

İntrauterin testis torsiyonu: Bir vaka takdimi

Esra Serdaroğlu¹, Şahin Takcı², Rana User³, Şafak Güçer⁴, Şule Yiğit⁴,
Murat Yurdakök⁴

Hacettepe Üniversitesi Tıp Fakültesi ¹Pediyatri Araştırma Görevlisi, ²Pediyatri Uzmanı, ³Pediyatrik Cerrahi Araştırma Görevlisi, ⁴Pediyatri Profesörü

SUMMARY: Serdaroğlu E, Takcı Ş, User R, Güçer Ş, Yiğit Ş, Yurdakök M. (Department of Pediatrics, Hacettepe University Faculty of Medicine, Ankara, Turkey). Intrauterine torsion of testis: a case report. Çocuk Sağlığı ve Hastalıkları Dergisi 2011; 54: 223-226.

Intrauterine torsion of testes (IUTT) is a very rare condition. It can cause anorchia in bilateral cases. IUTT is almost exclusively extravaginal. It may result from the interplay between a hyperactive cremaster reflex and the failure of adequate in-utero fixation of the tunica vaginalis to the scrotal wall. Controversy in treatment continues regarding the urgency for surgical exploration as well as the need for contralateral testis fixation. Here, we present a two-day-old infant who was admitted to the neonatology department with a solid, firm and immobile mass in the right scrotum. The infant was diagnosed as IUTT after surgery. The necessity of contralateral testis fixation was discussed and performed after one month of follow-up.

Key words: intrauterine torsion of testes, testes fixation, newborn infant.

ÖZET: İntrauterin testis torsiyonu (İUTT) seyrek görülen, bilateral olması halinde anorşiyeye neden olabilen bir durumdur. İUTT vakalarının neredeyse tamamı ekstravajinaldir. Hiperaktif kremaster refleksi ve skrotal duvara tunika vajinalisin yetersiz fiksasyonu sonucu gelişir. İUTT tedavisinde acil cerrahi girişim, karşı taraf skrotumun eksplorasyonu ve fiksasyonu tartışmalı konulardır. Bu yazıda sağ skrotumunda sert, redükte edilemeyen kitle nedeniyle getirilen iki günlük bir yenidoğan sunulmuştur. Hastaya orşiektomi yapılmış ve sonucunda İUTT tanısı konulmuştur. Karşı taraf testis fiksasyon gerekliliği açısından tartışılmış, bir aylık izlem sonunda sağlıklı testise fiksasyon uygulanmıştır.

Anahtar kelimeler: intrauterin testis torsiyonu, testis fiksasyonu, yenidoğan.

Neonatal dönemde görülen testis torsiyonlarının %72'si intrauterin dönemde ortaya çıkar.¹ İlk defa 1897 yılında tanınlanan intrauterin testis torsiyonu (İUTT) seyrek görülen bir durumdur ve kesin nedeni bilinmemektedir. Erişkinlerde görülen intravajinal torsiyonların aksine genellikle ekstravajinal karakterdedir. Hiperaktif kremaster refleksi ve skrotal duvara tunika vajinalisin yeterli in-utero fiksasyonunun sağlanamamasının torsiyona neden olduğu düşünülmektedir.² Cerrahi sırasında spermatik kordların sıklıkla spiral konfigürasyonda bulunması bu görüşü desteklemektedir. İntravajinal torsiyon ise epididim ve testisin tunika vajinalis içinde anormal fiksasyonu (bell clapper deformitesi) nedeniyle olmaktadır ve %5-30 karşı tarafta testis torsiyonu görülmektedir.²

Bu yazıda intrauterin testis torsiyonu tanısı alan bir yenidoğanın tedavisinde acil cerrahi girişim ve karşı taraf testis fiksasyonu tartışılmıştır.

Vaka Takdimi

Yirmi beş yaşındaki annenin ikinci gebeliğinden 38 haftalıkken sezaryenle 3200 gr ağırlığında doğan iki günlük bebek beslenme güçlüğü nedeniyle getirildi. Anne baba arasında akrabalık olmadığı ve üç yaşında sağlıklı bir kardeşi olduğu öğrenildi. Fizik muayenesinde bilateral skrotumları büyüktü (Şekil 1). Sağ skrotumda 2 cm çapında ekimotik görünüm vardı ve 2 cm büyüklüğünde solid, sert, redükte edilemeyen kitle palpe ediliyordu. Soldaki şişlik hidrosel olarak değerlendirildi. Skrotal ultrasonografide solda hidrosel, sağda 2x2x2 cm boyutlarında heterojen yapıda milimetrik



Şekil 1. Bilateral skrotal şişlik, sağ skrotum ekimotik görünümündedir.

kalsifikasyon odakları ve kistik alanlar içeren kitle izlendi ve sağ testis görüntülenemedi. Serum AFP (alfa fetoprotein), beta hCG (insan koryonik gonadotropin) ve LDH değerleri sırasıyla 73857 IU/ml, 22.42 mIU/ml ve 823 U/l saptandı; yenidoğan dönemi için normal olarak değerlendirildi. Abdominal ultrasonografide sol böbrek toplayıcı sistemde minimal dilatasyon görüldü. Operasyonda ekstravajinal testis torsiyonu saptandı. Sağ testis koyu kahverengi,



Şekil 2. Testisin gros görünümü. Dış yüzün hemorajik ve ödemli görünümü dikkati çekmektedir.

nekrotik ve ödemli görünümdeydi (Şekil 2). İnternal ring düzeyinde yüksek ligasyon yapılarak sağ orşiektomi gerçekleştirildi. Lezyonun patolojik incelemesinde testis dokusunun büyük bölümünün hemorajik nekroza uğradığı görüldü. Kesitlerde testis dokusu ve geniş alanlar halinde tunika vajinalisin hemen altında başlayan kanama ve fibrin birikimi izlendi. Seminifer tübüllerin çoğunda ve interstisyel dokuda kanama, nekroz ve karyoreksis mevcuttu. Malignite bulgusu yoktu. Yaygın hemorajik nekroz gösteren testis dokusu intrauterin torsiyon ile uyumluydu (Şekil 3). Hasta izleme alındı ve bir aylıkken karşı taraf sağlıklı testise fiksasyon yapıldı.

Tartışma

Ergen ve erişkin erkeklerde görülen intravajinal torsiyonların aksine yenidoğanlarda torsiyon genellikle ekstravajinal tiptedir. İntravajinal torsiyonda testis tunika vajinalisin içinde dönmüştür (bell clapper deformitesi). Ekstravajinal torsiyonda ise spermatik kordun aksı etrafında testis ve tunika yapıları beraber döner. Ekstravajinal torsiyona hiperaktif kremaster refleksinin, tunika vajinalisin skrotuma yeterince yapışmamasının ve doğum travmasının neden olduğu düşünülmektedir. Cerrahi sırasında spermatik kordun spiral yapmış şekilde bulunması bu görüşü destekler.² Spiral döngüler genellikle iki turdur ve dört tam döngüye kadar çıkabilir.² Bu açıdan bakıldığında teorik olarak iki testis de risk altındadır.¹

İntrauterin testis torsiyonu olgularında sıklıkla karşı tarafta hidrosel saptanmaktadır. Bu rastlantısal bir fenomen olabileceği gibi hafif tekrarlayan torsiyonların neden olduğu iskemik ataklara bağlı reaksiyonel bir hidrosel de olabilir. Al-Salem'in³ 11 vakalık serisinde altı vakada (%60) saptanan karşı tarafta hidrosel bizim hastamızda da vardı.

Ekstravajinal tipte olan torsiyonlarda kesin olarak gösterilmiş bir tetikleyici faktör yoktur.³ İnterauterin stres ve travmatik doğumun tetikleyici olduğu düşünülmektedir.^{2,8,9} Torsiyon vakalarının çoğu zamanında doğmuş bebeklerde görülmektedir.⁹ Zayıfça yapışmış tunika vajinalis varlığında intrauterin basınç ve stresle kremaster refleksinin artması torsiyona yol açabilir. Kaye ve arkadaşlarının² yaptığı çalışmada vajinal doğum da bir risk faktörü olarak gösterilmiş ve vakalarının %90'ının vajinal yolla doğduğu belirtilmiştir.

İntrauterin testis torsiyonunun bilateral olması durumunda anorşi gelişebileceğinden çeşitli çalışmalarda bu risk saptanmaya çalışılmıştır. Bilateral torsiyon iki testiste aynı anda bulgu vererek senkron olabileceği gibi, farklı zamanlarda bulgu vererek veya testisler incelendiğinde atrofi derecelerinin farklı olmasına dayanılarak asenkron torsiyon olarak da tanımlanabilir.

Al-Salem'in³ 11 vakalık serisinde bir vakada bilateral torsiyon görülmüştür ve sağ testiste iskemik bulgular varken sol testisin tamamen nekrotik olması ile asenkron kabul edilmiştir. Djahangirian ve arkadaşlarının¹ yayınladıkları 44 vakalık seride iki bilateral torsiyone vaka (risk %5) bulunmuştur. Vakaların birinde tek tarafın atrofik olması nedeniyle torsiyon asenkron olarak tanımlanmıştır. Genel olarak kabul edilen bilateral torsiyonların sıklıkla senkron olduğudur. Bağlaj ve arkadaşları⁹ tarafından yapılan çalışmada 20 yıllık sürede izlenen 48 bilateral torsiyon vakasının 32'sinde (%67) torsiyon eş zamanlı görülmüştür.

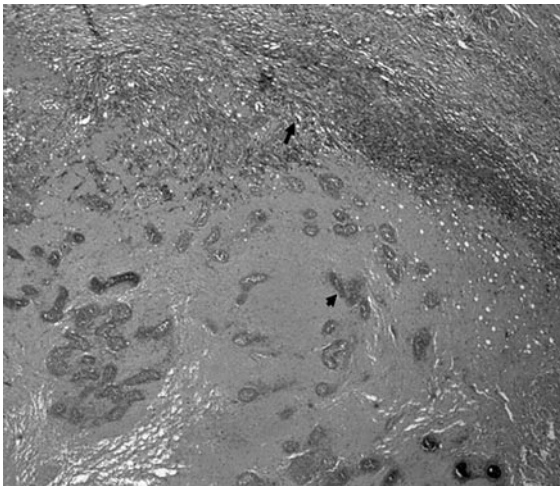
Postnatal dönemde görülen testis torsiyonları, testisin kurtarılabilmesi nedeniyle cerrahi acil olarak kabul edilir. Bilateral testis torsiyonları intrauterin dönemde oluşmuş olsa da, anorşiye neden olabileceğinden acilen opere edilmelidir. Yenidoğan döneminde tek taraflı torsiyonlarda acil cerrahi yeğlense de tartışmalıdır. Anesteziye bağlı genel riskler olabilirse de torsiyon vakalarının çoğunlukla

sağlıklı, term ve normal ağırlıkta bebekler olması riski azaltmaktadır. Erken cerrahi eksplorasyon tanının netleştirilmesini, diğer nadir nedenlerin (iyi ve kötü huylu tümörler, hematosel) dışlanmasını sağlar.³

İntrauterin testis torsiyonu doğuma yakın dönemde ve doğum sırasında olabilir. Bu nedenle testis dokusu intrauterin torsiyone olsa bile kurtarılabilir. Al-Salem³ 11 hastalık serisinde üç torsiyone testisin acil cerrahi girişim ile korunduğunu bildirmiştir. Olguner ve arkadaşları⁴ postnatal 28. saatte sağ skrotal şişlikle başvuran ve teknesyum 99m perteknetat sintigrafisiyle bilateral hipoperfüzyon saptadıkları hastalarında acil cerrahi uygulamış nekrotik olmayan sol testisi detorsiyone ederek kurtardıklarını bildirmişlerdir.

Torsiyone testisin kurtarılma ihtimali ameliyat sırasında öngörülebilir. Bu amaçla Arda ve Özyaylalı⁶ tarafından etkilenmiş testisin tunika vajinalisine cerrahi sırasında insizyon açılması ve 10 dakikaya kadar arteriyel kanamanın izlenmesi esasına dayanan bir test geliştirilmiştir. Torsiyon kanamanın başlama zamanına göre derecelendirilmiş, hastalar kanama hemen başlarsa grade 1; on dakika içerisinde başlarsa grade 2; on dakika içinde kanama olmazsa grade 3 olarak kategorize edilmiştir. Ondokuz hasta üzerinde yaptıkları çalışmada grade 1 ve 2 olan hastalara orşiopeksi, grade 3 hastalarda orşiektomi uygulanmıştır. Test sonucunda %100 duyarlılık, %78 özgüllük bildirilmiştir. Bu nedenle operasyon sonrası orşiopeksi hastalarının izlemi gerekmektedir.

Bristol'de çocuk cerrahları arasında yapılan bir ankette ekstravajinal torsiyon sonrası karşı taraf sağlıklı testise fiksasyon uygulaması konusunda ortak bir görüş olmadığı görülmüştür⁷. Harper ve arkadaşları⁸ Fransa'da 28 çocuk cerrahisi ünitesinin yaklaşımlarını inceledikleri çalışmalarında 16 üniteye ekstravajinal torsiyon sonrası karşı tarafa testis fiksasyonu uygulandığını saptamışlardır. Karşı tarafa girişim yapılmaması, geciktirilmiş orşiopeksi uygulanması veya acil şartlarda orşiopeksi yapılması genel strateji olarak izlenebilecek üç yoldur¹⁰. Bu stratejilerin her biri için destekleyici bilgiler bulunabilir. Asemptomatik torsiyonların hasara yol açıp tedavi gerektireceği gösterilmediğinden yenidoğanın dikkatli izlemiyle karşı taraf testis takip edilebilir. Torsiyone tarafa acil eksplorasyon uygulanması



Şekil 3. Testiste yaygın kanama, seminifer tübüllerin büyük kısmında nekroz (küçük ok), distrofik kalsifikasyon ve çevrede fibroblastik reaksiyon (büyük ok) izlenmektedir. (HEx100).

esnasında karşı tarafa orşiopeksi yapılabilir veya orşiopeksi hastanın daha iyi olduğu bir döneme ertelenebilir. Pediatrik ürologlar arasında yapılan bir ankette %10'luk bir grubun acil müdahalede bulunduğu, %33'lük bir grubun yalnızca gözlem önerdiği ve %57'lik çoğunluğun geciktirilmiş eksplorasyonu tercih ettiği görülmüştür.¹¹ Anesteziye bağlı riskin bebek bir aylık olduktan sonra azalmaya başlaması nedeniyle Kaye ve arkadaşları² orşiopeksinin bu dönemde yapılmasını önermektedir.

Tunika vajinalisin skrotuma yeterince yapışmamasının ekstravajinal torsiyona yol açtığı düşünüldüğünde bu yapışmanın tam sağlanacağı ilk 1-2 aylık dönem torsiyon açısından risklidir.^{1,11} Bilateral torsiyon nadirdir, fakat son yıllarda artan vaka bildirimleri ile tetikleyici faktörler üzerinde durulmaya başlanmıştır. Bu nedenle bilateral testis kaybının önlenmesi için sağlıklı tarafa fiksasyon uygulaması yaygındır.^{2,3} Hastamız orşiektomi sonrası izleme alınmış ve bir aylıkken karşı tarafa orşiopeksi uygulanmıştır.

KAYNAKLAR

1. Djahangirian O, Ouimet A, Saint-Vil D. Timing and surgical management of neonatal testicular torsions. J Pediatr Surg 2010; 45: 1012-1015.
2. Kaye JD, Levitt SB, Friedman SC, et al. Neonatal torsion: a 14-year experience and proposed algorithm for management. J Urol 2008; 179: 2377-2383.
3. Al-Salem AH. Intrauterine testicular torsion: a surgical emergency. J Pediatr Surg 2007; 42: 1887-1891.
4. Olguner M, Akgur FM, Aktug T, et al. Bilateral asynchronous perinatal testicular torsion: a case report. J Pediatr Surg 2000; 35: 1348-1349.
5. Stone TK, Kass EJ, Cacciarelli AA, et al. Management of suspected antenatal torsion: What is the best strategy? J Urol 1995; 153: 782-784.
6. Arda IS, Ozyaylali I. Testicular tissue bleeding as an indicator of gonadal salvageability in testicular torsion surgery. Br J Urol 2001; 87: 89-92.
7. Mishriki SF, Winkle DC, Frank JD. Fixation of a single testis: always, sometimes or never. Br J Urol 1992; 69: 311-313.
8. Harper L, Gatibelza ME, Michel JL, et al. The return of the solitary testis. J Pediatr Urol 2011; 7: 534-537.
9. Baglaj M, Carachi R. Neonatal bilateral testicular torsion: a plea for emergency exploration. J Urol 2007; 177: 2296-2299.
10. Roth CC, Mingin GC, Ortenberg J. Salvage of bilateral asynchronous perinatal testicular torsion. J Urol 2011; 185: 2464-2468.
11. Guerra LA, Wiesenthal J, Pike J, et al. Management of neonatal testicular torsion: which way to turn? Can Urol Assoc J 2008; 2: 376-379.