

Konjenital pubik sinüs: Dorsal üretral duplikasyon'un bir çeşidi - olgu sunumu

Congenital pubic sinus: A variant of dorsal urethral duplication

İbrahim UYGUN¹, Salim İdris KELEŞOĞLU², Burak İŞLER³, Nurullah DOĞAN⁴,
Figen ARSLAN⁵

Kütahya Evliya Çelebi Devlet Hastanesi, Çocuk Cerrahisi Kliniği¹, Genel Cerrahi Kliniği²,
Üroloji Kliniği³, Radyoloji Kliniği⁴, Patoloji Kliniği⁵, KÜTAHYA

ÖZET

Konjenital prepubik sinüs üriner sistemin nadir bir anomalisidir. Literatürde 1987'de bildirildiğinden beri 44 olgu bildirilmiştir. Burada nadir anomalili biri kız, biri erkek 2 olgu hakkında ki klinik tecrübemizi sunmak istedik.

Anahtar kelimeler: Prepubik sinüs, pubik sinüs, üretral duplikasyon

ABSTRACT

Congenital prepubic sinus is a rare anomaly of the urinary tract. There have been 44 cases in the literature since the first report in 1987. Here we present our clinical experience two cases (1 male, 1 female) with this anomaly.

Key words: Prepubic sinus, pubic sinus, urethral duplication

GİRİŞ

Konjenital prepubik sinüs üriner sistemin nadir bir anomalisidir. Genellikle pubis önünde küçük bir açıklığı olan ve kör sonlanan sinüs şeklinde görülür. Tanımlandırılmasında prepubik sinüs, subpubik fistül, prepubik dermoid sinüs, suprapubik dermoid sinüs, penopubik sinüs, suprapubik urakhal sinüs gibi çeşitli isimler kullanılan bu lezyonun embriyolojik orjini hala tartışmalıdır (1-5). Bu nadir anomalinin görüldüğü, takip ve tedavisinin yapıldığı 2 olgudaki klinik tecrübemizi sunmak istedik.

Literatürde, ilk olarak Campbell ve ark. tarafından 1987'de bildirildiğinden beri, 44 olgu bildirilmiştir (1-15).

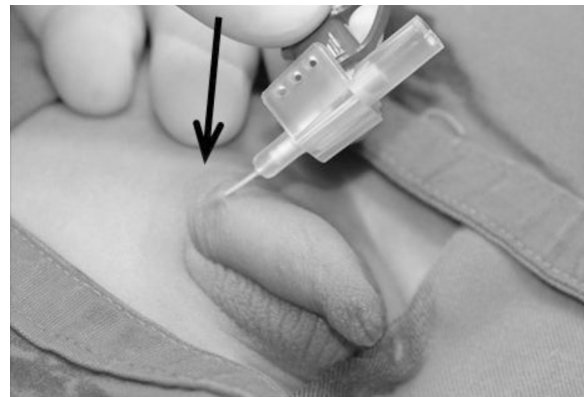
Yazışma adresi:

Uzm. Dr. İbrahim UYGUN, Kütahya Evliya Çelebi Devlet Hastanesi, Çocuk Cerrahisi Kliniği, Kütahya
Tel: (0274) 231 66 60 / (0505) 413 09 44
Email: ibuygun@ttmail.com

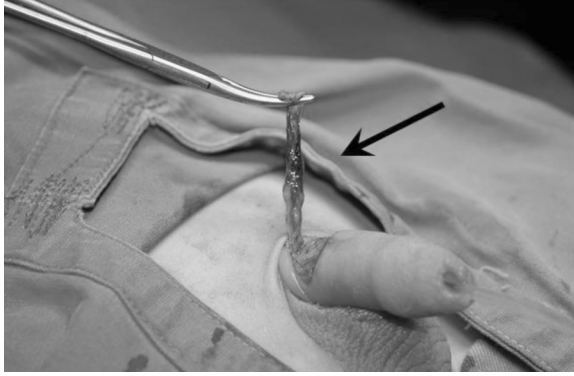
Geliş tarihi / Date of receipt: 15 Aralık 2008 / December 15, 2008
Kabul tarihi / Date of acceptance: 26 Aralık 2008 / December 26, 2008

OLGU 1

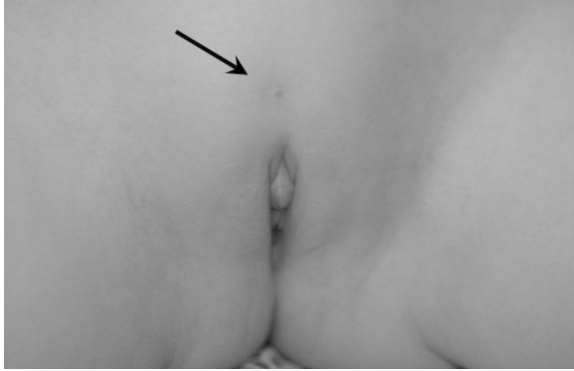
2,5 yaşında erkek çocuğu; ilk kez, 6 aylık iken ailesi tarafından farkedilen ve 1 yıldır ara ara tekrarlayan pürülan akıntıya sebep olan dorsal midpenil lezyon nedeni ile başvurdu (Resim 1). Diğer klinik ve laboratuvar bulguları normaldi. Dorsal midpenil fistül 24G İV kanül ile kateterize edilerek çekilen anteroposterior ve lateral fistülografi-



Resim 1: Olgu 1'in kateterize edilmiş dorsal midpenil sinüs girişi (ok ile işaretli) görülmektedir.



Resim 2: Erkek olgunun pubik sinüsü (ok ile işaretli) içerisine doldurulan metilen mavisi yardımı ile kolayca eksize edilmiştir.

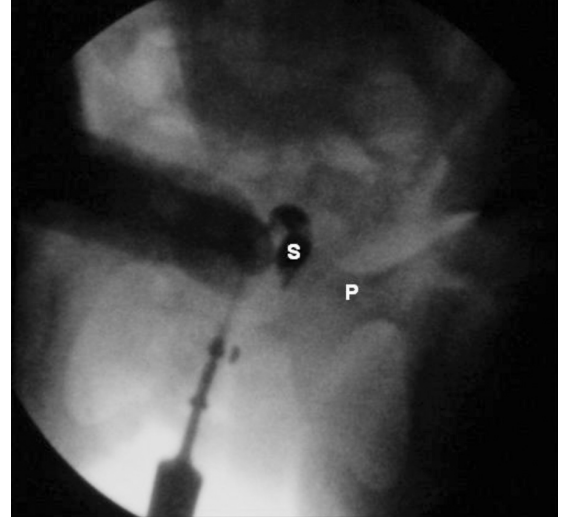


Resim 3: Kız olguda konjenital pubik sinüs ağzı (ok ile işaretli) görülüyor

sinde mesane boynuna kadar uzanarak kör sonlanan 5 cm uzunluğunda sinüs görüldü. İşeme sistoüretrografisi ve üriner ultrasonografisi normal idi. Olgunun cerrahi eksplorasyonu yapıldı ve simfizis pubisin ön duvarında fibröz bir band şeklinde sonlanan 50 mm uzunluğunda sinüs traktı tamamen eksize edildi (Resim 2). Postoperatif 4. saatte sorunsuz taburcu edilen hastanın 3 yıllık takibinde sorunu olmadı. Eksize edilen cerrahi spesmenin patolojik değerlendirmesinde gözlemlenen sinüs traktı çok katlı yassı epitel ile döşeli idi.

OLGU 2

3 yaşında kız çocuğu; Hastanın doğumunda pubik kemik üzerinde orta hatta fark edilen ancak o zaman araştırılmayan lezyondan son bir aydır gözlenen ve pürülan akıntıya sebep olan



Resim 4: Kız olgunun fistülografisinde kör sonlanan geniş pubis kemiği (P) önündeki sinüs (S) görülüyor.



Resim 5: Kız olgunun geniş pubik sinüsü (S) metilen mavisi ile şişirilerek kolayca eksize edilmiştir.

lezyon nedeni ile başvurdu (Resim 3). Bunun dışında başka bir semptom ve bulgusu yoktu. Klinik ve laboratuvar bulguları normaldi. Anteroposterior ve lateral fistülografisinde mesane boynuna kadar uzanarak kör sonlanan 45 mm uzunluğunda sinüs görüldü (Resim 4). İşeme sistoüretrografisi ve üriner ultrasonografisinde başka patoloji saptanmadı. Olgunun cerrahi eksplorasyonu yapıldı ve simfizis pubisin ön duvarında fibröz bir band şeklinde sonlanan sinüs traktı tamamen eksize edildi (Resim 5). Postoperatif 3. saat-

te sorunsuz taburcu edilen hastanın 3 yıllık takibinde sorunu olmadı. Bu olgunun da patolojik değerlendirmesinde sinüs dokunun çok katlı yassı epitel ile döşeli olduğu görüldü.

TARTIŞMA

Konjenital prepubik sinüs üriner sistemin çok nadir bir malformasyonudur. Çeşitli isimler ile de adlandırılan bu lezyonun anatomik ve patolojik özellikleri iyi tanımlanmış, ancak etyolojisi hala tartışılmaktadır. Klinik muayene yararlı bir tanı metodudur. Ultrasonografi ve diğer üriner sistem görüntüleme teknikleri tanıda yardımcı olmayabilir (5). Bununla beraber fistülografi, lezyonun uzanımını görmek ve sinüsün üriner sistem ile bağlantısının olup olmadığını saptamak için rutin olarak çekilmelidir (5). Her iki olgumuzda da ameliyat öncesi çekilen anteroposterior ve lateral fistülografide üriner sisteme bir bağlantı saptanmamıştır. Fistülografinin anteroposterior ile birlikte muhakkak lateral pozisyonda da çekilmesi-

nin lezyonun daha doğru anatomisinin belirlenmesinde faydalı olacağını düşünmekteyiz. Hastalarımızın hiçbirinde ek üriner anomali saptanmamıştır. Sinüslerin üriner sisteme bağlantısı saptanmadığı için dorsal üretral duplikasyonun bir çeşidi (Stephens Tip 3) olarak değerlendirmekteyiz. Etiyolojisi ve buna bağlı olarak adlandırılması her ne kadar karışık ise de anatomisi ve patolojisi gittikçe artarak tanımlanmaktadır (2,4,5). Literatürde, pubik bölgeden başlayıp yine pubis kemiği ile yakın komşuluk gösteren konjenital prepubik sinüsün lokalizasyonu; prepubik, suprapubik, subpubik ve penopubik kelimeleri ile yapılmaktadır. Ancak, bu anomalinin anlam doğruluğu ve tanımlama birliği açısından karışıklığa neden vermemek için sadece konjenital pubik sinüs olarak adlandırılmasının yeterli ve doğru olacağı düşüncesindeyiz. Hangi trakt artığı olursa olsun, tekrarlayan semptomlara ve potansiyel geç malign değişikliklere neden olabileceği için total eksizyonu gereklidir (5,13,15). Bu lezyonlar basit eksizyon ile kolayca ve tam sağaltılabilir.

KAYNAKLAR

- Balster S, Bettendorf O, Brinkmann OA, et al: Congenital prepubic sinus: etiology and therapy. *Aktuelle Urol*, 34:484-487, 2003.
- Campbell J, Beasley S, McMullin N, et al: Congenital prepubic sinus: possible variant of dorsal urethral duplication (Stephens type 2). *J Urol*, 137:505-506, 1987.
- Chao HM, Chuang CJ, Chen KC, et al: Unusual epithelium in a subpubic sinus. *Pediatr Surg Int*, 18:494-495, 2002.
- Chou TD, Chu CC, Diao GY, et al: Subpubic sinus: a remnant of cloaca. *J Urol*, 153:1671-1672, 1995.
- Ergun O, Sayan A, Arıkan A: Congenital prepubic sinus: possible variant of dorsal urethral duplication. *Eur J Pediatr Surg*, 8:380-381, 1998.
- Filippin SP, Rodriguez OF, Tosoni LM et al: Congenital prepubic sinus: case report. *Actas Urol Esp*, 32:351-356, 2008.
- Hayase M, Kojima Y, Hayashi Y, et al: Pseudoclitomegaly associated with congenital prepubic sinus. *Int J Urol*, 13:1031-1032, 2006.
- Huang CC, Wu WH, Chai CY, et al: Congenital prepubic sinus: a variant of dorsal urethral duplication suggested by immunohistochemical analysis. *J Urol*, 166:1876-1879, 2001.
- Jouini R, Krichene I, Lefi M, et al: Urethral duplication in boys: report of 4 cases. *Ann Urol*, 37:288-292, 2003.
- Park WH, Choi SO: An unusual urachal sinus with external opening in the midline suprapubic area. *J Pediatr Surg*, 38:E18-20, 2003.
- Ratan SK, Rattan KN, Sehgal T, et al: A rare presentation of abortive epispadiac urethral duplication and vanishing midurethra. *Pediatr Surg Int*, 21:689-691, 2005.
- Soares-Oliveira M, Julia V, Aparicio LG, et al: Congenital prepubic sinus. *J Pediatr Surg*, 37:1225-1227, 2002.
- Tander B, Yiğit Ü, Bulut M: Konjenital Prepubik Sinüs. *Pediatric Cerrahi Dergisi*, 7:101-102, 1993.
- Tsakamoto K, Yamataka A, Kuga T, et al: Congenital prepubic sinus: is it a residual cloacal membrane and umbilicophallic groove? *Pediatr Surg Int*, 20:47-50, 2004.
- Usami M, Hayashi Y, Kojima Y, et al: Congenital prepubic sinus: a variant of dorsal urethral duplication (Stephens type 3). *Int J Urol*, 12:231-233, 2005.