

MALFORMAȚIILE ARTERIOVENOASE ALE UTERULUI: OPȚIUNI DE DIAGNOSTIC ȘI TRATAMENT (Caz clinic)

Ala Țurcan¹ – medic ginecolog,
Eduard Bernaz² – conf. univ., dr. șt. med.,
Vladimir Gura¹ – medic radiolog-intervenționist,
Sorin Barat¹ – medic chirurg vascular,
Olga Taburcova¹ – medic funcționist,
Olga Cernetchi³ – prof. univ., dr. hab. șt. med.,

¹ IMSP Spitalul Clinic Republican,

² Catedra de chirurgie FECMF,

³ Catedra de obstetrică și ginecologie FECMF,
IP USMF „Nicolae Testemițanu”

tel. 069283022, ocernetchi@yahoo.com

Rezumat

În articolul dat este prezentat un studiu de caz cu manifestarea clinică a malformației arteriovenoase a uterului, dobândită după mola hidatiformă, completat cu revista literaturii de specialitate. Sunt abordate problemele de diagnostic și tratament ale malformațiilor vasculare ale uterului. Este demonstrat rolul ultrasonografiei, angio-CT (tomografie computerizată) și RMN (rezonanță magnetică nucleară) în diagnosticul acestei patologii. Sunt prezentate rezultatele tratamentului aplicat cu utilizarea metodelor performante de chirurgie endovasculară modernă.

Cuvinte-cheie: malformații arteriovenoase ale uterului (MAV), examen ultrasonografic transvaginal, angiografia, embolizarea arteriilor uterine

Summary. Arteriovenous malformations of the uterus: Diagnosis and treatment (case report)

This article presents a case study about the clinical manifestation of uterine arteriovenous malformation acquired after molar pregnancy. Diagnosis and treatment of vascular malformations of the uterus are covered. The role of ultrasonography, CT angiography and MRI of this pathology are highlighted. The author presented the results of treatment using advanced methods of modern endovascular surgery.

Key words: arteriovenous malformations of the uterus, transvaginal ultrasound examination, angiography, embolization of uterine arteries

Резюме. Артериовенозная малформация матки: диагностика и лечение (клинический случай)

В данной статье рассматривается клинический случай проявления артериовенозной малформации матки после пузырного заноса и представлен обзор литературы по данной теме. Освещены вопросы диагностики и лечения сосудистых пороков развития матки. Показана роль УЗИ, КТ-ангиографии и МРТ в диагностике этой патологии. Представлены результаты лечения с использованием современной эндоваскулярной хирургии.

Ключевые слова: артериовенозные пороки развития матки, трансвагинальное ультразвуковое исследование, ангиография, эмболизация маточных артерий

Introducere. Leziunile vasculare ale uterului prezintă malformații arteriovenoase (MAV) ale sistemului vascular uterin care pot fi congenitale sau dobândite. Termenul „malformație” este utilizat pentru a descrie defectele de structură ale unui organ sau o regiune a corpului ca rezultat al morfogenezei anormale. În ultimii ani apar tot mai multe studii despre MAV uterine dobândite după graviditate, operație cezariană, molă hidatiformă, avort și chiuretaj.

În majoritatea studiilor raportate diagnosticul de malformație vasculară uterină a fost stabilit precoce, practic a doua zi după naștere sau avort. Într-un studiu prezentat de către Timmerman D., et al., [6] din 30 de cazuri raportate ca MAV uterine bazate pe examenul Doppler, numai 3 cazuri au fost veridice. Rufener et

al. [4] au efectuat un studiu ultrasonografic al leziunilor vasculare uterine post-partum și postavort, care au fost raportate ca malformații vasculare uterine; după examinarea morfopatologică nici una din leziunile vasculare uterine nu s-a confirmat ca MAV a uterului. În literatura de specialitate leziunile vasculare ale uterului pot fi interpretate ca MAV, malformație vasculară, fistulă arteriovenoasă și anomalii vasculare non-MAV ale uterului. Cele mai frecvent utilizate clasificări ale malformațiilor vasculare sunt:

Clasificarea ISSVA (1996):

I. Implicarea unui singur tip de vas: capilar, venos, limfatic, arterial;

II. Malformații combinate: arteriovenoase, limfaticovenozose, capilarovenozose, capilarolimfatice;

Clasificarea Mulliken și Glowacki (1982):

I. Slow flow: capilare (CM), venoase (VM), limfatice (LM);

II. Fast flow: arteriale (AM) - anevrisme, coarctării, ectazii; fistule arteriovenoase (AVF), malformații arteriovenoase (MAV);

III. Complexe combinate (deseori asociate cu hipertrofii scheletale).

Scopul lucrării constă în prezentarea unui caz clinic care se referă la opțiunile de diagnostic și tratament ale patologiei vasculare uterine cu trecerea în revistă a datelor reflectate în literatura de specialitate.

Material și metode. Este prezentat un studiu de caz clinic bazat pe datele anamnezei ginecologice, datele examenului clinic și paraclinic (ultrasonografia, angio-CT și RMN), rezultatele tratamentului aplicat, completat cu revista literaturii de specialitate.

Rezultate. Pacienta P.O., în vârstă de 26 de ani s-a adresat la ginecolog pe data de 24.05.2014 cu acuze de eliminări sangvinolente abundente pe parcursul a 2 zile, dureri spastice în regiunea inferioară a abdomenului. Examenul ginecologic: Colul uterin cilindric. Eliminări - sangvinolente abundente. Uterul în anteversio flexio, mărit la 7 săptămâni de sarcină, cu consistența moale, sensibil la palpare. Anexele uterine dolore la palpare pe stânga. *Anamneza ginecologică:* Menarhe la 12 ani. Ciclul menstrual regulat-28 zile, menses cu durata de 4 zile, indolore. În ultimele 6 luni menstruațiile sunt abundente și durează câte 7-10 zile. Sarcini -1 (molă hidatiformă). Nașteri-0. Contracepție prin act sexual neprotejat. Se consideră bolnavă de 2 luni de zile, când eliminările menstruale au devenit foarte abundente și puțin dolore.

Istoricul actualei boli: În martie 2011 a fost însărcinată (sarcina dorită). La examenul USG-transvaginal se stabilește diagnosticul de molă hidatiformă; uterul mărit la 7 săptămâni de sarcină. La nivelul corpului uterin nu se depistează semne de anomalii vasculare.

Pacienta a primit tratament în secția de ginecologie (raclajul cavității uterine cu examenul morfopatologic ulterior, tratament antibacterian), s-a externat în stare satisfăcătoare. Peste trei luni după sarcina patologică pacienta acuză dureri în regiunea inferioară a abdomenului și eliminări sangvinolente persistente din organele genitale în cantități reduse după menstruație. La examenul USG-transvaginal se stabilește diagnosticul: Suspecție la corioepiteliom. Formațiune chistică a ovarului stâng. A fost efectuat raclajul cavității uterine. *Rezultatul morfopatologic:* fragmente de polip fibroglandular endometrial. A fost indicată testarea nivelului de b-HCG (mUI/mL) în di-

namică și administrarea de contraceptive hormonale timp de 6 luni de zile.

Rezultatele investigațiilor: Dinamica nivelului de b-HCG (mUI/mL): 03.06.11- 1128; 26.09.11-37,42; 30.11.11- 51,43; 16.01.12-< 2. La examenul USG – transvaginal cu examen B-Mod și Doppler color au fost stabilite următoarele modificări: în peretele lateral și anterior al uterului în miometru - formațiuni multiple trabeculate cu aspect anecogen și hipoeocogen, localizate haotic formând un conglomerat vascular, în centrul căruia se depistează o formațiune anecogena de 4,3 cm (așa numitul **nidus**), cu flux turbulent mozaic color. S-a înregistrat un indice de rezistență foarte jos- 0,417 și velocimetria înaltă -1,8 m/s (Figura 1).

Pentru stoparea metroragiei și efectuarea examinărilor imagistice necesare a fost indicat tratamentul cu Ulipristal acetat (modulator al receptorilor progesteronici) câte 5 mg în zi timp de trei luni. Pe fondul tratamentului hormonal eliminările uterine au devenit scunde, uneori la efort fizic apareau eliminări sangvinolente spontane moderate.



Figura 1. USG transvaginal cu B-Mod – **nidus** și vase dilatate patologic ale corpului uterin

Pentru a determina mai exact arhitectura vasculară a malformației și nivelul de limitare a acesteia față de țesuturile adiacente au fost efectuate: angio-CT și angio-RMN.

Examinările imagistice au determinat prezența unei malformații arteriovenoase masive la nivelul uterului (Figurile 2, 3).

Următorul pas în diagnostic și, respectiv, tratament a fost angiografia în regim DSA, care a permis vizualizarea numărului și calibrului vaselor aferente, precizarea dimensiunilor nidusului și numărului vaselor eferente. În timpul angiografiei s-a efectuat embolizarea malformației cu polivinil alcool 750 μm prin punctarea arterei iliace externe (dreapta) și cateterizarea selectivă a arteriilor uterine bilaterale. Apoi prin angiografia arterei ovariene pe stânga a fost blocat și stopat fluxul patologic dintre ovar și

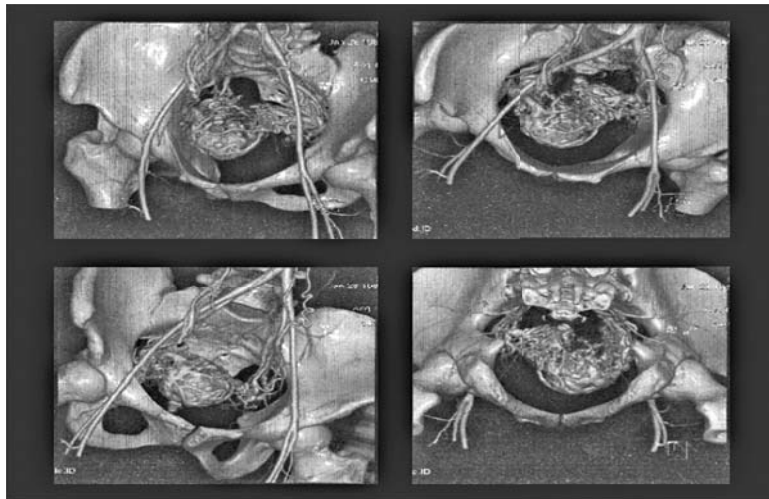


Figura 2. Arhitectura vaselor bazinului mic a pacientei cu MAV

MAV uterin cu alcool etilic 96%. Intervenția a fost efectuată peste trei luni după adresarea pacientei la medic.

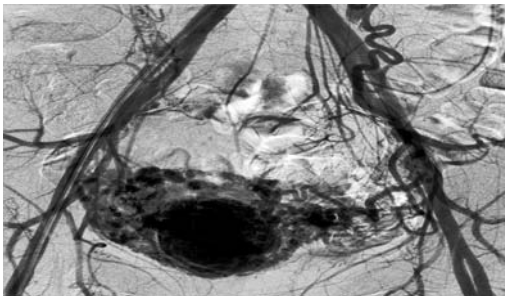


Figura 3. Tabloul angiografic al MAV

După EAU (embolizarea arterei uterine) eliminările sangvinolente intermenstruale au dispărut, menstruațiile s-au reglat cu durata de 4-5 zile, în volum normal, fără dureri. Peste o săptămână pacienta a fost examinată prin USG transvaginal cu aplicarea Doppler color: circuitul sangvin în proiecția nidusului a dispărut. Formațiunea s-a micșorat până la 1,5 cm, cu sectoare de ecogenitate neuniformă. Se planifică angio-RMN la 6 luni după EAU. Pacienta își dorește în viitor o sarcină.

Discuții. Malformațiile vasculare reprezintă iregularități structurale localizate ale patului vascular, care apar datorită defectelor de dezvoltare în timpul angiogenezei și limfogenezei. Aceste proce-

se dau naștere și reglează sistemul vascular matur. Este necesar de a diferenția anomaliile vasculare ale uterului de tumorile vasculare, care se deosebesc în baza criteriilor biologice, histologice și clinice. Spre deosebire de hemangioamele în faza proliferativă, malformațiile vasculare sunt prezente la naștere și progresașă proporțional cu dezvoltarea organismului fără a regresa spontan în timp.

Conform datelor Mulliken J.B., Glowacki J., (1982) tumorile vasculare se dezvoltă din hiperplazia celulară a endoteliului și fac parte din tumorile vasculare benigne (hemangioame). Malformațiile vasculare în care nu se observă procese de hiperplazie reprezintă defecte regionale de morfogeneză vasculară, cauzate, probabil, de disfuncția mecanismelor de reglare a embriogenezei și vasculogenezei. Malformațiile se deosebesc între ele prin tipul de țesut implicat (arteriale, venoase, capilare, limfatice, mixte), tipul fluxului prin aceste vase patologic dezvoltate (high-flow sau low-flow), după localizare fiind superficiale (mucoase, cutanate) sau profunde (musculare, viscerele, țesut etc.), și tabloul clinic (uneori acestea fac parte din sindroame) pe care îl determină [3].

Mai frecvente sunt malformațiile arteriovenoase (MAV), care reprezintă anomalii vasculare congenitale în care arterele comunică direct cu venele (fistule arteriovenoase), evitând patul capilar prin intermediul unui nidus, în care se revarsă multiple artere afe-

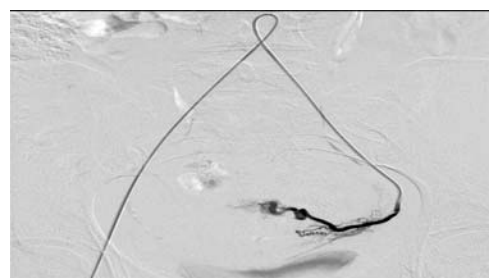
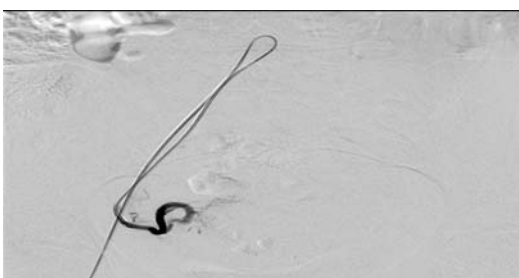


Figura 4. Tabloul angiografic al arteriilor uterine după EAU

rente (Figura 5). Acest proces este însoțit de fibroza și hiperplazie musculară parietală.

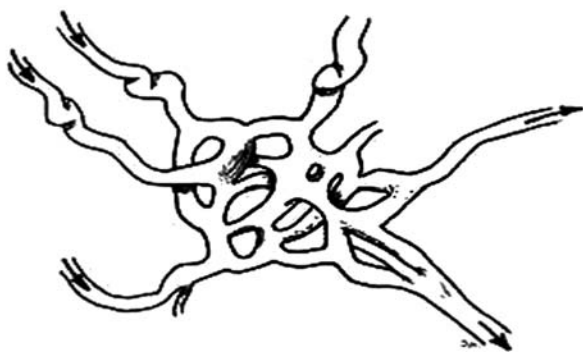


Figura 5. Structura nodului malformației, cu vase aferente arteriale și eferente venoase

MAV pot fi prezente la naștere fiind asimptomatice și progresează sub influența unor traumatisme (avorturi, raclajuri uterine), proceselor inflamatorii, factorilor hemodinamici, dereglărilor hormonale, gestației provocând dismorfism, tulburări neurologice sau cardiovasculare.

MAV a uterului reprezintă o formă foarte rar întâlnită de anomalii vasculare și ocupă un loc deosebit în structura cauzală a hemoragiilor uterine cu substrat organic. În ultimul secol în literatura mondială au fost descrise nu mai mult de 200 de cazuri de MAV uterine veridice. Multitudinea de diagnostice eronate de MAV uterine, care de fapt reprezintă anomalii vasculare dobândite, nu permite de a stabili incidența lor reală. Primul caz clinic raportat datează cu anul 1926 și prezenta o anomalie congenitală a uterului, cauzată de dismorfogeneza structurilor vasculare embrionare primitive, cu dilatarea anormală a comunicărilor dintre artere și vene, care a necesitat rezecția de organ [9].

În studiul efectuat de Laurian C. (1990) anomaliile vasculare uterine au fost diagnosticate ca malformații arteriovenoase, angiomatoză difuză cavernoasă, angiodisplazie uterină, fistulă arteriovenoasă uterină, cât și aneurism varicos al uterului [2]. Astfel, cazul clinic prezentat de către noi se încadrează într-o malformație arteriovenoasă veridică a uterului cu caracterele morfologice descrise.

În literatura mondială frecvent este folosit eronat termenul de malformație arteriovenoasă uterină în cazul leziunilor vasculare dobândite prin traumatism (chiuretaj, dilatări), boală trofoblastică a uterului, adenomioză cu evoluție atipică etc. [1]. În aceste cazuri termenul folosit corect este "anomalie arteriovenoasă" sau "leziune arteriovenoasă", în lipsa unei confirmări morfopatologice exacte. Anomaliile arteriovenoase uterine progresează în timpul perioadei de pubertate sau după gestație. Acestea rar devin simp-

tomatice la femeile care nu au suportat graviditate [8]. În cazul unei sarcini patologice apar schimbări la nivelul patului vascular cauzate de proliferarea activă a cito- și sincițiotrofoblastului. Ca rezultat pe fondul destrucției vililor corionului cu dezvoltarea proceselor exudative patologice, în miometru se formează lacune care se aseamănă ca structură cu "hemangiomul" sau "varicele".

În diagnosticul anomaliilor vasculare (sau leziunilor vasculare) un rol important aparține examenului ultrasonografic transvaginal cu aplicarea Doppler color [10,11]. Următorii pași în diagnosticul malformației sunt: RMN cu contrast, angiografia și examenul morfopatologic (care nu este posibil în toate cazurile).

Ultrasonografia este una din metodele cele mai informative de investigație. Aceasta permite determinarea anomaliei arteriovenoase uterine, localizarea ei anatomică și structura sa. La ultrasonografie anomalia arteriovenoasă se vizualizează în miometru ca formațiune unică sau multiplă cu aspect anecogen sau hipoecogen, de formă circulară sau neregulată. În unele cazuri leziunile au caracter pulsativ [5,7]. Din datele publicate, diametrul maximal al formațiunii nu depășește 3 cm [5], iar în cazul nostru aceasta era mai mare de 4 cm.

În pofida faptului că anomalia poate fi ușor depistată la ultrasonografie, diagnosticul definitiv nu poate fi stabilit folosind doar regimul B-mode, deoarece un tablou similar ecografic îl prezintă și alte patologii uterine. Pentru confirmarea diagnosticului este necesar de a utiliza regimul Doppler color, care poate reda caracterul vascular al leziunii, determina viteza, direcția și tipul fluxului sangvin. În regimul Doppler color, malformația arteriovenoasă se caracterizează printr-un flux cu viteză înaltă, indice de rezistență scăzut, caracter turbulent vascular care se manifestă printr-un tablou de mozaic color la nivelul "nidusului". Prezența fluxului turbulent al anomaliei vasculare în cazul prezentat, ne permite a face o diferențiere de un hemangiom sau varicoza vaselor uterului și a bazinului mic.

Pentru determinarea exactă a arhitectonicii vasculare MAV și nivelului de limitare a acesteia față de țesuturile adiacente, sunt informative angio-CT sau angio-RMN. Standartul de aur în diagnosticul MAV este angiografia în regim DSA, care permite vizualizarea numărului și calibrului vaselor aferente și eferente, aprecierea dimensiunilor și formei nidusului vascular [12].

Angiografia poate continua cu aplicarea tratamentului prin embolizare a malformației. Această metodă este una minim invazivă, sigură, cu rata de complicații comparabil mai joasă decât în cazul me-

todei chirurgicale deschise. Din datele literaturii, rata de succes a acestei metode de tratament este între 64-93%. Scopul metodei de tratament prin embolizarea arteriilor uterine este de a lichida fluxul patologic al nodului vascular și a vaselor aferente. Persistența nodului conduce la recidivarea malformației prin deschiderea noilor vase aferente. Embolizarea malformației uterine permite păstrarea funcției reproductive feminine.

Concluzii:

1. Malformațiile vasculare uterine reprezintă anomalii arteriovenoase, care se manifestă clinic după perioada de gestație.

2. Pentru a stabili diagnosticul de MAV se va utiliza examenul ultrasonografic transvaginal în B-Mod și Doppler color, reprezintă evaluarea de primă intenție în diagnosticul malformațiilor arteriovenoase.

3. Angiografia este obligatorie în determinarea acestui tip de anomalii vasculare, demonstrând mai amplu arhitectura malformației, numărul și calibrul vaselor aferente și eferente. Prioritățile acestei metode constau în posibilitatea de a continua imediat embolizarea endovasculară a arterelor uterine, care reprezintă la moment o metodă efektivă în tratamentul malformațiilor arteriovenoase uterine și oferă o șansă de a realiza funcția reproductivă.

Bibliografie

1. Grivell M., Reid M., Mellor A. *Uterine arteriovenous malformations: a review of current literature* // *Obstet. Gynecol. Surg.* 2005; 60: 761 – 767.

2. Laurian C., Leclerf Y., Gigou E., et al. *Pelvic arteriovenous fistulas: therapeutic strategy in five cases.* *Ann Vasc Surg* 1990; 4:1:1-9.

3. Mulliken J.B., Glowacki J. *Hemangiomas and vascular malformations in infants and children: a classification based on endothelial characteristics.* // *Plast Reconstr Surg.* 1982;69:412–422.

4. Rufener S.L., Adusumilli S., Weadock W.J., Caoili E. *Sonography of uterine abnormalities in postpartum and postabortion patients: a potential pitfall of interpretation.* // *J Ultrasound Med.* 2008;27:343–348.

5. Sugiyama T., Honda S., Kataoka A. et al. *Diagnosis of uterine arteriovenous malformation by color and pulsed Doppler ultrasonography* // *Ultrasound Obstet. Gynecol.* 1996. V. 8. №5. P. 359 – 360.

6. Timmerman D., Wauters J., Van Calenbergh S., et al. *Color Doppler imaging is a valuable tool for the diagnosis and management of uterine vascular malformations.* // *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2003;21:570–577.

7. Torres W.E., Stones P. J., Thames F.M. *Ultrasound appearance of pelvic arteriovenous malformation* // *J.Clin. Ultrasound.* 1979. V. 7.P. 383 – 385.

8. Vogelzang R., Nemcek A., Skrtic Z., et al. *Uterine arteriovenous malformations: primary treatment with therapeutic embolization* // *J.Vascular International Radiol.* 1991. V.2 P. 517 – 522.

9. Wautier M.P., Boval B., Chappey O. et al. *Cultured endothelial cells from human arteriovenous malformations hav defective growth regulation* // *Blood,* 1999; 94; 6: 2020 – 2028.

10. Доплерография в гинекологии / Под ред. Б.И. Зыкина, М.В. Медведева. – М.: Реальное время, 2000. – 149 с.

11. Леваков С.А., Кедрова А.Г., Нечаева О.Е., и др. *Опыт эмболизации маточных артерий при артериовенозной мальформации матки* // *Клиническая практика.* – 2010. - №3. – С.103 - 111.

12. Сметник В.П., Бугарева Л.Б., Гус А.И., Дан В.Н. *Совершенствование тактики ведения больных с артериовенозной аномалией матки* // *Проблемы репродукции.* – 2005. – Т. 116. №2. – С. 66 – 69.