

گزارش یک مورد سندروم بالانتین همراه با تخدمانهای بزرگ تحریک شده

چکیده

سندروم بالانتین سندرومی است که با هیدروپس شدید جنینی و جفتی و به دنبال آن هیدروپس مادر، خود را نشان می‌دهد. این سندروم علل مختلفی دارد و در واقع می‌توان گفت هر عاملی که هیدروپس فتالیس شدید ایجاد نماید، ممکن است به سندروم بالانتین منجر شود. علائم آن شامل افزایش ناگهانی و سریع وزن و تورم شدید واولیگوری مادر همراه با وجود آلبومین در ادرار و فشار خون پایین‌تر از ۱۴۰ میلیمتر جیوه و رقیق شدن خون می‌باشد. در این مقاله موردی از حاملگی همراه با سندروم بالانتین گزارش می‌شود که بیمار تخدمانهای تحریک شده و پلی‌کیستیک داشت و در نهایت جنین به روش سزارین متولد شد اما چند ساعت بعد از تولد فوت کرد.

دکتر علی امینی I

کلیدواژه‌ها: ۱- سندروم بالانتین ۲- هیدروپس ۳- اولیگوری ۴- تخدمانهای پلی‌کیستیک

مقدمه

میلیمتر جیوه بالاتر نمی‌رود. بعدها موارد دیگری با عنوانهای Mirror Syndrome، سندروم مادری در ارتباط با هیدروپس جنینی (۲و۳)، سندروم مادر وابسته به ایزوایمیونیزاسیون (۴و۵)، ادم تریپل (۶و۷)، سندروم بالانتین (۸)، توکسمی حاملگی (۹و۱۰)، توکسمی کاذب وابسته به ایزوایمیونیزاسیون شدید (۱۱و۱۲) و سندروم هیدروپس مادری (۱۳) گزارش شد.

تا سال ۱۹۷۰ علت این سندروم را ایزوایمیونیزاسیون می‌دانستند اما پس از آن آلفا تالاسمی (۱۴)، تراتوم ساکروکوکسیژیال (۱۵)، آنوریسم ورید گالن، کوریوآنژیوم جفتی، آنومالی اپشتین، هیپوپروفیتئینمی جنین، انواع عفونتهای ویروسی مانند سیتومگالو ویروس نیز به عنوان علل این بیماری مطرح شدند.

این سندروم همراه با حاملگی ۲ قلویی، مولار و در خانمهای حامله مبتلا به دیابت و سفالیس که جفت بزرگی دارند نیز دیده شده است. هرگونه اتیولوژی هیدروپس فتالیس شدید ممکن است منجر به سندروم بالانتین شود،

سندروم بالانتین اولین بار در ارتباط با هیدروپس شدید جنین در RH ایزوایمیونیزاسیون و مدتی بعد در ارتباط با هیدروپس غیر ایمیون توضیح داده شد.

به نظر می‌رسد که هیدروپس شدید جنینی یا جفتی علت ایجاد کننده سندروم بالانتین باشد. تصویر اصلی بیولوژیکی، رقیق شدن خون مادر می‌باشد که آن را از پره‌اکلامپسی افتراق می‌دهد. در سال ۱۸۹۲ John.W. Ballantyn برای اولین بار هیدروپس مادری را در ارتباط با هیدروپس جنینی به صورت منتشر یا محدود توضیح داد.

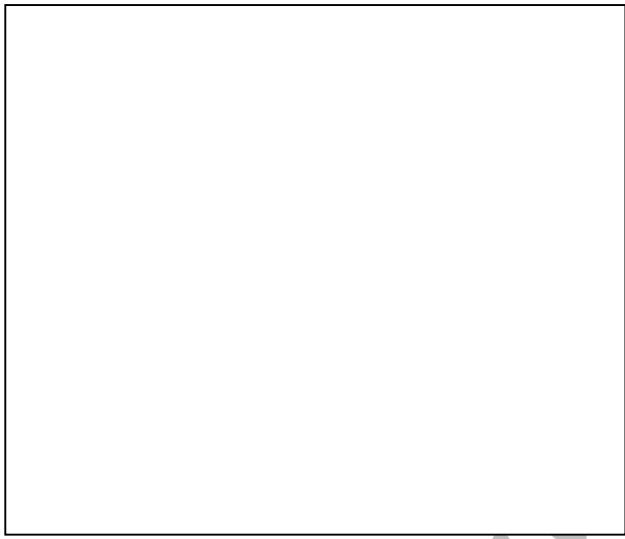
Potter نیز در سال ۱۹۴۷ (۱) علائم اصلی سندروم هیدروپس مادری را توضیح داد. گروه کمی از زنان هستند که نوزادانی با بیماری همولیتیک و علائم توکسیک به دنیا می‌آورند.

در این افراد بارداری تا ماه هفتم و هشتم به شکل طبیعی ادامه می‌یابد اما پس از آن بطور ناگهانی افزایش سریع وزن و ادم شدید ایجاد می‌شود. ترشح متوسط آلبومین در ادرار وجود دارد و فشار خون سیستولیک معمولاً از ۱۴۰

(۱) دانشیار بیماریهای زنان و زایمان، بیمارستان فیروزگر، خیابان به‌آفرین، دانشگاه علوم پزشکی و خدمات بهداشتی - درمانی ایران.

عملیات احیا شروع شد که به دنبال آن تنفس نوزاد برگشت پیدا کرد(تصویر شماره ۱). سپس تزریق یک دوز دیگوکسین و یک نوبت تعویض خون انجام گردید. همچنین ۳۰ میلی لیتر FFP به نوزاد داده شد اما با وجود تلاشهای فراوان ۶ ساعت بعد فوت کرد.

به دنبال خروج جنین، جفت بسیار بزرگ و متورم با وزن ۲ کیلوگرم خارج گردید(تصویر شماره ۲). تخدمانها نیز بسیار متورم و حاوی فولیکولهای متعدد و بزرگ بودند(تصویر شماره ۳).



تصویر شماره ۱- نوزاد هیدروپیک متولد شده به روش سزارین در این تصویر مشاهده می‌شود.



تصویر شماره ۲- تصویر جفت که بسیار بزرگ و متورم می‌باشد.

خصوصیات زمانی که وضعیت جنین بدتر می‌شود این سندروم تنها تظاهر شدت یافتن اختلال جنینی و جفتی است(۷ و ۸ و ۹).

معرفی بیمار

بیمار خانم ۳۳ ساله‌ای بود که با حاملگی چهارم و سن بارداری ۳۱ هفته جهت ختم بارداری به بیمارستان فیروزگر مراجعه کرده بود.

وی در بارداری اول یک نوزاد ترم و سالم به دنیا آورده بود، بارداری دوم (۶ سال قبل) منجر به سقط شده و در بارداری سوم (۲ سال قبل) جنین در سن ۸ ماهگی دچار مرگ داخل رحمی (IUFD) شده بود و با نمای هیدروپیک به روش سزارین به دنیا آمده بود. به علت منفی بودن گروه خون مادر به دنبال هر ۳ حاملگی آمپول روگام تزریق گردیده بود.

در هنگام مراجعه، بیمار از کاهش حرکت جنین از روز قبل و تورم شدید شکم و اندام تحتانی شکایت داشت. علائم حیاتی بیمار طبیعی بود. در معاینه فیزیکی، شکم به شدت متورم و ارتفاع رحم در حد ترم به نظر می‌رسید. اندام تحتانی تا حد رانها تورم ۲+ داشت.

سمع قلب و ریه مادر طبیعی و ضربان قلب جنین منظم و حدود ۱۲۳ ضربان در دقیقه بود. آزمایش‌های بیمار طبیعی و شامل $BUN=۱۳$, $WBC=۱۰.۰۰$, $Hb=۱۱/۴$, $Cl=۰/۷$ بود. تست کومبیس غیرمستقیم مادر ۱۰ روز قبل از مراجعه $\frac{1}{۳۲}$ بود که بر اساس آن آمنیوسنتز صورت گرفت و $OD=۰/۳۳$ گزارش گردید.

سونوگرافی در ۲ نوبت انجام شد که جنین پسر هیدروپیک و جفت بزرگ و آسیت جنین و پلی هیدروآمینوس را نشان داد.

بیمار در سن حاملگی ۳۲ هفته به علت عدم امکانات لازم و اتساع بیش از حد رحم، خوب نبودن وضع عمومی و دیر مراجعه کردن سزارین شد و یک نوزاد پسر هیدروپیک با آپکار ۲ در دقیقه اول و ۳ در دقیقه پنجم به دنیا آمد. با توجه به عدم تنفس نوزاد و وجود برادری کاردی و سیانوز،



تصویر شماره ۳- تخدانهای بزرگ حاوی فولیکولهای متعدد در ۲ طرف رحم دیده می‌شود.

در یک تحقیق از ۱۱ مورد پرهاکلامپسی شدید با شروع زورس، در ۸ مورد پاتولوژی جنینی و جفتی وجود داشت که مول ناکامل یا هیدروپس جنینی و جفتی بود(۱۳و۱۸). در سال ۱۹۵۸(۷) ثابت شد که این سندروم توکسیک در مواردی مانند هیدروپس فتالیس شدید و مول رخ می‌دهد. براساس یک تحقیق(۱۲و۱) مواردی به عنوان نشانه تغییرات هیدروپیک جفتی تعیین و مشخص گردید که عبارتند از: ۱- توده جفتی بزرگ که با افزایش نسبت وزن جفت نسبت به جنین مشخص می‌شود. ۲- پرزهای جفتی هیدروپیک. ۳- افزایش فعالیت و عدم بلوغ تروفوبلاست و باقی ماندن لایه لانگ هانس.

ناهنجاریهای جفتی معمولاً با سطح بالای HCG همراه هستند اما ممکن است به افزایش فعالیت سن سیشیوتروفوبلاست نیز مربوط باشد(۱۸و۱۲).

بسیاری از موارد سندروم بالانتین با کم خونی همراه بوده و ترانسفوزیون ارزش کم و موقتی در بالا بردن هماتوکریت دارد(۱۹). بطورکلی هماتوکریت پایین که نتیجه رقیق شدن خون است در تشخیص این بیماری بسیار کمک کننده می‌باشد.

بنابراین تزریق خون و گشادکننده‌های عروقی و افزایش حجم پلاسمای بدون مانیتورینگ عملکرد قلبی - عروقی بسیار خطرناک می‌باشد. در این بیماران با وجود کاهش پروتئین پلاسمای، گاهی آلبومین اوری وجود دارد.

بعد از عمل، علائم حیاتی مادر ثابت بود و هموگلوبین بعد از عمل ۱۲/۸ و $BHCG = ۵۷۰۰۰$ گزارش گردید. وی ۳ روز بعد با حال عمومی خوب مرخص شد. بیمار معرفی شده در این حاملگی آمپول روگام دریافت نکرده بود، سابقه‌ای از بیماری یا جراحی را نکر نمی‌کرد و قبل از عمل ۴ دوز دگزامتازان جهت بلوغ ریه جنین دریافت کرده بود.

بحث

علائم بالینی سندروم بالانتین به شکلهای مختلفی ظاهر می‌کند. تورم یک علامت کلیدی بوده(۱۵و۱۲و۹و۱۳) و آلبومین اوری خفیف، افزایش خفیف فشار خون نیز ممکن است وجود داشته باشد که این افزایش اغلب در زمان زایمان دیده می‌شود(۱۶).

اکلامپسی نادر بوده و اولیگوری این بیماران به داروهای دیورتیک پاسخ می‌دهد(۱۷و۵). در موارد کشنده بیمار بدحال بوده، تورم در سرتاسر بدن (آنازارکا) وجود دارد و جنین می‌میرد(۳و۶و۹و۷).

در این سندروم معمولاً تجمع مایعات علت زمینه‌ای بوده یا حداقل در طی دوره بیماری ایجاد می‌شود. هرگونه اتیولوژی هیدروپس فتالیس شدید می‌تواند به سندروم بالانتین منجر گردد.

نمی‌گردد. هیدروپس جفتی مشکل شایعی است که احتمال دارد نقش کلیدی در شروع سندروم بالانتین داشته باشد.

شروع تورم و افت هماتوکریت همراه با هیدروپس جنین باید پژوهش را در مورد بدتر شدن وضعیت جنین آغاز سازد.

مراقبتها دقيق در درمان اين بيماران ضروري بوده و در اين بيماران با وجود کاهش هماتوکریت نباید تزریق خون صورت گيرد.

لازم به ذكر است که تورم مادر، جفت و جنین (ادم تریپل) برای تشخیص سندروم بالانتین کافی می‌باشد.

این مورد گزارش جالبی از همراهی سندروم بالانتین با تخدمانهای تحريك شده و پلی‌کیستیک بوده است.

منابع

- Potter EL.Rh,Hs Relation to Congenital Hemolytic Disease & to Intragroup Transfusion Reaction, Theyear book publisher, 1947: 146-147.
- Cohen A. Maternal syndrome in Rh isoimmunization: Report of a case, J Obstet gynecol Br Emp, 1960; 67: 325-327.
- John AH, Duncan AS. The maternal hydrops syndrome associated with hydrops fetalis, J Obstet Gynecol Br Commonw , 1964; 71: 61-65.
- O'Driscoll DT.A fluid retention syndrome associated with severe isoimmunization to the Rhesus Factor, J Obstet Gynecol Br Emp, 1956; 63: 372-374.
- Kaiser JH. Ballantyne and triple edema, Am J Obstet Gynecol, 1971; 110: 115-120.
- Quagliarello JR, Passalaqua AM, Alba greco M, Harry M, Pursley MD, Albert Huch MD, et al. Prenatal diagnosis with ultrasound and maternal biopsy findings, AM J Obstet Gynecol, 1978; 132: 580-581.
- Jeffcoate TNA, Acott JS. Some observations on the placental factor in pregnancy toxemia, AM J Obstet Gynecol, 1959; 77: 475-489.

در اين سندروم اوليگوری نيز مشاهده می‌شود که اين يافته‌ها تا ۱۲ روز پس از زايمان خودبخود از بين می‌روند.(۲۰).

تورم شديد، اوليگوری و رقيق شدن خون يك ترياد تشخيصي برای هیدروپس جنینی است. در حاملگی طبيعی گشاد شدن شريانهای محيطی بخصوص شريان کليوي(۲۱)، تحريك سیستم رنین - آذثیوتانسین، آلدوسترون و سیستم عصبی سمباتیک و رهایی وازوپرسین وجود دارد که تمام این موارد مسئول افزایش حجم خون در حدود ۳۰-۵۰٪ و تجمع آب و سدیم هستند(۲۱).

پره‌اکلامپسی و اکلامپسی ممکن است بطور ثانويه و به علت اختلال در وضعیت گشادشدن عروق در اثر تحریب آندوتیال بخصوص در کاپیلهای گلومرولی ایجادشود که در نتیجه آن پروتئین اوری رخ می‌دهد(۲۱).

قابل توجه است که پره‌اکلامپسی در اين سندروم دیده نمي‌شود و علت اصلی، اختلال در مکانیسم جبرانی می‌باشد بطوری‌که وازوپرسین پلاسمای باوجود حجم بالای خون کاهش نيافته و ANP(Atrial Natriuretic Peptid) بالا می‌رود(۲۲).

بيمار معرفی شده در اين مقاله نيز دارای معیارهای سندروم بالانتین بود که بعد از سزارین افزایش هماتوکریت و بهبود علائم بيماري مشاهده شد.

يافته جالب در اين بيمار تخدمانهای بسيار بزرگ و حجمی بود که تعداد زيادي فوليکول تحريك شده در آنها مشاهده می‌شد.

شاید اين بيمار اولين مورد سندروم بالانتين با تخدمانهای پلی‌کیستیک باشد که تاکنون در مقالات گزارش نشده است. ۴ روز بعد از زايمان برای بيمار سونوگرافی انجام شد

که تخدمانها به حد طبيعی برگشته بودند. آيا اين تخدمانها در ارتباط با تحريك مستمر و بالاي B-HCG اين چنین شده بودند یا نه؟ هنوز معلوم نیست. در پايان می‌توان چنین گفت که سندروم بالانتین تنها توسيط يك اتيولوژي خاص مانند هيدروپس فتاليس ايجاد

- 20- Abraham WT, Schrier RW. Body fluid volume regulation in health and disease, *Adv intern Med*, 1994; 39: 23-47.
- 21- Schrier RW, Briner VA. Peripheral arterial vasodilation hypothesis of sodium and water retention in pregnancy: Implications for pathogenesis of preeclampsia-eclampsia, *Obstet Gynecol*, 1990; 77: 632-639.
- 22- Manoogian C, Pandian M, Ehrlich fisher D, Horton R, Andrews WW, Paula J, et al. Plasma atrial natriuretic hormone levels in patients with the syndrome of inappropriate antidiuretic hormone secretion, *J Clin Endocrinol Metab*, 1988; 67: 571-575.
- 8- Scott JS. Pregnancy toxemia associated with hydrops fetalis, hydatidiform mole, and hydramnios, *J Obstet Gynecol Br Emmp*, 1958; 65: 689-701.
- 9- Hirsch MR, Mark MS. Pseudotoxemia and erythroblastosis. Report of a case, *Obstet Gynecol*, 1964; 24: 47-48.
- 10- Nicolay KS, Gainey HL. Pseudotoxemic state associated with severe Rh isoimmunization, *AM J Obstet Gynecol*, 1964; 89: 41-43.
- 11- Van selm M, Kanhai HH, Bennebroek Gravenhorst J. Maternal hydrops syndrome: A review, *Obstet Gynecol Surv*, 1991; 46: 785-788.
- 12- Kloosterman MD, Bennebroek J, Langezaal CFM, Eva Visca MD, Renate Huch MD, Peter Wein MB, et al. A case of Barth's hydrops, *Eur J Obstet Gynecol*, 1977; 7: 25-27.
- 13- Colwill JR, Machin GA, popkin JS, Julie Gosselin PhD, Amanda Sholl MD, wadhwa MD, et al. Acute second trimester EPH gestosis as an indicator of fetal anomaly, *Genetic Aspects of Developmental Pathology*, 1987; 23: 179-190.
- 14- Goodin R. Impending fetal death in utero due to isoimmunization. The maternal syndrome: Report of three cases, *Obstet Gynecol*, 1957; 10: 299-302.
- 15- Beischer NA, Fortune DW, Macafee J. Nonimmunologic hydrops fetalis and congenital abnormalities, *Obstet Gynecol*, 1971; 38: 86-95.
- 16- Brockuizen F, Elejalde R, Hamilton PR. Early-onset preeclampsia, triploidy, and fetal hydrops, *J Report Med*, 1983; 28: 223-226.
- 17- Chaoui R, Bollman R, Hoffmann H, Zienert A, Barthos, Vanmeir C, et al. Eine Ebsteinanomalie als seltene ursache eines nicht immunologischen hydrops fetalis (NIHF); Prenatal diagnose mittels doppler echocardiography. 1990; 202: 173-175.
- 18- Hornberger LK, Sahn DJ, Kleinman CS JD, Iams MD,B.M.Mercer MD, P.J.Meis MD, et al. Tricuspid valve disease with significant tricuspid insufficiency in the fetus, *J Am coll cardiol*, 1991; 17: 167-173.
- 19- Redman CW. Hypertension in pregnancy. In: Chamberlain G, ed. *Turnbull's obstetrics*, 2nd Ed., Edinburgh; Churchill Livingstone, 1995; 441-470.

**BALLANTYNE SYNDROME WITH LARGE HYPERSTIMULATED OVARIES:
A CASE REPORT**

^I
A. Amini, MD

ABSTRACT

Ballantyne syndrome is a syndrome with severe hydropic placenta and fetus followed by maternal hydrops. Several different causes may lead to this syndrome. In fact, Ballantyne syndrome may result from any factor causing severe hydrops fetalis. The diagnosis can be supported by sudden and rapid weight gain, severe edema, oliguria with albuminuria, blood pressure less than 140 mmHg and hemodilution. In this study, a case with Ballantyne syndrome and hyperstimulated ovaries is reported on which cesarian section was performed but the newborn infant died after some hours.

Key Words: 1) Ballantyne Syndrome 2) Hydrops 3) Oliguria 4) Polycystic ovaries

I) Associate professor of Gynecology. Firoozgar Hospital, Behesht Ave, Iran University of Medical Sciences and Health Services, Tehran, Iran.