

MALFORMACIÓN ARTERIOVENOSA EN INTESTINO DELGADO COMO CAUSA DE SANGRADO GASTROINTESTINAL OSCURO: DOS CASOS ALECCIONADORES

SMALL BOWEL ARTERIOVENOUS MALFORMATION AS A CAUSE OF DARK GASTROINTESTINAL BLEEDING: TWO INSTRUCTIONAL CASES

Eugenio Américo Palomino Portilla ^{1,2,3,a}, María del Pilar Quiñones Ávila ^{2,3,a}, Isaira Giovanna Torpoco Baquerizo ^{4,a},
María Angélica Medrano Huallanca ^{4,a}, Katia Sofía Palomino Aguilar ^{5,b}

RESUMEN

Introducción: El sangrado digestivo puede poner en riesgo la vida de los pacientes, más aún cuando el origen no se ubica en las endoscopías alta y baja de rutina. El intestino delgado es la porción más extensa del tubo digestivo y ser fuente de sangrado significa un reto médico diagnóstico y terapéutico. **Caso clínico:** Se presenta los casos de dos pacientes de sexo femenino, de 53 y 60 años, quienes desarrollan sangrado digestivo, ubicándose su origen en intestino delgado y realizándoseles extirpación quirúrgica del segmento intestinal afectado. El estudio anatomopatológico encuentra arterias y venas malformadas que se comunican sin lecho capilar intermedio. El diagnóstico fue Malformación arteriovenosa, una entidad infrecuente en intestino delgado. Se revisa ambos casos con énfasis en los criterios histopatológicos y su correlación clínica.

Palabras clave: Malformación arteriovenosa; Intestino delgado; Sangrado digestivo. (Fuente: DeCS- BIREME)

ABSTRACT

Introduction: Digestive bleeding can put patients' lives at risk, even more so when the origin is not located in routine upper and lower endoscopy. The small intestine is the largest portion of the digestive tract and being a source of bleeding means a diagnostic and therapeutic medical challenge. **Clinical case:** We presented cases of two female patients, 53 and 60 years old, who develop digestive bleeding, locating its origin in the small bowel and undergoing surgical removal of the affected intestinal segment. The anatomopathological study finds malformed arteries and veins that communicate without an intermediate capillary bed. The diagnosis was arteriovenous malformation, a rare entity in the small bowel. Both cases are reviewed with emphasis on the histopathological criteria and their clinical correlation.

Keywords: Arteriovenous malformation, small bowel, digestive bleeding (Source: MESH-NLM)

¹ Instituto de investigaciones en Ciencias Biomédicas, Universidad Ricardo Palma, Lima, Perú.

² Servicio de Patología quirúrgica, Hospital Edgardo Rebagliati Martins. Lima, Perú.

³ Laboratorio Diagnóstico S.A.C. Lima, Perú.

⁴ Hospital Emergencia Ate-Vitarte. Lima, Perú.

⁵ Centro de Salud Arcata, Gerencia Regional de Salud de Arequipa. Arequipa, Perú.

^a Médico anatomopatólogo.

^b Médico cirujano.

Citar como: Palomino Portilla EA, Quiñones Ávila MP, Torpoco Baquerizo IG, Medrano Huallanca MA, Palomino Aguilar KS. Malformación arteriovenosa en intestino delgado como causa de sangrado gastrointestinal oscuro: Dos casos aleccionadores. Rev Fac Med Hum. 2023;23(1):126-131. doi:10.25176/RFMH.v23i1.5290

Journal home page: <http://revistas.urp.edu.pe/index.php/RFMH>

Artículo publicado por la Revista de la Facultad de Medicina Humana de la Universidad Ricardo Palma. Es un artículo de acceso abierto, distribuido bajo los términos de la Licencia Creative Commons: Creative Commons Attribution 4.0 International, CC BY 4.0 (<https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>), que permite el uso no comercial, distribución y reproducción en cualquier medio, siempre que la obra original sea debidamente citada. Para uso comercial, por favor póngase en contacto con revista.medicina@urp.pe



INTRODUCCIÓN

La malformación arteriovenosa (MAV) es una entidad caracterizada histopatológicamente por un conglomerado de vasos sanguíneos con paredes anormalmente constituidas y que se conectan entre sí de manera directa, sin lecho capilar entre ambos tipos de vasos. Suelen causar hemorragia y se ubica frecuentemente en sistema nervioso central siendo muy inusual el compromiso del intestino delgado.

El término MAV implica la presencia de un alimentador arterial con una transición abrupta a las venas sin un lecho capilar intermedio. Esta característica es fundamental para diferenciarle de las angioectasias que son lesiones venosas y de las lesiones de Dieulafoy que son arteriales⁽¹⁾.

Se ha definido al sangrado gastrointestinal oscuro como una hemorragia de origen no identificado que persiste a pesar de una prolija evaluación endoscópica alta y baja⁽²⁾. No obstante que debe considerarse lesiones no observadas en esófago, estómago, duodeno y colon, la mayoría de fuentes de sangrado se identifican en el intestino delgado⁽³⁾, representando aproximadamente el 5 % de todos los casos de sangrado gastrointestinal⁽⁴⁾.

Aunque la evaluación endoscópica de rutina (alta y baja) suele ser negativa en el sangrado del intestino delgado, la presencia de sangre en el íleon terminal es un factor de riesgo independiente, indicativo de un origen en el intestino delgado⁽⁵⁾.

A pesar que la mayoría de ellas son asintomáticas, pueden manifestarse con intenso dolor abdominal o sangrado, pudiendo ocurrir a cualquier edad. Las MAV intestinales en adultos usualmente comprometen al ciego y el colon derecho⁽⁶⁾. Sin embargo, en niños frecuentemente ocurren en el yeyuno causando obstrucción o intususcepción⁽⁷⁾.

Las MAV suelen ser grandes y susceptibles a resangrado, por lo cual usualmente requieren resección quirúrgica⁽⁸⁾. Las MAV del tubo digestivo se han dividido en 3 tipos por la clasificación de Moore⁽⁹⁾. Las de tipo 1 suelen ser adquiridas, en pacientes ancianos, afectando colon ascendente, pequeñas y poco visibles. Las de tipo 2 son usualmente congénitas, en pacientes más jóvenes, afectando el intestino delgado, más grandes y visibles.

Las de tipo 3 son hereditarias, como en la enfermedad de Rendu-Osler-Weber. Las MAV intestinales pueden causar anemia severa y hemorragia que pone en riesgo la vida, por lo cual a veces se requiere cirugía de emergencia⁽¹⁰⁾. Los clips o tatuajes endoscópicos pueden ayudar a localizar el segmento del intestino delgado afectado durante la cirugía⁽¹¹⁾.

Considerando que cada paciente tiene características propias como huésped de cualquier enfermedad, se presenta a continuación dos casos clínicos de particular interés.

DESCRIPCIÓN DE CASOS CLÍNICOS

Caso 1. Mujer de 60 años, con antecedente de hepatitis autoinmune desde hace 5 años, que consultó por palidez y cansancio. Los exámenes de laboratorio detectaron una hemoglobina de 10,9 g/dL, hematocrito de 35,7 y volumen corpuscular medio de 83,8 fl. Le realizaron endoscopia alta y baja sin encontrar mayores alteraciones, siendo programada para enteroscopia retrógrada por sospecha de hemorragia digestiva, la cual se frustró. Le realizaron prueba de cápsula endoscópica en donde se descubrió una lesión subepitelial poco definida. Posteriormente, se logró realizar la enteroscopia, encontrándose a 3,8 metros del ángulo de Treitz, una lesión lobulada, azulada, de unos 35mm, con sangrado rezumante. Se realizó marcación con tatuaje de tinta china color negro. Posteriormente, en el acto quirúrgico, se confirmó la lesión, realizándose resección de un segmento de intestino delgado y liberación de adherencias epiploicas. Al estudio anatomopatológico, la macroscopia describió un segmento de intestino delgado de 10x1,5x1,5cm, serosa congestiva con área negruzca paracentral (tatuaje). Abierto el espécimen, se observó una lesión elevada, de 12x8x4mm, grisácea, elástica, cubierta por mucosa de aspecto habitual a la circundante. (Figura 1A)

Al corte seriado, se observó vasos irregulares dilatados, ubicados principalmente en la submucosa, con discreta retracción de la capa muscular. Microscópicamente, la lesión correspondía a ovillos vasculares, con arterias y venas de diámetro diverso, paredes con alteraciones estructurales y anastomosis arteriovenosas, sin lecho capilar evidenciable (Figura 1C). La coloración histoquímica para fibras elásticas demostró múltiples alteraciones estructurales (Figura 1E). El diagnóstico



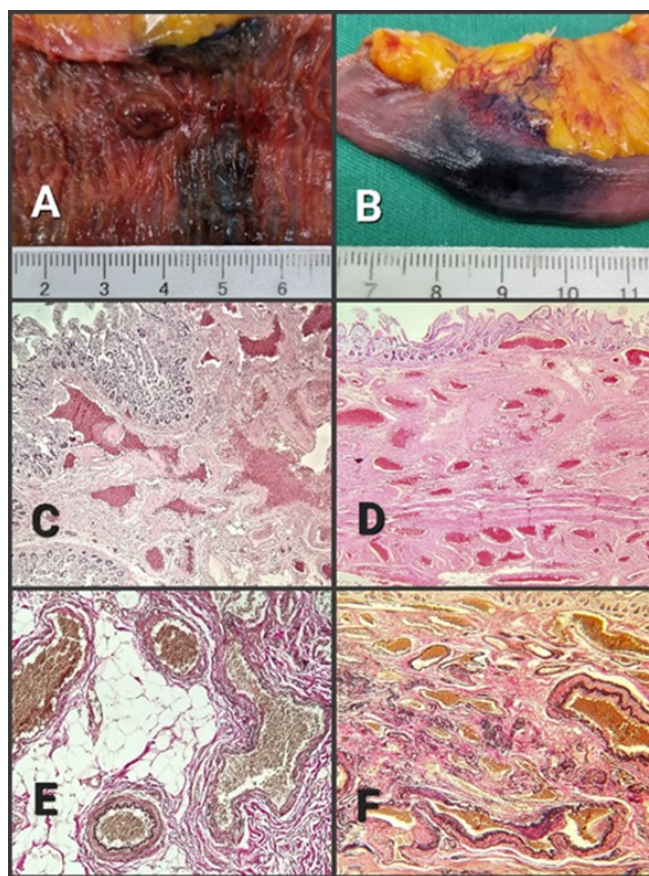


final fue Malformación arteriovenosa, a predominio de submucosa de intestino delgado. En los controles médicos posteriores, la paciente no presentó re-sangrado ni otras alteraciones significativas.

Caso 2. Mujer de 53 años, con antecedente de hipotiroidismo, que consultó por pérdida de conocimiento, palidez y dificultad respiratoria. Los exámenes de laboratorio detectaron una hemoglobina de 7,1 g/dL hematocrito de 24,3% y volumen corpuscular medio de 87,1 fl. Le realizaron endoscopia alta y baja hallándose lesiones elevadas gástricas de aspecto benigno y diverticulosis colónica sin sangrado, respectivamente. Días después le realizaron prueba de cápsula endoscópica la cual encontró sangrado diluido y presencia de una Tenia que obstaculizaba la visión. Fue hospitalizada y recibió tratamiento para teniasis. Posteriormente, le realizaron enteroscopia, la cual encontró una lesión violácea en yeyuno medio asociada a contenido hemático desde yeyuno medio distal. Se realizó tatuaje con tinta china negra. En el acto quirúrgico, se describió una lesión vascular en yeyuno medio, asociada a arañas vasculares en mesenterio y se realizó resección de un segmento de intestino delgado.

Al estudio anatomopatológico, la macroscopía describió un segmento de intestino delgado de 13x1,5x1,5cm, serosa congestiva con área negruzca paracentral (tatuaje) y se observó vasos tortuosos/congestivos a nivel de raíz mesentérica (Figura 1B). Abierto el espécimen, la mucosa era congestiva e irregularmente nodular en la zona descrita, de 12x10mm, sin evidenciarse contornos nítidos. Al corte seriado, se observó vasos congestivos y tortuosos ocupando casi todo el espesor de la pared intestinal. Microscópicamente, se observó ovillos vasculares, con arterias y venas de diámetro diverso, paredes con alteraciones estructurales y anastomosis arteriovenosas, sin lecho capilar, que afectaban hasta subserosa (Figura 1D) y en el mesenterio se encontró un foco idéntico.

La coloración histoquímica para fibras elásticas demostró su discontinuidad y espesor irregular (Figura 1F). El diagnóstico final fue Malformación arteriovenosa, que compromete submucosa, muscular propia, subserosa y raíz mesentérica de intestino delgado. En los controles médicos posteriores, la paciente no presentó re-sangrado ni otras alteraciones significativas.



A. Caso 1, lesión submucosa tipo meseta, adyacente a zona de tatuaje
 B. Caso 2, ovillos vasculares visibles desde serosa en raíz de mesenterio
 C. Caso 1, ovillos vasculares con alteraciones estructurales en paredes de arterias y venas sin lecho capilar, afectando submucosa (40X)
 D. Caso 2, ovillos vasculares similares al caso anterior afectando desde submucosa hasta subserosa intestinal (40X)
 E. Caso 1, fibras elásticas discontinuas en color negro (100X)
 F. Caso 2, fibras elásticas discontinuas en color negro (100X)



DISCUSIÓN

La MAV que afecta el intestino delgado es muy poco frecuente y ubicarla en el yeyuno-íleon que mide unos 6 metros, representa todo un reto médico. La endoscopia alta permite evaluar con gran precisión desde el esófago hasta el duodeno. Situación similar ocurre con la endoscopia baja para la evaluación desde canal anal hasta el íleon distal. Ambos estudios no permiten una adecuada evaluación del yeyuno-íleon, la porción más extensa del tubo digestivo. Existen otros métodos disponibles como la enteroscopia y la cápsula endoscópica para dicha evaluación.

El sangrado gastrointestinal de origen oscuro puede poner en riesgo la vida del paciente y representar una verdadera emergencia médica. En estos casos se requiere un abordaje rápido y dirigido, teniendo en cuenta que las fuentes de sangrado en el intestino delgado tienen características peculiares, debiendo considerarse lesiones neoplásicas y no neoplásicas. Se sabe que los adenocarcinomas primarios de intestino delgado son extremadamente raros, siendo la neoplasia neuroendocrina la más frecuente. Entre las lesiones no neoplásicas debe considerarse las lesiones vasculares, como la MAV y otras.

Yano et al ⁽¹²⁾ clasificaron las lesiones vasculares del intestino delgado en seis grupos, según los hallazgos endoscópicos. Los tipos 1a (eritema punteado menor de 1 mm) y 1b (eritema en parches) son lesiones venosas o capilares y se consideran angioectasias. El tipo 2a (lesión puntiforme menor de 1 mm con sangrado pulsátil) y 2b (protrusión roja pulsátil sin dilatación venosa circundante) son lesiones arteriales y se consideran lesiones de Dieulafoy. El tipo 3 (protrusión roja pulsátil con dilatación venosa

circundante) son MAV. El tipo 4 corresponde a lesiones vasculares con una morfología inusual y son inclasificables.

Clínicamente, es útil recordar la semiología de la hemorragia digestiva, en donde la rectorragia es presencia de sangre roja rutilante que se origina en el recto; la hematoquecia es sangre entremezclada con heces, color rojo oscuro y suele provenir del intestino delgado o grueso; mientras que la melena es sangre digerida color negro originada proximalmente en el tubo digestivo.

Los casos presentados corresponden a mujeres, de 53 y 60 años, con comorbilidades no digestivas y que presentan signos y síntomas asociados a pérdida crónica de sangre. Los estudios dirigidos encuentran lesiones de aspecto vascular, ambas en el yeyuno medio, una de ellas con sangrado rezumante. En ambas ocasiones se logró realizar el tatuaje con tinta china, para facilitar la ubicación en el acto quirúrgico. Realizadas las resecciones quirúrgicas, el estudio histopatológico con hematoxilina-eosina demostró que ambas lesiones correspondían a ovidos de vasos arteriales y venosos, con paredes arquitecturalmente alteradas, que se comunicaban directamente, sin lecho capilar intermedio. En el caso 1, la lesión afectaba mayormente la submucosa, mientras que en el caso 2, casi toda la pared, incluyendo raíz del mesenterio. Las coloraciones especiales para fibras elásticas, evidenciaron su discontinuidad multifocal en las paredes vasculares. Ambos casos correspondieron al tipo 2, según la clasificación de Moore y al tipo 3 según la clasificación endoscópica de Yano. El diagnóstico anatomopatológico definitivo fue Malformación arteriovenosa en intestino delgado, una lesión poco frecuente. La Tabla 1 resume las principales características de ambos casos.





Tabla 1

	CASO 1	CASO 2
Género	Femenino	Femenino
Edad	60	53
Antecedentes patológicos	Hepatitis autoinmune	Hipotiroidismo, Teniasis
Signos-síntomas	Palidez, cansancio	Pérdida de conocimiento, palidez, dificultad respiratoria
Valor de hemoglobina en g/dL	10.9	7.1
Cápsula endoscópica	Sí	Si
Enteroscopia	Sí	Sí
Tatuaje con tinta china negra	Sí	Sí
Cirugía (laparotomía exploratoria)	Sí	Sí
Ubicación de la lesión	Yeyuno medio	Yeyuno medio
Tamaño de la lesión	12x8x4mm	12x10mm
Forma de la lesión	En meseta	Difusa, engruesa la pared hasta 5mm
Compromiso de capas intestinales	Submucosa	Submucosa, muscular propia y subserosa
Compromiso del mesenterio	No	Sí
Evolución postoperatoria / controles	Favorable	Favorable

CONCLUSIÓN

La MAV se considera una lesión vascular congénita, que puede afectar cualquier tejido corporal, pero es mucho más frecuente en el sistema nervioso central. La ubicación en el tubo digestivo es poco frecuente y en el intestino delgado, más infrecuente aún. Suele causar sangrado digestivo crónico, pero también brusco, poniendo en riesgo la vida de los pacientes. La anemia en los casos crónicos es la regla y la pérdida del conocimiento suele relacionarse a una peligrosa hemorragia digestiva brusca y masiva.

Se requiere alto grado de sospecha clínica y un

protocolo definido para el enfoque diagnóstico de estas lesiones, lo cual debe culminar con la exacta ubicación y resección de la lesión, por el alto riesgo de re-sangrado descrito. Existen otras opciones terapéuticas, cuya utilidad e indicación escapan del alcance de la presente publicación.

El estudio histopatológico debe ser prolijo desde la microscopía hasta el hallazgo microscópico de las alteraciones estructurales en paredes vasculares, debiendo complementarse con coloraciones de histoquímica para evidenciar las alteraciones en las fibras elásticas murales, características de ésta lesión.

Contribuciones de autoría: Concepción, diseño y resumen del artículo: Eugenio Américo Palomino Portilla. Recolección de datos clínicos: María del Pilar Quiñones Ávila. Análisis e interpretación de datos: Eugenio Américo Palomino Portilla. Redacción del artículo: Introducción (Katia Sofía Palomino Aguilar). Descripción de casos clínicos (María del Pilar Quiñones Ávila). Discusión (Isaira Giovanna Torpoco Baquerizo). Conclusión (María Angélica Medrano Huallanca).

Financiamiento: Autofinanciado

Conflictos de intereses: Los autores declaran no tener conflictos de interés.

Recibido: 28 de octubre, 2022

Aprobado: 03 de enero, 2023

Autor responsable: Eugenio Américo Palomino Portilla.

Dirección: Calle Doña Victoria, manzana C, Lote 1, Santiago de Surco.

Teléfono: (+51) 998483195

Correo electrónico: eugenio.palomino@urp.edu.pe





REFERENCIAS

- Holleran G, Hall B, O'Regan M. Expression of Angiogenic Factors in Patients with Sporadic Small Bowel Angiodysplasia. *J Clin Gastroenterol.* 2015;49:831. DOI: <https://doi.org/10.1097/MCG.0000000000000260>
- ASGE Standards of Practice Committee; Gurudu SR, Bruining DH, Acosta RD, Eloubeidi MA, Faulx AL, Khashab MA, Kothari S, Lightdale JR, Muthusamy VR, Yang J, DeWitt JM. The role of endoscopy in the management of suspected small-bowel bleeding. *Gastrointest Endosc* 2017; 85: 22-31 [PMID:27374798] DOI: <https://doi.org/10.1016/j.gie.2016.06.013>
- Gerson LB, Fidler JL, Cave DR, Leighton JA. ACG Clinical Guideline: Diagnosis and Management of Small Bowel Bleeding. *Am J Gastroenterol* 2015; 110: 1265-87; quiz 1288 [PMID:26303132] DOI: <https://doi.org/10.1038/ajg.2015.246>
- Lewis BS. Small intestinal bleeding. *Gastroenterol Clin North Am* 1994; 23: 67-91 [PMID: 8132301] DOI: [https://doi.org/10.1016/S0889-8553\(05\)70108-4](https://doi.org/10.1016/S0889-8553(05)70108-4)
- Micic D, Gaetano JN, Nigam N, Peller M, Rao VL, Semrad C, et al. Risk factors for small bowel bleeding in an overt gastrointestinal bleeding presentation after negative upper and lower endoscopy. *PLoS One* 2019; 14: e0212509. DOI: <https://doi.org/10.1371/journal.pone.0212509>
- Lee HH, Kwon HM, Gil S, Kim YS, Cho M, Seo KJ, et al. Endoscopic resection of asymptomatic, colonic, polypoid arteriovenous malformations: two case reports and a literature review. *Saudi J Gastroenterol* 2017; 23: 67-70. DOI: <https://doi.org/10.4103/1319-3767.199111>
- Yazbeck N, Mahfouz I, Majdalani M, Tawil A, Farra C, Akel S. Intestinal polypoid arteriovenous malformation: unusual presentation in a child and review of the literature. *Acta Paediatr* 2011; 100:e141-4. DOI: <https://doi.org/10.1111/j.1651-2227.2011.02203.x>
- Sakai E, Ohata K, Nakajima A, Matsuhashi N. Diagnosis and therapeutic strategies for small bowel vascular lesions. *World J Gastroenterol.* 2019 Jun 14;25(22):2720-2733.
- Moore JD, Thompson NW, Appleman HD, Foley D. Arteriovenous malformation of the gastrointestinal tract. *Arch Surg.* 1976; 111(4):381-9.
- Small intestinal arteriovenous malformation treated by laparoscopic surgery using intravenous injection of ICG: Case report with literature review Takahiko Hyo, Kenji Matsuda, Koichi Tamura, Hiromitsu Iwamoto, Yasuyuki Mitani, Yuki Mizumoto, Yuki Nakamura, Hiroki Yamaue; *International Journal of Surgery, Case Reports* 74 (2020) 201-204. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.ijscr.2020.08.038>
- Chung CS, Chen KC, Chou YH, Chen KH. Emergent single-balloon enteroscopy for overt bleeding of small intestinal vascular malformation. *World J Gastroenterol.* 2018;24:157-60. DOI: <https://doi.org/10.3748/wjg.v24.i1.157>
- Yano T, Yamamoto H, Sunada K, et al. Endoscopic classification of vascular lesions of the small intestine (with videos). *Gastrointest Endosc* 2008;67:169-172. <https://doi.org/10.1016/j.gie.2007.08.005>

INDEXACIONES



INICIB PROMOVRIENDO LA INVESTIGACIÓN DE CALIDAD

TALLERES DE CAPACITACIÓN DEL REGISTRO PARA:



REPORTE DE CASO

