

CASO CLÍNICO

1. Médico Gineco-Obstetra, Hospital Nacional Daniel Alcides Carrión, Callao, Perú; Centro de Medicina Fetal: CENMEF, Grupo de Medicina Materno Fetal: Fetalis; ORCID iD: <https://orcid.org/0000-0003-3321-3355>
2. Médico Gineco-Obstetra, Hospital Nacional Daniel Alcides Carrión, Callao, Perú; ORCID iD: <https://orcid.org/0000-0003-4068-3697>

Financiamiento: Autofinanciado

Conflicto de intereses: Ninguno

Recibido: 28 julio 2020

Aceptado: 9 noviembre 2020

Publicación en línea:

Correspondencia:

📍 Av. Guardia Chalaca 2176, Bellavista, Callao

☎ 985436784

✉ drllacunza@hotmail.com

Citar como: Lacunza Paredes R, Zumalave

Grados I. Malformación arteriovenosa

uterina gigante. Reporte de un caso. Rev Peru Ginecol Obstet. 2021;67(1). DOI: <https://doi.org/10.31403/rpgo.v67i2307>

Malformación arteriovenosa uterina gigante. Presentación de un caso

Giant uterine arteriovenous malformation. Report of a case

Rommel Omar Lacunza Paredes¹, Isabel Zumalave Grados²

DOI: <https://doi.org/10.31403/rpgo.v67i2307>

RESUMEN

Se presenta el caso de una paciente que cursó con hemorragia uterina anormal debido a una malformación arteriovenosa adquirida diagnosticada por ecografía Doppler y resonancia magnética. Dicha patología es hallada cada vez con mayor frecuencia y consecuencias graves, si no se realiza un manejo adecuado y oportuno.

Palabras clave. Útero, Malformaciones vasculares, adquirida, Hemorragia uterina.

ABSTRACT

The case of a patient who presented with abnormal uterine hemorrhage due to an acquired arteriovenous malformation diagnosed with Doppler ultrasound and magnetic resonance is presented. This pathology is found with increasing frequency and serious consequences, if proper and timely management is not carried out.

Keywords: Uterus, Vascular malformations, acquired, Uterine hemorrhage.

INTRODUCCIÓN

La malformación arteriovenosa uterina (MAVU), llamada antiguamente fístula arteriovenosa o aneurisma cirsoide, fue comunicada por primera vez por Dubreuil y Loubat, en 1926⁽¹⁾. Tiene una incidencia desconocida, pero es más frecuente de lo que se estima. En la literatura existen pocos casos y series documentadas.

Estas malformaciones pueden ser clasificadas en congénitas y adquiridas, siendo las más comunes las MAVU adquiridas. La MAVU congénita se debe a falla en la diferenciación embriológica de las estructuras vasculares primitivas, resultando en conexiones vasculares anormales que tienden a extenderse más allá de los márgenes del útero en la pelvis, con vasos generalmente provenientes de la arteria uterina⁽²⁾. El origen de la MAVU adquirida es poco claro, pero se relaciona a episodios de traumatismo endometrial en presencia de tejido trofoblástico (legrados uterinos, cirugía uterina como la cesárea, acretismo placentario, enfermedad trofoblástica gestacional o parto vaginal). Se presenta como múltiples conexiones vasculares entre arterias y venas, de tamaño variable, que suelen ser focalizadas en el área del factor desencadenante⁽³⁻⁵⁾.

Se presenta el caso poco usual de una MAVU adquirida, que comprometió todo el miometrio del cuerpo uterino y cursó con hemorragia uterina severa.

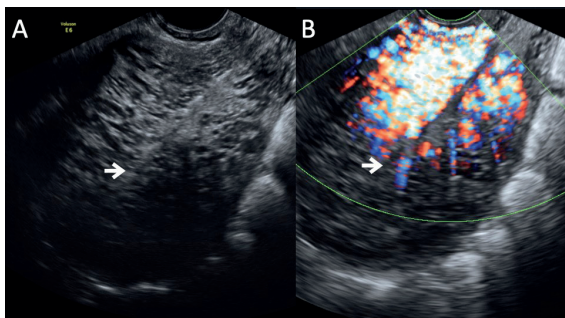
CASO CLÍNICO

Se trató de paciente de 40 años con antecedentes obstétricos de primer parto vaginal no complicado 20 años atrás, cesárea por eclampsia hacía 16 años y 6 años de un aborto incompleto complicado con anemia severa, que requirió transfusión de 2 paquetes globulares previo a la aspiración manual endouterina (AMEU). Cinco años atrás ocurrió nuevo aborto incompleto tratado con AMEU, sin complicaciones. En ambos casos, el estudio anatómico-patológico correspondió a restos placentarios y deciduales.

La paciente acudió al consultorio externo ocho meses atrás por presentar hemorragia uterina anormal de dos meses de evolución. Los estudios ecográficos iniciales (en otra institución) consideraron los diagnósticos de leiomiomatosis uterina, adenomiosis y engrosamiento endometrial. Fue sometida a histeroscopia 6 meses antes, sin haberse hallado mayores alteraciones en la cavidad. La hemorragia uterina anormal persistió en la paciente, y un nuevo ultrasonido evidenció miometrio engrosado y heterogéneo y endometrio delgado de difícil delimitación (figura 1A). Al estudio Doppler, había zonas hipocogénicas miometriales que presentaban aumento global de la vascularidad (figuras 1B y 2); estos vasos mostraban una velocidad de pico sistólico (VPS) de 47,33 cm/seg (figura N2B). La probabilidad diagnóstica fue de sarcoma uterino o malformación arteriovenosa uterina (MAVU) gigante. En la resonancia magnética se halló engrosamiento del miometrio, con aumento marcado de captación del contraste en todo el músculo uterino y los vasos uterinos del ligamento ancho, sin evidencia de tumoraciones o patología endometrial (figura 3).

A los pocos días, presentó episodio de sangrado uterino masivo con anemia severa sintomática que requirió transfusión de 2 paquetes globulares. Una vez estabilizada, y por la gravedad del cuadro, la paciente fue programada para histerectomía abdominal de emergencia. Durante el acto operatorio se encontró útero de aproximadamente 15 cm, vasos uterinos del ligamento ancho dilatados y tortuosos, sangrado intraoperatorio de 2 800 mL, por lo que recibió múltiples hemoderivados. El postoperatorio lo cursó sin interurrencias. El estudio anatomopatológico

FIGURA 1. A. ULTRASONOGRAFÍA DEL ÚTERO EN CORTE SAGITAL, QUE MUESTRA EL MIOMETRIO ENGROSADO Y HETEROGÉNEO. LA FLECHA SEÑALA EL ENDOMETRIO, EL CUAL ES DIFÍCIL DE DIFERENCIAR. B. ULTRASONOGRAFÍA CON POWER DOPPLER HD, QUE MUESTRA AUMENTO CONSIDERABLE DEL FLUJO VASCULAR EN TODO EL GROSOR ENDOMETRIAL.



de la pieza quirúrgica informó malformación arteriovenosa adquirida. Macroscópicamente se observó el miometrio engrosado, con vasos de diverso calibre, con excepción del cérvix e istmo (figura 4A). La microscopia mostró múltiples vasos miometriales de morfología variable, diverso calibre y paredes de grosor irregular (figura 4B).

DISCUSIÓN

La malformación arteriovenosa es un cortocircuito formado por la comunicación anormal entre ramas de la arteria uterina y los plexos venosos miometriales^(1,2). Mulliken y Glowacki consideran las MAVU como canales vasculares tortuosos de diferentes tamaños y formas, revestidos por un endotelio continuo y rodeado por un complemento anormal de células murales. Müngen considera que, en los casos adquiridos, la vascularidad variable y el aumento de la fibrosis se asocian a retención miometrial de restos conceptuales (trofoblasto)^(2,6,7).

FIGURA 2. A. ULTRASONIDO CON DOPPLER PULSADO MUESTRA ABUNDANTE VASCULARIDAD MULTIDIRECCIONAL EN TODO EL GROSOR ENDOMETRIAL. B. ONDA ESPECTRAL DE LOS VASOS MIOMETRIALES ANORMALES, CON PICO SISTÓLICO EN 47,33 CM/S, ÍNDICE DE RESISTENCIA BAJO EN 0,43.

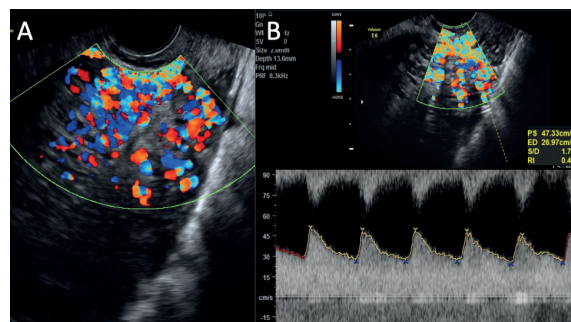


FIGURA 3. A. RESONANCIA MAGNÉTICA CON CONTRASTE EN CORTE AXIAL; SE EVIDENCIA VASOS EN LIGAMENTO ANCHO DILATADOS Y ARTERIAS UTERINAS AUMENTADAS DE TAMAÑO (FLECHA BLANCA). B Y C. CORTE SAGITAL DE RESONANCIA MUESTRA MIOMETRIO ENGROSADO GLOBALMENTE, HETEROGÉNEO, CON ZONAS HIPOINTENSAS Y CAVIDAD ENDOMETRIAL LINEAL.

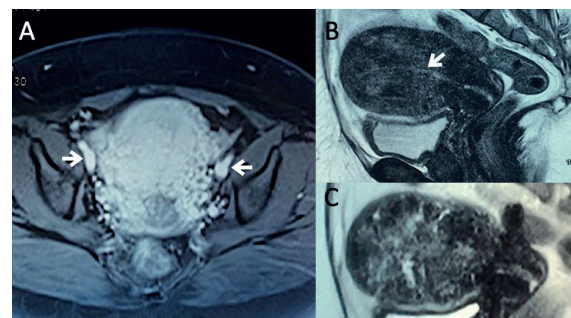
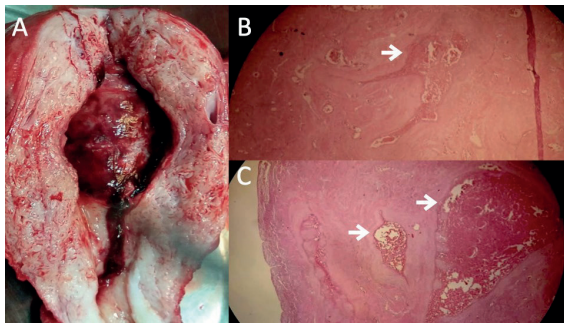




FIGURA 4. A. PIEZA ANATÓMICA DE ÚTERO, MIOMETRIO ENGROSADO CON AUMENTO DE LA VASCULARIDAD (COLORACIÓN ROJIZA), CÉRVIX BLANQUECINO SIN ALTERACIONES, CAVIDAD ENDOUTERINA OCUPADA POR TEJIDO DE ASPECTO HEMÁTICO. B Y C. CORTES HISTOLÓGICOS DE MIOMETRIO PRESENTAN VASOS CON MORFOLOGÍA Y CALIBRE VARIABLE, CON PAREDES DE GROSOR IRREGULAR RODEADAS DE FIBROSIS (FLECHAS BLANCAS).



La sospecha de MAVU se establece ante la hemorragia uterina anormal (HUA) que, al ultrasonido transvaginal, muestra una zona de heterogeneidad en el músculo uterino, como espacios anecogénicos irregulares de diverso tamaño, habitualmente agrupados y cercanos al endometrio⁽⁷⁻⁹⁾. Al utilizar el Doppler (sea color o *power*) se evidencia un ovillo con flujo multidireccional que se corresponde con las áreas anecogénicas antes mencionadas (figuras 1B y 2A). La alta velocidad presente en estos vasos anormales genera una imagen en mosaico vascular propio de las derivaciones arteriovenosas, en 95% de los casos. Se encuentran picos elevados de velocidad sistólica con índice bajo de resistencia y pulsatilidad, hallazgo característico de esta condición⁽¹⁰⁾ (figuras 1 y 2).

Kamaya clasifica la vascularización del útero del MAVU estudiada con Doppler en: a) tipo 0: restos de la concepción retenidos sin vascularización; b) tipo 1: contenido endouterino con vascularidad mínima; c) tipo 2: vascularización moderada; y, d) tipo 3: vascularidad extensa^(11,12). Van den Bosch usa el término 'vascularidad miometrial aumentada' al examen Doppler cuando se trata de retención de restos conceptuales. Parece razonable usarlo como un término integral para la descripción de las MAVU, al ser la imagen ecográfica similar, independientemente de la patología asociada^(2,8,11,13).

Si bien estas pacientes suelen permanecer asintomáticas, es común que presenten sangrado uterino generalmente indoloro y poco específico. Debe sospecharse cuando, ante el antecedente de un procedimiento invasivo (legrado uterino, biopsia endometrial), el sangrado sea profuso, sin una explicación clara. Por ello, es imprescindible su

búsqueda cuando se estudia con ultrasonido a pacientes con hemorragia y antecedentes cercanos de gestación o aborto, antes de someterlas a procedimientos^(6,7,13).

La arteriografía es considerada el estándar de oro para el diagnóstico definitivo. Sin embargo, diversos estudios han mostrado que la ecografía transvaginal y el estudio Doppler son modalidades de diagnóstico simple, reproducible y costo-efectivo^(10,14,15). En casos seleccionados, la tomografía y resonancia pueden aportar diagnósticos diferenciales y la extensión de la vascularidad pélvica; pueden ser recomendables, pero no siempre son necesarias.

A grandes rasgos, el manejo de las pacientes asintomáticas es médico (control, gestágenos, metilergonovina, anticonceptivos combinados). Las pacientes con episodios recurrentes de HUA tendrán indicación quirúrgica (histerectomía, ligadura de arterias hipogástricas vía laparoscópica o histeroscopia), sobre todo aquellas con hemorragia masiva refractaria, como fue el caso presentado. Actualmente, en pacientes que deseen preservar la fertilidad se recomienda la embolización distal selectiva de las arterias uterinas, con tasa de éxito superior al 93%⁽¹⁶⁾.

Una forma de elegir el manejo se basa en el comportamiento vascular de la MAVU. Si los valores de VPS están por debajo de 40 cm/seg, el curso se considera menos riesgoso. Los signos y síntomas generalmente son tributarios de seguimiento periódico^(2,13,15,17). Si las pacientes presentan VPS entre 40 y 60 cm/seg, pueden tener manejo médico, siempre y cuando se mantengan asintomáticas. Sin embargo, si las velocidades son superiores a 60 o 70 cm/seg, son candidatas para tratamiento con embolización de las arterias uterinas o tratamiento quirúrgico^(2,7,9). Lo anormal del caso presentado fue lo aparatoso del sangrado vaginal con VPS bajo; quizá, la extensión generalizada de la lesión podría explicar este comportamiento.

Capmas comunica el único caso publicado de una MAVU extensa que abarcaba todo el miometrio, evidenciando áreas de hipervascularidad, flujo turbulento y alta velocidad sistólica. Tras falla del manejo conservador, optaron por la histerectomía⁽¹⁸⁾. El presente caso muestra similitud en el compromiso vascular de la totalidad del miometrio, con imágenes de flujo Doppler y curso clínico similares.



Si bien la MAVU es poco frecuente, las complicaciones potenciales de no diagnosticarla obligan a su búsqueda en casos de HUA, siempre antes de procedimientos quirúrgicos relacionados a abortos recientes.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Fleming H, Ostör AG, Pickel H, Fortune DW. Arteriovenous malformations of the uterus. *Obstet Gynecol.* 1989;73:209. PMID: 2643064
2. Timor-Tritsch IE, Haynes MC, Monteagudo A, Khatib N, Kovács S. Ultrasound diagnosis and management of acquired uterine enhanced myometrial vascularity/arteriovenous malformations. *Am J Obstet Gynecol.* 2016;214(6):731.e1-731.e10. DOI:10.1016/j.ajog.2015.12.024
3. Ghai S, Rajan DK, Asch MR, Muradali D, Simons ME, TerBrugge KG. Efficacy of embolization in traumatic uterine vascular malformations. *J Vasc Interv Radiol.* 2003;14(11):1401-8. DOI: 10.1097/01.rvi.0000096761.74047.7d
4. Peitsidis P, Manolakas E, Tsekoura V, Kreienberg R, Schwentner L. Uterine arteriovenous malformations induced after diagnostic curettage: a systematic review. *Arch Gynecol Obstet.* 2011;284(5):1137-51. DOI: 10.1007/s00404-011-2067-7
5. Grivell RM, Reid KM, Mellor A. Uterine arteriovenous malformations: a review of the current literature. *Obstet Gynecol Surv.* 2005;60:761-7. DOI: 10.1016/j.gyobfe.2011.08.013
6. Nasu K, Fujisawa K, Yoshimatsu J, Miyakawa I. Uterine arteriovenous malformation: ultrasonographic, magnetic resonance and radiological findings. *Gynecol Obstet Invest.* 2002;53(3):191-4. DOI: 10.1159/000058373
7. Huang MW, Muradali D, Thurston WA, Burns PN, Wilson SR. Uterine arteriovenous malformations: gray-scale and Doppler US features with MR imaging correlation. *Radiology.* 1998;206(1):115-23. DOI:10.1148/radiology.206.1.9423660
8. Flynn MK, Levine D. Non-invasive diagnosis and management of a uterine arteriovenous malformation. *Obstet Gynecol.* 1996;88:650. doi: 10.1016/0029-7844(96)00122-6
9. Rosa C, De Aguiar F, Japur A, Reis F, Poli O, Nogueira A. Conservative management of large uterine arteriovenous malformation: case report. *Fertil Steril.* 2008;90:2406-7. DOI: 10.1016/j.fertnstert.2008.01.097
10. Szpera-Goździewicz A, Gruca-Stryjak K, Bręborowicz GH, Ropacka-Lesiak M. Acquired uterine arteriovenous malformation - a diagnostic dilemma. *Ginekol Pol.* 2018;89(4):227-8. doi:10.5603/GP.a2018.0039
11. Zhu YP, Sun ZJ, Lang JH, Pan J. Clinical characteristic and management of acquired uterine arteriovenous malformation. *Chin Med J (Engl).* 2018;131(20):2489-91. DOI:10.4103/0366-6999.243570
12. Kamaya A, Petrovitch I, Chen B, Frederick CE, Jeffrey RB. Retained products of conception: spectrum of color Doppler findings. *J Ultrasound Med* 2009;28:1031-41. DOI: 10.7863/jum.2009.28.8.1031
13. Timmerman D, Van den Bosch T, Peeraer K, Debrouwere E, Van Schoubroeck D, Stockx L, et al. Vascular malformations in the uterus: ultrasonographic diagnosis and conservative management. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol.* 2000;92(1):171-8. doi:10.1016/s0301-2115(00)00443-7
14. Polat P, Suma S, Kantarcy M, Alper F, Levent A. Color Doppler US in the evaluation of uterine vascular abnormalities. *Radiographics* 2002;22:47-53. doi:10.1148 / radiographics.22.1.g02ja0947
15. Lacunza RO. Uterine arteriovenous malformation as a non-frequent cause of abnormal uterine hemorrhage. Case report. *Rev Peru Ginecol Obstet.* 2013;59:203-6.
16. Grivell RM, Reid KM, Mellor A. Uterine arteriovenous malformations: a review of the current literature. *Obstet Gynecol Surv* 2005;60: 761-7. DOI: 10.1016/j.gyobfe.2011.08.013
17. Syla B, Fetiu S, Tafarshiku S. Transabdominal two-and-three-dimensional color Doppler imaging of a uterine arteriovenous malformation. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2011;37:376-8. DOI: 10.1002/uog.8918
18. Capmas P, Levallant JM, Teig B, Fernandez H. Uterine arteriovenous malformation involving the whole myometrium. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2013;41(6):715-7. doi:10.1002/uog.12432