

Treatment of Primary Hydrothorax in a Fetus, with Thoracentesis

ARTICLE INFO

Article Type

Case Report

Authors

Saremi A.T.¹ MD,
Mortazavi S.M.* MD,
Ahmadi H.² MD

How to cite this article

Saremi A T, Mortazavi S M, Ahmadi H. Treatment of Primary Hydrothorax in a Fetus, with Thoracentesis. Sarem Journal of Reproductive Medicine. 2018;2(4):185-188.

ABSTRACT

Patient Information Hydrothorax is a rare disorder in fetal period with the prevalence of 1 in 15,000 pregnancies referring to level 3 clinics, often caused by the accumulation of lymphatic fluid in pleura. Moderate to severe cases are associated with the high incidence of mortality and morbidity in fetal and neonatal period; in this cases, fluid depletion via thoracentesis can reduce the complications of the disease.

After doing ultrasonography and screening, a 29-year-old pregnant woman at 31 weeks pregnant was referred to Sarem Hospital due to fetal hydrothorax. In ultrasonography result, the severe right-sided pleural effusion and mediastinal and heart shift to the left were reported. For the fetus, thoracentesis was performed by mother's skin ultrasound. The fluid was reaccumulated after several days. Then, amniotic sac was ruptured and with premature labor pain, caesarian section was done; a neonate was borne with hydrops. At birth, thoracentesis was performed in the neonate and the chest tube was inserted. After 10 days, the neonate was discharged with good condition. The fluid obtained from pleural aspiration was Chylous.

Conclusion Hydrothorax is a life-threatening disease in fetal period, whose subsequent complications can be prevented by the timely treatment. Thoracentesis is a standard treatment that can be associated with complications, such as preterm labor and hydrothorax relapse.

Keywords Hydrothorax; Thoracentesis; Chylothorax; Fetus

*"Sarem Fertility & Infertility Research Center (SAFIR)" and "Sarem Cell Research Center (SCRC)", Sarem Women's Hospital, Tehran, Iran

¹"Sarem Fertility & Infertility Research Center (SAFIR)" and "Sarem Cell Research Center (SCRC)", Sarem Women's Hospital, Tehran, Iran

²Sarem Women's Hospital, Tehran, Iran

Correspondence

Address: Sarem Women's Hospital, Basij Square, Phase 3, Ekbatan Town, Tehran, Iran. Postal Code: 1396956111

Phone: +98 (21) 44670888

Fax: +98 (21) 44670432
mazy_mor@yahoo.com

Article History

Received: April 15, 2017

Accepted: October 20, 2017

ePublished: November 15, 2018

CITATION LINKS

[1] Fetal Pleural Effusion [2] Neonatal Chylothorax and Dysmorphic Phenotype: A Noonan Syndrome? [3] Nonchylous idiopathic pleural effusion in the newborn [4] Primary fetal hydrothorax: Natural history and management [5] Neonatal-perinatal medicine: Diseases of the fetus and infant [6] Neonatal-perinatal medicine: Diseases of the fetus and infant [7] Congenital pulmonary lymphangiectasis resulting in pleural effusions managed by thoracoamniotic shunting [8] Resolution of unilateral fetal hydrothorax with associated non-immune hydrops after intrauterine thoracentesis [9] Fetal hydrothorax resolving completely after a single thoracentesis: A report of 2 cases [10] Thoraco-amniotic shunting [11] Common etiologies of neonatal pleural effusion [12] Isolated fetal pleural effusion: A prenatal management dilemma

درمان هیدروتوراکس اولیه در جنین با کمک توراکوستن

ابوطالب صارمی MD

"مرکز تحقیقات باروری و ناباروری صارم" و "پژوهشکده سلولی-مولکولی و سلول‌های بنیادی صارم"، بیمارستان فوق تخصصی صارم، تهران، ایران

سیدمازیار مرتضوی* MD

"مرکز تحقیقات باروری و ناباروری صارم" و "پژوهشکده سلولی-مولکولی و سلول‌های بنیادی صارم"، بیمارستان فوق تخصصی صارم، تهران، ایران

حسنعلی احمدی MD

بیمارستان فوق تخصصی صارم، تهران، ایران

چکیده

مشخصات بیمار: هیدروتوراکس یک بیماری نادر در دوران جنینی با شیوع یک در هر ۱۵۰۰۰ مورد حاملگی مراجعه‌کننده به مراکز درمانی سطح ۳ است که اغلب به علت تجمع مایع لنفاوی در فضای پلور ایجاد می‌شود. بیماری در موارد متوسط تا شدید می‌تواند همراه با مورتالیتی و موربیدیتی در دوران جنینی و نوزادی باشد که در این موارد می‌توان با تخلیه مایع پلور از طریق توراکوستن جنینی به بقا و کم‌کردن عوارض ناشی از بیماری کمک کرد.

مادر ۲۹ ساله با حاملگی ۳۱ هفته‌ای به دنبال انجام سونوگرافی‌های غربالگری به علت هیدروتوراکس جنینی ارجاع شد. در سونوگرافی هیدروتوراکس شدید سمت راست همراه با شیفت قلب و مدیاستن به طرف مقابل گزارش شده بود. برای جنین توراکوستن با کمک سونوگرافی از طریق پوست مادر انجام شد. پس از چند روز مجدداً مایع تجمع پیدا کرد و همزمان مادر دچار پارگی کیسه آب و شروع دردهای زایمانی شد که مادر سزارین و نوزاد با علایم هیدروپس متولد شد. در بدو تولد نوزاد توراکوستن شد و لوله سینه‌ای برای وی تعبیه شد. پس از مدت حدود ۱۰ روز با حال عمومی خوب مرخص شد. در بررسی‌های انجام‌شده مایع به‌دست‌آمده از آسپیراسیون پلور، شیلوس بود.

نتیجه‌گیری: هیدروتوراکس از بیماری‌های تهدیدکننده حیات در دوران جنینی است که با انجام درمان به‌موقع می‌توان از عوارض بعدی آن جلوگیری کرد. توراکوستن دوران جنینی از درمان‌های استاندارد است که می‌تواند همراه با عوارضی از جمله زایمان زودرس و عود هیدروتوراکس باشد.

کلیدواژه‌ها: هیدروتوراکس، توراکوستن، شیلوتوراکس، جنین

تاریخ دریافت: ۱۳۹۶/۰۱/۲۷

تاریخ پذیرش: ۱۳۹۶/۰۷/۲۹

*نویسنده مسئول: mazy_mor@yahoo.com

مقدمه

هیدروتوراکس از بیماری‌های نادر دوران جنینی است. اگرچه شیوع بیماری در جامعه مشخص نیست، ولی میزان شیوع آن در مراکز درمانی سطح ۳ حدود یک در هر ۱۵۰۰۰ حاملگی گزارش شده است [1]. [2] با اینکه این بیماری بسیار نادر است، اما در برخی از موارد به‌طور مداوم با ناهنجاری‌های سیستم لنفاوی یا ناهنجاری‌های مجرای سینه همراه است [2]. علل پلورال افیوژن در نوزاد، شامل هیدروپس ایمنی و غیرایمنی ترنر و پایین سندروم مادرزادی، ذات‌الریه و جمع شدن مایع پلور است [3]. اگرچه مقادیر کم افیوژن پلور ممکن است خودبه‌خود جذب شود یا مشکلی در جنین و نوزاد ایجاد نکند ولی مقادیر زیاد مایع می‌تواند موجب هیدروپس جنینی، هیپوپلازی ریه، پلی‌هیدروآمینوس در اثر فشار بر مری، زایمان زودرس و حتی مرگ داخل رحمی شود [4-6]. حدود ۲۷-۹۰٪ موارد بیماری خودبه‌خود جذب می‌شوند [7] و سایر موارد نیاز به مداخلات درمانی در دوران جنینی دارند. پروگنوز در موارد همراهی بیماری با هیدروپس فتالیس، سن حاملگی کمتر از ۳۵ هفته و افیوژن دوطرفه بسیار سخت‌تر است [8]. میزان مورتالیتی بعد از تولد در حدود ۳۷٪ گزارش شده است [9].

به‌طور کلی هیدروتوراکس، اولیه یا ثانویه است. در موارد اولیه علت اصلی، مالفورماسیون‌های عروق لنفاوی است و اغلب درگیری مجرای توراسیک وجود دارد که موجب تجمع مایع لنفاوی در پلور (شیلوتوراکس) می‌شود [10]. در موارد ثانویه هیدروتوراکس معمولاً به‌عنوان جزئی از موارد هیدروپس است که می‌تواند علل ایمونولوژیک یا غیرایمونولوژیک داشته باشد. توراکوستن از طریق پوست، روش تشخیصی و درمانی است [11] که نشان داده شده است در ۲۷٪ موارد با یک نوبت توراکوستن افیوژن برطرف می‌شود و نیاز به اقدام درمانی دیگری نخواهد بود [5]. با این وجود در اغلب موارد مایع مجدداً جمع می‌شود و ریسک ایجاد هیدروپس با هیپوپلازی ریه باقی می‌ماند. در این موارد گذاشتن شانت توراکوآمنیوتیک کمک‌کننده است.

بیمار و روش‌ها

مادر ۲۹ ساله‌ای در حاملگی دوم در سن بارداری ۳۱ هفته‌گی، با تشخیص پلورال افیوژن شدید در سمت راست قفسه سینه جنین، به گروه پریناتولوژی بیمارستان فوق تخصصی صارم ارجاع شد. در سونوگرافی انجام‌شده پلورال افیوژن شدید در سمت راست، همراه با کلاپس ریه راست که موجب شیفت قلب و مدیاستن به سمت مقابل شده بود، دیده شد (شکل ۱). میزان مایع آمنیوتیک بیشتر از حد نرمال بود (AFI=220) و آنومالی یا ناهنجاری در سونوگرافی گزارش نشده بود. در اکوکاردیوگرافی جنینی، پریکاردیال افیوژن خفیف همراه با هیپرتروفی خفیف بطن راست، بدون وجود آنومال‌های مادرزادی قلبی و ریتم قلب نرمال گزارش شد. همچنین آزمایشات غربالگری جنین نرمال بود. حاصل حاملگی اول دختر دوساله‌ای سالم است.



شکل ۱) تصویر سونوگرافی جنینی، پلورال افیوژن شدید همراه با کلاپس ریه

با توجه به هیدروتوراکس شدید، کلاپس ریه راست، اثر فشاری بر قلب و ریه‌ها با کمک سونوگرافی همزمان توراکوستن جنین از طریق پوست مادر انجام و مایع شفاف حدود ۱۰۰ (سی‌سی) از فضای پلور خارج شده که به‌منظور بررسی به آزمایشگاه ارسال شد (شکل ۲). سونوگرافی در حین انجام توراکوستن حاکی از تخلیه همی‌توراکس راست و بازشدن ریه سمت راست به‌همراه اصلاح شیفت قلب و مدیاستن بود. در بررسی، مایع آسپیره‌شده حاوی ۹۵٪ لنفوسیت بود که نشان‌دهنده شیلوتوراکس بودن مایع است. کاریوتایپ انجام‌شده 46XY و نرمال بود و وجود سندروم ترنر نیز منتفی شد. بعد از ۲ روز سونوگرافی مجدد جنین انجام گرفت که در

صورت فشار بر قلب و عروق می‌تواند منجر به هیدروپیس در جنین شود. موارد هیدروپیس به‌دنبال هیدروتوراکس با ۵۰٪ مورتالیته همراه است. در بیمار مورد نظر ما با توجه به شدیدبودن هیدروتوراکس و کلاپس ریه، تخلیه مایع به‌منظور کاهش فشار بر ریه‌ها، قلب و عروق مدیاستین و در نهایت حفظ جنین اهمیت داشت. در این موارد، ابتدا توراکوستن با کمک سونوگرافی انجام می‌شود^[5] که در بیمار مورد بررسی ما با تخلیه مایع کلاپس برطرف و فشار مایع روی قلب مرتفع شد، ولی بعد از چند روز مجدداً مایع تجمع پیدا کرد و به‌علت فشار روی قلب و عروق مدیاستین، جنین دچار هیدروپیس شد. عود هیدروتوراکس از عوارض شایع توراکوستن است که گذاشتن شنت بین فضای پلور و مایع آمنیوتیک مرحله بعدی درمان است که در این مورد خاص قبل از گذاشتن شنت، مادر دچار دردهای زودرس زایمانی و پارگی کیسه آب شد.

بیشتر مطالعات، انجام توراکوستن را به‌عنوان اقدام اولیه در درمان هیدروتوراکس مطرح می‌کنند و توصیه می‌شود که در صورت عود بیماری، شنت پلوروآمنیوتیک گذاشته شود^[12]. با این وجود موارد درمان هیدروتوراکس با دو نوبت توراکوستن در دوران جنینی نیز گزارش شده است.

نتیجه‌گیری

هیدروتوراکس از بیماری‌های نادر در دوران جنینی است که در صورت عدم درمان به‌موقع می‌تواند منجر به هیدروپیس جنینی یا هیپوپلازی ریه شود و با مورتالیته بالایی بعد از تولد همراه است. در چنین مواردی تخلیه زودهنگام مایع پلور نقش مهمی در درمان بیماری و پیشگیری از عوارض دارد. با توجه به بالای بودن خطر عود هیدروتوراکس، سونوگرافی‌های سریال بعد از انجام توراکوستن توصیه می‌شود. به نظر می‌رسد سن تشخیص هیدروتوراکس و درمان به‌موقع آن نقش مهمی در پیش‌آگهی بیماری داشته باشد.

تشکر و قدردانی: موردی از سوی نویسندگان ذکر نشده است.

تأییدیه اخلاقی: موردی از سوی نویسندگان ذکر نشده است.

تعارض منافع: موردی از سوی نویسندگان ذکر نشده است.

منابع مالی: مرکز تحقیقات باروری و ناباروری صارم منابع مالی این پژوهش را تأمین نموده است.

سهم نویسندگان: ابوطالب صارمی (نویسنده اول)، نگارنده مقاله / پژوهشگر اصلی (۴۰٪)؛ سیدمازیار مرتضوی (نویسنده دوم)، نگارنده مقاله / روش‌شناس / پژوهشگر اصلی / نگارنده بحث (۴۰٪)؛ حسنعلی احمدی (نویسنده سوم)، نگارنده مقاله / پژوهشگر کمکی (۲۰٪)

منابع

- 1- Castagno R, Carreras E, Toran N, Higuera T, Sánchez MA, Cabero L. Fetal Pleural Effusion. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 2007;30(4): 461-2.
- 2- Suárez-Cabezas S, Natera-de Benito D, Pérez-Segura P, Llorente-Otones L, Villar MJA, Rivero-martin MJ. Neonatal Chylothorax and Dysmorphic Phenotype: A Noonan Syndrome?. *J Rare Disord Diagn Therapy.* 2016;2(2)34-6.
- 3- Gathwala G, Singh J, Rattan K, Bhalla K. Nonchylous idiopathic pleural effusion in the newborn. *Indian J Crit Care Med.* 2011;15(1):46-8.
- 4- Longaker MT, Laberge JM, Dansereau J, Langer JC,

آن تجمع مایع در فضای پلور راست همراه با هیدروتوراکس خفیف چپ، ادم ژنرالیزه پوست و هیدروسول دوطرفه دیده شد.



شکل ۲) آسپیراسیون پلورال افیوژن از طریق پوست مادر به‌کمک سونوگرافی، با زدن ریه همزمان با تخلیه مایع

روز بعد مادر به‌علت پارگی کیسه آب و شروع دردهای زودرس زایمانی مراجعه نمود و سزارین صورت گرفت. در بدو تولد، برای نوزاد به‌علت نداشتن تنفس مناسب و ضربان قلب زیر ۶۰، در اتاق عمل لوله تراشه گذاشته شد و یک نوبت آمپول آدرنالین هم دریافت کرد. همزمان مایع داخل فضای توراکس با آنژیوتکت آسپیره و حدود ۱۲۰ سی‌سی مایع از فضای پلور خارج شد. بعد از آن ضربان قلب و تنفس نوزاد بهتر و سپس به بخش NICU منتقل شد.

زمان معاینه سراسر پوست و اسکروتوم ادماتو بود. در NICU با توجه به ادامه دیسترس تنفسی و باقی‌ماندن مایع در فضای پلور، لوله سینه دوطرفه برای وی گذاشته و نوزاد به ونتیلاتور متصل شد. در سونوگرافی شکم هیدرونفروز متوسط دوطرفه داشت و در آزمایشات انجام‌شده شواهدی برای همولیز یا کم‌خونی نداشت. همچنین در اکوکاردیوگرافی ناهنجاری ساختاری یا نقص عملکردی دیده نشد. مادر و نوزاد از نظر ویروس‌های سرخچه، سائتومگالوویروس، HIV، هرپس سیمپلکس و نیز عفونت‌های توکسوپلازما، کلامیدیا و مایکوپلازما بررسی شدند که درگیری دیده نشد.

به‌تدریج در مدت یک هفته ادم برطرف شد و با کمترشدن ترشحات لوله سینه، ابتدا لوله سمت چپ سپس لوله سمت راست خارج و در نهایت نوزاد با حال عمومی خوب مرخص شد.

بحث

شیلتوراکس یا جمع‌شدن مایع لنف در فضای پلور، شایع‌ترین علت بروز پلورال افیوژن در دوران جنینی است^[12]. در بیمار مورد نظر علت‌های دیگر هیدروتوراکس به‌طور کامل بررسی شدند. سرولوژی از نظر عفونت‌های مادرزادی (TROCH) در مادر و نوزاد منفی بود و شواهدی از همولیز در نوزاد وجود نداشت. کاریوتایپ و اکوکاردیوگرافی نرمال بود و با توجه به آنالیز مایع آسپیره‌شده از فضای پلور وجود شیلتوراکس تأیید شد. علت شیلتوراکس غالباً ناهنجاری در مجرای توراسیک است. هیدروتوراکس جنینی به‌ندرت ممکن است خودبه‌خود جذب شود^[12]. در موارد خفیف روش درمانی، تحت نظر گرفتن و سونوگرافی‌های سریال از جنین است، ولی در مواردی که هیدروتوراکس موجب فشار بر ریه و قلب شود احتمال بروز کلاپس ریه و در نهایت هیپوپلازی ریه وجود دارد و در

associated non-immune hydrops after intrauterine thoracentesis. *Ultrasound Obstet Gynecol.* 1995;5(5):346-8.

9- Hidaka N, Chiba Y. Fetal hydrothorax resolving completely after a single thoracentesis: A report of 2 cases. *J Reprod Med.* 2007;52(9):843-8.

10- Nicolaides KH, Azar GB. Thoraco-amniotic shunting. *Fetal Diagn Ther.* 1990;5(3-4):153-64.

11- Shih YT, Su PH, Chen JY, Lee IC, Hu JM, Chang HP. Common etiologies of neonatal pleural effusion. *Pediatr Neonatol.* 2011;52(5):251-5.

12- Hagay Z, Reece EA, Roberts A, Hobbins JC. Isolated fetal pleural effusion: A prenatal management dilemma. *Obstet Gynecol.* 1993;81(1):147-52.

Crombleholme TM, Callen PW, et al. Primary fetal hydrothorax: Natural history and management. *J Pediatr Surg.* 1989;24(6):573-6.

5- Fanaroff AA, Martin RJ. *Neonatal-perinatal medicine: Diseases of the fetus and infant.* Maryland: Mosby; 1987.

6- Taylor PM. *Neonatal-perinatal medicine: Diseases of the fetus and infant.* J Am Med Assoc. 1988;260(17):2580.

7- Singh P, Ahmed F. Congenital pulmonary lymphangiectasis resulting in pleural effusions managed by thoracoamniotic shunting. *J Ped Surg Case Rep.* 2013;1(6):147-51.

8- Aguirre O, Finley B, Ridgway L, Bennett T, Cowles T. Resolution of unilateral fetal hydrothorax with