

<https://doi.org/10.31146/1682-8658-ecg-220-12-194-198>

Липоматоз илеоцекального угла как причина острого живота у пациента с апластической анемией*

Корнева Ю. С.^{1, 2, 3}, Монахова И. А.¹

¹ Санкт-Петербургское государственное учреждение здравоохранения «Городская больница № 26», (ул. Костюшко д. 2, г. Санкт-Петербург, 196247, Россия)

² Федеральное государственное бюджетное образовательное учреждение высшего образования «Северо-Западный государственный медицинский университет имени И. И. Мечникова» Министерства здравоохранения Российской Федерации, (ул. Кирочная, 41, г. Санкт-Петербург, 191015, Россия)

³ Федеральное государственное бюджетное образовательное учреждение высшего образования «Смоленский государственный медицинский университет» Министерства здравоохранения Российской Федерации, (ул. Крупской 28, г. Смоленск, 214018, Россия)

Для цитирования: Корнева Ю. С., Монахова И. А. Липоматоз илеоцекального угла как причина острого живота у пациента с апластической анемией. Экспериментальная и клиническая гастроэнтерология. 2023;220(12): 194–198. DOI: 10.31146/1682-8658-ecg-220-12-194-198

✉ Для переписки:

Корнева

Юлия Сергеевна

ksu1546@yandex.ru

Корнева Юлия Сергеевна, к.м.н., доцент кафедры патологической анатомии; доцент кафедры патологической анатомии; врач-патологоанатом

Монахова Ирина Алексеевна, врач-терапевт

Резюме

* Иллюстрации

2–4 – на цветной
вклейке в журнал
(стр. IX).

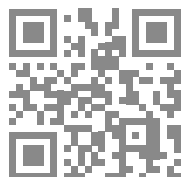
Илеоцекальная область может быть поражена многими патологическими состояниями, такими как доброкачественные и злокачественные опухоли, воспалительные процессы (аппендицит, дивертикулит, болезнь Крона) и инфекционные заболевания, что обуславливает важность знания дифференциальной диагностики. Липоматозные поражения кишечника могут быть одиночными или множественными, инкапсулированными липомами или диффузными, дискретными, некапсулированными участками жировой ткани, называемыми липоматозом, встречаясь в 0,04 до 4,5% случаев по данным аутопсий и чаще поражая слепую кишку. Приведен случай липоматоза илеоцекального угла у мужчины с апластической анемией, проявившийся симптомами острого живота вследствие массивного кровоизлияния в него из-за выраженной тромбоцитопении, расценённый интраоперационно как злокачественная опухоль, которая не была удалена из-за высокого риска кровотечения на фоне тяжелой тромбоцитопении. Предоперационно на КТ органов брюшной полости, забрюшинного пространства, малого таза выявлено утолщение стенок ободочной кишки на всем протяжении до 14 мм со сглаженностью, выпрямлением контуров, умеренной инфильтрацией окружающей клетчатки. В области купола слепой кишки определяется инфильтрат размерами 10,0×6,0 см, с участками жидкостной плотности. Диаметр слепой кишки 6,0 см, стенки ее резко утолщены до 2,5 см, просвет деформирован, сужен. Забрюшинные лимфатические узлы не увеличены. Окончательно характер процесса был установлен при гистологическом исследовании аутопсийного материала.

Липоматоз илеоцекального угла является редкой патологией с неспецифическими проявлениями со стороны желудочно-кишечного тракта и определенными сложностями диагностики. Необходимо помнить о возможном его наличии для включения в дифференциальный диагноз.

Ключевые слова: липоматоз илеоцекального угла, острый живот, болезни желудочно-кишечного тракта, дифференциальный диагноз.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

EDN: FJTNKX





Lipomatosis of the ileocecal valve as a cause of acute abdomen in a patient with aplastic anemia*

Yu. S. Korneva^{1,2,3}, I. A. Monahova¹

¹ St. Petersburg State Healthcare Institution "City Hospital No. 26", (2, Kostushko st., St. Petersburg, 196247, Russia)

² North-western State Medical University named after I. I. Mechnikov, (41, Kirochnaya st., Saint Petersburg 191015, Russia)

³ Smolensk State Medical University, (28, Krupskaya st., Smolensk, 214018, Russia)

For citation: Yu. S. Korneva, I. A. Monahova Lipomatosis of the ileocecal valve as a cause of acute abdomen in a patient with aplastic anemia. *Experimental and Clinical Gastroenterology*. 2023;220(12): 194–198. (In Russ.) DOI: 10.31146/1682-8658-ecg-220-12-194-198

✉ **Corresponding author:**

Yulia S. Korneva
ksu1546@yandex.ru

Yulia S. Korneva, PhD, Associate Professor in the Department of Pathological Anatomy, Pathologist; ORCID: 0000-0002-8080-904X, Scopus Author ID: 56657493900

Irina A. Monahova, therapist

Summary

* Illustrations
2–4 are on the
colored inset
of the Journal
(p. IX).

Ileocecal region can be affected by many pathological conditions, such as benign and malignant tumors, inflammatory processes (appendicitis, diverticulitis, Crohn's disease) and infectious diseases, which determines the importance of knowledge of differential diagnosis. Lipomatous lesions in intestine may be single or multiple, encapsulated lipomas or diffuse, discrete, uncapsulated areas of adipose tissue called lipomatosis, occurring in 0.04 to 4.5% of cases according to autopsies and more often affecting the cecum. A case of lipomatosis of the ileocecal valve in a patient with aplastic anemia, manifested by symptoms of an acute abdomen due to massive hemorrhage into it due to severe thrombocytopenia, regarded intraoperatively as a malignant tumor that was not removed due to the high risk of bleeding on the background of severe thrombocytopenia, is presented. Preoperatively, CT scans of the abdominal cavity, retroperitoneal space, and pelvis revealed thickening of the colon walls throughout up to 14 mm with smoothness, straightening of contours, and moderate infiltration of surrounding fiber. In the area of the dome of the cecum, an infiltrate with dimensions of 10,0x6,0 cm, with areas of liquid density, is determined. The diameter of the cecum is 6,0 cm, its walls are sharply thickened to 2.5 cm, the lumen is deformed, narrowed. Retroperitoneal lymph nodes are not enlarged. Finally, the nature of the process was established by histological examination of autopsy material. Intestinal lipomatosis is a rare pathology with nonspecific manifestations from the gastrointestinal tract and certain diagnostic difficulties. It is necessary to remember about its possible presence for inclusion in the differential diagnosis.

Keywords: lipomatosis of the ileocecal valve, acute abdomen, diseases of the gastrointestinal tract, differential diagnosis

Conflict of interests. The authors declare no conflict of interest.

Введение

Илеоцекальная область может быть поражена многими патологическими процессами, такими как доброкачественные и злокачественные опухоли, воспалительные процессы (аппендицит, дивертикулит, болезнь Крона) и инфекционные заболевания [1]. Липоматозные поражения кишечника могут быть одиночными или множественными, инкапсулированными липомами или диффузными, дискретными, некапсулированными участками жировой ткани, называемыми липоматозом [2], частота которого по данным аутопсийного материала колеблется от 0,04 до 4,5% [3]. В порядке убывания липоматоз чаще встречается в слепой, восходящей, сигмовидной, поперечной, прямой кишке и нисходящей ободочной кишке [4]. В 90% случаев поражается подслизистая оболочка, иногда вовлекается мышечная оболочка, у 10% жировая

ткань располагается субсерозно [5]. Этиология липоматоза неясна, и в качестве вероятных причин рассматривают нарушение эмбрионального развития или хроническое раздражение кишки [2, 6]. Липоматоз кишечника может наблюдаться как у новорожденных, так и у пожилых пациентов, одинаково часто у мужчин и женщин [7]. Обычно пациенты с липоматозом кишечника не имеют симптомов, либо их беспокоят проявления перемежающейся кишечной непроходимости [8, 9]. В данной статье представлен случай липоматоза илеоцекального угла у мужчины с апластической анемией, проявившийся симптомами острого живота вследствие массивного кровоизлияния в него из-за выраженной тромбоцитопении, расцененный интраоперационно как злокачественная опухоль.

Описание случая

Пациент К. 54 лет был экстренно доставлен в СПб ГБУЗ «Городская больница № 26» после носового кровотечения в состоянии средней тяжести. Жалобы на рецидивирующие носовые кровотечения, эпизоды потери сознания, гематомы на конечностях и боковых поверхностях туловища.

Анамнез жизни: работающий пациент без хронических заболеваний, вредных привычек, контактов с вредными факторами.

Анамнез заболевания: ухудшение без явных причин с 20.04.23 г., когда появилось кровоизлияние в правый глаз, с 21.04.23 г. стал отмечать геморрагическую сыпь и кровоизлияния (сначала на коже нижних конечностей). 29.04.23 г. эпизод потери сознания, от госпитализации отказался. В связи с развившимся носовым кровотечением госпитализирован в стационар. В лабораторных анализах обращала на себя внимание панцитопения: эритроциты – $3,1 \times 10^9/\text{л}$, тромбоциты $2,0 \times 10^9/\text{л}$, лейкоциты $2,4 \times 10^9/\text{л}$. В связи с рецидивирующими носовыми кровотечениями, пациент госпитализирован в ЛОР отделение, выполнена тампонада носа. Проведена трансфузия тромбоконцентрата 03.05.2023 г. Консультирован гематологом, генез угнетения кроветворных ростков неясен, рекомендовано дообследование в условиях терапевтического отделения, куда пациент был переведен 04.05.2023 г. Пациент расценен как диагностически неясный, обследование направлено на онкопоиск, верификацию гематологической патологии. 05.05.2023 г. выполнена стерильная пункция, получен гипоклеточный аспират костного мозга с разведением периферической кровью. 10.05.2023 г. выполнена аспирационная биопсия костного мозга из подвздошной кости, материал малоинформативный. Принято решение о выполнении трепанобиопсии: в костном мозге гистологическая картина выраженной гипоплазии с избытком плазматических клеток, рекомендовано ИГХ исследование.

Пациенту выполнен ряд инструментальных исследований в рамках онкопоиска. 18.05.2023 г. на КТ органов брюшной полости, забрюшинного

пространства, малого таза выявлено утолщение стенок ободочной кишки на всем протяжении до 14 мм со сглаженностью, выпрямлением контуров, умеренной инфильтрацией окружающей клетчатки. В области купола слепой кишки определяется инфильтрат размерами 10,0х6,0 см с плотностью 18 с участками жидкостной плотности (рис. 1). Диаметр слепой кишки 6,0 см, стенки ее резко утолщены до 2,5 см, просвет деформирован, сужен. Забрюшинные лимфатические узлы не увеличены, селезенка увеличена до 12,5х11,0х6,0 см, однородной структуры. Свободная жидкость в брюшной полости не выявлялась, костно-деструктивных изменений не выявлено.

По поводу выявленного инфильтрата купола слепой кишки пациент был проконсультирован хирургом, убедительных данных за острую хирургическую патологию не получено. Изменения стенки слепой кишки расценены как проявление основного гематологического заболевания – лимфопролиферативный процесс с вероятным вовлечением червеобразного отростка. С учетом высокого риска геморрагических осложнений от хирургического вмешательства решено воздержаться. Рекомендовано выполнение контроля УЗИ органов брюшной полости для оценки динамики, назначена антибактериальная терапия – без положительной динамики. Лабораторно у пациента прогрессирует панцитопения, отмечается нарастающая резистентность к трансфузии тромбоконцентрата. 24.05.2023 г. отмечается появление болевого синдрома в правой подвздошной области, частый водянистый стул. По данным УЗИ появление жидкости в брюшной полости. Пациент повторно осмотрен хирургом. Рекомендовано продолжить консервативную терапию, контроль КТ органов брюшной полости, УЗИ органов брюшной полости в динамике.

Несмотря на проводимую симптоматическую терапию состояние с отрицательной динамикой. Сохраняется лихорадка с подъемами температуры до 40 С, частый водянистый стул, нарастают

Рисунок 1. Срез компьютерной томографии органов брюшной полости.

1 – стенка слепой кишки, плотность ткани 18; 2 – просвет слепой кишки с пузырьками воздуха.

Figure 1. Section of computed tomography of organs of abdominal cavity.

1 – the wall of the cecum, tissue density is 18; 2 – the lumen of cecum with air bubbles.



боли в правой подвздошной области, повышаются уровни С-реактивного белка, СОЭ, снижается уровень гемоглобина без признаков наружного кровотечения. 27.05.23 г. принято решение о выполнении диагностической лапароскопии, которая была расширена до срединной лапаротомии для полноценной, ревизии органов брюшной полости. Интраоперационно: в брюшной полости мутный выпот с коричневым оттенком (жидкость была взята на посев – выявлена *Klebsiella pneumonia* 10^6 КОЕ/мл, умеренно чувствительная к меропенему, цитологическое заключение по перитонеальной жидкости: асцитическая жидкость, в осадке обилие кокковой микрофлоры, немного лимфоцитов и макрофагов, без признаков атипии). Стенка слепой кишки плотная, отечная, серозная оболочка тусклая, гиперемирована. В полости кишки пальпируется плотное образование (рис. 2), не смещаемое, которое было расценено как злокачественная опухоль, ее резекция не выполнена, потому что сохранялись высокие риски геморрагических осложнений и неопределенности в отношении распространенности процесса. В послеоперационном периоде состояние пациента тяжелое, на следующий день после операции констатирована биологическая смерть пациента.

Обсуждение

Обычно пациенты с липоматозом кишечника не имеют симптомов; однако у некоторых наблюдаются такие неспецифические симптомы как боль в животе, запор, диарея [4]. Иногда липоматоз кишки является интраоперационной находкой у пациентов с клиникой кишечной непроходимости [2]. Редко могут возникнуть такие острые осложнения как перфорация, инвагинация кишечника или массивное кровотечение [3, 5, 10, 11]. Рентгенография органов брюшной полости неспецифична и демонстрирует наличие нескольких уровней воздуха/жидкости, что указывает на механическую непроходимость [11]; контрастирование с барием может выявить дефект наполнения в хорошо очерченном очаге поражения, имитируя злокачественное новообразование [9]. Интраоперационная картина также чаще всего наводит на мысль о его наличии. В большинстве случаев биопсия не позволяет установить диагноз, поскольку очаг поражения находится под нормальной слизистой оболочкой кишечника, и только гистологическое исследование резецированного фрагмента кишки позволяет верифицировать характер процесса [9]. Обнаруживается липоматоз обычно случайно после проведения КТ, МРТ или колоноскопии [7], что наблюдалось и в нашем случае. На компьютерной томографии он выглядит как интрамуральная гиподенсивная область со значениями ослабления от –80 до –120 HU [12], от истинной липомы, которая проявляется как асимметричное образование, его отличает симметричное утолщение стенки кишки [4]. В нашем случае сложность диагностики заключалась в том, что плотность образования соответствовала мягкотканной структуре, что было обусловлено пропитыванием кровью. Для оценки

На аутопсии: в брюшной полости следы геморрагического выпота, кишечник не вздут, в слепой кишке, начиная от илеоцекального угла, на протяжении 10,0 см стенка кишки уплотнена, сероза тусклая, со сливающимися кровоизлияниями, при вскрытии просвета здесь определяются крупнобугристые разрастания ткани желтого цвета с распадом, обильно пропитанные темно-вишневыми массами, распространяющийся через все слои стенки, циркулярно суживающие и деформирующие просвет, в просвете кишки здесь – слизистые темно-красные массы (рис. 3).

Микроскопически – гистоархитектоника стенки слепой кишки резко нарушена: определяется аутолизированная слизистая, а далее – обширные поля неинкапсулированной зрелой жировой ткани, обильно пропитанной лизированными эритроцитами, в которой дезорганизованные пучки гладких миоцитов, очаговая воспалительная инфильтрация (рис. 4), на основании чего вынесен диагноз липоматоза илеоцекального угла с вторичным геморрагическим пропитыванием. Костный мозг при гистологическом исследовании с явлениями аплазии с сохранением единичных клеток лимфоидного ряда, на основании чего диагностирована апластическая анемия.

распространенности поражения проводят МРТ 1,5 Тл (HASTE, VIBE и попечное T1-взвешенное изображение с подавлением жира), при этом МР-сигнал выпадает в области жировых структур [12], хотя именно выполнение T1-взвешенных изображений без подавления жировой ткани может оказать большую помощь в постановке правильного диагноза [13]. ПЭТ-КТ не демонстрирует поглощения ^{18}F ГД.

В литературе описаны случаи, когда липоматоз илеоцекального угла стал причиной острого живота. Так G. Dajti с соавторами (2020) описывают пациента 79 лет, поступившего в больницу скорой помощи с клиникой аппендицита и подозрением на перитонит. На КТ-ангиографии выявили увеличенный отросток слепой кишки, заполненный неоднородным материалом, указывающий на острый аппендицит. Кроме того, было отмечено наличие аморфного гиподенсного образования в илеоцекальном углу и восходящей ободочной кишки, что соответствует липоматозу толстой кишки [4]. Механическая обструкция пассажа каловых масс за счет липоматоза объясняет доказанную связь между его толщиной и частотой возникновения острого аппендицита [14]. Другой причиной острого живота при наличии липоматоза кишки является его перфорация [9]. В нашем случае массивное геморрагическое пропитывание участка слепой кишки с липоматозом на фоне тяжелой тромбоцитопении как проявления апластической анемии стало причиной формирования геморрагического выпота в брюшной полости и нарастания выраженности болевого синдрома. Подобные случаи не были описаны ранее в литературе.

В настоящее время не существует каких-либо установленных рекомендаций по лечению липоматоза толстой кишки, однако в случае рецидивирующих

симптомов или появления острых осложнений хирургическое вмешательство остается методом выбора [2, 9, 10].

Заключение

Липоматоз кишечника является редкой патологией с неспецифическими проявлениями со стороны органов брюшной полости и определенными сложностями диагностики. Необходимо помнить

о возможном его наличии для включения в дифференциальный диагноз для назначения МРТ с верной интерпретацией результатов для подтверждения диагноза.

Литература | References

1. Hoeffel C., Crema M. D., Belkacem A. et al. Multidetector row CT: spectrum of diseases involving the ileocecal area. *Radiographics*. 2006;26(5):1373–90. doi: 10.1148/rg.265045191.
2. Armas I., Brandão M., Guerreiro I. et al. Incidental diagnosis of breast cancer in the pursuit of the treatment of intestinal obstruction. *AutopsCaseRep*. 2019;9(1): e2018071. doi: 10.4322/acr.2018.071.
3. Suárez-Moreno R.M., Hernández-Ramírez D.A., Madrazo-Navarro M. et al. Multiple intestinal lipomatosis. Case report. *Cir Cir*. 2010;78:163–5.
4. Dajti G., Vagliasindi A., Bosi S. et al. An unusual clinical presentation of colonic lipomatosis: A case report. *Int J Surg Case Rep*. 2020;75:273–275. doi: 10.1016/j.ijscr.2020.08.036.
5. Vasiliadis K., Katsamakas M., Nikolaidou A. et al. Submucosal lipoma of the ascending colon as a source of massive lower gastrointestinal bleeding: a case report. *Acta Chir Belg*. 2008;108:356–9.
6. Pagacz M., Willis I., Alexis J. Massive Lipomatosis of the Small Intestine Causing Intussusception. *Case Rep Gastrointest Med*. 2019;2019:9701478. doi: 10.1155/2019/9701478.
7. Parlak S., Okay A. E., Altin L. et al. Lipomatosis of terminal ileum and ileocecal valve: multidetector computed tomography findings. *Iran J Radiol*. 2014;11(3): e4336. doi: 10.5812/iranjrad.4336.
8. Weinberg T., Feldman M. Sr. Lipomas of the gastrointestinal tract. *Am. J. Clin. Pathol*. 1955;25(3):272–281.
9. Thakur B., Kishore S., Bhardwaj A., Kudesia S. Diffuse intestinal submucosal lipomatosis with incidental epidermal inclusion cyst of caecum clinically masquerading as carcinoma caecum. *Rare Tumors*. 2014;6(3):5380. doi:10.4081/rt.2014.5380.
10. Uyulmaz S., Zünd M., Caspar U. et al. Ileoileal intussusception in unspecific recurrent abdominal pain in adult: A case report. *SAGE OpenMedicalCaseReports*. 2018;6: 4. doi: 10.1177/2050313X18792814.2050313X1879281.
11. Shenoy R., Rodrigues G., Gopashetty M. et al. Segmental jejunal lipomatosis – a rare cause of intestinal obstruction. *Yonsei Med J*. 2003;44(2):359–61.
12. Ure E., Cingoz M., Kandemirli S. G. et al. CT and MR imaging features of diffuse lipomatosis of the abdomen. *Diagn. Interv. Imaging*. 2016;97(11):1189–1191.
13. Cicero G., Pallio S., D'Angelo T., Mazziotti S. Lipomatosis of the ileocecal valve: A not to miss diagnosis when performing magnetic resonance enterography. *Clin Case Rep*. 2021;9(5): e04316. doi: 10.1002/ccr3.4316.
14. Börekci H., Serin H. İ., Baş H., Börekci E. Relationship between appendicitis and diameter of ileocecal lipomatosis and also ileocecal angle. *Surg. Radiol. Anat*. 2020;42(4):437–441.

To article

Lipomatosis of the ileocecal valve as a cause of acute abdomen in a patient with aplastic anemia (p. 194–198)

Рисунок 2. Купол слепой кишки с новообразованием интраоперационно (описание в тексте).

Figure 2. Cecum during operation with the mass (description is in the text).

Рисунок 3. Макроскопический вид новообразования в слепой кишки (описание в тексте).

Figure 3. Gross appearance of the mass in the caecum (description is in the text)

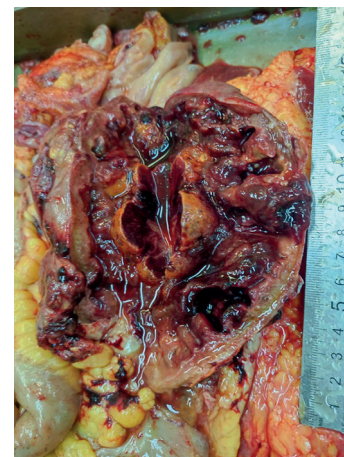
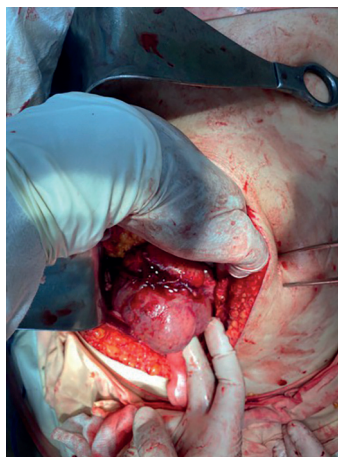


Рисунок 4. Микроскопическое строение стенки слепой кишки:
а – поля жировой ткани под аутолизированной слизистой оболочкой, замещающие подслизистую и мышечную оболочки (окраска Г-Э. 50); б – разрозненные пучки аутолизированных гладких миоцитов в средней трети стенки кишки, окруженный разрастаниями зрелой жировой ткани, пропитанной эритроцитами (окраска Г-Э. 50).

Figure 4. Microscopic structure of the cecum wall:
a – fields of adipose tissue under the autolysed mucosa, replacing the submucosal and muscular membranes (H-E stain, x50);
b – scattered bundles of autolysed smooth myocytes in the middle third of the intestinal wall, surrounded by growths of mature adipose tissue impregnated with erythrocytes (H-E stain, x50).

