

Corangioma placentario: enfoque clínico-patológico de un caso descrito en Colombia

Gabriel E Pérez García,¹ Jairo A Sierra Avendaño,² Eulalia Rangel Navia,³ Juan S Fuentes Porras⁴

RESUMEN

El corangioma es un tumor placentario de origen vascular, es el más frecuente entre los tumores primarios no trofoblásticos de la placenta y se encuentra en aproximadamente 1% de los estudios de patología placentaria. Representa una proliferación benigna de vasos capilares y estroma dentro de las villosidades que forma un tumor y se asocia con embarazos múltiples, preeclampsia y anomalías congénitas en el feto. Se comunica el caso de una paciente de 38 años años de edad, con 11 embarazos, nueve partos y un aborto, con embarazo de 29 semanas, quien durante la valoración perinatal tuvo polihidramnios severo y signos de sufrimiento fetal agudo, por lo que se practicó cesárea. En el estudio histopatológico de la placenta se evidenció una masa con áreas hemorrágicas que durante el examen microscópico reveló proliferación de vasos fetales de pequeño calibre de tipo capilar y sinusoidal, con positividad para CD34. El estudio histopatológico de las neoplasias placentarias no trofoblásticas debe diferenciar entre corangiosis, corangiomatosis y coriocarcinoma, además de informar si existe o no displasia mesenquimatosa debido a su frecuente asociación con padecimientos genéticos. Esta neoplasia se asocia con procesos de hipoxia feto-placentaria que deben evaluarse en las pacientes con antecedentes de restricción del crecimiento fetal, preeclampsia y múltiples embarazos.

Palabras clave: hemangioma, corangioma, multigravidet, neoplasias del tejido vascular.

ABSTRACT

Chorangioma is a tumor of vascular origin placental, the most frequent among primary placental non-trophoblastic tumors; however, it is found in about 1% of placental pathology case studies. Chorangioma represents a benign neoplasm with proliferation of capillaries and villous stroma associated to multiple gestations, preeclampsia and birth defects in the fetus. This paper reports the case of a 38-year pregnant woman (29 gestation weeks). She had eleven pregnancies, nine deliveries and one abortion. During perinatal assessment patient showed severe polyhydramnios and acute fetal distress. The histopathologic examination of the placenta showed a mass with hemorrhagic areas. The microscopic examination revealed proliferation of small fetal capillary vessels and CD34-positive immunostain. Histopathological study of primary non-trophoblastic tumors should differentiate chorangiosis from other entities, as the chorangiomatosis and choriocarcinoma, and this study should report the presence or absence of mesenchymal dysplasia because it is associated with genetic diseases. This neoplasm is associated with processes of fetal-placental hypoxia that must be assessed in patients with a history of fetal growth restriction, preeclampsia and multiple gestations.

Key words: chorangioma, hemangioma, multigravidity, vascular tissue neoplasms.

RÉSUMÉ

Le corangioma est une tumeur placentaire vasculaire, sont les tumeurs les plus fréquentes primaires non trophoblastique du placenta et se retrouve dans environ 1% des études de pathologie placentaire. Représente une prolifération bénigne des vaisseaux capillaires du stroma villositaire et à l'intérieur qui forme une tumeur et est associée aux grossesses multiples, la pré-éclampsie et de malformations congénitales chez le foetus. Nous rapportons le cas d'un patient âgé de 38 ans, avec 11 grossesses, neuf naissances et à l'avortement, la grossesse de 29 semaines, qui avaient évaluation périnatale sévère au cours hydramnios et des signes de souffrance fœtale aiguë, qui a été réalisée par césarienne. Lors de l'examen histopathologique du placenta a montré une masse avec des zones hémorragiques lors de l'examen microscopique a révélé la prolifération des vaisseaux fœtaux de type capillaire de petit calibre et sinusoidal, CD34-positif. L'histopathologie des tumeurs trophoblaste placentaire devrait pas la différence entre corangiosis et choriocarcinome corangiomatosis également informer s'il existe une dysplasie mésenchymateuse en raison de son association fréquente avec des troubles génétiques. Cette néoplasie est associée aux processus de foeto-placentaire hypoxie à évaluer chez les patients ayant des antécédents de retard de croissance fœtale, la pré-éclampsie et les grossesses multiples.

Mots-clés: hémangiome, corangioma, multigravidet, les tumeurs des tissus vasculaires.

RESUMO

O corangioma é um tumor vascular da placenta, é que os tumores primários mais freqüentes não trofoblástica placenta e é encontrado em aproximadamente 1% dos placentários estudos de patologia. Representa uma proliferação benigna de capilares e estroma viloso dentro da qual forma um tumor e está associada com gravidezes múltiplas, pré-eclâmpsia e defeitos de nascimento do feto. Relatamos um caso de um paciente com idade de 38 anos, com 11 gestações, nove nascimentos e aborto, gravidez de 29 semanas, que tiveram avaliação perinatal grave durante polidrâmnio e sinais de sofrimento fetal agudo, que foi realizado por cesariana. No exame histopatológico da placenta mostrou uma massa com áreas hemorrágicas durante o exame microscópico revelou proliferação de vasos fetais do tipo calibre pequeno capilar e sinusoidal, CD34 positivo. O exame histopatológico de neoplasias trofoblasto placentário não deve diferenciar entre corangiosis, e choriocarcinoma corangiomatosis também informar se existe displasia mesenquimal por causa de sua associação freqüente com doenças genéticas. Esta neoplasia está associada a processos de hipóxia fetal-placentário a ser avaliados em pacientes com história de restrição do crescimento fetal, pré-eclâmpsia e gestações múltiplas.

Palavras-chave: hemangioma, corangioma, multigravidet, neoplasias tecido vascular.

El corangioma es un tumor placentario de origen vascular, y es la neoplasia más frecuente entre los tumores benignos de la placenta; tiene una tasa de ocurrencia baja en comparación con otras afecciones de este órgano.¹ Pertenece al grupo de los hemangiomas, anomalías vasculares debidas a la proliferación de vasos sanguíneos que forman un tumor. El primer reporte de corangioma placentario fue descrito por Clarke en 1798.¹ La lesión se compone de canales capilares vascularizados que se entremezclan con las células estromales y se rodean de trofoblasto; sin embargo, debido a su variabilidad histológica se le han conferido nombres, como: hemangioma, angioma placentario, corangioma, mesenquimoma, corioangioma, hamartoma vascular de la placenta, fibroma, mixoma y corioma.² La distinción con la corangiomatosis es difícil de establecer, pero puede hacerse con el hallazgo de nódulos neoplásicos múltiples con un promedio de 2 cm de diámetro, constituidos por un estroma escaso en células que soporta abundantes vasos sanguíneos capilares revestidos por trofoblasto, estos componentes están inmersos en las vellosidades placentarias.³

Este tumor vascular se ubica, frecuentemente, bajo la placa coriónica o en el margen placentario, correspondiente al sitio de reducción de la oxigenación.⁴ Procesos patológicos previos, como la preeclampsia, son un factor importante en la patogénesis del tumor vascular,^{4,5} que se asocia con decremento en la tensión de oxígeno, lo que aumenta la proliferación de vasos capilares en el tejido placentario.^{4,6}

¹ Médico patólogo, docente de cátedra.

² Estudiante de cuarto año, programa de medicina.

³ Residente de segundo año, especialización en patología.

⁴ Residente de primer año, especialización en ginecología y obstetricia.

Grupo de Investigación en Patología Estructural, Funcional y Clínica (PAT-UIS). Escuela de Medicina, Facultad de Salud, Universidad Industrial de Santander, Bucaramanga, Colombia.

Correspondencia: Dr. Gabriel Pérez. Carrera 32 núm. 29-31, Facultad de Salud, Edificio Eloy Valenzuela, 2^o piso, Departamento de Patología, oficina 201B. Facultad de Salud, Universidad Industrial de Santander, Bucaramanga, Colombia.

Correo electrónico: juancamapa@yahoo.com.ar.

Recibido: noviembre 2012. Aceptado: enero 2013.

Este artículo debe citarse como: Pérez-García GE, Sierra-Avendaño JA, Rangel-Navia E, Fuentes-Porras JS. Corangioma placentario: enfoque clínico-patológico de un caso descrito en Colombia. Ginecol Obstet Mex 2013;81:109-114.

A continuación se comunica el caso de una paciente con un corangioma placentario, hallazgo histopatológico de la pieza anatómica. Se analizan los datos disponibles en la bibliografía para realizar una adecuada descripción de esta neoplasia vascular y para aportar algunas apreciaciones acerca de su patogénesis.

CASO CLÍNICO

Paciente de 38 años de edad, gran multípara con 11 embarazos, nueve partos y un aborto. La paciente tenía embarazo de 29 semanas por ecografía, sin adecuado control prenatal; durante la evaluación perinatal se encontró polihidramnios severo con índice de líquido amniótico de 45 cm, por lo que se decidió hospitalizarla para realizar estudios de extensión y útero-inhibición profiláctica. Durante su estancia en la sala de partos de la institución, se encontró feto cardia de 90 latidos por minuto sostenida por más de 10 minutos, por lo que se consideró sufrimiento fetal agudo y se realizó inmediatamente cesárea, con la que se obtuvo un recién nacido vivo masculino sin esfuerzo respiratorio, hipotónico y bradicárdico cuyo índice de Apgar fue 3/10 al minuto y 3/10 a los 15 minutos. Se realizaron maniobras avanzadas de reanimación sin obtener respuesta. Se remitió el cuerpo y la placenta para su estudio anatomo-patológico.

En el servicio de patología se recibió una placenta que medía 20.2 x 17.4 x 1.4 cm y pesaba 535 g, con superficie fetal con cordón umbilical de inserción marginal que medía 20.1 cm de longitud por 1.6 cm de diámetro. A los cortes seriados se observó una gran lesión nodular bien delimitada, de consistencia cauchosa y superficie de corte sólida de color pardo claro, con áreas de hemorragia, que medía 3.2 x 3.1 x 2.1 cm de diámetros mayores cruzados (Figura 1). La valoración anatómica del feto no evidenció hallazgos dismórficos para la edad.

Los cortes microscópicos revelaron una placenta a término con una gran lesión tumoral benigna, angiomatosa, constituida por células mononucleares que acompañaban la proliferación de vasos fetales de pequeño calibre de tipo capilar y sinusoidal, este conjunto estaba inmerso en una cantidad moderada de tejido conectivo; a su vez, estaba tapizada por trofoblasto (Figura 2). No se observó atipia ni malignidad. La inmunohistoquímica reveló positividad para el marcador CD34 (Figura 3). Estos hallazgos son concluyentes para el diagnóstico de corangioma de la placenta.

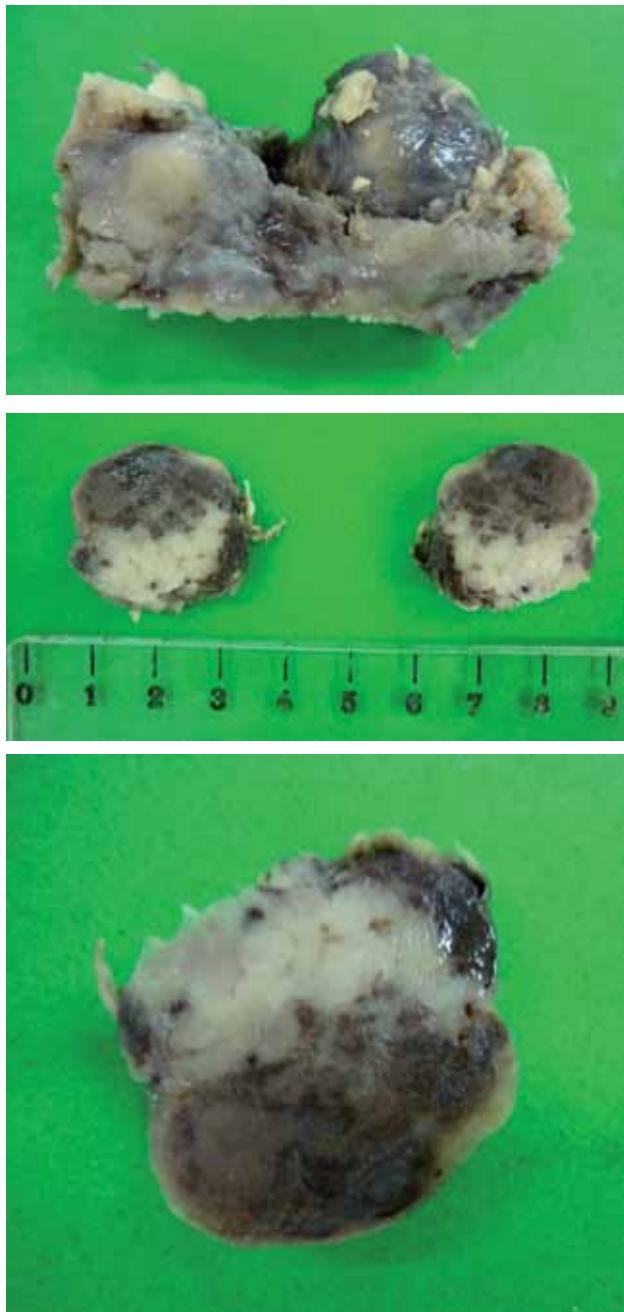


Figura 1. Tejido placentario con masa nodular blanquecina que sobresale sobre su cara fetal y que al corte muestra bordes definidos con zonas de infiltración hemorrágica en su interior, con lo que puede diferenciarse del tejido placentario adyacente.

DISCUSIÓN

Los tumores de la placenta son de frecuencia muy baja, a diferencia de los tumores vasculares. La bibliografía co-

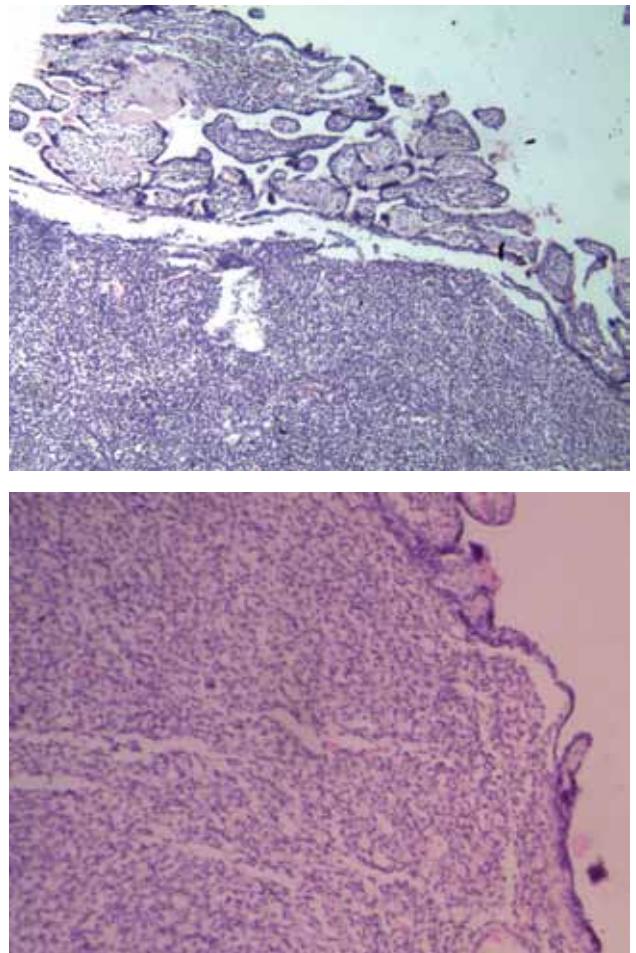


Figura 2. La imagen microscópica muestra la lesión tumoral compuesta por numerosos vasos sanguíneos agrupados entre sí y revestidos por células endoteliales sin atipia que crecen en forma expansiva, separados del tejido placentario adyacente.

lombiana cuenta apenas con descripciones anecdoticas.⁷ Aunque su incidencia es de 0.5 a 0.7%, cifra reportada en estudios recientes de exámenes de placenta,^{8,9} otros datos muestran que la ocurrencia puede variar entre 1:3,000 y 1:9,000 nacimientos.⁵ Otros tipos de tumores informados en este órgano son muy poco frecuentes, entre ellos está el teratoma, con menos de 30 casos informados en la bibliografía mundial.¹⁰

Las descripciones histopatológicas de esta lesión coinciden en la conformación de una proliferación de vasos capilares fetales dispuestos en un estroma de tejido fibroconectivo y rodeados por células trofoblásticas, la mayor parte de ellos son pequeños (≤ 1 cm) y

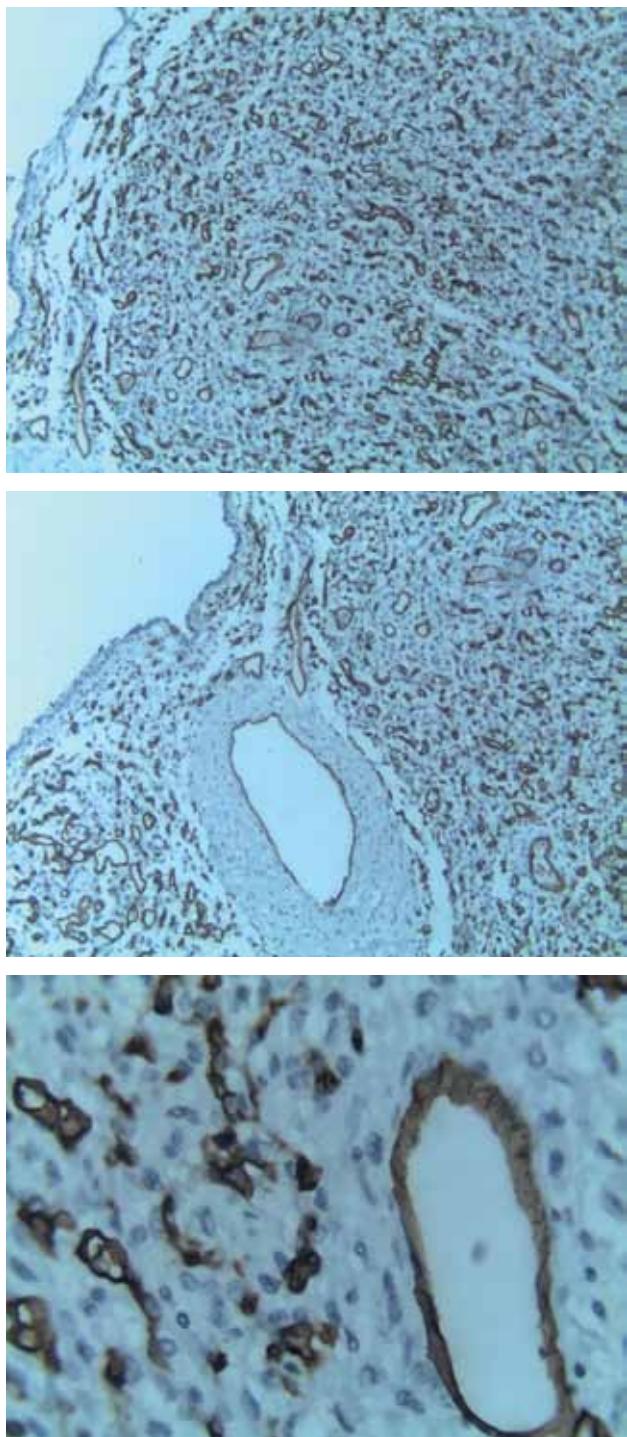


Figura 3. El marcador CD34 confirma la proliferación vascular del tumor dando tinción a las células endoteliales.

no son detectados fácilmente,¹¹ por ello es necesario el estudio seriado del tejido placentario, especialmente si

se trata de una corangiomatosis. Por lo general, estos nódulos firmes con superficie de corte lisa se encuentran en el margen de la placenta o por debajo de la placa coriónica;⁸ estas estructuras pueden variar de pocos milímetros a ser mayores de 4 cm y constituirse por un patrón difuso a revelarse como un patrón nodular.⁵ La lesión puede constituir grandes masas que surgen del tejido veloso y puede protruir hacia la superficie fetal placentaria. Las masas tienen una consistencia blanda, de color violáceo a claro con cambios de congestión e infiltración hemorrágica, descripción que comparten los diferentes informes.^{3,11,12}

Clásicamente se distinguen tres patrones histológicos, que se han descrito como: 1) patrón angiomatoso, 2) patrón celular y 3) patrón degenerado.^{5,11} El primero es el más común, se constituye por pequeños vasos capilares revestidos por células endoteliales y rodeados de estroma placentario, que puede estar compuesto por un abundante tejido fibroso que en algunas zonas puede recordar un fibroma.

El tipo celular se distingue por marcada proliferación de vasos capilares primitivos ubicados en medio de un estroma edematoso, estas lesiones con frecuencia pueden encontrarse en áreas cercanas a la base de implantación del cordón umbilical. Por último, la variante degenerada se distingue por acompañarse de áreas de necrosis, calcificación y cambios hialinos.¹

Es importante descartar atipia en el epitelio del estroma vascular, que se traduce en lo que Moscoso y colaboradores, en el año 1991, denominaron “displasia del mesénquima placentario”,¹³ una anomalía vascular que se distingue por placentomegalia y vesículas en forma de “racimo de uvas” que recuerdan a un embarazo molar parcial visualizado en el ultrasonido y el examen macroscópico.

Esta afección está estrechamente relacionada con el síndrome de Beckwith-Wiedemann (23% de los casos informados) y retraso en el crecimiento intrauterino en la mayor parte de los informes,^{14,15} pero puede manifestarse con apariencia fetal normal. Los hallazgos de corangiomatosis multifocal difusa, múltiples anomalías congénitas severas y edad gestacional temprana, menor a 32 semanas, son datos que sugieren displasia del mesénquima placentario.

La mayor parte de los corangiomas, principalmente los más pequeños, son asintomáticos; sin embargo, los tumores mayores de 4 cm, también denominados corangiomas gigantes,¹⁶ pueden producir síntomas clínicos,

principalmente asociados con polihidramnios, anemia fetal hemolítica no inmunitaria, cardiomegalia fetal, insuficiencia cardiaca congestiva fetal, retardo del crecimiento intrauterino, distocia, toxemia y desprendimiento placentario.^{16,17} La presencia o ausencia de estas complicaciones y de las características primarias de la lesión puede hacer pensar en diagnósticos diferenciales como: infarto de las vellosidades, cicatrices perivellosas, inflamación de la placa coriónica, trombosis intervellosa, atrofia placentaria o quiste septal, todas caracterizadas por ser lesiones nodulares firmes.^{2,8} Debe descartarse el corangiocarcinoma, un corangioma con proliferación del trofoblasto.¹⁵

Este tipo de neoplasias se asocia con factores de riesgo, como restricción del crecimiento fetal, preeclampsia y múltiples embarazos, el primero asociado con masas de gran tamaño.⁸ Algunos autores adjudican la mayor prevalencia de estos tumores a edades maternas mayores de 30 años.¹²

Otra herramienta diagnóstica de gran utilidad en los casos de corangioma es la inmunohistoquímica. Los diferentes elementos que conforman estas lesiones neoplásicas pueden ser caracterizados con marcadores, como la actina de músculo liso (AML) para los pericitos de cada vaso sanguíneo o CD31 y CD34 para las células endoteliales.¹⁵ El marcador de proliferación celular Ki-67 muestra una importante expresión en los casos de hiperplasia trofoblástica;^{12,15} sin embargo, no es habitual determinar índices altos de proliferación para esta neoplasia. Al momento de establecer el diagnóstico diferencial, deben descartarse: corangiomatosis, chorangiosis y, en raras ocasiones, el corangiocarcinoma. Acerca de este último, Mao y colaboradores,¹⁸ con una casuística de 36 piezas de este tumor, registraron positividad con CD146 (Mel-CAM) en 78% de los casos y en 100% con el marcador trofoblástico MUC-4 recientemente introducido. Este trabajo describe que marcadores como β -catenina sólo evidencian inmunorreactividad en apenas uno de cada tres casos de corangiocarcinoma. Los inmunomarcadores para la proliferación vascular cobran importancia cuando no se dispone de estos últimos.

CONCLUSIONES

Los tumores no trofoblásticos primarios de la placenta son poco frecuentes, entre ellos el corangioma es la neoplasia más representativa, aunque resulta en menos de 1% de la

mayor parte de las series de casos. El corangioma placentario es escasamente referido en la bibliografía médica latinoamericana y cobra gran importancia al asociarse con una frecuencia alta de mortinatos y de diversas condiciones perinatales que sugieren importante hipoxia feto-placentaria. La preeclampsia y el antecedente de multiparidad son datos que ayudan a la sospecha clínica. La mayor parte de sus complicaciones se deriva de la hipoxia que genera en el tejido placentario y fetal. El examen histopatológico se correlaciona con atipia traducida como displasia del mesénquima placentario, con la aparición del síndrome de Beckwith-Wiedemann y retardo en el crecimiento intrauterino, por lo que las herramientas de diagnóstico prenatal deben descartar este tipo de alteraciones u otras que pongan en riesgo el embarazo a término.

REFERENCIAS

1. Mochizuki T, Nishiguchi T, Ito I, Imai M, et al. Case report. Antenatal diagnosis of chorioangioma of the placenta: MR features. *J Comput Assist Tomogr* 1996;20:413-416.
2. Rumboldt T, Eberts PT. Disorders of fetal vascular development: chorangioma, localized chorangiomatosis, chorangiosis, and diffuse multifocal chorangiomatosis. *Pathol Case Rev* 2008;13:236-240.
3. Cuesta MT, Bojorge BL, Valero OA, Seoane GM. Caso anatomo-clínico. *An Med Asoc Med Hosp ABC* 2002;47:106-111.
4. Myatt L. Placental adaptive responses and fetal programming. *J Physiol* 2006;572:25-30.
5. Marchetti A. A consideration of certain types of benign tumors of the placenta. *Surg Gynecol Obstet* 1939;68:733-743.
6. Sharp AN, Heazell AE, Crocker IP, Mor G. Placental apoptosis in health and disease. *Am J Reprod Immunol* 2010;64:159-169.
7. Sarmiento-Rodríguez A, Quijano-García FE, Puccini-Santa-maría G, Rodríguez-Acosta N y col. Corangioma placentario. Reporte de caso y revisión de la literatura. *Rev Colomb Obstet Ginecol* 2008;59:62-67.
8. Ogino S, Redline RW. Villous capillary lesions of the placenta: distinctions between chorangioma, chorangiomatosis, and chorangiosis. *Hum Pathol* 2000;31:945-954.
9. Ovalle A, Kakarieka E, Correa A, Vial MT y col. Estudio anatomo-clínico de las causas de muerte fetal. *Rev Chil Obstet Ginecol* 2005;70:303-312.
10. Kudva R, Monappa V, Rai L. Placental teratoma: a diagnostic dilemma with fetus acardius amorphous. *Indian J Pathol Microbiol* 2010;53:378-379.
11. Fox H. Haemangioma of the placenta. *J Clin Pathol* 1966;19:133-137.
12. Lez C, Fures R, Hrgovic Z, Belina S, et al. Chorangioma placentae. *Rare Tumors* 2010;2:e67.
13. Parveen Z, Tongson-Ignacio JE, Fraser CR, Killeen JL, et al. Placental mesenchymal dysplasia. *Arch Pathol Lab Med* 2007;131:131-137.

14. Cohen MC, Roper EC, Sebire NJ, Stanek J, et al. Placental mesenchymal dysplasia associated with fetal aneuploidy. *Prenat Diagn* 2005;25:187-192.
15. Amer HZ, Heller DS. Chorangioma and related vascular lesions of the placenta –a review. *Fetal Pediatr Pathol* 2010;29:199-206.
16. Ramírez Arreola L, Nieto Galicia LA, Gómez García E, Cerda López JA. Corioangioma gigante y sus complicaciones perinatales. Reporte de un caso. *Ginecol Obstet Mex* 2007;75:104-110.
17. Hamill N, Rijhsinghani A, Williamson RA, Grant S. Prenatal diagnosis and management of fetal anemia secondary to a large chorioangioma. *Obstet Gynecol* 2003;102:1185-1188.
18. Mao TL, Kurman RJ, Huang CC, Lin MC, et al. Immunohistochemistry of choriocarcinoma: an aid in differential diagnosis and in elucidating pathogenesis. *Am J Surg Pathol* 2007;31:1726-1732.