

CASO CLÍNICO

1. Servicio de Obstetricia y Ginecología. Hospital Central "Dr. Urquinaona", Maracaibo, Estado Zulia, Venezuela
 - a. Doctor en Medicina Clínica
 - b. Especialista en Ginecología y Obstetricia
 - c. Doctora en Ciencias Médicas

Declaración de aspectos éticos

Reconocimiento de autoría. Todos los autores declaramos que hemos realizado aportes a la idea, diseño del estudio, recolección de datos, análisis e interpretación de datos, revisión crítica del contenido intelectual y aprobación final del manuscrito que estamos enviando.

Responsabilidades éticas. Protección de personas. Los autores declaramos que los procedimientos seguidos se conformaron a las normas éticas del comité de experimentación humana responsable y de acuerdo con la Asociación Médica Mundial y la Declaración de Helsinki.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaramos que hemos seguido los protocolos del Hospital Central "Dr. Urquinaona" sobre la publicación de datos de pacientes.

Derecho a la privacidad y consentimiento informado. Los autores hemos obtenido el consentimiento informado de los pacientes y/o sujetos referidos en el artículo. Este documento obra en poder del autor de correspondencia.

Financiamiento. Los autores certificamos que no hemos recibido apoyos financieros, equipos, en personal de trabajo o en especie de personas, instituciones públicas y/o privadas para la realización del estudio.

Recibido: 7 febrero 2020

Aceptado: 28 febrero 2020

Publicación anticipada:

Correspondencia:

Dr. Eduardo Reyna-Villasmil

📍 Hospital Central "Dr. Urquinaona" Final Av. El Milagro, Maracaibo, Estado Zulia, Venezuela

☎ 58162605233.

✉ sippenbauch@gmail.com

Citar como: Reyna-Villasmil E, Torres-Cepeda D, Rondon-Tapia M. Neumotórax catamenial recurrente. Reporte de caso. Rev Peru Ginecol Obstet. 2020;66(3). DOI: <https://doi.org/10.31403/rpgo.v66i2263>

Neumotórax catamenial recurrente. Reporte de caso Recurrent catamenial pneumothorax. Case report

Eduardo Reyna-Villasmil^{1,a,b}, Duly Torres-Cepeda^{1,b,c}, Martha Rondon-Tapia^{1,b}

DOI: <https://doi.org/10.31403/rpgo.v66i2263>

RESUMEN

El neumotórax catamenial es una condición clínica rara y compleja que debe ser considerada como causa de neumotórax espontáneo y recurrente que a menudo es diagnosticado en forma errónea. Es una patología pulmonar comúnmente asociada a la menstruación, ya que ocurre dentro de las 72 horas antes o después del inicio del sangrado menstrual. La etiología y el mecanismo subyacente exacto no han sido identificados, pero podría ser una forma rara de endometriosis extrapélvica caracterizada por la presencia de tejido endometrial funcional en pleura, parénquima pulmonar y vías respiratorias. El diagnóstico es un desafío, por lo que puede resultar en recurrencias. Debe sospecharse en mujeres jóvenes en edad fértil. La primera línea de tratamiento es médica, mientras que el tratamiento quirúrgico es necesario para evitar la recurrencia. Se presenta un caso de neumotórax catamenial recurrente. **Palabras clave.** Neumotórax catamenial; Endometriosis; Endometriosis torácica; Neumotórax.

ABSTRACT

Catamenial pneumothorax is a rare and complex clinical condition that should be considered as a cause of spontaneous and recurrent pneumothorax that is often misdiagnosed. It is a pulmonary pathology commonly associated with menstruation since it occurs within 72 hours before or after the onset of menstrual bleeding. The etiology and the exact underlying mechanism have not been identified, but it could be a rare form of extra-pelvic endometriosis characterized by the presence of functional endometrial tissue in the pleura, pulmonary parenchyma, and respiratory tract. Diagnosis is a challenge, so it can result in recurrences. It should be suspected in young women of childbearing age. The first line of treatment is medical, while surgical treatment is necessary to avoid recurrence. A case of recurrent catamenial pneumothorax is presented.

Key words: Catamenial pneumothorax; Endometriosis; Thoracic endometriosis; Pneumothorax.

INTRODUCCIÓN

El neumotórax catamenial, aunque es poco frecuente, es considerado una causa común de neumotórax espontáneo recurrente⁽¹⁾. Es la forma más común de síndrome de endometriosis torácica y su principal característica es la presencia de aire en los campos pulmonares como consecuencia de implantes endometriósicos en la pleura, parénquima pulmonar y/o vías respiratorias, lo que permite que entre aire y sangre causando colapso pulmonar. Por lo general, ocurre el día previo o 2 o 3 días después de la menstruación⁽²⁾.

Las manifestaciones clínicas del neumotórax catamenial incluyen dificultad para respirar, disnea, dolor pleurítico y, raramente, hemoptisis⁽³⁾. En la actualidad, después de años de descripción, la fisiopatología se desconoce en su totalidad, por lo que generalmente es una enfermedad misteriosa, difícil de diagnosticar y de tratar⁽²⁾. Se presenta el reporte de un caso de neumotórax catamenial recurrente.

CASO CLÍNICO

Se trata de paciente de 34 años, III gestas, II paras, I aborto, que consultó por presentar episodio espontáneo de dolor torácico pleurítico del lado derecho, dificultad para respirar (que empeoraba progresivamente con la actividad física) y tos seca, que aparecieron dos días después del



inicio de la menstruación. Refería antecedentes de tres episodios de neumotórax espontáneo derecho con remisión completa y espontánea con reposo, que también coincidían con el periodo menstrual. La paciente tuvo menarquía a los 14 años, con ciclos menstruales dismenorreicos de 28 días, con 6 días de sangrado y dispareunia desde los 20 años de edad. Entre los antecedentes quirúrgicos, la paciente fue sometida a legrado obstétrico un año antes por aborto incompleto. Negaba antecedentes de traumatismos, tos, fiebre, tabaquismo o cualquier otra enfermedad pulmonar crónica.

Al examen físico, la paciente estaba en su tercer día del ciclo menstrual, en regulares condiciones generales, afebril y signos vitales estables (presión arterial 139/81 mmHg, frecuencia cardíaca 91 latidos por minuto, frecuencia respiratoria de 18 latidos por minuto y saturación de oxígeno en la sangre del 96% en aire ambiente). No se observó desviación de la tráquea, pero se notó disminución de la expansión torácica, movimientos respiratorios asimétricos y los ruidos respiratorios eran audibles a la auscultación del hemitórax izquierdo, pero ausentes en el derecho. El análisis de sangre, química sanguínea básica y gases en sangre venosa estaban dentro de los límites normales.

La radiografía de tórax mostró neumotórax del hemitórax derecho asociado con áreas de neblina en el segmento basal anterior, de localización subpleural, sin desplazamiento del mediastino (figura 1). La tomografía computada de tórax confirmó estos hallazgos y demostró nódulos con opacidad de vidrio esmerilado de pequeño tamaño en el diafragma, sin evidencia de bronquiectasia o bulas enfisematosas (figura 2). La paciente fue hospitalizada y sometida a toracotomía. Un tubo torácico de tamaño 28 FG fue insertado en el cuarto punto medio del espacio intercostal, entre la axila anterior línea y la línea axilar media, para aliviar los síntomas. Debido a las múltiples recurrencias y a los hallazgos clínicos y radiológicos, se consideró la posibilidad que el cuadro clínico estuviera relacionado a focos endometriósicos torácicos. La ecografía transvaginal mostró que el útero y los ovarios estaban morfológicamente normales, con presencia de pequeñas lesiones nodulares en el tabique rectovaginal, de posible origen endometriósicos. Las concentraciones de CA-125 fueron 75 UI/L (valor normal hasta 35 UI/L).

FIGURA 1. RADIOGRAFÍA SIMPLE DE TÓRAX EN LA QUE SE OBSERVA EL NEUMOTÓRAX DERECHO. LAS FLECHAS INDICAN EL BORDE DE LA SILUETA PULMONAR.

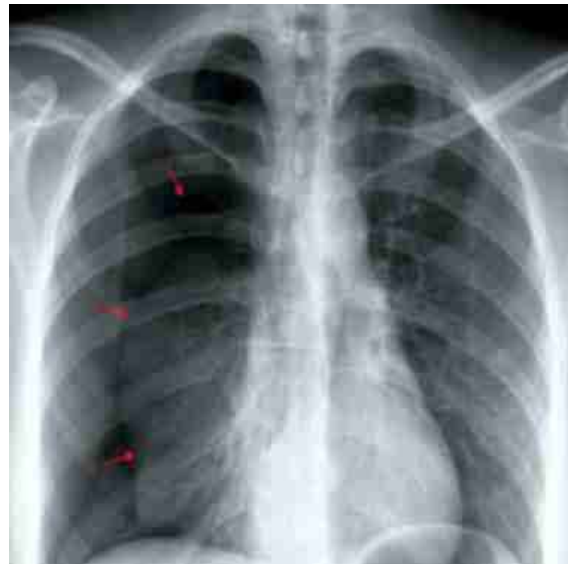
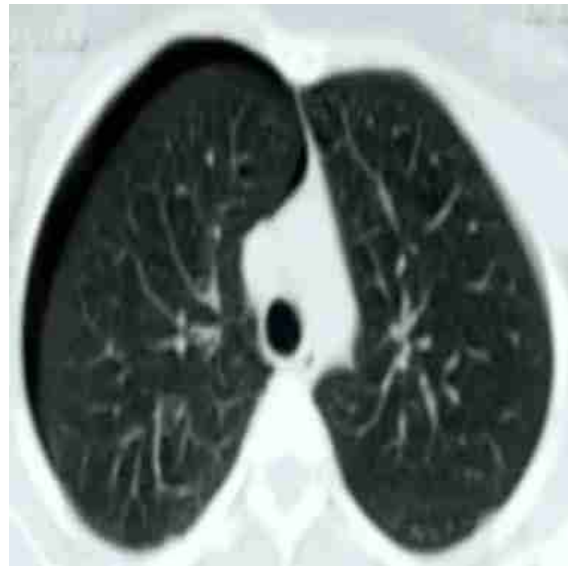


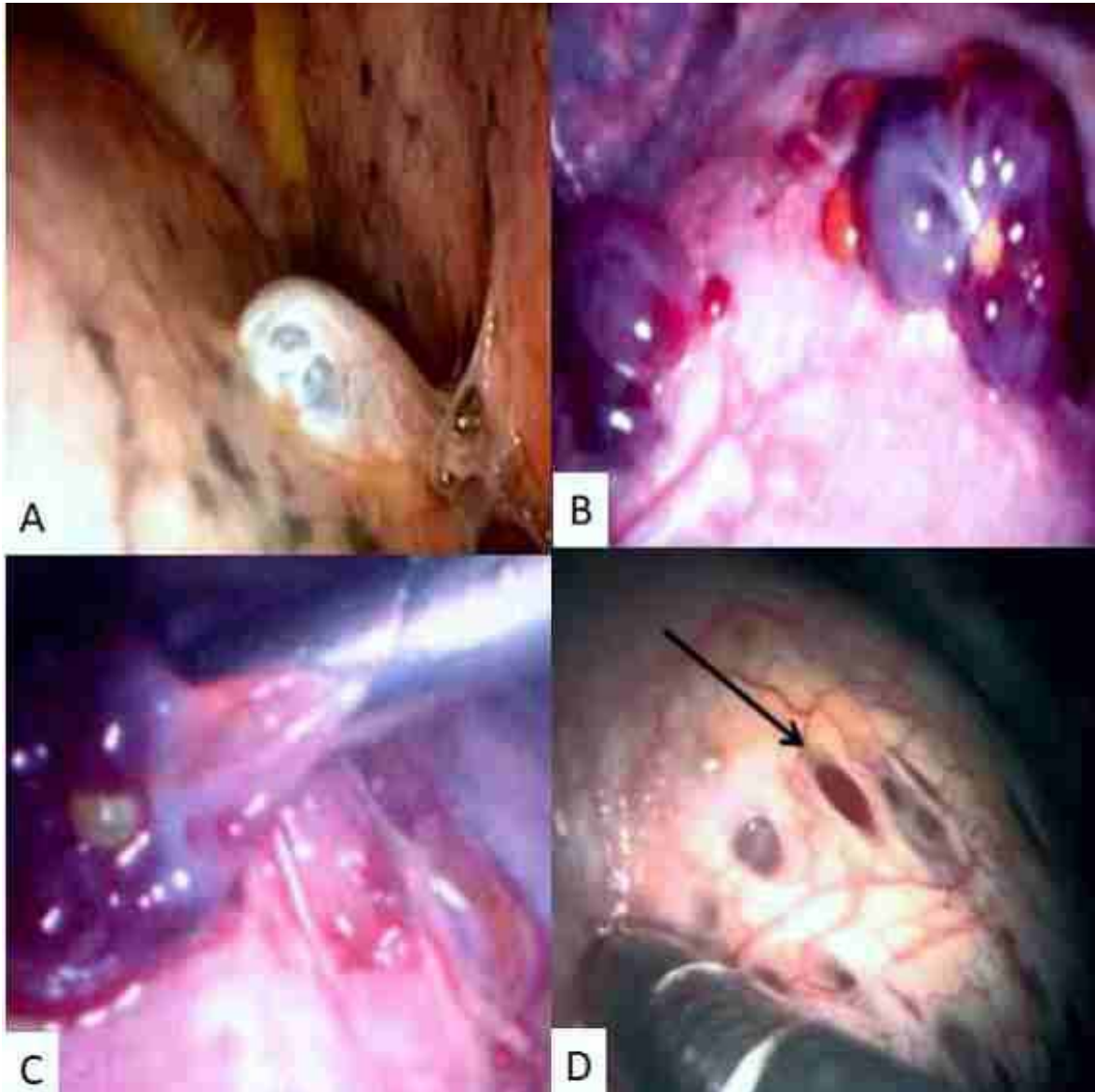
FIGURA 2. IMAGEN DE TOMOGRAFÍA AXIAL COMPUTADA QUE MUESTRA LA PRESENCIA DE NEUMOTÓRAX DEL LADO DERECHO.



Para evitar nuevas recurrencias del cuadro clínico, la paciente fue remitida al servicio de cirugía de tórax, en el cual fue programada para cirugía toracoscópica asistida por video. Luego de ingresar al espacio pleural derecho en busca de lesiones que pudieran explicar el neumotórax recurrente, se observaron múltiples poros pequeños en el diafragma, con lesiones macroscópicas pequeñas de color rojizo compatibles con implantes endometriósicos, en la superficie pleural y diafragmática (figura 3). Durante el procedimiento se realizó cierre de los espacios en el diafragma con vicryl 2-0, resección de los im-



FIGURA 3. HALLAZGOS INTRAOPERATORIOS DE VIDEOTORACOSCOPIA. A) PRESENCIA DE VARIAS LESIONES MILIMÉTRICAS EN PLEURA Y DIAFRAGMA. B) IMPLANTES ENDOMETRIALES EN LA SUPERFICIE DIAFRAGMÁTICA. C) RESECCIÓN DE IMPLANTES ENDOMETRIALES. D) PRESENCIA DE POROS DIAFRAGMÁTICOS.



plantes con electrocauterización y pleurodesis con talco estéril diluido en solución fisiológica.

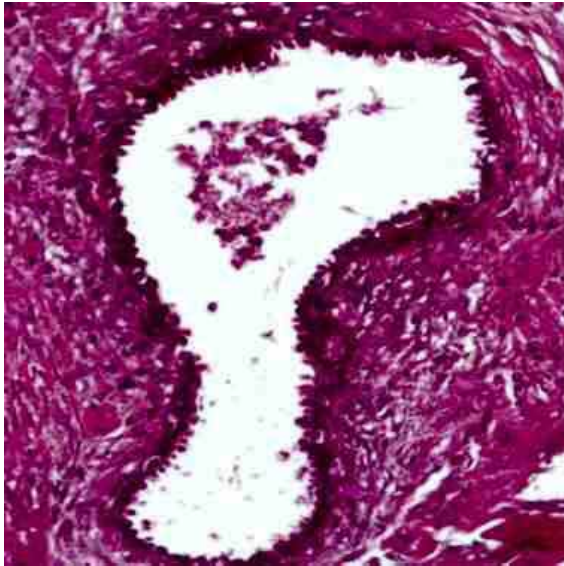
La evaluación histológica de la lesión mostró glándulas endometriales hiperplásicas y dilatadas, con abundante estroma endometrial hemorrágico colapsado junto a glándulas quísticas alineadas en una monocapa de epitelio cuboidal e infiltración perivascular de linfocitos (figura 4). El examen de inmunohistoquímica fue positivo para la coloración CK7 en las glándulas endometriales y para CD10 en el estroma endometrial, junto con positividad de receptores para estrógeno y progesterona en los núcleos de las células glandulares y estromales. El puntaje Ki-67 fue 5 % para el estroma y 5 %

al 30 % en las células epiteliales. No se encontraron signos de hiperplasia endometrial, atipias o malignidad. Estos hallazgos confirmaron el diagnóstico de síndrome catamenial secundario a implantes endometriósicos en pulmones y diafragma.

La paciente permaneció hospitalizada en condiciones estables y sin episodios de dolor, por lo que fue dada de alta al quinto día, iniciando tratamiento de forma inmediata con análogos de la hormona liberadora de gonadotropinas mensual por 3 meses. Durante el seguimiento, la paciente no ha presentado recurrencia de los síntomas. Las concentraciones de CA-125 se han mantenido dentro de valores normales durante el seguimiento.



FIGURA 4. IMAGEN MICROSCÓPICA DE LA HISTOLOGÍA DE LA LESIÓN, EN LA QUE SE OBSERVA LA PRESENCIA DE ESTROMA Y GLÁNDULAS DE TIPO ENDOMETRIAL (COLORACIÓN HEMATOXILINA – EOSINA 40X).



DISCUSIÓN

La endometriosis es la presencia de tejido endometrial fuera de la cavidad uterina. Por lo general, se encuentra en la pelvis, pero puede ocurrir en cualquier otra parte del cuerpo, incluido abdomen, tórax, piel y sistema nervioso central⁽⁴⁾. Entre 5 % y 10 % de las mujeres en edad reproductiva y 2 % a 5 % de las menopáusicas tienen diagnóstico de esta condición. La endometriosis torácica es rara. Su prevalencia ha sido subestimada en la literatura hasta la última década⁽⁵⁾.

El síndrome de endometriosis torácica es una patología por la cual el tejido endometrial ectópico se deposita en las estructuras torácicas y está caracterizado por compromiso clínico torácico como neumotórax catamenial (73 %), hemotórax catamenial (14 %), hemoptisis catamenial (7 %) y nódulos pulmonares en relación con el ciclo menstrual, pero sin evidencia histológica clara⁽⁶⁾. La endometriosis pélvica está presente en 30 % a 50 % de los casos. El neumotórax puede ser catamenial y no catamenial. Aquellos de tipo catamenial son los más comunes, ya que representan 31 % a 35 % de los casos, mientras que los de neumotórax no catamenial son difíciles de diagnosticar y generalmente solo pueden ser identificados durante la cirugía⁽⁷⁾.

A pesar de la asociación entre neumotórax y menstruación, los investigadores no han podido encontrar explicación única sobre la fisiopatología.

Existen varias teorías para explicar la causa de esta rara condición clínica⁽¹⁾. La primera teoría es el paso trans-diafragmático de aire desde la vagina, a través de las trompas de Falopio, al peritoneo, que llega luego a la cavidad torácica a través de defectos o porosidades diafragmáticas. La ausencia de tapón mucoso cervical permite la comunicación entre la cavidad peritoneal y el exterior a través del cuerpo uterino y las trompas de Falopio. La segunda teoría es la fuga activa de aire proveniente de los implantes endometriales situados en la pleura. Otra teoría es derivada de las altas concentraciones de prostaglandinas durante el período menstrual. Esto causa vasoconstricción tanto vascular como bronquial, que conduce a lesión traumática y rotura alveolar, lo que eventualmente resultaría en fuga de aire de las vías aéreas⁽⁸⁻¹⁰⁾.

El neumotórax catamenial puede pasar desapercibido. Por eso es importante realizar la historia clínica y examen físico completo en toda paciente con neumotórax espontáneo recurrente. La sintomatología clínica más frecuente incluye dolor torácico (ocurre con mayor frecuencia y en 90 % de los casos), seguido de disnea (31%), hemoptisis (7 %) y tos (poco frecuente), que generalmente ocurren en las 72 horas siguientes al inicio de la menstruación^(2,6). Los síntomas de endometriosis pélvica asociada pueden ser leves y pasar desapercibidos, por lo que puede ser difícil el diagnóstico. El examen físico puede mostrar los sonidos respiratorios disminuidos o ausentes en el lado afectado.

El neumotórax catamenial puede diferenciarse del espontáneo por 4 elementos clínicos: neumotórax del lado derecho, antecedentes de endometriosis pélvica, edad mayor o igual a 31 años y ausencia de antecedentes de hábito tabáquico. Además, los antecedentes de hemoptisis durante el período menstrual pueden ser un indicador de endometriosis pulmonar. Estas características tienen un elevado valor predictivo para diferenciar neumotórax relacionado al síndrome de endometriosis torácica con el neumotórax espontáneo⁽¹¹⁾.

La posible explicación de un mayor número de casos en el hemitórax derecho puede estar relacionada con el movimiento en sentido horario del tejido endometrial dentro del líquido peritoneal, desde la pelvis a lo largo del canal paracólico derecho hasta el espacio subfrénico.



Dos fuerzas contribuyen a este movimiento: el ligamento falciforme que impide el movimiento hacia la izquierda y los cambios en la presión intraperitoneal durante la respiración, lo que hace que el hemidiafragma derecho se contraiga sobre el hígado. Esto genera un efecto similar a un pistón, potenciando el movimiento del tejido endometrial debajo del hemidiafragma derecho⁽¹²⁾. Sin embargo, existen informes de neumotórax tanto del lado izquierdo como bilateral⁽¹³⁾.

El estudio por imágenes inicial del neumotórax catamenial es la radiografía de tórax, en la que se puede observar neumotórax, derrames pleurales o nódulos pulmonares. En algunos casos, el neumoperitoneo también podría estar asociado al neumotórax. En tales casos, la tomografía computarizada de alta resolución del tórax es útil para proporcionar información sobre lesiones como opacidades o nódulos de vidrio esmerilado. Por otro lado, la resonancia magnética es más sensible que la tomografía computarizada, ya que es capaz de detectar los productos sanguíneos dentro de los depósitos endometriales y sangre durante la menstruación (hiperintensa en eco de gradiente T2), pero tiene menor resolución espacial. La broncoscopia aísla efectivamente las lesiones ubicadas en las vías respiratorias, pero no puede ser utilizada para detectar las lesiones ubicadas en el parénquima pulmonar, pleura o diafragma⁽⁶⁾.

La histología de las lesiones endometriósicas confirman el diagnóstico al mostrar inflamación y macrófagos cargados de hemosiderina junto a linfocitos, plasmocitos y macrófagos. Las células mesoteliales se modifican por estímulos reactivos inflamatorios y a veces se observa fibrosis. Los hallazgos histológicos típicos consisten en glándulas endometriales proliferativas y estroma, cuya presencia es indicativa de endometriosis⁽¹¹⁾.

A pesar de conocer múltiples teorías del origen del neumotórax catamenial, es difícil decidir qué tratamiento es útil a largo plazo. El objetivo principal es eliminar los síntomas agudos con aspiración del aire en el espacio pleural y colocación del tubo de toracotomía. El objetivo secundario es la prevención de las recurrencias con cirugía y / o supresión hormonal ovárica. Los procedimientos terapéuticos iniciales incluyen oxígeno

de apoyo, observación y descanso si el colapso pulmonar es pequeño. En casos de colapso mediano o grande puede ser necesaria la aspiración manual o por tubo torácico⁽⁶⁾. Las recurrencias pueden tratarse de forma más intensa con agentes esclerosantes. Existen varios procedimientos quirúrgicos que incluyen ablación pleural, resección de ampollas apicales e implantes parenquimatosos, resección de implantes diafragmáticos y cierre de los poros diafragmáticos⁽¹⁴⁾. La calidad del diagnóstico ha mejorado debido a la cirugía toracoscópica asistida por video. Tanto el diagnóstico como el tratamiento quirúrgico relacionado con el neumotórax, incluidos el catamenial y la endometriosis, se pueden lograr fácilmente con esta técnica⁽⁷⁾. No obstante, la cirugía o el tratamiento médico solo conducen a tasas de respuesta subóptimas⁽¹⁵⁾.

Diferentes estudios muestran que estos casos pueden ser tratados con diferentes fármacos, como los agonistas de la hormona liberadora de gonadotropinas (GnRH), danazol y dienogest⁽¹⁵⁾. Los agonistas de la GnRH actúan modificando la retroalimentación del eje hipotálamo – hipofisis – ovario, reduciendo la secreción de la hormona luteinizante y foliculoestimulante, produciendo una condición de pseudomenopausia u ooforectomía médica -al disminuir la producción de estrógenos-, llevando a inactivación y degeneración de los implantes endometriósicos. El danazol, un andrógeno sintético, produce alteración en el metabolismo de los estrógenos. El dienogest, por otro lado, es una progestina oral que disminuye la producción de estrógenos. Los agonistas de GnRH son tan efectivos como el danazol en el tratamiento de la endometriosis pélvica con menos efectos secundarios⁽¹⁴⁾.

En conclusión, el neumotórax catamenial es una causa rara, pero importante, de neumotórax recurrente en mujeres en edad reproductiva. El diagnóstico es difícil debido a los hallazgos clínicos y radiológicos poco consistentes, ya que la condición es generalmente secundaria al síndrome de endometriosis torácica en el cual tejido endometriósico está presente en el tórax, generalmente en el diafragma. La única asociación temporal que conduce al diagnóstico es el dolor torácico y la disnea durante menstruación. La recurrencia puede ser controlada con diagnóstico precoz y tratamiento de la endometriosis pélvica.



REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Junejo SZ, Singh Lubana S, Shina SS, Tuli SS. A case of thoracic endometriosis syndrome presenting with recurrent catamenial pneumothorax. *Am J Case Rep.* 2018;19:573-6. doi: 10.12659/AJCR.907964
2. Aissa S, Benzarti W, Alimi F, Gargouri I, Salem HB, Aissa A, et al. Catamenial pneumothorax revealing diaphragmatic endometriosis: a case report and revue of literature. *Pan Afr Med J.* 2017;27:112. doi: 10.11604/pamj.2017.27.112.8007
3. Saito T, Saito Y, Fukumoto KJ, Matsui H, Nakano T, Taniguchi Y, et al. Clinical and pathological characteristics of spontaneous pneumothorax in women: a 25-year single-institutional experience. *Gen Thorac Cardiovasc Surg.* 2018;66(9):516-22. doi: 10.1007/s11748-018-0952-8
4. Visouli AN, Darwiche K, Mpakas A, Zarogoulidis P, Papaniannis A, Tsakiridis K, et al. Catamenial pneumothorax: a rare entity? Report of 5 cases and review of the literature. *J Thorac Dis.* 2012;4 Suppl 1:17-31. doi: 10.3978/j.issn.2072-1439.2012.s006
5. Chamié LP, Blasbalg R, Pereira RM, Warmbrand G, Serafini PC. Findings of pelvic endometriosis at transvaginal US, MR imaging, and laparoscopy. *Radiographics.* 2011;31(4):E77-100. doi: 10.1148/rg.314105193
6. Voláková E, Kolek V, Kufa J, Zatloukal J, Chudáček J, Szkorupa M, et al. Catamenial pneumothorax - case reports and literature review. *Ceska Gynekol.* 2017;82(4):308-12.
7. Alifano M. Catamenial pneumothorax. *Curr Opin Pulm Med.* 2010;16(4):381-6. doi: 10.1097/MCP.0b013e32833a9fc2
8. Nezhat C, Lindheim SR, Backhus L, Vu M, Vang N, Nezhat A, et al. Thoracic endometriosis syndrome: A review of diagnosis and management. *JSLS.* 2019;23(3). pii: e2019.00029. doi: 10.4293/JSLS.2019.00029
9. Inam H, Inam S, Tahir M. Catamenial pneumothorax: A case report. *J Pak Med Assoc.* 2016;66(10):1327-9.
10. Makhija Z, Marrinan M. A case of catamenial pneumothorax with diaphragmatic fenestrations. *J Emerg Med.* 2012;43(1):e1-3. doi: 10.1016/j.jemermed.2009.05.023
11. Haga T, Kataoka H, Ebana H, Otsuji M, Seyama K, Tatsumi K, et al. Thoracic endometriosis-related pneumothorax distinguished from primary spontaneous pneumothorax in females. *Lung.* 2014;192(4):583-7. doi: 10.1007/s00408-014-9598-1
12. Meyers MA. Distribution of intra-abdominal malignant seeding: dependency on dynamics of flow of ascitic fluid. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med.* 1973;119(1):198-206.
13. Takahashi R, Kurihara M, Mizobuchi T, Ebana H, Yamanaka S. Left-sided catamenial pneumothorax with thoracic endometriosis and bullae in the alveolar wall. *Ann Thorac Cardiovasc Surg.* 2017;23(2):108-12. doi: 10.5761/atcs.cr.16-00112
14. Sugimura K, Sasaki O, Shinoda M, Kawasaki S, Shinkai M. Catamenial pneumothorax: a cause of monthly breathlessness. *Lancet.* 2019;394(10202):952. doi: 10.1016/S0140-6736(19)32094-X
15. Ichiki Y, Nagashima A, Yasuda M, Takenoyama M, Toyoshima S. Surgical treatment of catamenial pneumothorax: Report of three cases. *Asian J Surg.* 2015;38(3):180-5. doi: 10.1016/j.asjsur.2013.09.014