

گزارش یک مورد سندرم بالانتین همراه با تخمدانهای بزرگ تحریک شده

چکیده

سندرم بالانتین سندرمی است که با هیدروپس شدید جنینی و جفتی و به دنبال آن هیدروپس مادر، خود را نشان می‌دهد. این سندرم علل مختلفی دارد و در واقع می‌توان گفت هر عاملی که هیدروپس فتالیس شدید ایجاد نماید، ممکن است به سندرم بالانتین منجر شود. علائم آن شامل افزایش ناگهانی و سریع وزن و تورم شدید و اولیگوری 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 سندرم بالانتین گزارش می‌شود که بیمار تخمدانهای 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- سندرم بالانتین ۲- هیدروپس ۳- اولیگوری ۴- تخمدانهای پلی‌کیستیک

مقدمه

سندرم 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 سندرم بالانتین باشد. تصویر اصلی بیولوژیکی، رقیق شدن خون مادر می‌باشد که آن را از پره‌اکلامپسی افتراق می‌دهد. در سال ۱۸۹۲ Ballantyn John.W. 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 سندرم 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

میلی‌متر جیوه بالاتر نمی‌رود. بعدها موارد دیگری با عنوانهای Mirror Syndrome، سندرم مادری در ارتباط با هیدروپس جنینی (۳ و ۲)، سندرم مادر وابسته به ایزوایمیونیزاسیون (۴ و ۲)، ادم تریپل (۶ و ۵)، سندرم بالانتین (۶)، توکسمی حاملگی (۳ و ۷ و ۸)، توکسمی کاذب وابسته به ایزوایمیونیزاسیون شدید (۹ و ۱۰) و سندرم هیدروپس مادری (۱۱) گزارش شد.

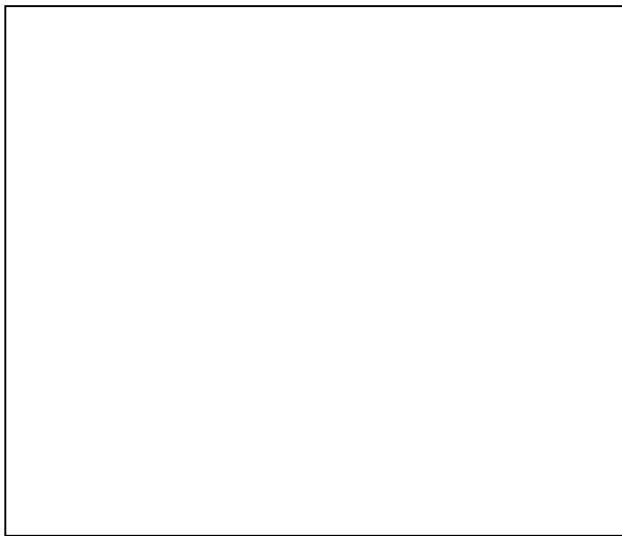
تا سال ۱۹۷۰ علت این سندرم را ایزوایمیونیزاسیون می‌دانستند اما پس از آن آلفا تالاسمی (۱۲)، تراتوم ساکروکوکسیژن (۱۳)، آنوریسم و رید گالن، کوریوآنژیوم جفتی، آنومالی اپشتین، هیپوپروتئینمی جنین، انواع عفونتهای ویروسی مانند سیتومگالو ویروس نیز به عنوان علل این بیماری مطرح شدند.

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

(I) 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). تخمدانها 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 می شود.



تصویر شماره ۲- تصویر جفت که بسیار بزرگ و متورم می باشد.

خصوصاً زمانی که وضعیت جنین بدتر می شود این سندرم تنها تظاهر شدت یافتن اختلال جنینی و جفتی است (۷ و ۱۴).

معرفی بیمار

بیمار خانم ۲۳ ساله ای بود که با حاملگی چهارم و سن بارداری ۲۱ 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 می رسید. 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 $Hb=11/4$, $WBC=10500$, $BUN=13$ و $Cr=0/7$ بود. تست کومبیس غیرمستقیم مادر ۱۰ روز قبل از مراجعه $\frac{1}{32}$ بود که بر اساس آن آمنیوسنتز صورت گرفت و $OD=0/33$ 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 ۲۲ 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 آپگار ۲ در دقیقه اول و ۳ در دقیقه پنجم به دنیا آمد. با توجه به عدم تنفس نوزاد و وجود برادی کاردی و سیانوز،



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

در یک تحقیق از ۱۱ مورد پره‌اکلامپسی شدید با شروع زودرس، در ۸ مورد پاتولوژی جنینی و جفتی وجود داشت که مول ناکامل یا هیدروپس جنینی و جفتی بود (۱۳ و ۱۸). در سال ۱۹۵۸ (۷) ثابت شد که این سندرم توکسیک در مواردی مانند هیدروپس فتالیس شدید و مول رخ می‌دهد.

براساس یک تحقیق (۱۳ و ۱۸) 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 (۱۳ و ۱۸).

بسیاری از موارد سندرم بالانتین با کم خونی همراه بوده و ترانسفوزیون ارزش کم و موقتی در بالا بردن هماتوکریت دارد (۱۹). بطور کلی 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 پلاسما بدون مانیتورینگ عملکرد قلبی - عروقی بسیار خطرناک می‌باشد. در این بیماران با وجود کاهش پروتئین پلاسما، گاهی آلبومین اوری وجود دارد.

بعد از عمل، علائم حیاتی مادر ثابت بود و هموگلوبین بعد از عمل ۱۲/۸ و $BHCG=57000$ 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 ذکر نمی‌کرد و قبل از عمل ۴ دوز دگزامتازون جهت بلوغ ریه جنین دریافت کرده بود.

بحث

علائم بالینی سندرم بالانتین به شکلهای مختلفی تظاهر می‌کند. تورم یک علامت کلیدی بوده (۹ و ۱۲ و ۱۳ و ۱۵) 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 (۱۷).

در موارد کشنده بیمار بدحال بوده، تورم در سرتاسر بدن (آنآزارکا) وجود دارد و جنین می‌میرد (۲ و ۷ و ۹ و ۱۳).

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

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

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

مراقبت‌های دقیق در درمان این بیماران ضروری بوده و در این بیماران با وجود کاهش هماتوکریت نباید تزریق خون صورت گیرد.

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

این مورد گزارش جالبی از همراهی سندرم بالانتین با تخمدانهای تحریک شده و پلی‌کیستیک بوده است.

منابع

1- Potter EL. Rh, Hs Relation to Congenital Hemolytic Disease & to Intragroup Transfusion Reaction, The year book publisher, 1947: 146-147.

2- Cohen A. Maternal syndrome in Rh isoimmunization: Report of a case, J Obstet Gynecol Br Emp, 1960; 67: 325-327.

3- John AH, Duncan AS. The maternal hydrops syndrome associated with hydrops fetalis, J Obstet Gynecol Br Commonw, 1964; 71: 61-65.

4- O'Driscoll DT. A fluid retention syndrome associated with severe isoimmunization to the Rhesus Factor, J Obstet Gynecol Br Emp, 1956; 63: 372-374.

5- Kaiser JH. Ballantyne and triple edema, Am J Obstet Gynecol, 1971; 110: 115-120.

6- Quagliarello JR, Passalacqua 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.

7- Jeffcoate TNA, Acott JS. Some observations on the placental factor in pregnancy toxemia, AM J Obstet Gynecol, 1959; 77: 475-489.

در این سندرم اولیگوری نیز مشاهده می‌شود که این یافته‌ها تا ۱۲ روز پس از زایمان خودبخود از بین می‌روند (۲۰).

تورم شدید، اولیگوری و رقیق شدن خون یک تریاد تشخیصی برای هیدروپس جنینی است. در حاملگی طبیعی گشاد شدن شریانهای محیطی بخصوص شریان کلیوی (۲۱)، تحریک سیستم رنین - آنژیوتانسین، آلدوسترون و سیستم عصبی سمپاتیک و رهایی از وازوپرسین وجود دارد که تمام این موارد مسئول افزایش حجم خون در حدود ۵۰-۳۰٪ و تجمع آب و سدیم هستند (۲۱).

پره‌اکلامپسی و اکلامپسی ممکن است بطور ثانویه و به علت اختلال در وضعیت گشادشدن عروق در اثر تخریب آندوتلیال بخصوص در کاپیلرهای گلوامرولی ایجاد شود که در نتیجه آن پروتئین اوری رخ می‌دهد (۲۱).

قابل توجه است که پروتئین اوری واضح و تغییرات گلوامرولی ناشی از پره‌اکلامپسی در این سندرم دیده نمی‌شود و علت اصلی، اختلال در مکانیسم جبرانی می‌باشد بطوری‌که از وازوپرسین پلازما با وجود حجم بالای خون کاهش نیافته و ANP (Atrial Natriuretic Peptid) بالا می‌رود (۲۲).

بیمار معرفی شده در این مقاله نیز دارای معیارهای سندرم بالانتین بود که بعد از سزارین افزایش هماتوکریت و بهبود علائم بیماری مشاهده شد.

یافته جالب در این بیمار تخمدانهای بسیار بزرگ و حجیم بود که تعداد زیادی فولیکول تحریک شده در آنها مشاهده می‌شد.

شاید این بیمار اولین مورد سندرم بالانتین با تخمدانهای پلی‌کیستیک باشد که تاکنون در مقالات گزارش نشده است. ۴۰ روز بعد از زایمان برای بیمار سونوگرافی انجام شد که تخمدانها به حد طبیعی برگشته بودند.

آیا این تخمدانها در ارتباط با تحریک مستمر و بالای B-HCG این چنین شده بودند یا نه؟ هنوز معلوم نیست.

در پایان می‌توان چنین گفت که سندرم بالانتین تنها توسط یک اتیولوژی خاص مانند هیدروپس فتالیس ایجاد

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, Bennebrock Gravenhorst J. Maternal hydrops syndrome: A review, *Obstet Gynecol Surv*, 1991; 46: 785-788.

12- Kloosterman MD, Bennebrock 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- Brockhuizen 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, Behafarin Ave, Iran University of Medical Sciences and Health Services, Tehran, Iran.