



ARAŞTIRMA

F.Ü.Sağ.Bil.Tıp.Derg.
2021; 35 (2): 119 - 122
http://www.fusabil.org

Ünal BAKAL^{1, a}
Mehmet SARAÇ^{1, b}
Tugay TARTAR^{1, c}
İbrahim AKDENİZ^{1, d}
Ercan GENÇ^{1, e}
Ahmet KAZEZ^{1, f}

¹ Fırat Üniversitesi,
Tıp Fakültesi,
Çocuk Cerrahisi Anabilim
Dalı,
Elazığ, TÜRKİYE

^a ORCID: 0000-0002-5140-8618

^b ORCID: 0000-0002-6660-5243

^c ORCID: 0000-0002-7755-4736

^d ORCID: 0000-0001-5240-8882

^e ORCID: 0000-0003-2690-4553

^f ORCID: 0000-0003-0440-3555

Geliş Tarihi : 08.03.2021

Kabul Tarihi : 03.05.2021

Yazışma Adresi Correspondence

Ahmet KAZEZ
Fırat Üniversitesi,
Tıp Fakültesi,
Çocuk Cerrahisi Anabilim
Dalı,
Elazığ - TÜRKİYE

akazez@firat.edu.tr

Hipospadiaslı Olgularda Ek Anomaliler

Amaç: Bu çalışmada hipospadiaslı olgulara eşlik eden ek anomalilerin araştırılması amaçlanmıştır.

Gereç ve Yöntem: 1998–2019 yılları arasında hipospadias nedeniyle ameliyat edilen olgular üretral meanın lokalizasyonuna göre distal (glanüler, koronal ve subkoronal), penil (distal penil, midşaft ve proksimal penil) ve proksimal (penoskrotal, skrotal ve perineal) olarak üç gruba ayrılarak ek anomaliler açısından incelendi.

Bulgular: Toplam 316 hipospadiaslı olgunun 73'ünde (%23) ek anamoli mevcuttu. Hastaların ortalama yaşı 51 (min:1, max:192) aydı. Hastalarda %64 distal, %18 penil ve %18 proksimal hipospadias tanımlanmıştı. Mea lokalizasyonuna göre penoskrotal ve daha proksimal yerleşimli olgularda ek anomali sıklığı anlamlı oranda artmıştı (P=0.015). İnguinoskrotal bölge patolojileri distal (P=0.012) ve proksimal hipospadiaslı (P=0.015) olgularda anlamlı oranda yüksekti. Ek patolojilerden en fazla inguinoskrotal bölge patolojileri görüldü (P<0.001) ve özellikle proksimal hipospadiaslı (P=0.017) olgularında daha da anlamlıydı (P<0.001). Ek anomalili hastaların cerrahi yaşı (Median: 36 ay) anomalisi olmayan gruba (Median: 60 ay) göre anlamlı oranda düşüktü (P=0.04). Üriner sistem patolojileri ile diğer sistem anomalileri arasında sıklık ve mea lokalizasyonu açısından anlamlı farklılık yoktu.

Sonuç: Hipospadiaslı olgularda mutlaka ayrıntılı inguinoskrotal bölge muayenesi yapılmalıdır. Hipospadiaslı olguların tedavi ederken eşlik eden idrar yolları anomalilerini araştırmak için net bir endikasyon yoktur.

Anahtar Kelimeler: Hipospadias, ek anormallikler, inguinal patoloji, inmemiş testis, genitoüriner anomali

Additional Anomalies in Cases with Hypospadias

Objective: The aim of this study was to investigate additional anomalies in hypospadias.

Materials and Methods: Patients who were operated for hypospadias between 1998 and 2019 were divided into distal (glanular, coronal and subcoronal), penile (distal penile, midshaft and proximal penile) and proximal (penoscrotal, scrotal and perineal) groups according to the localization of urethral mea to elaborate on additional anomalies.

Results: Of the total 316 hypospadias cases, 73 (23%) had additional anomaly. The median age of the patients was 51 (min: 1, max: 192) months. 64% distal, 18% penile and 18% proximal hypospadias were defined in the patients. The incidence of additional anomalies has significantly increased in patients with penoscrotal and proximal mea (P=0.015). Inguinoscrotal pathologies were significantly higher in patients with distal (P=0.012) and proximal hypospadias (P=0.015). The most common additional anomalies were inguinoscrotal region pathologies (P<0.001) and it was more significant in patients with proximal hypospadias (P=0.017). The surgical age of patients with additional anomalies (Median: 36 months) was significantly lower than the group without anomaly (Median: 60 months) (P=0.04). There was no significant difference between urinary system pathologies and other system anomalies in terms of frequency and mea localization.

Conclusion: A detailed inguinoscrotal examination should be performed in patients with hypospadias. There is no clear indication for the presence of concomitant urinary tract anomalies in hypospadias.

Key Words: Hypospadias, additional anomaly, inguinal pathologies, undescended testis, genitourinary anomaly

Giriş

Erkek üretrasının ventral kapanma bozukluğu olan hipospadias, 1000 canlı erkek doğumunda 0.3-7 sıklıkla olup erkek dış genital organların en sık karşılaşılan konjenital anomalilerinden biridir (1). Genellikle izole anomali olan hipospadiasın en sık görülen tipleri glanüler ve penil yerleşimli olanlardır. Hipospadias olgularının %20'si skrotal ve perineal hipospadias türündedir. Bu tür proksimal hipospadiaslarda mikro fallus, kordi, bifid skrotum, penoskrotal transpozisyon, kasık fıtığı ve inmemiş testis, kuşku genitalya görünümü ve cinsiyet gelişim bozukluğu (CGB) daha sık görülmektedir (1).

Bu çalışmada hipospadiasa eşlik eden anomalileri araştırmak, sıklığı hakkında literatüre katkı sağlamak ve bu hastalarda ek ileri inceleme ve tetkik yapılmasının gerekliliğinin sorgulanması amaçlanmıştır.

Gereç ve Yöntem

Araştırma ve Yayın Etiği: Fırat Üniversitesi Tıp Fakültesi Girişimsel Olmayan Araştırmalar Etik Kurulu'dan onay alındı (Karar tarihi: 08.04.2021, karar no: 2021-/05-13).

Bu çalışmada 1998–2019 yılları arasında hipospadias nedeniyle ameliyat edilen olguların kayıtları retrospektif olarak incelendi. Hastalar üretral meanın lokalizasyonuna göre distal (glanüler, koronal ve subkoronal), penil (distal penil, midşaft ve proksimal penil) ve proksimal (penoskrotal, skrotal ve perineal) olarak üç gruba ayrılarak ek anomaliler açısından incelendi.

Çalışmadaki verilerin istatistiksel analizi IBM SPSS 22.0 programı ile yapılmıştır. Sürekli verilerde normal dağılıma uymayan değişkenlerin iki bağımsız grup arasındaki karşılaştırması Mann Whitney U Testi ile kategorik değişkenlerin karşılaştırılması ise Chi-Square Testi ile değerlendirildi. Normal dağılıma uymayan sürekli verilerin tanımlayıcı istatistikleri median (min-max) değerleri ile, kategorik değişkenlerin tanımlayıcı istatistikleri ise frekans (n) ve yüzde (%) ile sunuldu. Anlamlılık düzeyi 0.05 olarak kabul edildi.

Bulgular

Toplam 316 hipospadiaslı olgunun 73'ünde (%23) ek anomali mevcuttu. Hastaların ortanca yaşı 51 (min: 1, max:192) aydı. Hastalarda %64 distal, %18 penil ve %18 proksimal hipospadias tanımlanmıştı. Mea yerleşimi penoskrotal ve daha proksimal yerleşimli olgularda ek anomali sıklığı anlamlı oranda artmıştı (P= 0.015). Mea lokalizasyonuna göre eşlik eden ek anomalilerin sıklığı Tablo 1'de verilmiştir. İnguinoskrotal bölge patolojileri distal (P=0.012) ve proksimal hipospadiaslı (P=0.015) olgularda anlamlı oranda yüksekti. Ek patolojilerden en fazla inguinoskrotal bölge patolojileri görüldü (P<0.001) ve özellikle proksimal hipospadiaslı (P=0.017) olgularında daha da anlamlıydı (P<0.001). Mea lokalizasyonuna göre eşlik eden İnguinoskrotal bölge patolojileri sıklığı Tablo 2'de verilmiştir. Ek anomalisi olan hastaların cerrahi yaşı (Median: 36 ay) anomalisi olmayan gruba (Median: 60 ay) göre anlamlı oranda düşüktü (P=0.04). Kuşkulu genitalya proksimal hipospadiaslı olgularda anlamlı derecede daha fazla görüldü (P<0.001). Kuşkulu genitalyası olan 7 olguda; konjenital adrenal hiperplazi 4, gonadal disgenezi 2 ve Klinefelter sendromu bir olguda tespit edildi. Üriner sistem patolojileri ile diğer sistem anomalileri arasında sıklık ve mea lokalizasyonu açısından anlamlı farklılık yoktu. Mea lokalizasyonuna göre eşlik eden üriner sistem patolojileri sıklığı Tablo 3'de verilmiştir.

Tablo 1. Mea lokalizasyonuna göre eşlik eden ek anomalilerin sıklığı

Ek Anomali	Mea Lokalizasyonu								Toplam n: 316
	Glanüler n: 77	Koronal n: 60	Subkoronal n: 63	Mid penil n: 55	Proksimal penil n: 1	Penoskrotal n: 54	Skrotal n: 5	Perineal n: 1	
Inguinoskrotal Patolojiler	9	8	3	5	1	10	3	-	39
ÜGS	-	2	1	3	-	3	-	-	9
Kuşkulu Genitalya	-	-	1	1	-	3	1	1	7
KVS	-	2	2	-	-	1	1	-	6
GIS	-	1	-	1	-	3	-	-	5
SSS	-	-	2	1	-	-	-	-	3
Endokrin sistem	-	1	-	-	-	-	-	-	1
Umbilikal herni	1	1	-	-	-	-	-	-	2
Hematopoetik Sistem	-	-	1	-	-	-	-	-	1
Toplam	10	15	10	11	1	20	5	1	73

ÜGS: Ürogenital sistem, KVS: Kardiyovasküler sistem, GIS: Gastrointestinal sistem, SSS: Santral sinir sistemi.

Tablo 2. Mea lokalizasyonuna göre eşlik eden inguinoskrotal bölge patolojileri sıklığı.

İnguinoskrotal Patolojiler	Mea Lokalizasyonu								Toplam n: 316
	Glanüler n: 77	Koronal n: 60	Subkoronal n: 63	Mid penil n: 55	Proksimal penil n: 1	Penoskrotal n: 54	Skrotal n: 5	Perineal n: 1	
Sağ inguinal herni	4	2	1	2	-	3	1	-	13
Sol inguinal herni	-	1	-	-	-	-	-	-	1
Bilateral inguinal herni	2	-	-	1	1	-	1	-	5
Sağ inmemiş testis	1	1	1	1	-	-	-	-	4
Sol inmemiş testis	2	1	1	-	-	1	-	-	5
Bilateral inmemiş testis	-	1	-	-	-	5	-	1	7
Hidrosetel	-	2	-	1	-	1	-	-	4
Toplam	9	8	3	5	1	10	2	1	39

Tablo 3. Mea lokalizasyonuna göre eşlik eden üriner sistem patolojileri sıklığı

Üriner sistem Patolojileri	Mea Lokalizasyonu								
	Glanüler n: 77	Koronal n: 60	Subkoronal n: 63	Mid penil n: 55	Proksimal penil n: 1	Penoskrotal n: 54	Skrotal n: 5	Perineal n: 1	Toplam n: 316
Nefrolitiazis	-	1	-	-	-	1	-	-	2
Üreteropelvik bileşke darlığı	-	1	-	-	-	1	-	-	2
Veziqüüretoral reflü	-	-	-	1	-	-	-	-	1
Pelvikaliektazi	-	-	1	-	-	-	-	-	1
Renal agenezi	-	-	-	2	-	-	-	-	2
Mesane divertikülü	-	-	-	-	-	1	-	-	1
Toplam	-	2	1	3	-	3	-	-	9

Tartışma

Bu çalışma hipospadiaslı olgularda eşlik eden ek anomalilerin oranını belirlenmesi ve ek anomalilerin tetkik edilmesinin gerekliliğini ortaya koymasından önemlidir. Hipospadiasla birlikte; inmemiş testis, inguinal herni, kuşku genitalya ile kendini gösteren CGB akla gelmektedir. Hipospadiaslı olgularda kardiyovasküler anomaliler, idrar yollarının diğer anomalileri, gastrointestinal anomaliler ve nörolojik anomaliler de görülebilmektedir. Hipospadias ile birlikte görülen ek anomaliler Kennedy (2), Khuri ve ark. (3), Culp (4) ve Demirciler ve ark. (5) tarafından sırasıyla %32.9, %25.7, %21 ve %8.9 olarak rapor edilmiştir. Bu çalışmada sunulan 316 olguların seride ise oran, %23 olarak tespit edilmiştir. Literatür ile karşılaştırıldığında tespit edilen anomali oranının uyumlu olduğu görülmektedir. Ancak bu retrospektif çalışmada üst üriner sistem tetkiki tüm olgularda gerçekleştirilemediğinden, ürogenital sistemin fizik muayene bulgularıyla tespit edilebilen anomalileri değerlendirmeye katılmıştır.

Hipospadiaslı olgularda inmemiş testis görülme oranı proksimal hipospadiaslarda daha yüksek oranda olmak üzere %8-40 oranında rastlanmaktadır (6, 7). Hipospadiasla bir inmemiş testisin eşlik ettiği erkek dış genitalyasına sahip olguların %27'sinde CGB bulunmaktadır. Bu olgularda cinsiyet kromozomu anomali sıklığı %18 olarak bildirilmiştir (4).

Penoskrotal ve daha proksimal hipospadias olgularında veya kuşku genitalya görünümü olgularına inmemiş testis eşlik ediyorsa CGB sıklığı artarak %53 ve %100'e ulaşmaktadır (8, 9). Sunulan çalışmada kuşku genitalyaya sahip 7 olgunun 5'i penoskrotal ve daha proksimal olgudan oluşmaktaydı. Yine çalışmada bilateral inmemiş testisli 7 olgunun 6'sı penoskrotal ve daha proksimal hipospadias olgularında görüldüğü tespit edildi. Bu sonuçlar doğrultusunda proksimal hipospadiaslı ve bilateral inmemiş testisli olgularda CGB ihtimali nedeniyle ileri tetkiklerinin yapılmasının gerekliliği açıktır.

Hipospadiaslı olgularda inguinal herni görülme sıklığı %4.7 ve %15.7 oranlarında bildirilmiştir (6, 10). İnguinal herni saptanan hipospadiaslı olgularda herni onarımı yöntemi ve zamanlaması izole herni olgularındaki gibidir. Ailenin ve hekimin uygun olduğu ilk

zaman diliminde yapılmalıdır. Hipospadias onarımı ile birlikte yapılması için beklenmemelidir. Çalışmamızda hernili olguların oranı %5.7 ile literatür ile uyumlu olarak tespit edilmiştir. Herninin eşlik ettiği olgularda mea lokalizasyonu açısından dağılımda anlamlı bir farklılık olmadığı görülmüştür.

Hipospadiaslı olgularda eşlik edebilecek alt ve üst idrar yolları anomalilerini incelemek için üriner ultrasonografi (US), işeme sistüretrografisi (VCUG) ve Manyetik rezonans ürografi ve idrar tetkiki kullanılmaktadır. Bu incelemelerle böbrek anomalileri, hidronefroz ve veziqüüretoral reflü (VÜR) tanınmaktadır. Kapsamlı bir tarama çalışması sonuçlarına göre; hipospadiasla birlikte yukarıda sayılan idrar yolu anomalilerinin görülme sıklığı %0 ile %56 arasında değişmektedir (6, 11, 12). Demirciler ve ark. (5)'nin Türkiye'de yaptığı çalışmada bu oran sunulan çalışmada elde edilen %3 ile aynı olmuştur. Yapılan çalışmada toplam 9 olguda (%3) alt ve üst üriner sistem patolojisi saptanmıştır. Ancak bu hastalar üriner sisteme ait öncesinde anomali saptanan veya semptomları olan hastalardan oluşuyordu. Dolayısı ile üriner sisteme ait semptomları olmayan hastalara ileri inceleme yapılmamıştı. Bu bulgular doğrultusunda hipospadiasa eşlik eden anomalilerin toplumlara göre farklılık gösterebileceği söylenebilir. Gerasaro ve ark. (13)'ün çalışmasında üst üriner sistem tetkikleri ile inceledikleri 301 hipospadiaslı hastada bu sisteme ait ek anomali oranını %1.7 olarak rapor edilmiştir. Bu oran toplumda %2'den daha az görülen üst üriner sistem anomali sıklığının hipospadias ile birlikte artmadığı inancını doğurmuştur. Dolayısı ile ek semptom ve bulgusu olmayan hastalarda üriner sistem ile ilgili ileri tetkik yapılması için net bir kanıt yoktur.

Ek anomali olan hastaların cerrahi yaşı (Median: 36 ay) anomali olmayan gruba (Median: 60 ay) göre anlamlı oranda düşüktü (p=0.04). Bu farklılığın nedeni olarak, ilgili hasta grubunda ek anomalilere bağlı olarak ortaya çıkan ilave semptom ve bulgular nedeniyle izole olgulara göre hastaneye daha erken müracaatları ve dolayısı ile hipospadiasa yönelik cerrahiye erken yönlendirmenin etkisi olduğu düşünülmektedir.

Sonuç olarak; hipospadiaslı olgularda mutlaka ayrıntılı inguinokrotal bölge muayenesi yapılmalıdır. Proksimal hipospadiaslı ve bilateral inmemiş testisli

olgularda CGB ön tanısıyla ileri tetkik amacıyla radyoloji ve endokrinoloji incelemelerin yapılması gereklidir. Hipospadiaslı olguları tedavi ederken eşlik eden idrar

yolları anomalilerini arařtırmak için net bir endikasyon yoktur.

Kaynaklar

1. Utsch B, Albers N, Ludwig M. Genetic and molecular aspects of hypospadias. *Eur J Pediatr Surg* 2004; 14: 297-302.
2. Kennedy PA Jr. Hypospadias: A twenty year review of 489 cases. *J Urol* 1961; 85: 814-817.
3. Khuri F, Hardy BE, Churchill BM. Urologic anomalies associated with hypospadias. *Urol Clin North Am* 1981; 8: 565-571.
4. Culp OS. Struggles and triumphs with hypospadias and associated anomalies: Review of 400 cases. *J Urol* 1966; 96: 339.
5. Demirciler N, Latıfođlu O, Babuđu O, Yavuzer R, Atabay K. Hipospadias ile birlikte bulunan dođumsal anomaliler: 630 olgunun retrospektif analizi. *Turk J Plast Surg* 1996; 4: 96-100.
6. Ates U, Göllü G, Yaşam Tařtekin N, et al. Evaluation of additional anomalies in concomitance of hypospadias and undescended testes. *Turkish J Pediatr Dis* 2019; 4: 222-226.
7. Huang WY, Chen YF, Guo YJ, et al. Epidemiology of hypospadias and treatment trends in Taiwan: A nationwide study. *J Urol* 2011; 185:1449-1454.
8. Rajfer J, Walsh PC. The incidence of intersexuality in patients with hypospadias and cryptorchidism. *J Urol* 1976; 116: 769-770.
9. Rohatgi M, Menon PS, Verma IC, Iyengar JK. The presence of intersexuality in patients with advanced hypospadias and undescended gonads. *J Urol* 1987; 137: 263-267.
10. Kajbafzadeh AM, Sabetkish S, Mahboubi AM, Sabetkish N. Single incisional approach for reconstruction of hypospadias and concomitant inguinal hernia. *J Pediatr Urol* 2014; 10: 45-51.
11. Chariatte V, Ramseyer P, Cachat F. Uroradiological screening for upper and lower urinary tract anomalies in patients with hypospadias: A systematic literature review. *Evid Based Med* 2013; 18: 11-20.
12. Friedman T, Shalom A, Hoshen G, et al. Detection and incidence of anomalies associated with hypospadias. *Pediatr Nephrol* 2008; 23: 1809-1816.
13. Gerasaro TS, Brock WA, Kaplan GW. Upper urinary tract anomalies associated with congenital hypospadias: Is sereening necessary? *J Urol* 1986; 135: 537-538.