

Caracterización del síndrome de cascanueces

Characterization of Nutcracker Syndrome

Eugenia María Serrano Canto¹ <https://orcid.org/0000.0003-0696-3257>

Sandalio Durán Álvarez^{1*} <https://orcid.org/0000-0001-7522-9182>

Niurka Diaz Zayas¹ <https://orcid.org/0000-0002-4478-1205>

Neri Campaña Cobas¹ <https://orcid.org/0000-0002-5772-1381>

Oramis Sosa Palacios¹ <https://orcid.org/0000-0002-7074-8853>

José Severino Hernández¹ <https://orcid.org/0000-0002-4045-7123>

¹Hospital Pediátrico Universitario “William Soler”. La Habana, Cuba.

*Autor para la correspondencia: sduran@infomed.sld.cu

RESUMEN

Introducción: El síndrome de cascanueces es una anomalía vascular poco buscada y diagnosticada, por su baja incidencia y por la dificultad de sospecharla ante manifestaciones clínicas frecuentes.

Objetivo: Examinar las características clínicas e imagenológicas de los pacientes diagnosticados con el síndrome de cascanueces.

Método: Estudio descriptivo retrospectivo y prospectivo en pacientes atendidos en el Hospital Pediátrico Universitario “William Soler” entre enero de 2013 - diciembre de 2017. Cuando se sospechó el síndrome se realizó ultrasonido buscando la dilatación de la vena renal izquierda y el ángulo de salida de la arteria mesentérica superior. En 7 de los pacientes se realizó angio-TAC. Se revisaron variables epidemiológicas, clínicas, de laboratorio e imagenológicas.

Presentación de los casos: Del total de 9 pacientes en que se diagnosticó la anomalía vascular, 6 (66,7 %) pertenecen al sexo masculino. La edad media al diagnóstico fue 11,4 años (rango: 7-15). Se diagnosticó cascanueces anterior en 7 (77,7 %), posterior en 1 (11,1 %) y síndrome de Wilkie con fenómeno cascanueces asociado en 1 (11,1%). En el 100 % de los casos hubo

dolor abdominal o lumbar, asociado a hematuria en 4, orinas espumosas en 4 y varicocele izquierdo en 2 de los 6 varones (33,3 %).

Conclusiones: El síndrome de cascanueces debe buscarse en los pacientes que presentan dolor abdominal, lumbar o en flanco izquierdo en forma recurrente, episodios de hematuria recurrente o proteinuria ortostática. En el varón con varicocele izquierdo debe descartarse esta posibilidad. El fenómeno cascanueces, puede diagnosticarse cuando se investiga al paciente por causa no relacionada.

Palabras clave: síndrome de cascanueces; fenómeno cascanueces; síndrome de la arteria mesentérica superior; síndrome de Wilkie; diagnóstico imagenológico.

ABSTRACT

Introduction: Nutcracker syndrome (NCS) is a vascular anomaly which is rarely searched and diagnosed due to its low incidence and because of the difficulty to suspect on it among other frequent clinical manifestations.

Objective: To examine clinical and imaging characteristics of patients diagnosed with NCS.

Methods: Descriptive, retrospective and prospective study in patients admitted in “William Soler” University Pediatric Hospital in the period from January, 2013 to December, 2017. When it was suspected the presence of the syndrome, it was made an ultrasound looking for dilation of the left renal vein and the output angle of the superior mesenteric artery. In 7 patients it was made an angio-TAC. The epidemiologic, clinical, laboratory and imaging variables were reviewed.

Presentation of cases: From the total of 9 patients diagnosed with a vascular anomaly; 6 (66,7%) were males. The mean age was 11,4 years (range 7-15 years). It was diagnosed front NCS in 7 patients (77.7%), back NCS in 1 patient (11.1%) and Wilkie syndrome with associated NCS in 1 patient (11.1%). 100% of the cases presented abdominal or lumbar pain related to hematuria (4 patients), foaming urine (4 patients) and left varicocele in 2 of the male patients (33.3%).

Conclusions: Nutcracker syndrome should be searched in patients presenting frequent abdominal, lumbar or left side pain, recurrent hematuria or orthostatic proteinuria episodes. In males with left varicocele should be discounted this possibility. Nutcracker phenomenon can be also diagnosed when the patient is being investigated due to not related causes.

Keywords: Nutcracker syndrome; Nutcracker Phenomenon; Superior Mesenteric Artery Syndrome; Wilkie syndrome; imaging diagnosis.

Recibido: 02/03/2020

Aceptado:23/08/2020

Introducción

Las estructuras vasculares intrabdominales pueden comprimir o ser comprimidas por estructuras adyacentes.⁽¹⁾ Estas compresiones pueden cursar asintomáticas o producir síntomas. Este es el caso del atrapamiento de la vena renal izquierda entre la aorta abdominal y la arteria mesentérica superior (AMS) cuando existe una emergencia anormal de esta arteria,^(2,3,4) descrito por *De Schepper* en 1972,⁽⁵⁾ y que lo denominó “cascanueces”.

Se han descrito tres variantes anatómicas de este fenómeno: cascanueces anterior (el más frecuente), cascanueces posterior y una forma muy rara que se ha denominado “cascanueces invertido”.^(6,7,8,9)

La forma más típica del síndrome de cascanueces consiste en la compresión de la vena renal izquierda entre la aorta abdominal y la AMS (cascanueces anterior). Menos frecuentemente la vena renal izquierda retroaórtica o circunaórtica puede ser comprimida entre la aorta y un cuerpo vertebral, lo que se conoce como cascanueces posterior.⁽¹⁰⁾ y el cascanueces invertido que se produce por la persistencia de una vena cava inferior izquierda, que es una forma muy rara de presentación.

Este síndrome, casi siempre producido por una anomalía vascular congénita, puede asociarse a causas adquiridas como ptosis renal izquierda, disminución de la grasa perirrenal, lordosis lumbar acentuada y también presentarse en el embarazo. Algunos autores refieren que el síndrome se presenta con mayor frecuencia en mujeres jóvenes, pero puede manifestarse en ambos sexos.^(3,4)

Desde el punto de vista clínico, la compresión de la vena renal izquierda puede ser asintomática (fenómeno cascanueces) o presentar síntomas relacionados (síndrome de cascanueces). En una revisión de los casos publicados hasta 2014 se señalan como

manifestaciones más frecuentes la hematuria macro- o microscópica, el dolor lumbar o abdominal y la proteinuria.⁽¹¹⁾ También pueden aparecer otros síntomas como la congestión pelviana (por obstrucción del flujo venoso gonadal). El dolor y la hematuria pueden exacerbarse con el ortostatismo y el ejercicio y además se describen el síndrome de fatiga fácil y el varicocele izquierdo y várices lumbares.^(4,7) Su verdadera incidencia se desconoce debido a que en múltiples ocasiones la anomalía es asintomática y frecuentemente el diagnóstico se realiza después de haber descartado otras causas más frecuentes de hematuria y dolor lumbar.⁽¹²⁾

Inicialmente, el síndrome de la arteria mesentérica superior (SAMS) o síndrome de Wilkie se consideró una variante del síndrome de cascanueces, pero presentan síntomas que pueden confundirlos y diferenciarlos. Este síndrome es la compresión extrínseca del duodeno que cruza por delante de la vena renal izquierda entre la aorta y la arteria mesentérica superior.⁽¹³⁾ Sus síntomas más frecuentes son los trastornos posprandiales crónicos o vagos, como dolor en epigastrio, distensión abdominal, náuseas, vómitos, sensación precoz de saciedad y pérdida de peso y se han notificado casos de asociación con el fenómeno o síndrome de cascanueces.^(14,15,16)

Partiendo de sintomatología tan variada, después de descartarse las causas más frecuentes, se buscó mediante ultrasonografía la dilatación por compresión de la vena renal izquierda y el ángulo de salida de la AMS, con la finalidad de caracterizar este síndrome.

Los pacientes que se presentaron con la sintomatología referida en la literatura, después de descartar sus causas más frecuentes, fueron sometidos a ultrasonido para buscar dilatación de la vena renal izquierda por compresión y el ángulo de salida de la AMS y si se encontró dilatación venosa o un ángulo de salida anormal, los pacientes se estudiaron atendiendo a su sintomatología. En algunos pacientes se realizó angio-TAC.

Cuando la anomalía se detectó en pacientes que presentaban síntomas se clasificó como síndrome de cascanueces; si la anomalía se diagnosticó incidentalmente en pacientes sin síntomas relacionados se identificó como fenómeno cascanueces.

Para el estudio de los pacientes se obtuvo el consentimiento de los padres, después de ofrecerles una explicación detallada, también a los pacientes, del proceder a realizar y los objetivos de las investigaciones. Se analizó el sexo, la edad de presentación de los síntomas, el tipo de síntomas y el tiempo transcurrido entre su aparición y el diagnóstico de la anomalía.

El estudio fue aprobado por el Comité de Ética para la Investigación en Salud y por el Consejo Científico del Hospital. El objetivo de ese estudio es examinar las características clínicas e imagenológicas de los pacientes diagnosticados con el síndrome de cascanueces.

Presentación de casos

Los resultados del estudio de esta pequeña serie de casos, se muestran con una breve historia de cada paciente y después se presenta tabla para analizar características del grupo en su totalidad.

Paciente 1: sexo masculino de 14 años que es remitido a nefrología por proteinuria. Fue atendido en la consulta de gastroenterología por dolor abdominal recurrente desde los 3 años de edad y hematuria microscópica intermitente a partir del año de edad. A su ingreso a los 14 años se clasifica como delgado en la valoración nutricional y se diagnostica proteinuria ortostática. Después de varias investigaciones sin precisarse causa de la proteinuria se realizó ultrasonido buscando la anomalía y se detectó disminución del ángulo de salida de la AMS (aproximadamente 23° y dilatación de vena renal izquierda) (Fig. 1) y se realizó angio-TAC que confirmó el diagnóstico. A los 15 años desaparecieron los episodios de dolor abdominal, a los 17 la microhematuria y a los 18 años la proteinuria ortostática en dos controles evolutivos con intervalo de 6 meses.

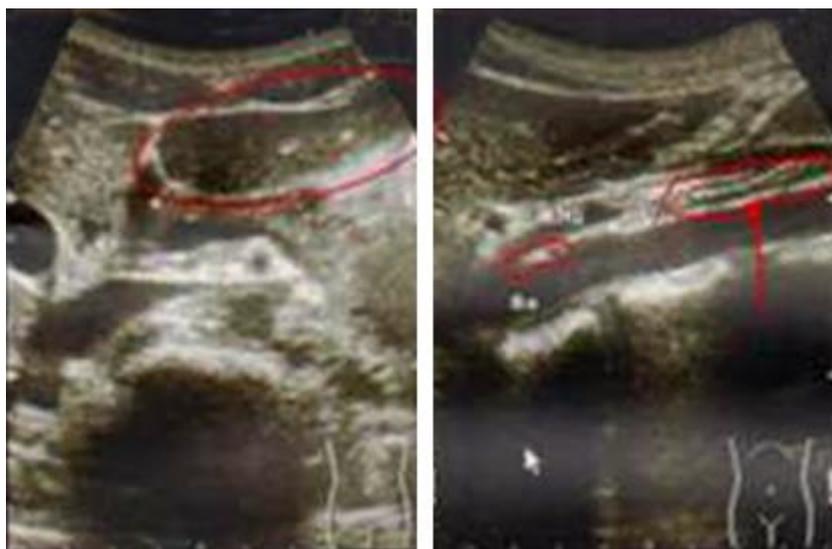


Fig. 1 - Paciente 1: síndrome de cascanueces anterior (emergencia anormal de la mesentérica superior con ángulo aortomesentérico aproximadamente de 23 grados y dilatación de la vena renal izquierda).

Paciente 2: adolescente masculino de 13 años de edad y antecedentes de hipercalcemia e hipertensión arterial diagnosticada a los 12 años, remitido a la consulta de nefrología por hematuria macroscópica, astenia y dolor abdominal recurrente a partir de los 10 años. Al examen se encuentra varicocele izquierdo. Por su evaluación nutricional clasifica como delgado. El índice calcio-creatinina en orina fue de 0,21 y el ultrasonido plantea el diagnóstico que se confirma mediante angio-TAC.

Paciente 3: varón de 9 años que acude al servicio de urgencias por adenopatías cervicales y axilares de 4 meses de evolución, pérdida de peso y astenia. La biopsia de ganglio cervical confirma proceso inflamatorio sin malignidad. En los antecedentes se recoge dolor abdominal recurrente de 4 meses de evolución. Se valoró nutricionalmente como delgado. En el ultrasonido en busca de adenopatías intrabdominales se detectó la anomalía vascular y se confirmó como un fenómeno cascanueces mediante angio-TAC. En el seguimiento de este paciente no se han presentado síntomas del síndrome de cascanueces.

Paciente 4: adolescente masculino de 15 años que consulta por dolor abdominal recurrente de 4 meses de evolución y orinas espumosas. Al examen se detecta varicocele izquierdo. Por su valoración nutricional clasifica como eutrófico. En su estudio se comprueba proteinuria ortostática. La ultrasonografía planteó el diagnóstico que se confirma mediante angio-TAC como un síndrome de cascanueces posterior) (Fig 2).

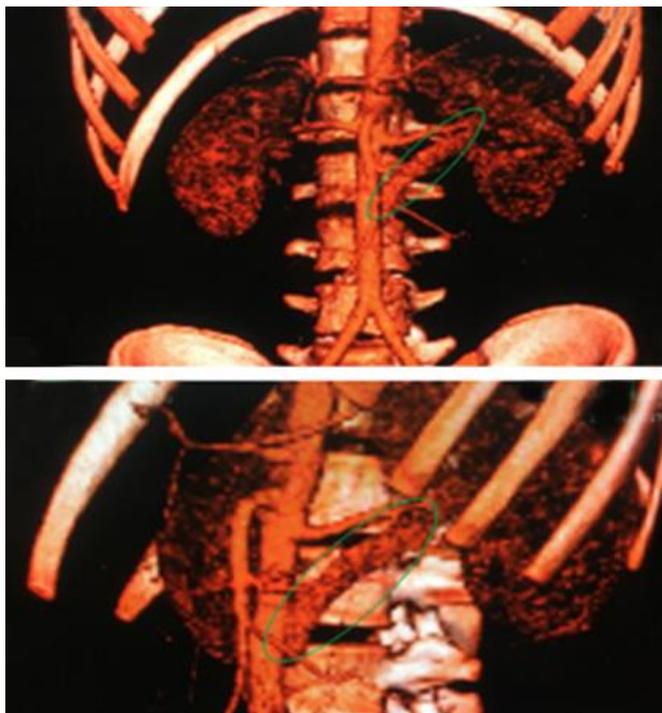


Fig. 2 - Paciente 4: cascanueces posterior: La vena renal izquierda pasa por detrás de la aorta (retroaórtica). La vena es comprimida entre la aorta y los cuerpos vertebrales y se produce ectasia de la vena renal.

Paciente 5: escolar de sexo masculino y 7 años de edad que consulta por hematuria macroscópica y dolor lumbar izquierdo recurrente. El ultrasonido plantea el diagnóstico que se confirma mediante angio-TAC.

Paciente 6: masculino de 12 años de edad que se estudia por dolor lumbar izquierdo recurrente desde los 9 años. El estudio detecta proteinuria ortostática y su valoración nutricional lo enmarca como eutrófico. La ultrasonografía plantea el diagnóstico que se confirma mediante angio-TAC.

Paciente 7: adolescente de sexo femenino y 14 años de edad que ingresa en el servicio de nutrición por pérdida de peso, inapetencia, vómitos abundantes y frecuentes, anorexia, astenia y sensación precoz de saciedad de dos años de evolución. Se valoró como desnutrida (< 3^{er} percentil). En la ultrasonografía se observó ángulo aorto-mesentérico de 16° aproximadamente (Fig. 3) y dilatación de la vena renal izquierda. En el estudio contrastado (esófago, estómago y duodeno) se observa estómago grande que casi llega a la excavación pélvica (Fig.4) con buena motilidad, sin engrosamiento de pliegues gástricos, buen paso hacia el duodeno, con marco duodenal normal y dilatación de primera, segunda y tercera porción

del duodeno, con movimientos de vaivén (lucha), aunque se logra el paso de contraste hacia asas delgadas, las cuales son de aspecto y posición normal. En vistas tardías (2 horas y media) se observa retraso en el vaciamiento gástrico. Los estudios de orina fueron normales. La angio-TAC demostró fenómeno cascanueces asociado a síndrome de Wilkie o síndrome de la arteria mesentérica superior (SAMS).



Fig. 3 - Paciente 7: marcada disminución del ángulo (16 grados) entre la arteria mesentérica superior y la aorta.

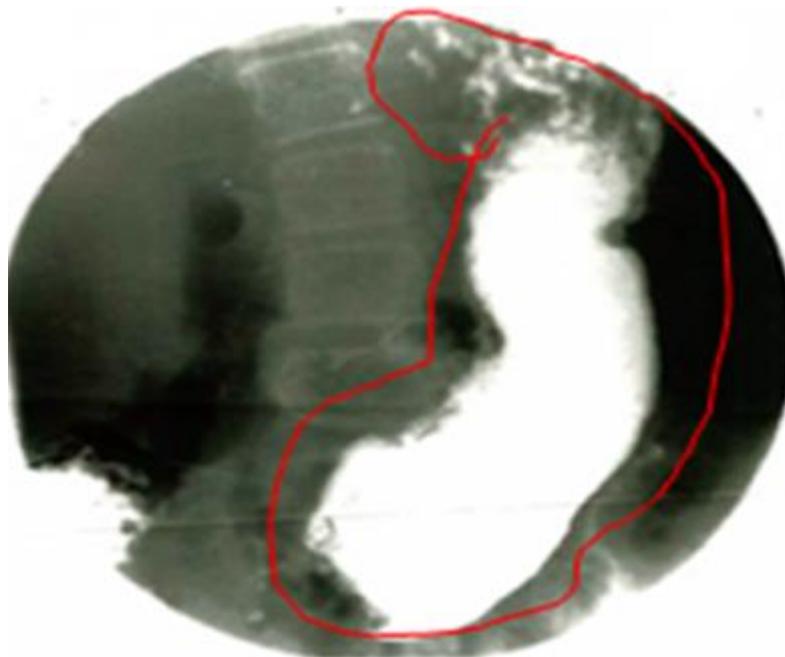


Fig. 4 - Paciente 7: síndrome de Wilkie asociado con cascanueces. Se observa estómago en “J” grande que casi llega a excavación pélvica, con buen paso del contraste hacia el duodeno, el cual se aprecia dilatado en su II y III porción, con movimiento de vaivén (lucha).

Paciente 8: sexo femenino de 9 años de edad, que consulta por dolor abdominal recurrente y hematuria macroscópica que hizo pensar en cólico renal y se clasifica como delgada en su evaluación nutricional. En su seguimiento por consulta la ultrasonografía demuestra ángulo aorto-mesentérico de 30° aproximadamente y dilatación de vena renal izquierda. No se realizó angio-TAC.

Paciente 9: sexo femenino de 10 años de edad que consulta por dolor abdominal recurrente y orinas espumosas. Se clasifica como delgada y se demuestra proteinuria ortostática. La ecografía demuestra ángulo aorto-mesentérico en el límite de 30° que produce ectasia de vena renal izquierda y se diagnostica síndrome de cascanueces anterior, aunque no se realizó angio-TAC.

En la caracterización del síndrome en esta pequeña serie, todos los pacientes con síndrome de cascanueces presentaron dolor abdominal o lumbar, la hematuria se presentó en 4 (50 %), proteinuria ortostática en 4 (50 %), pérdida de peso en 2 (25 %) y varicocele izquierdo en 2 de los 6 varones (33,3 %). Predominaron los pacientes delgados (55.5 %). La paciente 7 (síndrome de Wilkie) no presentó síntomas relacionados con la anomalía vascular (fenómeno cascanueces), que se detectó al estudiarla por sintomatología no relacionada.

La edad promedio al diagnosticarse el síndrome o fenómeno cascanueces fue 11,4 años (rango: 7-15), pero el tiempo transcurrido entre el inicio de los síntomas y el diagnóstico de la anomalía varió entre 0,4 y 13 años (media: 4,6). En la tabla se muestran las variantes de la anomalía (síndrome o fenómeno) encontradas en este estudio.

Tabla - Variantes de cascanueces diagnosticadas por imágenes

Variante	No. de pacientes	%
Síndrome de cascanueces anterior	7	77,7
Síndrome de cascanueces posterior	1	11,1
Síndrome de Wilkie + fenómeno cascanueces	1	11,1

Discusión

En este pequeño estudio se apreció que el dolor recurrente (abdominal o lumbar), por lo general de más de un año de evolución se presentó en 100 % de los casos con el síndrome seguido por la hematuria macro- o microscópica que se publica en la literatura como el síntoma de presentación más frecuente.^(11,17,18) Aunque menos frecuente que el dolor abdominal o lumbar recurrente, la hematuria, principalmente en forma macroscópica recurrente fue una manifestación clínica referida y constatada en el 50 % de los pacientes de este estudio.

La proteinuria ortostática se detectó en igual proporción que la hematuria. *Bechmann* y *Abrams*,⁽¹⁹⁾ la señalan en 30,3 % de los casos, mientras otros autores refieren cifras menores,^(20,21) y se destaca que la proteinuria varía con los cambios posturales.⁽²⁾

En 2 de los 6 (33,3 %) pacientes de sexo masculino, se presentó varicocele izquierdo, y varios autores señalan que entre las manifestaciones acompañantes del síndrome de cascanueces se encuentra el varicocele izquierdo.^(17,19,22,23)

En una revisión de cincuenta y cinco publicaciones entre 1980 y 2014 de síndrome de cascanueces se encontró varicocele en el hombre en 35,7 % de los casos.⁽¹⁹⁾ Lo encontrado en nuestro estudio y lo referido por otros, prácticamente nos obliga a descartar cascanueces en todos los pacientes con varicocele izquierdo.

La mayoría de los pacientes que estudiamos eran delgados (la paciente con síndrome de Wilkie estaba por debajo del tercer percentil). Al respecto se plantea que el síndrome de cascanueces es de rara presentación y puede aparecer en asociación con enfermedades debilitantes, pero debe considerarse en el diagnóstico diferencial de síntomas abdominales, sobre todo en adolescentes que han perdido peso en forma significativa.⁽¹⁴⁾ Este pudiera ser el caso de nuestro paciente número 3, que aunque se recogió el antecedente de dolor abdominal, se sospechó el fenómeno cascanueces al buscar adenopatías intrabdominales, y se demostró la anomalía vascular con estudios imagenológicos (angio-TAC), se recuperó clínicamente y se mantiene asintomático durante su seguimiento.

Algunas de las características clínicas en la serie de pacientes estudiados (dolor recurrente, hematuria, defecto nutricional, proteinuria ortostática, anemia y varicocele en los varones) pueden aparecer mucho antes de establecer el diagnóstico de síndrome de cascanueces.

Se reconoce que la ecografía doppler es un medio óptimo para la evaluación inicial ante la sospecha de síndrome de cascanueces,^(1,24) y contribuye con la precisión de aumento de las venas gonadales, várices pélvicas y varicoceles,^(1,18,25) en tanto la angio-TAC es un medio de mayor precisión que permite demostrar la anormalidad anatómica.⁽²⁾

En los pacientes estudiados predominó el diagnóstico de cascanueces anterior, que se describe en la literatura como la forma más frecuente del síndrome, mientras que el posterior es menos frecuente,^(1,20,26) solo diagnosticamos un caso.

La incidencia de SAMS o síndrome de Wilkie se ubica entre 0,013 y 0,3 % según señalan algunos autores,⁽²⁷⁾ mientras otros lo sitúan entre 0,1 y 0,3 %.⁽²⁸⁾ En la presente serie de casos se diagnosticó una adolescente con este síndrome y manifestaciones digestivas típicas (posprandiales) en correspondencia con lo que se informa en la literatura.⁽²⁷⁾

La AMS se origina en la aorta a nivel de L1, no obstante, la variabilidad es de T12 a L3 y el ángulo aorto-mesentérico normal en los adultos ($> 25^\circ$) contiene la vena renal, el proceso uncinado del páncreas, la tercera porción del duodeno y la grasa retroperitoneal. El SAMS solo puede ser confirmado teóricamente, cuando la tercera o cuarta porción del duodeno son comprimidas por la AMS y la aorta, la columna o ambas, y se aceptan como límites de ángulos patológicos, los menores de 25° con más de 10 mm de distancia.⁽¹²⁾ En la paciente número 7 de este estudio, se midió un ángulo de 16° .

Por otra parte, las longitudes mayores o menores del ligamento de Treitz y el nivel del duodeno en la columna (L2 o L3) también parecen ser determinantes en la patogénesis.⁽¹²⁾

Se ha señalado la importancia de correlacionar los hallazgos imagenológicos y los datos clínicos para identificar la compresión vascular asintomática, que no requiere tratamiento, con manifestaciones clínicas inespecíficas o vagas y el grupo de pacientes con verdadero síndrome que pueden beneficiarse de la terapéutica,⁽¹⁾ La paciente que describimos tenía los síntomas y hallazgos imagenológicos de un SAMS (Wilkie), y el estudio con imágenes encontró un fenómeno cascanueces (compresión de la vena renal izquierda) sin sintomatología clínica.

En la literatura reciente se notifican casos de asociación de SAMS (Wilkie) y el síndrome de cascanueces.

En 2014, *Inal* y otros,⁽²⁹⁾ describen un hombre de 28 años que consulta por un día de vómitos, dolor epigástrico y distensión abdominal; en el interrogatorio se recoge pérdida de peso, anorexia y dolor abdominal intermitente en los últimos años. La TAC demostró SAMS

(Wilkie), pero también compresión de la vena renal izquierda, por lo que se describe como un síndrome de Wilkie acompañado de un síndrome de cascanueces.

En 2017, se informa un hombre de 28 años que consulta por vómitos intensos, dolor epigástrico y distensión abdominal; además refería saciedad precoz, dolor posprandial y vómitos ocasionales durante el último año. El estudio con imágenes (TAC 64 cortes) demostró estómago y duodeno proximal dilatados con estrechamiento de la tercera porción del duodeno y disminución del ángulo aorto-mesentérico (15°). Además, la vena renal izquierda estaba comprimida por la mesentérica superior justamente en su origen.⁽¹³⁾

También en 2017, se publica otro hombre de 23 años, saludable, en el que se diagnostica síndrome de Wilkie y síndrome de cascanueces, que se presenta con vómitos biliosos y alimentos sin digerir por tres días consecutivos. Había perdido 20 kg de peso durante el servicio militar. Se corrigió laparoscópicamente el SAMS (Wilkie) y se recomendó observación estrecha del síndrome de cascanueces.⁽¹⁵⁾

Estos tres pacientes, aunque los autores refieren síndrome de cascanueces, ninguno presenta síntomas relacionados con la compresión de la vena renal, por lo que siguiendo los criterios más aceptados, deben considerarse fenómeno y no síndrome de cascanueces al igual que el analizado en este estudio.

Cabe señalar que no encontramos casos pediátricos con esta asociación en la literatura médica revisada.

Los pacientes con hematuria ligera pueden mejorar con tres medidas de tratamiento conservador, particularmente efectivo en menores de 18 años, ya que se ha notificado la desaparición de la hematuria en dos años, al menos en 75 % de los pacientes de edad pediátrica. Las medidas conservadoras consisten en: un modesto aumento de peso en los pacientes delgados, compresión con vendaje elástico en los pacientes con dolor pélvico o en el flanco e inhibidores de la angiotensina en los que presentan proteinuria.^(24,30) En el paciente número 1 que logramos seguir su evolución hasta los 19 años y que presentó hematuria microscópica, dolor abdominal recurrente y proteinuria ortostática, estas manifestaciones fueron desapareciendo y solamente recibió medicación analgésica en pocas ocasiones.

En los pacientes con hematuria importante, dolor intenso en pelvis o flanco o afectación de la función renal, el tratamiento quirúrgico puede estar indicado. Se han descrito varias opciones quirúrgicas en la literatura incluyendo nefropexia, derivación gónado-cava, transposición de

la AMS, autotrasplante renal, transposición de la vena renal izquierda y la colocación de stents endovenosos.⁽²⁴⁾ Aunque la colocación de stents ha ganado adeptos en el tratamiento del síndrome de cascanueces,^(2,31) pueden ocurrir migraciones hacia vena cava inferior y corazón que pueden requerir cirugía y sustitución valvular.^(31,32,33)

Algunos autores han utilizado procedimientos quirúrgicos en niños,⁽³⁴⁾ pero en la edad pediátrica el tratamiento observacional es lo más recomendable.⁽¹⁶⁾

En nuestra revisión de la literatura cubana solamente encontramos dos casos publicados por *Campañá* y otros, en 2015.⁽³⁵⁾

Podemos concluir que el síndrome de cascanueces debe buscarse en los pacientes que presentan dolor abdominal, lumbar o en flanco izquierdo en forma recurrente, episodios de hematuria recurrente o proteinuria ortostática. En el varón con varicocele izquierdo debe descartarse esta posibilidad. El fenómeno cascanueces, puede diagnosticarse cuando se investiga al paciente por causa no relacionada.

Agradecimiento

Al Dr. *Ramón Villamil Martínez* por el diagnóstico y tratamiento de la paciente con síndrome de Wilkie.

Referencias bibliográficas

1. Sriajjakul S, Prapaisilp P, Bangchokdee S. Imaging features of vascular compression in abdomen. Fantasy, phenomenon or true syndrome, Indian J Radiol Imaging. 2017;27:216-24.
2. Korkes F. Nutcracker syndrome: How are we cracking the nuts and whose nuts are cracking? Int Braz J Urol. 2017;43:788-90.
3. Dellavedona T, Síndrome de cascanueces: Comunicación de un caso, Rev Mex Urol. 2010;70:51-4.
4. Vidarte O, Salinas C, Quiroa F, Melgarejo W, Medina R, Zegarra L. Hematuria macroscópica persistente causada por el síndrome de cascanueces. Rev Med Hered, 2000;11:34-9.

5. De Schepper A, “Nutcracker” phenomenon of the renal vein and venous pathology of the left kidney. *J Belge Radiol.*1972;55:507-11.
6. Del Canto Perunera P, Vaquero Lorenzo F, Vallina-Victorero Vázquez MJ, Álvarez Salgado A, Vicente Santiago M, Rojas Velasco M, *et al.* Recurrent hematuria caused by nutcracker syndrome. *Ann Vasc Surg.* 2014;28:e15-e19.
7. Lewis DS, Grimm LJ, Kim CY, Left renal vein compression as cause for varicocele: Prevalence and associated finding on contrast-enhance CT. *Abdom Imaging*, 2015;40:3147-51.
8. Rudloff V, Holmes RI, Faust GR, Moldwin R, Siegel D. Meso-aortic compression of the renal vein (nutcracker syndrome): Case report and review of the literature. *Ann Vasc Surg*, 2006;20:120-9.
9. Ekwenna O, Gorin MA, Castellán M, Casillas V, Ciancio C. Inverted nutcracker syndrome: A case of persistent hematuria and flank pain in presence of left-side inferior vena cava. *Scientific World J.* 2011;11:1301-5.
10. Kurklinsky AK, Rooke TW. Nutcracker phenomenon and nutcracker syndrome. *Mayo Clin Proc.* 2010;85:552-9.
11. Vianello FA, Mazzoni MBM, Peeters GB, Fossali E, Camozzi P, Bianchetti MB, *et al.* Micro- and macroscopic hematuria caused by renal vein entrapment: Systematic review of the literature. *Pediatr Nephrol.* 2016;31:175-84.
12. Quintana de la Cruz R, Pastor Sánchez C, Goic Ortiz V, Zarcía Díaz de la Espina MA, Torres Sousa MY, Villanueva Liñán J. Pinza aorto mesentérica, dos patologías en una [poster S-0966]. Sociedad Española de Radiología Médica (SERAM). España: Congreso SERAN; 2014. doi:<http://dx.doi.org/10.1594/seran2014/S-0966>.
13. Michael PE, Al-Saadi T, Jamkhandikar R. A rare case of coexisting superior mesenteric artery syndrome and nutcracker phenomenon. *Sultan Qaboos Univ Med J.* 2017;17:e368-e370.
14. Alvarenga A, Espinheira C, Guerra P, García M, Abreu M, Campos M. Superior mesenteric artery syndrome: Weight loss can be a problem, weight gain can be a solution. *GE Port J Gastroenterol.* 2017;24:43-6.
15. Oh MJ. Superior mesenteric artery syndrome combined with renal nutcracker syndrome in a young child. A case report. *Korean J Gastroenterol.* 2017;70:253-60.

16. Oseguera de Rodriguez EJ, Hernández-Villegas AC, Serralde-Zúñiga AE, Reyes-Ramírez ALDC. The two sides of superior mesenteric artery syndrome: Conservative or surgical treatment? *Nutr Hosp.* 2017;34:97-100.
17. Takahashi Y, Sato A, Matsoo M, An ultrasonographic classification for diverse clinical symptoms of pediatric nutcracker phenomenon. *Clin Nephrol.* 2005;64:47-50.
18. Atkinson TH, Love M, Messer J. Gross hematuria caused by nutcracker syndrome and segmental pseudoaneurism. *Can J Urol.* 2015;22:7445-7.
19. Bechmann CF, Abrams HC, idiopathic renal vein varices: Incidence and signification. *Radiology.* 1982;143:649-52.
20. Berthelot JM, Dovane F, Maugars Y, Frampas E. Nutcracker syndrome: A rare cause of left flank pain that can also manifest as unexplained pelvic pain. *Join Bone Spine.* 2017;84:557-62.
21. Rogers A, Beech A, Brairhwaite B. Transperitoneal laparoscopic left gonadal ligation can be right treatment option for pelvis congestion secondary to nutcracker syndrome. *Vascular Surg.* 2007;15:238-45.
22. Unlu M, Orguc S, Serter S, Pekindil G, Pobascu Y. Anatomic and hemodynamic evaluation of renal venous flow in varicocele formation using color Doppler sonography with enfasis on renal vein entrapment syndrome. *Scand J Urol Nephrol.* 2007;41:42-8.
23. Coolsaet BL. Ureteric pathology in relation to right and left gonadal veins. *Urology.* 1978;12:40-9.
24. Hulsberg PC, McLoney E, Partovi S, Davidson JC, Patel IJ. Minimally invasive treatment for venous compression syndromes. *Cardiovasc Diagn Ther.* 2016;6:582-92.
25. Park SJ, Shin JJ. Renal Doppler ultrasonography in the diagnosis of nutcracker syndrome. *Eur J Pediatr.* 2013;172:135-6.
26. Zucker EJ, Ganguli S, Ghoshhajra AB, Gupta R, Prabhakar AM. Imaging of venous compression syndrome. *Cardiovasc Diagn Ther.* 2016;6:519-32.
27. Khoedear Y, Al-Ramli W, Bodnar Z. Laparoscopic management of a complicated case of Wilkie´s syndrome: A case report. *Int Surg Case Rep.* 2017;37:177-9.
28. Zaraket V, Abdelsayed G, Frank G, Deeb L. Wilkie´s syndrome: A rare cause of intestinal obstruction. *Am J Gastroenterol.* 2014;109:S330.

29. Inal M, Unal Daphan B, Karadeniz Bilgili MY. Superior mesenteric artery syndrome accompanying with nutcracker syndrome: A case report. Iran Red Crescent J. 2014;16.16:e14755. doi:10.5812/ircmj.14755.
30. Nahmood SK, Oliveira GR, Rosovsky RP. An easily missed diagnosis: Flank pain an nutcracker syndrome. BMJ Case Rep. 2013;2013:bcr2012009447 doi: 10.1138/bcr.2013.009447. Epub: 2013 May 24.,
31. Anathan K, Owida S, Davies AH. Nutcracker syndrome: An update on current diagnostic criteria and management guidelines. Eur J Vasc Endovasc Surg. 2017;53:886-94.
32. Wu Z, Zheng X, He Y, Fang X, Li D, Tian L, *et al.* Stent migration after endovascular stenting in patients with nutcracker syndrome. J Vasc Surg Venous Lymphat Disord. 2016;4:193-9.
33. Hen S, Zhang H, Tian L, Li M, Zhong M, Wang Z. A stranger in the heart: LRV stent migration. Urol Nephrol. 2009;41:427-30.
34. Ullery BW, Itoga NK, Mell MW. Transposition of the left renal vein for the treatment of nutcracker syndrome in children: A short-term experience. Ann Vasc Surg. 2014;28; e5-8.
35. Campañá Cobas NG, Durán Álvarez S, Abradelo Rodriguez AF, Diaz Zayas N, Hernández Hernández JS. Síndrome de cascanueces, a propósito de dos casos. Rev Cubana Pediatr. 2015 [acceso 10/06/2018];87(3). Disponible en: http://scielo.sld.cu/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S0034-753120140003000148-inf=es

Conflicto de intereses

Los autores declaran la no existencia de ningún conflicto de interés.

Declaración de contribución autoral

Eugenia María Serrano Canto: estudio de los pacientes, revisión de la literatura y redacción del informe final.

Sandalio Durán Álvarez: revisión de la literatura y revisión y corrección del informe final.

Niurka Diaz Zayas: realización e interpretación imagenológica de la anomalía.

Neri Campañá Cobas: Creación del protocolo de investigación

Oramis Sosa Palacios: orientación y revisión estadística.

José Severino Hernández Hernández: seguimiento de los pacientes por consulta externa.