

Nonimmune Hydrops Fetalis: A Case Report

Mehrbanoo Amirshahi ^{1,*}, Akram Sanagoo ², Fatemeh Mirshekari ³

¹ Instructor, Department of Midwifery, Nursing and Midwifery School, Zabol University of Medical Sciences, Zabol, Iran

² Associate Professor, Department of Nursing, Nursing Research Center, Golestan University of Medical Sciences, Golestan, Iran

³ BSc, Department of Midwifery, Nursing and Midwifery School, Zabol University of Medical Sciences, Zabol, Iran

* **Corresponding author:** Mehrbanoo Amirshahi, Instructor, Department of Midwifery, Nursing and Midwifery School, Zabol University of Medical Sciences, Zabol, Iran. E-mail: amirshahim@ymail.com

Received: 03 Oct 2016

Accepted: 03 Nov 2016

Abstract

Introduction: Hydrops fetalis is the accumulation of excess fluid in the fetus. Depending on the severity and cause of hydrops, the cause may be the existence of edema of the fetus and placenta, ascites, pleural effusion, and pericardial effusion. Hydrops fetalis can be secondary to Rh incompatibility or nonimmune origin. The aim of this study was to introduce a nonimmune hydrops fetalis diagnosed during labor.

Case Report: A primiparous mother with complaint of contractions and rupture of membranes and with gestational age of 30 weeks referred to the birth center and during a normal vaginal delivery, a baby girl was born that was hydropic, had ascites clinical picture and was severely ill, and died five minutes after the birth. The maternal blood group was O positive and the infant was B positive.

Conclusions: Nonimmune hydrops fetalis is a condition that often requires emergency treatment. Consulting and precise control of pregnancy can lead to the discovery of the etiology and severity of the disease.

Keywords: Hydrops Fetalis, Ascites, Edema

گزارش یک مورد هیدروپس فتالیس با منشأ غیرایمنی

مهربانو امیرشاهی^{۱*}، اکرم ثناگو^۲، فاطمه میرشکاری^۳

^۱ مربی، گروه مامائی، دانشکده پرستاری و مامائی، دانشگاه علوم پزشکی زابل، زابل، ایران
^۲ دانشیار، گروه پرستاری، مرکز تحقیقات پرستاری، دانشگاه علوم پزشکی گلستان، گلستان، ایران
^۳ کارشناس، گروه مامائی، دانشکده پرستاری و مامائی، دانشگاه علوم پزشکی زابل، زابل، ایران
 * نویسنده مسئول: مهربانو امیرشاهی، مربی، گروه مامائی، دانشکده پرستاری و مامائی، دانشگاه علوم پزشکی زابل، زابل، ایران.
 ایمیل: amirshahim@ymail.com

تاریخ پذیرش مقاله: ۱۳۹۵/۰۸/۱۳

تاریخ دریافت مقاله: ۱۳۹۵/۰۷/۱۲

چکیده

مقدمه: هیدروپس فتالیس، تجمع مایع اضافی در جنین است. بسته به شدت و علت هیدروپس، ممکن است آدم جنین و جفت، آسیت، پلورال افیوژن و افیوژن پریکارد وجود داشته باشد. هیدروپس فتالیس، می‌تواند ثانویه به ناسازگاری Rh باشد و یا منشأ غیرایمنی داشته باشد. هدف از مطالعه حاضر، معرفی یک مورد هیدروپس فتالیس با منشأ غیرایمنی است که در طی زایمان تشخیص داده شد. **معرفی بیمار:** مادری نخست‌زا، با شکایت از دردهای زایمانی و پارگی کیسه آب و با سن حاملگی ۳۰ هفته، به مرکز تسهیلات زایمانی مراجعه و طی یک زایمان طبیعی، نوزاد دختری را بدنیا می‌آورد که هیدروپیک بوده، تابلوی بالینی آسیت را دارد و به شدت بدحال است و ۵ دقیقه پس از تولد فوت می‌شود. گروه خونی مادر، O مثبت و نوزاد، B مثبت بود. **نتیجه‌گیری:** هیدروپس فتالیس با منشأ غیرایمنی، شرایطی است که اغلب نیاز به درمان اورژانسی دارد. مشاوره و کنترل دقیق بارداری، می‌تواند منجر به کشف اتیولوژی و شدت این بیماری شود. **کلیدواژه‌ها:** هیدروپس فتالیس، آدم، آسیت

تمامی حقوق نشر برای انجمن علمی پرستاری ایران محفوظ است.

مقدمه

میزان، در سونوگرافی سه ماهه اول و دوم به دلیل بالاتر بودن نرخ مرگ جنینی، از این حد هم بالاتر می‌رود (۳). اتیولوژی هیدروپس با منشأ غیرایمنی، در بیش از یک سوم موارد، ناشناخته باقی می‌ماند، در عین حال عوامل زمینه‌ساز، از تنوع و فراوانی رو به رشدی برخوردارند که می‌توانند در یکی از این گروه‌ها طبقه‌بندی شوند: نواقص قلبی، اختلالات خونی (ناسازگاری ABO، آلفا تالاسمی)، ناهنجاری‌های کروموزومی، خطاهای متابولیسمی مادرزادی، عوامل عفونی، ناهنجاری‌های دستگاه ادراری و سندروم ترانسفوزیون قل به قل (۴). بررسی گام به گام هیدروپس غیرایمنی عبارتست از تصویربرداری از جنین (سونوگرافی دقیق و اکوکاردیوگرام)؛ بررسی خون مادر (CBC، گروه خون، کومیس غیرمستقیم، تست سیفیلیس، تیتراهای آنتی‌بادی توکسوپلاسموز، سیتومگالوویروس، سرخچه، پاروویروس؛ و بسته به منشأ قومی، الکتروفورز هموگلوبین و بررسی کمبود آنزیم G6PD؛ بررسی مایع آمنیون و نمونه‌گیری از خون جنین (۵). درمان، وابسته به سن حاملگی در زمان تشخیص و نیز علت مولد است. هیدروپس غیرایمنی، با مرگ و میر ۶۰ تا ۹۰ درصدی جنین همراهی دارد. این میزان مرگ و میر وابسته به علت زمینه‌ای است (۶). ما در

هیدروپس فتالیس، به عنوان تجمع غیر طبیعی مایع، حداقل در دو ناحیه مختلف از بدن جنین تعریف می‌شود که تابلوی بالینی آن عبارتست از آدم زیرجلدی به همراه پلورال افیوژن و یا افیوژن پریکارد و آسیت. اغلب پلی هیدرامنیوس یا ضخیم شدگی جفت نیز از یافته‌های همراه هستند. هیدروپس جنینی، ثانویه به سه مکانیسم اصلی اولیه است که عبارتند از آنمی داخل رحمی، نارسائی قلبی داخل رحمی و هیپوپروتئینمی. علاوه بر این سه مکانیسم، هیدروپس جنینی دارای یک رابطه علت و معلولی با انواع ناهنجاری‌های ساختمانی است که در گردش خون جنینی - جفتی تداخل ایجاد می‌کنند. ناهنجاری‌های کروموزومی (آنوپلوئیدی، حذف، تکرار، جهش ژنتیکی) و دیسپلازی اسکلتی نیز ممکن است از طریق انواع مکانیسم‌های فوق با هیدروپس در ارتباط باشند (۱، ۲). هیدروپس فتالیس با منشأ غیرایمنی، اشاره به نوعی از هیدروپس دارد که در غیاب تشکیل آنتی‌بادی‌های گردش خون مادری بر علیه گلبول‌های قرمز جنین، شکل می‌گیرد و در مقایسه با هیدروپس ایمنی، از یک شیوع حداقل ۸۵ درصدی برخوردار است. انسیدانس این هیدروپس، حدود ۳ در هر ۱۰۰۰۰ تولد است که این

خونی از نوع IgM است که قدرت عبور از جفت را ندارند. بر خلاف ناسازگاری Rh، بیماری ABO، در مادران نخست‌زاده دیده می‌شود (۷).



تصویر ۱: نوزاد دختر متولد شده با دیسترس تنفسی شدید، هیدروپیک و دارای تابلوی بالینی آسیت

در مطالعه حاضر، طبق تنها سونوگرافی که مادر به همراه داشت و در آن سن حاملگی وی ۱۶ هفته و ۵ روز بود، هیچ مورد غیرطبیعی دیده نمی‌شد و جنین زنده و دارای قلب و فاقد هر گونه ناهنجاری گزارش شده بود. اما پس از زایمان، مشخص شد که نوزاد کاملاً هیدروپیک بوده و آسیت شدید دارد. گروه خونی این مادر نخست‌زاده، O مثبت و گروه خونی نوزاد B مثبت بود. Drabik-Clary (۲۰۰۶)، Khairy (۲۰۱۲) و Nandyal (۲۰۱۶) در مقالات خود، به توصیف هیدروپس فتالیس ثانویه به ناسازگاری ABO پرداخته بودند (۸-۱۰). همراهی جنین‌های دارای گروه خونی A یا B با مادران دارای گروه خونی O، تقریباً در ۱۵ درصد حاملگی‌ها دیده می‌شود اما بیماری همولیتیک نوزادی، تنها در ۳ درصد این بارداری‌ها اتفاق می‌افتد و تنها در ۱ درصد موارد تبدیل به فرم شدید می‌شود. یافته‌های بالینی بیماری همولیتیک نوزادی از زردی خفیف و آنمی تا هیدروپس فتالیس (آسیت، افیوژن پلورال و پریکارد، هیپوتاسپلنومگالی) متغیر است. به طور کلی معمولاً تظاهرات بالینی ناسازگاری ABO در مقایسه با ناسازگاری Rh، از شدت کمتری برخوردار است. برخی خطراتی که لیبر و زایمان اینگونه بارداری‌ها را تهدید می‌کند عبارتند از آسفیکسی، دیسترس تنفسی، آدم، رنگ پریدگی، کواگولوپاتی (کاهش پلاکت و فاکتورهای انعقادی)، هیپوگلیسمی و زردی (۸).

در بررسی حاضر، به نظر می‌رسد که نوزاد، مبتلا به فرم شدید بیماری باشد زیرا علاوه بر اینکه هیدروپیک بود و آسیت چشمگیری داشت، هیپوتون و رنگ پریده بود و دیسترس تنفسی شدید داشت و ضربان قلب وی هم ۵۰ ضربه در دقیقه بود، از اینرو بلافاصله به زیر وارمر منتقل و عملیات احیا برای او آغاز گردید که مؤثر واقع نشد و نوزاد پنج دقیقه پس از تولد، فوت گردید. متأسفانه به دلیل امکانات کم آزمایشگاه تسهیلات زایمانی، امکان بررسی احتمال هیپوگلیسمی و زردی وجود نداشت که این خود از محدودیت‌های پژوهش بود اما در بررسی نمونه خونی نوزاد، همولیز و ترومبوسیتوپنی تأیید شد. همچنین به دلیل عدم

این مقاله یک مورد هیدروپس فتالیس با منشأ غیرایمنی را معرفی می‌کنیم که حاصل زایمان طبیعی یک مادر نخست‌زاده بود. این نوزاد به شدت بدحال، کاملاً هیدروپیک بود و تابلوی بالینی آسیت را نشان می‌داد و پنج دقیقه پس از تولد فوت شد. این هیدروپس، ثانویه به ناسازگاری گروه خونی ABO (گروه خونی مادر، O مثبت و نوزاد، B مثبت) بود.

معرفی بیمار

مطالعه حاضر یک مورد هیدروپس فتالیس با منشأ غیرایمنی را گزارش می‌کند که در حین زایمان تشخیص داده شد. مادر بارداری در مورخه ۹۴/۱۲/۱۵ با شکایت دردهای زایمانی و پارگی کیسه آب به یکی از مراکز تسهیلات زایمانی شهرستان زابل مراجعه کرد و پذیرش شد. مادر ۲۲ ساله، ایرانی، خانه دار، گراوید ۱، پارا صفر و بدون سابقه سقط بود. سن حاملگی وی بر اساس اولین روز آخرین قاعدگی، ۲۹ هفته و ۲ روز و بر اساس سونوگرافی ۳۰ هفته بود. دفترچه مراقبتی مادر نشان می‌داد که وی در طی بارداری، مراقبت‌های معمول پره ناتال را دریافت کرده بود. آزمایشات دوران بارداری وی نیز طبیعی بودند. در شرح حال مادر مصرف سیگار، مواد مخدر یا الکل، بیماری‌های زمینه‌ای مانند دیابت، هیپرتانسیون، تیروئید، بیماری‌های قلبی-ریوی-کلیوی، عفونت؛ مصرف دارو غیر از داروهای روتین بارداری (آهن و مکمل‌های ویتامینی) وجود نداشت. مادر با همسر نسبت خویشاوندی داشت و آزمایشات سرولوژیک پره‌ناتال از نظر سیفیلیس، ایدز، هپاتیت B و سرخچه منفی بودند. گروه خونی مادر O مثبت بود. تاریخچه فامیلی مادر، سابقه‌ای از تالاسمی را در عمه وی نشان می‌داد و تعدادی از عمه زاده‌های او نیز کر و لال بودند. در ضمن مادر در منزل از حیوانات خانگی (سگ و گربه) نگهداری می‌کرد.

طبق تنها سونوگرافی که مادر به همراه داشت و در آن سن حاملگی وی ۱۶ هفته و ۵ روز گزارش شده بود، هیچ مورد غیرطبیعی وجود نداشت و ضربان قلب جنین و میزان مایع آمنیوتیک، نرمال گزارش شده بودند. از آنجا که نتایج معاینه واژینال مادر، قریب الوقوع بودن زمان زایمان را نشان می‌داد (دیلاتاسیون: ۱۰ cm، افسمان: ۱۰۰٪، جایگاه: ۳+ و پرناتاسیون: سفالیک) لذا مادر، به اتاق زایمان هدایت و زایمان وی انجام شد. حاصل این زایمان طبیعی، نوزاد دختری بود که دیسترس تنفسی شدید داشت، کاملاً هیدروپیک بود و تابلوی بالینی آسیت را نشان می‌داد (تصویر ۱). با اینکه اقدامات احیا بلافاصله برای نوزاد شروع شد، باینحال مؤثر واقع نشد و نوزاد پنج دقیقه پس از تولد فوت گردید. وزن بدو تولد این نوزاد پره‌ترم، ۲۲۰۰ گرم بود.

بحث

هدف از این مقاله، معرفی یک مورد نادر است که تاکنون در این منطقه گزارش نشده است. این معرفی، شامل یک مورد هیدروپس فتالیس با منشأ غیرایمنی و ثانویه به ناسازگاری ABO است که در طی زایمان تشخیص داده شد. ناسازگاری ABO عمدتاً در مادرانی اتفاق می‌افتد که گروه خونی O دارند زیرا تحت این شرایط، آنتی‌بادی‌های مادری که بیشتر از نوع IgG هستند براحثی از جفت عبور کرده و می‌توانند موجب همولیز در جنین شوند. این ناسازگاری، در مادرانی که گروه خونی A یا B دارند اتفاق نمی‌افتد زیرا آنتی‌بادی‌های این گروه‌های

تا بتوان آنمی شدید را اصلاح نمود. آماده کردن سورفاکتانت (در صورتیکه نوزاد پره‌ترم باشد) و آمادگی برای احیا (۱۳).

نتیجه‌گیری

تولد این نوزاد نشان داد که ناسازگاری ABO، همواره شرایط خوش‌خیمی نیست و بیماری همولیتیک نوزادی در نوزادان بدنیا آمده از مادران با گروه خونی O می‌تواند به قدری شدید باشد که منجر به مرگ نوزاد شود.

سپاسگزاری

بدینوسیله از خانواده محترم این نوزاد که اجازه انجام این گزارش را دادند و نیز از عامل محترم زایمان که در مرکز تسهیلات زایمانی بدون دسترسی به پزشک متخصص، به تنهایی این زایمان طبیعی را انجام داده‌اند و همچنین کلیه بزرگوارانی که در تدوین این مقاله همکاری نموده‌اند، صمیمانه تشکر و قدردانی می‌شود.

References

1. Machin GA. Hydrops revisited: literature review of 1,414 cases published in the 1980s. *Am J Med Genet.* 1989;34(3):366-90. DOI: 10.1002/ajmg.1320340313 PMID: 2688420
2. Gilbert-Barness E. Hydrops, cystic hygroma, hydrothorax, pericardial effusion and fetal ascites. *Potter's pathology of the fetus and infant.* St-Louis: Mosby; 1997.
3. Ikeda Y, Dalton JC, Moseley ML, Gardner KL, Bird TD, Ashizawa T, et al. Spinocerebellar ataxia type 8: molecular genetic comparisons and haplotype analysis of 37 families with ataxia. *Am J Hum Genet.* 2004;75(1):3-16. DOI: 10.1086/422014 PMID: 15152344
4. Sampath V, Narendran V, Donovan EF, Stanek J, Schleiss MR. Nonimmune hydrops fetalis and fulminant fatal disease due to congenital cytomegalovirus infection in a premature infant. *J Perinatol.* 2005;25(9):608-11. DOI: 10.1038/sj.jp.7211357 PMID: 16123790
5. Desilets V, Audibert F, Society of O, Gynaecologists of C. Investigation and management of non-immune fetal hydrops. *J Obstet Gynaecol Can.* 2013;35(10):923-38. PMID: 24165062
6. Amini A, Fekrat M, Voshmgir M. Hydrops Fetalis: Report Of The Two-Living Neonates. *Razi J Med Sci.* 2001;8(24):121-6.
7. Ferreira CR, Sibire V, Schultz R, de Melo AM, Ibidi SM, Torre JD. Congenital generalized lymphangiectasia: a rare developmental disorder for non-immune fetal hydrops. *Autops Case Rep.*

رضایت مادر، بررسی بیشتر سایر تظاهرات بالینی نوزاد محقق نشد که این خود یکی دیگر از محدودیت‌های پژوهش بود. بیماری همولیتیک ABO علاوه بر ناسازگاری خونی، ممکن است ثانویه به عللی نظیر اختلالات آنزیمی گلبول‌های قرمز (کمبود G6PD، کمبود پیرووات کیناز)؛ اختلالات سنتز هموگلوبین (آلفا- تالاسمی)؛ همانژیوما؛ بیماری‌های اکتسابی مانند سپسیس؛ عفونت‌هایی نظیر TORCH یا پاروویروس B19 باشد (۱۱، ۱۲).

در مطالعه ما، علل ارثی مانند کمبود G6PD، و آلفا- تالاسمی کنار گذاشته شدند. آزمایشات غربالگری عفونت‌هایی نظیر سیفلیس، توکسوپلاسموز و سرخچه نیز منفی بودند و علت خاص دیگری که بتواند منجر به همولیز شود، شناسایی نشد. توصیه می‌شود که جهت اداره اینگونه زایمان‌ها، شرایط ذیل وجود داشته باشد: در دسترس بودن گروه خونی O منفی، پک سل و کراس میج خون مادر. آماده داشتن خون در اتاق زایمان در مواردی که بیماری همولیتیک نوزاد شدید است

- 2015;5(4):27-33. DOI: 10.4322/acr.2015.027 PMID: 26894043
8. Drabik-Clary K, Reddy VV, Benjamin WH, Boctor FN. Severe hemolytic disease of the newborn in a group B African-American infant delivered by a group O mother. *Ann Clin Lab Sci.* 2006;36(2):205-7. PMID: 16682519
9. Ali MK, Abdelbadee AY, Shazly SA, Othman ER. Hydrops fetalis with cystic hygroma: A case report. *Mid East Fertil Soc J.* 2012;17(2):134-5. DOI: 10.1016/j.mefs.2012.01.001
10. Nandyal R, Moorthy G. A Rare Association of Non-Compaction of the Ventricular Myocardium, and Non-Immune Hydrops Fetalis. *J Okla State Med Assoc.* 2016;109(4-5):146-50. PMID: 27328555
11. Bellini C, Donarini G, Paladini D, Calevo MG, Bellini T, Ramenghi LA, et al. Etiology of non-immune hydrops fetalis: An update. *Am J Med Genet A.* 2015;167A(5):1082-8. DOI: 10.1002/ajmg.a.36988 PMID: 25712632
12. Welcker S, Heckmann M. Non-immune Hydrops fetalis due to Parvovirus B19 Infection in 2 Extremely Preterm Infants: Perinatal Management and Long-term Neurodevelopmental Outcome. *Z Geburtshilfe Neonatol.* 2015;219(3):144-7. DOI: 10.1055/s-0034-1395538 PMID: 25830498
13. Negishi H, Yamada H, Okuyama K, Sagawa T, Makinoda S, Fujimoto S. Outcome of non-immune hydrops fetalis and a fetus with hydrothorax and/or ascites: with some trials of intrauterine treatment. *J Perinat Med.* 1997;25(1):71-7. PMID: 9085206