

Pneumotórax catamenial, fenestrações diafragmáticas e endometriose: considerações sobre um caso

Catamenial pneumothorax, diaphragmatic fenestrations and endometriosis: considerations of a case

Paula Corrales Grigol¹; Carolina Elisabete da Silva Meregé²; Paola Nalini Paschoalin¹

Luiz Flávio Quinta Jr.³; Francisco Assis Cury⁴

¹Graduada em Medicina pela Faculdade de Medicina de São José do Rio Preto (FAMERP).

²Médica residente em Proctologia do Hospital de Base de São José do Rio Preto

³Médico residente em Cirurgia Torácica do Hospital de Base de São José do Rio Preto

⁴Doutorado em Cirurgia Torácica. Docente do Departamento de Cirurgia, Faculdade de Medicina de São José do Rio Preto (FAMERP).

Departamento de Cirurgia Torácica – Hospital de Base, Faculdade de Medicina de São José do Rio Preto

Resumo **Introdução:** O Pneumotórax catamenial é a manifestação clínica mais comum de Endometriose Torácica. Essa é uma entidade rara e subdiagnosticada e deve se cogitada em mulheres em idade reprodutiva ou em uso de Reposição Hormonal, com episódios de pneumotórax recorrentes que se apresentam entre 48 a 72 horas antes da menstruação. Os defeitos diafragmáticos estão presentes em uma porcentagem significativa de casos, mas ainda não foi comprovado se esses são primários e participam da formação do Pneumotórax Catamenial ou secundários a implantes de tecido endometrial na pleura. **Apresentação do Caso:** Descrevemos o caso de uma mulher de 31 anos, com histórico de três episódios de pneumotórax nos últimos dois anos no hemitórax direito. Esses episódios ocorreram próximos ao período menstrual e após a paciente cessar o uso de anticoncepcional hormonal oral. No interrogatório complementar, a paciente relatou dismenorreia e dificuldade para engravidar. Submetida a uma videotoroscopia foram encontradas fenestrações diafragmáticas e aderências pleurais sem visualização de focos de endometriose. A alta ocorreu no segundo dia de pós-operatório, com anticoncepcional hormonal oral de uso contínuo e ininterrupto. Após 12 meses, a paciente está assintomática e sem recidivas. **Conclusão:** Este relato reforça a hipótese de que as fenestrações diafragmáticas são possíveis meios de passagem de ar para a cavidade torácica no pneumotórax catamenial.

Palavras-chave Pneumotórax; Menstruação; Endometriose.

Abstract **Introduction:** Catamenial pneumothorax is the most common clinical manifestation of thoracic endometriosis. Catamenial pneumothorax is a rare and underdiagnosed condition. It should be considered in women of reproductive age or in use of Hormone Replacement, with recurrent episodes of pneumothorax presenting between 48 to 72 hours before menstruation. The diaphragmatic defects are present in a significant percentage of cases. It has not yet been established whether they are primary defects and participate in the formation of catamenial pneumothorax, or they are secondary defects to implants of endometrial tissue in the pleura. **Case report:** We describe the case of a 31-year-old woman with a history of three episodes of pneumothorax in the past two years in the right hemithorax. These episodes occurred near the menstrual period and after the patient ceased using oral contraceptives. On further investigation, the patient reported dysmenorrhea and difficulty becoming pregnant. The patient underwent a video-assisted thoracoscopic surgery, and we found diaphragmatic fenestrations and pleural adhesions. However, we could not visualize endometriotic foci. Patient was discharged on the second postoperative day. We instructed the patient to make continuous use of oral hormonal contraceptive without hormonal free intervals. Twelve months after the surgery, the patient is asymptomatic and without recurrence of the episodes. **Conclusion:** This report supports the hypothesis that the diaphragm fenestrations are possible passageways of air into the thoracic cavity in catamenial pneumothorax.

Keywords Pneumothorax; Menstruation; Endometriosis.

Recebido em 23/08/2013

Aceito em 18/09/2013

Não há conflito de interesse

Introdução

O Pneumotórax Catamenial foi descrito pela primeira vez em 1958 por Maurer et al¹. É uma condição rara, afetando entre 2 a 30% das mulheres². A sua fisiopatologia ainda é incerta. Deve-se suspeitar dessa entidade em mulheres em idade reprodutiva ou em uso de Reposição Hormonal, com episódios de pneumotórax recorrentes que se apresentam entre 48 a 72 horas antes da menstruação.

Neste relato, apresentamos o caso de uma mulher jovem com pneumotórax recidivante, com achado de fenestrações diafragmáticas, sem comprovação anatomopatológica de endometriose pulmonar. Os dados clínicos e intraoperatórios nos levam ao diagnóstico de pneumotórax catamenial.

Relato de Caso

Paciente do sexo feminino, 31 anos, previamente hígida, encaminhada ao ambulatório de Cirurgia Torácica do Hospital de Base de São José do Rio Preto por apresentar episódios recorrentes de pneumotórax espontâneo nos últimos dois anos. O primeiro episódio foi em abril de 2010, no hemitórax direito. A paciente foi tratada com drenagem em selo d'água. O segundo, novamente no hemitórax direito, foi em junho de 2010. Optou-se pelo tratamento conservador, com repouso durante 30 dias. O último, também no hemitórax direito, foi em fevereiro de 2011. Novamente, foi tratado com drenagem em selo d'água e a paciente encaminhada ao nosso serviço, para melhor investigação.

A paciente estava assintomática no momento da consulta e negou trauma torácico, história de tabagismo ou asma. No entanto, relatou proximidade dos episódios com o período menstrual e interrupção do uso de anticoncepcional oral um ano antes do início dos episódios, retornando o uso após o último episódio em 2011. Além disso, relatou dificuldade para engravidar e dismenorreia. Ao exame físico, apresentava apenas murmúrio vesicular levemente diminuído, no terço inferior do hemitórax direito. A paciente realizou ultrassom abdominal, com resultado normal.

A paciente foi submetida a uma videotoroscopia eletiva em outubro de 2011, na qual foram encontradas fenestrações diafragmáticas e aderências pleurais em ápice pulmonar e seio costofrênico (Figura 1). Durante o procedimento as fenestrações



Figura 1 – Toracoscopia evidenciando Fenestrações Diafragmáticas.

foram devidamente tratadas. A paciente não apresentou intercorrências e recebeu alta no segundo dia de pós-operatório com anticoncepcional oral de uso ininterrupto. O exame anatomopatológico das peças de diafragma e pleura não revelou presença de foco de endometriose ou sinais de malignidade. Após 12 meses de cirurgia, a paciente não apresentou novos episódios de pneumotórax.

Discussão

O pneumotórax catamenial (PC) é a principal manifestação da Endometriose Torácica (ET)³. Acredita-se que essa entidade tenha sua prevalência e incidência subestimadas^{4,5}. Estudos demonstram que 3-6% dos casos de pneumotórax recidivante são decorrentes da ET⁶. O quadro clínico é composto por dor torácica em 90% dos casos e por dispneia em 72%⁷. O pneumotórax, na grande maioria dos casos, acomete o hemitórax direito⁷⁻⁸ em mulheres com idade média entre 32 a 37 anos^{4,9}.

A associação entre endometriose pélvica (EP) com ET não é consensual. Rousset-Jablonski et al realizou um estudo com 49 mulheres diagnosticadas com PC e relatou que 51% das pacientes tinham EP associada⁷. Por outro lado, Channabasavaiah et al compilou 110 relatos de casos de ET e EP, revelando que não há associação significativa entre ET e EP, podendo ocorrer de maneira independente ou concomitante¹⁰. A fisiopatologia do PC ainda permanece incerta, havendo hipóteses ou modelos para explicá-la.

Rossi e Goplerud¹¹ formularam uma hipótese na observação de altos níveis de Prostaglandina F2 e mudanças no epitélio respiratório de acordo com a época do ciclo menstrual. Assim, consideraram que os altos níveis de Prostaglandina F2 levam a um vasoespasmó com isquemia de vasos pulmonares associado à broncoespasmó. Esse fato poderia romper alvéolos e levar a um pneumotórax. Entretanto, o uso contínuo de Anti-Inflamatórios Não Esteroides não preveniu recidivas do PC¹². Além disso, essa hipótese não explica o predomínio de episódios no hemitórax direito¹³.

Outro modelo proposto¹⁴⁻¹⁵ tem como base a perda do tampão mucoso cervical com conseqüente comunicação da cavidade peritoneal com o meio externo. Ocorre um influxo de ar da cavidade peritoneal até o espaço pleural, por meio das fenestrações ou defeitos diafragmáticos, que são mais comuns do lado direito. Alguns dados corroboram essa hipótese, como a baixa taxa de recidiva de PC após cirurgia de reparo dos defeitos diafragmáticos⁴, a predominância do lado direito⁷⁻⁸ e relatos de pneumotórax pós-parto¹⁶ e pós-coito¹⁷. Por outro lado, temos relatos de pacientes hysterectomizadas¹⁸ e com histórico de ligadura tubária¹² que desenvolveram PC, indicando que os defeitos diafragmáticos são conseqüências de áreas de involução de tecido endometrial¹⁸⁻¹⁹.

O modelo metastático propõe a migração do tecido endometrial pela cavidade peritoneal até o espaço pleural vias linfática e hematogênica ou por fenestrações diafragmáticas¹³. Como estas ocorrem mais do lado direito, explicaria a preponderância do PC no hemitórax direito. Outra hipótese é que o tecido endometrial seja depositado na cavidade torácica, durante o desenvolvimento embriológico³⁻⁴.

O Diagnóstico não costuma ser imediato, com um período médio de 19 meses⁷. A videotoroscopia é indicada naquelas

pacientes com pneumotórax recorrente, apesar do uso de Terapia Hormonal. Korom et al relata que 16,3% das mulheres diagnosticadas com PC apresentavam lesões diafragmáticas sem endometriose e 24,5% apresentavam focos de endometriose diafragmáticos associados⁵. Embora haja, por antagonismo, uma alta prevalência de defeitos diafragmáticos em pacientes com PC (50-62,5%)^{4,9}.

Até o momento, não há dados suficientes para elaboração de diretrizes terapêuticas no PC por ET¹³. Para alguns, deve-se iniciar a terapêutica exclusivamente com hormonioterapia²⁰⁻²¹, porém outros autores demonstram uma alta taxa de recidiva³. A videotoroscopia também é indicada, focando principalmente na ressecção de implantes de tecidos endometriais e na correção dos defeitos diafragmáticos^{5,13,22}. Diante do significativo índice de recidiva²², a pleurodese química associada a hormonioterapia no pós-operatório é utilizada com bons resultados²³⁻²⁵.

Conclusão

O caso relatado faz parte de uma entidade rara e subdiagnosticada. Observamos uma paciente que apresentou três episódios de PC sem novas recidivas após correção cirúrgica do defeito diafragmático, associada a uso contínuo de anticoncepcional hormonal oral no pós-operatório, o que reforça a hipótese de que as fenestrações diafragmáticas são possíveis meios de passagem de ar para a cavidade torácica.

Referências bibliográficas

1. Maurer ER, Schaal JA, Mendez FL, Jr. Chronic recurring spontaneous pneumothorax due to endometriosis of the diaphragm. *J Am Med Assoc*. 1958;168(15):2013-14.
2. Guo SW, Wang Y. The prevalence of endometriosis in women with chronic pelvic pain. *Gynecol Obstet Invest*. 2006;62(3):121-30.
3. Joseph JJ, Sahn SA. Thoracic endometriosis syndrome: new observations from an analysis of 110 cases. *Am J Med*. 1996;100:164-70.
4. Alifano M, Roth T, Broet SC, Magdeleinat P, Regnard JF. Catamenial pneumothorax: a prospective study. *Chest*. 2003;124:1004-08.
5. Korom S, Canyurt H, Missbach A, Schneiter D, Kurrer MO, Haller U, et al. Catamenial pneumothorax revisited: clinical approach and systematic review of the literature. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 2004;128:502-08.
6. Blanco S, Hernando F, Gómez A, González MJ, Torres AJ, Balibrea JL. Catamenial pneumothorax caused by diaphragmatic endometriosis. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 1998;116:179-80.
7. Rousset-Jablonski C, Alifano M, Plu-Bureau G, Camilleri-Broet S, Rousset P, Regnard JF, et al. Catamenial pneumothorax and endometriosis-related pneumothorax: clinical features and risk factors. *Hum Reprod*. 2011;26(9):2322-9.
8. Suginami H. A reappraisal of the coelomic metaplasia theory reviewing endometriosis occurring in unusual sites and instances. *Am J Obstet Gynecol*. 1991;165:214-8.
9. Bagan P, Le Pimpec Barthes F, Assouad J, Souilamas R, Riquet M. Catamenial pneumothorax: retrospective study of surgical treatment. *Ann Thorac Surg*. 2003;75:378-81.
10. 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;89:183-8.

11. Rossi NP, Gloperud CP. Recurrent catamenial pneumothorax. *Arch surg*. 1974;109:173-76.
12. Dattola RK, Toffle RC, Lewis MJ. Catamenial pneumothorax. A case report. *J Reprod Med*. 1990;35(7):734-6.
13. Peikert T, Gillespie DJ, Cassivi SD. Catamenial pneumothorax. *Mayo Clin Proc*. 2005;80(5):677-80.
14. 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.
15. Funatsu K, Kirschner PA. Catamenial pneumothorax: an example of porous diaphragm syndromes? [letter and response]. *Chest*. 2002;122:1865.
16. Lozman H, Newman AJ. Spontaneous pneumoperitoneum occurring during postpartum exercises in the knee-chest position. *Am J Obstet Gynecol*. 1956;72(4):903-05.
17. Müller NL, Nelems B. Postcoital catamenial pneumothorax. Report of a case not associated with endometriosis and successfully treated with tubal ligation. *Am Rev Respir Dis*. 1986;134:803-04.
18. Joseph J, Reed CE, Sahn SA. Thoracic endometriosis. Recurrence following hysterectomy with bilateral salpingo-oophorectomy and successful treatment with talc pleurodesis. *Chest*. 1994;106:1894-6.
19. Soderberg CH, Dalquist EH. Catamenial pneumothorax. *Surgery*. 1976;79:236-39.
20. Akal M, Kara M. Nonsurgical treatment of a catamenial pneumothorax with a Gn-RH analogue. *Respiration*. 2002;69:275-6.
21. Koizumi T, Inagaki H, Takabayashi Y, Kubo K. Successful use of gonadotropin-releasing hormone agonist in a patient with pulmonary endometriosis. *Respiration*. 1999;66:544-6.
22. Alifano M, Jablonski C, Kadiri H, Falcoz P, Gompel A, Camilleri-Broet S, et al. Catamenial and noncatamenial, endometriosis-related or nonendometriosis-related pneumothorax referred for surgery. *Am J Respir Crit Care Med*. 2007;176:1048-53.
23. 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.
24. Marshall M, Ahmed Z, Kucharczuk J. Catamenial pneumothorax: optimal hormonal and surgical management. *Eur J Cardiothorac Surg*. 2005;27:662-6.
25. Attaran S, Bille A, Karenovics W, Lang-Lazdunski L. Videothoroscopic repair of diaphragm and pleurectomy / abrasion in patients with catamenial pneumothorax: a 9-year experience. *Chest*. 2012 Nov 1. doi: 10.1378/chest.12-1558 [Epub ahead of print].

Endereço de correspondência:

Paula Corrales Grigol
Faculdade de Medicina de São José do Rio Preto
Departamento de Cirurgia Geral
Avenida Brigadeiro Faria Lima, 5544
São José do Rio Preto, SP, 15090-000, Brazil
e-mail: paulagrigo@gmail.com
Telefone: +55-17-32015700 - Fax: +55-17-32291777
