



Malformación arteriovenosa uterina como causa de sangrado posparto, reporte de un caso

Rosas-Delgadillo N,¹ Padilla-Rodríguez AL²

Resumen

ANTECEDENTES: la malformación arteriovenosa es un defecto del sistema vascular de alto flujo y baja resistencia en el que arterias y venas tienen comunicación directa entre sí, sin interposición de un sistema capilar; esto debido, principalmente, al aumento de vasos por una angiogénesis anómala. La malformación arteriovenosa uterina es poco frecuente, solo hay alrededor de 300 casos reportados; y aún más rara es como causa de sangrado posparto, del que en la bibliografía médica solo hay 13 y el aquí reportado es el 14.

CASO CLÍNICO: paciente de 40 años de edad, que en el tercer embarazo tuvo dos episodios de sangrado transvaginal profuso e intermitente en los días 23 y 28 del puerperio; por falla del tratamiento médico se le practicó la histerectomía. Desde el aspecto macroscópico el útero tenía múltiples espacios dilatados en todo el espesor del miometrio que, histológicamente, correspondían a vasos de mediano a gran calibre de paredes gruesas, sin interposición de capilares en toda la superficie uterina; con estos datos se estableció el diagnóstico.

CONCLUSIONES: el sangrado posparto es una causa frecuente de complicaciones durante el puerperio que incrementa la mortalidad materna. La malformación arteriovenosa uterina, a pesar de su relativa poca frecuencia, debe tenerse en mente como causa de sangrado puerperal. Se recomienda la búsqueda ultrasonográfica intencionada de malformaciones vasculares uterinas.

PALABRAS CLAVE: malformación arteriovenosa, útero, sangrado posparto.

Ginecol Obstet Mex. 2017 February;85(2):102-108.

Uterine arteriovenous malformation as a cause of postpartum hemorrhage, case report

Rosas-Delgadillo N,¹ Padilla-Rodríguez AL²

Abstract

BACKGROUND: Arteriovenous malformation is a high flux and low resistance vascular system defect that consists of a blending of arteries and veins without interposition of a capillary system, in response of an

¹ Escuela de Ciencias de la Salud, Instituto Tecnológico y de Estudios Superiores de Monterrey, campus Ciudad de México.

² Jefe del Departamento de Patología, The American British Cowdray Medical Center, Campus Santa Fe, Ciudad de México.

Recibido: diciembre 2016

Aceptado: enero 2017

Correspondencia

Dra. Nancy Rosas Delgadillo
apadillar@abchospital.com

Este artículo debe citarse como

Rosas-Delgadillo N, Padilla-Rodríguez AL. Malformación arteriovenosa uterina como causa de sangrado posparto, reporte de un caso. Ginecol Obstet Mex. 2017 feb;85(1):102-108.



increasing anomalous angiogenesis. Uterine arteriovenous malformation is a rare entity, with only 300 cases reported, being even more uncommon as a cause of postpartum bleeding, with only thirteen cases in the literature. We report the fourteenth case of uterine arteriovenous malformation associated with postpartum bleeding.

CASE REPORT: It was a 40- year-old female in her third pregnancy, who presented with two episodes of intermittent, profuse vaginal bleeding at 23th and 28th days posterior to the cesarean delivery. She was submitted to hysterectomy after medical treatment without remission. Macroscopically the uterus showed multiple dilated spaces in the whole thickness of the myometrium that histologically corresponds to multiple medium to large thickened wall vessels, without intervening of capillaries throughout uterine myometrial surface.

CONCLUSIONS: Postpartum bleeding is a well-known complication during puerperium that increases the maternal mortality rates. Uterine arteriovenous malformation despite of its relative low frequency must be taken account as a cause of puerperal bleeding. It is recommended to intentionally search ultrasonographic early signs of vascular malformations in uterus during the prenatal control.

KEY WORDS: Arteriovenous malformation; Uterus; Postpartum hemorrhage

¹ Escuela de Ciencias de la Salud, Instituto Tecnológico y de Estudios Superiores de Monterrey, campus Ciudad de México.

² Jefe del Departamento de Patología, The American British Cowdray Medical Center, Campus Santa Fe, Ciudad de México.

Correspondence

Dra. Nancy Rosas Delgadillo
apadillar@abchospital.com

ANTECEDENTES

La malformación arteriovenosa es un defecto del sistema vascular de alto flujo y baja resistencia en el que arterias y venas tienen comunicación directa entre sí, sin interposición de un sistema capilar; esto debido, principalmente, al aumento del número de vasos por una angiogénesis anómala.¹ La localización más frecuente de las malformaciones arteriovenosas es en el cerebro; por lo tanto, es la localización más estudiada; sin embargo, estas malformaciones pueden encontrarse en cualquier otro órgano. La malformación arteriovenosa uterina es poco frecuente, con alrededor de 300 casos reportados en la bibliografía. Algunos de los factores desencadenantes de estas malformaciones uterinas son los cambios hormonales, como los que suceden durante la adolescencia o el embarazo, traumatismos, procedimientos

quirúrgicos, entre otros.² Se comunica el caso de una malformación arteriovenosa uterina como causa de sangrado en una paciente en el puerperio tardío.

CASO CLÍNICO

Paciente femenina, de 40 años de edad, con antecedentes ginecoobstétricos de dos embarazos previos que terminaron por cesárea (última en el año 2004) sin complicaciones, y el tercer embarazo a principios de 2015. En este último cursó con amenaza de aborto en el primer trimestre, que se contrarrestó con tratamiento farmacológico, sin complicaciones adicionales. El último ultrasonido obstétrico efectuado en el tercer trimestre se reportó sin anomalías, con feto masculino único, líquido amniótico de características normales, placenta y cordón umbilical adecuadamente insertos.

A las 38.5 semanas de gestación el embarazo se terminó mediante cesárea tipo Kerr, con nacimiento de un feto masculino, de 3486 gramos, 50 centímetros, APGAR 8-9, Silvermann 0. Durante el procedimiento quirúrgico hubo hemorragia obstétrica secundaria a hipotonía uterina, por eso se realizó ligadura de arterias uterinas para controlar el sangrado. Al cuarto día de hospitalización se dio de alta, sin complicaciones.

Al vigésimo tercer día posquirúrgico la paciente tuvo dolor abdominal, tipo cólico, localizado en la parte inferior del abdomen, de predominio derecho, irradiado hacia el área lumbar, acompañado de sangrado transvaginal abundante por lo que acudió al servicio de Urgencias.

En la exploración física solo se encontraron datos de irritación peritoneal, signos de rebote y Mc Burney positivos. El ultrasonido y la tomografía computada reportaron: útero de 11x 6x8 cm y una colección en la cavidad uterina de 3 x 2 cm, con ecogenicidad correspondiente a coágulos. Se administró tratamiento con ergonovina, etamsilato, oxitocina y soluciones parenterales. La mejoría fue parcial, y se estableció el diagnóstico de subinvolución de lecho placentario.

Al vigésimo octavo día posquirúrgico la paciente continuó con sangrado transvaginal profuso, razón por la que volvió a hospitalizarse para histerectomía subtotal. Los hallazgos quirúrgicos fueron: múltiples adherencias en la cavidad abdominal, útero con datos sugerentes de acretismo focal, con extensión a la cara anterior istmo y lateral derecho, sangrado de 400 mL. Durante la evolución posoperatoria se transfundieron múltiples paquetes globulares, y volvió a darse de alta del hospital a los tres días, en condiciones estables.

Hallazgos histopatológicos

Placenta: monocorial monoamniótica, de 625 gramos, cordón umbilical trivascular y mem-

branas coriales sin alteraciones macroscópicas, disco placentario con superficie materna, con 14 cotiledones, íntegros, sin datos de desgarros, superficie fetal con inserción central del cordón umbilical.

Hallazgos microscópicos: circulación útero-placentaria sin alteraciones de la implantación vascular, piso placentario con zonas focales de infarto periférico, y calcificaciones focales; espacio intervelloso con congestión y fibrina; circulación fetoplacentaria con placa corial, vellosidades coriales y cordón umbilical sin alteraciones patológicas. Hallazgos que corresponden a placenta del tercer trimestre, sin alteraciones significativas.

Útero: producto de histerectomía subtotal (sin cuello uterino) de 8x7x5 cm, que al corte mostró a la cavidad uterina de superficie irregular, color rojizo con múltiples coágulos. A los cortes de la pared uterina se observó al miometrio de color marrón-naranja, con múltiples espacios dilatados de aspecto vascular, desde el endometrio hasta el miometrio profundo.

Hallazgos microscópicos: los cortes histológicos revelaron: proliferación de múltiples vasos de mediano a gran calibre, de pared muscular gruesa, que corresponden a arterias y venas, sin interposición de capilares, distribuidos en todo el espesor de la pared uterina (Figuras 1 y 2), superficie endometrial con cambios pospuerperio, con zonas isquémicas e inflamación crónica; no se identificaron vellosidades coriales residuales, ni datos de acretismo placentario. Con estos hallazgos histológicos se estableció el diagnóstico de malformación arteriovenosa uterina.

DISCUSIÓN

La hemorragia puerperal secundaria (sangrado uterino posparto) es la pérdida sanguínea anormal, mayor a 500 mL posterior a un parto y 1000

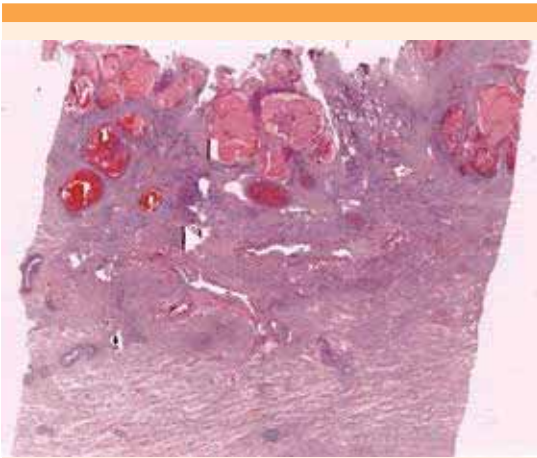


Figura 1. Microfotografía del corte de la pared uterina donde se observan múltiples canales vasculares de gran calibre, en todo el espesor del miometrio, con dilatación y congestión de su luz, sin interposición de capilares. Hematoxilina-eosina 10x.

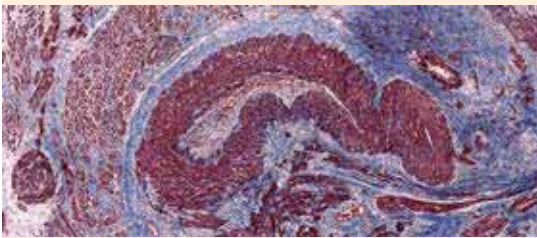


Figura 2. Microfotografía con tinción tricrómica de Masson que muestra una arteria de grueso calibre. Puede observarse el grosor de la pared muscular del vaso (teñido de color rojo), inmerso entre las fibras de músculo liso del miometrio (lado izquierdo) (40x).

mL posterior a una cesárea, que sobreviene en las 24 horas a 12 semanas posteriores al nacimiento.³ La hemorragia posparto es la principal causa de mortalidad materna en países de ingresos bajos y se asocia casi en 25% de todas las defunciones maternas del mundo.⁴

Entre los factores de riesgo asociados con la hemorragia puerperal están: edad avanzada,

multiparidad, intervalo intergenésico corto, antecedente de múltiples legrados uterinos, primiparidad, obesidad materna, macrosomía fetal, antecedente de atonía uterina, embarazo múltiple, hemorragia anteparto y anemia materna.⁵

Las causas más comunes de sangrado uterino posparto temprano son: retención de restos placentarios, subinvolución de lecho placentario, y traumatismo durante el trabajo de parto o cesárea (episiotomías y desgarros puerperales).⁶ Otras causas de sangrado posparto tardío menos frecuentes incluyen: defectos en la coagulación, hemorragia posparto previa, obesidad y trastornos de la placentación, como placenta previa, desprendimiento prematuro de placenta, y acretismo placentario,⁶ tal como sucedió en el caso aquí reportado, en donde se sospechó acretismo placentario como causa del sangrado. La malformación arteriovenosa uterina es, también, aunque menos frecuente, una causa de hemorragia uterina, que puede tener implicaciones importantes como anemia o, incluso, llegar al choque hipovolémico, que puede poner seriamente en riesgo la vida de las pacientes.⁷

La malformación arteriovenosa uterina es un defecto en el sistema vascular por proliferación anormal de vasos de grueso calibre, en donde arterias y venas tienen comunicación directa entre sí, sin interposición de un sistema capilar verdadero, esto debido principalmente a un desarrollo embriológico anormal entre las arterias y venas uterinas.^{1,8} La causa de esta malformación vascular no siempre guarda relación con el embarazo, ésta puede ser de origen congénito o adquirido; se ha visto una relación estrecha con el antecedente de legrados uterinos o cirugías pélvicas previas para su desarrollo.⁹

La malformación arteriovenosa uterina la describieron, por primera vez (1926) *Dubrenil y Loubat*, en una paciente con sangrado transvaginal profuso de inicio súbito, en donde se hacía

referencia a esta entidad como *cirsoide aneurismática de útero*, o “similar a una várice uterina” debido a la coexistencia de venas aumentadas de tamaño, tortuosas y en ocasiones con sectores varicosos;^{10,11} posteriormente, este nombre fue modificado a malformación arteriovenosa uterina por las uniones directas entre el sistema arterial y venoso que se observaron.¹¹

A la fecha, en el ámbito mundial solo están reportados alrededor de 300 casos de malformaciones arteriovenosas uterinas, entre los que destacan reportes de casos y estudios observacionales, de los que solo 5% cuenta con confirmación histopatológica.¹² Nuestro caso tiene un interés especial debido a que, si bien las malformaciones arteriovenosas uterinas son verdaderamente excepcionales, son más escasas aún las descripciones de ésta como causa de sangrado puerperal. En la búsqueda bibliográfica efectuada solo se encontraron 13 descripciones de malformaciones arteriovenosas uterinas como causa de sangrado posparto, por lo que el caso aquí comunicado es el 14.^{1,2,7,13-25}

La malformación arteriovenosa uterina es poco frecuente, su prevalencia es de apenas 0.22% de las mujeres en etapa del posparto, aunque no en todos los casos se manifiesta clínicamente, por lo que puede ser subdiagnosticada.^{14,26} Se encuentra en mujeres en edad reproductiva, en torno de los 30 años,²⁷ con sangrado transvaginal intermitente y profuso, que puede o no estar acompañado de dolor abdominal o pélvico. Esto hace pensar, de inicio, en otras causas más comunes de sangrado uterino posparto, si es que no se tiene conocimiento de este padecimiento.²⁸ En nuestro caso, la paciente cursó un puerperio tardío patológico, con dos episodios de sangrado vaginal importante, de inicio súbito los días 18 y 23 posteriores a la cesárea. Esto condujo a que en el primer sangrado se diagnosticara y se tratara como una subinvolución del lecho placentario; y en el segundo se sospechara acre-

tismo placentario, hasta que pudo confirmarse el diagnóstico histopatológico de malformación arteriovenosa uterina.

La manipulación quirúrgica previa a la que estuvo expuesta la paciente (por sus dos cesáreas anteriores) pudo ser el factor de riesgo de la malformación arteriovenosa uterina; el embarazo actual, junto con el trabajo de parto y cesárea, los desencadenantes de la rotura de alguno de estos vasos más superficiales, como etiopatogenia del sangrado profuso.

La angiografía es el patrón de referencia para el diagnóstico de malformación arteriovenosa uterina; sin embargo, en los últimos años se ha incrementado el uso del ultrasonido transvaginal para la detección de este padecimiento debido a su fácil acceso y resultados certeros.¹³ Los hallazgos consisten en espacios hipoeoicos tortuosos en el miometrio, que demuestran el flujo vascular con modalidad Doppler.²⁹

Los hallazgos macro y microscópicos encontrados en nuestro caso son concordantes con la malformación arteriovenosa uterina que consiste en múltiples vasos dilatados de las paredes musculares gruesas, correspondientes a arterias y venas, con conexiones fistulosas entre ellas, en todo el espesor de la pared miometrial. El principal diagnóstico diferencial es el hemangioma uterino, entidad poco frecuente que difiere de las malformaciones arteriovenosas por tratarse de una verdadera proliferación neoplásica de un tipo específico de vaso sanguíneo, y ausencia de arterias y venas de paredes engrosadas interconectadas; sin embargo, el abordaje es similar en ambos padecimientos.³⁰

Por tradición, la histerectomía había sido el tratamiento de elección, como sucedió en el caso aquí informado, pero a partir de la introducción de la embolización arterial como tratamiento menos invasivo, éste se ha conver-



tido en la opción de elección, con excelentes resultados.²⁹

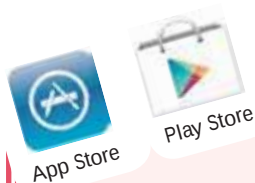
CONCLUSIÓN

El sangrado posparto es causa frecuente de complicaciones durante el puerperio que implica un incremento en la mortalidad materna. La malformación arteriovenosa uterina, a pesar de su relativa poca frecuencia, debe tenerse en mente como causa de sangrado puerperal, en especial en casos de sangrado transvaginal profuso, intermitente y posterior a un procedimiento invasivo en la cavidad uterina de causa aparentemente inexplicable. El ultrasonido transvaginal es un método de imagen mínimamente invasivo y muy utilizado durante el control prenatal; se sugiere la búsqueda ultrasonográfica temprana e intencionada de malformaciones vasculares en el útero.

REFERENCIAS

- Kelly SM, Belli AM, Campbell S. Arteriovenous malformation of the uterus associated with secondary postpartum hemorrhage. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2003;21(6):602-605.
- Roach MK, Thomasee MS. Acquired Uterine Arteriovenous Malformation and Retained Placenta Increta. *Obstet Gynecol* 2015;126(3):642-644.
- American College of Obstetricians and Gynecologists. ACOG Practice Bulletin: Postpartum Hemorrhage. *Obstet Gynecol* 2013;108:1039-1047.
- Organización Mundial de la Salud. Recomendaciones de la OMS para la prevención y el tratamiento de la hemorragia posparto. Genova: WHO 2014. [en línea]. Dirección URL: <http://apps.who.int/iris/bitstream/10665/141472/1/9789243548500_spa.pdf> (Consulta: diciembre 2016).
- Belfort M. Overview of postpartum hemorrhage. UpToDate. [en línea]. Dirección URL: <https://0-www.uptodate.com.millennium.itesm.mx/contents/overview-of-postpartum-hemorrhage?source=search_result&search=Overview%20of%20postpartum%20hemorrhage&selectedTitle=1~150> (Consulta: Diciembre 2016).
- Cunningham F, Leveno K, Bloom S, et al. *Williams Obstetrics*. 24ª Ed. New York: Mc Graw Hill, 2014;782-784.
- Aziz N, Lenzi TA, Jeffrey RB Jr, Lyell DJ. Postpartum uterine arteriovenous fistula. *Obstet Gynecol* 2004;103(5 Pt 2):1076-1078.
- Karadag B, Erol O, Ozdemir O, et al. Successful treatment of uterine arteriovenous malformation due to uterine trauma. *Case Reports Obstet Gynecol*. Hindawi Publishing Corporation; 2016:1-3.
- Al-Shekaili KR, Bhatnagar G, Ramadhan FA, Al-Zadjali N. Arteriovenous malformation of uterus. *Indian J Pathol Microbiol* 2011;54:187-188.
- Dubreuil G, Loubat E. Aneurisme circoid de l'uterus. *Ann Anat Pathol* 1926;3:697-718.
- Graves W, Smith G. Cirroid Aneurysm of the uterus. *Am J Obstet Gynecol* 1927;14:30-34.
- Peitsidis P, Manolakos E, Tsekoura V, Kreienberg R, Schwentner L. Uterine arteriovenous malformations induced after diagnostic curettage: a systematic review. *Arch Gynecol Obstet* 2011;1-15.
- Yoon DJ, Jones M, Dowell JD, Taani J Al, Buhimschi C. A systematic review of acquired uterine arteriovenous malformations: pathophysiology, diagnosis, and transcatheter treatment. *Am J Perinatol Reports* 2016;43210:6-14.
- Mosedale T, Martin G, Majumdar A. Uterine arteriovenous malformation: A rising cause of postpartum haemorrhage? *J Obstet Gynaecol* 2016;36:687-689.
- Bandura P, Rawnaq T, Holznecht A, et al. Management of intrauterine arteriovenous malformation (AVM) in 14 patients by sonographically guided tisseel application. *Ultraschall Med* 2015. [Epub ahead of print]
- Sellmyer MA, Desser TS, Maturen KE, Jeffrey RB Jr, Kamaya A. Physiologic, Histologic, and imaging features of retained products of conception. *Radiographics* 2013;33(3):781-796.
- Barber JT Jr, Tressler TB, Willis GS, et al. Arteriovenous malformation identification after conservative management of placenta percreta with uterine artery embolization and adjunctive therapy. *Am J Obstet Gynecol* 2011;204(5):e4-8.
- Sidhu HK1, Prasad G, Jain V, Kalra J, Gupta V, Khandelwal N. Pelvic artery embolization in the management of obstetric hemorrhage. *Acta Obstet Gynecol Scand* 2010;89(8):1096-1099.
- Salazar GM1, Petrozza JC, Walker TG. Transcatheter endovascular techniques for management of obstetrical and gynecologic emergencies. *Tech Vasc Interv Radiol* 2009;12(2):139-147.
- Josephs SC. Obstetric and Gynecologic Emergencies: A Review of Indications and Interventional Techniques. *Semin Intervent Radiol*. 2008;25(4):337-346.
- Chien SC, Tseng SC, Hwa HL, Wei MC. Immediate postpartum hemorrhage caused by rupture of uterine arteriovenous malformation. *Aust N Z J Obstet Gynaecol* 2007;47(3):252-254.
- Nasu K, Yamaguchi M, Yoshimatsu J, Miyakawa I. Pregnancy complicated by asymptomatic uterine arteriovenous malformation: a case report. *J Reprod Med*. 2007;52(4):335-337.

23. Delotte J, Chevallier P, Benoit B, Castillon JM, Bongain A. Pregnancy after embolization therapy for uterine arteriovenous malformation. *Fertil Steril* 2006;85(1):228.
24. Maleux G, Timmerman D, Heye S, Wilms G. Acquired vascular malformations: radiological outcome after transcatheter embolotherapy. *Eur Radiol* 2006;16(2):299-306.
25. Uchida K, Suzuki N, Murakami K, Terada S, Inoue M. Uterine arteriovenous malformation as a cause of immediate postpartum hemorrhage. *Acta Obstet Gynecol Scand* 1998; 77(55):577-580.
26. Sellers F, Palacios-Marqués A, Moliner B, et al. Uterine arteriovenous malformation *BMJ Case Rep*. 2013; doi:10.1136/bcr-2012-008443.
27. Lalitha N, Seetha P, Shanmugasundaram R, Rajendiran G. Uterine arteriovenous malformation: case series and literature review. *J Obstet Gynecol India* 2016;66(4):282-286.
28. Grivell R, Reid K, Mellor A. Uterine Arteriovenous Malformations: A Review of the Current Literature. *Obstet Gynecol Surv* 2005;60(11):761-767.
29. Chen SQ, Jiang HY, Li JB, Fan L, Liu MJ, Yao SZ. Treatment of uterine arteriovenous malformation by myometrial lesion resection combined with artery occlusion under laparoscopy: A case report and literature review. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 2013;169(2):172-176.
30. Kurman R, Ellenson L, Ronnett B. *Blaustein's Pathology of the female genital tract*. 6th ed. Baltimore: Springer, 2011;515-516.



AVISO IMPORTANTE

www.ginecologiyobstetricia.org.mx

Aquí se consulta la edición más reciente y el acervo de los últimos 10 años. La página web está permitiendo la participación de ginecoobstetras de otros países y continentes y el intercambio de las experiencias de los ginecoobstetras mexicanos.