

Olgu Sunumu

Termde Sağlıklı Canlı Fetüsle Birlikte Bulunan Mol Hidatidiform

Dursun BAŞTUĞ, Kahraman ÜLKER, Halil ASLAN, Hüseyin Azer YILMAZ,
Murat BERKKANOĞLU, Ahmet GÜLKILIK
SSK Bakırköy Doğumevi Kadın ve Çocuk Hastalıkları Eğitim Hastanesi-İstanbul

ÖZET

TERMDE SAĞLIKLI CANLI FETÜSLE BİRLİKTE BULUNAN MOL HİDATİDİFORM: OLGU SUNUMU

Amaç: Terme yakın normal canlı bir fetüsle, mol hidatidiformun birlikte bulunması nadir görülmektedir. Persiste trofoblastik hastalık ya da koryokarsinom gelişme olasılığı göz önünde bulundurularak, hastaya genellikle gebeliğin sonlandırılması önerilmektedir. Vajinal kanama, preeklampsi, eklampsi gibi obstetrik nedenlerde gebeliğin terme ulaşmasını engellemektedir.

Olgu: Hasta kliniğimize 10. gebelik haftasında ağrısız vajinal kanama yakınmasıyla başvurdu. Yapılan ultrasonografik incelemede son adet tarihi ile uyumlu, fetal kalp aktivitesi olan fetüsle birlikte, etrafında kistik alanlar içeren, sınırları düzensiz bir kese olduğu izlendi. Canlı, normal bir fetüsle birlikte bulunan mol hidatidiform ya da bozulmuş ikiz eşi öntanısı kondu. Hastaya gebeliği ve oluşabilecek olan komplikasyonlar anlatıldı. Hastanın ısrarla gebeliğin devamını istemesi üzerine haftalık β -hCG ölçümleriyle takibe başlandı.

Sonuç: Olguda hidatidiform molle birlikte gebeliğin terme kadar sürdürüldüğü ve normal bir bebeğin doğurtulduğu gösterilmiştir.

Anahtar Kelimeler: Mol hidatidiform, Term gebelik.

SUMMARY

HYDATIDIFORM MOLE WITH A COEXISTENT HEALTHY, VIABLE FETUS AT TERM CASE REPORT

Background: The coexistence of a hydatidiform mole with a normal, live fetus at term is a rare occurrence. When a molar pregnancy is incurred, the patient is usually encouraged to terminate the pregnancy due to the possibility of developing trophoblastic disease or choriocarcinoma. Vaginal bleeding, preeclampsia and eclampsia are the leading causes terminating the pregnancy before term.

Observation: At 10 weeks gestation a women admitted our hospital with the complaint of vaginal painless bleeding. Irregular borders of a sac with cystic areas on the marginal side, with a coexistent live fetus having appropriate measurements with the last menstrual period observed ultrasonographically.

Conclusion: A hydatidiform mole can coexist with a normal, healthy fetus who can be carried to term, with a good outcome.

Key Words: Mole hydatidiform, Term pregnancy.

Gestasyonel trofoblastik hastalıklar trofoblastik doku proliferasyonu ile karakterize plasental lezyonlardır. Hidatidiform mol, invazif mol, koryokarsinom ve plasental bölge tümörleri olarak dört grupta incelenirler. Gestasyonel trofob-

lastik hastalıklar tedaviye yanıtı en iyi olan jinekolojik malignansilerdendir. İyi sonuç alınmasını sağlayan faktörler; oldukça yüksek duyarlılıklı belirteç olan hCG salgılanması, hCG miktarının canlı hücre sayısı ile doğru orantılı olması, kemoterapiye çok iyi yanıt vermesi, yüksek risk faktörlerinin belirlenmesiyle hastaya uygun kemoterapi, radyoterapi ya da cerrahi gibi çoğul tedavi yöntemlerinin seçilebilmesidir (1). Mol hidatidiform insidansı ABD'de 1/1200 iken bazı gelişmekte olan ülke-

Yazışma Adresi: Dursun Baştuğ, SSK Bakırköy Doğumevi, Yenimahalle/İstanbul

* 2-6 Mayıs 1999 tarihinde 7. Ulusal Perinatoloji Kongresi Belek/Antalya'da poster olarak sunulmuştur.



Resim 1. Fetüs 15 haftalıkken plasenta görünümü.

lerde insidansının 1/77 olduğu bildirilmiştir (1, 2). Hidatidiform molle fetüsün birlikte bulunduğu olgular ise % 0,005-0, 01 olarak saptanmıştır (3). Komplet mol ve normal fetüsün birlikte olduğu gebeliklerde kanama, medikal komplikasyonlar ve persiste trofoblastik hastalık gelişmesi açısından artmış risk vardır (14). Eşlik eden fetüslerde de triploidi başta olmak üzere malformasyonlar sık görülür (4). Buna rağmen az sayıda olguda molar gebelikte birlikte normal canlı fetüs bildirilmiştir (2, 5).

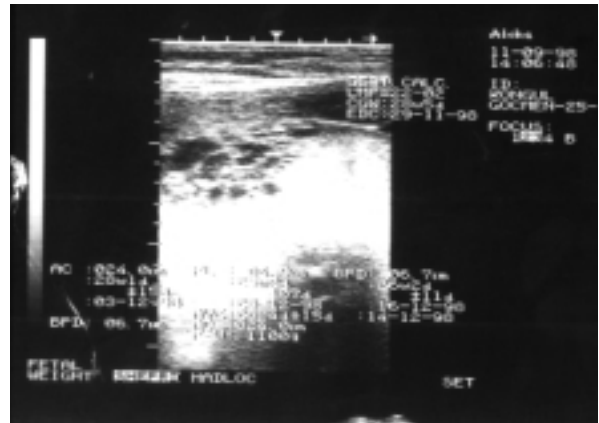
OLGU

Sunacağımız hasta 22 yaşında, gebelik 2, parite 1 olan, daha önceki gebeliği abruptio plasenta nedeniyle abdominal doğumla sonlandırılan bir kadındı. Hastanın bebeği neonatal asfiksi nedeniyle exitus olmuştu. Hasta kliniğimize 10. gebelik haftasında ağrısız vajinal kanama yakınmasıyla başvurdu. Yapılan genital muayenede uterin serviks kapalı ve kalındı. Vajinal ve abdominal ultrasonografik değerlendirmede son adet tarihi ile uyumlu gelişme gösteren, belirgin anomalisi olmayan, fetal kalp aktivitesi belirgin patolojik özellik taşımayan canlı bir fetüs görüldü. Fetüsle birlikte, etrafında kistik alanlar içeren, sınırları düzensiz bir kese de izlendi. Bilateral adneksal patolojik bulguya rastlanılmadı. Canlı, normal bir fetüsle birlikte bulunan mol hidatidiform ya da bozulmuş ikiz eşi öntanısıyla hasta takibe alındı. Yatak istirahati ile vajinal kanama durdu.

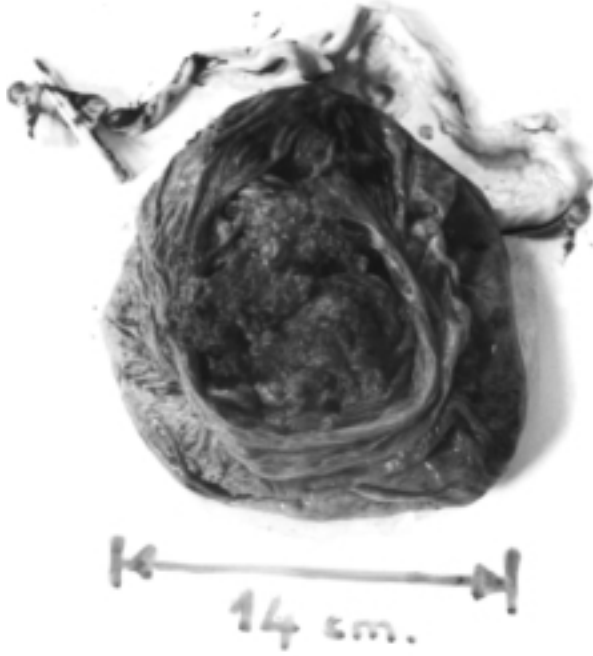
Resim 1 ve 2'de hastanın takipleri sırasında çekilmiş olan sonografik görüntüleri mevcuttur.

Hastadan alınan öykü ve yapılan laboratuvar tetkikleriyle hastanın hepatit B taşıyıcısı (HbsAg +, HbcAg +) ve Rh uygunsuzluğu olduğu görüldü.

Aylık indirekt Coombs testiyle izlendi ve bütün testlerde izoimmünizasyon yönünde titre artışına rastlanılmadı. HbsAg'de bütün gebelik boyunca pozitif (+) olarak kaldı. Aktif hepatite geçiş için yapılan karaciğer fonksiyon testleri takibinde gestasyonel ve post gestasyonel dönemde patolojik bulgulara rastlanılmadı. İlk başvuru sırasında yapılan β -hCG ölçümü 153230 IU/L gelince komplet mol tanısı konularak hastaya gebelik, gebeliğin gidişatı, olası komplikasyonlar, mol hidatidiform, olası malign transformasyon, persiste trofoblastik hastalık ve olası kemoterapi gereksinimi hakkında bilgilendirmede bulunuldu ve gebeliğin sonlandırılması önerildi. Ancak hasta ısrarla gebeliğin devamını isteyince haftalık β -hCG ölçümleriyle sıkı takibe başlandı. 11. haftada 137400, 12. haftada 144,173, 13. haftada 141000 ve 14. haftada 143710 UI/L sonuçları alınca β -hCG takipleri 2 haftada bir yapıldı. 16. haftada 141600, 18. haftada 147100 ve 20. haftada 139050 UI/L değerleri elde edildi. Bundan sonra 3. haftada bir yapılan ölçümlerde β -hCG değerleri yaklaşık olarak haftada 5000-7000 UI/L düşerek 32. gebelik haftasında 70000UI/L seviyelerine geriledi. Bundan sonra yapılan ölçümlerde bu düşüş devam etti ve 38. gebelik haftasında 18000 UI/L'lik ölçüm elde edildi. Gebelik boyunca yapılan ultrasonografik değerlendirmelerde fetal gelişim normal olarak izlendi. İlk ultrasonografik değerlendirmeden farklı olarak sağ fundal bölgede 18. gebelik haftasına kadar yavaş yavaş büyüyen ve 6x8 cm çaplarına ulaşan, içinde kistik alanlar içeren kitle izlendi. Kitle boyutu bu haftadan sonra değişim göstermedi. İlk başvurudan sonra yatak istirahati önerilen hastada, gebelik boyunca non-spesifik üriner sistem infeksiyonları dışında başka bir komplikasyon gelişmedi. 39. gebelik haftasında elektif abdominal doğum planlandı. Ancak 38 haftada sancı yakınmasıyla başvuru



Resim 2. Fetüs 26 haftalıkken plasenta görünümü.



Resim 3. Doğumdan sonra plasentanın görünümü.



Resim 4. Plasentanın yakından görünüşü.

ran hastanın genital muayenesinde serviksin tam açık ve tam efase olduğu görüldü. Hasta vajinal yoldan 1. dakika apgar skoru 9 ve 5. dakika skoru 10 olan, 2950 gr ağırlığında canlı bir erkek bebek doğurdu. Plazenta ve zarları postpartum 15 dakikada sonra spontan olarak tam ayrıldı. Plasentanın halası sırasında, plasentayla birlikte üzüm salkımına benzer materyel geldiği görüldü (Resim 3-4). Endometriyal kavite küretajı yapıldı. Postnatal bebek kan grubu Rh (-) olarak bulunduğu için, yalnızca hepatit için aktif ve pasif immunizasyon yapıldı.

Histolojik incelemede plasenta 15cm çapındaydı, zarları ve kotiledonları tamdı ve santral yerleşimli 25 cm uzunluğunda kordon vardı. Plasental marjinal bölgede 2, 5cm çaplı bir infarktüs alanı vardı. Üzüm salkımı benzeri görüntüsü olan kitle 9cm çapındaydı. Damar yapıları içermeyen, hidropik dejenerasyon gösteren villusların varlığı mol hidatidiform tanısıyla uyumluydu. 2 gün sonra yapılan β -hCG ölçümü 1340 UI/L geldi. Akciğer grafisi, serum alanin transferaz, aspartat transferaz, alkalik fosfataz, üre, kreatinin ölçümlerinde metastatik hastalığa yönelik bulgular saptanamayınca anne ve bebeği takip edilmek üzere taburcu edildiler. Bir hafta sonraki β -hCG ölçümü 540 UI/L geldi. Daha sonra hasta takiplerini bıraktığı için persiste hastalık yönünde takip yapılamadı. Başka bir şehir taşınan hastaya iki ay sonra ulaşıldı ve telefonla

kendi şehrindeki medikal takiplerinin normal olduğu öğrenildi.

TARTIŞMA

Hidatidiform mol damarsal yapıları bulunmayan, trofoblastik proliferasyon ve hidropik dejenerasyon gösteren bir plasental doku anomalisidir. Komplet ya da parsiyel mol olarak sınıflandırılır. Parsiyel molde fetüsle birlikte plasental dokunun belli bir kısmında molar değişiklik gelişir. Parsiyel mol vakalarında en sık triploidi olmak üzere fetüste genellikle bir anomali olur (5, 6). Komplet molde ise fetal gelişim sağlayacak damar yapıları olmadığından fetüs de yoktur. Komplet molde karyotip 46XX (nadiren 46 XY) olur ve iki seks kromozomu da paternal kaynaklıdır. Komplet molde kendisine ait bir fetal gelişim söz konusu değilken, molle birlikte kendisi ve plasentas normal olan bir fetüs aynı zamanda olabilir (2-6, 8).

Bu tür vakalarda vajinal kanama, 20. gebelik haftasından önce gelişen preeklampsi, şiddetli hiperemesis ve tiroid fonksiyon bozuklukları görülebilir. Vajinal kanama lekelenme tarzında olabileceği gibi masif de olabilir ve genellikle aralıklarla sürer. Uterus gebelik yaşına göre büyük olabilirse de, %30 vakada uterus normal ya da normalden küçüktür (1).

Molle birlikte gebeliğe bağlı hipertansiyon sıklığında artma olduğu bildirilmiştir. Klinik olarak belirgin hipertiroidi olmasa da, tiroid fonksiyonlarında bozulmalar görülebilir. Yine de literatürde yayınlanmış mole bağlı tirotoksikozların da olduğu unutulmamalıdır. Hipertiroidizmin; hCG ile TSH benzerliğinden kaynaklandığı düşünülmüştür(3). TSH reseptörlerinin spesifitesine olmaması molar doku tarafından bol miktarda üretilen hCG ile bağlanmasına ve tiroid hiperfonksiyonuna sebep olabilir.

Normal bir fetüsün varlığında mol hidatidiform tanısı koymak zordur. Eğer hasta üzüm tanelerine benzer veziküller düşürmüş ise mol tanısı kolaylaşabilir. Gebelik haftasına göre büyük bir uterus, vajinal kanama, 1 ve 2. trimesterde ani başlayan hipertansiyon ve hCG ölçümlerinin 1000000 UI/L den yüksek olması molü düşündürmelidir (12). Mol ile birlikte fetüsün olduğu hastalarda hCG titreri, normal gebelikte bulunan seviyelere göre oldukça fazla yükselirse de, bazan normal gebeliklerde de artmış hCG üretimine rastlanılır (6). Bazan da molar gebeliğin, normal gebelik sınırları içerisinde hCG üretmesine rastlanılabilir (12). Mol hidatidiform tanısı için tanısız değeri olan, belirlenmiş mutlak hCG seviyeleri olmamasına rağmen, yüksek hCG titreleri ile persiste trofoblastik hastalık arasında güçlü bir ilişki vardır (3).

Molün ultrasonografik incelemesinde plasenta içinde multiple ekojenik alanların bulunduğu klasik kar yağdı manzarası oldukça önemlidir. Yüksek hCG nedeniyle mol vakalarında sıklıkla theca lutein kistlerine de rastlanılmaktadır. Hidatidiform mole birlikte fetüsün olduğu vakalarda, ilk trimesterde abdominal ultrasonografi ile %68 vakanın tanısının konulabileceğini söyleyen yayınlar vardır (11-15). Yine de ultrasonografik incelemede şüpheli mol görüntüsü ile birlikte canlı fetüs görüldüğünde tanı yalnızca bu bulgulara dayandırılmamalıdır. Çünkü missed abortus ve kısmen dejenerasyona uğramış leiomyomlar da benzer ultrasonografik görüntülere neden olabilirler. Bunun için tanının hCG düzeylerindeki anormal artışla desteklenmesi gerekir (8-13). Ultrasonografik bulgu olarak fetal malformasyon, gelişme geriliği ve oligohidroamnios daha sık görülen parsiyel molü düşündürmelidir.

Mol hidatidiform vakalarını 1/5'inde persiste trofoblastik hastalık geliştiğinden bu hastaların takibi de önemlidir (3-11). Amerikan Jinekoloji ve Obstetri Koleji'nin önerisine göre molün boşaltılmasında 48 saat sonra hCG seviyeleri ölçülmeli ve ölçümler normal sınırlara düşene kadar haftalık devam ettirilmelidir. Bundan sonra aylık takipler yapılarak hasta 6-12 ay takip edilmelidir. Bir yıl bo-

yunca hasta gebelikten korunmalıdır. Başlangıçta bir akciğer grafisi incelemesi yapılmalı ve hCG yükselir ya da plato çizerse bu inceleme tekrarlanmalıdır. Takipler sırasında hCG seviyelerinde yükselme ya da plato çizme devam ederse kemoterapiye geçilmelidir (1).

Molle birlikte canlı fetüse ikinci trimesterde tanı konulduğunda, gebeliğin sonlandırılması önerilmesine (3) karşın bizim olgumuzda normal canlı bir fetüsün komplet hidatidiform molle birlikte bulunduğu ve terme kadar sürdürülen gebeliğin iyi bir fetal prognozla sonlandırıldığı gösterilmiştir. Ancak hastaya gebeliğin sürdürülmesi önerilmeden önce maternal ve fetal risklerin anlatılması, persiste trofoblastik hastalık ve kemoterapi yönünden bilgilendirilmesi gerekir (11). Mol hidatidiformun invaziv büyümesi ya da malign transformasyonunu bildiren yeterli ve güvenilir göstergeler olmadığından, gebeliğin sonlandırılması ya da sürdürülmesi yönündeki öneriler tartışmaya açıktır.

KAYNAKLAR

1. DiSaia PJ, Creasman WT: Gestational trophoblastic neoplasia. In Clinical Gynecological Oncology. Third edition. St Louis, CV Mosby, 1981, pp 214-40
2. Azuma C, Saji F, Takemura M et al: Triplet pregnancy involving complete hydatidiform mole and two fetuses: Genetic analysis by deoxyribonucleic acid fingerprint. Am J Obstet Gynecol 1992;166: 664-7
3. Vejerslev LO: Clinical management and diagnostic possibilities in hydatidiform mole with coexistent fetus. Obstet Gynecol Surv 1991;46:577-88
4. Vejerslev LO, Dueholm M, Nielsen FH: Hydatidiform mole cytogenetic marker analysis in twin gestation. Am J Obstet Gynecol 1986;155:614-7
5. Deaton JL, Hoffman JS, Saal H, Allred C, Koulos JP: Molar pregnancy coexisting with a normal fetus: A case report. Gynecol Oncol 1989;32:394-7
6. Block MF, Merrill JA: Hydatidiform mole with coexistent fetus. Obstet Gynecol 1982;60:129-34
7. Labarrere CA, Althabe OH: Primary chronic abortion, preeclampsia, idiopathic intrauterine growth retardation, hydatidiform mole, and choriocarcinoma: A unifying concept. Am J Reprod Immunol Microbiol 1986;10:156-7
8. Sauerbrei EE, Salem S, Fayle B: Coexistent hydatidiform mole and a live fetus in the second trimester. Radiology 1980;135:415-7
9. Lage JM, Mark SD, Roberts DJ, Goldstein DP, Bernstein MR, Berkowitz RS: A flow cytometric study of 137 fresh hydropic placentas: Correlation between types of hydatidiform moles and nuclear DNA ploidy. Obstet Gynecol 1992;79:403-10
10. Davis JR: Cytogenetics and clinical features of placental moles: Synopsis and update. Cancer Genet Cytogenet 1986;19:123-7
11. Steller MA, Genest DR, Bernstein MR, Lage JM, Goldstein DP, Berkowitz RS: Natural history of twin pregnancy with complete hydatidiform mole and coexistent fetus. Obstet Gynecol 1994;83:35-42
12. Anderson CK, Deiter RW, Motz MJ, Goldstein JA: Complete hydatidiform mole with a coexistent healthy, viable fetus near term: A case report. J Reprod Med 1996;41:55-8

13. Romero R, Horgan JG, Kohorn EI, Kadar N, Taylor KJ, Hobins JC: New criteria for the diagnosis of gestational trophoblastic disease. *Obstet Gynecol* 1985;66:553-8
14. Fishman DA, Padilla LA, Keh P, Cohen L, Frederiksen M, Lurain JR: Management of twin pregnancies consisting of a complete hydatidiform mole and normal fetus. *Obstet Gynecol* 1998;91:546-50
15. Steller MA, Genest DR, Bernstein MR, Lage JM, Goldstein DP, Berkowitz RS: Clinical features of multiple conception with partial or complete molar pregnancy and coexisting fetuses. *J Reprod Med* 1994;39:147-54