B. Arriaga[a]
I. Cristóbal[a]
F. Hernando[b]
V. Ocaña[a]
O. Torres[a]
M. Escudero[a]

Neumotórax catamenial asociado a endometriosis pelviana: a propósito de un caso

Catamenial pneumothorax associated with pelvic endometriosis: a propos of a case

[a]Departamento de Obstetricia y Ginecología. Hospital Clínico San Carlos. Madrid. [b]Departamento de Cirugía Torácica. Hospital Clínico San Carlos. Madrid. España.

Correspondencia:
Dra. B. Arriaga Borrageiros.
Departamento de Obstetricia y Ginecología.
Hospital Clínico San Carlos.
Martín Lagos, s/n. 28040 Madrid. España.
Correo electrónico: barriaga@mi.madritel.es

Fecha de recepción: 16/10/03
Aceptado para su publicación: 31/8/04

RESUMEN

Objetivo: Se presenta el caso de una paciente con neumotórax catamenial y nódulo endometriósico pleural derecho asociado a endometriosis pelviana difusa. Se realiza una revisión de las opciones terapéuticas empleadas en la actualidad.

Material y método: Análisis descriptivo de un caso clínico.

Caso clínico: Paciente de 28 años de edad que presenta neumotórax catamenial y dismenorrea severa. Se realiza estudio con tomografía axial computarizada de alta resolución, videotoracoscopia y ecografía pelviana. Diagnosticada de endometriosis torácica se instaura tratamiento quirúrgico apropiado para la lesión local y se inicia tratamiento con análogos de la GnRH durante 6 meses y tratamiento *add-back*, cediendo, aunque no totalmente, la sintomatología.

Discusión: Se hace una revisión de los tratamientos más aceptados en la actualidad y de aquellos que se plantean como una alternativa de futuro.

Conclusiones: La endometriosis pulmonar es una entidad poco frecuente. A la hora de plantearnos el tratamiento, puesto que no vamos a curar la enfermedad, deberemos emplear aquellos que menos efectos secundarios vayan a producir, puesto que será un tratamiento a largo plazo.

PALABRAS CLAVE

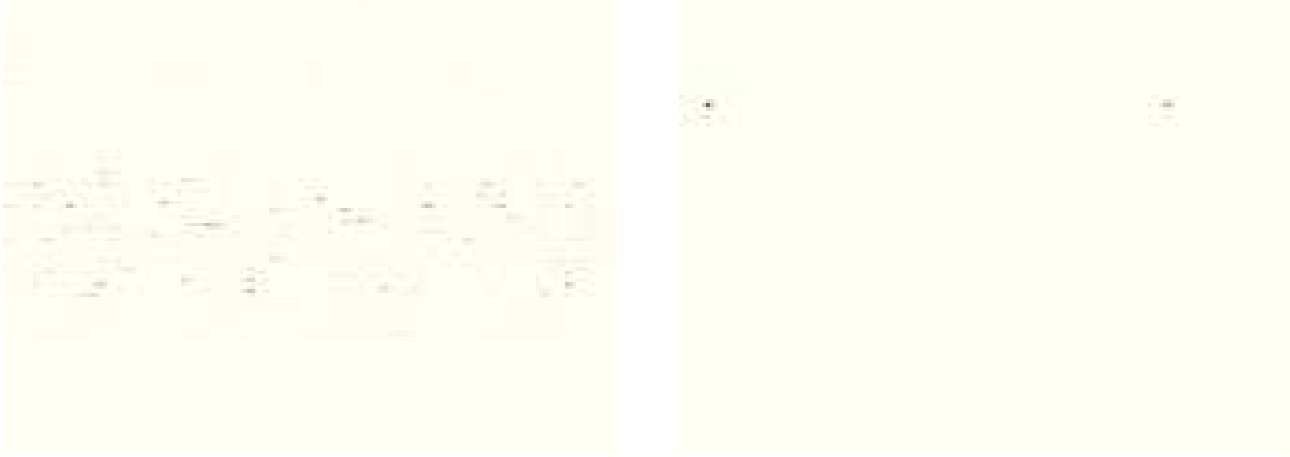
Endometriosis. Neumotórax catamenial. Dismenorrea. Análogos GnRH. Tratamiento *add-back*.

ABSTRACT

Objective: We present a patient with catamenial pneumothorax and right pleural endometriotic node associated to difuse pelvic endometriosis. The therapeutical medical options are reviewed.

Material and method: A case report.

Case report: A 28 years old patient with catamenial pneumothorax and intense dysmenorrhea. The complete case report, hight resolution CT, videothoracoscopy and pelvic ultrasound are analyzed. The apropiatted surgical treatment is used for the local lesion after the



Figuras 1 y 2. *Estudio histológico que demuestra macrófagos con hemosiderina y restos hemáticos.*

diagnostic of thoracic endometriosis. On a second time we used GnRH agonists for six months and add-back treatment to reduce the generalized disease; the symptoms reduced, but not completely.

Discussion: The medical options for therapy used today and the new treatments are reviewed.

Conclusions: Thoracic endometriosis is a rare entity. Certainly we will not cure the disease completely. Treatments with lesser secondary effects must be given, because it is a long term treatment.

KEY WORDS

Endometriosis. Catamenial neumothorax. Dysmenorrhea. GnRH agonist. Add-back treatment.

INTRODUCCIÓN

La endometriosis se define como la presencia de tejido endometrial, generalmente funcionante, fuera del útero, de forma localizada, dando lugar a quistes endometriósicos, o como implantes diseminados. Desde el punto de vista anatomopatológico es similar al endometrio eutópico, con presencia de glándulas y estroma endometrial, fibrosis y hemorragia, aunque lo que varía son las proporciones de cada uno. Un hallazgo frecuente en los estudios es la presencia de hemorragia intersticial y macrófagos cargados de hemosiderina (figs. 1 y 2)[1].

La edad más frecuente de diagnóstico es 25-35 años. La prevalencia es del 10-15% de la población general, y afecta al 30% de las mujeres sometidas a laparoscopia por infertilidad y al 50% por dolor pelviano[2,3].

La endometriosis sistémica se define como la presencia de focos endometriósicos fuera de la pelvis. Su prevalencia es desconocida. Puede afectar a cualquier órgano, como el intestino, los uréteres, la vejiga, el riñón, el pulmón o el diafragma, casi cualquier parte del cuerpo, a excepción de uno: el único órgano en el que no se han encontrado nunca focos es en el bazo, dato que puede ser clave en la patogenia por sus importantes funciones inmunológicas[3,4].

Durante varias décadas se han postulado diferentes teorías patogénicas, como la metaplasia celómica, el transporte directo por líquido peritoneal, la microembolización de tejido[2], y también se ha implicado una inmunidad deficiente, tanto celular como humoral.

En la enfermedad torácica, que es el caso que nos ocupa, es más frecuente la afección pleural que la del parénquima, y también se ha observado una mayor prevalencia en el hemitórax derecho. Los síntomas son cíclicos, se presenta 24-48 h alrededor de la menstruación, lo que para algunos autores este dato es patognomónico[1,5]. Los síntomas más fre-

cuentes son neumotórax catamenial, dolor torácico, disnea y hemoptisis. Además el 60-80% tiene asociada endometriosis pelviana.

CASO CLÍNICO

Paciente de 28 años, nuligesta. Como antecedentes personales presenta alergias a antibióticos, una prótesis mamaria por anisomastia a los 20 años y un episodio de neumotórax que se solucionó con tratamiento expectante.

Presenta dismenorrea desde la menarquia, que por entonces cedía con los analgésicos clásicos, pero cada vez necesitaba dosis crecientes. A los 24 años comienza tratamiento con anticonceptivos orales, aunque siguió precisando la asociación de analgésicos. Desde hace un año ya no se ve efectividad.

Acudió a urgencias de nuestro hospital con un cuadro de disnea y dolor torácico; se le practicó una radiografía de tórax y se descubrió un hidroneumotórax derecho. Se le realizó una tomografía axial computarizada (TAC) torácica de alta resolución, que informó de un moderado derrame de alta densidad (fig. 3) que podría ser hemático; en la cavidad pleural anterior, una lesión quística de baja densidad (fig. 4), que dado el contexto clínico podría corresponder a un endometrioma.

Durante la anamnesis descubrimos que ya había presentado episodios previos similares pero de menor intensidad, y todos relacionados con la menstruación. Al día siguiente del ingreso comenzaba con la menstruación. También había referido en ocasiones hematuria.

Sospechándose una endometriosis de base se realizó una ecografía ginecológica, que estaba dentro de los límites de la normalidad, y no se visualizaba ninguna masa anexial.

Dado que se trataba de un episodio recidivante de neumotórax se indicó cirugía; durante la videotoracoscopia se visualizaron implantes en pleura parietal, diafragma (fig. 5) y superficie pulmonar de aspecto endometrioide; orificios diafragmáticos, implantes en peritoneo visceral, y tumoración en seno cardiofrénico derecho de 5 × 3 cm con contenido "achocolatado". Igualmente se visualizó un *bleb* apical (fig. 6).

El estudio anatomopatológico informó de depósitos de fibrina y reacción inflamatoria crónica, ma-

Figura 3. *Derrame de alta densidad.*

Figura 4. *Lesión quística de baja densidad.*

crófagos alveolares con hemosiderina y restos hemáticos, sin poder confirmar la existencia de estroma ni epitelio endometrial.

Tres semanas más tarde inició tratamiento con análogos de GnRH y un mes más tarde se le añadió tibolona diaria para completar tratamiento *add-back*. A los 6 meses se suspendió el tratamiento. Durante dicho período, la sintomatología cedió espectacular-

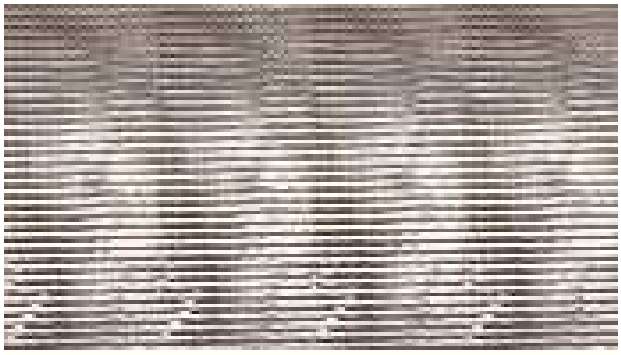


Figura 5. *Implantes en superficie diafragmática.*

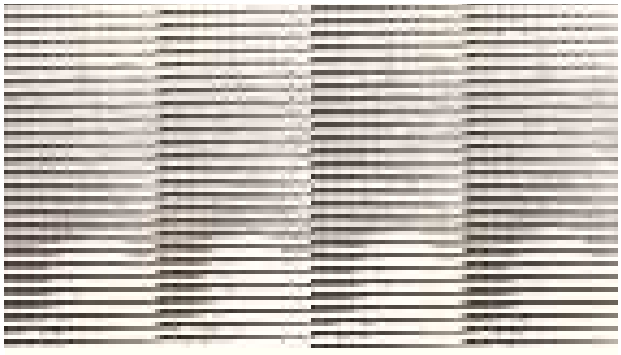


Figura 6. Bleb *apical.*

mente, aunque acusó algún efecto secundario del tratamiento.

DISCUSIÓN

El tratamiento de la endometriosis pulmonar está encaminado, en primer lugar, a la resolución de la complicación: TET, pleurodesis, pleurectomía, resección, etc.; en segundo lugar, y puesto que se trata de una enfermedad sistémica, intentar controlarla, teniendo en cuenta variantes como la sintomatología, los deseos genésicos, la localización, el grado de extensión y la edad[6].

Lo deseable es comenzar el tratamiento con la confirmación histológica, pero lo habitual es que domine la clínica.

El tratamiento más clásico ha sido la castración quirúrgica, si bien existen casos documentados de recidiva varios meses después[1,7,8,9]. Actualmente, siempre se asocia un tratamiento médico intentando prevenir dicha recidiva.

Más recientemente ha tomado fuerza el tratamiento conservador, como inductor a una situación de hipoestrogenemia que mantenga en inactividad esos focos ectópicos, si bien tiene el inconveniente de sus posibles efectos secundarios y su escaso efecto sobre los quistes endometriósicos.

Los anticonceptivos orales y progestinas (acetato de medroxiprogesterona 30 mg/día, acetato de noretrindrona 5 mg/día, 6 meses), que inhiben directamente el crecimiento de los implantes por decidualización y necrosis del tejido, son bastante eficaces para controlar el dolor[10]. El danazol (derivado de la testosterona) inhibe la secreción de gonadotropinas hipofisarias, el crecimiento directo del implante y las enzimas esteroidogénicas, permitiendo así un control moderado de la enfermedad. Los análogos de GnRH, empleados en la segunda fase del ciclo, inhiben la secreción de gonadotropinas hipofisarias, suprimiendo la producción de estrógenos ováricos[5,6,11].

El efecto colateral de mayor relevancia es la situación de seudomenopausia, que implica la pérdida de masa ósea y calcio y, además, cuya recuperación no es del 100% tras la supresión del tratamiento[7,10,12-14].

Para prevenir o disminuir dichos efectos secundarios, actualmente se puede asociar THS[15] como la tibolona 2,5 mg/día, bisfosfonatos diarios o el mantenimiento de las concentraciones plasmáticas de E2 entre 30-50 pg/ml. Así, no sólo no disminuye la pérdida de masa ósea, sino que parece incrementarla, y además la recuperación de ésta es mayor y ocurre antes tras la supresión de la medicación[5].

Con síntomas graves e incapacitantes, el tratamiento médico es prácticamente inútil y ha de asociarse a tratamiento quirúrgico, como la ooforectomía bilateral (manteniendo el tratamiento médico durante unos meses), si bien hay casos descritos de recidiva de la sintomatología incluso después de los tratamientos más radicales, como ya se comentó previamente.

En conclusión, a la hora de plantearnos el tratamiento de la endometriosis sistémica, de cualquier localización, éste ha de ser sobre todo sintomático. Debemos considerar que no vamos a curar la enfermedad, y evitar la mayor cantidad de efectos secundarios posibles, puesto que se trata de un tratamiento a largo plazo.

Actualmente, se están investigando 2 nuevas opciones terapéuticas, una basada en la dependencia estrogénica local y otra en la neutralización de la respuesta inmunológica local[16].

Dentro del primer grupo tendríamos los inhibidores de la aromatasa (fadrozole, anastrozole) que impedirían la conversión local de andrógenos a estrógenos. La aromatasa se encuentra en grandes cantidades en el tejido endometriósico, y esta producción local puede influir en la persistencia y crecimiento de los focos, incluso después de una histerectomía con doble anexectomía. La mayor experiencia se tiene en animales; existen muy pocos casos en mujeres (posmenopáusicas con endometriosis). Del raloxifeno (SERM), empleado fundamentalmente en el tratamiento de la osteoporosis posmenopáusica, con efecto antiestrogénico en los tejidos del aparato reproductor, se tiene mayor experiencia en modelos animales, mientras que los resultados en las mujeres en edad reproductiva indican que necesitan una mayor supresión estrogénica, ya que no inhiben la ovulación[16].

Dentro del segundo grupo estarían los inmunomoduladores (interleucina-12, interferón α-2b, loxoribine), basados en la teoría patogénica de la capacidad de las células endometriales de neutralizar la respuesta inmunológica local. El único con el que se tiene experiencia en humanos, es con INF-α[17], que disminuye el tamaño y grado de la enfermedad. Y los antiinflamatorios, ya que se puede considerar una enfermedad inflamatoria por los valores elevados de citocinas y de factores de crecimiento en el líquido peritoneal, y el aumento del número de anticuerpos en las mujeres con endometriosis[18]. Dentro de este grupo, los fármacos implicados serían: diclofenaco, ibuprofeno, danazol (su acción inmunomoduladora parece ser secundaria a su capacidad de inducir un hipoestrogenismo), pentoxifilina (que parece útil en situaciones en las que el daño está producido por la acción inflamatoria de los macrófagos) y factor de necrosis tumoral bp-1 (que neutraliza el factor de necrosis tumoral alfa).

BIBLIOGRAFÍA

1. Danforth, Robert S. Schenken. Tratado de obstetricia y ginecología. 8.ª ed. McGraw-Hill Interamericana; 2000. p. 703-9.
2. Usandizaga JA, De la Fuente P, Ordás J. Tratado de obstetricia y ginecología. Vol. II. Aravaca: McGraw-Hill Interamericana; 1998. p. 289-307.
3. Jubanyik KJ, Comite F. Extrapelvic endometriosis. Obstet Gynecol Clin North Am. 1997;24:411-40.
4. Markham SM, Carpenter SE, Rock JA. Extrapelvic endometriosis. Obstet Gynecol Clin North Am. 1997;24:260-75.
5. Espaulella J, Armengol J, Bella F, Laín JM, Calaf J. Pulmonary endometriosis: conservative treatment with GnRH agonists. Obstet Gynecol. 1991;78:535-7.
6. Slabbynck H, Laureys M, Impens N, DeVroey P, Schanderyl W. Recurring catamenial pneumothorax treated with a GnRH analogue. Chest. 1991;100:851.
7. Speroff L, Glass RH, Kase NG. Endometriosis. Endocrinología ginecológica e infertilidad. 6.ª ed. Madrid: Waverly Hispanica; 1999. p. 1057-69.
8. Joseph J, Reed CE, Sahn SA. Recurrence following hysterectomy with bilateral salpingo-oophorectomy and successful treatment with talc pleurodesis. Chest. 1994;106:1984-96.
9. Shibata K, Aizawa H, Inoue H, Sugio K, Hara N. Recurrence of catamenial pneumothorax after surgical treatment. Nihon Kokyuki Gakkai Zasshi. 2000;38:278-82.
10. Dawood MY, Obasiolu CW, Ramos J, Khan-Dawood FS. Clinical, endocrine and metabolic effects of two doses of gestrinone in treatment of pelvic endometriosis. Am J Obstet Gynecol. 1997;176:387-94.
11. Rosenberg SM, Riddick DH. Successful treatment of catamenial hemoptysis with danazol. Obstet Gynecol. 1981;57:130.

12. Dawood MY, Ramos J, Khan-Dawood FS. Depot Leuprolide acetate versus danazol for treatment of pelvic endometriosis: changes in vertebral bone mass and serum estradiol and calcitonin. Fertil Steril. 1995;63:1177-83.

13. Koizumi T, Inagaki H, Takabayashi Y, Kubo K. Successful use of GnRH agonist in a patient with pulmonary endometriosis. Respiration. 1999;66:544-6.

14. Schwack M, Montag M, Schindler AE. Perenchymal thoracic endometriosis—diagnosis and therapy. Zentralbl Gynakol. 1997;119:181-5.

15. Friedman AJ, Hornstein MD. Gonadotropin-releasing hormone agonist plus estrogen-progestin "add-back" therapy for endometriosis-related pelvic pain. Fertil Steril. 1993;60: 236-41.

16. Vignali M, Infantino F, Matrone R, Chiodo I, Somigliana E, Busacca M, et al. Endometriosis: novel etiopathogenetic concepts and clinical perspectives. Fertil Steril. 2002;78:665-78.

17. Ali AFM, Fateen B, Ezzet A, Badawy H, Ramadan A, El-tobge A. Laparoscopic intraperitoneal injection of human interferon alfa 2b in the treatment of pelvic endometriosis: a new modality. Obstet Gynecol. 2000;95 Supl:478-9.

18. Kupker W, Schultze-Mosgau A, Diedrich K. Paracrine changes in the peritoneal enviroment of women with endometriosis. Hum Reprod Update. 1998;4:719-23.