

Fístula tardia entre a cúpula vaginal pós-histerectomia total e a cavidade uterina: Revisão de literatura - relato de caso

Late fistula between the post-total hysterectomy vaginal vault and the abdominal cavity: Literature review - case report

DOI: 10.46814/lajdv3n6-025

Recebimento dos originais: 01/11/2021

Aceitação para publicação: 15/12/2021

Prof. Dr. Joe Luiz Vieira Garcia Novo

Prof. Dr. Titular - Departamento de Reprodução Humana e Infância - Faculdade de Ciências Médicas
e da Saúde-PUC/SP

Rua Manoel Ferreira Leão, 67 ap. 21 Vila Leão - CEP 18040-410 Sorocaba-SP

E-mail: joeluznovo@hotmail.com

Isabela Dias dos Santos

Acadêmica (o) do Curso de Medicina – Faculdade de Ciências Médicas e da Saúde-PUC/SP

Matheus Rauen Oliveira

Acadêmica (o) do Curso de Medicina – Faculdade de Ciências Médicas e da Saúde-PUC/SP

Prof. Ms. Danilo Moulin Sales

Prof. Ms. - Radiologia Médica

RESUMO

Sangramentos irregulares ou cíclicos tardios semelhantes a fluxos menstruais, em pacientes com histerectomia total anterior são muito raros, podendo surgir meses ou anos após a cirurgia. Há poucos casos citados na literatura. Estes eventos são consequentes da associação de endometriose e fístulas com a cúpula vaginal promovendo subsequente eliminação sanguínea pela vulva. Neste estudo, há revisão da literatura pertinente à fístula tardia entre cúpula vaginal pós-histerectomia total e a cavidade abdominal. Há 4 casos descritos, aos quais associa-se o relato atual. Descreve-se paciente com 44 anos, histerectomia total há 7 anos (mioma uterino), sangramento genital tardio simulando perdas menstruais, após 2 anos de cirurgia. RNM de 11/2017 identificou volumoso endometrioma ovariano E (641,6 cm³), com fistulização peritônio-vaginal. Em 02/2018 após tentativa cirúrgica frustrada em virtude de múltiplas aderências pélvicas, e a seguir de contraceptivos orais, não resolutivas, optou-se por ser medicada com dienogeste. Fluxos sanguinolentos cessaram em 08/2018, retornaram em 01/2019. RNM de 03/2019 revelou gradual redução volumétrica do endometrioma (volume = 143 cm³), mas, não resolução deste caso. Iniciou-se, a seguir, a administração de goserrelina (análogo sintético GnRH) por 6 meses. Retornou após tratamento com fogachos incômodos, sem sangramentos, anexo E com volume de 124 cm³, preferindo retornar tratamento com dienogeste contínuo. Apresentou-se este relato de caso pela sua extrema raridade, aliada à valorização da queixa dolorosa pélvica, associando-se aos sangramentos genitais periódicos, sugerindo conteúdos menstruais, bem como à grande dimensão do endometrioma ovariano, e, também, à condução do caso voltado para o acompanhamento direcionado a sua real patologia.

Palavra chaves: histerectomia total, sangramento genital tardio, fístula peritônio-vaginal, revisão de literatura, endometriose, relato de caso, dienogeste, goserrelina.

ABSTRACT

Irregular or late cyclic bleeding like menstrual flows in patients with previous total hysterectomy is very rare and may appear months or years after surgery. There are few cases cited in the literature. These events are a consequence of the association of endometriosis and fistulas with the vaginal vault, promoting subsequent blood clearance through the vulva. In this study, literature review pertaining to late fistula between the post-total hysterectomy vaginal vault and the abdominal cavity. There are 4 cases described, to which the current report is associated. We describe a 44-year-old patient, with a 7-year total hysterectomy (uterine fibroid), late genital bleeding simulating menstrual losses, after 2 years of surgery. MRI of 11/2017 identified large ovarian endometrioma E (641.6 cm³), with peritoneum-vaginal fissurization. In 02/2018, after a failed surgical attempt due to multiple pelvic adhesions, and then non-resolving oral contraceptives, it was decided to be medicated with dienogest. Bloody flows stopped on 08/2018, returned on 01/2019. MRI of 03/2019 revealed gradual volumetric reduction of endometrioma (volume = 143 cm³), but no resolution of this case. The administration of goserelin (synthetic GnRH analogue) for 6 months was then started. He returned after treatment with uncomfortable hot flashes, without bleeding, annex E with a volume of 124 cm³, preferring to return to treatment with continuous dienogest. This case report was presented for its extreme rarity, combined with the appreciation of the pelvic pain complaint, associated with periodic genital bleeding, suggesting menstrual contents, as well as the large dimension of the ovarian endometrioma, and also the management of the case. for follow-up aimed at your true pathology.

Keywords: total hysterectomy, late genital bleeding, peritoneum-vaginal fistula, literature review, endometriosis, case report, dienogest, goserelin.

1 INTRODUÇÃO

A histerectomia total é o procedimento cirúrgico realizado por via abdominal e/ou vaginal, que remove a totalidade uterina, culmina com a fixação e síntese integral da cúpula vaginal com os ligamentos uterinos, sem restar quaisquer pontos e/ou áreas de comunicação entre a vagina e a cavidade peritoneal.¹

Os seguimentos pós-operatórios destas pacientes podem ser longamente assintomáticos, porém, queixas e/ou raras complicações tardias na cúpula vaginal isoladas ou associadas entre si, podem surgir, como: hematomas, granulomas, queloides, herniação, formações vasculares,^{2, 3} endometriose,³ infecções focais,⁴ gestação abdominal,⁵ neoplasias⁶ e/ou fístulas tardias entre a cavidade peritoneal e a cúpula vaginal.^{3, 4, 6, 7}

A ocorrência de sangramentos irregulares ou cíclicos semelhantes a fluxos menstruais, nestas pacientes histerectomizadas são raros, podendo surgir meses ou anos após a cirurgia bem-sucedida. Tais sangramentos são ligados, em geral, à associação de endometriose ativa com implantes e/ou apenas com fistulizações peritoniais na cúpula vaginal, e subsequente eliminação sanguínea pela vulva. A literatura de casos com fístulas sem implante endometriótico, tem poucos casos citados.²⁻⁴

A endometriose é uma doença crônica, inflamatória, estrogênio-dependente que acontece durante o período reprodutivo da vida da mulher, cujas características se faz pela presença de tecido

endometrial, glândula e/ou estroma, eliminando, em geral, conteúdo sanguinolento similares a fluxos menstruais para fora da cavidade uterina.⁸

A raridade de citações de que após uma histerectomia total bem-sucedida cirurgicamente, a endometriose ovariana possa promover a formação de fistulizações tardias (sem implantes na fistulização), entre a cavidade peritoneal e a vaginal, sua revisão em literatura mundial, além da possibilidade de ser o primeiro caso nacional a ser relatado, suas implicações evolutivas, e de tentativas de resolução, motivaram a apresentação deste caso.

2 REVISÃO DE LITERATURA

Realizou-se a revisão de literatura de pacientes submetidas à histerectomia total bem-sucedida, com a ocorrência de sangramentos tardios, irregulares ou cíclicos, semelhantes a fluxos menstruais. A literatura encontrada revelou que são eventos raros, surgindo meses ou alguns anos após a cirurgia.^{2-4, 6, 7}

Os casos descritos sinalam a frequente possibilidade da presença de endometriose na cavidade pélvica. Observam-se as probabilidades de associações de implantes da mesma patologia na cicatriz cirúrgica íntegra em sua face vaginal, e/ou mesmo à de somente endometriose pélvica e fistulização (sem implantes) entre a cavidade abdominal e a cúpula vaginal.^{4, 7, 9, 10}

A revisão de literatura de relatos de casos de sangramentos tardios após histerectomia total, identificados com a presença de somente fistula tardia entre a cavidade abdominal e a cúpula vaginal, é apresentada na Tabela 1. Nota-se que são extremamente raros, foram acompanhados assistencialmente por condutas clínicas e/ou cirúrgicas. A mesma tabela é utilizada para a exposição do caso em estudo.

Tabela 1 – Casos de fístula tardia entre a cúpula vaginal pós-histerectomia total e a cavidade abdominal.

CASO	ANO	IDADE	CIRURGIA INICIAL	TEMPO DO INÍCIO DO SANGRAMENTO APÓS CIRURGIA	TRATAMENTO A SEGUIR
GREEN et al. ⁹	1954	34	Histerectomia total vaginal	(-)	Clínico com andrógenos
OLIVER et al. ⁷	2006	39	Histerectomia total abdominal	03 meses	Excisão da massa + correção da fístula (laparoscopia)
CHONG et al. ⁴	2007	44	Histerectomia total vaginal	02 anos	Excisão da (laparotomia)
AYDIN et al. ¹⁰	2009	42	Histerectomia total + salpingooforectomia abdominal	06 meses	Excisão da fístula + ooforectomia E (laparotomia)
NOVO et al.	2019	44	Histerectomia total + salpingectomia bilateral abdominal	02 anos	Tratamento clínico com progestágeno (dienogeste)

3 RELATO DE CASO

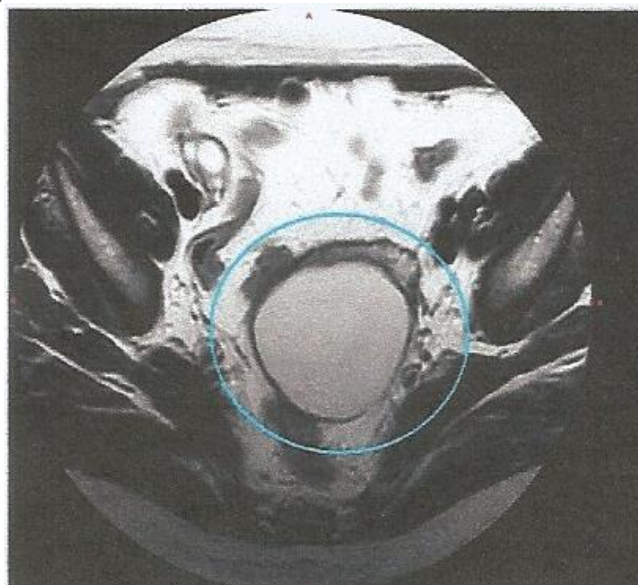
Na consulta inicial de 06/02/2018, paciente com 44 anos, relatava que após histerectomia total bem-sucedida em 2012 por mioma uterino, surgiram há 4 anos, dispareunia, cólicas intermitentes e

intensas no baixo-ventre, perdas mensais de conteúdo sanguinolento, em regular quantidade, semelhantes a fluxos menstruais. Realizou Ressonância Magnética (RNM) em 05/01/2017 que descrevia: ovário D com morfologia e dimensões aumentadas (volume = 19,1 cm³); ovário E na região hipogástrica, dimensões elevadas (volume = 641,6 cm³), aderido e desviando o sigmoide à D. Foi medicada sem bons resultados com contraceptivos orais bifásicos e monofásicos. Em 23/12/2017 submeteu-se à frustrada tentativa cirúrgica de remoção do cisto ovariano E, pela coexistência de múltiplas aderências em alças intestinais com o cisto relatado, impedindo o sucesso operatório.

Na continuação da consulta inicial o exame especular revelou, vulva sem lesões, vagina: ausência cirúrgica de colo, cúpula vaginal com pequena cicatriz de tecido em granulação recente (20 mm) à E, sugerindo ser uma fístula, sem sinais de implante endometriótico. O toque bimanual identificou massa pélvica à E, palpável, dolorosa, com diâmetro ao redor de 10 cm. Com diagnósticos de endometrioma pélvico e de ovário E, provável fístula abdominal tardia em cúpula vaginal, na impossibilidade de conduta cirúrgica resolutive, optou-se, inicialmente, medicar-se com dienogeste (2 mg/dia) de forma contínua.

Em 07/02/2019 comentou persistência das incômodas cólicas no baixo ventre; porém, os sangramentos foram diminuindo progressivamente, cessando ao redor de 08/2018, porém, retornaram há 60 dias em menor quantidade. RNM realizada em 19/03/2019, descreveu ovário D tóxico, dimensões e contornos normais (25x37x29 mm, volume = 9,6 cm³); formação cística uniloculada ovariana E (72x61x63 mm, volume = 143 cm³) com conteúdo hiperprotéico/hemático com discreto realce parietal após administração de contraste magnético), em proximidade com a cúpula vaginal; reto e ânus normais e ausência de líquido cavitário (fig. 1).

Figura 1 – Imagem de ressonância magnética revelando o cisto endometriótico, alças intestinais de permeio, em proximidade com a cúpula vaginal.



Em virtude de persistência da incômoda e dolorosa queixa abdominal, do retorno de perda sanguínea, da persistência atual do endometrioma ovariano E (apesar de sua parcial redução com o uso de dienogeste), além de anuência da paciente (ciente de eventuais e prováveis efeitos inadequados poderem surgir), optou-se pela administração de goserrelina (análogo sintético GnRH). O esquema proposto para a continuidade de tratamento clínico foi: 3,6 mg, via subcutânea, a cada 4 semanas, durante 6 meses, a partir 20/04/2019.

Retornou em 02/2020 após completar 4 doses do esquema proposto à goserrelina, apresentando fogachos incômodos, alopecia, ganho ponderal, cólicas ocasionais e menos intensas, sexo indolor e sem sangramento genital. Controle ultrassonográfico endovaginal relatou da massa cística hiperecótica homogênea anexial E, persistente, com volume ao redor de 124 cm³. A paciente manifestou o desejo de retornar ao esquema anterior de dienogeste contínuo, para tentar a melhora de suas queixas atuais, e a probabilidade de continuar em tratamento clínico.

4 DISCUSSÃO

A endometriose é doença crônica, cuja abordagem epidemiológica compreende as mulheres entre sua menarca e a menopausa, explicando sua variação de prevalência na literatura mundial. Presume-se que ocorra em cerca de 10% destas mulheres, observados por meio de dados sindrômicos, auxiliados com exames e/ou cirurgias ginecológicas.^{8, 11}

Apresenta etiologia e patogênese ainda controversas, crendo-se na atualidade em alterações imunológicas, resultantes pelo balanceamento do sistema imune em eliminar células de localização anormal, e por outro lado facilitar a sua sobrevivência.¹² Em geral, apesar de ser patologia benigna, poderá associar-se a tumores malignos (endometriomas, adenocarcinomas), condicionada pelo nível de progressão, a órgãos afetados e de sua recorrência.¹³

O seu diagnóstico clínico se baseia, em geral, à presença de menorragias, dismenorréia, dor pélvica, dispareunia, e outros quadros de acordo com os acometimentos dos órgãos intra ou extrapélvicos.¹⁴ Relatos anteriores observam que qualquer presumível tecido endometrial transplantado, possa se desenvolver na cúpula vaginal ou no sistema tubo-ovariano, causando a denominada endometriose pélvica profunda.^{9, 15}

Nesta eventualidade a localização ovariana é caracterizada pelo achado ultrassonográfico, associado ou não ao doppler, como cistos de ecos interiores de baixa intensidade, difusos e focos hiperecogênicos na parede cística (endometrioma ovariano).¹⁶ Além dos procedimentos ultrassonográficos, a RNM poderá ser utilizada, também, quando de localização duvidosa, ou de difícil acesso da patologia em pauta.¹⁷

O tratamento da endometriose necessita ser individualizado dependendo da idade da paciente, sintomas clínicos e sua localização.³ Na localização ovariana a cirurgia é o tratamento preferencial, seja via endoscópica ou laparotômica, associando-se a tratamento clínico quando de futuras recorrências.¹⁸ A terapêutica clínica compreende o uso de progestágenos como o acetato de medroxiprogesterona, noretindrona, dienogeste, sistema intrauterino com levonorgestrel e/ou análogos agonistas do hormônio liberador de gonadotrofina (GnRH).^{10, 18, 19}

Os análogos agonistas do GnRH que seriam potencialmente mais efetivos, promovem uma diminuição na secreção dos hormônios folículo estimulante (FSH) e luteotrófico (LH) pela hipófise, inibem a produção de estrogênio pelos ovários, causando redução ou cura das lesões de endometriose.²⁰ Os prováveis efeitos colaterais e indesejáveis, de inibição secundária hipofisária, causando síndrome similar à menopausa precoce e o elevado custo da medicação, tornam seu uso relativamente mais restrito.^{3, 20}

Muito embora as complicações analisadas após uma histerectomia total, sejam extremamente raras, quando outros diagnósticos tenham sido excluídos, a implantação iatrogênica de tecido endometrial, gerando endometriose pélvica com e/ou sem fistulizações, deve ser considerada no diagnóstico diferencial de quadros hemorrágicos genitais tardios.^{10, 20}

Lembrar que mesmo em virtude de a natureza destas lesões poderem ter alta e significativa recorrência, pela sua hormônio-dependência, o tratamento preferencial como qualquer endometriose extrapélvica, é a sua remoção cirúrgica.²⁰ Assinalar, também, além do devido seguimento pós-operatório, a elevada importância de acesso e acompanhamento dos serviços sociais governamentais.²¹

No relato atual em virtude das características da lesão ovariana E em vigência (endometrioma com conteúdo misto: líquido e sólido, associado à múltiplas aderências pélvicas), foi descartada, também, uma provável tentativa de esvaziamento da tumoração, com o auxílio de sonda ultrassonográfica endovaginal.²²

Conclui-se que a endometriose promove impacto biopsicossocial importante, incluído do ponto de vista individual,²³ bem como de saúde pública, com vários tratamentos utilizados, devendo eles serem individualizados e dirigidos à melhoria da qualidade de vida de cada paciente.²⁴

Apresentou-se este relato de caso pela sua extrema raridade, aliada à valorização da queixa dolorosa pélvica, associando-se aos sangramentos genitais periódicos sugerindo conteúdos menstruais, bem como à grande dimensão do endometrioma ovariano, e, também, à condução do caso voltado para o acompanhamento direcionado a sua real patologia.

CONFLITOS DE INTERESSE

Os autores declaram inexistência de conflitos de interesse na realização deste trabalho.

REFERÊNCIAS

1. Hoffman BL, Schorge JD, Schaffer JI, Halvarson LM, Bradshaw KO, Cunningham FG. *Ginecologia Williams*. Porto Alegre: AMGH Editora, 2014. 2ª ed. p. 1045-54.
2. Shen CC, Wu MP, Kung FT, Huang FJ, Hsieh CH, Lan KC, Huang EY, Hsu TY, Chang SY. Major complications associated with laparoscopic-assisted vaginal hysterectomy: ten-year experience. *J Am Assoc Gynecol Laparosc*. 2003; 10 (2): 147-53.
3. Chen X, Zhu J. Vaginal cuff endometriosis after laparoscopic-assisted vaginal hysterectomy: a cause report and literature review. *Int J Clin Exp Med*. 2018; 11 (6): 6336-9.
4. Chong KM, Chuang J, Tsai YL, Hwang JL, Chu CC. Vaginal cuff endometriosis resulting in a fistula between the vagina and abdominal cavity and presenting as peritonitis: a case report. *J Reprod Med*. 2007; 52 (5): 439-40.
5. Shao EX, Hopper K, McKnoulty, Kothari A. A systematic review of ectopic pregnancy after hysterectomy. *Int J Gynecol Obstet*. 2018; 141 (2): 159-65.
6. Marsden NJ, Wilson-Jones N. Scar endometriosis: a rare skin lesion presenting to the plastic surgeon. *J Plastic Reconstr Aesthet Surg*. 2013; 66 (4): 111-3.
7. Oliver R, Coker, A, Khoo D. Laparoscopic approach to an endometriotic vault fistula causing posthysterectomy “menstruaton”. *J Minim Invasive Gynecol*. 2006; 13 (2): 164-5.
8. Giudice LC. Clinical practice. Endometriosis. *N Engl J Med*. 2010; 362 (25):2389-98.
9. Green Jr TH, Meigs JV. Pseudomenstruation from posthysterectomy vaginal vault endometriosis. *Obstet Gynecol*. 1954; 4 (6): 622-34.
10. Aydin Y, Atis A, Ercan E, Donmez M. An endometriotic vault fistula presenting with monthly bleeding after hysterectomy. *Arch. Gynecol Obstet*. 2009; 280 (6): 1011-4.
11. Vercellini P, Crosignani PG, Abbiati A, Somigliana E, Viganò P, Fedele L. The effect of surgery for symptomatic endometriosis: the other side of the story. *Hum Reprod Update*. 2009; 15 (2):177-88.
12. Dmowski WP, Braun DP. Immunology and endometriosis: is there a link? In: García-Velasco JA & Botros RMB Rizk. *Endometriosis: current management and future trends*. New Delhi. Jaypee Brothers Medical Publishers. 2010; 62-75.
13. Brosens I, Puttemans P, Benagiano G. Endometriosis: a little cycle approach? *Am J Obstet Gynecol*. 2013; 209 (4): 307-16.
14. Vercellini P, Fedele L, Aimi G, Pietropaolo G, Consonni D, Crosignani PG. Association between endometriosis stage, lesion type, patient characteristics and severity of pelvic pain symptoms: a multivariate analysis of over 1000 patients. *Human Reprod*. 2007; 22 (1): 266–7.
15. Crosignani P, Olive D, Bergqvist A, Luciano A. Advances in the management of endometriosis: na update for clinicians. *Hum Reprod Update*. 2006; 12 (2): 179-89.

16. Moore J, Copley S, Morris J, Lindsell D, Golding S, Kennedy S. A systematic review of the accuracy of ultrasound in the diagnosis of endometriosis. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2002; 20 (6): 630-4.
17. Biazot M, Bharwani N, Huchon C, Kinkel K, Cunha TM, Guerra A, Manganaro L, Buñesch L, Kido A, Togashi K, Tomassin-Naggara I, Rockall AG. European society of urogenital radiology (ESUR) guidelines: MR imaging of pelvic endometriosis. *Eur Radiol.* 2017; 27 (7): 2765-75.
18. Kennedy S, Bergqvist A, Chapron C, D'Hooghe T, Dunselman G, Greb R, Hummelshoj L, Prentice A, Saridogan E. ESHRE guidelines for the diagnosis and treatment of endometriosis. *Hum Reprod.* 2005; 20 (10): 2698-704.
19. Fedele L, Bianchi S, Zanconato G, Portuese A, Raffaelli R. Use of levonorgestrel-releasing intrauterine device in the treatment of rectovaginal endometriosis. *Fertil Steril.* 2001; 75 (3):485-8.
20. Choi CH, Kim WY, Min KW, Kim DH. A rare cause of post-hysterectomy vault site iatrogenic endometriosis. *Obstet Gynecol Sci.* 2015; 58 (4): 319-22.
21. Vieira LCR, Paula MAB. Determinantes sociais da saúde uma reflexão sobre a questão social e a contribuição da estratégia de saúde da família. 2021; 3 (5): 3372-83.
22. Aboulghar MA, Mansour RT, Serour GI, Rizk B. Ultrasonic transvaginal aspiration of endometriotic cysts: an optional line of treatment in selected cases of endometriosis. *Hum Reprod.* 1991; 6 (10): 1408-10.
23. Santos AM. Abordagem social do conhecimento. *Lat Am J Develop.* 2020; 4 (2): 129-35.
24. Silva JCR, Valério FP, Herren H, Troncon JK, Garcia R, Poli Neto OB. Endometriose. Aspectos clínicos do diagnóstico ao tratamento. *Femina.* 2021; 49 (3): 134-41.