

REPORTE DE CASO

Malformación arteriovenosa pudenda con trombosis espontánea secundaria de cuerpo cavernoso. Reporte de caso

Wilmer Roberto Rivero Rodríguez^{a,*}, José Federico Saaibi Solano^b,
Juliana Pradilla Valbuena^c y Erika Liliana Plata Rueda^d

^aUrólogo, Jefe de Servicio, Servicio de Urología, Fundación Cardiovascular de Colombia, Seccional Bucaramanga, Bucaramanga, Santander, Colombia

^bMédico internista, hemodinamista, Jefe de Servicio, Servicio de Hemodinamia, Fundación Cardiovascular de Colombia, Seccional Bucaramanga, Bucaramanga, Santander, Colombia

^cMédico General, Universidad Autónoma de Bucaramanga, UNAB, Bucaramanga, Santander, Colombia

^dMédico General, Universidad Industrial de Santander, UIS, Bucaramanga, Santander, Colombia

Recibido el 14 de mayo de 2013; aceptado el 8 de julio de 2014

PALABRAS CLAVE

Fístula arteriovenosa;
Hematoma;
Impotencia
vasculogénica;
Erección peneana;
Enfermedades del
pene;
Embolización
terapéutica

Resumen Las malformaciones arteriovenosas congénitas del sistema pelviano y perineal son entidades poco frecuentes, con pocos casos reportados, lo que hace difícil estandarizar su diagnóstico y su manejo. Por ello se presenta el caso de un adulto joven sin antecedentes traumáticos con hematoma perineal espontáneo, asociado a dolor local en el pene, síntomas urinarios irritativos bajos, además de disfunción eréctil y curvatura peneana. Se le diagnosticó mediante resonancia magnética de pelvis y arteriografía, y se lo trató de manera definitiva con embolización selectiva en la fundación cardiovascular de Colombia. El enfoque diagnóstico y terapéutico estuvieron estrechamente relacionados con los datos encontrados en la literatura mundial. Se requieren más estudios para establecer la efectividad de la embolización como manejo definitivo de esta afección.

A pesar de que las malformaciones arteriovenosas que afectan al sistema pelviano y perineal son un trastorno poco prevalente, se ha de tenerlas en cuenta entre los diagnósticos diferenciales de pacientes del servicio de urgencias con hematomas perineales sin antecedentes traumáticos o de relaciones sexuales recientes.

© 2013 Sociedad Colombiana de Urología. Publicado por Elsevier España, S.L.

Todos los derechos reservados.

KEYWORDS

Arteriovenous fistula;
Hematoma;
Vasculogenic
impotence;
Penile erection;
Penile diseases;
Therapeutic
embolization

Pudendal arteriovenous malformation with secondary spontaneous cavernous body thrombosis. A case report

Abstract Congenital arteriovenous malformations of the pelvic and perineal system are rare conditions, with few reported cases, making it difficult to standardize the diagnosis and management. Given the above, the case is presented of a young adult patient with no history of trauma, who presented with a spontaneous perineal hematoma, associated with local pain in penis, irritative low urinary tract symptoms. He also had erectile dysfunction and penile curvature, which was diagnosed by MRI of the pelvis, and arteriography and definitively managed with selective embolization in the Fundación Cardiovascular, Colombia. The diagnostic and therapeutic approach was closely related to the data found in the world literature. Further studies are needed to establish the effectiveness of embolization as definitive management of this condition.

Although arteriovenous malformations involving the pelvic and perineal system are uncommon, it must be taken into account in the differential diagnosis of patients in the emergency department with perineal hematoma with no history of trauma or recent sexual intercourse.

© 2013 Sociedad Colombiana de Urología. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introducción

Las malformaciones arteriovenosas congénitas que afectan al sistema pelviano y perineal son una entidad poco frecuente, y no se cuenta con información suficiente en cuanto a diagnóstico y manejo¹. En la revisión de la literatura disponible, nos encontramos con que su aparición espontánea se ha relacionado mayormente con eventos traumáticos posteriores a relaciones sexuales y/o procedimientos urológicos^{1,2}. Dado lo anterior, es aún menos probable que en la práctica clínica diaria la aparición de hematoma perineal en un paciente se relacione con facilidad con un contexto diferente del traumático, donde están implícitas las roturas parciales y/o totales de los cuerpos cavernosos por, entre otras cosas, la disminución del espesor de la túnica albugínea (de 2 mm en flacidez a 0,5-0,25 mm) durante la erección, lo cual aumenta su vulnerabilidad al traumatismo.

Dada la escasez de información y casos reportados que permitan una aproximación a la prevalencia de malformaciones arteriovenosas congénitas del sistema pelviano, es de nuestro interés dar a conocer el caso clínico de un paciente diagnosticado y tratado en la Fundación Cardiovascular de Colombia.

Reporte de caso

Se trata de paciente adulto joven de 31 años, sin antecedentes de importancia, quien asiste a consulta externa del servicio de urología por un cuadro clínico, iniciado algunos días antes, caracterizado por episodio de 1 día de evolución de dolor tipo presión de inicio súbito en la base del pene, persistente, además de sensación de induración en la región escrotal y perineal, tenesmo vesical y rectal, síntomas por los que había ingresado previamente a urgencias, donde lo trataron con antiinflamatorios no esteroideos, sin mejoría. En su valoración inicial por el servicio de urología extrahospitalaria, se decidió manejo sintomático, con control a los

3 meses por este servicio, que refirió persistencia del cuadro inicial, además de disminución en la calidad y duración de las erecciones; al examen físico, se evidencia masa indurada a nivel de cuerpo cavernoso en la base del pene; se decidió reajustar el manejo analgésico y, al no haber antecedente traumático, se solicitó resonancia magnética de pelvis en búsqueda de etiología y valoración ambulatoria por hematología para descartar discrasias sanguíneas.

Las imágenes mostraban una imagen ovalada hiperintensa en T1 y T2, de contornos regulares bien definidos de aproximadamente 6,6 cm de longitud por 1,8 cm de diámetro anteroposterior transverso, ocupando la raíz del cuerpo cavernoso derecho; en la base del cuerpo cavernoso izquierdo, se apreciaba imagen hiperintensa de iguales características y menor diámetro (5 cm de longitud y 0,8 cm de diámetro transverso). Los hallazgos previamente descritos son compatibles con hematoma en base de cuerpos cavernosos.

Se amplió el estudio con ecografía dúplex color del pene, con estímulo farmacológico intracavernoso a base de alprostadil, que logró una erección adecuada. Se encontraron velocidades sistólicas de flujo normales (> 25 cm/s) tras la aplicación de alprostadil, por lo que se descartó disfunción eréctil de origen vascular arterial. Sin embargo, se detectó fuga venosa persistente en ambos cuerpos cavernosos por defecto del mecanismo venocorporooclusivo, probablemente secundario a proceso fibrótico intracavernoso que impedía la adecuada distensibilidad y la falla secundaria en la oclusión venosa albugínea para mantener una adecuada rigidez peneana, por lo cual se indicó tratamiento con tadalafilo 20 mg precoital.

Una vez valorado por hematología, se inician estudios para descartar coagulopatía: Cofactor de ristocetina, factor von Willebrand, factor VIII y IX de la coagulación, fibrinógeno, agregación plaquetaria y tromboelastograma; igualmente se criba para enfermedad autoinmunitaria: anticoagulante lúpico, C3, C4, IgG, IgM, cardiolipinas, electroforesis de proteínas, proteína C y proteína S, anticuerpos antifosfolípidos y anticuerpos antinucleares (ANA). Todos los estudios se

encontraban dentro de la normalidad, y se descartó enfermedad de origen hematológico. Se realizó estudio de potenciales evocados somatosensoriales del nervio pudendo, en vía sensitiva, que reportó normalidad.

En el siguiente control por urología, el paciente refirió sensibilidad y dolor perineal, acompañado de curvatura peneana hacia la derecha, sin cambios en la calidad de las erecciones respecto al control previo, a pesar del tadalafilo precoital, con índice internacional de disfunción eréctil (IIEF-5) de 7 puntos (disfunción eréctil grave). Clínicamente, presentaba resolución total del hematoma perineal; sin embargo, debido a la persistencia de los síntomas, se solicitó resonancia de pelvis de control, la cual evidenció dilatación del cuerpo cavernoso derecho, con alteración en la intensidad de señal, y zona de alta señal en secuencias potenciadas en T1 y baja señal en secuencias potenciadas en T2, que corresponde al área de sangrado, con trombosis parcial (figs. 1A y B). El cuerpo cavernoso izquierdo y demás estructuras peneanas visualizadas no mostraban alteraciones; se concluyó del estudio una trombosis parcial del cuerpo cavernoso derecho y se inició tadalafilo 5 mg/día indefinidamente.

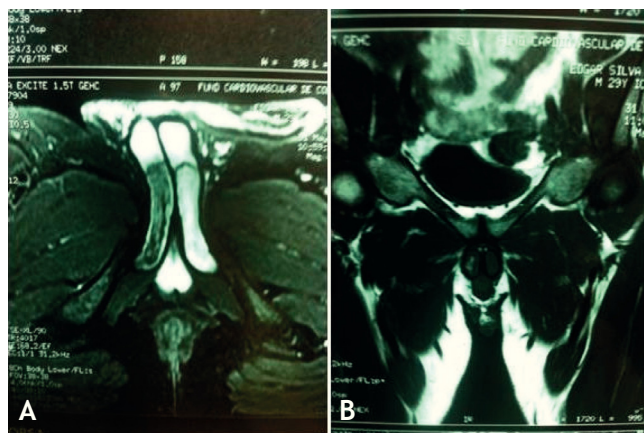


Figura 1 Resonancia magnética de pelvis contrastada. A: trombosis parcial de cuerpo cavernoso derecho. B: control tras la embolización.

En una tercera visita a urología, el paciente seguía con disfunción eréctil, además de curvatura peneana, dolor en pene y periné persistente, con alta sospecha de trombosis total de cuerpo cavernoso derecho, por lo cual se solicitó arteriografía pelviana, que mostró malformación arteriovenosa dependiente de la rama media de la arteria pudenda derecha parcialmente trombosada. Se programó para embolización selectiva de la malformación, procedimiento que se realizó, sin complicaciones, en conjunto con el Servicio de Hemodinamia (fig. 2).

En el control tras la embolización, el paciente manifestó disminución significativa del dolor pelviano y peneano, además de mejoría de la erección matutina, erecciones espontáneas y capacidad de penetración, aunque la duración de las erecciones aún no es suficiente para finalizar la relación sexual de manera placentera. A pesar de lo anterior, se estimó la mejoría en puntuación de índice IIEF-5 a 14 (disfunción eréctil moderada). No se ha producido priapismo. Actualmente se encuentra en tratamiento continuo con IPDF-5 tipo vardenafilo a dosis máxima, y se espera respuesta clínica para definir la continuación del manejo médico o considerar el tratamiento quirúrgico.

Discusión

Las malformaciones arteriovenosas son comunicaciones anormales entre canales arteriales y venosos sin la interposición del sistema capilar. Las lesiones de origen congénito se dan por falta de desarrollo del sistema capilar entre las semanas 7 y 12 de vida intrauterina³. Esta comunicación vierte sangre desde un sistema de alta presión, como el lado arterial de la circulación, a uno de baja presión, como los vasos de capacitancia venosa, lo que genera un *shunt* de volúmenes importantes de sangre.

La irrigación arterial del pene depende de las arterias pudendas internas (ramas de las hipogástricas), que a su salida del periné se dividen en tres ramas: bulbouretral, dorsal del pene y cavernosa. Los entramados plexos venosos confluyen en las venas dorsal profunda, bulbar y cavernosa⁴.

Se han descrito numerosas malformaciones arteriovenosas en diferentes sistemas del organismo; quizá las más estudiadas sean las cerebrales, mientras que sobre el sistema pelviano y perineal es muy poca la información publicada.

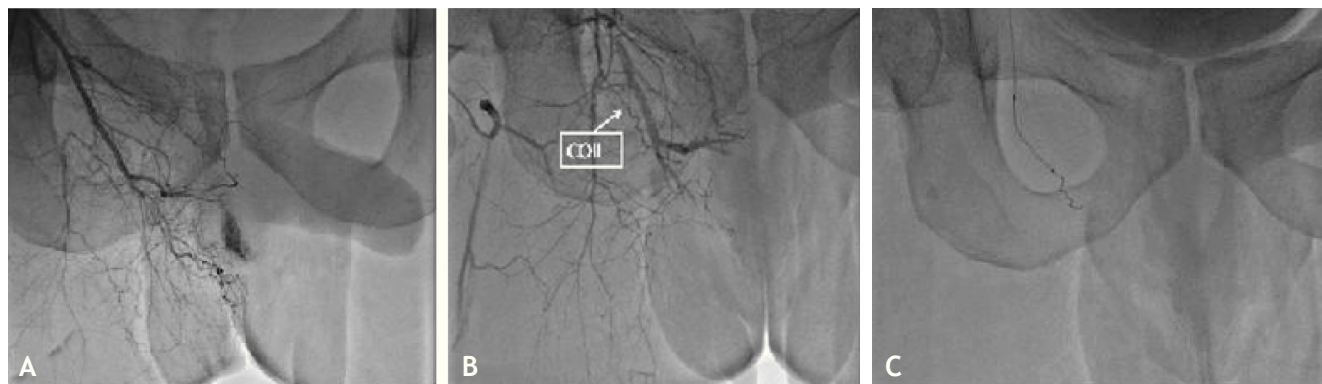


Figura 2 A: malformación arteriovenosa. B: catéter para embolización selectiva. C: resultado tras la embolización.

Al realizar una revisión de la literatura, se encuentran algunos reportes, de los más antiguos en 1968, donde Mitty et al reportan 2 casos de varones jóvenes con síntomas urinarios irritativos inespecíficos, uno de ellos con dolor suprapúbico y el otro con disfunción eréctil; los estudios angiográficos sin duda fueron la clave para confirmar el diagnóstico y definir el tratamiento¹.

En 1977 Wear et al, realizaron la primera embolización de una fístula arteriolacunar con coágulo autólogo. Esta sustancia, al igual que las esponjas de gelatina reabsorbibles (Spongostan, *gelfoam*), permiten la recanalización de la arteria embolizada una vez que se disuelven a los pocos días (tiempo suficiente para que se produzca la autorreparación de la lesión en la pared arterial) y preservar mejor la función eréctil normal previa. Así, la interrupción del flujo sanguíneo de los vasos lesionados puede considerarse temporal⁵.

La serie de casos más grande encontrada sobre esta alteración data de 2002; se analizaron datos de 17 varones en los que se documentó malformación arteriovenosa congénita; manifestaban en su mayoría síntomas urinarios irritativos bajos inespecíficos, dolor pelviano y, algunos, disfunción eréctil, la resonancia magnética y la tomografía computarizada fueron el acercamiento radiológico de elección y la arteriografía, la regla para confirmar el diagnóstico⁷. En el seguimiento encontraron que entre las líneas de manejo se encontraban extirpación quirúrgica de la tumoración, embolización selectiva y resección tumoral, e incluso la observación, dependiendo de la clínica^{6,7}. Los datos disponibles, más esta última serie de casos, nos permiten tener un acercamiento sobre el enfoque diagnóstico y terapéutico.

Al realizar una búsqueda más específica, existen muy pocos reportes de malformación arteriovenosa en ramas terminales de arteria pudenda congénitas, los cuales probablemente se evidenciaron clínicamente tras un traumatismo, con síntomas irritativos y disfunción eréctil predominantemente, y se trataron con embolización selectiva, con mejoría ulterior en la función sexual^{8,9}. Al realizarse la embolización selectiva a nuestro paciente, se observó mejoría parcial de la función sexual y resolución total del dolor. Por lo anterior, se requieren más estudios para evaluar la efectividad de la embolización en pacientes con malformación arteriovenosa de arteria pudenda.

Conclusiones

Cuando un paciente ingresa a urgencias o una consulta externa de urología y se le diagnostica hematoma perineal, en la mayoría de los casos este hallazgo tendrá relación con una posible lesión traumática de los cuerpos cavernosos du-

rante el coito. Sin embargo, ante la ausencia del antecedente traumático, relaciones sexuales recientes y/o asociación con síntomas irritativos urinarios, las malformaciones arteriovenosas congénitas deberían estar entre los diagnósticos diferenciales del urólogo o médico general en la búsqueda de un enfoque clínico acertado que permita llegar al diagnóstico oportuno y establecer medidas terapéuticas tempranas.

Nivel de evidencia

III.

Conflicto de intereses

Los autores declaran que no tienen conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Mitty H, Baron M, Jacobson J. Pelvic arteriovenous malformations. New York: Departments of Radiology and Surgery, The Mount Sinai Hospital; 1968. Disponible en: <http://www.ajronline.org/doi/pdf/10.2214/ajr.102.2.424>
2. Monga M1, Puyau FA, Hellstrom WJ. Posttraumatic high flow internal pudendal artery-urethral fistula. J Urol. 1995;153 (3 Pt 1): 734-6.
3. Hofmeister C, Stapf C, Hartmann A, Sciacca RR, Mansmann U, Terbrugge K, et al. Demographic, morphological and clinical characteristics of 1289 patients with brain arteriovenous malformations. Stroke. 2000;31:1307-10.
4. Martínez-Rodríguez RH, Gutiérrez-Ruiz C, Rodríguez-Escovar F, et al. Hematoma espontáneo paracavernoso. Actas Urol Esp. 2007;31:781-2.
5. Langenhuijsen If, Reisman Y, Reekers Ja, De Reijke ThM. Highly selective embolization of bilateral cavernous arteries for post-traumatic penile arterial priapism. Int J Impot Res. 2001; 13:354-6.
6. Game X, Berlizot P, Hassan T, Joffre F, Chokairi S, Houlgatte A, et al. Congenital pelvic arteriovenous malformation in male patients: a rare cause of urological symptoms and role of embolization. Eur Urol. 2002;42:407-12.
7. Glodny B1, Petersen J, Bendix N, Gruber H, Trieb T, Herwig R, Rehder P. Microcoil embolization of an arteriovenous fistula from the arteria bulbi penis to the corpus spongiosum penis in the treatment of erectile dysfunction: normal function regained immediately after intervention. Br J Radiol. 2007;80:e265-7.
8. Duron JJ, Benhamou G. Priapism and pudendal arteriovenous fistula. Int Surg. 1979;64:75-7.
9. Zornigotti AW, Shaw WW, Padula G, Rossi G. Impotence associated with pudendal arteriovenous malformation. J Urol. 1984;132:128-30.