

Neumotórax catamenial secundario a endometriosis pleural. Estudio clínico-patológico e inmunohistoquímico de un caso

Mauricio Brindis Zavaleta,¹ Sergio Piña Oviedo,^{2,3} Javier Baquera Heredia,¹ León Green,⁴
Carlos Ortiz Hidalgo^{1,2}

RESUMEN. Presentamos un caso de neumotórax catamenial en una mujer de 48 años de edad. La paciente se presentó con disnea, dolor pleurítico y neumotórax espontáneo, que coincidieron con la vecindad de su ciclo menstrual. La paciente fue sometida a pleurotomía derecha con abrasión pleural de la pleura parietal, incluyendo la pleura mediastinal. El examen histológico demostró que la lesión presentó nidos de células que semejan las glándulas y el estroma endometrial. Por inmunohistoquímica, los núcleos de las células glandulares endometriales fueron positivos a los receptores de estrógenos y progesterona y las células estromales fueron fuertemente positivas al marcador CD10. La etiología del neumotórax catamenial no está clara, sin embargo, la ruptura de bulas durante los cambios hormonales, ruptura secundaria a la broncoconstricción alveolar inducida por prostaglandinas e implantes ectópicos del endometrio en la pleura visceral durante la menstruación con escape de aire como resultado, han sido implicados. El neumotórax catamenial debe sospecharse en cualquier mujer con neumotórax y dolor unilateral con derrame pleural serohemático, disnea, tos y neumotórax derecho recurrente después o al principio de una menstruación.

Palabras clave: Neumotórax catamenial, endometriosis, inmunohistoquímica.

ABSTRACT. We present a case of catamenial pneumothorax in a 48-year-old woman. The patient presented with dyspnea, pleuritic pain and spontaneous pneumothorax, which coincided with the onset of menses. She underwent a right pleurotomy with pleural abrasion of the whole parietal pleura, including the mediastinal pleura. A histological examination showed that the lesion presented sheets of cells resembling endometrial glands and endometrial stroma. Immunohistochemically, the nuclei of the endometrial glands were positive for estrogen and progesterone receptors and stromal cells were strongly positive for CD10. The etiology of catamenial pneumothorax is unclear, however, spontaneous rupture of blebs during hormonal changes, alveolar rupture due to prostaglandin-induced bronchiolar constriction, and sloughing of ectopic endometrial implants in the visceral pleura during menstruation with resultant air leaks have been implicated. Catamenial pneumothorax should be suspected in any woman with pneumothorax and unilateral pain with serohemorrhagic pleural effusion, dyspnea, coughing and recurrent right-sided pneumothorax after the onset of menstruation.

Key words: Catamenial pneumothorax, endometriosis, immunohistochemical.

INTRODUCCIÓN

¹ Departamento de Patología Quirúrgica. The American British Cowdray Medical Center, México.

² Laboratorio de Biología Tisular y Celular. Escuela de Medicina, Universidad Panamericana, México.

³ Instituto de Hematopatología, México.

⁴ Departamento de Cirugía. The American British Cowdray Medical Center, México.

Correspondencia y solicitud de sobretiros:

Dr. Carlos Ortiz Hidalgo.

Departamento de Patología, Centro Médico ABC

Sur 136 Núm. 116 Las Américas, Ciudad de México. 01120, México

Teléfono/Fax: (55) 5230-8171

E-mail: mmbz75@gmail.com

La endometriosis torácica comprende cuatro entidades clínicas bien reconocidas que incluyen: 1) el neumotórax catamenial, 2) el hemotórax catamenial, 3) la hemoptisis catamenial y 4) los nódulos endometrióticos pulmonares.^{1,2} El neumotórax espontáneo secundario a endometriosis (neumotórax catamenial, gr. καταμνίος: «mensual») es un colapso recurrente del pulmón que con frecuencia ocurre en mujeres 72 horas antes o después de que se presente la menstruación.¹ Este síndrome fue descrito en 1958 por Maurer, Schaal y Méndez, en una paciente con neumotórax espontáneo recurrente, secundario a endometriosis del diafragma.³ Existen varias hipótesis acer-

ca de la patogénesis del neumotórax catamenial, sin embargo, aún no se ha establecido una causa definitiva.⁴ En la literatura se han reportado menos de 100 casos de esta entidad.^{3,5-10} En este trabajo describimos un caso de neumotórax catamenial secundario a endometriosis que afecta la pleura con demostración histológica e inmunohistoquímica de ambos componentes del endometrio: estromal y glandular.

REPORTE DE CASO

Una mujer de 48 años de edad (gesta 3, para 3) ingresó al Centro Médico ABC en la ciudad de México, con disnea progresiva y dolor torácico. La paciente estaba próxima al inicio de su ciclo menstrual y tenía el antecedente que 7 años antes, había presentado episodio de neumotórax espontáneo que se había presentado previo a su menstruación. Además tenía antecedentes de endometriosis pélvica y miomatosis uterina. A la exploración física la paciente presentó taquipnea moderada (18 x min) con saturación de oxígeno (SaO_2) de 95%. Los exámenes de sangre demostraron niveles bajos de hemoglobina (11.1 g/dL) con MCV y MCHC normales, el resto de los estudios de laboratorio se encontraron dentro de los límites normales. La radiografía de tórax reveló la presencia de neumotórax derecho inferior que involucraba aproximadamente el 25% del hemitórax (Figura 1A-B). La paciente

fue sometida a pleurotomía derecha con abrasión total de la pleura parietal y pleura mediastinal. El examen macroscópico reveló numerosas áreas pálidas café-amillentas de forma circular, sobre la superficie pleural, que medían aproximadamente 3-4 mm de diámetro; no había alteraciones diafragmáticas. Posterior a la pleurotomía el pulmón se re-expandió y se colocó un tubo pleural para drenaje torácico y la cavidad torácica fue cerrada. El sangrado pleural fue mínimo y no se presentaron complicaciones durante la cirugía. La evolución clínica de la paciente fue satisfactoria y se dio de alta 4 días posteriores a procedimiento quirúrgico.

La pleura parietal derecha removida pesó 51 g y mostraba numerosas áreas azul-violáceo tanto en la superficie interna como en la externa. Histológicamente se identificaron glándulas endometriales compuestas por epitelio columnar rodeado por estroma endometrial, inmerso en tejido fibroso pleural denso con datos de hemorragia antigua y reciente (Figura 1C-D). El estroma endometrial estaba formado por células fusiformes pequeñas con núcleo de redondo a oval, citoplasma inconspicuo y edema intercelular en proporciones variables. Por inmunohistoquímica, los núcleos de las células glandulares endometriales fueron intensamente positivos para receptores de estrógenos (Bio SB, 1:250) y progesterona (Bio SB, 1:100) (Figura 2A), y el citoplasma de las células estromales fue positivo al CD10 (Bio SB, 1:10) (Figura 2B).

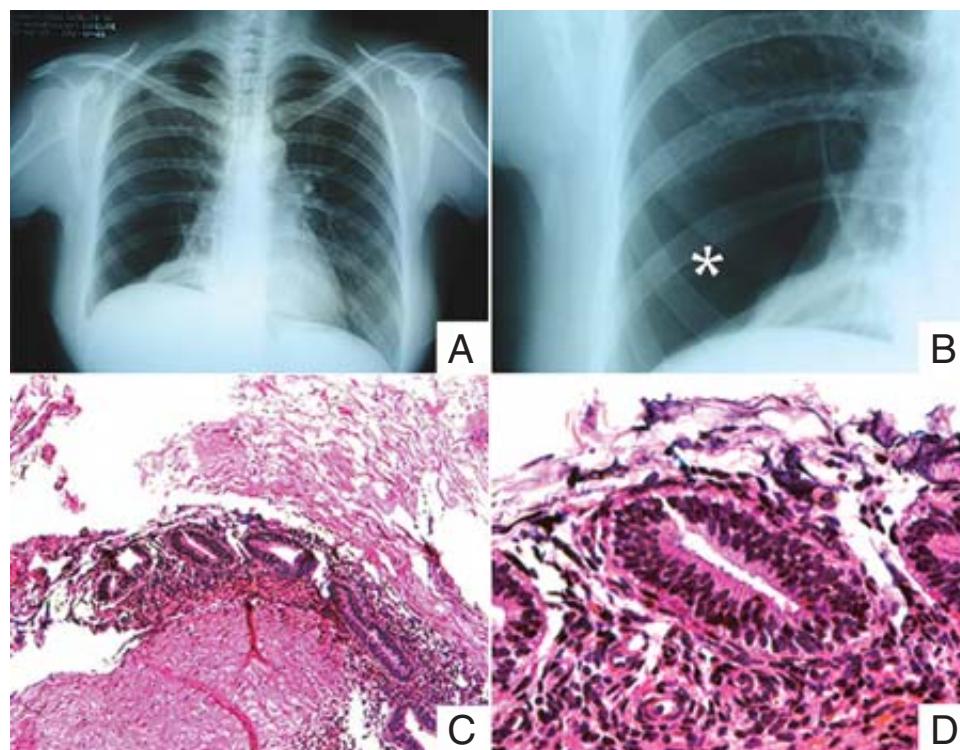


Figura 1. A) Radiografía de tórax que muestra la presencia de neumotórax derecho inferior que compromete menos del 25% del hemitórax. B) Acercamiento de la imagen anterior (el asterisco señala el área del neumotórax). C) y D) Nidos de células que semejan glándulas endometriales y estroma endometrial con vasos sanguíneos pequeños y delgados (H&E, 100X y 400X, respectivamente).

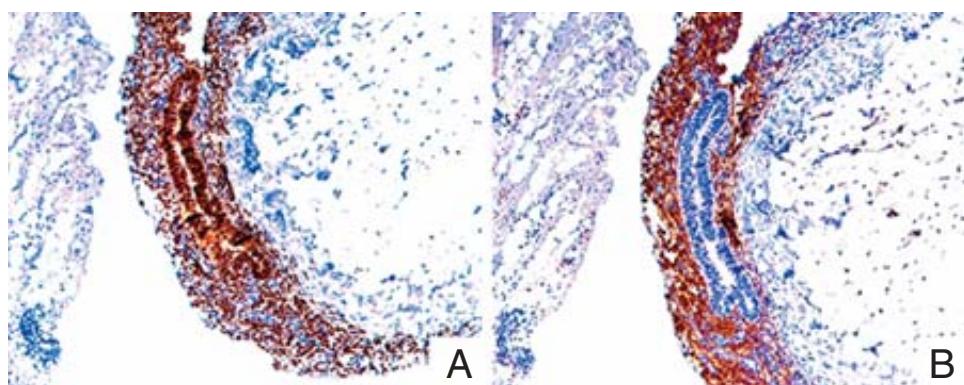


Figura 2. Inmunohistoquímica. A) Núcleos de glándulas endometriales con positividad fuerte y difusa para receptores de estrógenos (100X). B) El citoplasma de las células estromales endometriales con positividad difusa para el marcador CD10 (100X).

DISCUSIÓN

La endometriosis pleural es una alteración que afecta a mujeres en edad reproductiva y que ocurre 72 horas antes o después del inicio de un periodo menstrual.^{3-5,10} Hasta 80% de estos casos coexisten con endometriosis pélvica. La endometriosis pleural usualmente se manifiesta como neumotórax catamenial o hemotórax, presentando dolor torácico y disnea como síntomas principales. Maurer y colaboradores describieron el neumotórax recurrente espontáneo, secundario a endometriosis diafragmática en 1958, el termino neumotórax catamenial fue establecido por Lillinton, Mitchell y Word¹¹ en 1972. Se puede establecer un diagnóstico presuntivo en base a los hallazgos clínicos, sin embargo la evaluación histológica es requisito para el diagnóstico definitivo.

En este trabajo presentamos el caso de una paciente con neumotórax recurrente que se presenta en asociación a la menstruación. En el examen histológico se puede advertir la presencia de glándulas y estroma endometrial en la pleura con datos de hemorragia reciente y antigua.

Tanto la endometriosis pleural como la parenquimato- sa se manifiestan usualmente como lesión solitaria que con mayor frecuencia se presenta en el hemitórax derecho en relación al hemitórax izquierdo. La endometriosis pleural con frecuencia puede afectar también la superficie diafragmática. El neumotórax recurrente asociado con la menstruación es la forma más frecuente de presentación de la endometriosis torácica y puede estar asociada a hemoptisis en caso de enfermedad parenquimatoso. Otros síntomas incluyen disnea, tos y dolor torácico unilateral que puede exacerbarse con la posición y durante la menstruación.^{4,12}

En las radiografías de tórax o tomografía axial computarizada (TAC), las lesiones de la endometriosis torácica pueden aparecer como pequeños defectos quísticos o condensaciones, y pueden variar de tamaño durante el ciclo menstrual. En algunos casos, los estudios de ima-

gen en tórax pueden ser completamente normales o las lesiones pueden incluso desaparecer.¹³ La TAC durante la menstruación puede aumentar la sensibilidad para la detección de esta entidad.¹³⁻¹⁵

La patogénesis exacta de la endometriosis torácica se desconoce, existen hipótesis que sugieren que la endometriosis pleural resulta de la metaplasia local del epitelio pleural (metaplasia celómica), o por el paso transdiafragmático de fragmentos endometriales después de embolización linfática o vascular, o por menstruación retrógrada.^{12,16}

El tratamiento médico ha sido considerado de primera línea para el manejo de la endometriosis torácica, sin embargo si el neumotórax o hemotórax llegan a ser significativos, la pleurodesis química, la pleurotomía o resecciones pulmonares segmentarias pueden llegar a ser necesarias.^{8,12,13} Algunos estudios han demostrado que los defectos diafragmáticos con frecuencia se presentan en pacientes con neumotórax catamenial, por ello la exploración quirúrgica puede ser necesaria para inspeccionar el diafragma e identificar todos los defectos anatómicos en pacientes que continúen experimentando neumotórax.^{12,18}

En resumen, el neumotórax catamenial debe sospecharse en toda mujer con neumotórax y dolor torácico unilateral con derrame pleural serohemático, disnea, tos y neumotórax derecho recurrente antes o después del inicio de la menstruación.^{12,13,17}

REFERENCIAS

1. Vodicka J, Spindlen V. Spontaneous pneumothorax. Cas Lek Cesk 2006; 145: 611-18.
2. Alifano M, Trisolini R, Cancellieri A, Regnard JF. Thoracic endometriosis: current knowledge. Ann Thorac Surg 2006; 81: 761-69.
3. Maurer ER, Schaal JA, Mendez FL. Chronic recurring spontaneous pneumothorax due to endometriosis of the diaphragm. JAMA 1958; 168: 2013-14.

4. Wang HC, Kuo PH, Kuo SH, Luk KT. Catamenial hemoptysis from tracheobronchial endometriosis: reappraisal of diagnostic value of bronchoscopy and bronchial brush cytology. *Chest* 2000; 118: 1205-08.
5. Van Schil PE, Vercauteren SR, Vermeire PA, Nackaerts YH, Van Marck EA. Catamenial pneumothorax caused by thoracic endometriosis. *Ann Thorac Surg* 1996; 62: 585-6.
6. Blanco S, Hernando F, Gómez A. Catamenial pneumothorax caused by diaphragmatic endometriosis. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1998; 116: 179-80.
7. Carter EJ, Ettenson DB. Catamenial pneumothorax. *Chest* 1990; 98: 713-716.
8. Shiraishi T. Catamenial pneumothorax: report of a case and review of the Japanese and non-Japanese literature. *Thorac Cardiovasc Surg* 1991; 39: 304-7.
9. Slasky BS, Siewers RD, Lecky JW, Zajko A, Burkholder JA. Catamenial pneumothorax: the roles of diaphragmatic defects and endometriosis. *AJR Am J Roentgenol* 1982; 138: 639-43.
10. Yamashita J, Iwasaki A, Kawahara K, Shirakusa T. Thoracoscopic approach to the diagnosis and treatment of diaphragmatic disorders. *Surg Laparosc Endosc* 1996; 6: 485-8.
11. Lillington GA, Mitchell SP, Wood GA: Catamenial pneumothorax. *JAMA* 1972; 219: 1328-32.
12. Alifano M, Roth T, Broët SC, Schüssler O, Magdeleinat P, Regnard JF. Catamenial pneumothorax: a prospective study. *Chest* 2003; 124: 1004-8.
13. Honoré GM: Extrapelvic endometriosis. *Clin Obstet Gynecol* 1999; 42: 699-11.
14. Kiyan E, Kilicaslan Z, Caglar E, Yilmazbayhan D, Tabak L, Gürgan M. An unusual radiographic finding in pulmonary parenchymal endometriosis. *Acta Radiol* 2002; 43: 164-6.
15. Chung SY, Kim SJ, Kim TH, et al. Computed tomography findings of pathologically confirmed pulmonary parenchymal endometriosis. *J Comput Assist Tomogr* 2005; 29: 815-8.
16. Witz CA. Current concepts in the pathogenesis of endometriosis. *Clin Obstet Gynecol* 1999; 42: 566-85.
17. Peikert T, Gillespie DJ, Cassivi SD. Catamenial pneumothorax. *Mayo Clin Proc* 2005; 80: 677-80.
18. Leong AC, Coonar AS, Lang-Lazdunski L. Catamenial pneumothorax: Surgical repair of the diaphragm and hormone treatment. *Ann R Coll Surg Engl* 2006; 88: 547-9.