

Trombosis espontánea de plexo pampiniforme: Reporte de un caso y revisión de literatura

Belén Pedraza J.^{1,a}, Juan Pablo Fuenzalida G.^{1,b}

Pampiniform plexus spontaneous thrombosis: Case report and literature review

Introduction: Pampiniform plexus thrombosis is a rare entity, with only 31 cases reported to date. **Aim:** Presentation of a case of a rare disease, description of previous publications and review of the literature.

Case report: 20-year-old patient, with no history, with right pampiniform plexus thrombosis. Initial suspicion was complicated right inguinal hernia, diagnosis was made with Doppler ultrasound and treatment with anticoagulation. It was complemented with tomography and study of thrombophilias. **Discussion:** The study and management has been variable, where the surgical strategy prevailed. Currently some authors recommend conservative management and others differentiate the treatment according to the compromised anatomical segment. **Conclusion:** Being a rare entity, conservative treatment or surgery continues to be a decision that must be made according to each case since there are no treatment guidelines, but the trend is increasing towards conservative treatment. The role of anticoagulation remains to be defined. It is important to carry out an adequate differential diagnosis and search for underlying causes.

Keywords: urology; pampiniform plexus; thrombosis; spermatic vein.

¹Clínica Dávila. Santiago, Chile.

^a<https://orcid.org/0009-0006-1913-713X>

^b<https://orcid.org/0009-0003-9383-8637>

Recibido el 2023-05-23 y aceptado para publicación el 2023-08-28

Correspondencia a:

Dra. Belén Pedraza J.
drabelenpedraza@gmail.com

E-ISSN 2452-4549



Resumen

Introducción: La trombosis de plexo pampiniforme es una entidad poco conocida, solo existen 31 casos reportados a la fecha. **Objetivo:** Presentación de un caso de una patología poco frecuente, descripción de las publicaciones anteriores y revisión de la literatura. **Reporte de caso:** Paciente de 20 años, sin antecedentes, con trombosis de plexo pampiniforme derecho. Sospecha inicial de hernia inguinal derecha complicada, el diagnóstico se realizó con ecografía *Doppler* y recibió tratamiento con anticoagulantes. Se complementó con tomografía y estudio de trombofilias. **Discusión:** El estudio y manejo ha sido variable, antes prevalecía la estrategia quirúrgica. Actualmente, algunos autores recomiendan el manejo conservador y otros proponen diferenciar el tratamiento según segmento anatómico comprometido. **Conclusión:** Al ser una entidad poco frecuente, el tratamiento es una decisión que debe ser tomada según cada caso, ya que no existen pautas de tratamiento, pero la tendencia es cada vez mayor hacia el tratamiento conservador. El rol de la anticoagulación está por definir. Es importante realizar un adecuado diagnóstico diferencial y búsqueda de causas subyacentes.

Palabras clave: urología; plexo pampiniforme; trombosis; vena espermática.

Caso clínico

Paciente de 20 años, sin antecedentes. Consulta en servicio de urgencias por dolor en región inguinal derecha de 48 horas de evolución. Al examen físico se palpa cordón inguinal derecho engrosado y sensible, al igual que el polo superior del testículo derecho. Ecografía inguinal: múltiples adenopatías

inguinocrurales derechas de menos de 1 cm. Es dado de alta con antiinflamatorios. Consultó en servicio de urgencias de otro centro a las 36 horas por persistencia del dolor, se realizó ecografía que describe: hernia inguinal derecha complicada y se traslada nuevamente a nuestro centro, donde se realiza tomografía computada (TC). Sin defecto en la pared, leve edema escrotal a derecha, cambios inflamatorios del

cordón testicular y prominencia de estructuras del plexo pampiniforme sugerente de varicocele, adenopatías inguinales derechas. Se completa estudio con Ecografía *Doppler* (Figura 1). Trombosis del plexo pampiniforme derecho en el canal inguinal. Cambios de tipo funiculitis a derecha asociados. Pequeña hernia crural derecha, reductible, no complicada. Al interrogatorio dirigido madre y abuelo materno con antecedente de trombosis venosa profunda de extremidades inferiores.

Se decide manejo con anticoagulación con enoxaparina por 48 horas y luego rivaroxaban que completó por 3 meses. Se realiza estudio de trombofilias, positivo para mutación del gen de la protrombina. Ecografía *Doppler* de control a los 3 meses sin evidencias de dilatación ni reflujo.

Revisión de Literatura

La trombosis espontánea del plexo pampiniforme (PP) es una entidad clínica infrecuente^{1,2}.

Se han reportado 29 artículos en la literatura mundial (en inglés, chino, italiano, portugués, alemán, rumano, español y francés), que suman en total 32 casos durante los últimos 120 años, los cuales incluyen trombosis de PP y de vena testicular (VT) o también denominada vena espermática (VE), ya que varios de estos autores no hacen diferencia anatómica entre estas estructuras. La mayoría de los casos son del lado izquierdo y los pocos de lado derecho tienen antecedente de cirugía testicular previa. En la Tabla 1 se exponen los casos presentados en la literatura y sus características.

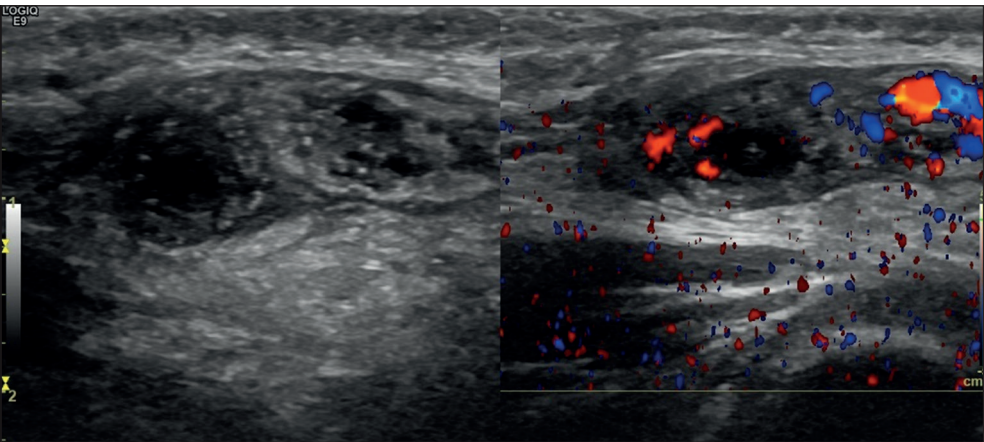


Figura 1. Ecografía Doppler testicular. Trombosis de una vena principal del plexo pampiniforme derecho en su trayecto a través del canal inguinal, con distensión por material ecogénico no compresible endoluminal y ausencia de señal al estudio Doppler. Determina dilatación retrógrada de las venas a nivel testicular. Esto se acompaña de cambios de tipo inflamatorio - edematosos del cordón inguinal derecho, con aumento de ecogenicidad al estudio Doppler.

Tabla 1 Casos reportados en la literatura de trombosis de plexo pampiniforme y vena espermática

Nº	Año/ Referencia	Edad	Lado	Factores asociados	Método diagnóstico	Tratamiento	Diagnostico presuntivo	Estructura anatómica
1	1903 Senn*	N/I	Izq	N/I	Clínico	N/I	Orquitis	N/I
2	1904 Senn*	N/I	N/I	No	Clínico	Escisión	Trombosis	VE
3	1935 McGavin*	41	Izq	No	Clínico	Orquiectomía	Epididimitis tuberculosa	PP
4	1935 McGavin*	57	Izq	No	Clínico	Orquiectomía	Epididimitis tuberculosa	PP
5	1941 Ecole ¹²	70	Izq	Trauma/ Policitemia vera	Clínico	Orquiectomía	Tumor testicular	PP
6	1977 Anseline*	27	Izq	No	Biopsia	Cirugía/ Extirpación***	Torsión testicular	PP
7	1980 Coolsaet*	7	Izq	NO	Venografía p.o	Exploración	N/I	PP
8	1980 Coolsaet*	10	Izq	Orquidopexia	Venografía	Exploración	Trombosis	PP
9	1980 Coolsaet*	15	Izq	Caminata	-	Extirpación	N/I	PP

10	1981 Rothman*	44	Der	Deporte	Clínico	Extirpación	Masa inguinal	PP
11	1981 Vincent*	33	Izq	Varicocele	Biopsia/ pielograma p.o.	Extirpación	Hernia encarcelada	PP
12	1985 Roach*	33	Izq	Varicocele	NO	Extirpación	N/I	PP
13	1985 Roach*	42	Izq	Vasectomía	Pielograma/ TC	Extirpación	Hernia encarcelada	VE
14	1990 Isenberg*	19	Izq	Ejercicio vigoroso	NO	Extirpación	Hernia encarcelada	VE
15	1993 Gleason*	23	Izq	Heavy lifting	Doppler /biopsia	Extirpación	Hernia encarcelada	PP
16	2000 Chamun ³	43	Izq	Varicocele	Doppler	Conservador/ diosmina	N/I	VE
17	2001 Kleinclaus**	30	Izq	Ectopia testicular operada	Doppler	Medico	N/I	PP
18	2006 Hashimoto*	27	Izq	Heavy Lifting	N/I	Cirugía / Exploración	Hernia encarcelada	PP
19	2009 Doerfler*	33	Izq	Ciclismo	Doppler	Conservador / AINES	Trombosis	PP
20	2010 Kayes*	21	Bilat/ Izq-der	Ejercicio intenso	Biopsia izq / Eco der	Exploración Izq/ conservador der	Torsión testicular	PP
21	2010 EI Hennawy ¹³	24	Izq	No	Biopsia	Conservador inicial, luego extirpación	Hernia inguinal izquierda	PP
22	2014 Mallat*	28	Izq	Sd Nutcracker	AngioTC	Extirpación	N/I	PP
23	2015 Chi*	43	Der	Varicocele, ausencia VCI, FeV Leiden	Doppler, TC	Anticoagulación	N/I	VE
24	2016 Tanner ¹⁴	23	Izq	No	Eco	AINES	N/I	PP
25	2017 Kamel*	39	Bilat Izq□der	Déficit proteína C	Eco, TC	Conservador Inicialmente, luego TACO	Trombosis	PP Izq VE Der
26	2018 Amador**	40	Izq	Varicocele + hernia inguinal / vasectomía	Eco	Conservador inicial, varicocelectomía diferida	N/I	PP
27	2018 Raghavendran ¹⁵	68	Izq	Varicocele	No	Conservador, varicocelectomía diferida	N/I	PP
28	2018 Murthy ¹⁶	36	Der	Orquiectomía izq, orquidopexia der/ CU*en estudio post	No	Exploración, incisión de descompresión	N/I	PP
29	2020 Ouanes ¹⁷	54	Izq	No	Eco	Anticoagulación	N/I	PP
30	2020 Bakshi ^{5*}	65	Bilat	Heavy lifting	Eco pre /Doppler post	Exploración / Conservador	Hernia inguinal encarcelada	PP
31	2020 Lay Keat ¹⁸	50	Izq	NO	Eco	Anticoagulación	N/I	PP
32	2020 Petca ¹⁸	55	Izq	NO	Eco, TC	Extirpación + Anticoagulación	Hernia inguinal encarcelada	VE
33	Actual	20	Der	Mutación gen de la protrombina	Eco	Anticoagulación	Hernia inguinal derecha	PP

Fuente: Elaboración propia. N/I: no informado. CU: colitis ulcerosa. *Trabajos resumidos en publicación Bakshi 2020⁵. ** Trabajo descrito en publicación de Amador¹. Izq: Izquierdo. Der Derecho. Bilat: Bilateral. PP: plexo pampiniforme. VE: vena espermática. ***Extirpación del segmento de vena comprometido.

Esta trombosis es causada por un aumento repetido de la presión intraabdominal con compresión de este plexo en el canal inguinal en contra de las ramas ileopúblicas¹, donde los principales mecanismos que favorecen la trombosis son el trauma vascular endotelial, un flujo venoso enlentecido y estados de hipercoagulabilidad^{2,3}. Los factores de riesgo asociados a este cuadro son: el ejercicio físico, el levantamiento de pesas (*heavy lifting*) y el antecedente de patología testicular. Otros factores que podrían estar relacionados son la actividad sexual vigorosa prolongada, tumores del tracto urinario, tumores del tracto digestivo, infecciones, trauma, cirugía de hernia inguinal, viajes prolongados, algunas drogas^{2,4}.

La forma de presentación es variable, los síntomas más frecuentes son dolor inguinal y la palpación de cordón espermático aumentado de volumen^{2,5}.

El diagnóstico diferencial incluye hernia inguinal encarcelada, tumores, hidrocele, espermatocele, torsión del cordón espermático, abscesos y tromboangeitis obliterante⁶.

La preponderancia de la trombosis en el lado izquierdo sugiere una contribución anatómica al evento tromبótico: 1) La VT derecha ingresa a la vena cava inferior (VCI) oblicua, mientras que la VT izquierda se une a la vena renal (VR) izquierda de forma perpendicular; 2) La VR izquierda entra la VCI 8-10 cm sobre la VT derecha. Esto genera una mayor presión en el lado izquierdo, con la subsecuente reducción en el flujo sanguíneo en la VT izquierda^{3,7}; 3) Compresión de la VR izquierda provocada por la vena mesentérica superior, lo que puede contribuir a la estasia venosa y posterior trombosis; 4) La conexión de la VT izquierda a la VR izquierda permite que el cáncer renal o cualquier otro proceso patológico (como infección o inflamación) se extienda hacia la VT izquierda y cause trombosis. Estas circunstancias anatómicas también predisponen a la trombosis izquierda del PP y a la formación de varicocele^{3,7}.

La ecografía *Doppler* es el *gold standard* para el diagnóstico¹. Los hallazgos muestran una masa con apariencia quística tubular, hipoeoica no comprensible con ausencia de flujo en el *Doppler* color². En 1993 se reportó el primer caso en que el diagnóstico se realizó por ecografía *doppler*⁴, anterior a esto, la confirmación se obtuvo por biopsia o en la exploración quirúrgica. El estudio con AngioTC de abdomen y pelvis, podría revelar la extensión del trombo en relación con el anillo inguinal y ayuda a identificar la etiología en los casos secundarios a anomalías anatómicas, síndrome de *nutcracker*, neoplasias u otros^{1,8}.

Autores de publicaciones iniciales consideran que la cirugía de ablación de venas trombosadas es necesaria, incluso cuando el proceso agudo se haya resuelto¹. Vincent et al.⁹ en 1981, consideraba que la alternativa quirúrgica estaría indicada para descartar otras condiciones como hernia inguinal encarcelada, torsión del cordón espermático o patología maligna. Lenz⁷, recomienda la anticoagulación debido a la recurrencia y la asociación con malignidad. Por otro lado, Zampieri et al.², investigó casos de trombosis posterior a cirugía de varicocele, con una incidencia del 2,6% (5 casos) todos fueron manejados sin anticoagulación. Roach et al.¹⁰, recomienda tratamiento conservador basado en la experiencia de dos casos de manejo quirúrgico, donde uno de ellos se complicó y requirió orquiectomía. En cambio, Castillo et al.¹¹, reportó un caso de tromboembolismo pulmonar asociado a trombosis de VE, por lo que recomienda su ligadura para prevenir tromboembolismo. A partir de las diferentes observaciones, Yoko et al.⁸, propone dos estrategias de tratamiento basado en la localización anatómica. El tratamiento conservador, que incluye observación y antiinflamatorios, es aceptable para trombosis periféricas, localizadas por fuera del anillo inguinal externo, a nivel de plexo. La escisión quirúrgica estaría recomendada en las trombosis de VT por dentro del anillo inguinal externo con extensión hacia la vena renal.

Discusión

La trombosis del PP al ser una entidad poco frecuente, requiere un alto índice de sospecha. El cirujano general debe estar atento y considerarlo como diagnóstico diferencial de dolor inguinal, debido a que el diagnóstico presuntivo, en la mayoría de los casos, es la hernia inguinal complicada, patología altamente prevalente y de resolución quirúrgica.

La estrategia de manejo se mantiene en discusión. Inicialmente, el tratamiento estaba inclinado hacia lo quirúrgico, probablemente, influenciado por la falta de elementos diagnósticos y la baja experiencia respecto a esta patología. Durante los últimos años, la tendencia es hacia el manejo conservador. Frente a estas diferencias, parece aceptable la propuesta de diferenciar el tratamiento según localización anatómica, donde el tratamiento conservador, que incluye observación y antiinflamatorios, es aceptable para trombosis periféricas, localizadas por fuera del anillo inguinal externo, a nivel de plexo. La extirpación (escisión) quirúrgica estaría recomendada en las trombosis de VT por dentro del anillo inguinal externo con extensión hacia la VR⁸.

El rol de la anticoagulación permanece incierto, su uso está reportado en solo 5 de los pacientes (considerando el nuestro) y de estos, 3 presentaban algún estado de hipercoagulabilidad y solo 1 asociado a policitemia vera¹².

Conclusiones

La trombosis del plexo pampiniforme es una entidad clínica muy poco frecuente, nuestro caso corresponde al número 33 reportado en el mundo. El lado, más frecuentemente, afectado es el izquierdo, preponderancia explicada por las diferencias anatómicas. El *gold standard* para el diagnóstico es la ecografía *Doppler*, se debe complementar el estudio con angioTC de abdomen y pelvis para evaluar la extensión de la trombosis, descartar anomalías anatómicas, la presencia de neoplasias u otros. El estudio de trombofilias es recomendable, más aún cuando corresponde al lado derecho. El manejo sigue siendo materia de discusión debido su baja prevalencia, por lo tanto, la decisión de anticoagulación, cirugía o manejo conservador con reposo y antiinflamatorios continúa siendo una decisión que debe tomarse según cada caso.

Nuestro caso representa una trombosis de plexo

pampiniforme de lado derecho aislado, con testículo izquierdo sin patologías. El diagnóstico se realizó con ecografía *Doppler* y se manejó con anticoagulación por tres meses, considerando además del cuadro, los antecedentes familiares. La ecografía de control post tratamiento no evidenció secuelas. Estudio posterior reveló trombofilia, lo que impugna ser el factor principal en la presentación de este caso.

Responsabilidades éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que en este manuscrito no se han realizado experimentos en seres humanos ni animales.

Confidencialidad de los datos. Los autores declaran que en este artículo no aparecen datos de pacientes.

Financiación: Ninguna.

Conflictos de interés: Ninguno.

Rol

Ambos autores elaboraron y revisaron el artículo, incluida su edición final modificada.

Bibliografía

- Amador A, Rodríguez J, Ballesta B, Falcón J, Carrión A, Orribo N, et al. Deep Vein Thrombosis: A Rare Cause of Acute Testicular Pain. Case Report: Literature Review. Urol Int. 2018;101:117-20. doi: 10.1159/000486287
- Zampieri N, Castellani R, Mantovani A, Scirè G, Peretti M, Zampieri G, et al. Thromboses of the pampiniform plexi after subinguinal varicocelelectomy. Pediatr Surg Int. 2014;30:441-4. doi: 10.1007/s00383-013-3426-1.
- Hashimoto L, Vibeto B. Spontaneous thrombosis of the pampiniform plexus. Scand J Urol Nephrol. 2006; 40:252-4. doi: 10.1080/00365590600589823
- Gleason T, Belsara Z, Goff W. Sonographic appearance of left spermatic vein thrombosis simulating incarcerated inguinal hernia. J Urol. 1993;150:1513-4. doi: 10.1016/s0022-5347(17)35831-7
- Bakshi, S. Bilateral spontaneous thrombosis of the pampiniform plexus mimicking incarcerated inguinal hernia: case report of a rare condition and literature review. Surg Case Rep. 2020; 6:47. doi: 10.1186/s40792-020-00810-3
- Chamun V, Rupp H, Ribeiro R. Spontaneous thrombosis of the left spermatic vein. Braz J Urol. 2000;26:406-7.
- Lenz M, Hof N, Kersting-Sommerhoff B, Bautz W. Anatomic variants of the spermatic vein: importance for percutaneous sclerotherapy of idiopathic varicocele. Radiology 1996;198:425-31. doi: 10.1148/radiology.198.2.8596844
- Mallat F, Hmida W, Ahmed KB, Mestiri S, Mosbah F. Spontaneous spermatic vein thrombosis as a circumstance of discovery of the nutcracker syndrome: An exceptional entity. Int J Case Rep Images 2014;5:519-23. doi: 10.5348/ijcri-201492-CR-10403
- Vincent MP, Bokinsky G. Spontaneous thrombosis of pampiniform plexus. Urology 1981;17:175-6. DOI: 10.1016/0090-4295(81)90232-6.
- Roach R, Messing E, Starling J. Spontaneous thrombosis of left spermatic vein: report of 2 cases. J Urol. 1985;134:369-70. doi: 10.1016/s0022-5347(17)47176-x.
- Castillo O, Diaz M, Vitagliano G, Metrebian E. Pulmonary thromboembolism secondary to left spermatic vein thrombosis: a case report. Urol Int. 2008;80 :217-8. doi: 10.1159/000112617
- Ercole R, Minnhaer T, Fort A. Trombosis del plexo pampiniforme en una enfermedad de Vásquez. Rev Arg de Urol. 1941;10 (7-8):406-12.
- El Hennawy H, Abuzour M, Bedair E. Surgical management of spontaneously thrombosed extratesticular varicocele presented with irreducible inguinal swelling: A case report. Eur J Surg Sci. 2010;1:99-101.
- Tanner R, Twomey M, Maher M, Fitzgerald E, O'Connor J. A Rare Cause of Testicular Pain: Thrombosis of the Pampiniform Plexus. Ir Med J.

- 2016;109:347-8.
15. Raghavendran M, Venugopal A, Kiran Kumar G. Thrombosed varicocele - a rare cause for acute scrotal pain: a case report. BMC Urol. 2018;18:34. doi: 10.1186/s12894-018-0347-2
 16. Murthy P, Gill B, Khurana S, Nyame Y, Sabanegh E, Kaouk J. Spermatic vein thrombosis. Urology 2018;119:32-4. doi: 10.1016/j.urology.2018.02.024
 17. Ouanes Y, Sellami A, Chaker K, Mokhtar B, Rhouma S, Noura Y. Thrombosis of the pampiniform plexus: About a case report. Urol Case Rep. 2018;20:28-9. doi: 10.1016/j.eucr.2018.06.003.
 18. Lay Keat W, Omar S, Kwong H. Rare Cause Of Acute Scrotal Swelling And Pain In Adult- A Case Report On Spontaneous Pampiniform Plexus Thrombosis and literature review. Urol Case Rep. 2019;28:101000. doi: 10.1016/j.eucr.2019.101000
 19. Petca R, Ionut R, Popescu C, Budau M, Petca A, Jinga V. Left spermatic vein thrombosis - An uncommon diagnosis: A case report. Chirurgia 2020; 115:505-10. doi: 10.21614/chirurgia.115.4.505