

## Casos Clínicos

### Endometriosis diafragmática: a propósito de un caso

Raúl Berríos Silva<sup>1</sup>, Constanza Bulboa Foronda<sup>4</sup>, Raimundo Santolaya Cohen<sup>1,3</sup>, Pedro Felipe Undurraga Machicao<sup>1,2,3</sup>, Pablo Pérez Castro<sup>2,3</sup>, César Sandoval Sepúlveda.<sup>5</sup>

<sup>1</sup>Cirugía Torácica, Facultad de Medicina, Clínica Alemana – Universidad del Desarrollo. <sup>2</sup>Cirugía Torácica, Departamento de Cirugía Occidente, Universidad de Chile, Hospital San Juan de Dios. <sup>3</sup>Departamento de Cirugía Oriente, Hospital del Salvador, Universidad de Chile. <sup>4</sup>Médico General, Universidad de Chile. <sup>5</sup>Departamento de Ginecología, Clínica Alemana – Universidad del Desarrollo. Santiago, Chile.

#### RESUMEN

*Antecedentes:* La endometriosis afecta entre 5 al 15% de las mujeres en edad reproductiva. La presentación torácica es una entidad de baja frecuencia (menos del 1% de todos los casos de endometriosis), y puede localizarse en vía aérea, parénquima, pleuras o diafragma. Sus manifestaciones clínicas habitualmente se presentan dentro de las primeras 72 horas del inicio de la menstruación y consisten en dolor torácico, neumotórax o hemoptisis. El mejor manejo consiste en supresión hormonal y manejo quirúrgico en casos refractarios. *Objetivos:* Describir un caso de endometriosis diafragmática tratada satisfactoriamente por videotoracoscopia. *Caso Clínico:* Mujer de 27 años, con antecedentes de endometriosis ovárica operada con electrofulguración dos años previo. Consulta por omalgia derecha y dado antecedentes de endometriosis pélvica, se solicita TAC torácico, que informa formación sólida, ovoídea, de 30 mm x 13 mm, que capta contraste en forma parcial ubicado en la región subdiafragmática derecha. Se interpreta imagen como posible foco de endometriosis, se complementa con RNM que es concordante con el diagnóstico. Se realiza videotoracoscopia derecha con resección diafragmática y reparación primaria. Anatomía patológica informa focos de endometriosis con márgenes negativos. Se retira la pleurostomía a las 48 horas, siendo dada de alta a los tres días. A un año de seguimiento, está asintomática y sin evidencia de recidiva. *Conclusión:* A pesar de su baja frecuencia, la endometriosis torácica representa un importante compromiso de la calidad de vida. Casos con complicaciones torácicas, con regular o deficiente respuesta a terapia hormonal, se benefician de resolución quirúrgica por vía mínimamente invasiva.

**PALABRAS CLAVE:** *Endometriosis, endometriosis torácica, videotoracoscopia*

#### SUMMARY

*Background:* Endometriosis affects between 5 to 15% of women of reproductive age. Thoracic presentation entity is infrequent (less than 1% of all cases of endometriosis) and may be located in airway parenchyma, pleura or diaphragm. Its clinical manifestations usually occur within the first 72 hours of onset of menstruation and include chest pain, pneumothorax or hemoptysis. Better management consists of hormonal suppression and surgical management in refractory cases. *Objective:* To describe a case of diaphragmatic endometriosis, successfully treated by video-assisted thoracoscopic surgery (VATS). *Case report:* Woman of 27 years old, with a history of ovarian endometriosis operated by electrofulguration two years before. She present right omalgia and a history of pelvic endometriosis. Chest CT report a solid, ovoid formation, 30 mm x 13 mm, which captures contrast partially, located in the right sub diaphragmatic region. Image is interpreted as a possible focus of endometriosis, it is complemented by RNM that is consistent with the diagnosis. It is performed VATS right with diaphragmatic resection and primary repair. Pathology reports endometriosis with negative margins. The pleurostomy is removed after 48 hours, she was discharged after

three days. A one year follow up, it is asymptomatic and without evidence of recurrence. *Conclusion:* Despite its low frequency, the thoracic endometriosis represents an important commitment to the quality of life. Cases with chest complications, and with fair or poor response to hormone therapy, benefit with minimally invasive surgical resolution.

**KEYWORDS:** *Endometriosis, thoracic endometriosis, videothoracoscopy*

## INTRODUCCIÓN

La endometriosis se define como la presencia de tejido endometrial fuera de la cavidad uterina. Afecta predominantemente a mujeres en edad reproductiva, con una incidencia global entre 5-15% de la población femenina (1). A pesar de corresponder a una patología habitualmente circunscrita a la pelvis, puede también existir compromiso de tejidos extra-pelvianos, representando un 9% del total de casos (2). Entre las diferentes ubicaciones, se encuentra el tracto gastrointestinal (32,3%), el tracto urinario (5,9%), y otros sitios (61,8%), que incluyen cicatrices abdominales, hígado, vesícula biliar, páncreas, mamas, pleura y pulmón (2,3).

La afectación torácica por endometriosis es una entidad de baja frecuencia (menor al 1%), y puede localizarse en vía aérea, parénquima, pleuras o diafragma (4).

Los factores de riesgo, que probablemente se relacionan con una mayor exposición a la menstruación, son edad temprana de menarquia, ciclo menstrual corto, larga duración del flujo menstrual, nuliparidad, e historia familiar (5,6). Por lo general, se presenta como nódulos pulmonares, neumotórax, hemotórax, hemoptisis, dolor torácico y neumomediastino, presentando los síntomas en relación al ciclo menstrual. El neumotórax catamenial es la manifestación más común de endometriosis diafragmática en los casos reportados en la literatura. El síntoma más común de la endometriosis torácica es dolor torácico, seguido por omalgia derecha (6).

Los mecanismos patogénicos de la endometriosis torácica aún no están totalmente dilucidados. Existen varias teorías entre ellas la implantación retrograda, micro-embolización hematogena endometrial, o la metaplasia del epitelio celómico, ninguna de ella aceptada en su totalidad (7,8).

El diagnóstico de endometriosis torácica puede ser laborioso y tardío, especialmente en el contexto de un nódulo pulmonar. Por lo tanto el diagnóstico endometriosis torácica, se basa en un cuadro clínico sugerente, idealmente en combinación imágenes torácicas y la confirmación de hallazgos intraoperatorios (9,10).

La verificación histológica del tejido endometrial confirma el diagnóstico de endometriosis, aunque no siempre es posible. Por lo que en estos casos, el diagnóstico suele establecerse sobre bases

clínicas y la exclusión de otras enfermedades pulmonares (11).

La radiografía de tórax puede revelar derrame pleural u opacidades nodulares, que son hallazgos inespecíficos. La Tomografía Computarizada de tórax (TAC tórax) es el método de elección para la localización de depósitos endometriales en el pulmón y la pleura (10). Aunque los hallazgos no son específicos, la endometriosis torácica puede incluir imágenes en vidrio esmerilado, lesiones nodulares, cavidades de pared delgada o bullas (10). Las lesiones pleurales son casi exclusivamente del lado derecho, mientras que las lesiones pulmonares pueden ubicarse en cualquier localización (6-12).

El manejo de la endometriosis torácica puede ser tanto médico como quirúrgico, siendo el tratamiento médico la primera línea terapéutica. El objetivo es interrumpir la secreción de estrógenos mediante uso de anticonceptivos orales y/o Danazol (13). 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 (14).

El manejo quirúrgico consiste en la localización del tejido endometrial ectópico en el pulmón, pleura o diafragma y su resección segmentaria y/o electrocauterización, idealmente de manera mínimamente invasiva (15,16).

El objetivo de esta comunicación es presentar un caso clínico de una paciente joven con endometriosis diafragmática tratada en forma satisfactoria por videotoracosopia.

## Caso Clínico

Mujer de 27 años, usuaria de anticonceptivos orales, con antecedentes de endometriosis ovárica operada hace dos años (electrofulguración). Derivada por omalgia derecha y dado antecedentes de endometriosis pélvica, se solicita TAC de tórax, que informa formación sólida, ovoidea, de 30 mm x 13 mm, que capta contraste en forma parcial y se ubica en la región subdiafragmática derecha, entre el diafragma y el parénquima hepático. Se interpreta imagen como posible foco de endometriosis ectópica, se complementa con RNM, la cual es concordante con el diagnóstico.

Se decide videotoracoscopía (VATS) derecha mediante incisión accesoria de 4 cm y dos puertos

accesorios. Como hallazgos se evidencian placas blanquecinas en relación a diafragma (Figura 1). Se realiza resección diafragmática con electrobisturí (Figura 2) y reparación primaria mínimamente invasiva (Figura 3). Se envía muestra a anatomía patológica, que informa focos de endometriosis, con márgenes negativos. Paciente evoluciona de manera favorable. Se retira la pleurostomía a las 48 horas, siendo dada de alta a los tres días postoperatorios. Se indica tratamiento con anticonceptivos orales. A un año de seguimiento sin evidencias de recidiva y asintomática.



Figura 1. Placas blanquecinas compatibles con implantes endometriales en superficie diafragmática.



Figura 2. Resección de implante endometrial diafragmático con electro bisturí.



Figura 3. Frenorrafia con Ethibond 1.0 punto corrido por vía videotoracoscópica.

## DISCUSIÓN

La entidad clínica descrita causa síntomas característicos que se correlacionan con el ciclo menstrual y que se pueden asociar a lesiones torácicas ubicadas tanto en pulmón, pleura y diafragma (3-16).

Es conocido que la mayoría de los pacientes con endometriosis torácica tienen endometriosis pélvica previamente (16), como es el caso de nuestra paciente. En un estudio retrospectivo, realizado por Nezhat y cols (17), se observó que la edad media del diagnóstico de la endometriosis torácica era de 37,7 años, con una media de tiempo de 10 años desde el diagnóstico inicial de la endometriosis pélvica.

El tratamiento de la endometriosis diafragmática debe ser individualizado sobre la base de la edad de la paciente, extensión y localización de las lesiones y la sintomatología específica. Con respecto al tratamiento hormonal, este está destinado a crear un ambiente hormonal desfavorable para el crecimiento y mantenimiento del endometrio mediante la inducción de pseudo-embarazo o una pseudo-menopausia. Los productos utilizados en la literatura para la endometriosis torácica son los anticonceptivos orales, danazol y los análogos de la hormona liberadora de gonadotropina (18).

El tratamiento quirúrgico se justifica por las recaídas frecuentes en el tratamiento médico aislado. La cirugía consiste en la reparación diafragmática y la escisión de todos los implantes endometriales aparentes. Una terapia hormonal combinada prolongada se recomienda cada vez más, para evitar las recurrencias (16).

En un estudio realizado por David y cols (12), se analizó la respuesta quirúrgica de los pacientes con endometriosis diafragmática sintomática, obteniendo una mejoría de los síntomas en el 100% de las pacientes y una curación completa de los síntomas en el 88% de las intervenidas mediante laparoscopia.

La videotoracoscopia es una técnica mínimamente invasiva que permite el diagnóstico y tratamiento de la endometriosis, observando directamente los implantes y nódulos en el diafragma y permite reseca implantes en parénquima o implantes diafragmáticos. Esta técnica fue la utilizada en nuestra paciente con una mejoría total de los síntomas y sin antecedentes de recidiva al año de seguimiento (17).

## CONCLUSIÓN

La endometriosis torácica a pesar de ser infrecuente, representa un importante compromiso de la calidad de vida de las pacientes. Casos con complicaciones torácicas con regular o deficiente respuesta a la terapia hormonal se benefician con

la resolución quirúrgica, idealmente por vía mínimamente invasiva como es la videotoracoscopia.

## REFERENCIAS

1. Woodward PJ, Sohaey R, Mezzetti TP Jr. Endometriosis: radiologic-pathologic correlation. *Radiographics* 2001;21(1):193-16.
2. Hwang SM, Lee CW, Lee BS, Park JH. Clinical features of thoracic endometriosis: A single center analysis. *Obstet Gynecol Sci* 2015;58(3):223-31.
3. Augoulea A, Lambrinouadaki I, Christodoulakos G. Thoracic endometriosis syndrome. *Respiration* 2008;75(1):113-9.
4. Chatra PS. Thoracic endometriosis: a case report. *J Radiol Case Rep* 2012;6(1):25-30.
5. Bennett GL, Slywotzky CM, Cantera M, Hecht EM. Unusual manifestations and complications of endometriosis-spectrum of imaging findings: pictorial review. *Am J Roentgenol* 2010;194(6 Suppl):34-46.
6. Ceccaroni M, Roviglione G, Rosenberg P, Pesci A, Clarizia R, Bruni F, Zardini C, Ruffo G, Placci A, Crippa S, Minelli L. Pericardial, pleural and diaphragmatic endometriosis in association with pelvic peritoneal and bowel endometriosis: a case report and review of the literature. *Videosurgery and Other Miniinvasive Techniques [Wideochir Inne Tech Maloinwazyjne]*. 2012;7(2):122-31.
7. Vercellini P, Abbiati A, Vigano P, Somigliana ED, Daguati R, Meroni F, Crosigniani PG. Asymmetry in distribution of diaphragmatic endometriotic lesions: evidence in favour of the menstrual reflux theory. *Human Reprod* 2007;22(9):2359-67.
8. Russell P, Farnsworth A. Mullerianosis and reactive mesothelial lesions. *Surgical pathology of the ovaries*. Churchill Livingstone, New York 1997; 195-207.
9. Azizad Pinto P, Clarke D. Thoracic endometriosis syndrome: case report and review of the literature. *Perm J* 2014;18(3):61-5.
10. Lee YR, Choi YW, Jeon SC, Paik SS, Kang JH. Pleuropulmonary endometriosis: CT-Pathologic Correlation. *Am J Roentgenol* 2006;186(6):1800-1.
11. Honoré GM. Extrapelvic endometriosis. *Clin Obstet Gynecol* 1999;42(3):699-711.
12. Redwine DB. Diaphragmatic endometriosis: diagnosis, surgical management, and long-term results of treatment. *Fertil Steril* 2002;77(2):288-96.
13. Hagneré P, Deswarte S. Thoracic endometriosis: A difficult diagnosis. *Rev Mal Respir* 2011;28(7):908-12.
14. Joseph J, Sahn AS. Thoracic endometriosis: new observations from an analysis of 110 cases. *Am J Med* 1996;100(2):164-70.
15. Yamashita J, Iwasaki A, Kawahara K, Shirakusa T. Thoracoscopic approach to the diagnosis and treatment of diaphragmatic disorders. *Surg Laparosc Endosc* 1996;6(6):485-88.
16. Nunes H, Bagan P, Kambouchner M, Martinod E. Thoracic endometriosis. *Rev Mal Respir* 2007;24(10):1329-40.
17. Nezhat C, Main J, Paka C, Nezhat A, Beyqui RE. Multidisciplinary treatment for thoracic and abdominopelvic endometriosis. *JLS* 2014;18(3).pii: e2014.00312.