



## Artículo breve

## Corangioma placentario asociado a hemangiomatosis neonatal difusa. A propósito de un caso

Adriana Beatriz González\*, Ana Inés Viñuales y Fausto Juárez

Servicio de Anatomía Patológica, Instituto de Maternidad y Ginecología Nuestra Señora de las Mercedes, Tucumán, Argentina

## INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

*Historia del artículo:*

Recibido el 23 de mayo de 2010

Aceptado el 13 de julio de 2010

On-line el 16 de septiembre de 2010

*Palabras clave:*

Corangioma

Tumor placentario

Hemangiomatosis neonatal

## RESUMEN

El corangioma es el tumor benigno placentario más frecuente, con una incidencia del 0,01 al 1,3 % de las placentas examinadas. Cuando esta lesión mide más de 5 cm puede causar complicaciones materno-fetales. Se reporta un caso de un gran corangioma placentario asociado a una hemangiomatosis difusa en una recién nacida. La relación entre corangioma placentario y hemangiomas fetales se discute brevemente.

© 2010 SEAP y SEC. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

### Placental chorioangioma associated with diffuse neonatal hemangiomatosis

## ABSTRACT

Chorioangioma is the most frequent non trophoblastic tumour of the placenta with a incidence ranging from 0.01 to 1.3% of placentas examined. Lesions larger than 5 cm may cause foetal and maternal complications. We report a case of a large chorioangioma of the placenta associated with diffuse haemangiomatosis in a newborn female. The relationship between placental chorioangioma and haemangioma is discussed.

© 2010 SEAP and SEC. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

*Keywords:*

Chorioangioma

Infantile hemangioma

Placental tumour

### Introducción

El corangioma es el tumor benigno placentario más frecuente, ocurre aproximadamente en el 1% de las placentas examinadas. La mayoría de ellos son pequeños. Generalmente son hallazgos incidentales sin significado clínico<sup>1</sup>. En este caso presentamos una neoplasia vascular placentaria, el corangioma, coexistiendo con una hemangiomatosis difusa neonatal.

### Caso clínico

Neonato de sexo femenino producto de parto eutócico, de 36 semanas de gestación, hija de madre de 16 años de edad, con antecedentes familiares de anomalías vasculares cutáneas. Pesó al nacer 3.435 g, talla 48 cm y Apgar 8 al primer minuto y 9 a los 5 min.

Presentó al examen físico, maculas cutáneas de tamaño variable, de forma irregular de color violáceo, diseminadas en todo el cuerpo,

predominando en antebrazo izquierdo, axila derecha, dorso, tórax, abdomen, miembros inferiores y plantas de ambos pies (fig. 3). Al segundo día evidenció hepatomegalia e ictericia. La evolución fue torpida con insuficiencia cardiaca congestiva, falleciendo a los cinco días de nacida. La autopsia reveló lesiones hemangiomatosas en hígado, duodeno, pulmones, riñones, piel, timo, diafragma, músculo cardiaco, estomago y colon (figs. 4 y 5).

La placenta pesó 1.500 g y midió 25 × 20 × 3 cm. En reborde placentario se observó área bien delimitada de 8,4 × 5,4 × 2,6 cm de color rojo violáceo, (fig. 1) correspondiente a vasos dilatados tortuosos, congestivos cuyo diámetro alternó entre 2 y 9 mm. A la microscopía presentó patrón angiomasomático típico con numerosos vasos capilares e infartos focales (fig. 2). No se realizaron estudios de inmunohistoquímica con Glut -1. (Proteína transportadora de glucosa tipo eritrocitaria).

### Discusión

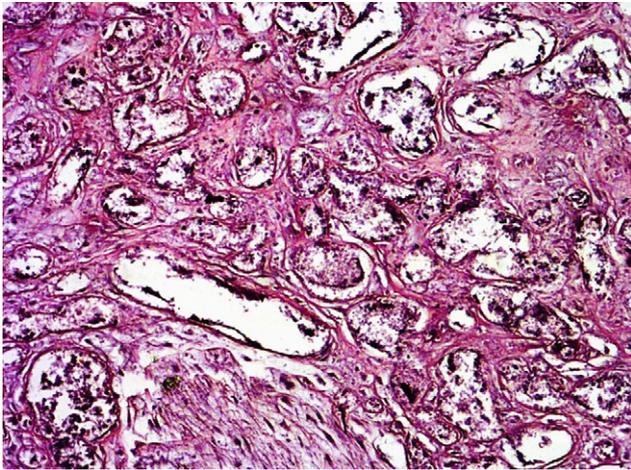
El corangioma generalmente no se asocia a complicaciones materno-fetales a menos que alcance un tamaño superior a 5 cm de diámetro, o que se encuentre cercano al sitio de inserción del cordón umbilical. Los tumores grandes pueden asociarse con

\* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: adribgonza@hotmail.com (A. Beatriz González).



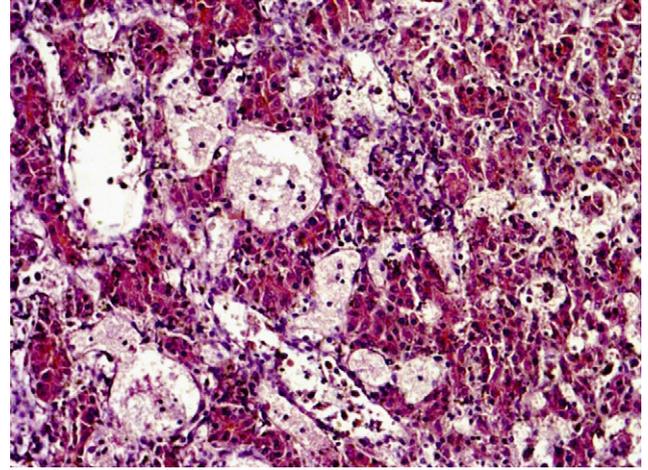
**Figura 1.** Corangioma placentario. Macroscopía. Masa bien circunscrita, de color rojizo, consistencia esponjosa que protruye hacia la cavidad amniótica.



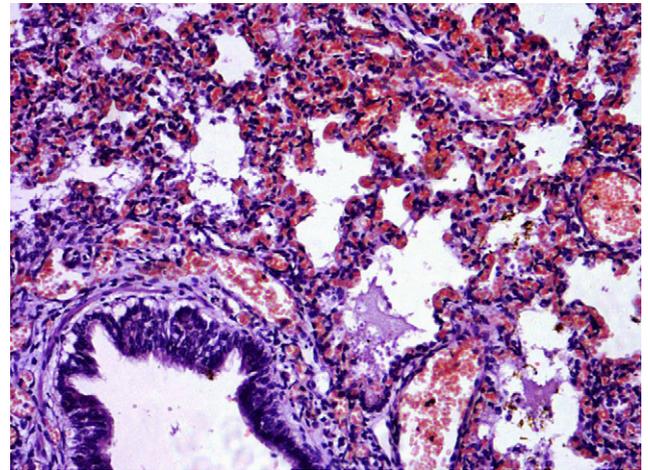
**Figura 2.** Corangioma placentario. Aspecto microscópico: numerosos capilares dilatados de diferentes calibres separados por estroma placentario.



**Figura 3.** Hemangiomatosis difusa neonatal: aspecto de las lesiones cutáneas.



**Figura 4.** Hemangiomatosis difusa neonatal: aspecto microscópico de las lesiones viscerales: múltiples espacios vasculares dilatados alternados con cordones hepatocitarios.



**Figura 5.** Hemangiomatosis difusa neonatal: aspecto microscópico de las lesiones viscerales: luces capilares de diversos tamaños de disposición peribronquial.

son edema, coagulopatía de consumo, anemia hemolítica, microangiopatía y angiomas de la piel<sup>5</sup>.

La hemangiomatosis neonatal difusa es un entidad caracterizada por lesiones dérmicas en cantidad variable, de tipo máculo papular, de color rojo cereza de forma redondeada y de superficie lisa. Puede presentar compromiso visceral (hígado, sistema nervioso central, tubo digestivo, pulmones, ojos, cavidad bucal y riñones) que en general presagia la evolución y pronóstico ominoso como en nuestro caso. Las principales causas de mortalidad son la insuficiencia cardíaca congestiva de alto gasto y el síndrome de Kasabach-Merritt, donde el fenómeno fisiopatológico primario consiste en atrapamiento de plaquetas dentro de la lesión vascular<sup>3-12</sup>. Se observó una predominancia de presentación de esta patología en neonatos de sexo femenino, como en nuestro caso. Se detectaron concentraciones altas de receptores para estrógenos en hemangiomas en proliferación, por lo que podría especularse una participación de efectos hormonales sobre el predominio de estas lesiones en niñas<sup>5</sup>.

La patogénesis de estos trastornos no está totalmente aclarada, una estrecha relación parece existir entre ellos<sup>11</sup>.

Debido a su aspecto morfológico se cree que los angiomas se originan en una proliferación excesiva de angioblastos indiferenciados (similares al mesénquima coriónico)<sup>3</sup>, dicha teoría se basa en la presencia de marcadores específicos demostrados por inmunohistoquímica expresados de forma conjunta en

hidramnios, hemorragias anteparto, o producir un cortocircuito arteriovenoso en la circulación fetal que conlleva a insuficiencia cardíaca congestiva y sus consecuencias<sup>2</sup>. Otras complicaciones

los hemangiomas neonatales y la microcirculación de la placenta. Otras teorías postulan la embolización de células de origen placentario y/o factores extrínsecos<sup>10</sup>. Se cree que la hipoxia es un importante moderador de la angiogénesis placentaria en varias especies. La capacidad de transportar oxígeno en la sangre arterial materna está reducida en la hipoxia hipobárica (grandes altitudes) así como en la hipoxia producto de anemia severa materna, pero en esta última la presión parcial de oxígeno se mantiene en niveles normales, mientras que la longitud de los capilares fetales dentro de las vellosidades intermedias y terminales se ven afectadas en la placenta expuesta a hipoxia hipobárica. Debido a la incidencia de corangiomas en embarazadas en grandes altitudes, la hipoxia hipobárica es el factor etiológico más probable y sus efectos pueden estar mediados a través de un incremento en la producción de factor de crecimiento angiogénico VEGF<sup>4</sup>. También la sobre expresión de VEGF se demostró en niños con hemangiomas en fase proliferativa<sup>6-9,13-14</sup>.

### Conclusión

Los hemangiomas probablemente son el final de la expresión de diferentes mecanismos fisiopatológicos que actúan de forma aislada o combinada.

El corangioma placentario es un tumor benigno pero cuando su tamaño es superior a 5 cm, puede causar complicaciones maternas y fetales. Su asociación con hemangiomatosis neonatal difusa (HND) es poco frecuente. La HND de aparición puramente cutánea tiene un excelente pronóstico (hemangiomatosis neonatal benigna) pero en aquellas con compromiso visceral y afección de múltiples sistemas, como en este caso, se relacionan con morbilidad y mortalidad altas en el neonato. Por ello es importante considerar su diagnóstico

temprano y difundir los signos clínicos para evitar complicaciones hematológicas y lograr la atención perinatal óptima.

### Bibliografía

1. Bakaris S, Karabiber H. Case of Large Placental Chorioangioma Associated with Diffuse Neonatal Hemangiomatosis. *Pediatr Dev Patol.* 2004;7:258-61.
2. Witters I, Van Damme M, Ramaekers P, Van Assche F, Fryns J. Benign multiple diffuse neonatal hemangiomatosis after a pregnancy complicated by polyhydramnios and a placental chorioangioma. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol.* 2003;106:83-5; 1992 Nov-Dec; 16(6):971-3.
3. Arabi Salas J. Hemangiomatosis neonatal difusa. Presentación de un caso y revisión de la literatura. *Rev mexicana de Pediatría Dic.* 2000;67:270-3.
4. Soma H. Chorangiomas and chorioangioma in three cohorts of placentas from Nepal, Tibet, and Japan. *Reprod Fertil Dev.* 1995;7:1533-8.
5. Kurman R. *Blaustein's Pathology of the female genital tract.* 5ª Edición. Baltimore, Maryland: Ed Springer. 2002; 23:1171-73.
6. Zhang L, Lin X, Wang W, Huang X, Dong J, Qi Z, et al. Circulating level of vascular endothelial growth in differentiating hemangioma from vascular malformation patients. *Plast Reconstr Surg.* 2005;116:200.
7. Baergen R. *Manual of Benirschke and Kaufmann's Pathology of the human placenta.* Ed. Springer; 2005.
8. Soto J. Pathology and pathogenesis of haemangiomas, vol. 27 (supl 1). *Anales Sis San Navarra. Pamplona;* 2004. 27(supl 1): ISSN 1137-6627.
9. Capelle X, Syrios P, Chantraine F, Rigo V, Schaaps JP, Kridelka F, et al. A rare case of placental chorioangioma associated with neonatal disseminated hemangiomatosis. *J Gynecol Obstet Biol Reprod (Paris).* 2009;38:246-9. Epub 2009 Mar 19.
10. Hoeger PH, Maerker JM, Kienast AK, Syed SB, Harper JL. Neonatal haemangiomatosis associated with placental chorioangiomas: report of three cases and review of the literature. *Clin Exp Dermatol.* 2009;34:e78-80.
11. Norte PE, Waner H, Mizeracki A, Mrak RE, Nicolás I, Kincannon J, et al. Un fenotipo único microvasculares compartida por los hemangiomas de menores y de placenta humana. *Arch Dermatol.* 2001;137:573-7.
12. Kara N, Smolinski, Yan Albert C. Yan Los hemangiomas de la infancia: clínica y biológica Charecteristiques. *Clin Pediatr (Phila).* 2005;44:747.
13. Bauland GC, Van Steensel MAM, Steijlen PM, Spauwen PHM. El paho-genesis de los hemangiomas : Una revisión. *Plast Surg Reconstr.* 2006;117:29-35.
14. Cvetanovski E, Palmgren Colovea N, Kahn R. Corangioma de la placenta asociado a hemangiomatosis múltiple benigna neonatal. *Acta obstetricia y Ginecología.* 2006;85:243-50.