

Complete Duplication of Bladder and Urethra: A Case report

Leila Alikhah¹,
Narjes Heshmatifar²,
Moslem Mansouri¹,
Ali Boskabadi³,
Arash Khamene Bagheri⁴

¹ MSc Student in Nursing, Student Research Committee, Faculty of School of Nursing and Midwifery, Sabzevar University of Medical Sciences, Sabzevar, Iran

² Lecturer, Department of Anesthesiology, Faculty of Paramedicine School, Sabzevar University of Medical Sciences, Sabzevar, Iran

³ Kidney and urinary tract specialist surgeon, Sabzevar University of Medical Sciences, Sabzevar, Iran

⁴ Radiologist for, Department of Radiology, Sabzevar University of Medical Sciences, Sabzevar, Iran

(Received October 19, 2015 Accepted January 13, 2015)

Abstract

Complete duplication of the bladder and urethra is a very rare congenital anomaly which is diagnosed either shortly after birth or during early childhood. These rare malformations are usually seen by other concomitant anomalies, especially in the genital area, large intestine and skeletal system. Complete duplication often occurs in the coronal and sagittal planes and may emerge as complete or incomplete. We present a 6-year-old female patient who was admitted to Vasei Hospital in sabzevar, Iran (in 2015) with a urinary tract infection. Because of double urethra in the genital area, more diagnostic tests were conducted due to suspicion of congenital abnormalities of the urinary system. Sonography showed cystic mass on the left adjacent to the bladder. Computer scan with IV contrast showed duplication of the bladder connected to left ureter and the right ureter. To the best of our knowledge, so far, no female case is being reported with complete duplication of the bladder and urethra in Iran. The case of this patient is remarkable and unique both in terms of gender and complete bladder duplication.

Keywords: bladder, urethra, duplication

J Mazandaran Univ Med Sci 2016; 26(135): 162-168 (Persian).

گزارش یک مورد با دو مثانه و دو مجرای ادرار کامل

لیلا علیخواه^۱
نرجس حشمتی فر^۲
مسلم منصوری^۱
علی بسکابادی^۳
آرش خامنه باقری^۴

چکیده

وجود مثانه و مجرای ادرار دو قسمتی، ناهنجاری مادرزادی بسیار نادری است که در هنگام تولد یا در اوایل دوران کودکی تشخیص داده می‌شود. این ناهنجاری اغلب با ناهنجاری در سایر ارگان‌ها به‌ویژه در ناحیه تناسلی، روده بزرگ و سیستم اسکلتی همراه می‌باشد. مثانه دو قسمتی اغلب در سطح ساژیتال یا کروئال رخ می‌دهد و ممکن است به‌صورت کامل یا ناکامل پدیدار گردد.

بیمار دختر ۶ ساله‌ای بود که به علت عفونت ادراری به بیمارستان واسعی سبزوار در سال ۱۳۹۳ مراجعه کرده بود. در معاینه به علت وجود دو مجرای ادراری در ناحیه ژنیتال با شک به وجود ناهنجاری مادرزادی سیستم ادراری تحت معاینات تشخیصی بیش‌تری قرار گرفت. سونوگرافی انجام شده، توده‌ای کیستیک را در مجاورت مثانه در سمت چپ نشان داد که وجود مثانه دو قسمتی در تشخیص افتراقی بود. اسکن کامپیوتری با ماده حاجب وریدی وجود مثانه دو قسمتی که حالب چپ به مثانه سمت چپ و حالب راست به مثانه سمت راست اتصال داشت را نشان داد. تاکنون هیچ بیمار مونی با مثانه و مجرای ادرار دو قسمتی در ایران گزارش نشده است و بیمار معرفی شده هم از نظر جنسیت و هم از نظر مثانه دو قسمتی کامل، قابل توجه و منحصر به فرد می‌باشد.

واژه‌های کلیدی: مثانه، مجرای ادرار، دو قسمتی

مقدمه

مجرای ادرار، واژن، رحم و مقعد همراه بود که از آن زمان تا سال ۲۰۱۵ حدود ۷۰ مورد CDBU گزارش شده است (۲). اطلاعات جنین‌شناسی در مورد مثانه دو قسمتی ثابت شده نیست اما چند فرضیه مطرح شده است. Abrahamson اولین کسی بود که در سال ۱۹۶۱ مثانه دو قسمتی را تقسیم‌بندی نمود. او این آنومالی مادرزادی را بر اساس وجود ارتباط بین دو مثانه به دو نوع کامل و ناکامل تقسیم‌بندی نمود (۳). در نوع کامل یک دیواره

حدود ۱۰ درصد کل نوزادان تازه متولد شده دارای ناهنجاری‌های تکاملی در دستگاه ادراری می‌باشند (۱). دو قسمتی بودن مثانه و مجرای ادرار Complete duplication of bladder and urethra (CDBU) ناهنجاری بسیار نادری است که اولین مورد آن در سال ۱۸۷۱ توسط Schatz گزارش شده است. مورد گزارش شده در مطالعه Schatz جنین مرده به دنیا آمده‌ای بود که با ناهنجاری متعدد به صورت دو قسمتی بودن مثانه،

E-mail: nheshmatifar@yahoo.com

مؤلف مسئول: نرجس حشمتی فر - سبزوار: بعد از پلیس راه، دانشگاه علوم پزشکی سبزوار

۱. دانشجوی کارشناسی ارشد پرستاری، کمیته تحقیقات دانشجویی، دانشکده پرستاری و مامایی، دانشگاه علوم پزشکی سبزوار، سبزوار، ایران

۲. مربی، گروه اتاق عمل و هوشبری، دانشکده پیراپزشکی، دانشگاه علوم پزشکی سبزوار، سبزوار، ایران

۳. جراح و متخصص بیماریهای کلیه و مجاری ادرار، دانشگاه علوم پزشکی سبزوار، سبزوار، ایران

۴. متخصص رادیولوژی، دانشگاه علوم پزشکی سبزوار، سبزوار، ایران

تاریخ دریافت: ۱۳۹۴/۷/۲۷ تاریخ ارجاع جهت اصلاحات: ۱۳۹۴/۸/۲۰ تاریخ تصویب: ۱۳۹۴/۱۰/۲۳

عضلانی تمام ضخامت بین دو مثانه وجود دارد و هر کدام از مثانه ها داخل یک پیشابراه تخلیه می شوند ولی در نوع ناکامل هر دو مثانه با هم ارتباط دارند و به یک پیشابراه مشترک منتهی می شوند (۴). در تقسیم بندی دیگر از نظر وضعیت قرارگیری مثانه ها نسبت به هم، با در نظر گرفتن محور سپتوم، مثانه دو قسمتی با دو نمای Sagittal و coronal تعریف شده است که نمای Sagittal شایع تر است (۵). در نمای Sagittal مثانه ها با مخاط و لایه عضلانی نرمال در کنار یکدیگر (Side by side) قرار گرفته اند. در این وضعیت هر کدام از مثانه ها به کلیه همان طرف وصل می شوند. البته قابل ذکر است که مثانه دو قسمتی از دیورتیکول و مثانه حفره ای قابل افتراق است (۶).

نمای Sagittal بیش تر با دستگاه تناسلی خارجی یا مجاری ژنیتال دو قسمتی همراه می باشد که در آقایان به صورت آلت تناسلی دو قسمتی و شقاق بیضه ها (دو شاخه شدن کیسه بیضه) و دو قسمتی شدن سر آلت تناسلی و در خانم ها به صورت واژن و رحم دو قسمتی می باشد (۶). دستگاه تناسلی داخلی دو قسمتی در حال حاضر در ۹۰ درصد موارد بررسی شده است و تنها در ۲ مورد نادر هر دو دستگاه تناسلی خارجی و داخلی دو قسمتی گزارش شده است (۷). ناهنجاری های دستگاه گوارش مانند تنگی، انسداد و بیرون زدگی رکتوم در ۴۰ درصد موارد در نمای Sagittal رخ می دهد. در ۱۰ درصد موارد دو قسمتی بودن ستون فقرات و متنگوسل در این نما مشاهده شده است. ناهنجاری های سیستم اسکلتی در این نوع نیز شایع می باشد (۸).

در نمای coronal دو مثانه به صورت قدامی - خلفی قرار گرفته اند. در این نما ناهنجاری دستگاه تناسلی کم تر است و بیش ترین ناهنجاری مربوط به سیستم ادراری است. ناهنجاری ها معمولاً گزارش اختلالات کلیوی مانند کلیه اکتوپیک، دیسپلازی، هیپوپلازی و فقدان کلیه و هم چنین ریفلاکس مثانه به حالب بوده است. علت تفاوت در وجود ناهنجاری های همراه در این دو نما هنوز ناشناخته است (۳). تظاهرات بالینی به وضعیت

آناتومیک آنومالی این بیماران بستگی دارد. در برخی علائم زودرس و در مواردی علائم دیررس ظاهر می شود و ممکن است بیماری سال ها بدون علامت باقی بماند. علائم زودرس CDBU شامل عفونت مجرای ادراری، انسداد مجاری فوقانی و تحتانی، بی اختیاری و اختلالات دفع، توده های شکمی، آنومالی دستگاه تناسلی خارجی و ناهنجاری آنورکتال است. علامت دیررس اختلالات جنسی و ناباروری می باشد (۹-۱۱) این گزارش به بررسی یک مورد با دو مثانه مجزا و دو مجرای ادرار پرداخته است. لازم به ذکر است که به منظور رعایت اصول اخلاقی، در زمان بستری بیمار پس از ارائه توضیحات لازم در زمینه انجام کار تحقیقاتی رضایت آگاهانه از خانواده بیمار اخذ و ضمیمه پرونده گردید.

معرفی بیمار

بیمار دختر بچه ای ۶ ساله بود که با شکایت سوزش و بوی بد ادرار که از چند روز قبل شروع شده بود و اخیراً تشدید یافته بود، به اورژانس بیمارستان واسعی سبزوار در سال ۱۳۹۳ مراجعه کرده بود و با تشخیص اولیه عفونت ادراری بستری گردید. در معاینات انجام شده هنگام پذیرش، بیمار هوشیار بود و تب نداشت. در بررسی تاریخچه بیماری های قبلی، هیچ گونه سابقه ای از عفونت ادراری قبلی بیان نشد و تنها در سال اول تولد به علت توده واژینال، کودک تحت عمل جراحی قرار گرفته بود. مدارک بیمار بررسی شد که در پاتولوژی نمونه یک توده پولیپوئیدی دارای بخش توبولر به قطر ۳ در ۰/۷ سانتی متر متصل به توده ندولر به قطر ۳/۵ در ۴/۵ سانتی متر دارای سطح پر خون با قوام نرم دیده شد اما با توجه به طبیعی بودن دستگاه تناسلی خارجی از وجود ناهنجاری گزارشی نشده بود. در معاینه بالینی صورت گرفته شکل دستگاه تناسلی خارجی طبیعی بود و در هنگام دفع ادرار، خارج شدن ادرار از دو مجرا مشاهده می شد که با شک به فیستول بیمار مورد بررسی دقیق تر قرار گرفت (تصویر شماره ۱).

برای تأیید تشخیص، بیمار تحت
 قرار VCUG (Voiding Cysto Urethro Graphy) قرار
 گرفت. CDBU با جدار صاف و بدون ریفلاکس
 ادراری تأیید شد. هم چنین ماده حاجب تزریق شده از
 یک مجرا دو مثانه را حاجب کرد که احتمال ارتباط بین
 دو مثانه مطرح شد. پس از قطعی شدن CDBU پی گیری
 بعدی برای تشخیص این که مثانه دوقسمتی کامل یا
 ناکامل است، انجام گردید که برای انجام آن از
 سیستوسکوپی (Cystoscopy) استفاده گردید. در
 سیستوسکوپی انجام شده نیز پس از تزریق ماده حاجب
 به یک مثانه، ماده حاجب در مثانه دیگر ارتشاح پیدا
 می کرد و با این احتمال که دو مثانه ناکامل هستند و با
 یکدیگر ارتباط دارند، کودک تحت بررسی دقیق تر
 قرار گرفت.

سی تی اسکن (Computed tomography scan)
 (CT scan) شکم و لگن با کنتراست خوراکی و تزریقی
 به عمل آمد که در آن کبد، طحال، کیسه صفرا، مجاری
 صفراوی و گوارشی نرمال بودند. دانسیته پارانشیمال
 بافتی نرمال بود. هر دو کلیه سایز و ترشح نرمال داشتند.
 هیدرونفروز مشاهده نشد. لگنچه کلیه چپ اکسترنال بود.
 قسمت میانی حالب چپ قدری دیلاته بود. در CT scan
 انجام شده تشخیص CDBU با نمای Sagittal مسجل
 گردید. حالب چپ به مثانه چپ و حالب راست به مثانه
 راست اتصال داشت. تصویر دو پیشابراه به صورت نواحی
 حاوی گاز دیده شد. مایع آزاد در حفره شکم و لگن
 دیده نشد. پترن لوپار روده ای نرمال بود. با توجه به
 گزارش CT scan مثانه دوقسمتی، کامل بود ولی احتمال
 فیستول بین دو مثانه مطرح بود (تصویر شماره ۳).

با توجه به موارد گزارش شده قبلی که احتمال سایر
 ناهنجاری ها در این بیماران گزارش شده بود، در بیمار
 مطالعه حاضر برای بررسی این موارد MRI انجام
 گردید. در گزارش MRI جسم رحم مشاهده نشد.
 برای اطمینان بیش تر سونوگرافی رحم و ضامم نیز
 انجام شد که در آن واژن مشاهده شد ولی جسم رحم



تصویر شماره ۱: وجود دو مجرای ادرار در معاینه بالینی

ابتدا سونوگرافی کلیه، مثانه و مجاری ادراری
 درخواست شد. در گزارش سونوگرافی کلیه های دو
 طرف ابعاد و پارانشیم طبیعی داشتند. توده کیستیک به
 ابعاد ۶۰*۳۰ میلی متر در مجاورت مثانه در سمت چپ
 دیده شد که مثانه دوقسمتی (Bipartite) در تشخیص
 افتراقی آن بوده است (تصویر شماره ۲).



تصویر شماره ۲: سونوگرافی ترانس ابدومینال وجود مثانه دوقسمتی
 کامل همراه با فیستول را نشان می دهد.

دیده نشد. در گزارش MRI ناهنجاری دیگری ذکر نشده بود (تصویر شماره ۴).



تصویر شماره ۳: در CT scan انجام شده تشخیص مثنه دو قسمتی با نمای سائیتال مسجل گردید.



تصویر شماره ۴: MRI مثنه دو قسمتی را نشان می دهد.

در نهایت بیمار با توجه به علایم عفونت ادراری، تحت درمان با آنتی بیوتیک قرار گرفت و یک هفته پس از درمان ب با حال عمومی خوب مرخص

گردید. لازم به ذکر است که خانواده کودک رضایت به انجام عمل جراحی اصلاحی ندادند. با این وجود توضیحات لازم جهت ادامه درمان به خانواده کودک داده شد.

بحث

مثانه و مجرای ادرار دو قسمتی ناهنجاری بسیار نادری است که از طریق سونوگرافی قبل از تولد یا بعد از تولد به دلیل ناهنجاری در سایر ارگان‌ها، عفونت ادراری، توده شکمی، خروج ادرار از دو مجرا تشخیص داده می‌شود (۱۴-۱۲). اغلب بیماران با مثانه دو قسمتی تقریباً "همیشه با سایر ناهنجاری‌ها همراه هستند که بیشترین ناهنجاری مربوط به سیستم گوارشی و بعد از آن مربوط به وجود دو دستگاه تناسلی خارجی می‌باشد (۸). بیشترین تر موارد CDBU در جنس مؤنث از طریق وجود دو واژن تشخیص داده شده است و تنها ۳ مورد تاکنون گزارش شده است که CDBU با ناهنجاری در دستگاه تناسلی همراه نبوده است. به همین دلیل گاهی تا زمان بروز علائم بیماری، تشخیص این ناهنجاری تا دوران کودکی امکان‌پذیر نمی‌باشد (۷).

نتایج بررسی Kossow و همکاران روی ۴۰ مورد CDBU، نشان داد که ۳۸ درصد موارد با ناهنجاری در دستگاه تناسلی خارجی به صورت کیسه بیضه شکافته و آلت و یا سر آلت دوتایی و واژن دو قسمتی همراه هستند (۱۵). نکته جالب در مطالعه حاضر این بود که در معاینه بالینی صورت گرفته، دستگاه تناسلی خارجی طبیعی بود و بیمار مورد نظر جهت درمان علائم سوزش و بوی بد ادرار که خود مطرح‌کننده استاز و عفونت ادراری است، مراجعه نموده بود و تا قبل از آن وجود مثنه دو قسمتی تشخیص داده نشده بود در صورتی که در اکثر مطالعات به دلیل ناهنجاری‌های همراه یا موارد گزارش شده مرده متولد شده‌اند و یا در مراحل نوزادی ناهنجاری قابل تشخیص بوده است.

مطالعه حاضر نیز بر اساس CT scan انجام شده تشخیص مثانه دو قسمتی با نمای Sagittal مسجل گردید. از دیگر موارد گزارش شده در مطالعه Kossow و همکاران ناهنجاری دستگاه ادراری به صورت اکتوبی، فقدان مادرزادی کلیه و یا هیپوپلازی کلیه و کلیه نعل اسبی بود که به طور کلی ۳۶ درصد از موارد CDBU را تشکیل می‌داد (۱۵) در صورتی که در مطالعه حاضر هر دو کلیه سایز و ترشح نرمال داشتند، هیدرونفروز مشاهده نشد و لگنچه کلیه چپ اکسترانال بود. مطالعات قبلی بیشترین ناهنجاری همراه با CDBU را مربوط به سیستم گوارشی گزارش کرده‌اند (۲) در حالی که در مطالعه حاضر بر اساس CT scan شکم و لگن با کنتراست خوراکی و تزریقی کبد، طحال، کیسه صفرا، مجاری صفراوی و گوارشی نرمال بودند بنابراین این مطالعه از این جهت نیز حائز اهمیت می‌باشد.

سپاسگزاری

بدین وسیله از معاونت پژوهشی دانشگاه علوم پزشکی سبزوار و کلیه پرستاران بخش جراحی مرکز آموزشی و پژوهشی درمانی واسعی سبزوار و هم چنین بیمار و خانواده وی جهت همکاری در این تحقیق، تشکر و قدردانی می‌گردد.

نتایج بررسی Kossow و همکاران هم چنین نشان داد که تقریباً در ۹۰ درصد موارد دستگاه تناسلی داخلی دو قسمتی بوده است (۱۵). از یافته‌های بسیار جالب در مطالعه حاضر این بود که در سونوگرافی انجام شده جسم رحم مشاهده نشد. طبق تقسیم‌بندی Abrahamson مثانه دو قسمتی از نظر وجود سپتوم به دو صورت کامل و ناکامل می‌باشد که نوع ناکامل آن شایع‌تر است (۳) و در مطالعه حاضر با توجه به گزارش CT scan مثانه دو قسمتی کامل مسجل گردید که این مورد نیز از موارد نادر می‌باشد.

مطالعه Coker و همکاران نشان داد که ۴۲ درصد موارد CDBU با اسپینایفیدا و مننگوسل و ۱۵ درصد موارد نیز با میلو مننگوسل همراه است (۲). طبق معاینات تخصصی صورت گرفته کودک مورد گزارش با هیچ یک از ناهنجاری‌های سیستم عصبی همراه نبوده است و از نظر سیستم عصبی کاملاً سالم تشخیص داده شد لذا مطالعه حاضر از این جهت نیز حائز اهمیت می‌باشد. نتایج مطالعه صورت گرفته توسط Lowentritt و همکاران نشان داد که از ۳۹ نفر CDBU مورد مطالعه تنها ۲ مورد مثانه دو قسمتی با نمای coronal در جنس مؤنث و ۱۱ مورد با نمای coronal در جنس مذکر گزارش شده است و مابقی موارد از نوع Sagittal بوده است (۱۶). در

References

1. Mensah JE, Ampadu KN, Kyei MY, Edusie B. Bladder exstrophy associated with complete urethral duplication: Bladder can be augmented with dorsal urethral mucosa. African Journal of Urology 2013; 19(2): 99-101.
2. Coker AM, Allshouse MJ, Koyle MA. Complete duplication of bladder and urethra in a sagittal plane in a male infant: case report and literature review. J Pediatr Urol 2008; 4(4): 255-259.
3. Karpathakis N, Vasileiou G, Fasoulakis K, Heretis I. First Case of Complete Bladder Duplication in the Coronal Plane with Concomitant Duplication of the Urethra in an Adult Male. Case reports in urology. 2013.
4. Gearhart JP. Duplication, in Walsh PC, Retik AB, Vaughan ED Jr, et al, (eds). Campbell's Urology, 8th ed. Philadelphia: WB Saunders; 2002. p. 2188.
5. Pirincci N, Gecit I, Gunes M, Tanik S, Ceylan K. Complete duplication of the bladder and urethra in the coronal plane: case report with review of the literature. Urol Int 2013; 90(1): 118-120.

-
6. Goh DW, Davey RB, Dewan PA. Bladder, urethral, and vaginal duplication. *J Pediatr Surg* 1995; 30(1): 125-126.
 7. Vijayaghavan SB, Niramala AB. Complete duplication of urinary bladder and urethra: prenatal sonographic features. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2004; 24(4): 464-466.
 8. Uzokurt p, Ozalevli SS, Alkan M, Kayaselcuk F, Hicsonmez A. Unusual case of bladder duplication: complete duplication in coronal plane with single urethra and no associated anomalies. *Urology* 2006; 68(5): 1121.e1-3.
 9. Abrahamson J. Double bladder and related anomalies: clinical and embryological aspects and a case report. *Br J Urol* 1961; 33: 195-214.
 10. Esham W, Holt HA. Complete duplication of bladder and urethra: a case report. *J Urol* 1980; 123(5): 773-775.
 11. Sarin YK, Manchanda V, Sharma A, Singhal A. Triplication of colon with diphallus and complete duplication of bladder and urethra. *J Pediatr Surg* 2006; 41(11): 1924-1229.
 12. Bae KS1, Jeon SH, Lee SJ, Lee CH, Chang SG, Lim JW, et al. Complete duplication of bladder and urethra in coronal plane with no other anomalies: case report with review of the literature. *Urology* 2005; 65(2): 388.
 13. Cevik M. AN Unusal complete duplication of the hindgut and urogenital tract: case report and literature review. *Jurnalul Pediatrului* 2012; 15: 59-60.
 14. Bouhafs A, Azzouzi D, Halim Y, Arifi M, Belkacem R, Barahoui M. Duplicate bladder exstrophy: a unique variant. *J Pediatr Urol* 2006; 2(5): 483-485.
 15. Kossov JH, Morales PA. Duplication of bladder and urethra and associated anomalies. *Urology* 1973; 1(1): 71-73.
 16. Coker AM, Allshouse MJ, Koyle MA. Complete duplication of bladder and urethra in a sagittal plane in a male infant: Case report and literature review. *J Pediatr Urol* 2008; 4(4): 255-259.