

CASO CLÍNICO

Síndrome de Cascanueces en el embarazo: Reporte de caso

[Nutcracker Syndrome in Pregnancy: Case Report]

Angela María Gómez Avilés¹ , Eliana Rocío Vargas Contreras¹ , Daniel Alejandro Bautista Perdomo¹ ,
Rafael Leonardo Aragón Mendoza²

1) Programa de Residencias en Ginecología y Obstetricia, Universidad Militar Nueva Granada, Hospital Militar Central, Bogotá, Colombia; 2) Departamento de Ginecología y Obstetricia, Universidad Militar Nueva Granada, Hospital Militar Central, Bogotá, Colombia.

Resumen

El Síndrome de cascanueces durante el embarazo es una condición infrecuente, con pocos casos reportados en la literatura. Se presenta como consecuencia de hipertensión venosa renal unilateral por la compresión mecánica de la vena renal izquierda secundaria a los cambios por el aumento de la presión intra abdominal por el útero grávido y aumento de diámetro aórtico; se manifiesta como hematuria asintomática persistente y puede estar asociado en menor frecuencia a dolor en flanco izquierdo. El diagnóstico se realiza ante la sospecha clínica, posterior a la exclusión de otras causas más frecuentes de hematuria durante la gestación y la resolución del cuadro clínico posterior al parto; estudios como la venografía lumbar están contraindicados en la gestación. Se describe el caso de una paciente de 26 años cursando con un embarazo de 23 semanas que presentó hematuria macroscópica ureteral izquierda asociado a dolor en flanco izquierdo con resolución espontánea en el puerperio confirmando el diagnóstico de síndrome de cascanueces.

ABSTRACT

Nutcracker syndrome during pregnancy is an uncommon condition, with few cases reported in the literature. It occurs as a consequence of unilateral renal venous hypertension due to mechanical compression of the left renal vein secondary to

changes due to increased intra-abdominal pressure caused by the pregnant uterus and increased aortic diameter; it manifests as persistent asymptomatic hematuria and may be associated less frequently with left flank pain. The diagnosis is made upon clinical suspicion, after exclusion of other more frequent causes of hematuria during pregnancy and resolution of the clinical picture after delivery; studies such as lumbar venography are contraindicated in pregnancy. We describe the case of a 26-year-old patient with a 23-week pregnancy who presented macroscopic left ureteral hematuria associated with left flank pain with spontaneous resolution in the puerperium, confirming the diagnosis of nutcracker syndrome.

Autor correspondiente

Angela María Gómez Avilés
angegomezav@gmail.com

Palabras claves

hematuria, embarazo, síndrome de cascanueces.

Key words

hematuria, pregnancy, nutcracker syndrome.

Fecha de Recibido

29 de agosto de 2023

Fecha de Aceptación

29 de julio de 2023

Fecha de Publicación

10 de septiembre de 2023

Aspectos bioéticos

Los autores declaran que este trabajo no requirió de participación de pacientes.

Financiamiento

Los autores declaran que no hubo financiamiento externo para la preparación de este manuscrito.

Uso de datos

Los datos crudos anonimizados serán provistos a solicitud por el autor correspondiente.

Reproducción

Artículo de acceso gratuito para uso académico personal e individual. Prohibida reproducción para otros usos o derivados.

INTRODUCCIÓN

El Síndrome de cascanueces durante el embarazo o Hematuria Idiopática del embarazo es una entidad infrecuente descrita inicialmente en 1950 [1], se desconoce su frecuencia, con pocos casos reportados en la literatura. Se caracteriza por la presencia de hematuria como consecuencia de la compresión mecánica de la vena renal izquierda entre la arteria mesentérica superior y la aorta descendente, lo cual lleva a hipertensión venosa unilateral con daño del sistema colector [2].

El cuadro clínico se presenta hacia la mitad del segundo trimestre y tercer trimestre en donde aumenta significativamente la presión intraabdominal; se manifiesta clínicamente con hematuria persistente generalmente microscópica y puede estar asociado a otros síntomas inespecíficos como dolor lumbar secundario a la distensión con congestión venosa del sistema álgicos [3].

El diagnóstico se establece ante la sospecha clínica, posterior a la exclusión de causas no obstétricas más frecuentes de hematuria como infección del tracto urinario, urolitiasis, tumores, uso de medicamentos como rifampicina entre otras [2], y causas obstétricas como trastornos hipertensivos o alteraciones de la placentación. Los estudios complementarios como la venografía lumbar y la angiografía por tomografía se contraindican durante el embarazo; convirtiendo esta patología en un reto clínico. El tratamiento es sintomático, con vigilancia de la función renal y riesgo de obstrucción urinaria secundaria a la hematuria; con un buen pronóstico dado por la resolución del cuadro una vez finalizada la gestación.

CASO PACIENTE

Paciente de 26 años, G4P3C1V2, con embarazo de 23 semanas, ingreso al servicio de urgencias con cuadro clínico de 3 días de evolución de primer episodio consistente en he-

maturia macroscópica, asociado a dolor abdominal en hemiabdomen izquierdo tipo peso de intensidad 3 de 10 en escala análoga del dolor, sin otra sintomatología asociada. No presentaba antecedentes patológicos personales ni familiares, como antecedentes obstétricos las gestaciones previas sin complicaciones con un periodo intergenésico de 11 meses y en la última gestación se realizó cesárea al término indicada por sospecha de macrosomía fetal y polihidramnios.

Al examen físico en buen estado con signos vitales de tensión arterial de 128/75 mmHg, frecuencia cardiaca de 87 lpm, frecuencia respiratoria de 19 rpm, temperatura de 36.5°C, con abdomen blando depresible sin signos de irritación peritoneal sin dolor a la palpación ni puño percusión positiva, con útero grávido único feto longitudinal con frecuencia cardiaca fetal de 155 lpm.

Al exámen ginecológico genitales externos normales con meato uretral sin lesiones, se realizó especuloscopia con paredes vaginales y cérvix de aspecto sano sin sangrado de origen vaginal. El ano sin lesiones y tacto rectal con ampolla rectal vacía sin masas y sin evidencia de sangrado. Se realizaron estudios complementarios con parcial de orina que evidenció densidad 1015, hematíes mayores de 100 por campo, proteínas 150 mg/dl, glucosa normal, cetonuria 50 mg/dl, sin leucocituria, bilirrubinas negativa y en el sedimento urinario células epiteliales escasas, eritrocitos espiculados 95%, eritrocitos normal 5%. gram de orina sin gérmenes, hemograma con leucocitos de 9,340, función renal conservada dado por creatinina de 0.55 Y BUN de 4 mg/dl Con diagnóstico de hematuria en estudio y riesgo de obstrucción urinaria por coágulos se indicó hospitalización con sonda vesical, sistema de irrigación vesical cerrado con solución salina y profilaxis antibiótica con cefalosporina de primera generación (Figura 1).

Figura 1. Hematuria macroscópica en sistema de irrigación vesical cerrado.

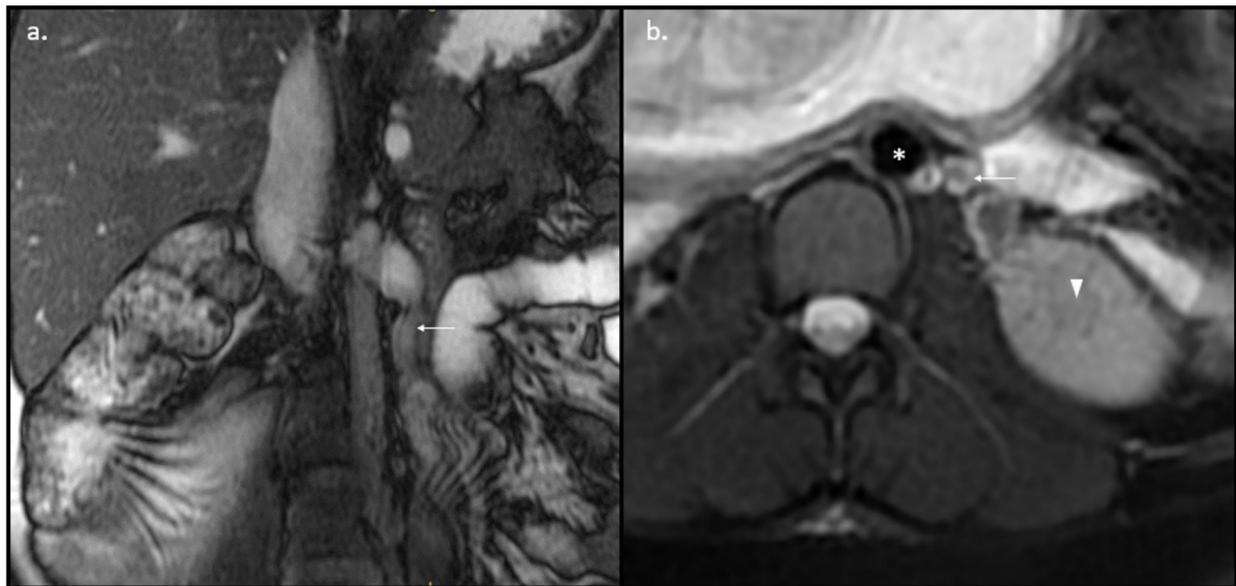


Paciente con sistema de irrigación vesical en el que se evidencia hematuria franca.

Se tomaron pruebas de bienestar fetal con ecografía obstétrica, perfil biofísico que documentaron bienestar fetal con crecimiento fetal adecuado y se realizó doppler de inserción placentario descartando anomalías en la placentación. Entre los estudios se realizaron urocultivo negativo, citología urinaria normal, ionograma normal, tiempos de coagulación normales, Perfil de autoinmunidad con ANA negativo, ENAS negativo, Anti DNA negativo, ANCAS negativo, complemento C3, C4 sin consumo.

Con estudios imagenológicos la ecografía renal y de vías urinarias normal, resonancia renal con riñones de forma, tamaño y posición normales con adecuada relación cortico medular, sin dilatación del sistema pielocalicial con mínima ectasia del uréter derecho con diámetro antero posterior de la pelvis intrarrenal de 7 milímetros con un aumento del tamaño de la vena gonadal izquierda con diámetro de 8 milímetros (Figura 2), por lo cual se complementó el estudio con doppler de venas renales que no mostro anomalía. La cistoureteroscopia

Figura 2. Resonancia magnética renal.



a) Reconstrucción coronal secuencia FIESTA en la cual se evidencia vena gonadal izquierda (flecha) con diámetro de 8 milímetros; **b)** Corte axial imagen potenciada en T2 donde se evidencia vena gonadal izquierda (flecha) en su lumen con intensidad de señal intermedia la cual sugiere disminución del flujo venoso, se muestra aorta (*) y riñón izquierdo (cabeza de flecha).

con hallazgo de hematuria selectiva en uréter izquierdo con riñón izquierdo que presentaba papilas renales congestivas, hipervascularizadas con múltiples lesiones petequiales (Figura 3), con biopsia para cultivo de tuberculosis negativo.

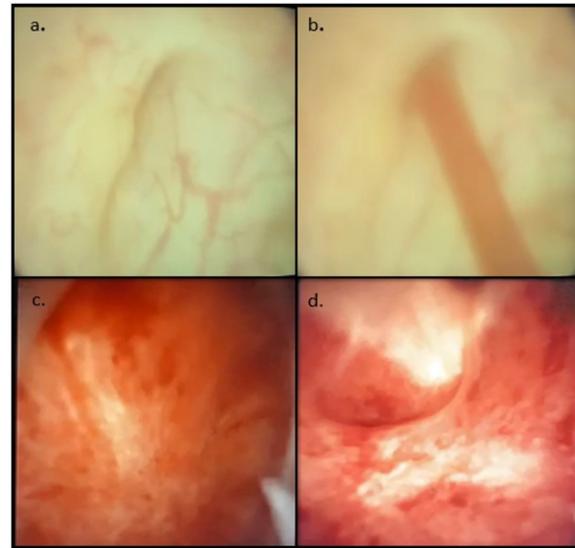
Con sospecha de síndrome de cascanueces no se indicó realizar venografía por el estado de gestación. Durante la vigilancia intrahospitalaria presentó descenso de hemoglobina de 2 gr sin alteración hemodinámica ni requerimiento de transfusión. Se realizó seguimiento con hemograma y función renal cada 72 horas sin deterioro de la función renal, con el aumento del aporte hídrico oral se realizó retiro del sistema de irrigación vesical cerrado sin presentar obstrucción urinaria con estabilidad hemodinámica, sin deterioro clínico y bienestar fetal confirmado, se dio egreso y seguimiento ambulatorio con hemograma, función renal y urocultivo de control cada 2 semanas por consulta externa.

Se realizó cesárea programada sin complicaciones al término con recién nacido sano; en su control puerperal se realizó función renal, hemograma y urocultivo cada 4 semanas en donde no presento amenización ni deterioro de la función renal con resolución de la hematuria a los tres meses del posoperatorio y con seguimiento a los 18 meses de la paciente la cual se encontraba asintomática confirmando el diagnóstico de síndrome de cascanueces.

DISCUSIÓN

El síndrome de cascanueces durante la gestación es también conocido como hipertensión de la vena renal izquierda; se atribuye a la compresión de esta vena debido a la disminución idiopática entre el ángulo de la aorta y la arteria mesentérica superior; lo que produce aumento de la resistencia del flujo venoso llevando a una circulación colateral del drenaje venoso de las venas gonadales, suprarrenal, lumbar, álgigos y periuretrales. Este compromiso causa ruptura de los sistemas colectores a nivel venoso produciendo la hematuria [2]. También puede estar

Figura 3. Cistoureteroscopia.



a y b) meato uretral izquierdo con hematuria selectiva; **b y c)** papilas renales congestivas, hipervascularizadas con lesiones petequiales.

asociada la compresión de la vena renal izquierda por el aumento de diámetro aórtico y a la alteración de la eficiencia de las válvulas anti reflujo del sistema venoso renal que puede ocurrir con el embarazo [4].

No se ha establecido con claridad factores de riesgo para desarrollar esta enfermedad, sin embargo, se han descrito variantes anatómicas asociadas como la posición baja del hígado y páncreas, el riñón en herradura, el riñón ectópico, la duplicación de la vena renal izquierda. Otros factores asociados son las condiciones que aumenten el flujo y presión del sistema de la vena cava que pueden favorecer o exacerbar la presentación del síndrome de cascanueces [5].

La presentación clínica de la hematuria es usualmente microscópica definida como la presencia de tres o más glóbulos rojos por campo de alta frecuencia en sedimento urinario [6]; sin embargo, en uno de cada cinco casos se presenta como hematuria macroscópica llegando a producir síntomas secundarios a la anemia. El dolor en flanco izquierdo ocurre en un tercio de las pacientes con síndrome de cascanueces, como es el caso de nuestra paciente; este se

presenta como un dolor visceral secundario a la dilatación de la vena renal izquierda asociado a dilatación de las venas lumbares [7].

El diagnóstico del Síndrome de cascanueces es un reto; no existen criterios imagenológicos, pero se plantean hallazgos que pueden sugerirlo en estudios como la ecografía Doppler del sistema venoso colateral (venas renales, vena cava inferior).

La angiografía por tomografía computarizada se utiliza para la evaluación del diámetro del sistema venoso y su vaciamiento a la vena renal izquierda con el fin de determinar la eficiencia de esta en compensación a la estenosis [5] y complementa descartando otras causas secundarias como compresión tumoral [1].

La venografía lumbar evalúa el gradiente de presión entre la vena renal izquierda y vena cava inferior siendo el mejor criterio diagnóstico, mostrando el lado derecho normal y marcada elevación del lado izquierdo, considerando un gradiente de presión normal entre 0 y 2.5 mm-Hg, con un valor mayor a tres anormal [8-9]. Por el contrario el doppler de las venas renales y vena cava inferior han mostrado pobre correlación con la medida del gradiente de presión entre éstas [10].

Durante el embarazo el diagnóstico del Síndrome de cascanueces es clínico y se basa en descartar otras etiologías de hematuria más frecuentes tanto obstétricas, para lo cual se realiza un examen físico y paraclínicos para descartar trastornos hipertensivos y el estudio doppler de inserción placentaria para el estudio de percretismo placentario.

Dentro de las causas no obstétricas se descartan las patologías infecciosas, autoinmunes, neoplásicas, hematuria secundario a medicamentos, entre otras.

Dentro de los estudios imagenológicos la venografía y la angiografía por tomografía axial tiene contraindicación con la gestación por lo cual no

estarían indicados y se podrían considerar su realización en el puerperio ante la persistencia de la hematuria.

En nuestro caso la ecografía renal dentro de la normalidad y con persistencia de la hematuria se realizó resonancia magnética renal, en la que se evidenciaron hallazgos indirectos al síndrome de cascanueces como un diámetro aumentado de la vena gonadal izquierda de ocho milímetros con un valor normal de tres milímetros [3] y disminución del flujo venoso en esta; cambios consistentes con una dilatación del sistema venoso a este nivel y complemento del estudio de la hematuria descartando otras causas estructurales.

La cistoureteroscopia en el síndrome de cascanueces evidencia hematuria selectiva a través del uréter izquierdo como se presentó en el caso de nuestra paciente; asociado a hallazgos en las papilas renales izquierdas las cuales fueron congestivas e hipervascularizadas con múltiples lesiones petequiales y sangrado activo en capa sin evidencia de masas sugestivas de malignidad (Figura 3). No se indica para el diagnóstico del síndrome de cascanueces la biopsia renal [11].

El tratamiento del Síndrome de cascanueces en el embarazo es sintomático, puede llevar a requerir transfusión sanguínea por la amenización secundaria a la hematuria; en nuestro caso la paciente presentó hematuria macroscópica recibió tratamiento como primera medida por el riesgo de obstrucción urinaria con un sistema de irrigación vesical cerrado con solución salina, posterior con el aumento del aporte hídrico oral se retiró con micción espontánea y antibiótico profiláctico.

El pronóstico de estos pacientes es bueno ya que las manifestaciones resuelven posterior a la gestación al disminuir la compresión que se ejerce sobre la vena renal izquierda, sin requerir estudios complementarios y con un adecuado resultado perinatal.

CONCLUSION

El síndrome de cascanueces durante la gestación es una entidad infrecuente que se presenta con hematuria, su diagnóstico se basa en la sospecha clínica y posterior a la exclusión de causas más frecuentes de hematuria. Se han propuesto estudios imagenológicos para la confirmación diagnóstica, sin embargo, el uso de estos es limitado durante la gestación. El tratamiento es sintomático con resolución del cuadro una vez finalizada la gestación lo cual confirmaría el diagnóstico.

REFERENCIAS

- [1] Berthelot JM, Douane F, Maugars Y, Frampas E. Nutcracker syndrome: A rare cause of left flank pain that can also manifest as unexplained pelvic pain. *Jt Bone Spine* [Internet]. 2017;84(5):557–62. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.jbspin.2016.10.006>
- [2] Opoku BK. Unexplained persistent gross hematuria in pregnancy. *Res J Women's Heal*. 2014;1(1):1.
- [3] Kurklinsky AK, Rooke TW. Nutcracker phenomenon and nutcracker syndrome. *Mayo Clin Proc* [Internet]. 2010;85(6):552–9. Available from: <http://dx.doi.org/10.4065/mcp.2009.0586>
- [4] Exhibit E. Volume-rendered CT Angiography of the Renal Arteries and Veins: Normal Anatomy, Variants, and Clinical OBJECTIVES. *Radiographics*. 2001;373–86.
- [5] Yih NDC, Chyen LH, Yang C, Jaywantraj PS, Isip ABC, Anil SA. Renosplenic shunting in the nutcracker phenomenon: A discussion and paradigm shift in options? A novel approach to treating nutcracker syndrome. *Int J Angiol*. 2014;23(1):71–6.
- [6] Sharp VJ, Barnes KT, Erickson BA. Assessment of asymptomatic microscopic hematuria in adults. *Am Fam Physician*. 2013;88(11):747–54.
- [7] Alaygut D, Bayram M, Soylu A, Cakmakci H, Türkmen M, Kavukcu S. Clinical course of children with nutcracker syndrome. *Urology*. 2013;82(3):686–90.
- [8] Avgerinos ED, McEnaney R, Chaer RA. Surgical and endovascular interventions for nutcracker syndrome. *Semin Vasc Surg* [Internet]. 2013;26(4):170–7. Available from: <http://dx.doi.org/10.1053/j.seminvascsurg.2014.06.014>
- [9] Quevedo HC, Arain SA, Abi Rafeh N. Systematic review of endovascular therapy for nutcracker syndrome and case presentation. *Cardiovasc Revascularization Med* [Internet]. 2014;15(5):305–7. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.ca-rrrev.2014.04.008>
- [10] Shin J II, Park JM, Lee JS, Kim MJ. Effect of renal Doppler ultrasound on the detection of nutcracker syndrome in children with hematuria. *Eur J Pediatr*. 2007;166(5):399–404.
- [11] Li H, Zhang M, Jiang Y, Zhang Z, Na W. Microsurgical spermatic-inferior epigastric vein anastomosis for treating nutcracker syndrome-associated varicocele in infertile men: A preliminary experience. *Urology* [Internet]. 2014;83(1):94–9. Available from: <http://dx.doi.org/10.1016/j.urology.2013.08.050>