Caso clínico
Ginecol Obstet Mex 2023; 91 (8): 615-620.

https://doi.org/10.24245/gom.v91i8.7320

Endometriosis pleuropulmonar y neumotórax catamenial asociado: reporte de caso

Pleuropulmonary endometriosis and associated catamenial pneumothorax: A case report.

Marcos Fidel Castillo Zamora,[1] Rodrigo Cuevas Marín,[1] Olga Isabel Restrepo Castro,[1] Valeria Roncarati Cannazzaro,[2] Estefany Maria Salas Danies,[3] Natalia Trujillo Ángel[3]

Resumen

ANTECEDENTES: El tórax es la localización extrapélvica más frecuente de la endometriosis; esto sin que su incidencia se haya determinado con estudios suficientes. Tampoco se ha establecido del todo su fisiopatología, pero aun así se han planteado diversas teorías. El neumotórax catamenial es una de las posibles manifestaciones que hacen complejo establecer el diagnóstico e indicar un tratamiento.

CASO CLÍNICO: Paciente de 31 años, con antecedente de neumotórax espontáneo a repetición, que acudió a consulta debido a disnea y dolor torácico de un mes de evolución. La radiografía de tórax evidenció el neumotórax del 50% en la parte derecha y la necesidad de la toracostomía. Puesto que los episodios de neumotórax ocurrían en fase catamenial, pero sin poder establecer una causa clara del cuadro clínico, se procedió a la toracoscopia diagnóstica con toma de muestra para estudio histopatológico. Durante el procedimiento se detectaron múltiples lesiones pseudonodulares, de aspecto inflamatorio crónico a nivel pleural y del parénquima pulmonar. El reporte histopatológico fue compatible con endometriosis pleuropulmonar; se le indicó terapia hormonal. Ante la evolución clínica satisfactoria y posoperatorio sin complicaciones la paciente fue dada de alta del hospital.

CONCLUSIÓN: El neumotórax catamenial, como consecuencia de una endometriosis pleuropulmonar, es un diagnóstico realmente excepcional y su sospecha debe vincularse con el ciclo menstrual. La atención médica de las pacientes con este diagnóstico debe ser interdisciplinaria, no solo por las estrategias diagnósticas sino por la complejidad del tratamiento y su seguimiento. El tratamiento de elección suele requerir intervenciones quirúrgicas, sumadas a la indicación de la medicación hormonal para prevenir recurrencias, con tasas de éxito favorables. Están pendientes los estudios que establezcan la respuesta del tejido endometrial ectópico torácico al tratamiento médico.

PALABRAS CLAVE: Endometriosis; tórax; neumotórax catamenial; toracoscopia; incidencia; menstruación.

Abstract

BACKGROUND: The thorax is the most frequent extrapelvic location of endometriosis, although its incidence has not been sufficiently studied. Its pathophysiology has not been fully established, but several theories have been put forward. Catamenial pneumothorax is one of the possible manifestations that make it difficult to establish the diagnosis and indicate treatment.

CLINICAL CASE: A 31-year-old female patient, with a history of repeated spontaneous pneumothorax, presented for consultation due to dyspnea and chest pain of one month of evolution. Chest X-ray showed a 50% pneumothorax on the right side and the need for thoracostomy. Since the episodes of pneumothorax occurred in catamenial phase,

[1] Especialista en Ginecología y Obstetricia.
[2] Residente de segundo año de Ginecología y Obstetricia.
[3] Estudiante de Medicina.
Departamento de Ginecología y Obstetricia, Universidad de La Sabana, Chía, Colombia.

Recibido: enero 2022
Aceptado: enero 2023

Correspondencia
Estefany Maria Salas Danies
stephaniesalasd02@gmail.com

Este artículo debe citarse como:
Castillo-Zamora MF, Cuevas-Marín R, Restrepo-Castro OI, Roncarati-Cannazzaro V, Salas-Danies EM, Trujillo-Ángel N. Endometriosis pleuropulmonar y neumotórax catamenial asociado: reporte de caso. Ginecol Obstet Mex 2023; 91 (8): 615-620.

but without being able to establish a clear cause of the clinical picture, diagnostic thoracoscopy with sampling for histopathological study was performed. During the procedure multiple pseudonodular lesions of chronic inflammatory aspect were detected at pleural and lung parenchyma level. The histopathological report was compatible with pleuropulmonary endometriosis; hormonal therapy was indicated. Given the satisfactory clinical evolution and postoperative course without complications, the patient was discharged from the hospital.

CONCLUSION: Catamenial pneumothorax, as a consequence of pleuropulmonary endometriosis, is a truly exceptional diagnosis and its suspicion should be linked to the menstrual cycle. The medical care of patients with this diagnosis should be interdisciplinary, not only because of the diagnostic strategies but also because of the complexity of the treatment and its follow-up. The treatment of choice usually requires surgical interventions, added to the indication of hormonal medication to prevent recurrences, with favorable success rates. Studies establishing the response of thoracic ectopic endometrial tissue to medical treatment are pending.

KEYWORDS: Endometriosis; Thorax; Catamenial pneumothorax; Thoracoscopy; Thoracostomy; Incidence; Menstruation.

ANTECEDENTES

La endometriosis es la coexistencia de tejido endometrial fuera del útero.[1] Esta afectación se localiza, las más de las veces, en la pelvis, aunque puede encontrarse en otros sitios: el abdomen, tórax, piel y cerebro. La endometriosis torácica es la localización extrapélvica más frecuente, aunque se desconoce su incidencia; quizá por ello se subdiagnostica.[2]

Está registrado que del 50 al 84% de las pacientes con diagnóstico de endometriosis torácica tienen asociada la endometriosis pélvica.[3] En verdad que hoy en día no está clara su fisiopatología pues se han descrito una serie de teorías que incluyen: menstruación retrógrada, diseminación metastásica del tejido endometrial y metaplasia celómica, que podrían explicar la enfermedad.[4]

El neumotórax catamenial, descrito por primera vez en 1958 por Maurer y colaboradores,[5] es una de las posibles manifestaciones de la endometriosis torácica, con una incidencia del 5.6%.[6] Esta localización puede representar un reto diagnóstico y terapéutico para el médico.[7]

Enseguida se expone el caso de una paciente con neumotórax espontáneo a repetición relacionado con la menstruación.

CASO CLÍNICO

Paciente de 31 años, con antecedente de neumotórax espontáneo a repetición que acudió a consulta debido a un cuadro de un mes de evolución, consistente en disnea y dolor torácico tipo opresivo no irradiado, de intensidad moderada. Entre sus antecedentes quirúrgicos refirió dos toracostomías practicadas en un hospital de segundo nivel, durante los episodios previos de neumotórax.

A su ingreso al hospital se encontró con cifras tensionales en 163-100 mmHg, frecuencia cardiaca de 119 lpm, frecuencia respiratoria de 20 rpm,

https://doi.org/10.24245/gom.v91i8.7320

saturación de oxígeno de 88% al aire ambiente. Durante la auscultación cardiopulmonar se detectaron ruidos cardiacos rítmicos, taquicárdicos e hipoventilación basal derecha. Inicialmente se consideraron relacionados con el posoperatorio de la toracostomía extrainstitucional y, conforme a los síntomas respiratorios y en el contexto de la pandemia, se sospechó infección por SARS-CoV-2, por lo que se solicitaron estudios paraclínicos y el aislamiento respiratorio.

El hemograma se reportó con 10,400 leucocitos, 71% de neutrófilos, 15.3 g/dL de hemoglobina, hematocrito de 46%, 344,000 plaquetas, 203.37 ng/mL de ferritina, 0.180 pg/mL de troponina I, 1.36 ng/mL de dímero D, 229 U/L de LDH, 0.7 mg/dL de creatinina, 9 mg/dL de nitrógeno ureico, 0.2 mg/dL de bilirrubina total, 0.1mg/dL de bilirrubina directa, 12.6 segundos de tiempo de protrombina.

En la radiografía de tórax se evidenció el neumotórax derecho, de aproximadamente 50%, con colapso parcial del parénquima adyacente y neumotórax izquierdo de alrededor del 10%. El cirujano general y el neumólogo consideraron que la paciente era apta para una toracostomía derecha. Para esto se insertó de tubo de 28 Fr, sin complicaciones. El reporte de PCR en tiempo real fue negativo para SARS-CoV-2. La tomografía de tórax no mostró opacidades que sugirieran neumonía viral; por esto se suspendió el aislamiento preventivo.

En la tomografía de tórax se identificaron cambios enfisematosos marcados en el pulmón izquierdo, sugerentes de síndrome de Swyer James en comparación con una linfangioleiomiomatosis, sin tener un antecedente claro de infecciones respiratorias tempranas. Ante esta situación se solicitó un perfil autoinmunitario, que se reportó negativo.

Ante la poca claridad del neumotórax, el caso se discutió con los neumólogos, sobre todo la impresión diagnóstica de neumotórax a repetición que ocurrían en fase catamenial, con afectación parenquimatosa, de tipo enfisematoso. Se procedió a la cuantificación de las concentraciones de alfa-1 antitripsina y a la búsqueda de daño extrapulmonar mediante ecografía renal y de vías urinarias. Los reportes se encontraron en límites normales. Por lo anterior, en conjunto con los médicos de Cirugía general, se practicó una toracoscopia diagnóstica derecha, con toma de muestra para el estudio histopatológico. Hasta ese momento la paciente había evolucionado favorablemente, con estabilidad hemodinámica, tensión arterial normal, con profilaxis para trombos, oxígeno suplementario a bajo flujo y toracostomía derecha funcional.

Se practicó la toracoscopia con pleurectomía y pleurodesis química. Entre los hallazgos intraoperatorios destacaron: la afectación pleuropulmonar, por múltiples lesiones pseudonodulares de aspecto inflamatorio crónico. Se tomaron muestras de la pleura parietal y del segmento medial del lóbulo medio derecho y se enviaron al servicio de Patología para su análisis. El desenlace intra y posoperatorio fue adecuado.

El reporte de Patología fue: parénquima pulmonar con infiltrado inflamatorio crónico subpleural, estroma y glándulas de tipo endometrial, con hemorragia antigua, fibrosis y colecciones de hemosiderófagos que también afectaban la pleura parietal. Estos hallazgos histopatológicos fueron compatibles con endometriosis pleuropulmonar.

La paciente fue valorada por los médicos del servicio de Ginecología, sin hallazgos de importancia en el examen físico genitourinario. Con base en lo anterior se indicaron: 2 mg al día de dienogest, como terapia hormonal. La paciente evolucionó de manera satisfactoria, sin nuevos episodios de neumotórax, ni deterioro del patrón respiratorio por lo que fue dada de alta del hospital para continuar el seguimiento integral en la consulta externa.

DISCUSIÓN

La endometriosis torácica puede afectar la pleura, el parénquima, el diafragma y los bronquios. Se han propuesto una serie de teorías en relación con el origen de la endometriosis aunque casi todas han sido puestas en duda. La teoría de Sampson se refiere al autotransplante mediante la menstruación retrógrada, por las trompas de Falopio donde asciende hacia la cavidad peritoneal y torácica.[8]

La diseminación metastásica del tejido endometrial, a través del sistema venoso o linfático, apoya la idea de que se encuentren focos de este tejido en sitios distantes al lugar de origen.[9] Otra teoría de la metaplasia celómica es la transformación de células pluripotentes en el tejido endometrial.[8] Para apoyar esta última teoría, en el 2010, la Sociedad Norteamericana de Ginecología Pediátrica y Adolescente publicó el caso de una paciente con síndrome de Rokitansky en quien se confirmaron: la agenesia uterina, cervical, vaginal y tubárica con endometriosis en el fondo de saco posterior, con confirmación histopatológica.[10]

En una revisión de endometriosis torácica de 110 pacientes (2010), basada en la asociación de los datos clínicos y de la afectación torácica, según los hallazgos de la toracoscopia, se encontró que la endometriosis torácica predominaba en el hemitórax derecho en un 85% de las pacientes.[11] Este hallazgo genera incertidumbre porque sería de esperar que la enfermedad tuviera una distribución bilateral, conforme a los mecanismos fisiopatológicos planteados.

En la bibliografía está descrito que los implantes endometriales en el diafragma, pleura o parénquima pulmonar podrían desprenderse durante la menstruación y originar un neumotórax debido a la fuga de aire hacia el espacio pleural.[6] Además, durante la menstruación puede haber concentraciones elevadas de prostaglandina F2 que llevan a un estado de vasoespasmo, con posterior proceso isquémico y ruptura de los alvéolos.[12]

La manifestación más común de la endometriosis torácica es el neumotórax catamenial en un 70 a 73% de los casos.[11] Los síntomas aparecen alrededor de las 72 horas posteriores al inicio de la menstruación y se caracterizan por dolor torácico o escapular, tos y disnea.[13] Otras manifestaciones clínicas pueden incluir: hemotórax en un 14% y hemoptisis en un 7% de las pacientes.[6]

Ante la sospecha de endometriosis torácica deberá tomarse una radiografía de tórax a manera de estudio inicial, en la que pueden encontrarse: neumotórax, nódulos pulmonares o derrames pleurales.[13] La tomografía computada de tórax puede ayudar a identificar opacidades en vidrio esmerilado, bulas y lesiones nodulares aunque, valga resaltar, que estos hallazgos pueden ser de carácter transitorio.[14]

El tratamiento del neumotórax catamenial consiste en el control del cuadro agudo mediante la toracostomía con drenaje cerrado.[15] Si el cuadro es recurrente podrá considerarse la pleurodesis química y pleurectomía por cirugía toracoscópica asistida por video, además de localización y ablación de focos endometriósicos.[9]

El tratamiento quirúrgico debe ir acompañado de terapia de supresión hormonal coadyuvante, con la indicación de diferentes fármacos: agonistas de la hormona liberadora de gonadotropinas (GnRH), anticonceptivos orales, dienogest y danazol.[16] La finalidad es disminuir la producción de estrógenos que, a su vez, lleva a la degradación e inactivación de los implantes de tejido endometrial.[13] Sin embargo, la elección del medicamento dependerá del contexto de la paciente y los posibles efectos secundarios.

https://doi.org/10.24245/gom.v91i8.7320

En un estudio retrospectivo con 25 pacientes con síndrome de endometriosis torácica, publicado en el 2018, se indicó terapia hormonal para controlar el neumotórax catamenial y se encontró que los anticonceptivos orales continuos y el dienogest eran el tratamiento óptimo en cuanto a efectividad, efectos adversos y posibilidad de control a largo plazo. Las tasas de recurrencia fueron de 18% para los anticonceptivos orales continuos, 33.3% para los anticonceptivos orales cíclicos, 16.7% para el dienogest y 0% con agonistas de GnRH.[17]

Si bien es cierto que el tratamiento hormonal de la endometriosis torácica se basa en los mismos principios que el de la endometriosis pélvica, se ha visto que los agonistas de GnRH se consideran el tratamiento de elección al momento de prevenir la recurrencia del neumotórax catamenial cuando se indican por lo menos durante un año.[16] Sin duda que aún se requieren más estudios que permitan determinar cuál es el tratamiento hormonal óptimo de la endometriosis torácica y su respuesta en comparación con la endometriosis pélvica.

CONCLUSIÓN

El neumotórax catamenial, como consecuencia de una endometriosis pleuropulmonar, es un diagnóstico realmente excepcional y su sospecha debe vincularse con el ciclo menstrual. La atención médica de las pacientes con este diagnóstico debe ser interdisciplinaria, no solo por las estrategias diagnósticas sino por la complejidad del tratamiento y su seguimiento. El tratamiento de elección suele requerir intervenciones quirúrgicas, sumadas a la indicación de la medicación hormonal para prevenir recurrencias, con tasas de éxito favorables. Están pendientes los estudios que establezcan la respuesta del tejido endometrial ectópico torácico al tratamiento médico.

REFERENCIAS

1. Zondervan K, Becker C, Missmer S, et al. Endometriosis, Review Article. N Engl J Med 2020; 382 (1244): 56. https://doi.org/10.1056/NEJMra1810764
2. Guo SW, Wang Y. The prevalence of endometriosis in women with chronic pelvic pain. Gynecol Obstet Invest 2006; 62 (3): 121-30. https://doi.org/10.1159/000093019
3. Korom S, Canyurt H, Missbach A, et al. Catamenial pneumothorax revisited: Clinical approach and systematic review of the literature. J Thorac Cardiovasc Surg 2004; 128 (4): 502-508. https://doi.org/10.1016/j.jtcvs.2004.04.039
4. Czyzyk A, Podfigurna A, Szeliga A, Meczekalski B. Update on endometriosis pathogenesis. Minerva Ginecol 2017; 69 (5): 447-61. https://doi.org/10.23736/S0026-4784.17.04048-5
5. Maurer E, Schaal J, Mendez F. Chronic recurring spontaneous pneumothorax due to endometriosis of the diaphragm. J Am Med Assoc 1958; 168 (15): 2013-14. https://doi.org/10.1001/jama.1958.63000150008012c
6. Velásquez M, Velásquez ME. Neumotórax catamenial. Rev Colomb Cirugía 2015; 48 (2): 128-29. https://doi.org/10.30944/issn.2011-7582
7. Rousset C, Alifano M, Plu-Bureau G, et al. Catamenial pneumothorax and endometriosis-related pneumothorax: Clinical features and risk factors. Hum Reprod 2011; 26 (9): 2322-329. https://doi.org/10.1093/humrep/der189
8. Vinatier D, Orazi G, Cosson M, Dufour P. Theories of endometriosis. Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol 2001; 96 (1): 21-34. https://doi.org/10.1016/s0301-2115(00)00405-x
9. Visouli A, Darwiche K, Mpakas A, et al. Catamenial pneumothorax: A rare entity? Report of 5 cases and review of the literature. J Thorac Dis 2012; 4: 17-31. https://doi.org/10.3978/j.issn.2072-1439.2012.s006
10. Mok-Lin E, Wolfberg A, Hollinquist H, et al. Endometriosis in a Patient with Mayer-Rokitansky-Küster-Hauser Syndrome and Complete Uterine Agenesis: Evidence to Support the Theory of Coelomic Metaplasia. J Pediatr Adolesc Gynecol 2010; 23 (1): e35-37. https://doi.org/10.1016/j.jpag.2009.02.010
11. Channabasavaiah A, Joseph J. Thoracic endometriosis: Revisiting the association between clinical presentation and thoracic pathology based on thoracoscopic findings in 110 patients. Medicine (Baltimore) 2010; 89 (3): 183-88. https://doi.org/10.1097/MD.0b013e3181df67d5
12. Mier J, Fibla J, Molins L. Neumotórax catamenial: un síndrome heterogéneo. Cirugía Española 2014; 92 (5): 366-68. https://doi.org/10.1016/j.ciresp.2012.04.021
13. Reyna E, Torres D, Rondon M. Neumotórax catamenial recurrente. Reporte de caso. Rev Peru Ginecol y Obstet 2020; 66 (3). https://doi.org/10.31403/rpgo.v66i2263
14. Hwang S, Lee C, Lee B, Park J. Clinical features of thoracic endometriosis: A single center analysis. Obstet Gy-

necol Sci 2015; 58 (3): 223-31. https://doi.org/10.5468/ogs.2015.58.3.223

15. Henry M, Arnold T, Harvey J. BTS guidelines for the management of spontaneous pneumothorax. Thorax 2003; 58. http://dx.doi.org/10.1136/thx.58.suppl_2.ii39

16. Ichiki Y, Nagashima A, Yasuda M, Takenoyama M, et al. Surgical treatment of catamenial pneumothorax: Report of three cases. Asian J Surg 2015; 38 (3): 180-85. https://doi.org/10.1016/j.asjsur.2013.09.014

17. Fukuda S, Hirata T, Neriishi K, et al. Thoracic endometriosis syndrome: Comparison between catamenial pneumothorax or endometriosis-related pneumothorax and catamenial hemoptysis. Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol 2018; 225: 118-23. https://doi.org/10.1016/j.ejogrb.2018.04.021

CITACIÓN ACTUAL

De acuerdo con las principales bases de datos y repositorios internacionales, la nueva forma de citación para publicaciones periódicas, digitales (revistas en línea), libros o cualquier tipo de referencia que incluya número doi (por sus siglas en inglés: Digital Object Identifier) será de la siguiente forma:

REFERENCIAS

1. Yang M, Guo ZW, Deng CJ, Liang X, Tan GJ, Jiang J, Zhong ZX. A comparative study of three different forecasting methods for trial of labor after cesarean section. J Obstet Gynaecol Res. 2017;25(11):239-42. https://doi.org/10.1016/j.gyobfe.2015.04..0015*

* El registro Doi deberá colocarse con el link completo (como se indica en el ejemplo).

https://doi.org/10.24245/gom.v91i8.7320