



Síndrome de endometriosis torácica una patología desafiante. Reporte de un caso y revisión narrativa de la literatura

Correspondencia: Instituto de Medicina Tropical - Facultad de Medicina - Universidad Central de Venezuela.

Consignado el 02 de Mayo del 2021 a la Revista Vitae Academia Biomédica Digital.

RESUMEN

La endometriosis torácica se define como la presencia de tejido endometrial ectópico funcional dentro de la cavidad torácica, asociado a fibrosis y a reacción inflamatoria. El hallazgo de implantes endometriales en vía aérea, pleura, pericardio y parénquima pulmonar es una condición rara conocida como Síndrome de Endometriosis Torácica, y se caracteriza por la presencia de neumotórax, hemotórax y/o hemoptisis catamenial y nódulo pulmonar. El neumotórax es la manifestación más frecuente, y suele ser derecho. Es de los pocos casos en los que la radiología simple puede resultarnos de gran ayuda en el diagnóstico de endometriosis torácica. Patología polimórfica y multifocal, con presentación clínica muy heterogénea. Se presenta un caso de una paciente, con antecedentes de endometriosis pélvica diagnosticada por ultrasonido pélvico quien acudió a la sala de emergencia por presentar cuadro clínico de dolor torácico con características pleuríticas irradiado a la región

escapular derecha, que se inicia durante las siguientes 72 horas después de la menstruación, disnea la cual se torna progresiva. Se le practica radiografía (Tele de tórax PA), la cual reveló la presencia de una imagen con visualización de la línea pleural, compatible con neumotórax derecho, ingresándose con el diagnóstico de Neumotórax catamenial espontáneo derecho Grado II. Decidiéndose intervención quirúrgica por lo que la paciente fue sometida a toracotomía posterolateral derecha se realiza resección del segmento apical y abrasión pleural mecánica. En el estudio anatomo-patológico se informó tejido fibroso pleural denso con datos de hemorragia reciente y antigua con presencia de estroma endometrial compatible con el diagnóstico de Síndrome de endometriosis torácica: Endometriosis Pulmonar

PALABRAS CLAVE: :Endometriosis, extrapélvica, torácica, neumotórax, catamenial

THORACIC ENDOMETRIOSIS SYNDROME A CHALLENGING PATHOLOGY. REPORT OF A CASE AND NARRATIVE REVIEW OF THE LITERATURE

SUMMARY

Thoracic endometriosis is defined as the presence of functional ectopic endometrial tissue within the thoracic cavity, associated with fibrosis and inflammatory reaction. The finding of endometrial implants in the airway, pleura, pericardium and lung parenchyma is a rare condition known as Thoracic Endometriosis Syndrome, and is characterized by the presence of pneumothorax, hemothorax and/or catamenial hemoptysis and pulmonary nodule. Pneumothorax is the most frequent manifestation, and it is usually right-sided. It is one of the few cases in which plain radiology can be of great help in the diagnosis of thoracic endometriosis. It is a polymorphic and multifocal pathology, with a very heterogeneous clinical presentation. We present a case of a patient with a history of pelvic endometriosis diagnosed by pelvic ultrasound. She went to the emergency room for presenting clinical picture of chest pain with pleuritic features radiating to the right scapular region, which began during the next 72 hours after menstruation, dyspnea which became progressive. An X-ray (PA chest X-ray) was performed, which revealed the presence of an image with visualization of the pleural line, compatible with right pneumothorax, being admitted with the diagnosis of right spontaneous catamenial pneumothorax Grade II. Surgical intervention was decided and the patient underwent a right posterolateral thoracotomy, resection of the apical segment and mechanical pleural abrasion. In the anatomopathological study dense pleural fibrous tissue was reported with data of recent and old hemorrhage with presence of endometrial stroma compatible with the diagnosis of thoracic endometriosis syndrome: Pulmonary Endometriosis.

KEY WORDS: Endometriosis, extrapelvic, thoracic, pneumothorax catamenial

SÍNDROME DE ENDOMETRIOSIS TORÁCICA UNA PATOLOGÍA DESAFIANTE. REPORTE DE UN CASO Y REVISIÓN NARRATIVA DE LA LITERATURA

INTRODUCCIÓN

La endometriosis es definida como un proceso invasivo, no neoplásico, caracterizado por la presencia de tejido endometrial, generalmente funcionante activo, fuera de la cavidad

endometrial de forma localizada, dando lugar a quistes endometriósicos, o como implantes diseminados, dentro de la cavidad abdominal, donde la localización más frecuente es la ovárica y la de la serosa peritoneal. Con menor frecuencia afecta al cérvix, vagina, vulva y pared abdominal. Excepcionalmente, se han descrito lesiones en tracto gastrointestinal, aparato urinario, nódulos linfáticos, pulmones, páncreas, hígado, cerebro y piel. Desde el punto de vista anatomo-patológico es similar al endometrio ectópico, con presencia de glándulas y estroma endometrial, fibrosis y hemorragia, aunque lo que varía son las proporciones de cada uno⁽¹⁾.

Se define la endometriosis como un proceso invasivo, no neoplásico, caracterizado por la presencia de tejido endometrial (glándulas y estroma) por fuera de la cavidad uterina, no obstante, para que se cumpla la definición, el tejido debe ser funcional activo.

Histológicamente se hace referencia a la endometriosis “típica” que es aquella que incluye la presencia de glándulas endometriales y estroma circundante y la “atípica” caracterizada por estructuras epiteliales glandulares o células estromales en lesiones no pigmentadas.

Inicialmente la endometriosis fue descrita en dos grupos: La endometriosis interna, actualmente denominada adenomiosis y que corresponde a la presencia de tejido endometrial dentro del miometrio y la endometriosis externa que hace referencia a los implantes que se ubican por fuera del útero. Las características epidemiológicas, clínicas y diagnósticas difieren entre la endometriosis interna y externa. Por lo general la endometriosis externa se presenta en zonas cercanas al útero como son las trompas útero ováricas, ovarios y peritoneo local, pero puede ubicarse en sitios distantes a este, llamándose a este complejo endometriosis extrapélvica o extra genital, la cual es el objeto de esta revisión científica⁽²⁾

Hasta ahora se desconoce si la endometriosis pélvica y extrapélvica corresponde a la misma enfermedad y por lo tanto si el tratamiento debe ser el mismo; en tal percepción, la endometriosis extrapélvica se constituye en una afección o trastorno de considerable complejidad y dificultad diagnóstica, sin un tratamiento de notoria efectividad y con muchas dudas e incógnita sobre su origen y comportamiento como una patología desafiante. La edad más frecuente de diagnóstico es 25-35 años. La prevalencia es del 3 a 15% de la población general, y afecta al 30% de las mujeres sometidas a laparoscopia por infertilidad y al 50% por dolor pelviano⁽¹⁻³⁾

Por lo general la endometriosis se limita a la pelvis, aunque puede ocurrir prácticamente en cualquier sitio, incluida la cavidad torácica. La característica sobresaliente de esta afección es que este tejido sufre, durante el ciclo menstrual, los mismos cambios hormonales que el útero; es decir que los síntomas suelen aparecer cíclicamente relacionados con la menstruación⁽⁴⁾

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⁽⁵⁾

En las últimas décadas los sistemas recomendados para la patogenia de endometriosis

sistémica torácica incluyen metaplasia celómica, menstruación retrógrada, movimiento del tejido endometrial, teoría de células madre, microembolización con los capilares pélvicos y drenaje linfático inusual. Uno de los conceptos más ampliamente aprobados implica la migración de tejido endometrial al tórax con la circulación de líquido peritoneal, la microembolización de tejido que circula por las correderas parietocólicas hasta el espacio subdiafragmático apropiado y luego a través de las aberturas diafragmáticas hereditarias u obtenidas hacia el tórax. También se ha implicado una inmunidad deficiente, tanto celular como humoraral (3-5).

Sin embargo, su epidemiología, el diagnóstico, y la historia natural de la endometriosis extrapélvica parecen diferir un poco de la endometriosis pélvica. Permanece incierto si las lesiones distantes de los sitios pélvicos tengan la misma fisiopatología, y si las mismas modalidades diagnósticas y terapéuticas son las apropiadas. La prevalencia real de la endometriosis extrapélvica es desconocida, aunque es ciertamente más rara que la pélvica.

La endometriosis pélvica fue clasificada por la Sociedad Americana de Fertilidad, en 1985⁽⁶⁾, sin embargo, no existe ningún sistema uniformemente aceptado para clasificar la endometriosis extrapélvica. Un sistema de clasificación ha sido sugerido por Markham⁽⁷⁾)dividiendo la endometriosis extrapélvica en cuatro clases: clase **I** designada como enfermedad del tracto gastrointestinal; clase **U**, a la de los órganos del tracto urinario; clase **L**, a la enfermedad pulmonar y torácica; y clase **O** que se refiere a todos los demás sitios. Además, las clases se subdividen basándose en la existencia de enfermedad intrínseca o extrínseca y en el tamaño de las lesiones. Este sistema de clasificación no ha sido ampliamente utilizado

La endometriosis torácica es la presencia de tejido endometrial ectópico funcional dentro de la cavidad torácica, fue descrita por primera vez en 1938 por Swartz. La enfermedad torácica, que es el caso al que se hará referencia, 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 cílicos, se presenta 24-48 h alrededor de la menstruación, lo que para algunos autores este dato es patognomónico. Los síntomas más frecuentes son neumotórax catamenial, dolor torácico, disnea y hemoptisis. Además, el 60-80% tiene asociada endometriosis pelviana

Se han descrito dos tipos de endometriosis torácica: la pleural y la parenquimatoso, que dan origen a cuatro tipos de cuadro clínico: (a). Neumotórax catamenial, (b). Hemotórax catamenial, (c) Hemoptisis catamenial, y (d). Nódulo endometriósicos pulmonares, con una frecuencia respectiva de 7 y 6% ⁽⁸⁾

La endometriosis pleural es la más común; habitualmente está asociada con dolor torácico y disnea, pero también puede estar asociada con neumotórax catamenial, hemotórax catamenial o ambos. El neumotórax catamenial es la manifestación más frecuente de la endometriosis torácica (80 % de las endometriosis torácicas se manifiestan como neumotórax catamenial). Descrito en 1958, por Maurer, Schaal y Méndez, el neumotórax espontáneo recurrente secundario a endometriosis (neumotórax catamenial, gr. ???vio?: "mensual") es un colapso recurrente del pulmón que con frecuencia ocurre en mujeres 72 horas antes o después del inicio de la menstruación, pero que no ocurre necesariamente con cada ciclo

menstrual. Se produce con la presencia de actividad menstrual cíclica, aunque puede aparecer aun durante el tratamiento de reemplazo hormonal (9).

El momento en que aparecen los signos y síntomas aquí y ahora del síndrome de endometriosis torácica hace posible que las pacientes se clasifiquen como catameniales o no catameniales. Las distinciones entre el enfoque de seguimiento aplicado a las pacientes catamenial y no catamenial se derivan de las diferencias sustanciales en los signos y síntomas de presentación en ambos grupos. Aunque el dolor de la parte superior del tórax fue uno de los signos y síntomas más típicos en ambos grupos, en el grupo catamenial se acompañó de disnea (52,2%), así como neumotórax recurrente (78,9%). Asimismo, en el grupo catamenial, la presencia de un síntoma diferenciador como el neumotórax, hizo que los pacientes fueran más propensos a acudir a los servicios médicos hospitalarios, donde más necesitaba la intervención médica (7-9)

El cuadro clínico se presenta como disnea (31%), dolor torácico (90%), hemoptisis (7%), neumotórax (73%), hemotórax (14%) y nódulos pulmonares (6%). El antecedente de endometriosis pélvica que se encuentra en una mujer con Neumotórax catamenial sustenta el diagnóstico de endometriosis pulmonar. No hay signos radiológicos específicos que indiquen una endometriosis. En la literatura se describen lesiones parenquimatosas, nódulos o bullas. En el 67% también se presenta hemoptisis y se ha reportado dismenorrea incapacitante previa en todas las mujeres con hemotórax y nódulos pulmonares (11,12)

Hoy en día siguen existiendo muchas incógnitas sobre el síndrome de endometriosis torácica, una realidad que incurre en su diagnóstico y también en su seguimiento. Hasta que el estudio de investigación disipe la fisiopatología del síndrome de endometriosis torácica y/o hasta que se descubra un biomarcador no invasivo específico, el diagnóstico y también la terapia contarán con la información científica disponible (10)

El propósito del presente artículo de investigación es presentar un caso, dado lo infrecuente y lo desafiante que es esta patología y los pocos reportes que se encuentran en la literatura científica, se decidió publicar este caso haciendo énfasis en el manejo quirúrgico tomar muestras para el estudio histopatológico, lo cual nos permitió descartar otras etiologías. Así mismo se hace una revisión de la literatura.

PRESENTACIÓN DE CASO CLÍNICO

Paciente de 38 años, sin antecedente de tabaquismo ni de enfermedades respiratoria, en la historia gineco-obstétrica I gesta, I para sin complicaciones aparentes, menarquía a los 12 años de edad, ciclos menstruales irregulares asociados a dismenorrea y metrorragias ocasionales. con antecedentes de endometriosis pélvica diagnosticada por ultrasonido pélvico el cual reportaba como datos positivos una imagen anecoica de cuatro por cinco centímetros en anexo derecho compatible con endometrioma bajo tratamiento con anticonceptivo oral para suprimir la ovulación, al igual que análogos de la GnRH como el acetato de leuprolide o el danazol ®

Quien acudió a la emergencia de centro médico privado por cuadro clínico de dolor torácico de características pleuríticas irradiado a la región escapular derecha, que se inicia durante las siguientes 72 horas después del inicio de la menstruación, con disnea la cual se torna progresiva. A la exploración física la paciente presentó taquipnea moderada (19 x min) con saturación de oxígeno (SaO_2) de 88%. Al examen físico a la auscultación respiratoria se aprecia disminución del murmullo vesicular en el campo pulmonar del hemitórax derecho, asociada a timpanismo. Los exámenes de sangre demostraron niveles bajos de hemoglobina (11.5g/dL), el resto de los estudios de laboratorio se encontraron dentro de los límites normales. Se le practica radiografía (Tele de tórax PA), la cual reveló la presencia de una imagen de visualización de la línea pleural, no visualización de trama pulmonar, con colección hiperlucida de aire lateral a la línea pleural compatible con neumotórax derecho grado II, se observa moderado derrame de alta densidad que podría ser hemático (Figura. 1). Ingresándose con el diagnóstico de neumotórax catamenial espontáneo derecho Grado II.

Se le practica toracotomía mínima mas avenamiento pleural con salida de abundante burbujeo al sello de agua Atrium®, así como 100 ml de contenido hemático.

En vista de persistir el colapso pulmonar y la fuga aérea persistente, tras 5 días posdrenaje, se decide realizar tomografía computarizada torácica (TCT), que informó de una lesión pleuropulmonar a nivel en la cavidad pleural anterior del vértice del pulmón derecho, de baja densidad (Figura. 2), que debido al contexto clínico podría corresponder a un foco endometriósico.

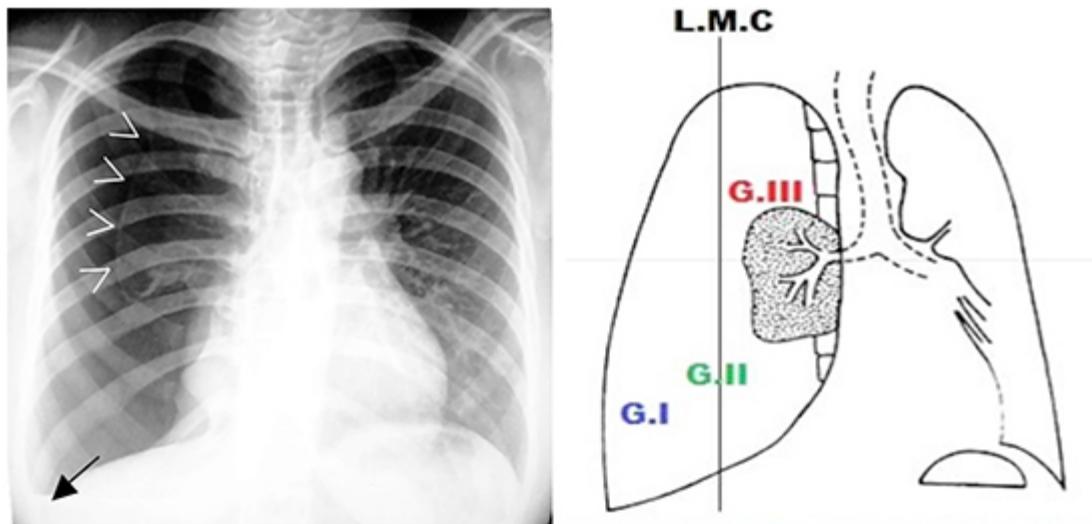


Figura. 1. Radiografía de tórax que muestra la presencia de imagen de visualización de la línea pleural, no visualización de trama pulmonar, con colección hiperlucida de aire lateral a la línea pleural compatible con neumotórax derecho grado II, (las flechas señalan el área del

neumotórax). Se observa moderado derrame de alta densidad que podría ser hemático (flecha negra)

Decidiéndose intervención quirúrgica por lo que la paciente fue sometida a toracotomía posterolateral derecha, se realiza resección del segmento apical superior derecho(**Figura 3**) y abrasión pleural mecánica. Posterior a la segmentectomia apical el pulmón se comprobó la reexpansión pulmonar y se colocó un tubo pleural numero 22 Fr para drenaje torácico con cierre por planos de la cavidad torácica. El sangrado pleural fue mínimo y no se presentaron complicaciones durante la cirugía.

El posoperatorio y la evolución clínica trascurrió con normalidad y la paciente fue dada alta a los tres días posterior al procedimiento quirúrgico.

En el estudio anatomicopatológico se informó en el examen macroscópico: reveló muestra número fragmento tisulares que mide 0.2 x 0,1 cms, marrón grisáceo, blando que corresponde a pleura parietal. Segunda muestra constituida por tejido tisular irregular, en el cual mide 5 x 3 x 1.5 cms, marrón negruzco, consistencia elástica que corresponde a pulmón.

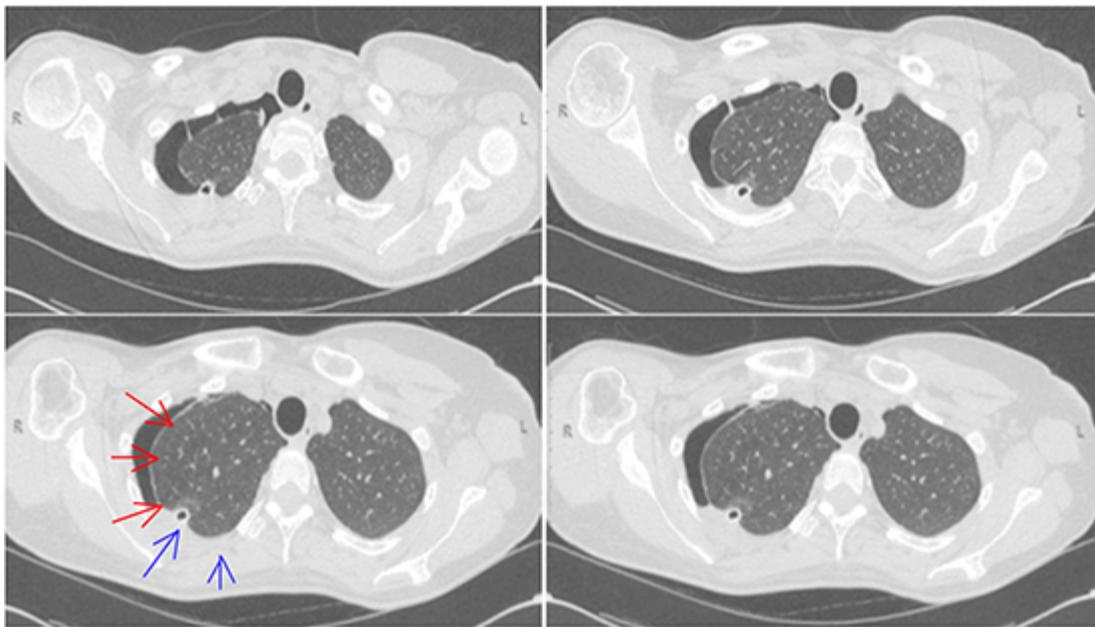


Figura. 2. Tomografía computarizada de tórax que muestra la presencia de una lesión pleuropulmonar a nivel en la cavidad pleural anterior del vértice del pulmón derecho, de baja densidad (flechas azules), asimismo neumotórax (flechas rojas)



Figura 3. Pieza quirúrgica de resección de segmento pulmonar apical derecho por toracotomía posterolateral áreas pálidas café-amarillentas de forma circular, sobre la superficie pleuropulmonar

Al examen microscópico del tejido pleural exhibe marcado engrosamiento fibroso, con denso infiltrado linfoplasmocitario, áreas de hemorragia reciente y antigua representada por macrófagos cargados de hemosiderina, evidenciándose fragmentos de glándulas de aspecto endometrial. El tejido pulmonar exhibe en el espesor nódulo de bordes mal definidos de tejido fibroconectivo denso infiltrado linfoplasmocitario, con áreas de hemorragia reciente y antigua representada por macrófagos cargados de hemosiderina, observándose grupos de glándulas y estroma de aspecto endometrial.

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), y el citoplasma de las células estromales fue positivo al CD10 (Bio SB, 1:10). Ambos hallazgos histopatológicos compatibles con el diagnóstico de **Síndrome de endometriosis torácica: Endometriosis Pulmonar**.

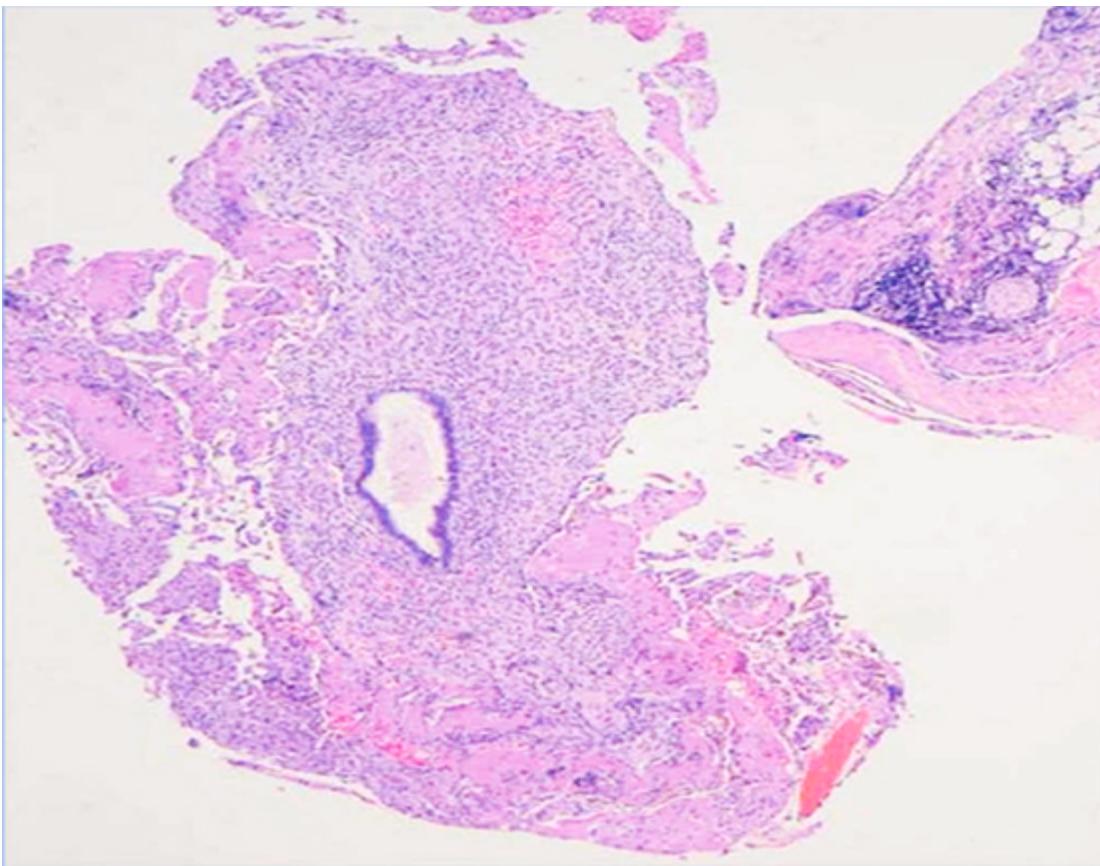


Figura 4. Fotomicrografía Corte histológico de la lesión que muestra la transición y comunicación entre el tejido estroma de aspecto endometrial y un bronquio, asimismo se observa el parénquima pulmonar.

Se instauró tratamiento con análogos de la GnRH, permaneciendo asintomática hasta la actualidad.

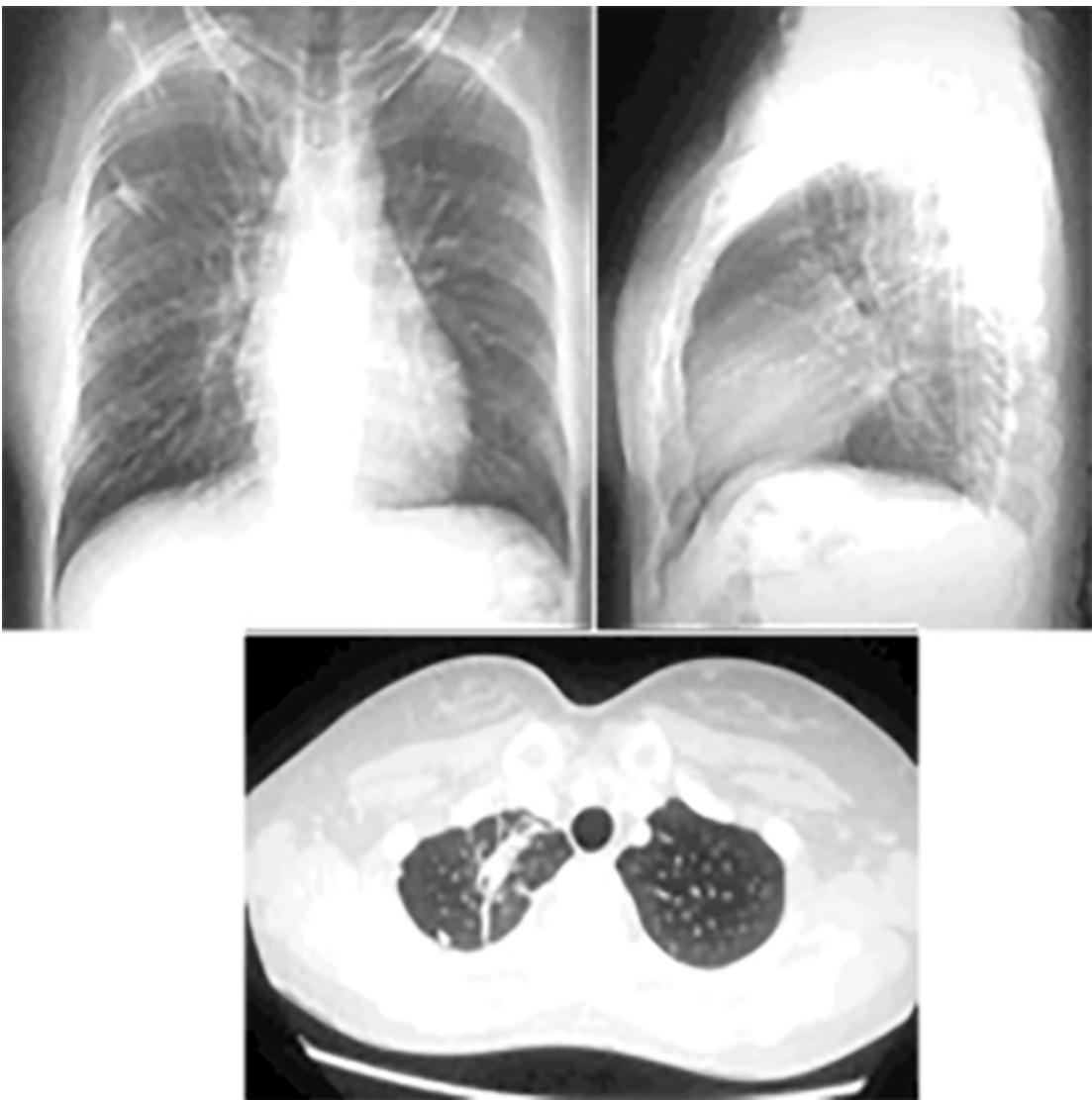


Figura 5. Tele de Tórax PA y lateral. Posoperatoria reexpansión pulmonar. Corte tomográfico axial se aprecia cicatriz de segmentectomía apical derecha

DISCUSIÓN Y CONCLUSIONES

La endometriosis extrapélvica es una enfermedad ginecológica no malformativa de baja frecuencia (menor al 1%), que se caracteriza por la presencia de glándulas endometriales funcionantes y estroma en lugares extrapélvicos, tales como pulmones, pleura, riñones, vejiga, pared abdominal, ombligo y cicatrices de cesárea, entre otros. Con respecto a la endometriosis torácica, se han reportado en la revisión de la literatura algo por encima de 100 casos, que incluyen casos de localización en la vía aérea, el parénquima pulmonar, pleuras o diafragmas.

La mayoría de lesiones se pueden reportar como un nódulo solitario, pero en menor relación también han sido reseñados algunos casos con diseminación miliar. El 90% de las lesiones se encuentran en el pulmón derecho como lo fue en nuestro caso a nivel vérteice, pero cuando el compromiso es de la serosa pleural por lo general esta se ubica sobre la superficie de la zona diafragmática. Su presentación ocurre con más frecuencia hacia los años en promedio y hasta en el 80% de ellas se encuentra de manera concomitante endometriosis pélvica, sobre todo

cuando la presentación se hace a nivel pleural, no así con las lesiones intraparenquimatosas (13).

Pero el proceso fisiopatológico por el cual el tejido endometrial llega a la cavidad torácica permanece desconocido y actualmente es controversial. Las dos rutas propuestas son, los defectos diafragmáticos, más comunes del lado derecho y la microembolización por las venas pélvicas; otros autores mencionan la posibilidad de desarrollar neumoperitoneo y hemoperitoneo secundario al compromiso endometrial de la cavidad abdominal, lo que predispone para la presentación de lesiones en el tórax (14).

La endometriosis torácica podría producir síntomas diferentes según afecte al parénquima o a la pleura. La endometriosis parenquimatosa no produce manifestaciones clínicas en cada ciclo menstrual, sino que puede causar una hemoptisis intermitente. El tiempo promedio entre el inicio de los síntomas y el diagnóstico es de ocho meses y su presentación en estrecha relación con la ocurrencia de la menstruación sugiere el diagnóstico. El dolor torácico, disnea, hemoptisis y tos son algunos de los síntomas que se pueden presentar y que no son específicos para sospechar esta enfermedad, salvo porque en la mayoría de las ocasiones pueden presentarse únicamente durante la menstruación (15).

Durante la realización del examen físico se puede encontrar el clínico a la auscultación pulmonar una acentuada disminución del murmullo vesicular principalmente en el hemitórax derecho, secundario a la presencia de neumotórax, el cual tiende a ser espontáneo, asimismo suele ser recurrente y que puede aparecer entre las 48 a las 72 horas posteriores a la iniciación de un ciclo menstruar, pero que no ocurre necesariamente siempre con cada ciclo menstrual, acontece en mujeres en etapa fértil y que guarda una relación temporal con la menstruación, aunque no siempre se presenta con cada ciclo menstrual (13-15).

Sin embargo, puede suceder que en muchos casos se hace necesaria la relación entre el episodio del neumotórax y el ciclo menstruar los cuales puede ser simultaneo, se requiere múltiples episodios de neumotórax asociados al período perimenstrual para reconocer la entidad. Su incidencia puede corresponder en un 5,6%, se presenta en una edad promedio entre los 32 a los 37 años. El 98,9 % de las pacientes se ve afectada la cavidad pleuropulmonar derecha. Por lo que su prevalencia es de 1 a 5 % en las mujeres que presentan neumotórax transmenstrual. También es posible encontrar signos que revelen la presencia de derrame pleural o hemotórax (16).

Se ha reportado una correlación significativa entre la presencia de neumotórax espontáneo y hemotórax en pacientes con síndrome torácico endometrial. Algunos autores mencionan como fuente primaria de las lesiones a la endometriosis pélvica, que suele encontrarse asociada en un 20 % a 70 % de los casos (17).

Hallazgos clínicos clásicos de este tipo de lesiones, esta signado por la tríada propuesta por Lillington tras observar el comportamiento de varias pacientes y su presentación en más del 90 % que son: las frecuentes recurrencias, el compromiso del hemitórax derecho (90-95 %) y la relación causal con el período menstrual (15, 16).

Esta persistencia sigue y permanece vigentes hoy en día en los casos reportados. Los signos, síntomas y hallazgos patológicos sugestivos de endometriosis a nivel torácico suelen identificarse en el 22 % a 37 % de los casos, asociados con cierta frecuencia (19-33%) con dolor torácico y/o la disnea de moderados esfuerzos, aunque algunas pueden permanecer asintomáticas, así como fenestraciones y adherencias pleurales. En nuestro caso se encontraron lesiones compatibles con tejido endometrial sobre el parénquima pulmonar, así como fenestraciones y adherencias pleurales en el vértice de lóbulo pulmonar derecho (13-17).

En los estudios por imágenes como los rayos X diagnóstico se pueden evidenciar la presencia de derrame pleural, neumotórax o hemotórax y con menor asiduidad diminutas lesiones tipo quísticas que se incrementan o se reducen de tamaño según la fase del ciclo menstrual, que suele ser muy similares a las observadas en la patología tuberculosa pulmonar o en los procesos malignos. Aunque se reportan y hay casos en los que los rayos X pueden ser normales. No obstante, el estudio tomográfico computarizada del tórax es más sensible sobre todo cuando se realiza durante el ciclo menstrual, instante en el cual las lesiones se encuentran aumentadas de tamaño. También ayuda a confirmar la presencia del neumotórax y es más precisa para calcular su grado de colapso; así mismo permite observar si hay implantes endometriales pleurales, pulmonares o diafragmáticos que se ven como lesiones con hipoatenuación y, también, ayuda a identificar nódulos pulmonares únicos o múltiples.

La resonancia magnética (RM) es una alternativa a la tomografía de tórax, con la ventaja que implica menor radiación y permite diferenciar los implantes pleurales de los parenquimatosos (18, 19).

La evidencia clínica o patológica de endometriosis pélvica se demuestra en un 30-60% de los casos, por lo que el diagnóstico definitivo debe incluir la toma de biopsia para estudio histopatológico, lo cual no es posible la mayoría de veces por lo cual es válido ante la sospecha clínica, instaurar una prueba terapéutica. La realización de una toracotomía exploradora puede ayudar, tanto en el diagnóstico definitivo, cuando se visualizan implantes endometriósico pleurales y/o diafragmáticos en el 30-50% de los pacientes, así como en el tratamiento de esta entidad, bien sea con abrasión pleural mecánica o química o pleurotomía (20).

En nuestra paciente fue preciso realizar dichos procedimientos diagnóstico y terapéutico quirúrgico, que informó de la existencia de un implante endometriósico en el vértice pulmonar derecho, que puede haber sido el responsable de la aparición del neumotórax catamenial, el cual fue resecado en su totalidad, reportado la biopsia tejido pulmonar con estroma endometrial.

El manejo terapéutico de la endometriosis torácica puede ser tanto médico como quirúrgico, siendo el tratamiento médico la primera línea terapéutica implementada más comúnmente es interrumpir la secreción de estrógenos con la administración de contraceptivos orales y/o Danazol para la supresión de la ovulación, aunque en muchas ocasiones se observan recidivas tras este tratamiento. Dentro de los problemas asociados a manejo médico exclusivo se encuentra una alta tasa de recurrencia a los seis meses, estimada en 50% de los pacientes tratados. Como sucedió con nuestra paciente.

Sin embargo, Asimismo, se han instalado tratamiento como la ooforectomía bilateral, y danazol, siendo los análogos de GnRH los que obtienen mejores resultados a largo plazo.

Mientras que el manejo quirúrgico consiste en la localización del tejido endometrial ectópico en el pulmón, pleura o diafragma y su resección segmentaria y/o electro cauterización, idealmente de manera mínimamente invasiva. El tratamiento debe encaminarse inicialmente a resolver la complicación que surja de la enfermedad, como por ejemplo la presencia de un neumotórax y/o hemotórax, que obliguen inmediatamente a realizar toracotomía cerrada. La pleurodesis química o la pleurectomía pueden ser procedimientos que disminuyan la posibilidad de hemotórax o neumoperitoneo recurrentes, pero no influyen en la mejoría del dolor torácico o la hemoptisis (21,22).

Sin embargo, la terapéutica implementada más comúnmente es la administración de contraceptivos orales para la supresión de la ovulación, aunque en muchas ocasiones se observan recidivas tras este tratamiento. Asimismo, se han instalado tratamiento como la ooforectomía bilateral, y danazol, siendo los análogos de GnRH los que obtienen mejores resultados a largo plazo (21).

Conclusiones

La endometriosis extrapélvica torácica a pesar de ser infrecuente o poco frecuente, es una enfermedad de difícil comprensión, que puede ocurrir de manera independiente de la endometriosis pélvica, representa una de las patologías desafiantes que es necesario tener en consideración sobre todo en mujeres en edad fértil, con un comportamiento clínico variado lo que dificulta su diagnóstico.

La endometriosis torácica debido al compromiso pleuropulmonar afecta la calidad de vida de las pacientes producto de las complicaciones como la hemoptisis intermitente y el neumotórax catamenial que es una causa sumamente rara de neumotórax espontáneo con muy pocas publicaciones científicas a nivel mundial.

El diagnóstico preoperatorio es difícil, ya que los métodos por imagen pueden sugerir granuloma tuberculoso o metástasis, solo la sospecha clínica y el estudio histopatológico permiten llegar a su confirmación.

Tanto el especialista en ginecología junto al especialista en cirugía de tórax deberá considerar este diagnóstico en su práctica clínica diaria para su manejo terapéutica temprano y oportuno con la finalidad de mejorar la calidad de vida de las pacientes evitando así sus recaídas.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- 1. Ortiz R, Quintero EM. Endometriosis extrapélvica: reporte de tres casos y revisión narrativa de la literatura. MedUNAB 2005; 8:130-136. Disponible en linea en: <https://revistas.unab.edu.co/index.php/medunab/article/view/200>.
- 2. Douglas C, Rotimi O. Extranodal endometriosis a clinicopathological review of a Glasgow hospital experience with case illustrations. J Obstet Gyn 2004; 24 (7): 804.

Disponible en linea en: DOI: 10.1080/01443610400009568.

- 3. Duque Castejón Fernando, Romero Edwuars, Carrillo Livia, Canache Hernández Scarlet. Endometriosis de pared abdominal: a propósito de un caso. Rev Obstet Ginecol Venez [Internet]. 2001 Sep; 61(3): 195-200. Disponible en linea en: http://ve.scielo.org/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0048-77322001000300011&lng=es.
- 4. Castillo Bustamante Johana, Loreto Francisco, Digianmarco Doris, Parada David, Liuzzi Juan Francisco, Mavarez Marlen. Endometriosis perineal malignizada: A propósito de un caso. Rev. venez. oncol. [Internet]. 2007 dic; 19(4): 337-343. Disponible en linea en: http://ve.scielo.org/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0798-05822007000400009&lng=es.
- 5. American Fertility Society. Revised for the American Fertility Society: Classification for the endometriosis. Fertil Steril. 1985; 43:351-352. Disponible en linea en: DOI: 10.1016/s0015-0282(16)48430-x.
- 6. Reyna-Villasmil Eduardo, Torres-Cepeda Duly, Rondon-Tapia Martha. Neumotórax catamenial recurrente. Reporte de caso. Rev. peru. ginecol. obstet. [Internet]. 2020 jul. 66(3): 00015. Disponible en: http://www.scielo.org.pe/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S2304-51322020000300015&lng=es. <http://dx.doi.org/10.31403/rpgov66i2263>.
- 7. Zelada, Ismael. Agüero, Ángel. Lee, Chong. Farina, César. Endometriosis torácica y neumotórax espontáneo. Cir. Parag. [Internet]. 2018; 42(1). Disponible en linea en: DOI: 10.18004/sopaci.2018.abril.38-40,
- 8. Brindis Zavaleta M. Piña Oviedo, S. Baquera Heredia, J. Green L, Ortiz Hidalgo, Carlos. Neumotórax catamenial secundario a endometriosis pleural. Estudio clínico patológico e inmunohistoquímico de un caso. Revista Neumología Y Cirugía de Tórax, 2007; 66(4). Disponible en linea en: <https://www.medigraphic.com/pdfs/neumo/nt-2007/nt074f.pdf>
- 9. Colaut F, Clemente N, De Luca M, Scaffidi G. Catamenial Pneumothorax: A Challenging Diagnosis. Case Report. J. of Respiratory Res. 2017 March; 3(1): 102-104. Disponible en linea en: DOI: 10.17554/j.issn.2412-2424.2017.03.27.
- 10. Hiyama N, Sasabuchi Y, Jo T, Hirata T, Osuga Y, Nakajima J, et al. The threepeaks in age distribution of females with pneumothorax: a nationwidedatabase study in Japan. Eur J Cardiothorac Surg 2018. Disponible en linea en: DOI:10.1093/ejcts/ezy081].
- 11. Lalani S, Black A, Hodge MC, Tulandi T, Chen I. Dienogest Therapy as a Treatment for Catamenial Pneumothorax: Case Report and Review of Hormonal Options. J Obstet Gynaecol Can 2017;-(-):1- 5. Disponible en linea en: DOI: 10.1016/j.jogc.2017.01.014.
- 12. Brosens, P. Puttemans, R. Campo, S. Gordts, J. Brosens. Non-invasive methods of diagnosis of endometriosis. Curr Opin Obstet Gynecol, 15 (2003), pp. 519-522. Disponible en linea en: <http://dx.doi.org/10.1097/01.gco.0000103855.47295.61>
- 13. Alifano, M. Trisolini, R. Cancellieri, A. Regnard. J.F. Thoracic endometriosis: Current knowledge. Ann Thorac Surg, 81 (2006), pp. 761-769. Disponible en linea en: <http://dx.doi.org/10.1016/j.athoracsur.2005.07.044>.
- 14. Ogawa H, Nakayama T, Doi H, Manabe K, Sakaguchi S. A case of pulmonary parenchymal endometriosis. Nihon Kokyuki Gakkai Zasshi 2005;43(3):165-170. Disponible en linea en: <https://europepmc.org/article/med/15801286>.
- 15. Joseph, J. Sahn, S.A. Thoracic endometriosis syndrome: new observations from an analysis of 110 cases. Am J Med, 100 (1996):164-170. Disponible en linea en: DOI:10.1016/s0002-9343(97)89454-5

- 16. Ahmet Ucvet, Esra Yamansavci Sirzai, Funda Cansun Yakut, Banu Yoldas, Soner Gursoy. Endometriosis pulmonar torácica: presentación de 2 casos de una enfermedad muy poco frecuente. Archivos de Bronconeumología (octubre 2014); 50(10): 454-455. Disponible en linea en: DOI: 10.1016/j.arbres.2013.11.018.
- 17. Alifano, M. Trisolini, R. Cancellieri, A. Regnard, JF. Thoracic endometriosis: Current knowledge. Ann Thorac Surg. (2006); 81: 761-769. Disponible en linea en: <http://dx.doi.org/10.1016/j.athoracsur.2005.07.044>.
- 18. Chatra PS. Thoracic endometriosis: a case report J Radiol Case Rep. 2012 Jan;6(1):25-30. Disponible en linea en: DOI: 10.3941/jrcr.v6i1.614. Epub 2012 Jan 1.
- 19. Chung SY, Kim SJ, Kim TH, Ryu WG, Park SJ, Lee DY, Paik HC, Kim HJ, Cho SH, Kim JK, Park KJ, Ryu YH. Computed tomography findings of pathologically confirmed pulmonary parenchymal endometriosis. J Comput Assist Tomogr. 2005 nov-Dec;29(6):815-8. Disponible en linea en: DOI: 10.1097/01.rct.0000176014. 37051.c7.
- 20. Flieder DB, Moran CA, Travis WD, Koss MN, Mark EJ. Pleuro-pulmonary endometriosis and pulmonary ectopic deciduosis: a clinicopathologic and immunohistochemical study of 10 cases with emphasis on diagnostic pitfalls. Hum Pathol. 1998 Dec;29(12):1495-503. Disponible en linea en: DOI: 10.1016/s0046-8177(98)90021-1.
- 21. Nezhat C, Main J, Paka C, Nezhat A, Beyqui RE. Multidisciplinary treatment for thoracic and abdominopelvic endometriosis. JSLS 2014;18(3). Disponible en linea en: DOI:10.4293 / JSLS.2014.00312
- 22. Channabasavaiah AD, Joseph JV. Thoracic endometriosis: revisiting the association between clinical presentation and thoracic pathology based on thoracoscopic findings in 110 patients. Medicine (Baltimore). 2010 May;89(3):183-188. Disponible en linea en: DOI: 10.1097/MD.0b013e3181df67d5. PMID: 20453605.
- 23. Nezhat C, Lindheim SR, Backhus L, Vu M, Vang N, Nezhat A, Nezhat. Thoracic endometriosis Syndrome: A review of Diagnosis and Management. C.JSLS. 2019 Jul-Sep;23(3): e2019.00029. Disponible en linea en: DOI: 10.4293/JSLs.2019.00029.