

ROTTURA UTERINA SPONTANEA DA ADENOMIOSI DIAGNOSTICATA IN PUERPERIO. DESCRIZIONE DI UN CASO E REVISIONE DELLA LETTERATURA.

Nunzio C. M. Salfi, Michela Nanni, Moira Ragazzi, Elena Della Bella,
Maria Paola Bonasoni

Unità operativa di Anatomia e Istologia Patologica. Padiglione 18, Policlinico S. Orsola – Malpighi

Indirizzo per corrispondenza: Dott. Nunzio C. M. Salfi

Unità operativa di Anatomia e Istologia Patologica. Padiglione 18, Policlinico S. Orsola – Malpighi

via Massarenti n° 9, 40138 Bologna (BO) Italia

tel: +39 051 6364572; fax: +39 051 6364571; e-mail: salfi@aosp.bo.it

ABSTRACT

The authors describe a clinical case of spontaneous uterine rupture associated with adenomyosis, diagnosed and treated in puerperium nine days after spontaneous delivery and routine curettage, in an unscarred uterus of a thirty-six years old patient affected by multiple sclerosis. The gross examination of uterus showed the presence of a rupture in three close areas in the uterine lower isthmus on the left side. The histological examination showed lacerations in the seromuscular outer uterine tissues, which used not to communicate with the isthmus cavity, associated with adenomyosis. Adenomyosis was in the all uterine wall. Although spontaneous uterine rupture could have occurred during delivery, authors suggest the rupture could have more probably occurred during puerperium. Other cases of spontaneous uterine ruptures associated with and possibly due to adenomyosis are described in literature in the setting of pregnancy, in the pre-partum period or during the delivery, but no one still now occurred in puerperium.

Key words: *uterine rupture; puerperium; adenomyosis.*

RIASSUNTO

Gli autori descrivono un raro caso di rottura spontanea dell'utero associata ad adenomiosi, diagnosticata e trattata in puerperio, nove giorni dopo il parto, in un organo privo di cicatrici, di una donna di trentasei anni affetta da sclerosi multipla, dopo parto eutocico, cui era seguito curettage di routine senza complicazioni. L'esame patologico macroscopico dell'utero mostrava tre linee vicine di rottura parziale in zona istmica bassa sinistra. L'esame istologico corrispondente mostrava lacerazioni dei tessuti sieromuscolari uterini esterni, associate ad adenomiosi, non comunicanti con la cavità istmica; l'adenomiosi era presente nell'utero a tutto spessore. La rottura uterina può essere avvenuta durante il parto, ma gli autori ritengono possibile che possa essere avvenuta anche in puerperio. In letteratura sono stati descritti altri casi di rottura spontanea dell'utero nel corso della gravidanza, nel pre-parto o durante il travaglio, ma nessuna finora manifestatasi in una fase così avanzata del puerperio. La segnalazione del caso può evidenziare uno sfortunato raro evento non imputabile a malpratica.

Parole chiave: *rottura uterina; puerperio; adenomiosi.*

INTRODUZIONE

Le rotture uterine

La rottura dell'utero gravidico o puerperale è un'urgenza drammatica che richiede una diagnosi immediata e un rapido e adeguato trattamento. Il quadro clinico può essere chiaro e tipico, come descritto per la prima volta da Bandl (1) nel 1875, con partoriente tormentata da continue algie pelviche, dolorabilità in corrispondenza dell'area sovra-

uterina e dei legamenti rotondi, aumentate contrazioni, eventualmente seguite da dolore acuto e improvviso, con interruzione delle doglie e del battito cardiaco fetale, talvolta con emorragia esterna; altre volte il quadro clinico può essere subdolo e sfumato, tanto più se la rottura avviene dopo l'espulsione del feto. Un attento esame obiettivo può comunque evidenziare segni obiettivi sufficienti a porre correttamente la diagnosi e, in casi meno chiari, le indagini strumentali possono dare un determinante contributo.

Dal punto di vista strettamente cronologico, le rotture uterine possono

essere suddivise in rotture pre-partum, intra-partum e post-partum o puerperali.

I meccanismi eziopatogenetici delle rotture sono diversi: è opportuno distinguere dapprima le rotture traumatiche da quelle "spontanee" cioè senza intervento di fattori esterni; queste ultime vanno distinte in:

- rotture uterine associate a patologie parietali uterine (miomi, adenomiosi, placenta accreta, mola, neoplasie, gangrena)
- rotture uterine associate a pregresse cicatrici sull'utero (da interventi chirurgici, precedenti traumi, esiti di processi morbosi)
- rotture uterine associate a complicanze ostetriche
- rotture di uteri apparentemente sani nelle multipare (con cinque parti o più)
- rotture uterine da cause combinate

Tutte le sopra elencate condizioni possono essere note o meno al momento dell'evento.

Le rotture uterine spontanee di solito avvengono durante le ultime settimane di gravidanza o durante il parto, sia in corso di travaglio che al momento dell'espulsione, ma esistono casi di rotture uterine diagnosticate in puerperio, per le quali peraltro si pone il problema di distinguere, ove possibile, tra una vera rottura in periodo puerperale o una rottura già avvenuta durante il parto, ma diagnosticata nel periodo puerperale. A questo scopo può essere utile, oltre alla clinica, una valutazione di tipo cronologico, tenendo conto che il puerperio è una fase di attività contrattile uterina. Secondo la letteratura (2) le rotture di uteri gravidici e puerperali sono aumentate negli ultimi tempi, nonostante il miglioramento delle cure; ma tale dato potrebbe essere dovuto soltanto a un semplice aumento di rilevazione. La causa più frequente della rottura dell'utero in gravidanza è verosimilmente la placenta accreta (si intendono genericamente per placenta accreta le tre condizioni di placenta accreta vera con trofoblasto esteso fino al limite con il miometrio, placenta increta con trofoblasto infiltrante parzialmente il miometrio e placenta percreta con trofoblasto infiltrante a tutto spessore il miometrio fino alla sierosa).

L' adenomiosi

Il termine di adenomiosi si riferisce ad una condizione morbosa caratterizzata dalla presenza di isole di ghiandole endometriali associate a stroma citogeno specializzato in profondità nel miometrio (3); le ghiandole e lo stroma di tipo endometriale mantengono le stesse caratteristiche istologiche e immunoistochimiche dell'endometrio, positività degli epiteli per citocheratina 7 e positività dello stroma per CD 10. L'adenomiosi uterina è costituita da un tessuto corrispondente alla parte basale non funzionante dell'endometrio; alcuni autori la considerano una forma complessa di diverticolosi dell'endometrio; nei preparati istologici il tessuto dell'adenomiosi è spesso connesso direttamente con l'endometrio. Sebbene si definisca come adenomiosi la presenza di ghiandole oltre i 3 mm di profondità a partire dal limite tra endometrio e miometrio, tale definizione risulta erronea perché più dei due terzi di donne sintomatiche (che presentano cioè menometrorragie, dismenorrea e dolore) presentano ghiandole situate ad appena 1 mm al di sotto del limite endo-miometriale.

Le correlazioni cliniche risultano più significative se le ghiandole sono presenti da 2 mm a livelli maggiori di profondità. Questa condizione morbosa è comune, si trova in circa 1/5 di tutti gli uteri asportati per le cause più varie. La diagnosi di adenomiosi in gravidanza è difficile e spesso viene formulata solo durante e a causa di una complicanza. La rivisitazione della letteratura dei 90 anni precedenti al 1994 (4) ha riscontrato 31 casi più i 2 casi degli autori (una rottura uterina spontanea all'inizio del travaglio e una gravidanza ectopica cornuale diagnosticata

nel corso di un emoperitoneo massivo). L' adenomiosi presenta un quadro istologico sovrapponibile all'endometriosi, ma dal punto di vista clinico esistono differenze: l' endometriosi tende a guarire col numero di gravidanze, mentre l'adenomiosi è considerata una malattia comune nelle multipare (nelle donne affette da adenomiosi solo il 9,16% sono nullipare) (5).

Per la nostra esperienza, ma anche per i dati forniti dalla letteratura, l'adenomiosi rappresenta uno dei possibili fattori di rottura uterina. Tutte le lacerazioni uterine, comprese quelle associate ad adenomiosi, possono essere complete o incomplete, intendendosi per complete quelle che realizzano una comunicazione tra lo spazio periuterino e la sua cavità interna. In entrambi i casi, il sanguinamento può essere importante e rappresentare un'indicazione all'isterectomia. In altri casi l'intervento può non essere demolitivo se sussiste la possibilità tecnica di suture delle lacerazioni, tenendo conto che, in alcuni casi, si può verificare la tendenza alla limitazione dell'emorragia per la stessa attività contrattile. Lo scopo del presente studio è quello di segnalare l'adenomiosi tra le possibili cause di rottura apparentemente spontanea dell'utero rilevabili in puerperio e di confrontare questa eventualità con le altre possibili cause di rottura uterina già segnalate in letteratura nello stesso periodo e nei periodi precedenti sulla gravidanza.

Caso clinico

Donna di anni 36, primigravida, affetta da sclerosi multipla. La paziente era già stata ricoverata in precedenza per un piccolo distacco amniocoriale alla quinta settimana di amenorrea presso il reparto di Ostetricia del Prof. Pelusi della Clinica Ginecologica dell'Ospedale S.Orsola - Malpighi di Bologna. In seguito la gravidanza aveva mostrato una evoluzione regolare. La paziente veniva ricoverata successivamente nello stesso reparto dopo la rottura delle membrane; al momento del ricovero l'utero era di volume corrispondente all'epoca di amenorrea, la dilatazione era 1 cm, il feto mostrava presentazione cefalica extrapelvica, non vi erano perdite ematiche in atto, né perdite di liquido amniotico all'esplorazione vaginale. Il tracciato cardiocografico era variabile e reattivo in presenza di minima dinamica uterina; il travaglio di parto insorgeva spontaneamente e proseguiva regolarmente. Su richiesta della paziente veniva eseguita l'analgesia terapeutica. La paziente partoriva un neonato vivo e vitale, di sesso femminile, del peso di 3090 g. Nel corso del travaglio erano stati somministrati ampicillina e ossitocina. Gli esami di laboratorio durante tutta la degenza erano risultati nella norma; l'esame obiettivo ginecologico in seconda giornata puerperale era nella norma e pertanto lo stesso giorno la paziente veniva dimessa in buone condizioni generali. In quinta giornata puerperale, a distanza di quattro giorni dalla dimissione, la paziente si presentava al Pronto Soccorso generale per algie pelviche; nella stessa giornata veniva eseguita l'ecografia addominale completa che rivelava un'idro-ureteronefrosi sinistra, un utero ingrandito e disomogeneo in rapporto al precedente parto, in posizione parauterina sinistra veniva evidenziata un'immagine anecogena di 2 cm, come da cisti ovarica, e si osservava la presenza di una falda fluida con aspetto corpuscolato a significato ematico nel cavo di Douglas. Nella stessa giornata la paziente veniva ricoverata presso il reparto di Ostetricia del prof. Pelusi della Clinica Ginecologica dell'Ospedale S. Orsola - Malpighi, con diagnosi di sindrome dolorosa addominale in puerpera in quinta giornata e venivano eseguiti alcuni accertamenti. L'esame obiettivo dell'addome rivelava un addome poco trattabile, diffusamente dolente alla palpazione. L'esame obiettivo ginecologico era reso difficoltoso dall'intensa reazione algica addominale. Gli esami di laboratorio mostravano un' Hb di 8.6 g/dl, proteine totali di 5.2 g/dl, albumina 3.0 g/dl. La consulenza chirurgica rivelava un

addome trattabile con modesta dolenzia alla palpazione profonda nei quadranti inferiori, il segno di Blumberg era negativo, la manovra di Giordano era positiva a sinistra, ma non veniva ravvisata una indicazione chirurgica d'urgenza. Durante la degenza, il secondo giorno del ricovero, veniva eseguita un'ecografia addominale che mostrava una pelvi apparentemente interamente occupata da un versamento ematico. L'Hb era di 6.8 g/dl, le proteine totali di 1.9 g/dl, l'albumina: 1.0 g/dl, il calcio: 5.6 mg/dl. In considerazione del reperto ecografico e dei dati laboratoristici si decideva di effettuare in medesima giornata una laparoscopia diagnostica d'urgenza che rivelava la presenza di un'abbondante emoperitoneo; lo stesso veniva evacuato visualizzando un'area necrotica abbondantemente sanguinante a livello della parete posteriore e sul lato sinistro dell'utero, conglobante l'annessio sinistro. Si decideva pertanto di effettuare per via laparotomica un'istero-annessiectomia sinistra parziale. Venivano infusi una sacca di plasma, tre sacche di globuli rossi concentrati e cinque flaconi di albumina. Il decorso post operatorio era regolare e nove giorni dopo l'intervento chirurgico la paziente veniva dimessa.

MATERIALI E METODI

L'utero, delle dimensioni di 13 x 10 x 5 cm e del peso di 400g, è stato asportato per via laparotomica insieme ad un ematoma periutero-annessiale sinistro. Dal materiale chirurgico (utero, salpinge ed ematoma) sono stati eseguiti 11 campioni significativi per esame istologico, fissati in formalina tamponata al 4% e inclusi in paraffina; da ognuno dei campioni sono state eseguite sezioni di 4 micron, colorate routinariamente con ematossilina eosina; dai campioni rappresentativi delle lacerazioni sono state eseguite ulteriori sezioni silanate, colorate specificamente con tecnica immunostochimica per citocheratina 7 (clone OV TL 12/3 0 Dako, diluizione 1.450) e per CD 10 (clone 56c6 Novocastra, diluizione 1.100).

RISULTATI-DISCUSSIONE

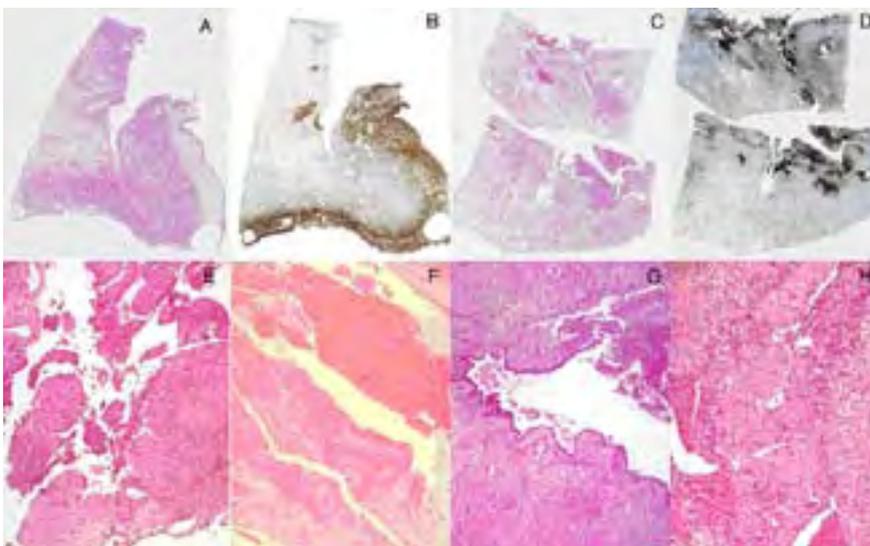
Le linee di rottura uterina visibili sul pezzo chirurgico (figura 1) erano multiple e incomplete, localizzate in sede istmica sinistra e corrispondevano esattamente alla presenza di foci di adenomiosi degli strati esterni superficiali sottosierosi del miometrio. All'esame istologico di routine, i foci di adenomiosi mostravano le modificazioni caratteristiche correlate allo stato gravidico del tessuto di tipo endometriale, sebbene in iniziale regressione, e cioè l'aspetto secretivo dell'epitelio e l'aspetto decidualizzato dello stroma; si osservavano anche gli spandimenti ematici nel tessuto lacerato e lacerazioni vasali; le indagini immunostochimiche mostravano la specifica positività per citocheratina 7 dell'epitelio (6) e la positività per CD 10 dello stroma di tipo endometriale (7) (Figura 1). Tali indagini hanno consentito di confermare le correlazioni causali. Dal punto di vista clinico, la sintomatologia lamentata dalla paziente combinava dolori a tipo di colica renale, verosimilmente dovuti alla compressione dell'uretere sinistro da parte dell'ematoma organizzato (con secondaria idroureteronefrosi documentata ecograficamente) e la sintomatologia dovuta a una modesta irritabilità peritoneale da versamento ematico, in realtà di per sé non molto eclatante.

CONCLUSIONI

Il caso descritto, insieme agli altri casi presenti in letteratura, dimostra che una condizione patologica benigna e diffusa come l'adenomiosi, può causare, seppure raramente, un evento drammatico come la rottura spontanea di un utero gravido o puerperale, indebolendo le caratteristiche meccaniche della parete uterina in periodi di attività contrattile. Tra le varie cause di rottura uterina spontanea l'adenomiosi non è certamente la più frequente, ma tale patogenesi deve essere considerata come possibile. Nel nostro caso, i primi sintomi e segni obiettivi si sono presentati solo in quinta giornata e la diagnosi di certezza è stata formulata solo in settima giornata: pertanto, nel confronto con la letteratura, si tratta del primo caso presentatosi in una fase così avanzata del puerperio; il peggioramento progressivo dello stato obiettivo della paziente, valutato clinicamente e con indagini strumentali, può essere interpretato come effetto progressivo dell'anemizzazione, dell'emoperitoneo e della compressione dell'uretere da parte della raccolta ematica coagulata. Si può ipotizzare una rottura avvenuta durante il parto, momento di più intensa attività contrattile, con effetti manifestatisi successivamente, ma si può ipotizzare anche una rottura avvenuta primitivamente in puerperio, facilitata forse da fenomeni di torsione di un organo non perfettamente simmetrico: la questione non è risolvibile con certezza, ma un'insorgenza così tardiva dei sintomi deve fare considerare tale possibilità; deporrebbe infine per tale interpretazione l'obiettività clinica del tutto negativa della paziente nell'immediato post-partum e il suo benessere apparentemente completo nei cinque giorni successivi; si ritiene che un'emoperitoneo precoce avrebbe dovuto dare qualche segno di sé. Si tratta comunque di una rottura incompleta, a carico degli strati esterni della parete uterina, cui possono ancora avere contribuito i fenomeni regressivi a carico dello stroma adenomiosico decidualizzato, che segue pressoché la stessa evoluzione della normale decidua endouterina. Pertanto l'ipotesi della rottura primitiva in puerperio non è da escludere.

Nella prevenzione e per la diagnosi delle rotture uterine una accurata visita clinica dopo il parto resta il principale mezzo di indagine, se tali rotture sono a partenza dalla cavità, clinicamente esplorabile, ma non esiste altro metodo della sorveglianza clinica per escludere rotture parziali uterine a carico degli strati esterni miometriali. Qual-

Figura 1



siasi possa essere la causa di una rottura uterina durante il parto o in puerperio, emerge quindi l'importanza della sorveglianza clinica di un periodo che non può essere considerato fisiologico a priori. E' infine importante annoverare le rotture uterine gravidiche, intra-partum e post-partum associate ad adenomiosi tra gli eventi sfortunati non imputabili a colpe professionali: nel presente caso non esistevano

comunicazioni tra l' interno della cavità e il peritoneo, pertanto la spontaneità dell' evento è del tutto dimostrata (vedi figura 1); ma anche in altri eventuali casi con rottura completa passante, la presenza di una causa di indebolimento parietale potrebbe contribuire ad alleviare, forse in maniera determinante, la posizione di un professionista indagato per accuse più o meno motivate.

RINGRAZIAMENTI

Un particolare ringraziamento va alla sig.ra Karin E. Bern per la sua indispensabile traduzione dell' articolo di Weström dallo svedese.

BIBLIOGRAFIA

1. Weström L. *Två fall av uterusruptur under partus diagnostiserade först i puerperiet. Nordisk Medicin* 3 III 1960; 63(9):264-7
2. Parfumi C, Farina M, Pernicone G, et al. *Adenomyosis and uterus rupture during labor. Zhonghua Yi Xue Za Zhi (Taipei)* 2001; Apr; 64(4):244-6
3. Rosai J. *Surgical Pathology: 9a edizione, 2004, volume 2; 1577-8*
4. Bensaid F, Kettani F, Febri S. El, et al. *Les complications obstétricales de l' adénomyose. J Gyecol Obstet Biol Reprod* 1996; 25:416-8
5. Azziz R. *Adenomyosis in pregnancy. A review. J Reprod Med* 1986; Apr; 31(4):224-7
6. Dabbs D. *Diagnostic immunohistochemistry: 2a edizione, 2006 186-8+553*
7. McCluggage WG, Sumathi Vp, Maxwell P. *CD 10 is a sensitive and diagnostically usefull immunoistochemical marker of normal endometrial stroma and of endometrial stromal neoplasms. Histopathology* 2002; Sep; 39(3):273-8