

Adenomyosis: an atypical presentation

Adenomiose: uma apresentação atípica

Maria Carvalho Afonso*, Catarina Castro*, Filipa Osório**, Nuno Clode***, Carlos Calhaz Jorge****

Departamento/Clinica Universitária de Obstetrícia e Ginecologia, CHLN-Hospital Universitário de Santa Maria

Faculdade de Medicina da Universidade de Lisboa, CAM – Centro Académico de Medicina de Lisboa

Abstract

A 45-year-old female patient was admitted with abdominal pain and metrorrhagia. After clinical examination, blood tests and abdominal-pelvic ultrasound, an exploratory laparotomy was performed due to a suspected hemoperitoneum and an hemorrhagic lesion on the surface of the uterus was found, leading to total hysterectomy with bilateral salpingo-oophorectomy. The final histopathological report showed the presence of intense and diffuse adenomyosis across the thickness of the myometrium and some ruptured cysts within the serosa. Adenomyosis affects mainly multiparous and perimenopausal women. The symptoms are varied and non-specific, according to the degree of achievement of the uterus. Despite rare, hemoperitoneum can be the initial presentation.

Keywords: Adenomiose; Hemoperitoneu; Adenomiose quística; Histerectomia.

Case report: We present the case of a 45-year-old female patient who was admitted with a history of abdominal pain and metrorrhagia. After clinical examination, blood tests and abdominal-pelvic ultrasound was performed an exploratory laparotomy on suspicion of hemoperitoneum. During laparotomy, a bloody lesion on the surface of the uterus was found, leading to total hysterectomy with bilateral salpingo-oophorectomy. The final histopathological report showed the presence of intense and diffuse adenomyosis across the thickness of the myometrium and at serosa some cysts that suffered rupture.

Conclusion: Adenomyosis presents 5-70% of hysterectomies, mainly affecting multiparous and perimenopausal women. The symptoms are varied and non-specific, varying with the degree of achievement of the uterus. Despite rare, hemoperitoneum can be the initial presentation.

INTRODUÇÃO

Adenomiose define-se pela presença de glândulas endometriais e estroma ao nível da camada muscular uterina. A presença ectópica deste tecido induz

hipertrofia e hiperplasia do miométrio envolvente, resultando num aumento do volume uterino. A fisiopatologia desta entidade, parece não assentar apenas no fenómeno de invaginação do endométrio através da camada basal, mas também no desenvolvimento de *novos* a partir de remanescentes mullerianos¹. Na maioria dos casos, o tecido endometrial ectópico encontra-se no miométrio em relação com o endométrio eutópico², porém pode ocorrer presença de tecido endometrial numa área distante relativamente ao endométrio eutópico, definindo-se, assim, adenomiose subserosa².

A sua incidência é difícil de determinar, uma vez que o diagnóstico só pode ser feito após o exame anátomo-patológico do útero. Em séries cirúrgicas, a prevalência de adenomiose varia entre 14% e 66%¹. A sintomatologia é variável e relaciona-se, essencialmente, com a profundidade do miométrio atingido. Assim, as formas superficiais (quando atinge 0,5mm abaixo do endométrio) caracterizam-se por hemorragia uterina, enquanto a adenomiose profunda desencadeia sintomatologia sobretudo dolorosa como dismenorreia e dispareunia. Raramente, a adenomiose é um achado isolado, encontrando-se comumente associada a outra patologia uterina: leiomiomas, hiperplasia endometrial e adenocarcinoma. Os dados tem sido consistentes em mostrar que a adenomiose é um distúrbio hormonodependente e, portanto, associado a níveis elevados de estrogénios^{3,4}.

Embora o diagnóstico definitivo seja anátomo-pa-

*Interna do Internato Complementar de Ginecologia e Obstetrícia, CHLN

**Assistente Hospitalar de Ginecologia e Obstetrícia, CHLN

***Chefe de Serviço de Ginecologia e Obstetrícia, CHLN

****Professor Associado da FMUL, Director de Serviço de Ginecologia, CHLN

tológico, a sintomatologia e os achados clínicos e imagiológicos podem apontar para um diagnóstico presumptivo.

A ecografia ginecológica transvaginal tem sido o exame de primeira linha na investigação de mulheres com suspeita de adenomiose. Uma meta-análise, que incluiu 14 estudos, mostrou que a ecografia tem uma sensibilidade de 82,5% e uma especificidade de 84,6% para o diagnóstico de adenomiose⁵. Contudo, esta sensibilidade e especificidade diminuem para 80% e 74%, respectivamente, quando existem leiomiomas ou patologia endometrial associada⁶. Nestes casos, a Ressonância Magnética é o exame imagiológico de eleição, tendo uma sensibilidade e especificidade de 77,5 e 92,5%, respectivamente, e que não varia com a presença de patologia uterina ou endometrial^{6,7}.

Descrevemos um caso de adenomiose quística que se revelou por um hemoperitoneu numa mulher no climatério.

CASO CLÍNICO

Caucasiana, 47 anos, admitida no serviço de urgência por um quadro de metrorragias indolores com 24 horas de evolução e amenorreia com 5 meses de duração. Referia vigilância ginecológica regular, ciclos de 30/4 dias até à 5 meses, tendo tido uma gestação que terminou num parto eutócico; referia ser portadora de um útero fibromiomas; encontrava-se sob terapêutica anti-hipertensiva e anti-agregante plaquetária (ácido acetilsalicílico 100mg/dia) por cardiopatia isquémica. Na observação inicial apresentava-se apirética, normotensa, com as mucosas ligeiramente descoradas; o abdómen era doloroso à palpação dos quadrantes inferiores, sem evidência de defesa ou dor à descompressão; ao exame pélvico eram visíveis perdas hemáticas vaginais escassas e à palpação bimanual era evidente um útero de dimensões aumentadas (fundo uterino 2 dedos abaixo do umbigo) e doloroso. A ecografia pélvica confirmou a existência de um útero em anteversão, ecoestrutura heterogénea aumentado de volume à custa de nódulo de fibromioma intra-mural com 60 mm de maior diâmetro; a linha endometrial era homogénea, com 18mm de espessura, e os anexos apresentavam-se normais; constatou-se uma pequena quantidade de fluido livre no fundo-de-saco posterior. Analiticamente, a doente apresentava uma hemoglobina de 10,8g/dl, hematócrito de 32,6%, leucocitose (18240/mm³) com neutrofilia (87,8%), número de pla-

quetas normais, e PCR elevada (7,5 UI); a hCG era negativa. Oito horas após a admissão, foi colocada a hipótese diagnóstica de doença inflamatória pélvica e metrorragia disfuncional com repercussão hemodinâmica, no contexto de um agravamento do estado geral, com hipotensão e febre (temperatura timpânica 38°C), agravamento da anemia (Hb 7,8g/dl) e manutenção da leucocitose e neutrofilia, pelo que a doente iniciou terapêutica antibiótica de largo espectro. Numa avaliação posterior, 2 horas depois, perante o agravamento do quadro algico abdominal, constatando-se acentuada queda dos valores da hemoglobina (Hb 6,7g/dl), e das plaquetas (85000/mm³) e, ao exame ecográfico, a presença de líquido intraperitoneal em quantidade significativa decidiu-se realizar uma laparotomia exploradora para esclarecimento da etiologia de um provável hemoperitoneu.

Durante o acto operatório confirmou-se um hemoperitoneu de 1250ml e a presença de duas soluções de continuidade (de cerca de 2cm de diâmetro), sangrativas, na superfície uterina, ao nível do fundo (Figura 1). Procedeu-se a histerectomia total com anexectomia bilateral. O pós-operatório decorreu sem intercorrências, tendo a doente tido alta ao 5º dia de internamento. O exame anátomo-patológico da peça revelou um útero com um miométrio trabeculado no qual se identificavam numerosas formações quísticas (entre 1,5 e 0,3 cm de diâmetro) preenchidas por conteúdo castanho; ao nível da serosa, existia uma solução de continuidade circular (com 1cm de diâmetro) em relação com um dos quistos referidos anteriormente. O estudo histológico confirmou a existência de adenomiose intensa e difusa por toda a espessura do miométrio identificando-se ruptura de um dos quistos com perfuração da serosa e lesões de serosite associada.

O pós-operatório decorreu sem complicações.

DISCUSSÃO

Como foi dito anteriormente, na adenomiose existem diferentes graus de atingimento do miométrio, sendo mais frequentemente o intramural do que subseroso⁸. A hemorragia cíclica e as alterações quísticas que ocorrem, levam à formação de quísticos que podem ter graus variáveis de dimensões, pelo que se tem descrito casos de adenomiose quística^{8,9,10}. Trata-se de uma entidade rara, que pode ser dividida entre juvenil e adulta, consoante a idade de aparecimento da sintomatologia⁸. A terapêutica médica deste tipo de entidade é limitada e

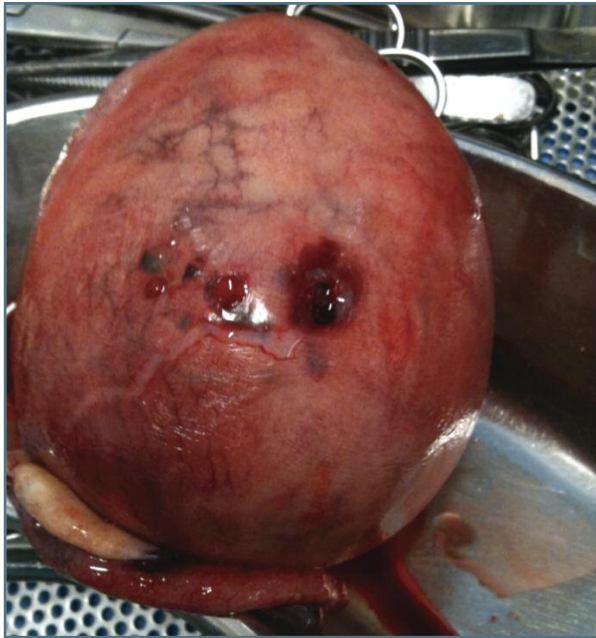


FIGURA 1. Lesão da serosa em continuidade com quisto de adenomiose

passa por alívio da dismenorreia, com analgésicos, contraceptivos orais contínuos ou cíclicos, análogos de GnRH. Na maioria dos casos é necessário ressecção cirúrgica, quando se trata de um único quisto ou, eventualmente, histerectomia^{8,9}.

O caso por nós descrito e perante os achados anátomo-patológicos, trata-se de um caso de adenomiose quística subserosa, em que o hemoperitoneu foi a sua forma de apresentação. Apesar de raros, estão descritos casos de hemoperitoneu no contexto de endométrio ectópico, sobretudo (ou quase exclusivamente) na endometriose pélvica. Nestes casos, a hemorragia tem por ponto de partida as trompas de Falópio, a rotura espontânea de vasos útero-ováricos (durante a gravidez) ou rotura de focos de endometriose na cavidade pélvica^{7,11}. Foi sugerido que os processos de inflamação crónica, resultantes da endometriose, além de desencadarem aderências pélvicas, tornariam os vasos útero-ováricos mais friáveis e assim facilitariam a sua rotura com o aumento de tensão que ocorre com o aumento do volume uterino – como acontece durante a gravidez – desencadeando a hemorragia^{12,13}. Assim, a inflamação crónica e os fenómenos de neogénese associados à presença de endométrio ectópico, podem ter sido a causa da rotura dos focos subserosos da face anterior do fundo uterino.

Durante a avaliação desta doente, o exame de ima-

gem utilizado foi a ecografia ginecológica transvaginal, não se tendo visualizado os quísticos descritos na relatório anátomo-patológico da peça cirúrgica devido às suas reduzidas dimensões e à presença do nódulo de mioma intramural. Apesar da Ressonância Magnética ser o exame de eleição em casos de co-existência de patologia uterina, esta não foi realizada devido à rápida deterioração do estado clínico da doente, tendo-se optado pela laparotomia exploradora, a fim do esclarecimento etiológico do hemoperitoneu.

Assim, e embora não seja ainda compreensível os mecanismos patogénicos que levam à presença subserosa de glândulas endometriais, o caso que apresentamos mostra que uma causa de hemoperitoneu numa mulher no climatério e com clínica e avaliação imagiológica sugestiva de adenomiose uterina, pode ser a rotura de um quisto de adenomiose subseroso.

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Fernandez H, Donnadieu AC. Adenomyosis. *J Gynecol Obstet Biol Reprod* 2007; 36(2): 179-185.
2. Sakamoto A. Subserosal adenomyosis: A possible variant of pelvic endometriosis. *Am J Obstet Gynecol* 1991; 165(1): 198-201.
3. Ferenczy A. Pathophysiology of adenomyosis. *Hum Reprod Update* 1998; 4:312-322.
4. Bazot M. et al. Limitations of transvaginal sonography for the diagnosis of adenomyosis, with histopathological correlation. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2002; 20: 605:611.
5. Meredith SM, Sanchez-Ramos L, Kaunitz AM. Diagnostic accuracy of transvaginal sonography for the diagnosis of adenomyosis: systematic review and metaanalysis. *Am J Obstet Gynecol* 2009; 201:107.
6. Bazot M. et al. Ultrasonography compared with magnetic resonance imaging for the diagnosis of adenomyosis: correlation with histopathology. *Hum Reprod Update* 2001; 16: 2427-2433.
7. Ascher SM, Arnold LL, Patt RH, et al. Adenomyosis: prospective comparison of MR imaging and transvaginal sonography. *Radiology* 1994; 190:803.
8. Kriplani et al. Laparoscopic Management of Juvenile Cystic Adenomyoma: Four Cases. *J Minim Invasive Gynecol*. 2011;18: 343-348.
9. Koga K et al. Images in reproductive medicine. A case of giant cystic adenomyosis. *Fertil Steril*. 2006 ;85:748-749.
10. Fisseha S et al. Cystic myometrial lesion in the uterus of an adolescent girl. *Fertil Steril*. 2006;86:716-718
11. Ranney B. Endometriosis. II. Emergency operations due to hemoperitoneum. *Obstet Gynecol* 1970; 36:437-442.
12. Passos F, Calhaz-Jorge C, Graça LM. Endometriosis is a possible risk factor for spontaneous hemoperitoneum in the third trimester of pregnancy. *Fertil Steril* 2008; 89:251-252.
13. Inoue T, Moriwaki T, Niki I. Endometriosis and spontaneous rupture of the uterine vessels in a pregnancy complicated by endometriosis. *Lancet* 1992; 340:240-241.