

# Diagnosis and Treatment of Mesenteric Cystic Lymphangioma: Case Report

Călin Molnar<sup>1</sup>, Vlad Latiș<sup>1</sup>, Victor Iosif Neagoe<sup>1</sup>, Doina Milutin<sup>2</sup>, Vlad-Olimpiu Butiurca<sup>1</sup>, Cosmin Nicolescu<sup>1</sup>, Daniel Popa<sup>1</sup>, Adrian Tudor<sup>1</sup> and Constantin Copotoiu<sup>1</sup>

<sup>1</sup>First Surgery Unit, Târgu Mureș Emergency County Hospital Romania

<sup>2</sup>Department of Pathology, Târgu Mureș Emergency County Hospital Romania

## Abstract

**Background:** Mesenteric cysts, and particularly lymphangiomas, occur very rarely in adult patients. Due to this low incidence and their non-specific symptomatology, they often present a difficulty in diagnosis.

**Case report:** We present the case of a patient aged 58 years admitted to the Surgical Clinic 1, Târgu Mureș Emergency County Hospital accusing diffuse abdominal pain and tenderness in the epigastrium. Abdominal ultrasound revealed a fluid cystic tumor, multi-septated, located in the root of the mesentery and the abdominal computer tomography confirmed this diagnosis. Surgery consisted of total cystectomy without compromising the intestinal segment and sparing the vascular structures in its vicinity. Cyst dimensions were approximately 70x50x30 mm and contained lymphatic fluid. The histopathological report confirmed a mesenteric cystic lymphangioma. The postoperative evolution was uneventful, with quick recovery and no postoperative complications.

**Conclusions:** The diagnosis of mesenteric cyst should be included in the differential diagnosis of intra-abdominal tumors in patients with nonspecific symptoms. Once this diagnosis is established histological differentiation between lymphangiomas and simple lymphatic cyst is essential. The total excision minimizes the recurrence rate, and their early removal can prevent complications caused by the compression and invasion of neighboring organs.

**Keywords:** Mesenteric lymphangioma; Mesenteric cysts

## Introducere

Limfangioamele chistice sunt tumori angiomatoase benigne, localizate mai ales la nivelul capului, gâtului (70-75%) și regiunii axilare (20%) [1]. Doar în 5% din cazuri acestea au alte localizări, la nivelul abdomenului cel mai adesea fiind localizate în mezenter, mezocolon și retroperitoneu [2]. Raportul adulți/copii este de 1/5 pentru pacienții spitalizați, incidența la vârsta adultă fiind de aproximativ 1:100.000-250.000 [1], cu o predominanță de trei ori mai crescută la sexul masculin [2]. Chisturile mezenterice pot apărea în orice parte a mezenterului și mezocolonului, cel mai frecvent fiind întâlnite în mezenterul ileal și mezocolonul drept (aproximativ 60% porțiunea ileală și 40% mezocolonul ascendent)[3].

Mennemeyer și Smith elaborează cea mai acceptată clasificare, bazată pe particularitățile histopatologice [4]:

- 1) Chisturi de origine limfatică (Chisturile mezenterice simple și limfangioamele mezenterice)
- 2) Chisturi de origine mezotelială (benigne sau maligne)
- 3) Chisturi enterice
- 4) Chisturi de origine urogenitală ;
- 5) Chisturi dermoide (Teratoame chistice);
- 6) Pseudochisturi-de origine infecțioasă sau traumatică.

Chisturile mezenterice simple și mezoteliale evoluează lent și sunt simptomatice în timp, pe când limfangioamele și mezotelioamele chistice dobândesc proprietăți invazive și implicit evoluție agresivă.[3]

Etiologia limfangioamelor este incertă, probabil determinată de o anomalie congenitală a sistemului limfatic ce cauzează sechestrarea țesutului limfatic în timpul dezvoltării embriologice [5]. Această teorie explică apariția limfangioamelor mai ales la copii [6]. Există autori care sugerează că traumatismele abdominale, obstruarea canalelor limfatice, procesele inflamatorii, intervențiile chirurgicale în antecedente sau radioterapia pot duce la apariția acestor entități patologice [7,8].

## Prezentarea Cazului

Prezentăm cazul unui pacient în vârstă de 58 de ani, din mediul urban, internat în Clinica Chirurgie nr. 1 din cadrul Spitalului Clinic Județean de Urgență Târgu-Mureș, acuzând dureri abdominale difuze de aproximativ 5 luni. Durerea a fost descrisă ca fiind de intensitate moderată, intermitentă, localizată preponderent în epigastru și mezogastru. Din antecedentele patologice ale bolnavului reținem o hepatită cronică virală B (confirmată în anul 2003) și gastrită cronică hiperacidă (recent diagnosticată) pentru care a urmat tratament cu inhibitori de pompă de protoni, lamivudină și hepatoprotectoare.

Examenul ecografic(13.01.2014) efectuat în spitalul teritorial pune în evidență un ficat de dimensiuni normale, omogen, fără dilatări ale venei porte și ale canalelor biliare intrahepatice, colecistul fiind de aspect normal. Pancreasul este greu apreciabil, însă inferior de corp se decelează o formațiune transonică, neregulată de 73 x 36 mm cu ecouri lineare declive în interior (septuri fine) (Figura 1).

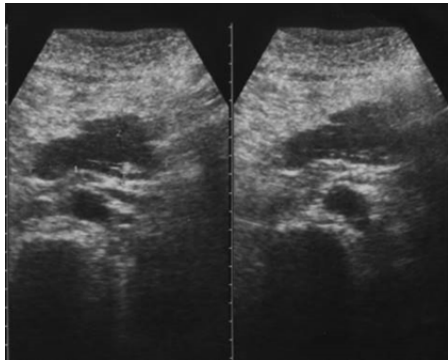
Tomografia computerizată abdominală efectuată nativ și cu substanță de contrast (15.01.2014) tranșează diagnosticul, descriind o masă cu densități lichidiene, omogenă, la nivelul mezenterului, median și paramedian drept, cu dimensiuni maxime de 69x27x53mm, bine delimitată, contur regulat (Figura 2). De asemenea se mai vizualizează câteva imagini limfo-ganglionare la nivelul mezenterului,

**\*Corresponding author:** Calin Molnar MD, PhD, First Unit of Surgery, Târgu Mureș Emergency County Hospital, Nicolae Grigorescu Street, No 31, 540136, Târgu Mureș, Mureș, Romania, Tel: +40 (0) 722 69 66 10; E-mail: molnar.calin@yahoo.com

Received May 14, 2014; Accepted June 23, 2014; Published June 30, 2014

**Citation:** Molnar C, Latiș V, Neagoe VI, Milutin D, Butiurca V, et al. [Diagnosis and Treatment of Mesenteric Cystic Lymphangioma: Case Report]. Journal of Surgery [Jurnalul de chirurgie] 2015; 10(4): 283-285 DOI:10.7438/1584-9341-10-4-8 [article in Romanian]

**Copyright:** © 2015 Molnar C, et al. This is an open-access article distributed under the terms of the Creative Commons Attribution License, which permits unrestricted use, distribution, and reproduction in any medium, provided the original author and source are credited.



**Figura 1:** Imaginea ecografică a chistului mezenteric (formațiune de 73x36mm, transonică, septată).

cu dimensiuni de până la 9 mm.

Examenul obiectiv general și local, efectuat în ziua internării, arată un pacient afebril, acuzând dureri abdominale minime, ușoară distensie, moderată sensibilitate la palpare în etajul superior, fără semne de iritație peritoneală, murmur intestinal prezent.

Paraclinic se constată valori normale, însă markerii antigenici HBs au fost mult crescuți (peste 17,3 la un interval de referință de 0-1,1).

După o pregătire preoperatorie adecvată se intervine chirurgical (24.02.2014) prin laparotomie mediană; la inspecția cavității peritoneale se confirmă diagnosticul de chist mezenteric corespunzător cadrului jejunal (Figura 3), situat în vecinătatea trunchiului venei mezenterice superioare. S-a practicat excizia formațiunii tumorale chistice mezenterice, cu ajutorul pensei Harmonic Focus Ultrasonic®, împreună cu tesutul grăos adiacent, menajând structurile vasculare din vecinătate (Figura 4) și păstrând viabilitatea intestinală. Se asociază și prelevarea unui limfonodul mezenteric pentru o eventuală stadializare.

Breșa mezenterică restantă a fost închisă cu fire separate, pentru a preveni o hernie internă. Inspecția minuțioasă a cavității peritoneale nu a pus în evidență prezența de alte modificări, intervenția încheindu-se prin laparorafie în planuri anatomice. Examinarea macroscopică a formațiunii excizate arată un chist unilocular cu dimensiuni de aproximativ 70x50x30 mm, de formă ovalară, culoare brun-gălbuie, cu perete subțiric (3-5mm), tapetat la interior de o membrană bine vascularizată, transparentă (Figura 5). La secționarea longitudinală a masei chistice s-au exteriorizat aproximativ 30 ml de lichid alb-deschis, opalescent, cu aspect lăptos, calități caracteristice limfei.

Examenul microscopic pune în evidență o formațiune cu aspect chistic delimitată de un perete conjunctivo-muscular, tapetat pe alocuri de endoteliu aplatizat, iar adiacent agregate limfoide și focare de histiocite cu citoplasmă spumoasă. Examinarea microscopică din limfonodulul mezenteric denotă histiocitoză sinusală. Diagnosticul histopatologic fiind de limfangiom chistic mezenteric (Figura 6).

Evoluția postoperatorie a bolnavului a fost favorabilă, cu reluarea tranzitului în a doua zi postoperator și externare în ziua a 5-a.

## Discuții

Chisturile mezenterice au fost descrise prima dată de în 1507 de Beneveni, în timpul unei autopsii la o fetiță de 8 ani. Prima descriere a unui chist mezenteric limfatic este legată de numele lui Rokitansky (1842), iar Tillaux a efectuat în 1880 prima excizie a unei formațiuni tumorale chistice [3]. Limfangioamele pot apărea fie ca leziuni unice, fie sub formă de formațiuni tumorale multiple de-a lungul intestinului [2].

Acestea sunt de obicei asimptomatice la adulți, fiind descoperite incidental, cu ocazia unor investigații pentru alte patologii, deseori constituind o surpriză intraoperatorie [5]. Clinic pacienții cu acestă

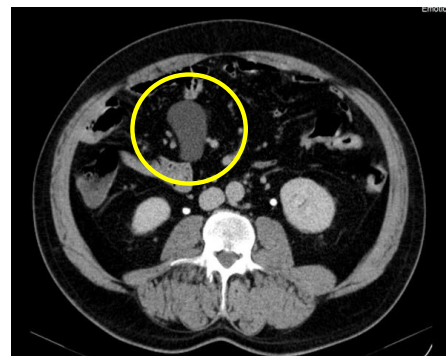
entitate rară se prezintă acuzând un tablou nespecific (dureri abdominale nesistematizate, meteorism grețuri, vărsături) [1]. Deși benigne, limfangioamele mezenterice pot crește semnificativ morbiditatea sau mortalitatea în cazul în care ating o anumită dimensiune și comprimă structurile adiacente. Au fost raportate complicații redutabile ale acestor formațiuni cum ar fi infecții secundare, ruptura chistului cu hemoragie, volvulus, sau ocluzie intestinală [9-12].

Examenul obiectiv urmat de ultrasonografie și computer-tomografie sunt pașii de bază în elucidarea diagnosticului [1-7]. Ecografia evidențiază structuri lichidiene, chistice, septate și ecouri caracteristice detritusurilor, hemoragiilor sau infecțiilor. Conținutul are de obicei o densitate similară cu cea a apei [13]. Secțiunile computer tomografice native pot ajuta la stabilirea punctului de origine, iar folosirea substanței de contrast evidențiază peretele chistului și septurile acestuia [14].

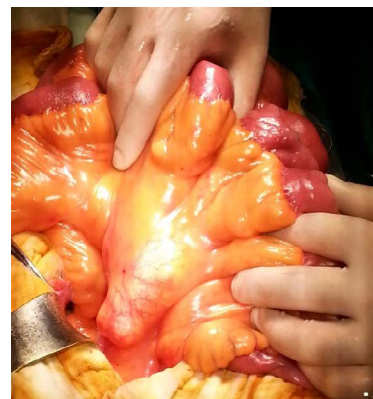
Diagnosticul diferențial al limfangioamelor include: chisturile mezenterice limfatice simple [3], pseudochistul pancreatic [12], chistul hidatic [13], colecțiile ascitice locale (maligne sau infecțioase- de exemplu în tuberculoză) [13], chisturile de incluziune peritoneale [15], paniculita chistică mezenterică (mezenterita sclerozantă)[16].

Elementul caracteristic histopatologic limfangiomului este reprezentat de prezența fibrelor musculare netede în interiorul peretelui acestuia; chisturile mezenterice limfatice sunt căptușite de un strat fibros și conțin doar celule endoteliale spre cavitatea chistului [17].

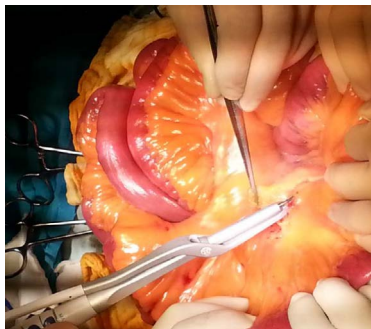
Excizia chirurgicală completă este metoda chirurgicală ideală în chisturile mezenterice, în special în cazul limfangioamelor [1-6]. Benigne histologic, limfangioamele se comporta de multe ori agresiv și tind să atingă dimensiuni enorme [13], unii pacienți necesitând o rezecție intestinală pentru îndepărtarea completă a chistului (înglobarea vaselor sangvine sau relația de imediată vecinătate cu acestea) [1-3].



**Figura 2:** Aspectul computer tomografic al leziunii mezenterice.



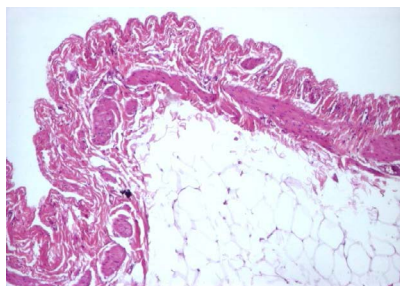
**Figura 3:** Imaginea intraoperatorie a chistului mezenteric.



**Figura 4:** Îndepărtarea chistului cu ajutorul penei Harmonic Focus Ultrasonic®.



**Figura 5:** Aspectul macroscopic chistic al limfangiomului mezenteric.



**Figura 6:** Imagine microscopică (hematoxilină-eozină): limfangiom chistic; de notat prezența fibrelor musculare netede în peretele chistului.

Urmărirea postoperatorie include monitorizare clinică, ecografică și computer tomografică.

## Concluzii

Un chist mezenteric, fie el limfangiom sau de altă natură, trebuie suspectat în prezența unei tumori abdominale palpabile, însoțită de dureri abdominale difuze, în condițiile unor examinări de laborator normale, la un pacient în stare generală relativ bună. În cazurile simptomatice, durerile abdominale acute sau cronice sunt cea mai comună caracteristică; alte acuze “de împrumut” depind de localizarea, dimensiunea și existența fenomenelor compressive a organelor de vecinătate (ocluzie intestinală, volvulus, infecții secundare, hemoragie, hidronefroza etc). Dintre investigațiile imagistice ecografia abdominală și computer-tomografia sunt metodele standard de diagnostic și de diferențiere față de alte suferințe abdominale ce îmbracă aceeași simptomatologie. Diferențierea intraoperatorie între chistul limfatic și limfangiom este de cea mai mare importanță, și poate fi realizată doar prin examinarea histopatologică a peretelui chistului. De aceea chistectomia totală este opțiunea terapeutică de elecție în tratamentul acestei patologii fie pe cale deschisă, fie prin metoda laparoscopică, având în vedere prezumția de malignitate a acestora și potențialul

acestor chisturi de a se extinde spre structurile învecinate. Odată îndepărtate, chisturile mezenterice rareori recidivează, iar pacienții au un prognostic excelent.

## Conflict de interese

Autorii nu au niciun conflict de interes.

## Bibliografie

- Izzo L, Galati G, Sassayannis PC, Binda B, D'Arielli D et al. (2003) Mesenteric cystic lymphangioma causing intestinal occlusion in an adult patient. *G Chir* 24: 347-349.
- Aprea G, Guida F, Canfora A, Ferronetti A, Giugliano A, et al. (2013) Mesenteric cystic lymphangioma in adult: a case series and review of the literature. *BMC Surgery* 13: A4.
- Miljkovi D, Gmijovi D, Radojković M, Gligorijević J, Radovanović Z (2007) Mesenteric cyst. *Arch Oncol* 15: 91-93.
- Mennemeyer R, Smith M (1979) Multicystic, peritoneal mesothelioma: a report with electron microscopy of a case mimicking intra-abdominal cystic hygroma (lymphangioma). *Cancer* 44: 692-698.
- Chen CW, Hsu SD, Lin CH, Cheng MF, Yu JC (2005) Cystic lymphangioma of the jejunal mesentery in an adult: A case report. *World J of Gastroenterol* 11: 5084-5086.
- Roisman I, Manny J, Fields S, Shiloni E (1989) Intra-abdominal lymphangioma. *Br J Surg* 76: 485-489.
- Hardin WJ, Hardy JD (1970) Mesenteric cysts. *Am J Surg* 119: 640-645.
- Daniel S, Lazarevic B, Attia A (1983) Lymphangioma of the mesentery of the jejunum: Report of a case and a brief review of the literature. *Am J Gastroenterol* 78: 726-729.
- Ricca RJ (1991) Infected mesenteric lymphangioma. *NY State J Med* 91: 359-361.
- Porras-Ramirez G, Hernandez-Herrera MH (1991) Hemorrhage into mesenteric cyst following trauma as a cause of acute abdomen. *J Pediatr Surg* 26: 847-848.
- Yoon HK, Han BK (1998) Chronic midgut volvulus with mesenteric lymphangioma: a case report. *Pediatr Radiol* 28: 611-613.
- Troum S, Solis MM (1996) Mesenteric lymphangioma causing bowel obstruction in a child. *Southern Med J* 89: 808-809.
- Kambakamba P, Lesurtel M, Breitenstein S, Emmert M, Wilhelm M, et al. (2012) Giant mesenteric cystic lymphangioma of mesocolic origin in an asymptomatic adult patient. *J Surg Case Rep* 2012: 4.
- Davidson AJ, Hartman DS (1990) Lymphangioma of the retroperitoneum. CT and sonographic characteristics. *Radiology* 175: 507-510.
- Clement PB (2000) Tumors of the peritoneum. In Fletcher CDM, editor, *Diagnostic histopathology of tumors*, (Vol1, 2<sup>nd</sup> edit) London: Churchill Livingstone, London
- Johnson LA, Longacre TA, Wharton KA, Jeffrey RB (1997) Multiple mesenteric lymphatic cysts: an unusual feature of mesenteric panniculitis (sclerosing mesenteritis). *J Comp Assist Tomography* 21: 103-105.
- Miettinen M (2010) *Modern soft tissue pathology*, Cambridge University Press, Cambridge, UK.