

## Metrorrea quillosa

### Recopilación de casos

GONZALO GONZALEZ

Asistente extranjero (Universidad de Chile) al Departamento de Angiología (Director: F. Martorell) del Instituto Policlínico Barcelona (España)

En 1963, **Martorell** describe, por primera vez en el mundo, la «Metrorrea Quillosa y su tratamiento por la linfangiectomía pélvica». En el mismo año presenta este caso al Congreso conjunto de la Sociedad Internacional de Cirugía y de la Sociedad Internacional Cardiovascular, celebrado en Roma. Presidía la Sesión **J. B. Kinmonth**. Al preguntar a los asistentes si alguien conocía caso alguno parecido, nadie le contestó. Se trataba, pues, de una enfermedad sumamente rara. Posteriormente se han publicado tres casos más. Vamos a recopilarlos todos en el presente trabajo.

**CASO I. (Martorell, 1963):** Mujer de 18 años de edad. Ingresa en nuestra Clínica Vascular el 4-III-63 con linfedema de la extremidad inferior derecha y metrorrea quillosa.

A los quince días de su nacimiento aparecieron en abdomen y muslos pequeñas vesículas que al romperse daban salida a un líquido claro como el agua. De vez en cuando desaparecían y su reaparición se acompañaba de fiebre. Más tarde quedaron circunscritas al muslo derecho, donde en el momento de su ingreso aún persisten. A los cuatro años de edad sufre brotes de erisipela en el muslo derecho, de cuatro días de duración y que repiten cada mes en el curso de dos años. A los doce años de edad se hincha el muslo derecho e inicia una pérdida vaginal continua y muy abundante de líquido de aspecto lechoso. Según manifiesta la madre, esta pérdida alcanzaba en ocasiones hasta dos litros por día, disminuía en posición horizontal y aumentaba en ortostatismo y con la marcha.

La pérdida vaginal antecedió en muy poco tiempo a la menarquía. A nivel del muslo aparecen también vesículas que a veces se rompen y de las cuales mana líquido lechoso.

Un año más tarde se le practica una operación en el muslo que no alivia el cuadro. Hace dos años sufre otra operación, ginecológica, que tampoco consigue nada. Sigue con linforrea vaginal e hinchazón de la pierna, cuando acude a nosotros.

La exploración general no muestra nada anormal. Presenta linfedema de la extremidad inferior derecha, con pequeñas vesículas en el muslo de las que a veces mana linfa y otras quilo. La extremidad contralateral es normal. Pruebas ru-

tinarias de laboratorio, normales; excepto una ligera hipoproteinemia. Por la vulva se observa una constante y muy abundante pérdida de líquido claro o lechoso, cuyo análisis muestra las características de la linfa.

Esta pérdida constante de linfa o quilo por la vagina constituye el trastorno más penoso para la enferma. Pierde peso y va siempre mojada. El linfedema es mucho más soportable.

Decidimos operarla. Pero al tomar esta decisión no podíamos copiar la terapéutica de otro caso similar, ya que en la literatura mundial no pudimos hallar caso alguno operado.

Era lógico suponer que si los linfedemas por reflujo quiloso curaban o mejoraban por la linfangiectomía pariliaca, la extensión de la linfangiectomía a los vasos hipogástricos podría suprimir los linfáticos insuficientes y dilatados que provocaban la metrorrea quilosa.

**Intervención (18-III-63):** Se administran 100 g de mantequilla tres horas antes de ser operada. Al colocar la enferma sobre la mesa, pierde gran cantidad de quilo por la vulva.

Por vía extraperitoneal se descubren los vasos ilíacos del lado derecho, apareciendo envueltos por un manguito perivascular constituido por una vaina engrosada en la que se distinguen linfáticos dilatados de curso tortuoso y de color blanco amarillento. La rotura de uno de ellos da salida a líquido quiloso. Se resecta este manguito a nivel de la arteria ilíaca interna, primero, de la externa y común, después, y por último de la vena cava inferior. El uréter se ha separado previamente. A nivel de la ilíaca interna se observan linfáticos que se anastomosan con los subperitoneales. Se abre el peritoneo a este nivel, comprobando la presencia de ascitis quilosa. No se puede asegurar si existía con anterioridad a la operación o corresponde a la rotura de un quilífero. Se resecta un linfático que parece anastomosar los intestinales con los hipogástricos. Sutura del peritoneo. Pared por planos, sin drenaje.

Al terminar la operación la vulva está completamente seca por primera vez desde seis años.

La linfangiectomía pélvica curó del todo e inmediatamente la metrorrea y mejoró el linfedema de la extremidad.

A los siete años de la intervención sigue curada de la metrorrea quilosa, persistiendo un leve linfedema de la extremidad inferior.

En 1953, **Watson** menciona sólo el nombre de la enfermedad, sin describirla. Su artículo se refería a un caso de linfedema por reflujo quiloso, el cual, dice, se asociaba a quiluria y metrorrea quilosa.

En 1964, **Kinmonth** y colaboradores comunican otros dos casos, resueltos uno por ligadura y el otro por resección de los linfáticos de la pelvis.

**CASO II (Kinmonth y colaboradores, 1964):** Mujer nacida en 1912. Bien hasta 1926, en que aparece hinchazón en el pie derecho. Observó que presentaba un amplio hemangioma capilar en abdomen y pecho derecho. En 1928, coincidiendo con micciones más frecuentes, comprueba orinas «lechosas», con pequeñas gotas de grasa. Examen de orina: 0.123 g % de grasa y 5.6 mg de colesterol. La administración de Sudán III por la boca hace aparecerlo en la orina. Se trataba,

pues, de una verdadera quiluria. Cistocopía: Se demuestra que el quilo procede de una pequeña fístula inmediatamente por debajo del orificio uretérico derecho. Extremidad inferior derecha hinchada por debajo de la ingle en la actualidad.

En 1929 se le practica laparotomía, demostrando linfáticos quísticos y dilatados, con quilo en la pelvis, alrededor de los ligamentos anchos y del ciego.

En 1930, después de la cauterización de una pequeña fístula en la vejiga, cesa casi por completo la quiluria, pero inicia una salida de líquido por la vagina procedente del cervix (metroquilorrea), que el análisis confirma como quilo. Examen fecal de grasas, normal.

En 1935, primera gestación de tiempo normal, falleciendo el niño después de nacer (autopsia: ductus arteriosus persistente y atelectasias). La metroquilorrea y la quiluria, que habían cesado durante la gestación, reaparecen de nuevo tras el parto. La pierna derecha sigue bastante hinchada, pero ahora mana quilo con intermitencias por el tobillo.

En 1936, segunda gestación. Parto y niño, normales. De nuevo cesó la salida de líquido durante la gestación y, ahora, también en la lactancia.

En 1939 no existen más cambios, excepto que han aparecido unas vesículas llenas de quilo en el muslo derecho que, de modo intermitente, se vacían al exterior.

Con la tercera gestación, en 1940, aumenta la hinchazón de la pierna derecha, diagnosticándose de «trombosis». Niño normal.

Muy apenada por la metroquilorrea (usa de 6 a 8 paños al día). Ligera quiluria. La pierna sigue muy hinchada con vesículas quillosas en muslo.

En 1942, laparotomía. Muy dilatada red de linfáticos quillosos que se extiende hacia el diafragma, bajo el peritoneo parietal a la izquierda de la aorta y en el mesenterio del colon pelviano y lado derecho de la pelvis. Quilíferos del intestino delgado, normales. Ni en los límites superiores de la anomalía linfática ni en otra parte se comprueba obstrucción o engrosamiento de los ganglios linfáticos. La palpación no demostró anormalidad alguna en la región de la cisterna de Pecquet. No se comprobó interferencia que pudiera causar ascitis quillosa.

Un año después de la laparotomía se mantuvo con menor pérdida vaginal.

En el curso de 1947, recurrencia de la pérdida vaginal, cuarta gestación, hiperemesis gravidica y «trombosis» de la pierna derecha. Niño normal.

En 1950, quinta gestación. Histerectomía y esterilización. Cesa la quiluria y disminuye la metrorrea quillosa (un paño al día). Edema de pierna y vesículas quillosas, sin modificación.

En 1951 ingresa en el hospital con úlcera en pie derecho, nuevas vesículas quillosas en este pie y en muslo, aumento de la hinchazón en pierna y varios brotes de linfangitis.

En 1952 es intervenida, en otro hospital, en la ingle, hallando los linfáticos inguinales dilatados y rellenos de quilo, coloreados por Sudán III que se le había administrado por boca la tarde anterior. Ligadura, para prevenir el reflujo quilloso hacia la pierna, lo que podría dificultar una «toma» de injertos cutáneos. A continuación, operación de Charles en la pierna. Curó muy bien. Al año siguiente, operación de Charles en el muslo.

El año 1955 lo pasa libre de pérdida quillosa.

En 1963, alguna recurrencia ocasional de descarga quillosa por el muslo,

pero no molesta. Proteínas plasmáticas, normales (total, 6.4; albuminas, 4.0; globulinas 2.4 g %).

**CASO III (Kinmonth y colaboradores, 1964):** Mujer de 20 años de edad. Inicia su enfermedad a los tres años, cuando sus padres observaron que la extremidad inferior izquierda era más gruesa que la derecha. Posteriormente procesos etiquetados de osteomielitis, celulitis o artritis séptica de la rodilla. En las numerosas operaciones en la extremidad se halló siempre gran colección de «pus lechoso», por lo común estéril. Con los años su pierna llegó a serle una pesada carga. A los 15 años de edad aparecen vesículas, desde la región glútea a la planta del pie, de las que manaba líquido lechoso.

En varias intervenciones se ha extirpado la totalidad de la piel, tejido celular subcutáneo y fascia del muslo, pierna y dorso de pie, reemplazándose la piel con injerto tegumentario total. Esto ha disminuido el grosor de la extremidad, pero no ha evitado la persistencia de pérdida de quilo por algunas vesículas recidivantes. En estas últimas épocas se ha presentado un flujo vaginal intermitente que parece provenir del útero, puesto que no se observa anormalidad en la vagina. Además, acude de nuevo al hospital por la reaparición de la artritis quillosa en rodilla izquierda.

A los 16 años de edad se le practica una exploración pélvica, comprobándose linfáticos aumentados de calibre y tortuosos, alrededor de la arteria ilíaca externa, que fueron resecados. El grosor de estos troncos era similar al del uréter adyacente. Suspensión temporal de la pérdida quillosa.

Hace dos años se explora de nuevo el abdomen, observando numerosos linfáticos dilatados retroperitoneales. Inyectando Urografín en uno de ellos, apareció un enorme linfático que transcurría por el lado izquierdo de la aorta, que fue resecado y ligado junto con otro más y algunos existentes en el pedículo ovárico izquierdo.

Desde la última operación, hace más de un año, ha quedado libre de la quilorrea vaginal o de cualquier otro reflujo quilloso.

En 1967, **Burnett y McCaffrey** comunican el cuarto caso, intervenido siguiendo la misma técnica que **Martorell**.

**CASO IV (Burnett y McCaffrey, 1967):** Mujer de 31 años de edad, casada, con tres hijos. Ingresó en julio de 1965. A los 4 años, al pisar un clavo oxidado, se produjo una herida en el pie izquierdo, seguida de infección ligera que respondió con rapidez al tratamiento. No obstante, a las pocas semanas, inició hinchazón del pie, que se extendió hacia la pierna con lentitud pero de forma continua. Nunca hubo una real regresión y, a los 25 años de edad, todo el miembro inferior izquierdo estaba hinchado de los dedos a la ingle. Fue operada en 1952 y luego en 1955 en pie y pierna, sin poder detallar lo que se le practicó.

A los 28 años de edad observó que por vagina y labio mayor izquierdo manaba un líquido, lo cual fue en aumento de modo progresivo. El líquido tenía aspecto lechoso, manando con mayor profusión cuando la enferma estaba en actividad y disminuyendo cuando estaba en reposo. Necesitaba diez paños al día para absorber la quilorrea vaginal, lo cual amargaba su vida normal. No existía historia

de algo similar en la familia. Sus tres hijos estaban sanos. Salvo una dispepsia intermitente, no había padecido otra enfermedad. Menstruación regular y normal, excepto una leve dismenorrea.

Exploración: Notable quiledema de su pierna izquierda, que alcanzaba la ingle. Cicatrices en dorso de pie izquierdo y cara interna de pierna (operación de Kondoleon?). Ausencia de signos recientes de infección en la extremidad ni ganglios linfáticos aumentados de tamaño en ingle. Pierna contralateral, normal.

La exploración de la vulva mostró una linforragia continua desde el labio mayor izquierdo, donde existía un discreto grupo de folículos de tipo linfóide cada uno de los cuales medía varios milímetros de diámetro. Supusimos que algunos orificios fistulosos a través de los cuales manaba linfa podrían ser visualizados, pero nos fue imposible incanularlos. Exploración pélvica, sin anomalías en los órganos de su cavidad. La linforragia parecía provenir sólo de la pared izquierda de la vagina y del lateral del mismo lado del fórnix. El lado derecho no se hallaba afectado. La exploración abdominal tampoco dio anomalía alguna. Se intentó estudiar la linforragia por la ingestión de distintos colorantes, sin resultado. Sin embargo, el aumento de mantequilla y nata en la dieta motivó un aumento de la quilorrea. Una linfografía normal, incanulando un linfático del dorso del pie, tampoco tuvo éxito. Entonces se practicó un nuevo linfograma a través de una pequeña incisión en la parte alta del muslo izquierdo, que demostró unos linfáticos muy dilatados en el interior del abdomen y algunos hipoplásicos en el propio muslo. Estos linfáticos eran más evidentes en el trayecto de los vasos ilíacos, con comunicaciones a la bóveda vaginal. No se demostraron conexiones entre estos linfáticos dilatados y los intestinales.

Examen microscópico del líquido: Presencia de numerosos linfocitos. Ausencia de grasa en la orina. No existía quiluria macro o microscópica. Resto de laboratorio, normal.

**Intervención (10-VIII-65):** Incisión oblicua sobre la parte inferior izquierda del abdomen. Aparece una masa de linfáticos dilatados rodeando los vasos ilíacos comunes, internos y externos, que desaparece por la base del mesocolon sigmoide en dirección al mesenterio del intestino delgado. Este intestino era normal, sin que se observaran conductos linfáticos comunicantes entre los intestinales y los dilatados que circundaban los vasos ilíacos. Ausencia de ascitis quillosa. Algunos de los linfáticos dilatados se hallaban próximos y transcurrían a lo largo del uréter izquierdo en su trayecto pélvico, pero no parecían establecer comunicaciones con él. Otros linfáticos patológicos seguían hacia la parte inferior del ligamento redondo izquierdo, fuera del abdomen, y siguiendo su curso se dirigían al labio mayor de este lado. Otros, dilatados, se introducían en la región lateral izquierda del fórnix y de la vagina. Los grandes troncos vasculares sanguíneos eran normales, excepto en cuanto a los tejidos linfáticos que los rodeaban.

Se resecó toda la masa linfática anormal, previa ligadura cuidadosa con seda de cuantas comunicaciones visibles existían entre dicha masa y los órganos pélvicos. Los linfáticos presentaban una pared engrosada, conteniendo linfa a tensión. Al término de la operación los vasos ilíacos izquierdos quedaron limpios en absoluto de tejido linfático. La limpieza fue total en la región pélvica izquierda, resecando a su vez el ligamento redondo y los linfáticos que lo acompañaban.

Postoperatorio, sin incidencias, disminuyendo con rapidez la salida de líquido

por la vagina. Al abandonar el hospital al quinceavo día, sólo persistía una muy discreta quilorrea. Se administró un tratamiento prolongado con tetraciclina para evitar una potencial infección por posibles comunicaciones residuales con los linfáticos intestinales.

Algunos meses después de la operación cesó por fin la metrorrea quilosa, sin que haya vuelto a producirse a los diez meses de aquélla. Durante los tres primeros meses de salir del hospital se le administraron 5 mg de Methyclozide por día, al objeto de disminuir el edema de la pierna izquierda, sin lograr mejoría, resignándose la paciente a quedar con este trastorno.

### COMENTARIO

Llama la atención el que en toda la literatura médica mundial sólo hayamos podido recopilar cuatro casos, casos publicados todos en revistas de Patología Vascular y ninguno en revistas de Ginecología. Es evidente que deben existir otros que quizá no han sido diagnosticados. Algunos casos de leucorrea abundante podrían corresponder a metrorrea quilosa atenuada. Esta posibilidad diagnóstica adquiere mayor fuerza si se comprueba, además, una desigualdad de tamaño entre ambas piernas.

Estas enfermas suelen acudir primero al ginecólogo. Este artículo pretende llamar su atención sobre esta rara enfermedad que sólo se diagnostica si se conoce su existencia.

### RESUMEN

El autor recopila cuatro casos de metrorrea quilosa, aparecidos desde la primera descripción y tratamiento que **Martorell** hiciera en 1963. Los tratamientos empleados fueron la linfangiectomía pélvica en tres y la ligadura de los linfáticos pelvianos en uno. Aunque resaltando la rareza de esta enfermedad, el autor supone que algunos casos de leucorrea abundante pudieran corresponder a ella y, por este motivo, llama la atención de los ginecólogos para que investiguen esta posibilidad.

### BIBLIOGRAFIA

- Martorell, F.:** Metrorrea quilosa. Su tratamiento por la linfangiectomía pélvica. «Angiología», 15: 209, 1963.  
**Watson, J.:** Chronic lymphoedema of the extremities and its management. «British J. Surgery», 41, n.º 5, 1953.  
**Kinmonth, J. B.; Taylor, G. W. y Jantet, G. H.:** Chylous complications of primary lymphoedema. «J. of Cardiovascular Surgery», 5: 327, 1964.  
**Burnett, W. y McCaffrey, J.:** Metrorrea quilosa. «Angiología», 19: 1, 1967.

### (English text) (\*)

In 1963, **Martorell** reports the first instance of chylous metrorrhea treated by pelvic lymphangiectomy. In the same year he communicates this case to the common Rome Meeting of International Surgery Society and International Cardiovas-

---

(\*) Texto en inglés por el autor.

cular Society. **Kinmonth** was presiding the session. Having been asked about the knowledge of any similar case, nobody in the assembly answered. Consequently, it was a highly rare disease. Lastly, three more cases have been published. All of them are compiled in the present work.

#### CASE I. (**Martorell**, 1963)

An 18-year-old unmarried girl was admitted to our Vascular Clinic on March, 4, 1963; complaining of chronic lymphoedema of the right leg and chylous metrorrhea. A fortnight after her birth, small vesicles appeared on the abdomen and thighs which sometimes ruptured and discharged clear fluid. These vesicles appeared and disappeared and were often associated with fever attacks. Later on these vesicles were circumscribed to the right thigh, where they still remain. When she was 4 years old, repeated attacks of erysipelas on the right thigh often complicated the condition. At 12 years, swelling of the right leg appeared and a clear or milky fluid discharged copiously from the vaginae. Her mother reported that she sometimes lost as much as two liters of fluid per day. The discharge decreased at rest and increased at orthostatism and walking.

The vaginal discharge shortly preceded menarche. Milky-colored vesicles appeared on the right lower limb and occasionally these vesicles would rupture and discharge chyle. A year later, the patient's thigh was operated upon in another hospital, but without improvement. In 1961, gynecologic surgery was performed in Madrid, again without success.

The general examination was normal. She had lymphedema on the right lower limb. Vesicles were present on the thigh, which, as has been noted, occasionally ruptured, when there would appear a clear or milky fluid discharge. The left leg was normal. The routine laboratory examinations were normal; the only finding of interest was slight hypoproteinemia. Clear or milky fluid continuously and copiously discharged from the vaginae. The patient was kept in misery by the irritation of the discharge and her wet clothing. Because of the loss large amounts of fluid and fat from the body, there was weight loss.

Surgical treatment was imperative, but I had no knowledge of any similar operation having been performed in a case of chylous metrorrhea. A review of the current literature disclosed no similar case. If periiliac lymphangiectomy was indicated in chylous reflux lymphedema, then it would be wise to suppose that to extend the lymphangiectomy to the enlarged and incompetent perihypogastric lymphatics which contribute to the chylous metrorrhea might be successful. On March 18, 1963, it was decided to pursue this course and surgery was scheduled. Three hours before the operation the patient was given 100 gm of butter. On being placed on the operating table, the patient discharged a copious milk-like fluid through the vaginae.

The right iliac vessels were exposed extraperitoneally. Retroperitoneal megalymphatics were observed around the caval vein, the common iliac, external iliac and internal iliac arteries. These lymphatic vessels were enlarged, tortuous and in white colour. They formed a thick perivascular wrapping, constituting an enlarged muff in which dilated white yellowish colored and tortuous lymphatics were discovered. A chylous liquid oozed out when one of these was ruptured.

First this wrapping was resected at the level of the internal iliac artery, then at the level of the external and common iliac arteries, and last at the level of the caval vein. The ureter was previously separated. Lymphatics were seen at the level of the internal iliac artery, having anastomosis with the subperitoneals. The peritoneum was incised at this level. The existence of chylous ascites was observed. It cannot be stated for certain whether it existed before the operation or was due to the rupture of a chyloferous visicle. A lymphatic that seemed to anastomose the intestinal and hypogastric vessels was resected. Suture of the peritoneum and the abdominal wall was accomplished without drainage. At the end of the operation the vulva was absolutely dry for the first time in 6 years.

The pelvic lymphagietomy immediately corrected the metrorrhea and improved the lymphedema of the extremity. Seven years after treatment the chylous metrorrhea had no recurred, although a slight lymphedema of the extremity remains.

The name of the disease was mentioned by **Watson** in 1953 without giving any description of it. Referring to reflux chylous lymphedema series, one case, he says, was associated with chyluria and chylous metrorrhea. In 1964, **Kinmonth** and cols. report two more cases, treated, one by ligation and the other by resection of pelvic lymphatics.

#### **CASE II (Kinmonth and cols., 1964).**

Born 1912. Quite well until 1926 when the right foot spontaneously and painlessly start swelling. Noted to have large capillary haemangioma on abdomen and on right breast. In 1928 started passing «milk» in her urine, accompanied with some increase in frequency of micturation. Urine: Contained minute fat droplets, 0.123 gm % of fat and 5.6 mg % of cholesterol. Sudan III by mouth appeared in the urine. Condition was therefore one of true chyluria. Cystoscopy: Showed that chyle was coming from a small fistula just below right ureteric orifice. Right leg and thigh now swollen up to groin.

1929. Laparotomy: Revealed dilated and cystic lymphatics, full of chyle in pelvis around the broad ligaments and around the caecum.

1930. Chyluria almost completely ceased after fulguration of a small fistula in the bladder, but instead chyle began to discharge per vaginam (on examination found to be coming from cervix) i.e. metrochylorrhea. Analysis confirmed that the fluid was chyle. Faecal fat analyses, normal.

1935. First pregnancy- full term normal, baby died after delivery (Autopsy showed patent ductus arteriosus and atelectasis). Metrochylorrhea an chyluria ceased during pregnancy but started again after delivery. Right leg still very swollen but now starting to leak chyle intermittently from right ankle.

1936. Second pregnancy. Normal live child. Chyle leakages again ceased during pregnancy and also during lactation.

1939. Unchanged except that chylefilled vesicles have appeared on right thigh and leak chyle intermittently.

1940. Third pregnancy. Increased swelling of right leg, diagnosed as «thrombosis». Normal live infant.

Very distressed by metrochylorrhoea (uses 6-8 pads/day) Chyluria slight-right leg still very swollen with chylous vesicles on thigh.

1942. Laparotomy: Very dilated chyle-filled lymphatics extending up to diaphragm under parietal peritoneum to left of aorta, also in mesentery of pelvic colon and on right side of pelvis. Normal small intestinal lacteals. No obstruction or enlarged lymph nodes founded at upper limits of lymphatic abnormality or elsewhere. Cysterna chyli region revealed no abnormality to palpation. No interference for fear of causing chylous ascites.

1943. Discharge P.V. much less for one year after laparotomy.

1947. Chylous discharge P.V. recurred. Fourth pregnancy. Hiperemesis gravidarum and «thrombosis» of right leg. Live infant.

1950. Fifth pregnancy. Hysterectomy and sterilisation. Chyluria ceased after this and metrochylorrhoea became much less again (1 pad a day). Leg oedema and vesicles unchanged.

1951. In hospital with ulcers on the right foot, new chylous vesicles on this foot as well as thigh, increase in swelling of the leg, and several attacks of lymphangitis.

1952. Operation (at another hospital) on the groin: it was found that the groin lymphatics were dilated and full of chyle and stained with Sudan III which had been given by mouth the previous evening. They were ligated to prevent chylous reflux down the leg which might impair a satisfactory «take» of the skin grafts. Subsequently a Charles' operation was done on the leg. Healed very well.

1953. Charles' operation on thigh.

1955. Free of chylous discharges.

1963. Some recurrence of the discharge from the thigh had recurred occasionally, but it was not troublesome. The patient was well. The plasma proteins were normal (total 6.4, albumin 4.0, globulin 2.4 gm. per cent).

### CASE III (Kinmonth and cols., 1964).

The history began when the child was three years-old and her parents noticed the left leg was thicker than the right, she had repeated attacks during childhood variously labelled osteomyelitis, cellulitis or septic arthritis of the knee and at numerous operations on the limb there was always a large collection of «milky pus» which usually proved to be sterile. Over the years the limb became an unsightly burden to her and when she was fifteen years-old milky fluid began to discharge from skin blebs scattered from the buttock to the sole of the foot. In many stages the hole of the skin, subcutaneous tissue and deep fascia of the thigh, leg and dorsum of the foot has been excised and the skin replaced with a thick free graft. This has improved the contours of the limb but there is still a discharge of chyle from a few skin blebs. More recently she has developed an intermittent, gushing-type of milky vaginal discharge, which probably comes from the uterus, as there is no abnormality to be seen in the vagina. Further, she still has frequent admissions to Hospital for attacks of chylous arthritis in her left knee-joint.

Nearly three years ago, in 1958, when she was aged 16, a pelvic explora-

tion was done and a few dilated tortuous lymphatics about the external iliac artery were excised. The largest of these trunks was about the size of the near-by ureter. There was only temporary cessation of chylous discharge.

In May 1962 the abdomen was again explored. There were many dilated retroperitoneal lymphatics. Injection of Urografin into them showed one enormous one running by the left side of aorta. It, together with others and some in the left ovarian pedicle were ligated and cleared.

Since the last operation, for a period of over a year, the patient has been free of vaginal chylorrhea and of any other evidence of chylous reflux.

In 1967, **Burnett** and **McCaffrey** report the fourth case, operated on by Martorell's technic.

#### **CASE IV (Burnett and McCaffrey, 1967).**

The patient was a married woman, aged 31 years, with three children. She was admitted in July, 1965. She stated that at the age of 4 years after standing on a rusty nail, a small wound in her left foot from this incident subsequently developed a mild infection which responded to treatment quite quickly. A few weeks later, however, the left foot began to swell and the swelling advanced up the leg slowly but quite relentlessly. No real regression ever occurred and by the age of 25 years, the whole of the upper limb from toes to groin was grossly swollen and oedematous. Operations on the left foot and leg were performed elsewhere in 1952 and again in 1955, but details of these procedures could not be made available to us.

Three years before the present admission, at the age of 28 years, she noticed a fluid discharge from the vagina and left labium majus, and this progressively increased in quantity. The fluid was milky in appearance and was most profuse when the patient was active, decreasing in volume when she rested. When seen in consultation, she said that she usually required at least ten perineal pads per day to absorb the chylous vaginal discharge. She complained bitterly about frequent embarrassments to her otherwise normal everyday life caused by her condition. There was no history of any disease within her family. Her three children aged from 3 years to 8 years were quite well. She herself had suffered no other illnesses apart from an intermittent dyspepsia. Her menstrual periods were regular and quite normal apart from some mild dysmenorrhea.

Examination revealed gross lymphoedema of the left leg extending to the groin. There was a scar on the dorsum of the left foot, another on the medial aspect on the leg where, it was presumed, some form of Kondoleon operation had been performed. There was no evidence of recent infection in the leg. There were no enlarged lymph nodes palpable in the left groin. The right leg appeared quite normal. Examination of the vulva showed a continuous lymphatic leak from the left labium majus, and on this labium there was a group of discrete lymphoid type follicles each measuring several millimetres in diameter. It was thought that a few fistulous openings could be seen through which the lymph was discharging. However, these could not be cannulated. Pelvic examination revealed no obvious abnormality in the pelvic organs. It appeared that the discharge was coming only from the left wall of the vagina and the left lateral fornix. The right side was

not involved and no discharge was seen to emerge from the cervix. Abdominal examination revealed no abnormality.

Attempts were made to study the lymphatic discharge after the patient had ingested various dye materials but these were unsuccessful. However, an increase in the amount of butter and cream in the diet resulted in an increase of the optical density of the chylous discharge. Lymphangiography was attempted in the usual way after cannulation of a lymphatic channel on the dorsum of the left foot. However this was unsuccessful. A further lymphangiogram was carried out through a small incision in the upper left thigh and this showed grossly dilated lymphatics within the abdomen with a few hypoplastic lymphatics in the thigh itself. These lymphatics were most marked in the line of the left iliac vessels and there were large channels communicating with the region of the vault of the vagina. No connections could be demonstrated between these lymphatics and any intestinal lymphatics.

Microscopic examination of the discharge showed numerous lymphocytes to be present. No fat was detected in the urine and there was no microscopic or macroscopic chyluria. All other laboratory investigations were normal.

Operation was carried out on the 10-VIII-65, through a left lower abdominal oblique muscle cutting incision. A mass of dilated lymphatic channels was found encircling the left common, internal, and external iliac vessels. This lymphatic mass disappeared through the base of sigmoid meso-colon in the direction of the small bowell mesentery. The small bowell itself was normal and no communicating lymph channels were found between the bowell lymphatics and the dilated lymphatics around the iliac vessels. There was no chylous ascites. Some of the dilated lymphatics were close to and ran alongside the left ureter in its pelvic course but did not appear to establish any communication with it. Some of these pathological lymphatics followed the left lower round ligament out the abdomen and ran with it to the region of the left labium majus. Several dilated lymphatics were seen to enter the region of the left lateral fornix of the vagina. The major blood vessels themselves appeared to be quite normal apart from the surrounding lymphatic tissue.

The entire abnormal lymphatic mass was excised after carefully ligating with silk all visible communications between it and the pelvic organs. The lymphatic were quite thick walled and contained lymph under pressure. At the end of the operation the iliac vessels were left completely bare of the surrounding lymphatic tissue. Clearance was also complete in the related areas on the left side of the pelvis, and the round ligament and the related lymphatic trunk was also excised. Post-operative progress was quite uneventful and the vaginal discharge rapidly diminished. When discharged from hospital on the 15th post-operative day only a very slight discharge remained. A prolonged course of Tetracycline was given to cut down any potential infection from still existent communications with intestinal lymphatics. The chylous metrorrhea finally ceased some months after operation and had not recurred by the 10th post-operative month. During the first three months after her discharge from the hospital she was given 5 mg of Methyclothiazide daily in an attempt to decrease the oedema of the left leg. However, no improvement occurred in this and the patient was reconciled to this remaining disability.

## COMMENTS

The present compiled instances configure a special, definite and rare disease. The four cases were published in Vascular Pathology Journals, but none in Gynecology Review.

Although the incidence of the disease is exceptional, we think that some cases of copious, contumacious leukorrhea could really correspond to chylous metrorrhea, particularly those associated with swelling of one or two legs.

The present compilation is a calling to the gynecologists to search this possibility in their patients, since that the diagnosis is only possible if disease is known.

## SUMMARY

Four cases of chylous metrorrhea occurring after Martorell's first description in 1963 are reviewed. Lymphangiectomy was performed in three cases and ligature of the pelvic lymphatics in one. The exceptional incidence of the disease is obvious, but it must be remembered in some cases of profuse leucorrhea. A wide field for research is open to gynecologists.

## REFERENCES

- Martorell, F.: Metrorrea quílosa. Su tratamiento por la linfangiectomía pélvica. «Angiología», 15: 209, 1963.  
Watson, J.: Chronic lymphoedema of the extremities and its management. «British J. of Surgery», 41, n.º 5, 1953.  
Kinmonth, J. B.; Taylor, G. W. and Jantet, G. H.: Chylous complications of primary lymphoedema. «J. of Cardiovascular Surgery», 5: 327, 1964.  
Burnett, W. and McCaffrey, J.: Metrorrea quílosa. «Angiología», 19: 1, 1967.