspecific and required differentiation against other pathologies, including malignancies. A total resection through a perineal approach was performed. The postoperative period was uneventful; no distant recurrence was observed 6 months after surgery.

### Keywords

rectal leiomyoma, ischioirectal tumour,  
transrectal ultrasound

**Conclusions.** 1. The ischiorectal fossa is a possible location for leiomyoma. 2. Computed tomography and transrectal ultrasonography allow for its detection, determination of its size, morphology and location, including its relation to the rectum and the anal canal. 3. The imaging presentation of leiomyoma does not allow to determine its histopathological type. Pathomorphological findings are decisive. Differentiation should also include malignancies.

## WSTĘP

Mięśniak gładkokomórkowy jest łagodnym nowotworem wywodzącym się z komórek mięśniowych gładkich. U kobiet najczęstszą lokalizacją mięśniaka jest macica. Zmiany te mogą się także rozwinąć w warstwie mięśniowej właściwej przewodu pokarmowego, przede wszystkim żołądka i jelita cienkiego. Umieszczenie mięśniaka w okolicy anorektalnej jest rzadkie, a publikowane doniesienia dotyczące tego tematu opierają się na pojedynczych przypadkach (1-5).

Opublikowana przez Billingsa i wsp. w 2001 roku klasyfikacja wyróżnia dwa typy mięśniaków: tkanek miękkich oraz zaotrzewnowe i wewnątrz jamy brzusznej (ang. *leiomyomas of somatic soft tissue and retroperitoneal-abdominal leiomyomas*) (6).

W pierwszej grupie najczęstszą lokalizacją są: kończyny dolne i górne, tułów, okolica pachowa oraz plecy. Częstość występowania wśród kobiet i mężczyzn jest porównywalna. Nie obserwuje się nawrotów ani przerzutów odległych.

Druga grupa mięśniaków rozwija się w przestrzeni zaotrzewnowej i w jamie brzusznej. Dominują kobiety, głównie w okresie pomenopauzalnym. Również i w tej grupie nawroty i przerzuty są rzadkością.

Objawy kliniczne mięśniaka zlokalizowanego w okolicy anorektalnej są zależne od jego wielkości i lokalizacji anatomicznej względem ściany odbytnicy i kanału odbytu. Guz może nie dawać żadnych dolegliwości i zostać wykryty przypadkowo. Osiągając duże rozmiary, może uciskać ścianę odbytnicy i powodować uczucie nieskutecznego parcia, bóle, a nawet objawy podniekroźności, a przy naciekaniu na zwieracze objawy inkontynencji. Diagnostyka opiera się na badaniu klinicznym, badaniach obrazowych i badaniu histopatologicznym.

## OPIS PRZYPADKU

Sześćdziesięciodwuletnia kobieta została przyjęta do planowej operacji guza lewego dołu kulszowo-odbytniczego. Guz został wykryty przypadkowo podczas wykonanej dwa lata wcześniej tomografii komputerowej (TK) jamy brzusznej i miednicy mniejszej. Jego średnica wynosiła wtedy około 20 mm. Wykonana biopsja wykazała elementy tkanki łącznej i mięśniowej bez cytologicznych cech złośliwości.

Planowana do operacji kobieta była leczona z powodu choroby Hashimoto. Przed kilkoma laty poddała się usunięciu tłuszczaka ramienia prawego. Stan ogólny pacjentki był dobry, bez gorączki, bez dolegliwości bólowych. Badanie przedmiotowe klatki piersiowej i brzucha nie wykazało odchyleń. W badaniu *per rectum* w kanale odbytnicy po stronie lewej był wyczuwalny patologiczny opór modelujący ścianę odbytnicy, o wielkości około 40-50 mm.

## INTRODUCTION

Leiomyoma is a benign tumour originating from smooth muscle cells. The uterus is the most common location in women. However, these lesions may also develop in the muscle layer of the digestive tract, stomach and small intestine in particular. Anorectal location of leiomyoma is rare, with only single cases reported in the literature (1-5).

Classification system published by Billings et al. in 2001 distinguished two types of leiomyomas: leiomyomas of somatic soft tissue and retroperitoneal-abdominal leiomyomas (6).

The first group of lesions is usually located in the lower or upper limbs, trunk, the axillary region, and the back. The incidence among men and women is approximately equal. No recurrences or distant metastases are observed.

The second group of leiomyomas develops in the retroperitoneal space and abdominal cavity. It mainly affects women, postmenopausal in particular. Recurrences and metastases are also rare in this group.

The clinical manifestations of anorectal leiomyoma depend on its size and anatomical location relative to the rectal wall and the anal canal. The tumour may be asymptomatic and found accidentally. Large tumours may cause rectal wall compression resulting in a sensation of ineffective tenesmus, pain and even sub-obstruction as well as symptoms of incontinence in the case of sphincteric involvement. The diagnosis is based on clinical examination, imaging techniques and histopathology.

## CASE REPORT

A 62-year-old woman was admitted for a scheduled resection of a tumour located in the left ischiorectal fossa. The tumour was found accidentally, during pelvic and abdominal CT performed 2 years ago. The tumour had a diameter of 20 mm at that time. Biopsy was performed and showed connective and muscle tissue components without cytological features indicating malignancy.

The patient was treated due to Hashimoto's disease. She also underwent a resection of right arm lipoma several years ago. The patient was in good overall condition, with no fever or pain. Thoracic and abdominal physical examination showed no abnormalities. Rectal examination detected a palpable pathological mass, about 40-50 mm in size, deforming the rectal wall, in the anal canal on the left side.

## Badania dodatkowe

W kolonoskopii nie stwierdzono nieprawidłowości. W badaniu TK w tkance tłuszczowej dołu kulszowego lewego stwierdzono owalną zmianę ogniskową o wymiarach 30 x 45 mm, o gładkich zarysach. W ultrasonografii przezodbytniczej (ryc. 1a-c) w tkance tłuszczowej pośladka lewego uwidoczniono dobrze ograniczoną zmianę ogniskową, hipoechogeniczną, o niejednorodnej echogeniczności, przylegającą i modelującą zwieracz zewnętrzny odbytu na lewym obwodzie. Zmiana przylegała na 2/3 długości do kanału odbytu, w tym do dalszego końca mięśnia łonowo-odbytniczego. Wymiary w płaszczyźnie poprzecznej wynosiły 40 x 20 mm.

Pacjentkę zakwalifikowano do operacji wycięcia guza. Przed zabiegiem operacyjnym otrzymała dawkę profilaktyczną cefalosporyny pierwszej generacji.

## OPIS OPERACJI

Zabieg przeprowadzono w ułożeniu lewo-bocznym. Cięciem promienistym w okolicy odbytu po stronie lewej pod kontrolą palca w odbytnicy dotarto do zmiany guzowatej, dobrze odgraniczonej, o wielkości około 50 mm, zlokalizowanej w lewym dole kulszowo-odbytniczym. Guz wypreparowano i usunięto, odsuwając mięśnie zwieracze. Skontrolowano ranę, wykonano hemostazę. Założono wziernik operacyjny, nie stwierdzając uszkodzenia ściany odbytnicy. Warstwowo zeszyto ranę. Dośrodkową część rany pozostawiono do gojenia *per secundam*. Założono opatrunek (ryc. 2a-c).

Przebieg pooperacyjny był niepowikłany. W czasie wizyty kontrolnej po upływie miesiąca stwierdzono całkowite zagojenie rany. Powtórna ocena po pół roku nie wykazała cech wznowy.

W badaniu histopatologicznym rozpoznano mięśniak gładkokomórkowy o typowej budowie (guz biały, lity, otorebkowany), o średnicy 40 mm.

## DYSKUSJA

Mięśniaki gładkokomórkowe to nowotwory mezenchymalne zbudowane z komórek różnicujących się w kierunku mięśni gładkich. Makroskopowo są dobrze ograniczone, okrągłe lub

## Additional examinations

Colonoscopy showed no abnormalities. CT showed an oval focal lesion 30 x 45 mm in size, with smooth outline, located in the adipose tissue in the left ischioirectal fossa. Transrectal ultrasound (fig. 1a-c) showed a well-delineated, hypoechoic focal lesion with inhomogeneous echogenicity, adjacent to and deforming the external anal sphincter in the left periphery, located in the adipose tissue of the left buttock. About 2/3 of the length of the lesion was adjacent to the anal canal, including the distant end of the puborectal muscle. Transverse plane dimensions were 40 x 20 mm.

The patient was scheduled for tumour resection. She received a prophylactic dose of first-generation cephalosporin before the procedure.

## DESCRIPTION OF THE SURGICAL PROCEDURE

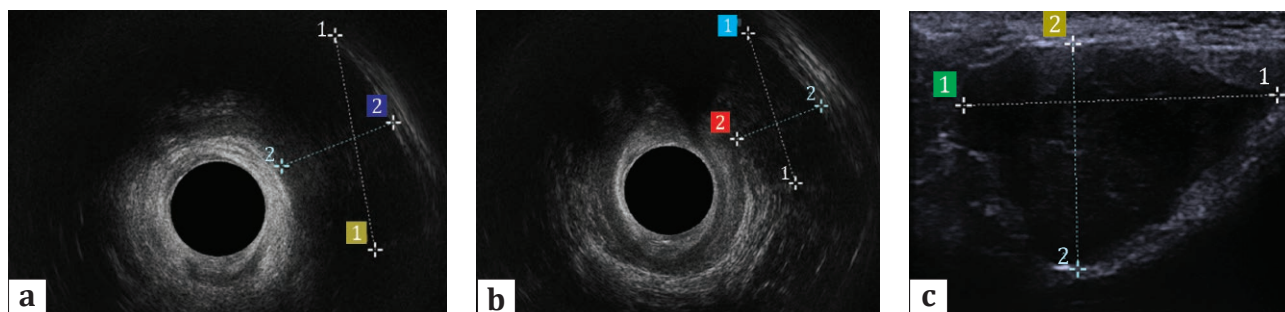
The surgery was performed in a left-sided position. Guided by rectal palpation, a radial incision was performed in the left anal region to reach a nodular, well-delineated lesion about 50 mm in size, located in the left ischioirectal fossa. The tumour was dissected and removed, with the sphincter muscles moved away. The wound was controlled and hemostasis was performed. A surgical speculum was inserted and no rectal wall damage was observed. The wound was sutured in layers. The middle part of the wound was left for healing *per secundam*. A dressing was placed on the wound (fig. 2a-c).

The postoperative period was uneventful. A follow-up after one month showed a complete healing of the wound. Another follow-up after 6 months showed no signs of recurrence.

Histopathology revealed a typical leiomyoma (white, solid, encapsulated tumour) 40 cm in diameter.

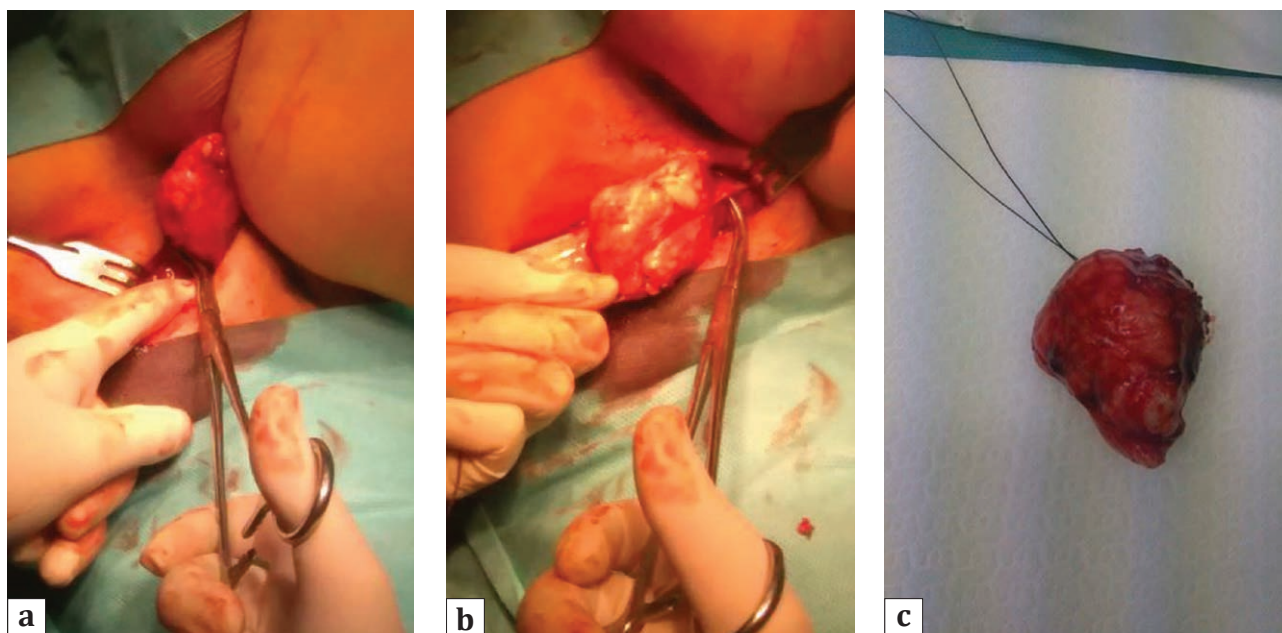
## DISCUSSION

Leiomyomas are mesenchymal tumours composed of cells that differentiate into smooth muscles. Macroscopically,



**Ryc. 1a-c.** W badaniu USG transrektalnym (a, b) oraz przezkroczeniowym (c) widoczna zmiana ogniskowa lita, hipoechogeniczna, o jednolitej echogeniczności, przylegająca do zwieracza na całej ich długości, o wymiarach w płaszczyźnie poprzecznej 28 x 16 mm, w osi długiej 40 mm. Poza tym kanał odbytu prawidłowy

**Fig. 1a-c.** Transrectal (a, b) and transperineal ultrasound (c) shows a solid focal hypoechoic lesion with homogeneous echogenicity, adjacent to the anal sphincters throughout their length, with transverse plane dimensions of 28 x 16 mm, 40 mm in the long axis. Other than that, the anal canal unremarkable



**Ryc. 2a-c.** Zdjęcia z operacji (a-c): preparowanie zmiany (a, b), otorebkowana zmiana wycięta w całości (c)  
**Figs. 2a-c.** Surgery images (a-c): tumour resection (a, b), totally resected encapsulated tumour (c)

owalne, spoiste, na przekroju najczęściej jednolite, białe lub szarobiałe, czasem z różnej wielkości zwapnieniami. W obrazie mikroskopowym widoczne są pęczki równoległe ułożonych komórek mięśni gładkich, tkanka łączna włóknista, mogą być widoczne obszary obrzęku, szkliwienia i zwapnień.

Najczęstszą lokalizacją mięśniaka gładkokomórkowego u kobiet jest macica. Umieszczenie mięśniaka w okolicy anorektalnej jest rzadkie. W takich przypadkach guz jest zazwyczaj zlokalizowany w ścianie odbytnicy. Objawy mięśniaka gładkokomórkowego są niespecyficzne, zależne od lokalizacji. Guzy okolicy anorektalnej mogą dawać uczucie dyskomfortu, zaparcia, zaburzenia oddawania moczu, nieprawidłową wydzielinę z pochwy. W prezentowanym przypadku zmiana była bezobjawowa i została przypadkowo wykryta w badaniu TK.

Badania obrazowe pozwalają na rozpoznanie zmian okolicy anorektalnej (7-11). Na radiogramach można uwidocznić ognisko zwapnień. W badaniu USG przezodbytniczym mięśniaki są zazwyczaj hipoechogeniczne (ryc. 1a-c), ale mogą także wykazywać wysoką lub mieszaną echogeniczność, zawierają zwapnienia, obszary płynowe odpowiadające torbielom, martwicy czy degeneracji. WTK gęstość mięśniaków odpowiada tkance miękkiej, mogą zawierać zwapnienia położone obwodowe lub centralnie, prezentują różne wzorce wzmocnienia. Rzadziej wykonuje się MR miednicy, w którym mięśniak ma zmienny sygnał: w obrazach T1-zależnych niski do umiarkowanego, w T2-zależnych – niski z obszarami o odmiennym sygnale w przypadku obecnych zmian wstecznych, pokontrastowe wzmocnienie jest zmienne.

Leczeniem z wyboru mięśniaków jest operacyjne wycięcie. Uzyskanie materiału do badania histopatologicznego ma decydujące znaczenie diagnostyczne. Guzy wykazujące brak atypii, martwicy, brak albo niską aktywność mitotyczną

they present as well-delineated, round or oval, most often homogeneous in cross-section, grey or grayish-white lesions occasionally containing calcifications of various sizes. Microscopically, they present as bunches of parallel smooth muscle cells, fibrous connective tissue, possibly with areas of oedema, hyalinisation and calcifications.

The uterus is the most common location of leiomyoma in women. Anorectal leiomyomas are rare. In such cases, tumours are usually located in the rectal wall. Clinical manifestations of leiomyoma are non-specific and depend on its location. Anorectal tumours can cause discomfort, constipation, impaired urination and abnormal vaginal discharge. In the presented case, the lesion was asymptomatic and was found accidentally during a CT scan.

Imaging techniques allow to identify anorectal tumours (7-11). Focal calcifications may be visualised on radiograms. In transrectal ultrasound, leiomyomas usually present as hypoechoic (fig. 1a-c), however, they may also exhibit high or mixed echogenicity, contain calcifications, fluid regions corresponding to cysts, necrosis or degeneration. The CT density of leiomyomas corresponds to soft tissue. They may contain peripheral or central calcifications and present various enhancement patterns. Pelvic MRI, in which a leiomyoma has a variable signal: low-to-moderate in T1-weighted images, low with areas of different signal in the case of regressive lesions in T2-weighted images, with variable post-contrast enhancement, is rarely performed.

Surgical excision is a treatment of choice. Obtaining material for histopathological examination is of crucial diagnostic importance. Tumours exhibiting no atypia, necrosis, no or low mitotic activity are considered mild. Total tumour resection with a margin of healthy tissue minimises the risk

są uważane za łagodne. Doszczętne wycięcie guza, z marginesem zdrowych tkanek, minimalizuje ryzyko nawrotu guza. W przedstawionym przypadku guz został wycięty doszczętnie, wraz z torebką i marginesem zdrowych tkanek, a ponad 6-miesięczna obserwacja nie wykazała nawrotu choroby.

## WNIOSKI

1. Mięśniak gładkokomórkowy może lokalizować się w dole kulszowo-odbytniczym.
2. Tomografia komputerowa i ultrasonografia przezodbytnicza pozwalają na jego wykrycie, określenie wielkości, morfologii i lokalizacji, w tym stosunku do odbytnicy i kanału odbytu.
3. Obraz mięśniaka w badaniach obrazowych nie pozwala na określenie jego typu histopatologicznego, decyduje ocena patomorfologa. W różnicowaniu należy wziąć pod uwagę również nowotwory złośliwe.

of recurrence. In the presented case, a complete resection of the tumour along with the capsule and a healthy tissue margin was performed, and no recurrence was observed during a follow-up after more than 6 months.

## CONCLUSIONS

1. The ischiorectal fossa is a possible location for leiomyoma.
2. Computed tomography and transrectal ultrasonography allow for its detection, determination of its size, morphology and location, including its relation to the rectum and the anal canal.
3. The imaging presentation of leiomyoma does not allow to determine its histopathological type. Pathomorphological findings are decisive. Differentiation should also include malignancies.

## Konflikt interesów Conflict of interest

Brak konfliktu interesów  
None

## Adres do korespondencji Correspondence

\*Karolina Pasztaleniec-Iglik  
Oddział Chirurgii Ogólnej  
Szpitala Powiatowego  
w Ostrowi Mazowieckiej  
ul. Dubois 68,  
07-300 Ostrów Mazowiecka  
tel. +48 (29) 746-37-11 do 19  
spzzozom@wp.pl

## nadesłano/submitted:

10.05.2017

## zaakceptowano do druku/accepted:

31.05.2017

## Piśmiennictwo/References

1. Goyal N, Khurana N: Leiomyoma of rectus sheath: An uncommon entity: Report of two cases. *Indian J Pathol Microbiol* 2010; 53: 591-592.
2. AlShalabi O, Alahmar FO, Aljasem H et al.: Pelvic Myxoid Leiomyoma Mass between Vagina and Rectum. *Case Rep Surg* 2016; 2016: 3479132.
3. Dasari BV, Khosraviani K, Irwin TS, Scott M: Perianal leiomyoma involving the anal sphincter. *Ulster Med J* 2007; 76(3): 173-174.
4. Kim HJ, Lee KY, Kim YW: Case report: Imaging features of perianal leiomyoma. *Br J Radiol* 2009; 82(980): e168-170.
5. Kilpatrick SE, Mentzel T, Fletcher CD: Leiomyoma of deep soft tissue: clinicopathologic analysis of a series. *Am J Surg Pathol* 1994; 18: 576-582.
6. Billings SD, Folpe AL, Weiss SW: Do leiomyomas of deep soft tissue exist? An analysis of highly differentiated smooth muscle tumors of deep soft tissue supporting two distinct subtypes. *Am J Surg Pathol* 2001; 25: 1134-1142.
7. Eckardt AJ, Jenssen C: Current endoscopic ultrasound-guided approach to incidental subepithelial lesions: optimal or optional? *Ann Gastroenterol* 2015; 28(2): 160-172.
8. Casillas J, Joseph RC, Guerra JJ: CT appearance of uterine leiomyomas. *Radio Graphics* 1990; 10: 999-1007.
9. Arleo EK, Schwartz PE, Pei Hui P, McCarthy S: Review of Leiomyoma Variants. *Am J Roentgenol* 2015; 205: 912-921.
10. Fasih N, Shanbhogu AKP, Macdonald DB et al.: Leiomyomas beyond the Uterus: Unusual Locations, Rare Manifestations. *Radio Graphics* 2008; 28: 1931-1948.
11. Murase E, Siegelman ES, Eric K et al.: Uterine Leiomyomas: Histopathologic Features, MR Imaging Findings, Differential Diagnosis, and Treatment. *Radio Graphics* 1999; 19: 1179-1197.