

## ПЕРВИЧНАЯ ЛЕЙОМИОСАРКОМА НАДПОЧЕЧНИКА: КЛИНИЧЕСКИЙ СЛУЧАЙ И ОБЗОР ЛИТЕРАТУРЫ



© С.В. Лукьянов, К.М. Бликийн\*, С.С. Тодоров, В.Ю. Дерibas, Н.С. Лукьянов

Ростовский государственный медицинский университет, Ростов-на-Дону, Россия

Лейомиосаркома надпочечника — это редкая мезенхимальная опухоль надпочечников, диагностика которой происходит чаще всего после того, как она достигает больших размеров. Первичная лейомиосаркома надпочечников встречается крайне редко: в англоязычной литературе ранее сообщалось только о 45 клинических наблюдениях. Мы представляем клинический случай 46-летнего мужчины с образованием правого надпочечника размерами 12×8×7,5 см. Пациенту было проведено оперативное вмешательство в объеме правосторонней адреналэктомии, нефрэктомии, пластики нижней полой вены. Фенотип подтвержден световой микроскопией и иммуногистохимией. При микроскопическом исследовании выявлено, что опухоль состоит из веретеновидных и полиморфных клеток, формирующих разнонаправленные пучковые структуры, имеющие высокую скорость митоза. Иммуногистохимически опухолевые клетки оказались положительны на актин гладких мышц, CD-34, CD-117.

**КЛЮЧЕВЫЕ СЛОВА:** надпочечники; новообразование надпочечников; лейомиосаркома; адреналэктомия.

### PRIMARY ADRENAL LEIOMYOSARCOMA: CLINICAL CASE AND LITERATURE REVIEW

© Stanislav V. Lukyanov, Karina M. Blikyan\*, Sergey S. Todorov, Viktoriya Y. Deribas, Nikita S. Lukyanov

Rostov State Medical University, Rostov-am-Don, Russian Federation

Adrenal leiomyosarcoma — rare mesenchymal tumor, which is diagnosed most often after it reaches a large size. Primary adrenal leiomyosarcoma is extremely rare: in the English-language literature, only 45 cases were previously reported. We report the case of a 46-year-old man with the formation of the right adrenal gland measuring 12×8×7,5 cm. The patient underwent right-sided adrenalectomy, nephrectomy, and plastic of the inferior vena cava. The phenotype was confirmed by light microscopy and immunohistochemistry. Microscopic examination of the tumor is represented by fusiform and polymorphic cells that form multidirectional bundle structures with a high rate of mitosis. Immunohistochemically, tumor cells were positive for smooth muscle actin, CD-34, CD-117.

**KEYWORDS:** adrenal glands; adrenal neoplasm; leiomyosarcoma; adrenalectomy.

#### АКТУАЛЬНОСТЬ

Одной из наиболее актуальных проблем клинической онкологии как в лечебном, так и в диагностическом плане являются первичные опухоли надпочечников. В данную группу заболеваний входят различные варианты злокачественных и доброкачественных опухолей, в число которых — и гормонально-активные опухоли надпочечников. В отечественной и зарубежной литературе существует большое количество различных классификаций опухолей надпочечников. Наиболее актуальной является классификация, основанная на цитогенетическом принципе [1–5].

- I. Эпителиальные опухоли коры надпочечников: аденома, карцинома.
- II. Мезенхимальные опухоли: миелолипома, липома, фиброма, ангиома.
- III. Опухоли мозгового слоя надпочечников: феохромоцитомы, нейробластомы, ганглиомы, симпатогониомы.

Крайне редко в надпочечниках могут встречаться гемангиомы, ангиосаркомы, лимфангиомы, лейомиомы, лейомиосаркомы, лимфомы, опухоли стромы гонадального тяжа, первичные меланомы [4–7].

Лейомиосаркомы надпочечников — это злокачественные мезенхимальные опухоли, развивающиеся из гладкомышечных клеток сосудов (чаще всего надпочечниковой вены и ее ветвей), характеризующиеся ядерной атипией и плеоморфизмом, высокой митотической активностью, некрозом опухолевых клеток и имеющие высокий риск метастазирования в кости, легкие и печень [7–10]. Дискутабельным остается и вопрос об источнике развития лейомиосаркомы в надпочечниках. Большинство исследователей полагают, что источником развития опухоли в надпочечниках являются клетки мышечной оболочки надпочечниковой вены [1, 4, 8, 11, 12]. Патогенез лейомиосаркомы надпочечников остается неизвестным, однако в некоторых исследованиях была отмечена взаимосвязь возникновения лейомиосаркомы надпочечников с инфекцией вируса Эпштейна–Барр у пациентов с синдромом приобретенного иммунодефицита (СПИД) [13–15].

Согласно анализу литературы, с 1981 по 2020 г. описано только 45 случаев лейомиосаркомы надпочечников [1, 4, 7, 10]. Впервые лейомиосаркома надпочечника была описана в 1981 г. Choi S.H. et al. [1]. Самый большой зарегистрированный срок выживаемости у пациента

с лейомиосаркомой надпочечника без наличия отдаленных метастазов, которому была проведена только адреналэктомия, составил 36 мес [16]. Наибольшая зарегистрированная выживаемость у пациента с лейомиосаркомой надпочечника с наличием метастазов в печень и лимфатические узлы, которому была выполнена адреналэктомия, нефрэктомия и химиотерапия, составил 53 мес [17].

Диагностика лейомиосаркомы надпочечников на ранних стадиях заболевания затруднена, что связано с отсутствием патогномичной клинической картины, биомаркеров, признаков гормональной активности [18–22]. Для лейомиосаркомы надпочечников характерен широкий спектр симптомов, что связано со сдавливанием соседних органов или метастазированием в кости, легкие и печень [4, 23–25]. Одной из наиболее частых жалоб у пациентов с лейомиосаркомой надпочечников является боль в боку или в животе (83%) [4, 8, 26–29]. Другие частые симптомы, встречающиеся у 50% пациентов данной группы, в виде наличия отеков нижних конечностей, варикозного расширения вен передней брюшной стенки, «паучьих ангиом», парестезий в конечностях связаны с прорастанием опухоли в нижнюю полую вену [4, 26, 29].

Для предоперационной диагностики лейомиосаркомы надпочечников используют компьютерную (КТ) и магнитно-резонансную (МРТ) томографию, что позволяет определить размеры опухоли, ее локализацию, резектабельность опухоли, края резекции и наличие метастазов [4, 8, 17, 26, 30]. При КТ лейомиосаркомы надпочечников представлены мягкотканной структурой с наличием зон некроза, внутриопухолевых кровоизлияний и кистозных изменений [3, 4, 18]. При магнитно-резонансном исследовании лейомиосаркомы надпочечников представлены гипо- и изоинтенсивными на T1-взвешенных изображениях и гиперинтенсивными на T2-взвешенных изображениях [18].

Основным методом лечения лейомиосаркомы надпочечников является хирургическое удаление опухоли в пределах здоровых тканей, в том числе с удалением органов, подверженных опухолевой инвазии [8, 16, 28, 31–34].

Диагноз лейомиосаркомы надпочечников устанавливается только после патологоанатомического исследования удаленного препарата [1, 4, 6, 8, 30, 33, 35–38]. Патологоанатомический диагноз лейомиосаркомы надпочечников основан на гистологическом и иммуногистохимическом исследованиях [4, 9, 27, 38, 39]. Микроскопически для лейомиосаркомы надпочечников характерны неоплазия веретенообразных клеток с ядерной атипией, плеоморфизмом, высокая митотическая активность и наличие некротических очагов. Иммуногистохимическая картина лейомиосаркомы надпочечников характеризуется экспрессией SMA в 90–95% случаев, десмина в 70–90% случаев, виментина, Н-кальдесмона [4, 8, 9, 12, 19, 24, 36, 38–40].

Анализ клинических исследований у пациентов с лейомиосаркомой надпочечников не выявил преимуществ проведения послеоперационной адьювантной лучевой терапии или химиотерапии [4, 8, 9, 12, 15, 24].

Согласно данным литературы, в мировой практике лейомиосаркома надпочечников встречается редко [41–44]. В связи с этим мы представляем наше собственное клиническое наблюдение пациента с лейомиосаркомой надпочечника.

## ОПИСАНИЕ СЛУЧАЯ

Пациент М., 46 лет, поступил в университетскую клинику в январе 2004 г. с жалобами на постоянные боли в правой половине живота и спины, возникающие с утра и усиливающиеся при физической нагрузке, чувство тяжести в правом подреберье, периодическое повышение АД до 160/100 мм рт.ст., парестезии в области стоп.

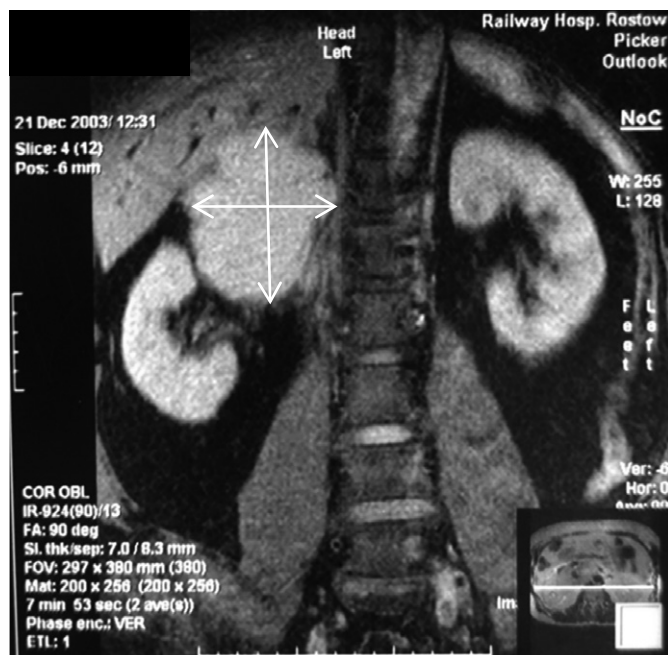
Из анамнеза известно, что отметил появление боли такого характера в июне 2003 г. В течение 15 лет болеет мочекаменной болезнью, три раза выполнялась дистанционная литотрипсия. Поэтому он не обратил особого внимания на очередную болевую приступ, посчитав это проявлением мочекаменной болезни. Было выполнено УЗИ почек и обнаружены конкременты с обеих сторон. В августе 2003 г. боли усилились и стали иррадиировать в правую поясничную область. Больной был госпитализирован в хирургическое отделение с диагнозом: острый ретроцекальный аппендицит. Выполнена аппендэктомия. Сразу после выписки из стационара отметил возобновление боли в правом подреберье, повышение АД до 160/100 мм рт.ст. В декабре 2003 г. при УЗИ органов брюшной полости обнаружено жидкостное образование из области ворот правой почки размерами 120×80×75 мм, деформирующее лоханочно-мочеточниковый сегмент. Физикальное обследование и лабораторные исследования не выявили отклонений от нормы. Выполнено МРТ брюшной полости: над правой почкой выявлено объемное образование размерами 142×101×81 мм, с четкими бугристыми контурами, прорастающее воротную вену и нижнюю поверхность печени (рис. 1).

В январе 2004 г. пациент был прооперирован: выполнено удаление опухоли правого надпочечника, нефрэктомия справа, пластика нижней полой вены.

Макроскопически опухолевая ткань серо-розового цвета, напоминала рыбье мясо, с участками желтоватого и бурого цвета, фрагментами сдавленной ткани надпочечника по периферии опухоли. Материал фиксирован в 10% забуференном формалине, после рутинной проводки, заливки в парафин, микротомия срезов толщиной 3–4 мкм, было выполнено окрашивание гематоксилином-эозином, по Хочкису (ШИК-реакция). Иммуногистохимическое исследование выполнено с использованием моноклональных антител (табл. 1). Микроскопия и микрофотографирование выполнены с использованием микроскопа LeicaDM 1000 с комплектом оборудования для цифровой микрофотографии (Германия).

При гистологическом исследовании опухоль построена из веретеновидных и полиморфных клеток с эозинофильной цитоплазмой, формирующих разнонаправленные пучковые структуры (рис. 2а). В опухоли часты фигуры митозов, в том числе атипичных (рис. 2б). Обширные очаги некрозов, встречаются крупные клетки с уродливыми гиперхромными ядрами (рис. 2в).

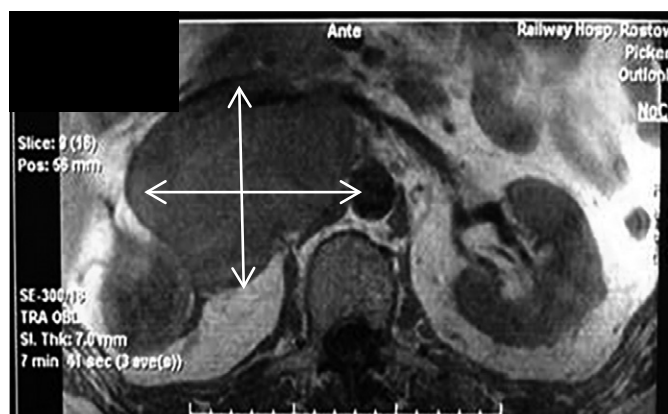
В ткани опухоли есть участки стенки крупной вены, на большем протяжении инфильтрированной вышеописанными атипичными клетками. Данный факт может свидетельствовать о том, что опухоль берет свое начало из стенки надпочечниковой вены, что подтверждено при МРТ-исследовании. Также опухоль инвазирует ткань надпочечника, окружающую клетчатку. Местами имеется прорастание опухоли в просветы мелких кровеносных сосудов.



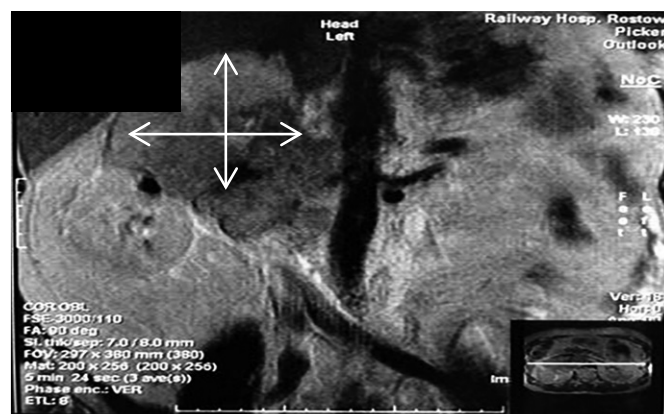
a



б



в



г

Рисунок 1. Магнитно-резонансные изображения лейомиосаркомы правого надпочечника, на снимках изображено четко очерченное неоднородное образование над правой почкой (указано стрелками): T1-взвешенные изображения в коронарном срезе (а) и сагиттальном срезе (б, в, г).

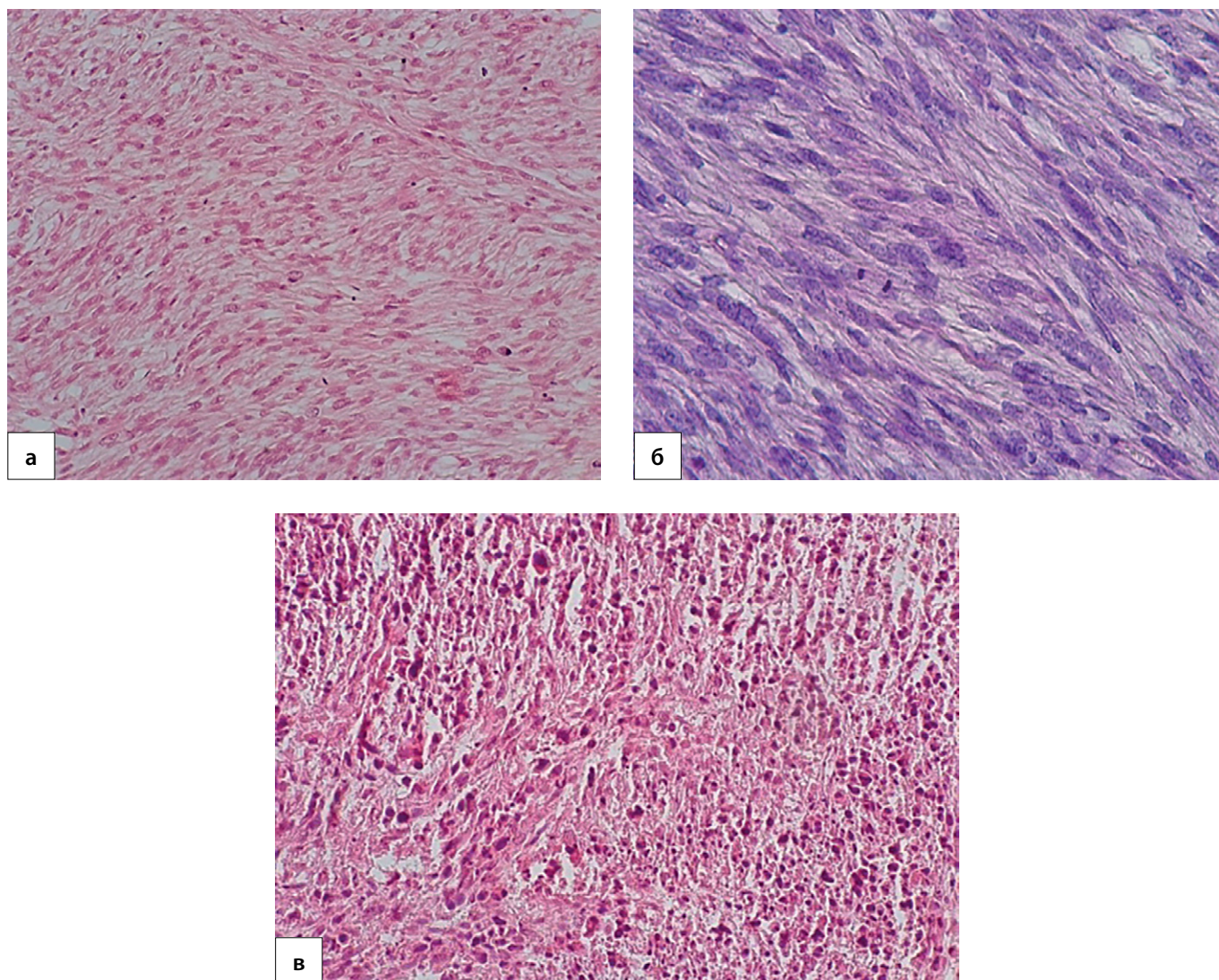
Таблица 1. Иммуногистохимическое исследование препарата

Название антитела	Производитель (фирма)	Клон	Происхождение антитела	Разведение
Ki-67	Cell Marque, США	SP6	Rabbit monoclonal	1:100
S-100	DAKO, Дания	FLEX	Rabbit polyclonal	rtu
Виментин	Cell Marque, США	V9	Mouse monoclonal	rtu
CD117	Cell Marque, США	c-kit (YR145)	Rabbit monoclonal	rtu
CD34	Cell Marque, США	QEnd/10	Mouse monoclonal	rtu
SMA	Cell Marque, США	HNF35	Mouse monoclonal	1:100

С целью дифференциальной диагностики с опухолью фиброгистиоцитарного и нейрогенного происхождения и оценки характера роста было проведено иммуногистохимическое исследование.

Иммунофенотип опухоли характеризуется: отсутствием экспрессии виментина в большей части опухолевых клеток; яркой мембранно-цитоплазматической

экспрессией специализированного гладкомышечного актина (рис. 3а); S-100 протеин — реакция негативная в клетках опухоли (рис. 3б); индекс пролиферации Ki-67 около 70% (рис. 3в); CD34 — яркая экспрессия в стенках многочисленных кровеносных сосудов в ткани опухоли, мембранно-цитоплазматическая экспрессия в части опухолевых клеток, что может косвенно указывать



**Рисунок 2.** Лейомиосаркома правого надпочечника: а — веретеновидные клетки с эозинофильной цитоплазмой, формирующие разнонаправленные пучковые структуры (увеличение  $\times 200$ , окрашивание — гематоксилин-эозин); б — фигуры митозов, в том числе атипичных (увеличение  $\times 400$ , окрашивание — PAS-реакция); в — очаги некрозов, крупные клетки с уродливыми гиперхромными ядрами (увеличение  $\times 200$ , окрашивание — гематоксилин-эозин).

на происхождение опухоли из сосудистой стенки (рис. 3г); CD117 — дискретная ядерная экспрессия в клетках опухоли, что указывает на нарушение транскрипции белка (рис. 3д).

Таким образом, морфоиммунофенотип опухоли (G3/G3) свидетельствует о лейомиосаркоме надпочечника высокой степени злокачественности. Гистологический диагноз: высокодифференцированная лейомиосаркома с очагами некроза. Большая часть ткани надпочечника атрофирована, местами отмечается аденоматозная гиперплазия пучкового слоя коры с образованием узелков. Обширное кровоизлияние в корковое и мозговое вещество надпочечника.

Через 6 мес после проведенного оперативного вмешательства пациент умер.

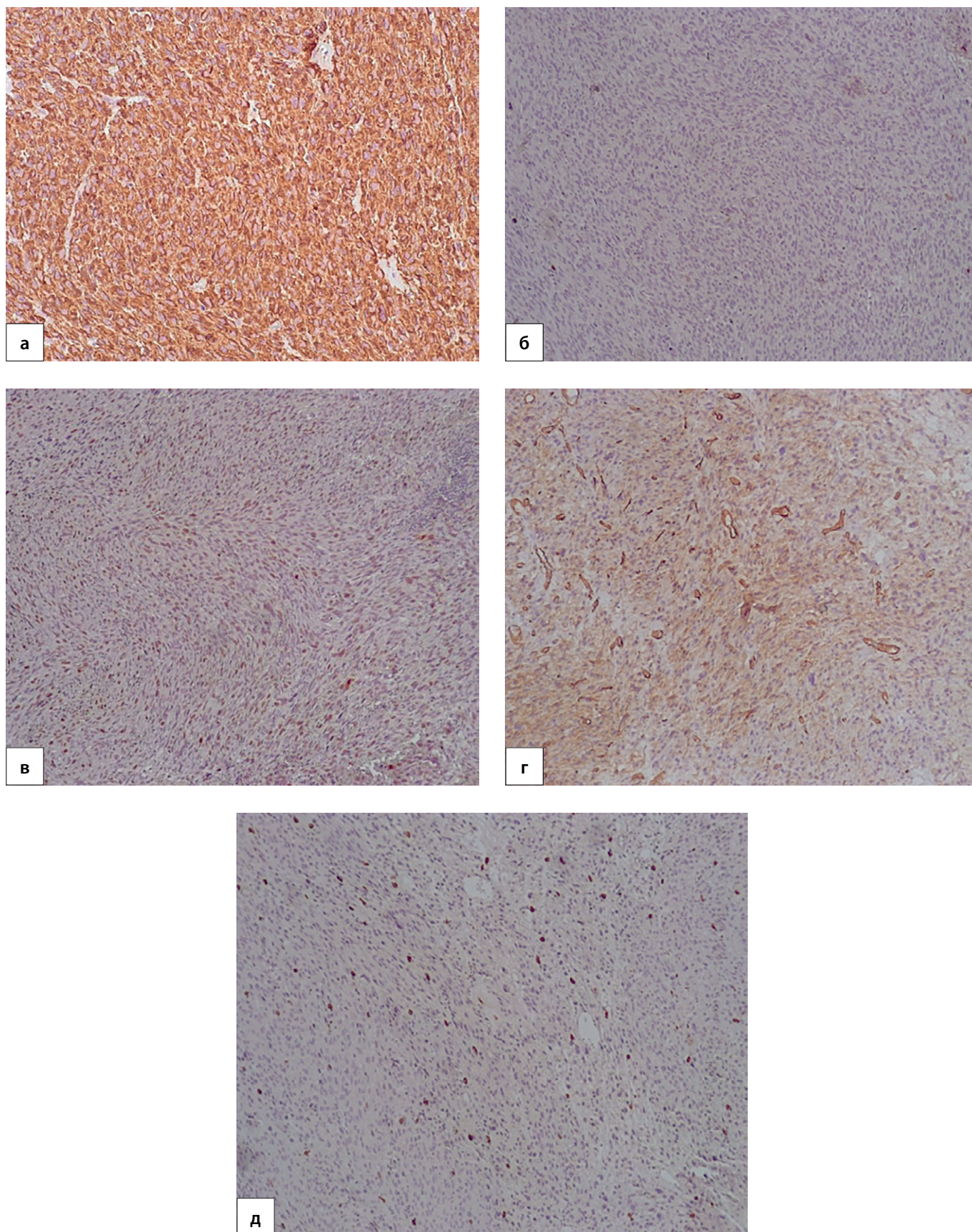
## ОБСУЖДЕНИЕ

Лейомиосаркома надпочечников — одна из самых редких разновидностей злокачественных опухолей. Мировая литература имеет данные о 45 случаях лейомиосаркомы надпочечников [3, 37, 38, 40]. Приведенное нами клиническое наблюдение еще раз

показывает, что лейомиосаркома надпочечников диагностируется на поздних стадиях заболевания. Причиной поздней диагностики являются: высокий темп роста опухоли; появление клинических симптомов, связанных не с биологическими особенностями опухоли, а с ее воздействием на окружающие органы; отсутствие биомаркеров; недостаточный опыт диагностики и лечения этой патологии у врачей. Дискутабельными остаются и вопросы о тактике послеоперационного ведения пациентов с лейомиосаркомой надпочечников. К сожалению, общий прогноз для пациентов с данной патологией остается плохим, что связано с агрессивным течением заболевания.

## ЗАКЛЮЧЕНИЕ

Небольшой накопленный опыт лечения данной патологии пока не позволяет выявить предикторы заболевания, сформировать алгоритм диагностических и лечебных мероприятий, повысить выживаемость пациентов. Для решения этих задач требуется кооперация хирургов, онкологов, морфологов, генетиков во всем мире.



**Рисунок 3.** Лейомиосаркома правого надпочечника: а — яркая мембранно-цитоплазматическая экспрессия специализированного гладкомышечного актина (увеличение  $\times 200$ , иммуногистохимия (ИГХ) с антителом к SMA); б — реакция негативная в клетках опухоли (увеличение  $\times 200$ , ИГХ с антителом к протеину S-100); в — индекс пролиферации 70% (увеличение  $\times 200$ , Ki-67); г — яркая экспрессия в стенках многочисленных кровеносных сосудов в ткани опухоли, мембранно-цитоплазматическая экспрессия в части опухолевых клеток (увеличение  $\times 200$ , ИГХ с антителом к CD-34); д — дискретная ядерная экспрессия в клетках опухоли (увеличение  $\times 200$ , ИГХ с антителом к CD-117).

## ДОПОЛНИТЕЛЬНАЯ ИНФОРМАЦИЯ

**Источники финансирования.** Работа выполнена по инициативе авторов без привлечения финансирования.

**Конфликт интересов.** Авторы декларируют отсутствие явных и потенциальных конфликтов интересов, связанных с содержанием настоящей статьи.

**Участие авторов.** Все авторы принимали непосредственное участие в подготовке статьи, а также одобрили финальную версию статьи

перед публикацией, выразили согласие нести ответственность за все аспекты работы, подразумевающую надлежащее изучение и решение вопросов, связанных с точностью или добросовестностью любой части работы.

**Согласие пациента.** Пациент добровольно подписал информированное согласие на публикацию персональной медицинской информации в обезличенной форме в журнале «Эндокринная хирургия».

## СПИСОК ЛИТЕРАТУРЫ | REFERENCES

- Choi Sh, Liu K. Adrenal leiomyosarcoma and its angiographic features: a clinical case. *J Surg Oncol.* 1981;16(2):145-148. doi: <https://doi.org/10.1002/jso.2930160205>
- Fletcher CDM. *WHO classification of soft tissue and bone tumors.* Lyon: IARC Press; 2013.
- Etten B, van Ijken MG, Mooi WJ, et al. Primary adrenal leiomyosarcoma. *Sarcoma.* 2001;5(2):95-99. doi: <https://doi.org/10.1155/S1357714X01000184>
- Sakellariu M, Dellaportas D, Grapsa E., et al. Primary adrenal leiomyosarcoma: a case report. *Mol Wedge Oncol.* 2020;12(4):317-320. doi: <https://doi.org/10.3892/mco.2020.1987>
- Fassnacht M, Libé R, Kroiss M, et al. Adrenocortical carcinoma: a clinician's update. *Nat Rev Endocrinol.* 2011;7(6):323-335. doi: <https://doi.org/10.1038/nrendo.2010.235>
- Matsui Y, Fujikawa K, Oka H, et al. Adrenal leiomyosarcoma spreading into the right atrium. *Int J Urol.* 2002;9(1):54-56. doi: <https://doi.org/10.1046/j.1442-2042.2002.00413.x>
- Nerli RB, Ghagane S, Dixit NS, et al. Adrenal leiomyosarcoma in a young adult male. *Int Cancer Conf J.* 2020;9(1):14-17. doi: <https://doi.org/10.1007/s13691-019-00387-1>
- Li J, Liang P, Zhang D, et al. Primary carcinosarcoma of the liver: imaging features and clinical findings in six cases and a review of the literature. *Cancer Imaging.* 2018;18(1):7. doi: <https://doi.org/10.1186/s40644-018-0141-0>
- Lack EE, Graham KV, Azumi N., et al. Primary adrenal leiomyosarcoma. Case report with immunohistochemical and ultrastructural study. *Am J Surg Pathol.* 1991;15(9):899-905. doi: <https://doi.org/10.1097/0000478-199109000-00011>
- Gong X, Yu Y, Zhan W. Ultrasonographic data of 1385 adrenal masses: a retrospective study of 1319 benign and 66 malignant masses. *J Ultrasound Med.* 2019;38(9):2249-2257. doi: <https://doi.org/10.1002/jum.14471>
- Wong S, Von Oppell WO, Scott-Coombs D. Cold feet from adrenal leiomyosarcoma. *JR Soc Med.* 2005;98(9):418-420. doi: <https://doi.org/10.1258/jrsm.98.9.418>
- Ozturk H. The defeat of the vena cava leiomyosarcoma of the adrenal glands. *Rare tumors.* 2014;6(2):5275. doi: <https://doi.org/10.4081/rt.2014.5275>
- Zetler PJ, Filipenko YD, Bilby JH, Schmidt N. Primary adrenal leiomyosarcoma in a man with acquired immunodeficiency syndrome (AIDS). Further evidence of an increase in the number of smooth muscle tumors associated with Epstein-Barr infection in AIDS. *Arch Pathol Lab Med.* 1995;119(12):1164-1167.
- Linos D, Kiriakopoulos AC, Tsakayannis DE, Theodoridou M, Chrousos G. Laparoscopic excision of bilateral primary adrenal leiomyosarcoma in a 14-year-old girl with acquired immunodeficiency syndrome (AIDS). *Surgery.* 2004;136(5):1098-1100. doi: <https://doi.org/10.1016/j.surg.2003.07.007>
- Candanedo-Gonzalez FA, Vela Chavez T, Serbulo-Vasquez A. Pleomorphic adrenal leiomyosarcoma with giant osteoclast-like cells. *Endocr Pathol.* 2005;16(1):75-81. doi: <https://doi.org/10.1385/ep.16:1:075>
- Quildrian S, Califano I, Carrizo F, et al. Primary adrenal leiomyosarcoma treated with laparoscopic adrenalectomy. *Endocrinol Nutr.* 2015;62(9):472-473. doi: <https://doi.org/10.1016/j.endonu.2015.05.008>
- Tomasich FD, Luz Mde A, Kato M, et al. [Primary adrenal leiomyosarcoma]. *Arq Bras Endocrinol Metabol.* 2008;52(9):1510-1514. doi: <https://doi.org/10.1590/s0004-27302008000900017>
- Karaosmanoglu AD, Gee MS. Sonographic data of adrenal leiomyosarcoma. *J Ultrasound Med.* 2010;29(9):1369-1373. doi: <https://doi.org/10.7863/jum.2010.29.9.1369>
- Kanthan R, Senger JL, Kanthan S. Three unusual adrenal incidentalomas: a 13-year review of surgical pathology. *World of J Surg Oncol.* 2012;10:64. doi: <https://doi.org/10.1186/1477-7819-10-64>
- Shao IH, Li VK, Chen TD, Chan YJ. Leiomyosarcoma of the adrenal vein. *Chang Gung Med J.* 2012;35(5):428-431. doi: <https://doi.org/10.4103/2319-4170.105475>
- Chen F, Lee V. *Retroperitoneal leiomyosarcoma.* In: Luo CH, editor. *Retroperitoneal tumors: clinical management.* Dordrecht: Springer Netherlands; 2018. P. 163-167. doi: <https://doi.org/10.1016/j.dld.2017.10.002>
- Surov A, Kehler J, Vinke A, et al. Muscle metastases: comparison of characteristics of various primary tumors. *Cancer imaging.* 2014;14:21. doi: <https://doi.org/10.1186/1470-7330-14-21>
- Goto J, Otsuka F, Kodera R, et al. A Rare Tumor in the Adrenal Region: Neuron-specific Enolase (NSE)-Producing Leiomyosarcoma in an Elderly Hypertensive Patient. *Endocr J.* 2008;55(1):175-181. doi: <https://doi.org/10.1507/endocrj.K07E-020>
- Hamada S, Ito K, Tobe M., et al. Bilateral adrenal LMS is treated with several topical treatments. *Int J Clin Oncol.* 2009;14(4):356-360. doi: <https://doi.org/10.1007/s10147-008-0844-5>
- Taniguchi A, Ujike T, Fujita K, et al. A case of adrenal leiomyosarcoma. *Hinyokika Kiyo.* 2017;63(11):465-469. doi: [https://doi.org/10.14989/ActaUroJap\\_63\\_11\\_465](https://doi.org/10.14989/ActaUroJap_63_11_465)
- Van Laarkhoven HV, Vinken M, Moose R, et al. Diagnostic obstacle for an elderly man with bone pain: how 18F-FDG-PET led to the diagnosis of adrenal leiomyosarcoma. *Anticancer Res.* 2009;29(2):469-472
- Lee S, Tanawit GD, Lopez RA, et al. Primary adrenal leiomyosarcoma with tissue eosinophilic infiltration. *Korean J Pathol.* 2014;48(6):423-425. doi: [10.4132/KoreanJPathol.2014.48.6.423](https://doi.org/10.4132/KoreanJPathol.2014.48.6.423)
- Gulpinar MT, Yildirim A, Gukluer B, et al. Primary adrenal leiomyosarcoma: a clinical case with immunohistochemistry and literature review. *Case Rep Urol.* 2014;2014:489630. doi: <https://doi.org/10.1155/2014/489630>
- Doppalapudi SK, Shah T, Fitzhugh VA, Bargman V. Primary adrenal leiomyosarcoma with dilatation of the inferior vena cava in a 70-year-old man. *BMJ Case Rep.* 2019;12(3). doi: <https://doi.org/10.1136/bcr-2018-227670>
- Alam MM, Nasser MF, Islam MF, Rahman MA. Primary adrenal leiomyosarcoma in an adult woman. *Mymensingh Med J.* 2014;23(2):380-383.
- Van TS, Okal IT, Salem RR, et al. Leiomyosarcoma of the adrenal vein: a new approach to surgical resection. *World of J Surg Oncol.* 2007;5:109 doi: <https://doi.org/10.1186/1477-7819-5-109>
- Deshmuk SD, Babanagare SV, Anand M, et al. Primary adrenal leiomyosarcoma: a clinical case with immunohistochemical study and literature review. *J Cancer Res Ther.* 2013;9(1):114-116. doi: <https://doi.org/10.4103/0973-1482.110394>
- Wei J, Song A, Tao J, et al. Primary adrenal leiomyosarcoma: case description and literature review. *Int J Surg Pathol.* 2014;22(8):722-726. doi: <https://doi.org/10.1177/1066896914526777>
- Onishi T, Yanagihara Y, Kikugawa T, et al. Primary adrenal leiomyosarcoma with lymph node metastases: a case report. *World of J Surg Oncol.* 2016;14(1):176. doi: <https://doi.org/10.1186/s12957-016-0936-z>
- Li ChV, Tsang YuM, Liu KL. Primary adrenal leiomyosarcoma. *Abdominal imaging.* 2006;31(1):123-124. doi: <https://doi.org/10.1007/s00261-005-0343-3>
- Mohanty SK, Balani JP, Parwani AV. Pleomorphic adrenal leiomyosarcoma: case and literature review. *Urology.* 2007;70(3):591. e5-7 doi: <https://doi.org/10.1016/j.urology.2007.07.029>

37. Mencoboni M, Bergallo M, Truini M, Varaldo M. Primary adrenal leiomyosarcoma: case and literature review. *Clin Med Oncol*. 2008;2:353-356. doi: <https://doi.org/10.4137/cmo.s627>
38. Bhalla A, Sandhu F, Sieber S. Primary adrenal leiomyosarcoma: case report and literature review. *Conn Med*. 2014;78(7):403-407
39. Mulani SR, Stoner P, Schlachterman A, et al. First Reported Case of Endoscopic Ultrasound-Guided Core Biopsy Yielding Diagnosis of Primary Adrenal Leiomyosarcoma. *Case Rep Gastrointest Med*. 2018;2018:1-3. doi: <https://doi.org/10.1155/2018/8196051>
40. Tambu TP, Lew LK, Raju GK. Leiomyosarcoma of the adrenal glands: a clinical case and a review of the literature. *Pathology*. 2003;35(1):47-49
41. Nagaraj V, Mustafa M, Amin E, et al. Primary Adrenal Leiomyosarcoma in an Arab Male: A Rare Case Report with Immunohistochemistry Study. *Case Rep Surg*. 2015;2015:1-4. doi: <https://doi.org/10.1155/2015/702541>
42. Kato T, Kato T, Sakamoto S, et al. Primary adrenal leiomyosarcoma with thrombosis of the inferior vena cava. *Int J Clin Oncol*. 2004;9(3):189-192. doi: <https://doi.org/10.1007/s10147-004-0383-7>
43. Nanpo I, Kuramoto T, Mori T, et al. Primary adrenal LMS: case report. *Nihon Hinyokika Gakkai Zasshi*. 2009;100(6):640-645. doi: <https://doi.org/10.5980/jpnjurol.100.640>
44. Hisaoka M, Wei-Qi S, Jiang V, et al. Specific but variable expression of h-caldesmon in leiomyosarcomas: immunohistochemical reevaluation of a new myogenic marker. *Appl Immunohistochem Mol Morphol*. 2001;9(4):302-308. doi: <https://doi.org/10.1097/00129039-200112000-00003>

## ИНФОРМАЦИЯ ОБ АВТОРАХ [AUTHORS INFO]

**\*Бликян Карина Михайловна**, к.м.н. [**Karina M. Blikyan**, MD, PhD]; адрес: Россия, 344022, Ростов-на-Дону, пер. Нахичеванский, д. 29 [Address: 29 Nahichevansky av., Rostov-on-Don, Russia];  
ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-5889-7138>; elibrary SPIN: 9918-5979; e-mail: [blikjankarina@mail.ru](mailto:blikjankarina@mail.ru)

**Лукьянов Станислав Викторович**, к.м.н., доцент [**Stanislav V. Lukyanov**, MD, PhD, assistant professor];  
ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-3317-0108>; elibrary SPIN: 4181-8431; e-mail: [svluk@rambler.ru](mailto:svluk@rambler.ru)

**Тодоров Сергей Сергеевич**, д.м.н., доцент [**Sergey S. Todorov**, MD, PhD, assistant professor];  
ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-8476-5606>; Scopus author ID: 7005217473; elibrary SPIN: 4404-3176;  
e-mail: [sertodorov@gmail.com](mailto:sertodorov@gmail.com)

**Дерибас Виктория Юрьевна**, ассистент [**Viktoriya Y. Deribas**, assistant]; ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-4541-6707>;  
Scopus author ID: 57217475386; elibrary SPIN: 8700-5205; e-mail: [derbasv@gmail.com](mailto:derbasv@gmail.com)

**Лукьянов Никита Станиславович** [**Nikita S. Lukyanov**]; ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-4691-417X>;  
e-mail: [lukrus61@gmail.com](mailto:lukrus61@gmail.com)

## ИНФОРМАЦИЯ

Рукопись получена: 22.06.2021. Одобрена к публикации: 16.09.2021.

## ЦИТИРОВАТЬ:

Лукьянов С.В., Бликян К.М., Тодоров С.С., Дерибас В.Ю., Лукьянов Н.С. Первичная лейомиосаркома надпочечника: клинический случай и обзор литературы // *Эндокринная хирургия*. — 2021. — Т. 15. — №1. — С. 36-42. doi: <https://doi.org/10.14341/serg12711>

## TO CITE THIS ARTICLE:

Lukyanov SV, Blikyan KM, Todorov SS, Deribas VY, Lukyanov NS. Primary adrenal leiomyosarcoma: clinical case and literature review. *Endocrine surgery*. 2021;15(1):36-42. doi: <https://doi.org/10.14341/serg12711>