

Intrauterine heterotopic Heterotopic reimplantation Reimplantation of an amputated Amputated finger Finger due to the amniotic Amniotic band Band syndrome Syndrome

Farivar Lahiji, Arash Maleki, Hamidreza Abouali*

Department of Orthopedics, Faculty of Medicine, Akhtar Hospital, Shahid Beheshti University of Medical Sciences, Tehran, Iran

(Received: 2019/05/13

Accept:2019/06/3)

Abstract

Background: Amniotic band Band syndrome Syndrome (ABS) is a rare congenital anomaly which may affecting any region of the fetus. Here, we reported a case of ABS involving the upper limbs resulted in amputation, syndactyly, and lymphedema of several fingers. One of the the amputated finger was reimplanted on to the upper back of the fetus between two scapular bone. The finger-like mass had no osseous tissue.

Keywords: amniotic Amniotic band syndrome, ; amutationAmutation, heterotopic Heterotopic reimplantatio
nReimplantation,congenital Congenital anomaly

* Corresponding: Hamidreza Abouali
Email: habuali.pedorth@gmail.com

گزارش یک مورد Reimplatation نامناسب داخل رحمی یک انگشت قطع شده ناشی از amniotic band syndrome

فریور لاهیجی، آرش ملکی، حمیدرضا ابوعلی*

گروه ارتوپدی، دانشکده پزشکی، بیمارستان اختر، دانشگاه علوم پزشکی شهید بهشتی، تهران، ایران

تاریخ پذیرش مقاله: ۱۳۹۸/۰۳/۱۳

تاریخ دریافت مقاله: ۱۳۹۸/۰۲/۲۳

چکیده:

سابقه و هدف: Amniotic band syndrome (ABS) یک ناهنجاری مادرزادی نادر است که ممکن است هر ناحیه‌ای از بدن جنین را درگیر کند. در این مقاله ما به گزارش یک بیمار دچار ABS با درگیری در اندام فوقانی پرداختیم. ABS سبب آمپوتاسیون، syndactyly و lymphedema در انگشتان دست شده بود. یکی از انگشتان قطع شده دوباره در بخش فوقانی پشت جنین، بین دو اسکاپولا چسبیده بود. در این توده شبیه انگشت هیچ گونه بافت استخوانی وجود نداشت.

واژگان کلیدی: Amniotic band syndrome، قطع عضو، heterotopic reimplantation، آنومالی مادرزادی

مقدمه:

ABS (amniotic band syndrome) یا Constriction ring syndrome یک آنومالی مادرزادی با شیوع بین یک در هر ۱۲۰۰ تا ۱۵ هزار تولد زنده است (۱، ۲). در این آنومالی یک یا چند fibrous band با منشأ amniotic sac به صورت جری یا کلی به دور اندام‌ها حلقه می‌زنند و سبب می‌شود در بخش‌های دیستال به باند، تغییرهای دائمی مختلفی از جمله درگیری اعصاب و عروق، شکستگی، دفورمیتی و حتی آمپوتاسیون یا spontaneous abortion رخ دهد (۳، ۷). اگرچه ABS اندام‌ها را درگیر می‌کند اما گزارش‌هایی مبنی بر درگیری سر و تنه نیز وجود دارد (۴، ۸، ۹). تا کنون گزارش‌هایی در مورد درگیری اندام‌ها در ABS و روش درمان آن‌ها ارائه شده است (۵، ۶، ۱۰، ۱۱) اما تا کنون تنها یک گزارش در مورد چهار بیمار دچار آمپوتاسیون و سپس heterotopic reimplantation انگشتان دست به دلیل ABS منتشر شده است (۱۲). ما در این مقاله به گزارش یک بیمار دچار ABS با مشکلات متعدد در اندام فوقانی پرداختیم. یکی از انگشتان این بیمار، در دوران جنین به دلیل ABS قطع شده و سپس در بخش فوقانی پشت جنین متصل شده بود (heterotopic reimplantation).

گزارش مورد:

بیمار دختر ۹ ماهه‌ای بود که با شکایت از دفورمیتی‌های انگشتان هر دو دست و آمپوتاسیون مراجعه کرده بود. تمامی مراحل بارداری، زایمان و رشد و نمو نرمال بود و در زمان مراجعه قادر به نشستن بود. در معاینه توده‌ای شبیه انگشت بین دو استخوان



شکل ۱- محل قرارگیری توده انگشت مانند در ناحیه فوقانی پشت روی عضلات paraspinal در دست چپ، ABS سبب آمپوتاسیون داخل رحمی از ناحیه میانی بند پروگزیمال

نویسنده مسئول: حمیدرضا ابوعلی

پست الکترونیک: habuali.pedorth@gmail.com

انگشتان ۲ و ۳ همراه با syndactyly شده بود (شکل ۲). با توجه به وضعیت بیمار جدا کردن انگشتان کمکی به بهبود عملکرد دست نمی‌کرد.



شکل ۲- نمای رادیوگرافی دست چپ که نشان‌دهنده قطع انگشتان دوم و سوم همراه با syndactyly است.

در دست راست مشاهده شد که فقط در انگشت پنجم ring وجود نداشته است. ring شست فقط در ناحیه دورسال و به‌صورت ناکامل بود. انگشت اشاره از قاعده بند پروگزیمال دچار آمپوتاسیون داخل رحمی شده بود. رینگ انگشت سوم به‌صورت کامل و عمیق بود و منجر به lymphedema و کوتاهی شده بود. همچنین syndactyly بقایای انگشت دوم و سوم وجود داشت. رینگ انگشت چهارم نیز کامل و در ناحیه بند پروگزیمال بود و سبب lymphedema شده بود (شکل ۳).



شکل ۳- قطع انگشت اشاره و lymphedema انگشتان میانی و چهارم به‌دلیل ring کامل ABS که در تصاویر رادیوگرافی و عکس دست بیمار به خوبی مشهود است. دست راست بیمار در دو مرحله تحت بیهوشی عمومی جراحی شد. در مرحله اول syndactyly انگشتان اشاره و حلقه آزادسازی شد. همچنین رینگ partial انگشت شست و رینگ دورسال انگشتان سوم و چهارم برداشته و Z-plasty متعدد انجام شد. همزمان با مرحله اول، توده پستی از طریق انسزیون fish mouth برداشته و برای بررسی پاتولوژی فرستاده شد. پس از دو ماه از جراحی اول و کاهش lymphedema، مرحله دوم جراحی انجام شد. در این مرحله رینگ قدامی انگشتان سوم و چهارم برداشته و Z plasty انجام شد.

بیمار دو ماه پس از جراحی مرحله دوم دوباره ویزیت شد. در ویزیت نهایی lymphedema کاهش پیدا کرده بود و مشکلی از نظر التیام زخم‌ها وجود نداشت. به بیمار توصیه شد تا شش ماه دیگر، دوباره برای ویزیت مراجعه کند.

بررسی‌های هیستوپاتولوژیک نشان داد که توده پستی با ابعاد $2/5 \times 0/7 \times 0/5$ سانتی‌متر، یک skin tag حاوی بافت پوستی و چربی بوده است. همچنین neural

tissue در این توده انگشت مانند مشاهده نشد.

بحث:

ABS یک مشکل داخل رحمی نادر است که برای نخستین بار توسط Montgomery در سال ۱۸۳۲ شرح داده شد (۱۳). در ترمینالوژی پزشکی ABS برای توصیف گستره‌ای از آنومالی‌های مادرزادی از قبیل محدودیت حلقوی (annular constrictions) اندام‌های مختلف، oligodactyly، acrosyndactyly، talipes equinovarus، شکاف کام و لب و هماتریوما به کار می‌رود (۱۱). تا کنون نام‌های بسیار متعددی برای ABS پیشنهاد شده است که نشان‌دهنده ماهیت گیج‌کننده، اتیولوژی ناشناخته و اشکال مختلف بالینی این سندرم است (۱۴). Swanson این سندرم را به عنوان یک گروه مستقل در بین هفت گروه دفورمیتی‌های مادرزادی اندام‌ها قرار داده است (۱۵). یافته‌های بالینی ABS دامنه وسیعی از annular constrictions تا مشکلات بسیار شدید مانند از دست رفتن یکپارچگی (disruption) و پیچیدگی‌های (distorsion) ساختارهای سر و صورت و سقط داخل رحمی را شامل می‌شود (۱۶، ۱۷). گزارش شده است که ۷۷ درصد بیماران دچار آنومالی‌های متعدد ناشی از ABS هستند (۱۸). اگرچه عوارض ناشی از ABS را می‌توان پس از تولد جنین مشاهده کرد اما خود ring‌هایی که سبب بروز این مشکلات شده‌اند، وجود ندارند (۱۹).

اگرچه اتیولوژی ABS ناشناخته مانده (۱۶)، اما دو تئوری اصلی در مورد شکل‌گیری این باندها مطرح شده است. بر اساس تئوری intrinsic یا تئوری شکست نمو (failure of development) به نظر می‌رسد که ring‌های محدود کننده از نقایص germplasm ناشی می‌شوند (۹). تئوری extrinsic یا تئوری amniotic band توضیح می‌دهد که این باندهای غیرکشسان ممکن است از پارگی ناقص ساک آمنیوتیک ناشی شوند و می‌توانند دور هر ناحیه‌ای از بدن یک حلقه تشکیل دهند (۹).

هیچ دو بیمار دچار ABS مشابه هم نیستند و یافته‌های بالینی بسیار مختلف و متنوع هستند (۱۰). در حال حاضر درمان پذیرفته شده عبارت است از جراحی مرحله‌ای برای آزادسازی و درمان آنومالی‌های ناشی از ABS مانند syndactyly (۲۰) که با نتایج قابل قبولی همراه است و آسیبی به ساختارهای عروقی وارد نمی‌کند (۱۱، ۲۱). در هر حال برخی محققان نیز انجام جراحی یک مرحله‌ای را توصیه کرده‌اند که با استفاده از Z-plasty آزادسازی ring انجام می‌شود (۳).

بیمار ما از نظر اتیولوژی، مشکلات ناشی از سندرم و درمان آن‌ها ویژگی جدیدی نداشت و مشابه سایر بیمارانی بود که در گزارش‌های قبلی معرفی شده‌اند. اما مهم‌ترین یافته و ویژگی جدید این بیمار وجود یک توده مشابه انگشت در ناحیه فوقانی پشت بین دو کتف بود. اگرچه شیوع ABS که می‌تواند سبب قطع عضو در بسیاری از موارد شود نسبتاً بالا به نظر می‌رسد (یک مورد در هر ۱۲۰۰ تا ۱۵ هزار تولد زنده)، اما heterotopic reimplantation انگشتان قطع شده بسیار بندرت دیده شده است.

تا کنون تنها یک گزارش شامل چهار بیمار هفت ماهه تا ۱۰ ساله با reimplantation انگشتان قطع شده ناشی از ABS ارائه شده است (۱۲). تنها در یکی از این بیماران، توده مشابه انگشت حاوی ناخن hypoplastic بود. این محققان توضیح دادند که ممکن است باند آمنیوتیک سبب تروماتیزه شدن نواحی دیستال به خود شود و این فرضیه را پیشنهاد کردند که تماس بین raw surface انگشت قطع شده و raw surface ناحیه‌ای از بدن می‌تواند سبب reimplantation انگشت روی آن ناحیه شود (۱۲). یکی دیگر از دلایل مطرح شده برای reimplantation به ویژگی‌های مایع آمنیوتیک مربوط می‌شود. در حال حاضر مشخص شده است که سلول‌های بنیادی که در مایع آمنیوتیک یافت می‌شوند این پتانسیل را دارند که سبب ترمیم قابل توجه زخم‌ها شوند (۲۲).

یکی دیگر از یافته‌های جالب بیمار ما و سه مورد از چهار بیماری که Tiwari و همکارانش گزارش کردند (۱۲) این بود که هیچ بافت استخوانی یا عصبی در توده‌های انگشت مانند یافت نشد که می‌تواند در تخمین سن جنین در زمان آمپوتاسیون کمک کننده باشد.

به عنوان نتیجه‌گیری باید گفت که ABS ممکن است سبب آمپوتاسیون انگشتان و سپس heterotopic reimplantation آن‌ها شود. به دلیل اتیولوژی و مکانیسم ناشناخته ABS، ما نمی‌توانیم دلیل این پدیده را توضیح دهیم و به مطالعه‌های بیشتری نیاز است.

منابع:

1. Higginbottom MC, Jones KL, Hall BD, Smith DW. The amniotic band disruption complex: Timing of amniotic rupture and variable spectra of consequent defects. *J Pediatr* 1979;95(4):544-549.
2. Burton DJ, Filly RA. Sonographic Diagnosis of the Amniotic Band Syndrome. *AJR* 1991;156(3):555-558.
3. Prasetyono TO, Sitorus AS. A review on the safety of one-stage circumferential ring constriction release. *Int Surg* 2015;100(2):341-9.
4. Yilmaz E, Dogan Y, Taskin E, Aygun D. Amniotic band syndrome: congenital anular constrictions. *J Eur Acad Dermatol Venereol* 2003;17(2):229-30.
5. Ozkan K, Unay K, Goksan B, Akan K, Aydemir N, Ozkan NK. Congenital constriction ring syndrome with foot deformity: two case reports. *Cases J* 2009;2:6696.
6. Masmoudi K, Mtaoumi M, Bouattour K, Ben Ayeche ML. Neonatal leg fracture and constriction ring syndrome: A case report and literature review. *Orthop Traumatol Surg Res* 2016;102(7):955-958.
7. Shah KH, Shah H. A rare combination of amniotic constriction band with osteogenesis imperfecta. *BMJ Case Rep* 2015;2015. pii: bcr2015212400.
8. Mian DB, Nguessan KL, Aissi G, Boni S. Amniotic band syndrome (ABS): can something be done during pregnancy in African poor countries? Three cases and review of the literature. *Clin Exp Obstet Gynecol* 2014;41(2):226-32.
9. Siemers F, Wunsch L, Namdar T, von Wild T, Mailänder P. Complete circumferential congenital constriction of the trunk-operation procedures and results. *Ger Med Sci* 2011;9:Doc17.
10. Halder A. Amniotic band syndrome and/or limb body wall complex: split or lump. *Appl Clin Genet* 2010;3:7-15.
11. Hung NN. Congenital constriction ring in children: sine plasty combined with removal of fibrous groove and fasciotomy. *J Child Orthop* 2012;6(3):189-97.
12. Tiwari VK, Sarabahi S, Mulla Rani UK. Heterotopic implantation of amputated digits following constriction ring syndrome: a case series. *J Plast Reconstr Aesthet Surg* 2013;66(12):1815-7.
13. Montgomery WF. Observation on the spontaneous amputation of the limbs of the fetus in utero, with an attempt to explain the occasional cause of its production. *Dublin Med Chem Sci J* 1832;1(2):140-144.
14. Rayan GM. Amniotic constriction band. *J Hand Surg Am* 2002;27(6):1110-1.
15. Swanson AB. A classification for congenital limb malformations. *J Hand Surg Am* 1976;1(1):8-22.
16. Chatzigeorgiou K, Theodoridis T, Efstratiou I, Athanasiadis A, Zepiridis L, Tzevelekis F, et al. Strangulation of the umbilical cord by an amnion band - a rare cause of intrauterine demise: a case report. *Cases J* 2009;2:9108.
17. Muraskas JK, McDonnell JF, Chudik RJ, Salyer KE, Glynn L. Amniotic band syndrome with significant orofacial clefts and disruptions and distortions of craniofacial structures. *J Pediatr Surg* 2003;38(4):635-8.
18. Baker CJ, Rudolph AJ. Congenital ring constrictions and intrauterine amputations. *Am J Dis Child* 1971;121(5):393-400.
19. Kiehn M, Leshem D, Zuker R. Constriction rings: the missing link. *Eplasty* 2007;8:e4.
20. Bernal E, Oeltjen JC. Constriction ring syndrome. *J Craniofac Surg* 2009;20(4):1018-1020.
21. Oda T, Pushman AG, Chung KC. Treatment of common congenital hand conditions. *Plast Reconstr Surg* 2010;126(3):121e-33e.
22. Fukutake M, Ochiai D, Masuda H, Abe Y, Sato Y, Otani T, et al. Human amniotic fluid stem cells have a unique potential to accelerate cutaneous wound healing with reduced fibrotic scarring like a fetus. *Hum Cell* 2019;32(1):51-63.