



clínica e investigación en ginecología y obstetricia

www.elsevier.es/gine



ORIGINAL

Malformación arteriovenosa uterina. Un reto diagnóstico y terapéutico



G. Chueca^{a,*}, T. Illescas^{a,b}, L. Sotillo^{a,b}, R. Rodríguez^{a,b}, C. Álvarez^d,
A. Hernández^{a,b}, J.L. Bartha^{a,b,c} y E. Antolín^{a,b,c}

^a Sección de Ecografía y Medicina Fetal, Servicio de Obstetricia y Ginecología, Hospital Universitario La Paz, Universidad Autónoma de Madrid, Madrid, España

^b Instituto de Investigación Hospital Universitario La Paz (IdiPAZ), Madrid, España

^c Red de Salud Materno Infantil y del Desarrollo (SAMID), Madrid, España

^d Unidad de Histeroscopia, Servicio de Obstetricia y Ginecología, Hospital Universitario La Paz, Madrid, España

Recibido el 2 de febrero de 2022; aceptado el 21 de septiembre de 2022

Disponible en Internet el 7 de noviembre de 2022

PALABRAS CLAVE

Metrorragia;
Malformación
arteriovenosa;
Doppler color;
Arteriografía

Resumen

Introducción: Las malformaciones arteriovenosas uterinas (MAVU) generalmente se presentan como sangrado vaginal en mujeres en edad fértil. Los antecedentes obstétricos o quirúrgicos uterinos y la ecografía son clave para la sospecha de esta dolencia. Existen múltiples tratamientos disponibles tanto médicos como quirúrgicos, con efectividad diversa.

Material y métodos: Analizamos el proceso diagnóstico y terapéutico de 3 pacientes con episodios de metrorragias y antecedentes obstétricos o cirugías uterinas que presentaban MAVU.

Resultados: En los 3 casos analizados, se realizó tratamiento médico como primera elección. Tras el fracaso del tratamiento médico mediante gestágenos orales, metilergometrina o ácido tranexámico, se realizó embolización transarterial con oclusión del nido o punto de la fístula.

Conclusiones: Con base en nuestra experiencia, debido a la demora entre el diagnóstico y la amplia variedad de tratamientos de las MAVU, la embolización supraselectiva podría valorarse como uno de los tratamientos con mayor tasa de eficacia en un perfil de paciente que habitualmente no ha completado su deseo genésico. Aunque los resultados a corto plazo parece que no afectan a la fertilidad, sería importante realizar un seguimiento prospectivo de estas pacientes en lo que respecta a la consecución de nueva gestación o recidiva de MAVU.

© 2022 Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: gchueca@outlook.es (G. Chueca).

KEYWORDS

Vaginal bleeding;
Arteriovenous
malformation;
Colour-Doppler;
Arteriography

Uterine arteriovenous malformation: A diagnostic and therapeutic challenge**Abstract**

Introduction: Uterine arteriovenous malformations (UAVM) usually present as vaginal bleeding in women of childbearing age. Obstetric or uterine surgical history and ultrasound are key when suspecting this pathology. There are multiple treatments available, including medical surgery or interventional radiology with different effectiveness.

Material and methods: We analysed the diagnosis and management of three patients with episodes of vaginal bleeding and obstetric history, or uterine surgeries with a MAVU diagnosis.

Results: In the three cases analysed, medical treatment was provided as first line treatment. After the failure of medical treatment with oral gestagens, methylergometrine, or tranexamic acid, transarterial embolization was performed with occlusion of the nidus or fistula point.

Conclusions: Based on our experience, due to the delay between diagnosis and the wide variety of MAVU treatments, supraselective embolization could be assessed as one of the treatments with the highest rate of efficacy in a patient profile that has usually not fulfilled their reproductive desire. Although the short-term results do not seem to affect fertility, it is important to prospectively follow-up these patients regarding achievement of a new pregnancy or recurrence of MAVU.

© 2022 Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

Introducción

Las malformaciones arteriovenosas uterinas (MAVU) consisten en una comunicación arteriovenosa directa y única entre una rama de la arteria uterina y el plexo venoso miometrial. Esta conexión anómala, no funcional, entre venas y arterias provoca dilataciones varicosas, con incremento de la vascularización de la pared uterina, pocas veces con afectación capilar^{1,2}.

Su incidencia es desconocida. Según diferentes autores, puede representar entre el 1 y el 4% de las hemorragias genitales, con un promedio de edad de 30 años¹⁻³.

La clínica inicial es variada^{1,3}: metrorragia masiva brusca e intermitente; dolor pélvico crónico o dispareunia; abortos de repetición; e incluso puede cursar de forma asintomática.

El diagnóstico de MAVU se fundamenta en unos parámetros clínicos y analíticos mediante metrorragias abundantes con anemia secundaria si se mantiene este sangrado en el tiempo. Además, deben contextualizarse los antecedentes personales de la paciente, realizar un test de embarazo (β HCG) que debe ser negativo, y pruebas de imagen que evidencien una comunicación arteriovenosa anómala^{1,4,5}.

El algoritmo terapéutico se fundamenta en la estabilidad hemodinámica de la paciente, describiéndose distintos tratamientos que abarcan desde el manejo expectante hasta el tratamiento hormonal, la embolización arterial o la cirugía. En cualquier caso, el legrado uterino está contraindicado.

El objetivo de este trabajo es, fundamentándonos en nuestra experiencia de los 3 casos descritos, describir una entidad poco habitual para facilitar su diagnóstico y elección de tratamiento, así como presentar los posibles diagnósticos diferenciales más prevalentes, como la persistencia de restos trofoblásticos o placentarios, que, sin embargo, tienen tratamientos completamente diferentes. Evitando el sobrediagnóstico, es importante tener en cuenta las MAVU en el diagnóstico diferencial de las metrorragias en

pacientes en edad fértil, por ser diferente su manejo y por su eventual repercusión sobre la capacidad reproductiva futura.

Material y métodos

Presentamos 3 casos de pacientes con metrorragias y antecedentes obstétricos y de cirugías uterinas que fueron diagnosticadas de MAVU, y analizamos el proceso diagnóstico y terapéutico que incluyó la embolización transarterial como tratamiento definitivo con seguimiento posterior óptimo e incluso la consecución de gestación en un relativo corto periodo de tiempo. Tras ecografía de control al mes del procedimiento, no precisaron de angiografías de control porque por ultrasonidos las imágenes concluían la resolución de la MAVU.

Caso 1

Mujer de 36 años, G2P1C1. Desarrolla preeclampsia en ambas gestaciones con crecimiento restringido intrauterino fetal en la última. La finalización de la segunda gestación es mediante cesárea, con sospecha de acretismo parcial en fondo uterino que requiere legrado en el mismo acto quirúrgico. Un mes más tarde, presenta episodio de sangrado puerperal, realizándose un segundo legrado. Los resultados de anatomía patológica informan de restos deciduales. Cuatro días tras el segundo legrado, presenta nuevo episodio de metrorragia que se resuelve con tratamiento médico.

La ecografía en ese momento informa de útero involucionado con áreas heterogéneas que pueden corresponder a restos hemáticos y coágulos. Hay cierta pérdida de la línea endometrio-miometrial en fondo, donde, coincidiendo con la zona teórica de acretismo placentario, se evidencia gran captación de color Doppler. El juicio clínico es de sospecha

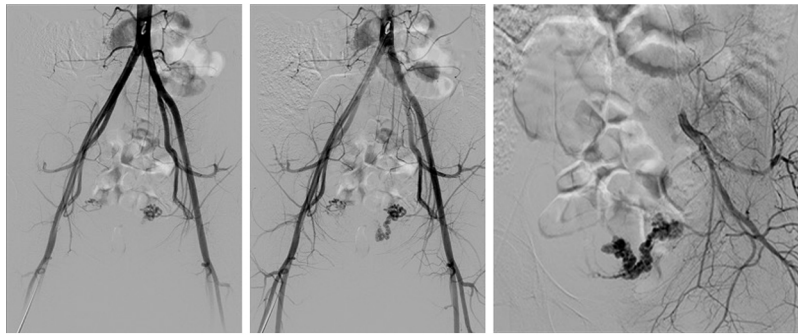


Figura 1 Embolización supraselectiva de arteria uterina izquierda.

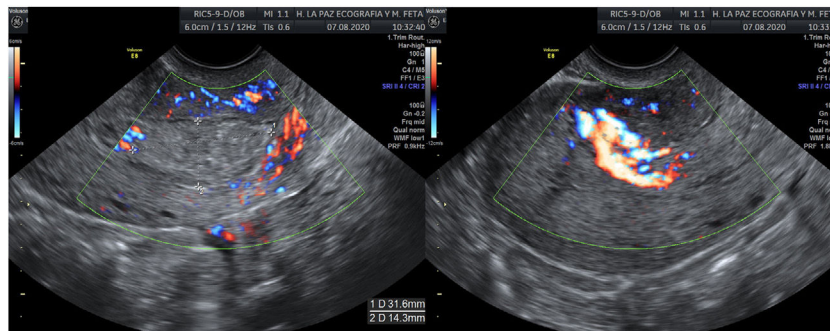


Figura 2 Flujo vascular turbulento con Doppler color compatible con MAVU.

de MAVU y se indica una arteriografía confirmatoria y eventual embolización.

Mediante arteriografía selectiva desde la arteria hipogástrica se localiza nido vascular compatible con MAVU dependiente de la arteria uterina izquierda. Tras la cateterización supraselectiva de la misma, se emboliza mediante el uso de *coils* con buen resultado angiográfico en el control final (fig. 1). La evolución posterior de la paciente ha sido de resolución completa del cuadro clínico.

La paciente no había cumplido su deseo genésico. Se indicó evitar gestación durante un periodo de 6 meses, con base en la escasa literatura científica relativa al consejo reproductivo. Posteriormente consiguió gestación espontánea con seguimiento en la Unidad de Obstetricia de Alto Riesgo de nuestro centro, dados los antecedentes obstétricos y la MAVU. En el momento actual la gestación está en curso y no ha habido incidencias reseñables.

Caso 2

Mujer de 33 años, primigesta con diagnóstico de aborto tardío de 15 semanas de gestación, que precisa de legrado evacuador. Presenta episodio de metrorragia 15 días después, resuelto con metilergometrina oral. Un mes después, consulta por persistencia de sangrado como regla y se encuentra estable hemodinámicamente. La ecografía transvaginal describe una imagen heterogénea intracavitaria de $32 \times 12 \times 14$ mm que alcanza el canal vaginal, compatible con sangre coagulada. Craneal a ella, se visualiza conglomerado vascular con turbulencias y componente arterial y venoso, procedente de la cara anterior del miometrio, que se introduce en la cavidad a nivel del tercio medio, compatible con MAVU (fig. 2). Se realiza aortograma y arteriografía selectiva de arteria hipogástrica derecha, apreciando imagen compatible con malformación vascular dependiente de la arteria uterina ipsilateral. Se cateteriza supraselectivamente y se emboliza mediante el uso de *coils*, con buen resultado angiográfico en control de imagen final.

Caso 3

Primigesta de 36 años, con gestación espontánea triple tri-corial triamniótica de 21 + 5 semanas. Rotura prematura de membranas del primer gemelo, con progresión a corioam-nionitis clínica que finaliza en menos de 24 h con parto y extracción manual de la placenta; se comprueba vacuidad ecográfica finalizado el procedimiento. Acude una semana después por metrorragia similar a regla autolimitada con ecografía transvaginal que orienta a pólipo placentario y posible MAVU adyacente. Tras actitud expectante durante 2 semanas, se realiza histeroscopia, diagnosticándose pólipo placentario de 3 cm sin signos de vascularización atípica en la cara uterina posterolateral derecha. Se procede a realizar polipectomía, que debe interrumpirse por sangrado profuso que cede con ácido tranexámico y desogestrel oral.

Ingresa a los 3 días por nuevo episodio de metrorragia y fiebre. Se toma cultivo vaginal y endocervical, aislándose *Bacteroides fragilis*, compatible con endometritis tras histeroscopia. Recibe antibioterapia dirigida y ácido tranexámico. Se plantea a la paciente actitud expectante con control ecográfico e histeroscopia en un mes en caso

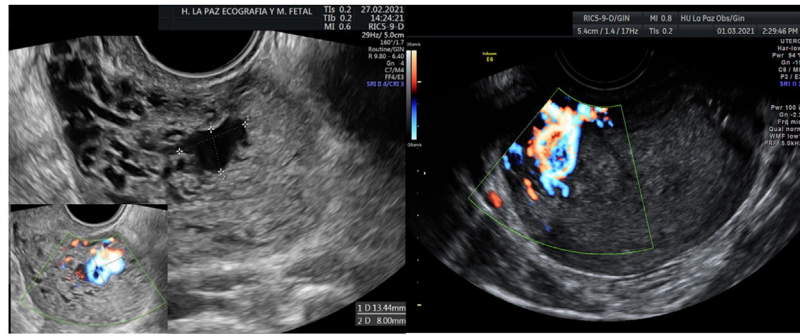


Figura 3 Ovillo vascular: imagen con aspecto econegativo en el espesor del miometrio en modo B, y fenómeno de *aliasing* con Doppler color, compatible con MAVU.

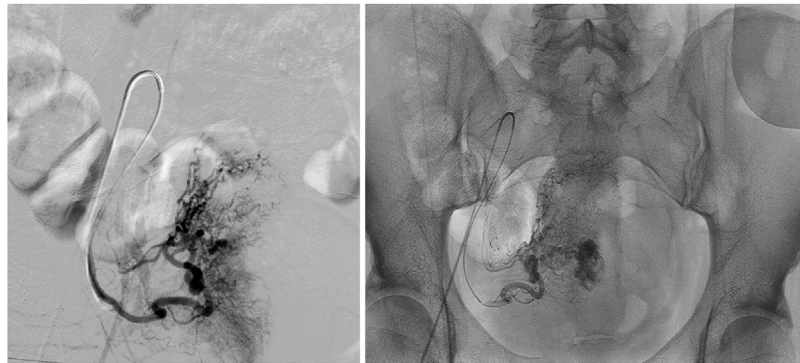


Figura 4 Embolización supraselectiva de arteria uterina derecha.

de control de sangrado. En dicha ecografía se describe una cavidad uterina vacía con interrupción de la línea endometrio-miometrial en la cara posterior y el lado derecho, identificándose zona refringente irregular de 2,4 cm con área de vascularización abundante, hallazgos compatibles con MAVU. Se acuerda control ecográfico en 3 meses y continuar con la pauta de desogestrel oral.

Dada la persistencia de la imagen compatible con MAVU, describiéndose *aliasing* en nido vascular (índice de pulsatilidad 0,53 y velocidad pico sistólica [VPS] 121 cm/s) en dicho control (fig. 3), y el deseo de la paciente de búsqueda de gestación posterior, se propone embolización supraselectiva de la arteria uterina derecha mediante el uso de coils, en la que se objetiva fistulización hacia las venas gonadales e hipogástricas derechas, con buen resultado en el control angiográfico posterior (fig. 4).

Discusión

Esta serie de casos de MAVU pone de manifiesto la importancia de incluir esta entidad en el diagnóstico diferencial del sangrado vaginal en edad fértil, especialmente tras aborto o parto, ante hallazgos ecográficos que pueden simular restos ovulares. La embolización supraselectiva mediante arteriografía permitió un manejo conservador en los 3 casos, preservando la capacidad reproductiva.

Existen 2 tipos principales de MAVU^{1,4}. Las congénitas consisten en una alteración del desarrollo embrionario de estructuras vasculares primitivas, con falta de desarrollo

Tabla 1 Factores de riesgo asociados a malformaciones arteriovenosas uterinas

<i>Antecedente de cirugía uterina (cesárea, legrado reciente o no, miomectomía, histeroscopia, septotomía)</i>
<i>Enfermedad corioplacentaria</i>
Retención de restos placentarios (miometrial o subendometrial)
Aborto incompleto o de repetición
Tumor trofoblástico
Acretismo (anticuerpos monoclonales para vellosidades coriales y células trofoblásticas pese a β hCG negativa)
<i>Cambios hormonales (gestación, aborto)</i>
<i>Cáncer de endometrio o cérvix</i>
<i>Usaria de dispositivo intrauterino, dietilestilbestrol, infecciones</i>

Fuente: Machado et al.⁴ y Gingold y Bradley⁵.

de un plexo capilar; en estos casos, es frecuente hallar MAV en otras localizaciones anatómicas (cerebro, piel). Las adquiridas son en realidad fístulas miometriales entre ramas arteriales y venosas; se asocian frecuentemente a enfermedad placentaria, cirugía uterina o infecciones, aunque no se descarta la posible preexistencia de una lesión congénita. Existen factores de riesgo predisponentes para esta dolencia y que se deben tener en cuenta a la hora de establecer el diagnóstico diferencial (tabla 1).

En el caso de mujeres jóvenes, por cambios hormonales y/o tras una gestación o aborto, se produce una involución

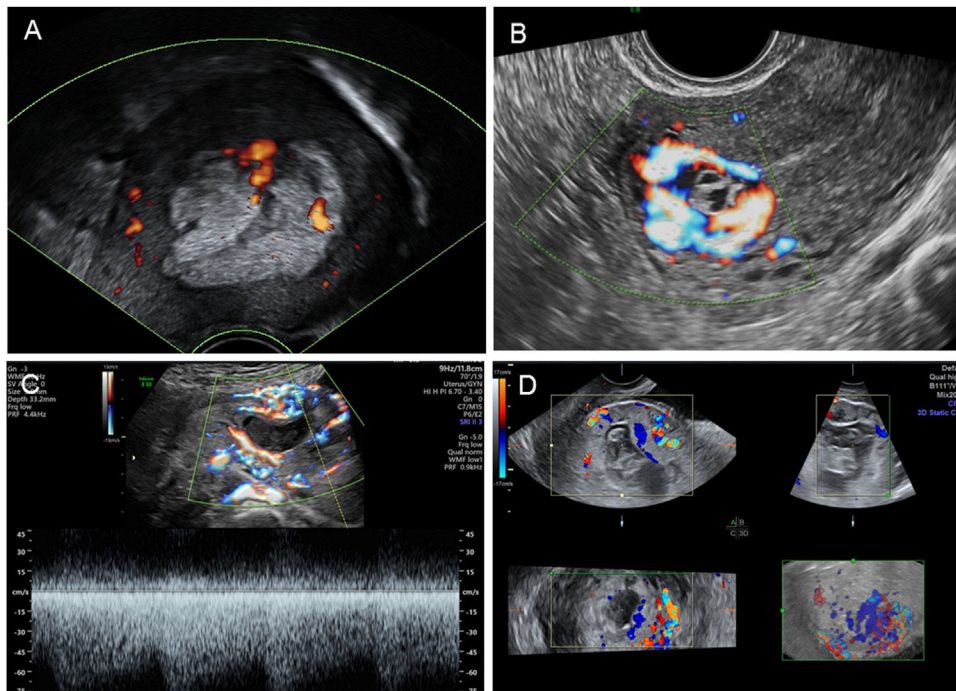


Figura 5 Vascularización miometrial aumentada: A) Pólipo corial: la vascularización se extiende hacia la cavidad. B) Mola hidatiforme: mayor vascularización y niveles altos de β hCG. C y D) MAVU: nido vascular intramiometrial con flujo turbulento (alta velocidad y bajo índice de pulsatilidad) y β hCG negativa.

anómala de los vasos uterinos. Un mecanismo similar justificaría la etiopatología en el caso de abortos de repetición debido a la hipervascularización, que altera la implantación embrionaria^{1,3,5}.

La clínica de inicio es variada^{1,3}, desde metrorragia masiva brusca e intermitente, que suele ser resistente a tratamiento hormonal; dolor pélvico crónico o dispareunia; sintomatología urinaria, abortos de repetición, e incluso puede cursar de forma asintomática. El sangrado se produce cuando los vasos llegan al endometrio y quedan expuestos, erosionándose.

Para el diagnóstico de MAVU se deben contextualizar los antecedentes personales de la paciente junto con la clínica, además de tener un test de embarazo (β hCG) negativo y pruebas de imagen donde cabe destacar^{1,4-6}:

- **Ecografía transvaginal con Doppler color y pulsado** como prueba de elección:
 - Espacios anecoicos irregulares de contorno serpenteante en miometrio: patrón en mosaico.
 - Ovillo vascular con flujo turbulento (*aliasing*).
 - Onda de flujo con altas velocidades y bajo índice de pulsatilidad.
 - Útil como prueba de seguimiento tras haber realizado tratamiento.
- **Histeroscopia:**
 - Diferencia restos intracavitarios de lesiones pulsátiles como la MAVU.

- Como técnica de *see and treat* se podría utilizar el asa electroquirúrgica bipolar en casos seleccionados.
- Confirma la resolución tras la embolización.

- **Arteriografía** como prueba diagnóstica definitiva clásicamente:

- Drenaje venoso precoz.
- Hipertrofia de las arterias uterinas.
- Vasos dilatados y tortuosos, falso aneurisma.

Se ha descrito el concepto de *enhanced myometrial vascularity* o vascularización miometrial aumentada^{2,6} como el hallazgo de un incremento anómalo de vascularización en el espesor del miometrio que tienen en común distintas entidades y que conviene diferenciar, si bien en ocasiones pueden coexistir: 1) la retención de restos trofoblásticos o el pólipo corial muestra vascularización que suele extenderse hacia la cavidad y, a veces, puede cursar con β hCG positiva débil; 2) la mola hidatiforme tiene mayor vascularización, de predominio o exclusivamente miometrial, y cursa con niveles altos de β hCG, y 3) la MAVU se caracteriza por un nido vascular intramiometrial con flujo turbulento y β hCG negativa (fig. 5).

Según la sintomatología y estabilidad hemodinámica de la paciente, se describen distintos tratamientos. En cualquier caso, el legrado uterino está contraindicado¹⁻⁴.

En el 6% de los casos se produce una *remisión espontánea* de los síntomas con manejo expectante^{1,3}. Se puede valorar un *tratamiento conservador* en dos tercios de los casos diagnosticados por ultrasonidos/ecografía, especialmente aquellos con VPS < 40-60 cm/s. Cabe destacar:

anticoncepción hormonal combinada, ácido tranexámico, misoprostol, metilergometrina, agonistas de GnRH o metotrexato. Recientemente, la noretisterona oral (derivado de la progesterona) ha resultado efectiva en el 90% de las pacientes con MAVU tras un aborto^{1,7}.

Como técnicas invasivas conservadoras se incluye la coagulación con asa electroquirúrgica bipolar mediante *histeroscopia*⁵. En el caso de objetivarse por ecografía una VPS > 80 cm/s, estaría indicada la *embolización selectiva*, con una tasa de éxito superior al 90%. En nuestra serie de casos, esta fue la opción terapéutica elegida, en el caso 3 tras el fracaso del tratamiento médico, con buena respuesta en todos ellos. No existe un consenso entre la técnica de embolización o el tipo de agente embolizante más indicado, aunque los de tipo líquido tienen la ventaja de alcanzar el nido vascular más distalmente¹. En todos los casos de la serie presentada se utilizaron *coils* como agente embolizante por ser el manejo habitual en nuestro centro sanitario. En caso de fracaso de la técnica endovascular o en entornos donde no esté disponible, existen otros procedimientos posibles, como son la extirpación quirúrgica selectiva, la ligadura de las arterias hipogástricas y la histerectomía^{1,3}. Conviene recordar la importancia del manejo conservador, dada la edad fértil de estas pacientes, que con frecuencia no han cumplido su deseo genésico.

En cuanto al consejo reproductivo, la tendencia a que la MAVU prolifere durante el embarazo genera controversia respecto a la contraindicación sobre la búsqueda de gestación^{1,8}. Posteriormente a una embolización exitosa, la gestación es posible pese a la probabilidad aumentada de aborto y parto pretérmino^{1,3,5}. El tiempo recomendado para buscar gestación no está claro, existiendo poca bibliografía al respecto.

Conviene destacar que la etiología más frecuente del sangrado puerperal es la retención de productos placentarios/trofoblasto. La MAVU, si bien debe incluirse en el diagnóstico diferencial, es una entidad muy infrecuente. Es importante evitar su sobrediagnóstico y, en consecuencia, su sobretratamiento con una técnica que, en el caso de la embolización arterial, requiere radiación iónica en mujeres jóvenes en edad fértil que en un futuro próximo es probable que deseen gestación.

Conclusiones

Dada la baja incidencia de esta afección, puede existir una dificultad para sospecharla y una limitación en cuanto a las técnicas disponibles y la habilidad en el uso para su tratamiento pertinente en centros no terciarios. Existen opciones terapéuticas muy efectivas con tasas de éxito de más del 90%, como la embolización supraselectiva transarterial.

Es importante contextualizar los antecedentes patológicos y obstétricos de la paciente con la clínica compatible para sospechar esta dolencia. Si existe una probabilidad fundada suficiente, se contraindicará el legrado hasta terminar de filiar la etiología. Sin embargo, no se debe olvidar que la retención de restos placentarios sigue siendo la afección más frecuente en la paciente que presenta sangrado uterino anómalo tras un embarazo.

Consentimiento del paciente

Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que han seguido los protocolos de su centro de trabajo sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

Financiación

Los autores declaran no tener financiación.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

- Giurazza F, Corvino F, Silvestre M, Cavaglià E, Amodio F, Cangiano G, et al. Uterine arteriovenous malformations. *Semin Ultrasound CT MR*. 2021;42:37–45.
- O'Rourke-Suchoff D, Benitez S, Higgins MCCS, Stier EA. Diagnosis and treatment of women with radiologic findings suspicious for uterine arteriovenous malformations. *J Obstet Gynaecol*. 2021;41:769–73.
- Fugarolas-Marín J, Hernández-Mendieta B, Olguín-Cruces VA, Rosales-Ortiz S. Malformación arteriovenosa uterina: una alternativa de tratamiento conservador. Reporte de caso y revisión bibliográfica. *Ginecol Obstet Mex*. 2018;86:208–16.
- Machado LE, Raga F, Chagas K, Bonilla F, Castillo JC, Bonilla-Musoles F. La malformación arteriovenosa uterina. Una lesión más frecuente y grave de lo sospechado. *Prog Obstet Ginecol*. 2010;53:10–7.
- Gingold JA, Bradley LD. Use of hysteroscopy in diagnosis and follow-up of acquired uterine enhanced myometrial vascularity. *Fertil Steril*. 2020;113:460–2.
- 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;214:731.e1–10.
- Taneja A, Chopra I, Kaur H, Naik S, Aggarwal R, Sachdeva E E., et al. Successful management of abnormal uterine bleeding from uterine arteriovenous malformations with progesterone in postabortal patients. *J Obstet Gynaecol Res*. 2019;45:1114–7.
- Delplanque S, Le Lous M, Proisy M, Joueidi Y, Bauville E, Rozel C, et al. Fertility, pregnancy, and clinical outcomes after uterine arteriovenous malformation management. *J Minim Invasive Gynecol*. 2019;26:153–61.