

# Hematuria no glomerular por atrapamiento de la vena renal izquierda: diagnóstico mediante angiografía por sustracción digital

J. Palmero \*, I. Calvo \*\*, J. M. Escobedo \*\*\* y S. Ferrer \*

\* Servicio de Radiodiagnóstico. \*\*\* Servicio de Nefrología. Hospital General Universitario. \*\* Servicio de Pediatría. Servicio de Nefrología Pediátrica. Hospital Dr. Peset. Valencia.

## RESUMEN

El síndrome de atrapamiento de la vena renal izquierda, conocido también en la literatura anglosajona como «Nutcracker syndrome» (síndrome del cascanueces), está provocado por la compresión de la vena renal izquierda entre la aorta y la arteria mesentérica superior y es una causa frecuente de hematuria no glomerular, poco descrita en la bibliografía.

Presentamos un caso típico de atrapamiento de la vena renal izquierda, estudiado mediante ultrasonidos, tomografía axial computarizada y angiografía por sustracción digital, analizando la aportación de cada uno de estos procedimientos al diagnóstico de esta patología.

Palabras clave: **Hematuria no glomerular. Atrapamiento de la vena renal izquierda. Síndrome del cascanueces.**

## NON GLOMERULAR HEMATURIA SECONDARY TO LEFT RENAL VEIN ENTRAPMENT (NUTCRACKER SYNDROME)

### SUMMARY

The left renal vein entrapment syndrome or nutcracker syndrome results from the anatomic relationships of the left renal vein (LRV), aorta and superior mesenteric artery (SMA). The LRV passes in front of the aorta and through a notch formed by the SMA anteriorly and the aorta posteriorly. The mechanism which produces the hematuria is the compression between the fork formed by the aorta and SMA.

We report a case of LRV entrapment syndrome in a boy with asymptomatic gross non-glomerular hematuria, without evidence of urinary tract infection, hypercalciuria, oxaluria, uricosuria or cystinuria. The ultrasonography and computerized tomography showed a dilated LRV with abrupt narrowing between the aorta and overlying SMA, without evidence of collateral veins.

Recibido: 30-I-1991.  
En versión definitiva: 3-VI-1991.  
Aceptado: 10-VI-1991.

Correspondencia: Dra. I. Calvo Penadés.  
Servicio de Pediatría.  
Hospital Dr. Peset.  
Avda. Gaspar Aguilar, 90.  
46017 Valencia.

*Intra-arterial digital subtraction angiography was performed showing a dilated distal segment of the LRV with a fine proximal segment and a well developed collateral veins. Considering the high incidence of LVR entrapment syndrome among patients with recurrent asymptomatic nonglomerular hematuria, the renal US with special attention to LRV should be performed. Intra-arterial digital subtraction angiography will be considered when US has not defined the cause and it is the only one technique to establish the existence of collateral veins.*

**Key words: Nonglomerular hematuria. Renal vein entrapment. Nutcracker phenomenon.**

## Introducción

Los procedimientos actuales de investigación de la hematuria permiten, mediante el microscopio de contraste de fase y el contador celular hematológico, la diferenciación de su origen como glomerular o no glomerular<sup>1-8</sup>. Una causa de hematuria no glomerular asintomática, que afecta principalmente a niños en edad escolar y adultos jóvenes, es el síndrome de atrapamiento de la vena renal izquierda.

Esta patología se produce como consecuencia de las relaciones anatómicas entre la vena renal izquierda (VRI), aorta y arteria mesentérica superior (AMS). La VRI es más larga que la derecha y pasa entre la AMS, situada anteriormente, y la aorta, situada posteriormente. En posición erecta y en decúbito supino, el peso del intestino delgado es transmitido a través de la raíz mesentérica, comprimiendo la AMS contra la VRI. En decúbito prono este peso es evitado, aliviándose el efecto de compresión de la AMS sobre la VRI. Estos hechos pueden producir un aumento de la presión en la VRI, conduciendo a la dilatación de la misma y a la formación de varicosidades a nivel de pelvis renal y uréter. El mecanismo de la hematuria probablemente se produce como consecuencia de la rotura de finas paredes venosas dentro del sistema colector<sup>9, 10</sup>.

En 1972, De Schepper<sup>11</sup> describe dos casos de hematuria, a los que se realizó venografía renal, describiendo y demostrando por primera vez la compresión de la VRI entre la aorta y la AMS, llamando a este hallazgo «fenómeno del cascanueces». Algunas publicaciones posteriores<sup>9-14</sup> se refieren al «fenómeno del cascanueces» como causa de hematuria no glomerular y su asociación con varicosidades en pelvis renal y periureterales, motivando episodios de hematuria macroscópica recurrente y/o microscópica persistente.

## Exposición del caso

Varón de quince años con historia de hematuria macroscópica recurrente de tres años de evolución. Exploración física dentro de la normalidad. Las cifras tensionales, la función renal y la osmolaridad urinaria fueron normales. La hematuria fue clasificada como no glomerular con el microscopio de contraste de fase, ya que no se observó dismorfia eritrocitaria; el 100 % de los hematíes urina-

rios presentaban una morfología similar al hematíe periférico. Con el contador celular hematológico se obtuvo una curva de distribución típicamente no glomerular, con un volumen eritrocitario mayor de 60 fl. Se descartó la existencia de infección urinaria, hipercalciuria, oxaluria, uricosuria y cistinuria. La urografía intravenosa y la cistografía no presentaron anomalías.

La ultrasonografía (US) renal presentó unos riñones de morfología, ecogenicidad, tamaño y situación normales, apreciándose una VRI dilatada hasta la zona en donde pasa entre la aorta y la AMS, observándose a este nivel la compresión de la misma, con una brusca disminución de calibre en la porción más proximal de la VRI (fig. 1).

La tomografía axial computarizada (TC) presenta hallazgos similares a la ecografía, existiendo una clara dilatación de la VRI (fig. 2). Ni en US ni en TC se pudo demostrar la existencia de circulación colateral.

Con el diagnóstico de atrapamiento de VRI se realizó la angiografía por sustracción digital (ASD) selectiva de arteria renal izquierda. Se apreció la existencia de una marcada dilatación de la VRI, con existencia de compresión entre la aorta y la arteria mesentérica superior, permitiendo únicamente un mínimo y filiforme paso de contraste a vena cava inferior. La circulación colateral es muy evidente, existiendo repleción de venas periureterales, hemiácigos y lumbares, estableciéndose a través de las mismas drenaje a vena cava inferior (fig. 3).

## Discusión

Ante la existencia de una hematuria asintomática se hace necesario, en primer lugar, el establecimiento de su origen glomerular o no glomerular. Los métodos actuales de investigación de la morfología eritrocitaria mediante el microscopio de contraste de fase<sup>15-17</sup> y la determinación del volumen eritrocitario mediante el contador celular hematológico<sup>7, 18</sup> son dos procedimientos no invasivos con una alta sensibilidad y especificidad para el establecimiento del origen de las hematurias.

El atrapamiento de la VRI debe ser considerado como una de las causas frecuentes de hematuria asintomática no glomerular<sup>19</sup>. Los métodos de diagnóstico por la imagen son imprescindibles para el diagnóstico de esta patología.

La US renal nos permite, en la mayoría de los casos, la

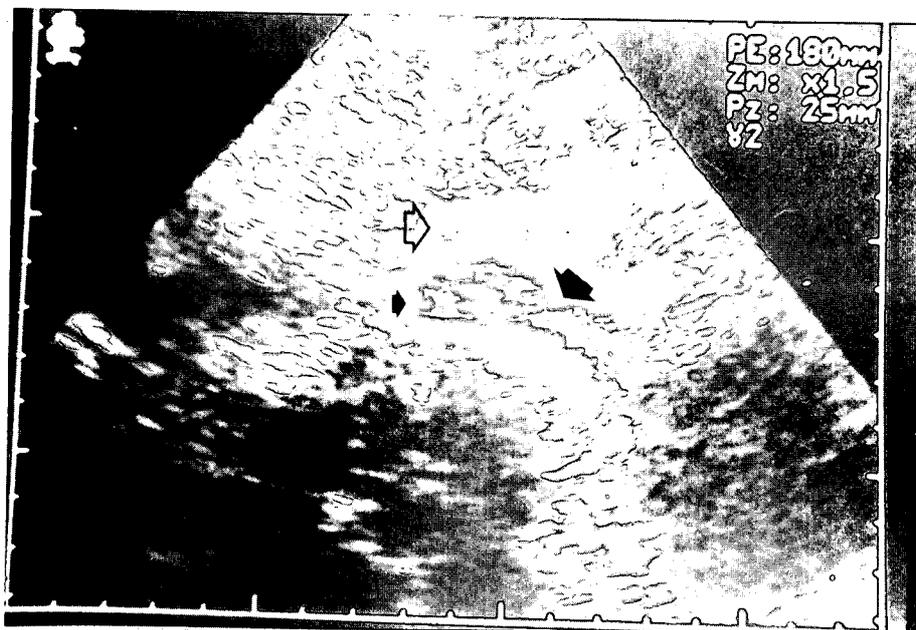


Fig. 1.—US. Corte transversal en el que se aprecia la VRI (flecha grande) dilatada en su porción distal y la compresión y brusca disminución del calibre de la misma a su paso entre la AMS (flecha hueca) y la aorta (flecha pequeña).



Fig. 2.—TC. Hallazgos similares a los descritos en US. VRI (flecha grande), AMS (flecha hueca), Aorta (flecha pequeña).

visualización de la VRI y su relación con la aorta y la AMS, pudiéndose establecer el diagnóstico de atrapamiento de VRI o «síndrome del cascanueces». La primera demostración del síndrome de atrapamiento de VRI mediante US fue realizada por Wolfish y cols. en 1986<sup>20</sup>. Ellos definieron la compresión de la VRI como una estenosis de la VRI anterior a la aorta y asociada con dilatación de la VRI en la porción izquierda de la aorta. La distensión de la VRI ha sido definida como un aumento en un 50 % en el diámetro de la VRI en la porción izquierda de la aorta, com-

parándolo con el diámetro inmediatamente anterior a la aorta<sup>21</sup>.

La TC renal debe estar reservada para aquellos casos en los que la ecografía no nos permite una buena visualización de la VRI y de sus relaciones anatómicas. Con ninguno de estos dos procedimientos diagnósticos va a ser posible la valoración adecuada de circulación colateral a través de venas muchas veces de fino calibre.

La ASD selectiva de arteria renal izquierda nos permite la obtención de imágenes sustraídas de la vascularización



Fig. 3.—ASD con inyección selectiva de contraste en arteria renal izquierda. Fase venosa en la que se aprecia la dilatación de la porción distal de la VRI (flecha sólida), con una porción proximal de muy fino calibre. La circulación colateral está muy desarrollada y a través de la misma también se establece drenaje a vena cava inferior (flecha hueca). AMS: Arteria mesentérica superior. ASD: Angiografía por sustracción digital. TC: Tomografía axial computarizada. US: Ultrasonografía. VRI: Vena renal izquierda.

renal (arterial, intrarrenal y venosa). La demostración del atrapamiento de la VRI mediante ASD intraarterial fue realizada por Takahashi y cols. en 1988<sup>19</sup>, estableciendo los diferentes grados de compresión de la VRI con circulación colateral bien establecida y otros con el hallazgo de un vaciamiento intermitente de la VRI en la cava inferior sin existencia de colaterales. Los mismos autores establecen la alta frecuencia del síndrome en los casos de hematuria no glomerular asintomática (22 de 28 pacientes estudiados).

La venografía selectiva renal izquierda no se manifiesta como un método adecuado para la valoración del atrapamiento de VRI; la cateterización selectiva de la misma a través de la zona comprimida altera la circulación fisiológica del flujo venoso y raramente verifica la compresión de la VRI. Sí que es de utilidad la medida de los gradientes de presión entre la VRI y la vena cava inferior. Gradientes de presión de menos de 1 mmHg se dan en el 98 % de los individuos normales<sup>22</sup>. Gradientes de presión de 3 mmHg o más pueden ser indicativos de hipertensión de VRI, hallazgo que se da en el 88 % (14 de 16) de los pacientes con hematuria no glomerular de la serie estudiada por Neishimura, 1986<sup>23</sup>. Takahashi<sup>19</sup> encuentra en 1988 gradientes de presión tan bajos como 2 mmHg en pacientes que claramente tienen un atrapamiento de VRI en el estudio por ASD intraarterial.

Dada la alta incidencia en la bibliografía del síndrome de atrapamiento de VRI en los pacientes en edad escolar y adultos jóvenes, debe considerarse de forma protocolizada esta entidad entre las causas de hematuria recurrente asintomática no glomerular. La US es el procedimiento a realizar en primer lugar para la valoración de esta patología, pudiendo evitarse la realización de técnicas más invasivas. Cuando la US y TC no son concluyentes debe

practicarse la angiografía selectiva de la arteria renal izquierda por sustracción digital, prestando especial atención al retorno venoso, siendo el método más adecuado para el establecimiento del diagnóstico definitivo de atrapamiento de VRI o síndrome del cascanueces y el único para la demostración de la existencia de circulación colateral si la hay.

#### Bibliografía

1. Birch DF y Fairley KF: Hematuria: Glomerular or non-glomerular? *Lancet*, 20:845-846, 1979.
2. Fairley KF y Birch DF: Hematuria: A simple method for identifying glomerular bleeding. *Kidney Int*, 21:105-108, 1982.
3. Birch DF, Fairley KF, Whitworth JA, Forbes IK y Fairley JK: Urinary erythrocyte morphology in the diagnosis of glomerular hematuria. *Clin Nephrol*, 20 (2):78-84, 1983.
4. Fasset RG, Horgan BA y Mathew TH: Detection of glomerular bleeding by phase-contrast microscopy. *Lancet*, 26:1432-1434, 1982.
5. Shichiri M, Oowada A, Nishio Y y Tomita K: Use of autoanalyser to examine urinary-red-cell morphology in the diagnosis of glomerular haematuria. *Lancet*, 4:781-782, 1986.
6. Shichiri M, Hosada K y Nishio Y: Curvas de distribución del volumen eritrocitario en el diagnóstico de la hematuria glomerular y no glomerular. *Lancet* (ed. esp.), 13 (3):151-153, 1988.
7. Tsukahara H, Yoshimoto M, Morikawa K, Okadata T, Kuroda M y Sudo M: Urinary erythrocyte volume analysis: A simple method for localizing the site of hematuria in pediatric patients. *J Pediatr*, 115 (3):433-436, 1989.
8. Calvo Penadés I: Estudio de la hematuria en la infancia por métodos no invasivos. Tesis doctoral. Valencia, 1990.
9. Hayashi M, Kume T y Nihira H: Abnormalities of renal venous system and unexplained renal hematuria. *J Urol*, 124:12-16, 1980.
10. Stewart BH y Reiman G: Left renal venous hypertension nutcracker syndrome. *Urology*, 20:365-369, 1982.
11. De Shepper: Nutcracker phenomenon of the renal vein causing left renal vein pathology. *J Belge Radiol*, 55:507-510, 1972.
12. Pastershauk SP: Left renal vein obstruction by a superior mesenteric artery. *J Canad Assoc Radiol*, 25:52-54, 1974.

13. Weiner SN, Bernstein RG, Morehouse H y Golden RA: Hematuria secondary to left peripelvic and gonadal vein varices. *Urology*, 22:81-84, 1983.
14. Wendel RG, Crawford ED y Hehman KN: The «nutcracker» phenomenon: an unusual cause for renal varicosities with hematuria. *J Urol*, 123:761-763, 1980.
15. De Santo NG, Nuzzi F, Capodicasa G, Lama G, Caputo G, Rosati P y cols.: Phase contrast microscopy of the urine sediment for the diagnosis of glomerular and nonglomerular bleeding-data in children and adults with normal creatinine clearance. *Nephron*, 45:35-39, 1987.
16. Raman GV, Pead L y Maskell RL: A blind controlled trial of phase-contrast microscopy by two observers for evaluating the source of hematuria. *Nephron*, 44:304-308, 1986.
17. Rizzoni G, Braggion F y Zacchello G: Evaluation of glomerular and nonglomerular hematuria by phase-contrast microscopy. *J Pediatr*, 103 (3):370-374, 1983.
18. Docci D, Delvecchio C, Turci A, Turci F, Baldrati L y Martinelli A: Detection of glomerular bleeding by urinary-red-cell-size distribution. *Nephron*, 50:380-382, 1988.
19. Takahashi Y, Akaishi K, Sano A y Kuroda Y: Intra-arterial digital subtraction angiography for children with idiopathic renal bleeding: a diagnosis of nutcracker phenomenon. *Clin Nephrol*, 30 (3): 134-140, 1988.
20. Wolfish NM, McLain PN y Martin D: Renal vein entrapment syndrome: frequency and diagnosis. A lesson in conservatism. *Clin Nephrol*, 26 (2):96-100, 1986.
21. Bushi AJ, Harrison RB, Brenbridge ANAC, Williamson BRJ, Gentry RR y Cole R: Distended left renal vein: CT/sonographic normal variant. *Am J Radiol*, 135:339-342, 1980.
22. Beinart C, Sniderman KN, Tamura S, Vaughan ED y Sos TA: Left renal vein to inferior vena cava pressure relationship in humans. *J Urol*, 127:1070-1071, 1982.
23. Nishimura Y, Fushiki M, Yoshida M y Nakamura K: Left renal vein hypertension in patients with left renal bleeding of unknown origin. *Radiology*, 160:663-667, 1986.