

Un caso di mortalità materno-fetale da rottura di aneurisma splenico

P. GALLI¹, C. BELOSI², A. GIORDANO², A. PASQUETTI², U. PAPA³

RIASSUNTO: Un caso di mortalità materno-fetale da rottura di aneurisma splenico.

P. GALLI, C. BELOSI, A. GIORDANO, A. PASQUETTI, U. PAPA

Gli Autori riferiscono un caso clinico di rottura spontanea di un aneurisma sconosciuto dell'arteria splenica avvenuta in una seconda-para di 32 settimane e che ha causato la morte sia della madre che del feto. Gli Autori si domandano quale management sarebbe stato adottato se la paziente fosse giunta in osservazione all'inizio della sintomatologia anziché post mortem. Infine riportano schematicamente le condizioni chirurgiche e non chirurgiche causa di dolore addominale e di addome acuto che possono complicare la gravidanza e su cui il perinatologo e il consulente chirurgo sono chiamati a vigilare.

SUMMARY: A case of fetal-maternal death due to rupture of splenic artery aneurysm.

P. GALLI, C. BELOSI, A. GIORDANO, A. PASQUETTI, U. PAPA

The Authors report a case of spontaneous rupture of an unknown splenic artery aneurysm in a woman at 32 weeks of pregnancy which caused the death of both the mother and the fetus. The Authors wonder how the patient could have been managed if arrived in Hospital at the beginning of symptomatology rather than post mortem. At last the Authors remained to both perinatologists' and surgeons' attention all the conditions of surgical and not surgical abdominal pain and of acute abdominal emergencies which may complicate pregnancy.

KEY WORDS: Aneurisma splenico - Mortalità materno-fetale.
Splenic aneurysm - Fetal-maternal mortality.

Introduzione

La rottura in gravidanza di un aneurisma dell'arteria splenica è ritenuta una gravissima quanto rara complicazione (4, 7). Se la diagnosi e il trattamento sono tempestivi e se l'epoca gestazionale è precoce, la prognosi sembra caratterizzata da un buon esito sia materno che fetale (2); non altrettanto se la rottura dell'aneurisma avviene a gravidanza avanzata (5).

In generale, gli aneurismi delle arterie splancniche sono assai spesso asintomatici nel corso della loro evoluzione e costituiscono il più delle volte dei reperti occasionali in corso di indagini angiografiche o di TAC (3, 6, 9). Un aneurisma splancnico è considerato a rischio di rottura se il suo diametro supera i 2 cm, se ha una etiologia infettiva, se ha una sede diversa da quella splenica e se si verifica in una donna giovane.

In particolare, l'aneurisma dell'arteria splenica costituisce il 60% degli aneurismi delle arterie viscerali, è un reperto occasionale nello 0,78% delle arteriografie e si riscontra in misura variabile tra lo 0,1 e il 10,4% dei reperti autoptici. È quattro volte più frequente nella donna e si manifesta generalmente nella sesta decade di vita con un limitato rischio di rottura (2%) che può invece diventare straordinariamente elevato (90-95%) quando compare nelle donne in età fertile e per di più in gravidanza (8, 10, 11). In caso di rottura in gravidanza la mortalità materna raggiunge il 70% e la mortalità fetale il 95% (5). Ne consegue che l'aneurisma splenico impone l'indicazione chirurgica se, seppure asintomatico, è diagnosticato in età giovane, i segni di espansione sono evidenti e la dimensione supera i 2 cm, oppure nei casi in cui è presente sintomatologia.

L'etiologia più frequente, sebbene non sempre determinata, è la displasia per degenerazione delle fibre elastiche della tunica media, la perdita di consistenza della muscolatura liscia vasale e l'aterosclerosi. Gli aneurismi dell'arteria splenica sono più frequenti nel-

¹ Consulente Ostetrico Ginecologo della APSS - Trento

² Dirigente Medico U.O. Ost. Gin., Ospedale di Tione (TN)

³ Direttore U.O. di Chirurgia Generale, Ospedale di Tione (TN)

© Copyright 2006, CIC Edizioni Internazionali, Roma

le pazienti con anamnesi positiva per fibrodisplasia, gravidanze multiple, ipertensione portale, splenomegalia e trapianto epatico. In particolare, il ruolo etiopatogenetico delle gravidanze multiple consiste nell'aumento del flusso ematico splenico.

Nella maggior parte dei casi gli aneurismi splenici sono asintomatici venendo identificati casualmente in corso di accertamenti per altre patologie. Il riscontro radiologico di una calcificazione curvilinea o a forma di anello che si proietta nei quadranti alti di sinistra dell'addome impone una arteriografia che costituisce l'esame di prima scelta.

In linea generale, solo il 20% dei pazienti affetti presenta sintomi (dolore in epigastrio o in ipocondrio sinistro). Al contrario la rottura determina un dolore addominale improvviso e violento associato ben presto ad un quadro di shock ipovolemico. Inizialmente l'emorragia può essere confinata al retroperitoneo e tamponata nella retrocavità con possibilità di una temporanea stabilizzazione clinica che costituisce l'intervallo temporale per l'intervento chirurgico. Successivamente l'emorragia può estendersi e determinare emoperitoneo attraverso il forame di Winslow o la rottura della *pars flaccida* e quindi invadere il peritoneo libero. Raramente l'aneurisma dell'arteria splenica produce per erosione un'emorragia all'interno di visceri cavi adiacenti e la formazione di una fistola artero-venosa con la vena splenica.

Il trattamento prevede varie opzioni: dalla resezione dell'aneurisma alla semplice legatura dell'arteria; dall'embolizzazione alla splenectomia.

Caso clinico

La signora C. Tamara di anni 32, cartella Anestesiologica n. 306/06, secondipara terzigravida di 32 settimane giunge presso l'ospedale di Tione di Trento alle 19,25 di mercoledì 8 marzo 2006 già deceduta.

Dalla ricostruzione *a posteriori* degli eventi risulta che nel pomeriggio di quel giorno la signora, intenta nell'allestire i preparativi per la festa di compleanno del figlio primogenito, accusasse poco dopo le ore 18 un improvviso dolore terebrante epi-mesogastrico con malessere generale e dispnea. Costretta ad un breve riposo sembrò poco dopo riprendersi: ciò nonostante fu chiamato il medico di famiglia che constatò al suo arrivo uno stato ipotensivo caratterizzato da subentranti episodi lipotimici. Allertato immediatamente il 118, all'arrivo dell'autoambulanza attrezzata la paziente era in stato di shock ipovolemico e ogni provvedimento adottato in corso di trasporto risultò vano. Dopo 36 minuti dall'allertamento del 118 e la percorrenza di 32 km di montagna la paziente giunge al P.S. dell'ospedale di Tione di Trento essendo già deceduta da 15 mi-

nuti, come comunicato via radio. Ciononostante, per decisione dell'équipe operatoria di guardia, la paziente viene immediatamente portata in sala operatoria (già allertata alla chiamata del 118) dove viene eseguito un taglio cesareo (etimologicamente "post mortem") che inizia alle 19,28. La laparotomia da esito ad una profusa fuoriuscita di sangue libero in cavità addominale mentre la situazione endouterina appare normale salvo essere il feto premorto e non reattivo ad alcuna manovra rianimatoria, analogamente alla madre. Seppure in corso di intervento l'équipe presuma che la profusa emorragia endo-addominale abbia origine da un grosso vaso, viene omessa qualsiasi manovra diversa dal taglio cesareo rimandando cioè la diagnosi all'esame autoptico.

L'autopsia evidenzierà la rottura di un aneurisma splenico peraltro asintomatico e sconosciuto prima degli eventi.

Commento

Appare presumibile ritenere che l'iniziale malessere avvertito circa alle ore 18 sia coinciso con il primo tempo della rottura aneurismatica ovvero con la fissurazione e un'iniziale probabile contenuta emorragia retro-peritoneale. Al mancato tempestivo accesso al pronto soccorso e alla continuazione dell'attività parentale ha poi fatto seguito l'emorragia endo-addominale massiva che in breve tempo ha portato allo shock ipovolemico e al decesso. Nonostante la paziente, raccolta dal 118 già in stato di incoscienza, fosse deceduta come comunicato via radio quindici minuti prima dell'arrivo al pronto soccorso, la decisione di eseguire il taglio cesareo *post mortem* seppure apparentemente irrazionale e certamente inutile fu presa per assolvere, invece, alla razionale decisione di non voler lasciare alcunché di intentato agli occhi dei familiari.

Il caso clinico, per come è evoluto, appare connotarsi come a prognosi e ad esito ineluttabilmente infastiti. Ciononostante, data la rilevanza dell'evento, ci si è posti il quesito "a quale *management* la paziente sarebbe potuta venir sottoposta nell'ipotesi si fosse presentata in ospedale agli esordi della sintomatologia anziché esservi portata già deceduta".

Sebbene riteniamo che difficilmente si sarebbe potuta porre una esatta diagnosi preoperatoria salvo quella generica di una emorragia interna di n.d.d., presumiamo che un cesareo d'emergenza sarebbe stato eseguito a seguito del rapido, progressivo e grave contemporaneo scadimento delle condizioni sia materne che fetali: ciononostante non abbiamo la certezza che ciò avrebbe consentito un buon esito del caso clinico. Infatti, se la paziente fosse giunta all'esordio della sintomatologia, dobbiamo immaginare che

per effetto dello stato gravidico avanzato sarebbe stata avviata dal pronto soccorso direttamente al reparto ostetrico e, presumiamo ulteriormente, l'allertamento del chirurgo sarebbe probabilmente stato contestuale al rapido peggioramento del quadro clinico materno così come l'allertamento della sala operatoria per un cesareo d'emergenza in madre in stato di anemizzazione grave da causa indeterminata e grave sofferenza fetale ipossica.

Nel caso in questione la sala operatoria fu allestita già all'allertamento del 118 in quanto fu detto trattarsi di gravida a termine e il personale di sala era presente in servizio. Ci si chiede, diversamente, come il caso clinico sarebbe potuto evolvere su entrambi i fronti, materno e fetale, se la paziente fosse giunta ancora viva ma in un giorno festivo o in una fascia oraria (tra le 20 e le 7) di un giorno feriale in cui il personale di sala operatoria sia reperibile. Per di più ci appare ragionevole ritenere che il provvedimento terapeutico, idoneo a trattare la rottura dell'aneurisma splenico avrebbe fatto seguito alla conclusione del taglio cesareo o, nella migliore delle ipotesi, sarebbe potuto essere stato ad esso contestuale in caso di incisione ombelico-pubblica allungata in xifo-pubblica o in caso di incisione a T qualora fosse stata eseguita una, peraltro improbabile data l'emergenza, incisione secondo Pfannenstiel.

In pratica, nutriamo qualche dubbio sulla possibilità di un buon esito congiuntamente materno e fetale del caso clinico in questione con ciò volendo porre l'attenzione sulla consuetudine propria degli ospedali periferici in cui di notte e nei giorni festivi, anche se limitatamente ad alcune fasce orarie a secondo dei luoghi, la sala operatoria si attiva su chiamata del personale preposto che è reperibile.

Discussione

Data la rilevanza clinica del caso in questione, riteniamo utile e doveroso rammentare sia al medico Ostetrico che al Chirurgo le condizioni (chirurgiche e non chirurgiche) di dolore addominale e di addome acuto che possono complicare la gravidanza e sulle quali sia il perinatologo che il chirurgo sono tenuti a vigilare tanto più perché di raro riscontro in donne per lo più giovani e come tali generalmente ritenute sane.

Con il termine di addome acuto si indica un quadro clinico caratterizzato dalla presenza di un dolore addominale acuto. Il termine dolore addominale acuto indica un dolore non diagnosticato in precedenza, che insorge all'improvviso e che perdura da meno di sette giorni, generalmente meno di 48 ore. L'interpretazione del dolore rimane un momento centrale dell'azione diagnostica (1).

Le condizioni patologiche che si esprimono con un addome acuto sono numerose e, nonostante l'affinamento delle procedure diagnostiche, possono rappresentare una difficile prova anche per il chirurgo più esperto. Nonostante alcune condizioni di addome acuto possano risolversi favorevolmente dopo un periodo di osservazione o dopo un trattamento medico, nella maggior parte dei casi sarà necessario ricorrere ad un intervento chirurgico urgente. Addome acuto significa infatti una situazione di emergenza in cui la precocità, o tempestività, della diagnosi costituisce la condizione fondamentale per il successo terapeutico.

La Tabella 1 riporta le cause principali di dolore addominale acuto non ginecologico prevalente in fossa iliaca destra e sinistra.

TABELLA 1 - DOLORE ADDOMINALE ACUTO NON GINECOLOGICO PREVALENTE IN FOSSA ILIACA.

DESTRA	SINISTRA
APPENDICITE ACUTA	DIVERTICOLITE: la perforazione può indurre
– quadro classico	– peridiverticolite circoscritta
– appendice retrocecale	– peritonite saccata
– appendice pelvica	– peritonite diffusa
LINFADENITE MESENTERICA ACUTA	– segni associati di occlusione intestinale
ILEITE ACUTA E ILEITE TERMINALE DI CROHN	NEOPLASIA DEL SIGMA
TUMORI ILEO-CECALI	(complicata da perforazione coperta)
OCCLUSIONI DEL COLON SINISTRO	COLITE INFETTIVA DA ANTIBIOTICI,
(con distensione del cieco)	ISCHEMICA, ULCEROSA
DIVERTICOLITE DI MECKEL	VOLVOLO DEL SIGMA
(spesso dolore mesogastrico, ma anche in fossa iliaca destra)	
ULCERA GASTRICA E DUODENALE PERFORATA	
(con raccolta di liquidi in fossa iliaca destra)	
DIVERTICOLITE	
COLICA URETERALE DESTRA	

La Tabella 2 riporta le cause principali di dolore addominale acuto non ginecologico in epimesogastrio.

La Tabella 3 riporta le cause di dolore addominale acuto non ginecologico prevalente in ipocondrio destro e sinistro.

La Tabella 4 riporta le cause di dolore addominale acuto non ginecologico in ipogastrio.

TABELLA 2 - DOLORE ADDOMINALE ACUTO IN EPI-MESOGASTRIO.

ULCERA GASTRO-DUODENALE – ulcera non complicata – ulcera perforata PANCREATITE ACUTA INFARTO INTESTINALE STRANGOLAMENTO DI ANSA (invaginazione, volvolo, briglia, ernia) ANEURISMA DELL'AORTA ADDOMINALE ENTEROCOLITI ACUTE PATOLOGIA NON ADDOMINALE (infarto miocardico postero-inferiore)

La Tabella 5 riporta le cause di dolore addominale non ginecologico diffuso.

Conclusioni

Prendendo spunto dal *reportage* di un caso clinico di mortalità materno fetale da rottura di un aneurisma sconosciuto dell'arteria splenica (che di per sé costituisce l'inconfutabile prova sia della condizione di intrinseco rischio insito nello stato stesso di gravidanza, che della incomprimibilità della mortalità materna e materno-fetale oltre certi limiti) abbiamo ritenuto utile, in proposito:

- 1) rammentare al perinatologo le condizioni chirurgiche addominali non ginecologiche (e non chirurgiche extra-addominali) di dolore addominale acuto e di addome acuto che possono insorgere in gravidanza e complicarla, talora in maniera persino letale sebbene talora del tutto insospettabili e pertanto ignote;
- 2) enfatizzare al chirurgo sia le diversità rispetto alla norma che lo stato gravidico comporta relativamente

TABELLA 3 - DOLORE ADDOMINALE ACUTO NON GINECOLOGICO IN IPOCONDRIO.

SINISTRO	DESTRO
DOLORE DA DISTENSIONE ACUTA DELLA CAPSULA SPLENICA – splenomegalia ad insorgenza rapida – ascesso splenico – rottura spontanea in uno o due tempi INFARTO SPLENICO ANEURISMA DELL'ARTERIA SPLENICA PANCREATITE ACUTA (a prevalente localizzazione caudale) TUMORE DELL'ANGOLO COLICO SINISTRO TUMORE DEL RENE O SURRENE SINISTRO PATOLOGIA NON ADDOMINALE (infarto miocardico postero-inferiore)	CALCOLOSI DELLA COLECISTI COLECISTITE COLANGITE CISTI EPATICHE ROTTURA EPATICA CANCRO FLESSURA DESTRA DEL COLON PATOLOGIE NON ADDOMINALI (infarto miocardico postero-inferiore; focolaio polmonare basale)

TABELLA 4 - DOLORE ADDOMINALE ACUTO NON GINECOLOGICO IPOGASTRICO.

RITENZIONE VESCICALE ACUTA CISTITE CALCOLOSI VESCICALE TUMORI VESCICALI
--

al decorso di talune patologie chirurgiche, sia, e soprattutto, la diversità di approccio psicologico e comportamentale che le pazienti e i loro familiari riservano a qualsiasi evento che accada in corso di gravidanza e che possono indifferentemente affrontare con spropositata enfasi o trascurare con assoluta indifferenza.

TABELLA 5 - DOLORE ADDOMINALE ACUTO NON GINECOLOGICO DIFFUSO.

OCCLUSIONE INTESTINALE

- Dolore viscerale di tipo iperperistaltico con andamento a poussées
- silenzio addominale, rumori metallici
- Alvo chiuso a feci e gas
- Nausea e vomito di tipo occlusivo (enterico o fecaloide)

COLON IRRITABILE

ENTEROCOLITI INFETTIVE, ISCHEMICHE, TOSSICHE

ILEO PARALITICO RIFLESSO, DA FARMACI, DA SQUILIBRIO IDRO-ELETTROLITICO

PATOLOGIA SISTEMICA O EXTRA-ADDOMINALE CONDIZIONANTE QUADRI

CLINICI DI FALSO ADDOME ACUTO

(intossicazioni da piombo, abuso di oppiacei, porfiria acuta, acidosi diabetica, ecc.)

NEURALGIE RADICOLARI ADDOMINO-VISCERALI

Bibliografia

1. *Addome acuto*: <http://www.cdu.dc.med.unipi.it/emet/DAD-DACUT.htm>
2. CAILLOUETTE I.C., MERCHANT E.B.: *Ruptured splenic artery aneurysm in pregnancy*. Am. J. Obstet. Gynecol., 168, 1810-1813, 1993.
3. DETERLING R.A.: *Aneurysms of visceral arteries*. J. Cardiovasc. Surg., 12, 309, 1971.
4. HERBECK M., HORBACH T., PUTZENLECHNER C., KLEIN P., LANG W.: *Ruptured splenic artery aneurysm during pregnancy: a rare case with both maternal and fetal survival*. Am. J. Obstet. Gynecol., 181, 763-764, 1999.
5. HILLEMANN P., KNITZA J., MULLER HOCKER.: *Rupture of splenic artery aneurysm in a pregnant patient with portal hypertension*. Am. J. Obstet. Gynecol., 174, 1665-1666, 1996.
6. JORGENSEN B.A.: *Visceral artery aneurysms: a review*. Dan. Med. Bull, 32, 237, 1985.
7. LOSA G., POLIZZOTTI G., BENFATTI M., CUNEO P., BIRAGHI P.: *Spontaneous rupture of splenic artery aneurysm during pregnancy: a case report*. It. J. Gynaecol. Obstet., 17, 118-119, 2005.
8. O'GRADY J.P., DAY B.J. et al.: *Splenic artery aneurysm rupture in pregnancy. A review and case report*. Obstet. Gynecol., 50, 627, 1977.
9. STANLEY J.C., THOMPSON N.W., FRY W.C.: *Splanchnic artery aneurysms*. Arch. Surg, 101, 689, 1970.
10. STANLEY J.C., FRY W.J.: *Pathogenesis and clinical significance of splenic artery aneurysms*. Surg. 76, 898, 1974.
11. TROSTÉCK V.F., PAIROLERO P.L.: *Splenic artery aneurysms*. Surg. 91, 694, 1982.