

## Лимфангиоматоз толстой кишки: редкий случай эндоскопической диагностики

Д.Б. Дегтерев, Т.В. Трофимова, Д.В. Говоровский

ГБУЗ «Госпиталь для ветеранов войн», Санкт-Петербург, Россия

## Lymphangiomatosis of the large intestine: A rare case of endoscopic diagnostic

D.B. Degterev, T.V. Trofimova, D.V. Govorovskiy

Hospital for veterans of wars, Saint-Petersburg, Russia

### ВВЕДЕНИЕ

Кистозные лимфангиомы являются редким доброкачественным заболеванием, диагностируемым чаще всего в детском возрасте (частота встречаемости в популяции от 1/250000 до 1/20000) [12]. Их образование является следствием мальформации лимфатических сосудов. Наиболее часто лимфангиомы локализуются в местах концентрации регионарных лимфатических коллекторов – это области головы и шеи, подмышечные впадины (около 90%). Значительно реже они имеют висцеральное расположение – в грудной клетке и брюшной полости (примерно по 5% [12, 14]). В процесс могут вовлекаться кишечник и его брыжейка, печень, селезёнка, забрюшинная клетчатка, лимфатические сосуды и узлы средостения. Лимфангиома толстого кишечника является крайне редким заболеванием. Впервые случай был представлен Chisholm A.J. et al. в 1932 году [1]. Наибольшее количество наблюдений описано Matsuda T. et al. в 2001 году. Анализ включал 279 зарегистрированных к тому времени случаев в Японии [2]. Случаи множественных лимфангиом толстой кишки (лимфангиоматоз), описанные в литературе, являются единичными [2, 3, 4, 9, 10].

### КЛИНИЧЕСКОЕ НАБЛЮДЕНИЕ

Представляем клиническое наблюдение кистозного лимфангиоматоза толстой кишки.

В мае 2017 года в Госпиталь для ветеранов войн в экстренном порядке поступила пациентка М., 84 лет с жалобами на выраженную слабость, головокружение, примесь крови в кале, одышку при незначительной физической нагрузке.

В клиническом анализе крови Нб – 48 г/л, эритроциты –  $2,33 \times 10^{12}$ /л, среднее содержание гемоглобина – 20,6 пк (N – 26–34 пк), средний объём эритроцита – 75,2 фл (N – 80–100 фл), гематокрит – 17,5% (N – 36–48%). В биохимическом анализе крови желе-

зо – 1,3 мкмоль/л (N – 10,7–32,2 мкмоль/л), общий белок – 38,6 г/л (N – 62–78 г/л). По данным УЗИ брюшной полости: Диффузные изменения структуры печени и поджелудочной железы. ЖКБ. Конкременты желчного пузыря. Кисты обеих почек (диаметром до 9 мм). При гастроскопии: Недостаточность кардии. Дуодено-гастральный рефлюкс. Поверхностный гастрит. Очаговая атрофия слизистой желудка.

Пациентке была выполнена колоноскопия с осмотром терминального отдела подвздошной кишки. При этом были выявлены 6 округлых подслизистых образований – в области купола слепой кишки, восходящей и поперечной ободочной кишке и в селезёночном изгибе. Размеры их составили от 1,5 до 3,0 см. Большая часть имела широкое основание (рис. 1), одно располагалось на короткой ножке (рис. 2). Слизистая над ними визуально была не изменена, кроме образования в куполе слепой кишки, которое имело слегка синюшный оттенок и мелкие внутрислизистые геморрагии (рис. 3), у некоторых были характерные втянутые участки в центре. При щипцовой биопсии – консистенция подслизистых образований мягко-эластичная, структура ячеистая, имело место вытекание светло-жёлтой жидкости (рис. 4). Дифференциальная диагностика проводилась с кистозным пневматозом, глубоким кистозным колитом и эхинококкозом. Гистологическое заключение – гиперпластический полип.

С диагностической целью было решено выполнить резекцию одного из образований, имеющего ножку. Операция выполнялась под внутривенным наркозом. После подслизистой инъекции 10 мл раствора гелофузина, на ножку образования была наложена эндоскопическая варио-петля MTW и выполнена его резекция. Дно дефекта слизистой представляло подслизистый слой без видимых сосудов. Кровотечения при операции не возникло. Дефект слизистой был ушит четырьмя клипсами Olympus. Образование извлечено и отправлено на гистологическое исследо-



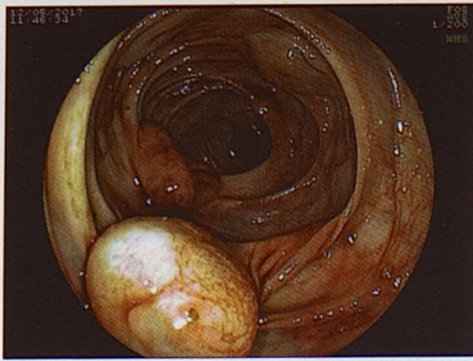


Рис. 1. Эндофото восходящей ободочной кишки

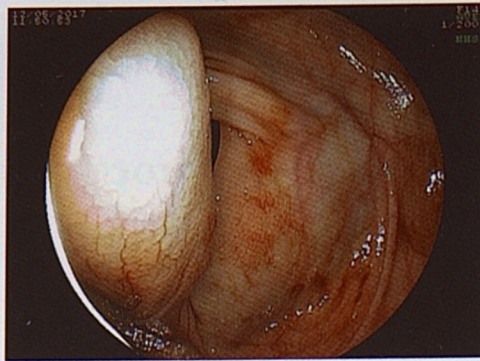


Рис. 2. Эндофото в селезеночном изгибе ободочной кишки



Рис. 3. Эндофото купола слепой кишки

вание. Микроскопическое описание: Слизистая оболочка с острым полнокровием капилляров, венул, умеренной лимфо-плазмочитарной инфильтрацией. В подслизистом слое – кистозно расширенные лимфатические сосуды с утолщенным эндотелием, гладкомышечными клетками в стенке. Часть лимфатических сосудов – мелкие тонкостенные, тесно прилежат друг к другу. Строма рыхлая, отёчная. Сосуды расположены хаотично, количество их увеличено (рис. 5 а, б). *Заключение (№8530-33 от 23.05.2017): Кистозная лимфангиома.*

Макроскопически они представляют собой округлые подслизистые образования, имеющие желтоватый, серый или желтовато-розовый оттенок. Слизистая над ними, как правило, не отличается от окружающей. У этих образований нередко имеется центральное вдавление. При инструментальной пальпации они имеют мягко-эластичную консистенцию. Состоят, как правило, из множества мелких полостей, имеющих эндотелиальную выстилку, и содержащих светлую прозрачную жидкость. В литературе не описано слу-

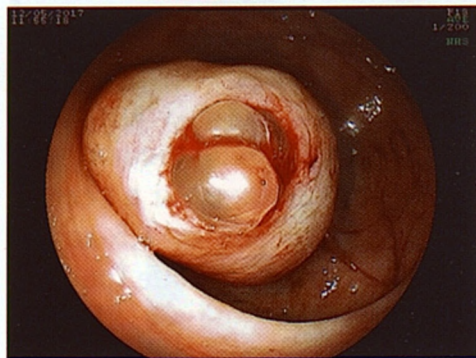


Рис. 4. Подслизистое образование после щипцовой биопсии

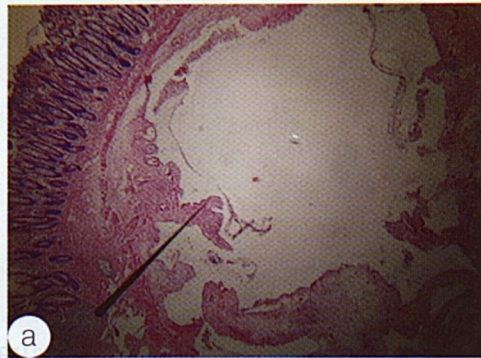
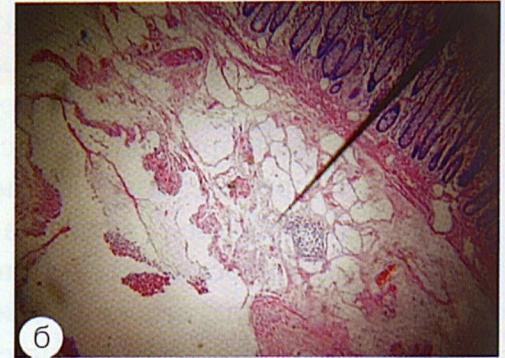


Рис. 5. а – Гистологическое исследование (окраска гематоксилин-эозин); б – Гистологическое исследование (окраска гематоксилин-эозин)



Послеоперационный период протекал без осложнений. Консервативное лечение включало переливание эритроцитарной массы, инфузии коллоидных и кристаллоидных растворов, препараты железа и средства для лечения сопутствующей патологии. Пациентка была выписана в удовлетворительном состоянии. В анализе крови при выписке Нб – 87 г/л, эритроциты –  $3,3 \times 10^{12}$ /л, среднее содержание гемоглобина в эритроците – 26,5 пг, средний объём эритроцита – 79,6 фл, гематокрит – 26,1%, лейкоциты –  $5,6 \times 10^9$ /л.

## ОБСУЖДЕНИЕ

Несмотря на широкое внедрение эндоскопии в современную медицинскую практику, случаи диагностики лимфангиом толстой кишки остаются крайне редки и чаще всего являются случайными находками. Различают простые, кавернозные и кистозные лимфангиомы. Наиболее часто встречается кистозный тип.

чаев малигнизации данных образований. Небольшие образования чаще имеют бессимптомное течение. Однако, несмотря на их доброкачественный характер, они склонны к инфильтративному росту и рецидивированию, а опухоли более 2–3 см диаметром могут стать причиной анемии, вызвать непроходимость кишечника (заворот или инвагинацию), быть причиной гипопропротеинемии, подвергаться воспалению [2, 3, 15]. Поэтому, при наличии крупных лимфангиом встаёт вопрос о хирургическом лечении. На сегодняшний день описаны различные виды оперативного пособия [2, 5, 7, 8, 11]. Эндоскопическое удаление данных образований возможно только при небольших опухолях и наличии узкого основания. В представленном нами случае, мы склонны предполагать связь железодефицитной анемии с лимфангиоматозом кишечника. Учитывая возраст больной и наличие сопутствующей патологии, была выбрана консервативная тактика лечения и динамическое наблюдение.



## ЗАКЛЮЧЕНИЕ

На сегодняшний день не существует стандартного подхода к лечению пациентов с лимфангиомами толстой кишки. Поскольку данные образования являются доброкачественными и большинство из них протекают бессимптомно, обычно они не требуют специального лечения. Однако крупные лимфангиомы могут вызвать серьёзные осложнения, поэтому хирурги, гастроэнтерологи и врачи-эндоскописты должны владеть имеющейся информацией о данной патологии. Вопрос о выборе тактики и выборе метода хирургического лечения должен решаться индивидуально.

## ЛИТЕРАТУРА

1. Chisholm A.J., Hillkowitz P. Lymphangioma of the rectum. *Am. J. Surg.* 1932;17:281–282.
2. Matsuda T, Matsutani T, Tsuchiya Y, Okihami Y, Egami K, Yoshioka M, Maeda S, Onda M. A clinical evaluation of lymphangioma of the large intestine: a case presentation of lymphangioma of the descending colon and a review of 279 Japanese cases. *J Nippon Med Sch.* 2001;68:262–265.
3. Kim J, Han D, Hong CH, Lee HL, Kim JP, Sohn JH, Hahm JS. Colonic lymphangiomatosis associated with proteinlosing enteropathy. *Dig Dis Sci.* 2005;50:1747–1753.
4. Watanabe T, Kato K, Sugitani M, Hasunuma O, Sawada T, Hoshino N, Kaneda N, Kawamura F, Arakawa Y, Hirota T. A case of multiple lymphangiomas of the colon suggesting colonic lymphangiomatosis. *Gastrointest Endosc.* 2000;52:781–784.
5. Zhuo C.H., Shi D.B., Ying M.G., Cheng Y.F., Wang Y.W., Zhang W.M., Cai S.J., Li X.X. Laparoscopic segmental colectomy for colonic lymphangiomas: a definitive, minimally invasive surgical option. *World J. Gastroenterol.* 2014;20(July (26)):8745–8750.
6. Suthiwartnarueput W, Kiatipunsodsai S., Kwankua A. Chaumrattanakul U Lymphangioma of the small bowel mesentery: a case report and review of the literature. *World J. Gastroenterol.* 2012;18(November (43)):6328–6332.
7. Nabeshima K., Machimura T., Wasada M., Ogoshi K., Makuuchi H. A case of colon lymphangioma treated with laparoscopyassisted ileocecal resection Tokai. *J. Exp. Clin. Med.* 2008;33(April (1)):61–64.
8. Kenney B., Smith B., Bensoussan A.L. Laparoscopic excision of a cystic lymphangioma. *J.Laparoendosc. Surg.* 1996;6(Suppl. 1):S99–101.
9. Jung SW, Cha JM, Lee JI, et al. A case report with lymphangiomatosis of the colon. *J Korean Med Sci.* 2010;25:155–158.
10. Lee JM, Chung WC, Lee KM, et al. Spontaneous resolution of multiple lymphangiomas of the colon: a case report. *World J Gastroenterol.* 2011;17:1515–1518.
11. Kanthi Rekha Badipatla, Chaitanya Chandrala, et al. Cystic Lymphangioma of the Colon: Endoscopic Removal beyond the Frontiers of Size. *Case Rep Gastroenterol.* 2017 JanApr;11(1): 178–183.
12. Lepre L, Costa G, Baldini D, et al. Emergency presentation of cystic lymphangioma of the colon: a case report and literature review. *Int J Surg Case Rep.* 2016;24:162–165.
13. Kinichi Hotta Kenichiro Imai Tadakazu Shimoda. Lymphangioma of the Colon: A Curious Endoscopic Finding. *Clin. Gastroenteol. and Hepatol.* 2014; vol 12(October)
14. В.К. Литовка, В.Н. Грона, И.П. Журило, С.В. Весёлый, Г.А. Сопов, К.В. Латышов, А.Ю. Гуныкин, Т.Ю. Моисеева. Лимфангиомы брыжейки у детей. *Украинский Журнал Хирургии*, 2011, № 3 (12)
15. Woo Chul Chung, HyeKang Kim, et al. Colonic lymphangiomatosis associated with anemia. *World J Gastroenterol.* 2008 Oct 7; 14(37): 5760–5762.

## КОНТАКТЫ

Денис Борисович Дегтерев – к.м.н., заведующий эндоскопическим отделением ГБУЗ «Госпиталь для ветеранов войн», 193079, Санкт-Петербург, ул. Народная, д. 21, к. 2 ddb@gvv-spб.ru