



REPORTE DE CASO

Síndrome de Wunderlich en una paciente con 10 semanas de gestación tratado satisfactoriamente con embolización arterial selectiva



Juan José Triana G^{a,*}, Carlos Andrés García M.^b y José Nicolás Fernández B.^c

^a Medicina Interna, Cirugía, Pontificia Universidad Javeriana, Bogotá, Colombia

^b Residencia de tercer año de Urología, Pontificia Universidad Javeriana, Bogotá, Colombia

^c Urólogo, Candidatura a PhD Ciencias Básicas, Hospital Universitario San Ignacio, Pontificia Universidad Javeriana, Bogotá, Colombia

Recibido el 28 de octubre de 2014; aceptado el 28 de septiembre de 2015

Disponible en Internet el 14 de noviembre de 2015

PALABRAS CLAVE

Informes de casos;
Embolización terapéutica;
Embarazo;
Neoplasias renales;
Complicaciones neoplásicas del embarazo;
Angiolipoma

Resumen

Introducción: El angiomiolipoma es un tumor benigno de tejido adiposo, muscular y vascular. Presenta una incidencia del 0,3% en la población general y es aún más infrecuente en el embarazo.

Objetivo: Reportar el caso clínico de una paciente de 31 años de edad, gestante, con síndrome de Wunderlich tratado exitosamente.

Métodos: Paciente de 31 años de edad, gestante de 10 semanas, que consultó por dolor lumbar y en flanco izquierdos, de inicio súbito, posterior a una maniobra de Valsalva. En la ultrasonografía se reportó un proceso inflamatorio en el riñón izquierdo asociado a un hematoma perirrenal. Presentó deterioro progresivo de su estado general y un descenso de la hemoglobina, requiriendo soporte transfusional. Fue necesaria la realización de una tomografía contrastada, caracterizando una laceración renal izquierda en polo inferior con salida del medio de contraste, asociada a una masa de características neoplásicas. Fue tratada con embolización arterial selectiva, garantizando el bienestar fetal.

Resultados: Tratamiento exitoso de un síndrome de Wunderlich con embolización arterial selectiva en una gestante.

Conclusiones: El síndrome de Wunderlich es poco común; debe considerarse en pacientes con cuadro clínico de dolor abdominal o lumbar severo, hipotensión y/o hematuria. Dependiendo del espectro clínico, podría ser una condición peligrosa para la vida, y más aún en mujeres embarazadas, teniendo presente que se puede realizar un manejo conservador garantizando el bienestar fetal.

© 2015 Sociedad Colombiana de Urología. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Todos los derechos reservados.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: juanjo.triana91@gmail.com (J.J. Triana G).

KEYWORDS

Case reports;
Therapeutic
embolisation;
Pregnancy;
Kidney neoplasms;
Neoplastic pregnancy
complications;
Angiolipoma

Wunderlich syndrome in a 10-week pregnant patient successfully treated with selective arterial embolisation

Abstract

Introduction: Angiomyolipoma is a benign tumour, composed of adipose, muscular and vascular tissue. It has an incidence of 0.3% in the general population, and is even rarer in pregnancy.

Objective: Report the case of a pregnant-31 year old woman with Wunderlich syndrome, successfully treated.

Methods: A 31 year old woman, 10 weeks pregnant, consulted for back and left flank pain, of sudden onset after Valsalva manoeuvre. An inflammatory renal process and a peri-renal haematoma were reported in the ultrasound study. The patient suffered a gradual haemodynamic impairment and a drop in haemoglobin that needed transfusion support. Contrast computed tomography was requested that showed a left renal laceration in the inferior pole with contrast outlet, associated with a kidney-dependent mass. The patient was treated using selective arterial embolisation, ensuring the foetal well-being.

Results: A Wunderlich syndrome successfully treated with selective arterial embolisation in a pregnant patient.

Conclusions: Although Wunderlich's syndrome is rare, it should be considered in patients with clinical symptoms of severe abdominal or lumbar pain, hypotension and/or haematuria. Depending on the clinical spectrum, it could be a life threatening condition, even more so in pregnant women, and taking into account that conservative management may be used, ensuring foetal well-being.

© 2015 Sociedad Colombiana de Urología. Published by Elsevier España, S.L.U. All rights reserved.

Introducción

El angiomiolipoma (AML) es un hamartoma benigno, descrito por primera vez en 1951. Tiene una incidencia del 0,3%. En mujeres embarazadas es incluso menor, aunque no se tienen datos exactos en la literatura revisada¹. El tumor tiende a incrementar su tamaño durante el embarazo; sin embargo, no se conoce la causa. En más del 25% de los casos, estos tumores tienen receptores de estrógenos y progesterona. Este tipo de tumor tiene una fuerte asociación con la esclerosis tuberosa (ET) y la linfangioleiomiomatosis, presentándose en un 80% de estos casos².

A continuación reportamos el caso de una paciente de 31 años que durante el segundo embarazo le fue diagnosticado un AML sangrante.

Reporte de caso

Una paciente de 31 años de edad, con 10 semanas de gestación, sin antecedentes de importancia, consultó por dolor lumbar y en flanco izquierdo asociado a astenia y adinamia. No presentaba hematuria ni otros síntomas urológicos. Fue valorada por el servicio de ginecología, quienes consideraron como diagnóstico cólico renal. En el momento en el que fue valorada por el servicio de urología, la paciente, al examen físico, presentaba taquicardia y dolor a la palpación en flanco izquierdo sin signos de irritación peritoneal. Los primeros resultados de laboratorio mostraban una función renal conservada, hemoglobina de 11,2 g/dl y 34,6% de hematocrito. La ecografía renal reportaba proceso inflamatorio en el riñón izquierdo con una masa de ecogenicidad heterogénea. El servicio de radiología sugirió la realización

de más imágenes, sospechando como diagnóstico principal un hematoma perirrenal izquierdo.

Durante las primeras 10 h de observación la hemoglobina tuvo un descenso de 2,8 g/dl y la paciente presentó inestabilidad hemodinámica. Requirió transfusión sanguínea de 2 unidades de glóbulos rojos y monitorización continua de los signos vitales en la unidad de cuidados intensivos (UCI).

En el contexto clínico de la paciente, teniendo en cuenta el riesgo de muerte secundario a un choque hemorrágico, la decisión tomada en conjunto con la paciente fue la realización de una tomografía abdominal contrastada, tomando los riesgos inherentes al procedimiento en cuanto a la radiación y la afectación directa del feto.

La tomografía abdominal mostró una laceración en el riñón izquierdo comprometiendo la médula y corteza, con una masa neoplásica asociada. Había filtración del medio de contraste a través de esta laceración, formando un hematoma perirrenal con dimensiones de 20 × 10 × 12 mm. Este hematoma desplazaba el riñón izquierdo y el páncreas (fig. 1).

Se llevó a cabo una junta médica entre los servicios de UCI, urología, cirugía y ginecología con el fin de decidir la mejor opción de tratamiento. Considerando varias opciones, en el contexto de un embarazo normal, una paciente con estabilidad hemodinámica, aunque sin control analgésico adecuado y taquicardia persistente con alto riesgo de choque hemorrágico, la opción terapéutica elegida fue la realización de una embolización arterial selectiva del AML renal izquierdo.

La embolización arterial selectiva fue realizada a través de un acceso femoral. Se hizo un cateterismo selectivo de la arteria renal izquierda. La arteriografía mostró una imagen de pseudovena que dependía de la arteria renal lobar

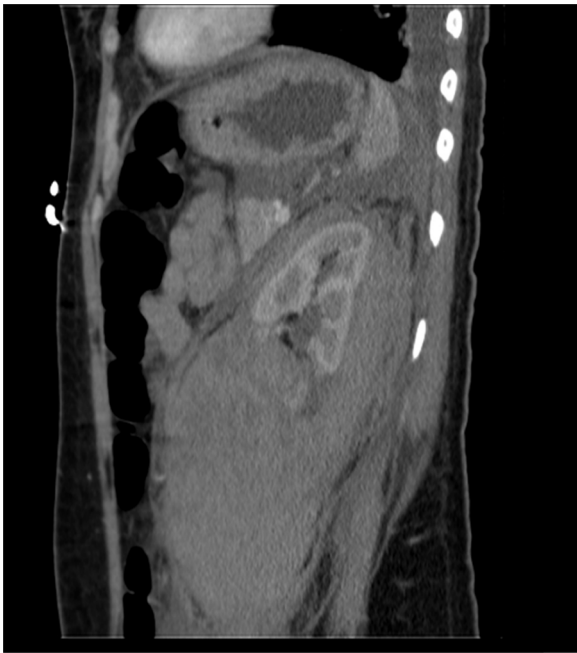


Figura 1 TAC contrastada. Evidenció una laceración renal izquierda en polo inferior con salida del medio de contraste que comprometía médula y corteza renal, asociada a una masa de características neoplásicas. Hematoma perirrenal asociado.

inferior izquierda, asociado a una opacificación tisular que evocaba una «sombra tumoral» (fig. 2). Después de obtener las imágenes de la arteriografía, se realizó una embolización selectiva con microcoils. Los resultados morfológicos y funcionales fueron excelentes, preservando el mayor parénquima renal funcional posible (fig. 3).

Después de la embolización arterial, la evolución clínica fue satisfactoria, obteniendo resolución de la taquicardia, sin requerir más transfusiones de hemoderivados. Después de resolver el sangrado causado por el AML renal, se llevó a cabo una ecografía obstétrica que confirmaba el bienestar fetal después del procedimiento.

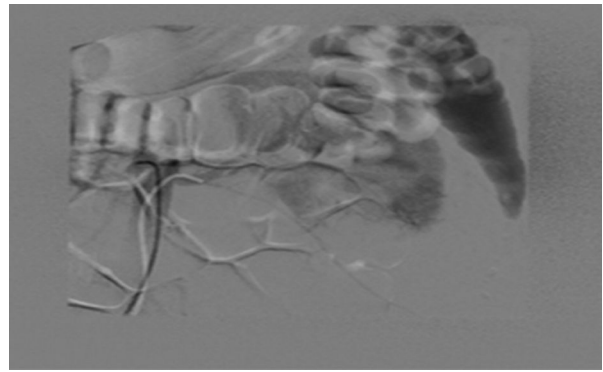


Figura 2 Sombra tumoral en polo renal inferior.



Figura 3 Resultado después de embolización selectiva con microcoils (polo inferior sin irrigación).

Discusión

El síndrome de Wunderlich (SW) asociado con el embarazo fue reportado en 72 casos, de los cuales 58 presentaron hemorragia asociada. Solo el 26% de los casos fueron documentados previos al embarazo³.

Las características clínicas son similares entre las pacientes en estado de embarazo y las no embarazadas. Los síntomas descritos más comunes son dolor abdominal, hipotensión o shock y hematuria. No hay diferencia en la asociación con el número de gestación, o la frecuencia de SW con el primer, segundo o tercer embarazo³.

Probablemente el riesgo de sangrado se incrementa durante el embarazo debido al aumento del volumen y del flujo sanguíneo⁴. Las estrategias de tratamiento que fueron utilizadas en estos 72 casos fueron nefrectomía total (79%), nefrectomía parcial (7%), embolización seguida por nefrectomía (7%) y tratamiento expectante (7%). Estas pacientes en el periodo posparto requieren un seguimiento estricto³.

El diagnóstico de AML se confirma mediante imágenes. La mayoría de los casos son diagnosticados con tomografía abdominal, aunque durante el embarazo la resonancia

magnética debe ser considerada como alternativa^{2,5,6}. La arteriografía puede ser un método diagnóstico válido, específicamente en ocasiones donde el tratamiento sea la embolización selectiva⁷⁻⁹. Se revisó el caso de una paciente en estado de embarazo temprano que presentó un AML renal sintomático que fue tratada de la misma forma que la paciente del caso presentado de una manera exitosa⁸.

Hay 2 casos reportados en la literatura de AML con SW asociado a trombosis de la vena renal. Estos 2 casos fueron tratados quirúrgicamente^{10,11}.

El 80% de pacientes con ET y linfangioleiomiomatosis presentaron AML bilateral y múltiple. De los AML asintomáticos, el 50% no estaban relacionados con ET. Durante el embarazo estos tumores presentan un rápido crecimiento, lo que significa que probablemente hay un efecto importante de los receptores de estrógenos y progesterona previamente descritos⁸.

El manejo del AML en el embarazo depende de la estabilidad hemodinámica del paciente y de las semanas de gestación. Debido a la inmadurez fetal, se recomienda que antes de la semana 32 de gestación el tratamiento sea conservador si la paciente se encuentra estable. Dependiendo de la situación clínica, el bienestar fetal y la edad gestacional, la decisión entre cesárea y parto vaginal debe ser tomada en cuenta². En AML renal asociado a ET es mandatorio preservar el mayor tejido renal sano como sea posible¹².

Conclusión

En conclusión, el SW secundario a AML renal es muy raro, pero debe ser considerado en un paciente con síntomas como dolor abdominal, hematuria e hipotensión.

Dependiendo del espectro clínico, puede ser una condición que amenace la vida del paciente, incluso más en pacientes en estado de embarazo. Hay ciertas opciones de tratamiento ya descritas, y la situación clínica del paciente siempre tiene que ser tomada en cuenta antes de tomar la decisión del tratamiento. En pacientes estables el manejo conservador siempre está indicado. Opciones quirúrgicas pueden ser la mejor alternativa en pacientes inestables, con más de 32 semanas de embarazo y en condiciones de estado fetal no satisfactorio.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Tanaka M, Kyo S, Inoue M, Kojima T. Conservative management and vaginal delivery following ruptured renal angiomyolipoma. *Obstet Gynecol* [Internet]. 2001;98 5 Pt 2:932-3 [consultado 24 Oct 2014]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/11704209>
2. Zapardiel I, Delafuente-Valero J, Bajo-Arenas JM. Renal angiomyolipoma during pregnancy: review of the literature. *Gynecol Obstet Invest* [Internet]. 2011;72:217-9 [consultado 24 Oct 2014]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/21876331>
3. Raft J, Lalot J-M, Meistelman C, Longrois D. Influence of pregnancy on renal angiomyolipoma. *Gynecol Obstet Fertil* [Internet]. 2005;33:898-906 [consultado 24 Oct 2014]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/16256402>
4. Lewis EL, Palmer JM. Renal angiomyolipoma and massive retroperitoneal hemorrhage during pregnancy. *West J Med* [Internet]. 1985;143:675-6 [consultado 24 Oct 2014]. Disponible en: <http://www.pubmedcentral.nih.gov/articlerender.fcgi?artid=1306454&tool=pmcentrez&rendertype=Abstract>
5. Illescas Molina T, Montalvo Montes J, Contreras E, Muñoz MM, González A, Herraiz MA. Angiomiolipomas, esclerosis tuberosa y gestación. *Ginecol Obstet Mex*. 2009;77:380-6.
6. Gyimadu AO, Kara O, Basaran D, Esinler I. Conservative management of a retroperitoneal hemorrhage following a ruptured renal angiomyolipoma in pregnancy. *J Obstet Gynaecol Res* [Internet]. 2011;37:156-9 [consultado 24 Oct 2014]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/21159033>
7. Shah J, Jones J, Miller MA, Patel U, Anson KM. Selective embolization of bleeding renal angiomyolipoma in pregnancy. *J R Soc Med* [Internet]. 1999;92:414-5 [consultado 24 Oct 2014]. Disponible en: <http://www.pubmedcentral.nih.gov/articlerender.fcgi?artid=1297323&tool=pmcentrez&rendertype=Abstract>
8. Morales JP, Georganas M, Khan MS, Dasgupta P, Reidy JF. Embolization of a bleeding renal angiomyolipoma in pregnancy: Case report and review. *Cardiovasc Intervent Radiol* [Internet]. 2005;28:265-8 [consultado 24 Oct 2014]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/15696353>
9. Abrams J, Yee DC, Clark TWI. Transradial embolization of a bleeding renal angiomyolipoma. *Vasc Endovascular Surg* [Internet]. 2011;45:470-3 [consultado 24 Oct 2014]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/21571778>
10. Hatakeyama S, Habuchi T, Ichimura Y, Akihama S, Terai Y, Kakinuma H, et al. Rapidly growing renal angiomyolipoma during pregnancy with tumor thrombus into the inferior vena cava: a case report. *Nihon Hinyokika Gakkai Zasshi* [Internet]. 2002;93:48-51 [consultado 24 Oct 2014]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/11842540>
11. Lopater J, Hartung O, Bretelle F, Bastide C. Management of angiomyolipoma vena cava thrombus during pregnancy. *Obstet Gynecol* [Internet]. 2011;117 2 Pt 2:440-3 [consultado 24 Oct 2014]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/21252782>
12. Peces R, Cuesta-López E, Peces C, Selgas R. Giant bilateral renal angiomyolipomas and lymphangioleiomyomatosis presenting after two successive pregnancies successfully treated with surgery and rapamycin. *ScientificWorldJournal* [Internet]. 2011;11:2115-23 [consultado 24 Oct 2014]. Disponible en: <http://www.pubmedcentral.nih.gov/articlerender.fcgi?artid=3217590&tool=pmcentrez&rendertype=Abstract>