

Per quanto riguarda il nostro caso è indubbio che, nell'ambito della precedente classificazione, esso rientri in quelle forme varianti di pseudoermafroditismo e precisamente di ipospadia pseudovaginale. Volutamente si è trascurato in questa sede di considerare i problemi di natura psicologica che il caso presentava. Si trattava comunque di un soggetto geneticamente maschile in cui era presente una solida identità psicologica femminile con spinte di attrazione verso tale sesso. Non ci sentiamo comunque di affermare che sia stato l'errore di natura anagrafica a determinare il disordine psicologico della paziente, anche se questo non si può con certezza assoluta escludere.

RIASSUNTO

È riportato un caso di malformazione genitale associato a difetto di sviluppo delle vie urinarie di un solo lato.

BIBLIOGRAFIA

1. Morris J.M.: *Am. J. Obst. Gyn.*, 65, 1193, 1953. - 2. Gilbert-Dreyfus S., Sabaoun C.A.: *Ann. Endocrinol.*, 18, 93, 1957. - 3. Sorenson S.: *N.Y. State J. Med.*, 63, 2258, 1963. - 4. Muldal J., Ockey R.E.: *N.Y. State J. Med.*, 63, 1342, 1963. - 5. Campbell M.F., Harrison J.H.: *Trattato di Urologia*, SEU Ed., Roma 1972. - 6. Anders J.M.: *Am. J. Med. Sci.*, 139, 313, 1910 (cit. da 5). - 7. Anderson E.E., Harrison J.H.: *New. England J. Med.*, 273, 683, 1965. - 8. Berg O.C., Kearns W.M.: *J. Urol.*, 62, 275, 1949. - 9. Arnold D., Hawes C.J.: *J. Urol.*, 64, 435, 1950.

Su di un caso di fistola vescico-uterina secondaria a taglio cesareo ripetuto (rassegna sintetica e contributo clinico)

E. MICHELON, S. RUSSO, G. SERPOTTA

La maggior parte delle fistole vescico-uterine appartiene, nosograficamente, alle istmopatie complicate o secondarie.

Sono affezioni di rara osservazione ed i casi segnalati in letteratura non superano di molto la cinquantina. Bitker e Dimopoulos ⁽¹⁾ parlano di circa una trentina di casi, Saporiti ⁽²⁾ di un numero di poco superiore e Ljubovic ⁽³⁾ di soli 33 casi.

Come rilevano Tapparelli e Coll. ⁽⁴⁾, però, il numero esatto è difficile da stabilire per la dispersione degli articoli in una grande moltitudine di riviste di oste-

Divisione Ostetrica e Ginecologica, Ospedale Civile di Montebelluna (Primario: dott. E. Tapparelli).
Comunicazione alla Riunione della Società Triveneta di Ostetricia e Ginecologia - Montebelluna, 9 maggio 1976.

tricia, di urologia e di chirurgia e, in secondo luogo, perché alla base di detta patologia vi è spesso un errore di tecnica operatoria.

CAUSE

Fra le cause, la più frequente è il taglio cesareo sul segmento inferiore, specialmente se ripetuto; non mancano, però, lesioni da forcipe⁽⁵⁾, da introduzione di una sonda in vescica attraverso l'utero a scopo abortivo⁽⁶⁾, da compressione dell'istmo e della vescica tra parte presentata (testa) e sinfisi pubica in caso di travaglio di parto con periodo espulsivo abnormemente prolungato⁽⁷⁾, da presentazione di spalla⁽⁸⁾, da cause infiammatorie specifiche e non per raccolte ascessuali nello spazio vescico-uterino che si aprono in vescica ed in utero⁽⁹⁾ da necrosi secondaria a terapia attinica, da infiltrazione neoplastica da carcinomi primitivi del collo o del corpo dell'utero e della vescica.

Per quanto riguarda il meccanismo patogenetico delle fistole dopo taglio cesareo che, come abbiamo ricordato, ne costituisce la causa più comune, esso può conseguire a lesione della parete vescicale durante le manovre di scollamento della vescica dall'utero specie dopo taglio cesareo iterativo o eseguito dopo miomectomia o dopo isteropessi pelvica secondo Pestalozza⁽¹⁰⁾, o ad errore di tecnica durante la sutura della breccia uterina⁽⁴⁾ comprendendo nell'ago, assieme al muscolo uterino, anche la parete vescicale o determinando, con suture a punti troppo ravvicinati, una necrosi ischemica tessutale, che darà luogo ad una fistola secondaria tardiva.

SINTOMATOLOGIA

La sintomatologia è varia, potendosi osservare quadri clinici diversi. Sono state descritte fistole *a senso unico*, con ematuria ciclica e senza incontinenza d'urina, fistole cioè in cui il sangue mestruale si versa esclusivamente in vescica attraverso il tramite fistoloso, per cui si instaura una apparente amenorrea secondaria sostituita da una « menouria » (sindrome di Youssef).

Altre fistole sono invece *a doppio senso* con mestruo dalla vagina e contemporanea menouria associati o meno ad incontinenza d'urina.

Fra le due forme vi sono varietà intermedie con incontinenza iniziale d'urina che regredisce a poco a poco, mentre il flusso mestruale viene sostituito progressivamente dalla menouria⁽¹¹⁾, oppure con incontinenza d'urina, di diversa entità, solo diurna⁽¹²⁾, in rapporto forse alla posizione della paziente o che si manifesta solo durante la minzione per l'aumentata pressione endovescicale o ciclicamente⁽⁴⁾ in fase perimestruale probabilmente in dipendenza delle variazioni del tono miometrale nelle diverse fasi del ciclo.

Per spiegare la sindrome di Youssef sono state formulate varie ipotesi. Per alcuni AA.⁽¹³⁾ l'attività sfinterica dell'istmo uterino, confermata mediante isterografia manometrica da Palmer e Liesse⁽¹⁴⁾, si opporrebbe al passaggio di sangue mestruale attraverso il canale cervicale e di urina nell'utero.

Questa ipotesi potrebbe essere invocata soprattutto nelle donne cesarizzate senza alcun parto precedente per le vie naturali, nelle quali l'istmo si è mantenuto integro come nella nullipara, e nelle pazienti sottoposte a taglio cesareo iterativo o eseguito dopo miomectomia o dopo isteropessi pelvica secondo Pestalozza, con incisione isterotomica sopraistmica, per insufficiente scollamento vescicale a causa della presenza di tenaci aderenze.

Altri AA. ritengono, invece, che la mucosa vescicale formi una vera e propria valvola unidirezionale⁽¹⁵⁾ o che il tono uterino si opponga al passaggio nel senso vescica-utero⁽¹⁶⁾.

DIAGNOSI

La diagnosi può essere sospettata in base all'anamnesi, alla menouria periodica associata o meno ad un mestruo per via vaginale, all'incontinenza di urina che può essere anche di lievissima entità e solo ciclica. Essa va confermata con l'isterografia e la cistoscopia. La prima evidenzierà l'esatta localizzazione e i caratteri del tramite fistoloso, con il passaggio in vescica del mezzo di contrasto. La cistoscopia potrà rivelare gli orifizi fistolosi e, se eseguita in periodo mestruale, la fuoriuscita di sangue da essi. Essa, poi, è necessaria per escludere una endometriosi vescicale, possibile causa di menouria.

Se esiste incontinenza d'urina, una soluzione colorata con indacocarminio o bleu di metilene, introdotta in vescica, uscirà attraverso l'orifizio uterino esterno.

L'urografia e la cistografia sono in genere nei limiti della norma per cui non sono di aiuto per porre la diagnosi.

EVOLUZIONE

Se non esiste incontinenza d'urina l'affezione, di solito, è ben tollerata tanto che alcune pazienti rifiutano l'intervento in attesa della menopausa. La maggior parte degli AA. non segnala complicazioni. È da citare, però, l'osservazione di Nourse e Wishard⁽¹⁷⁾ riguardante una donna di 30 anni affetta da fistola vescico-uterina e nella quale in una successiva gravidanza la testa del feto si impegnò in vescica tanto che i capelli sporgevano dall'uretra. Questa osservazione dovrebbe indurci alla riparazione di ogni fistola vescico-uterina in pazienti in età fertile e prima di una ulteriore gravidanza.

TERAPIA

La terapia è chirurgica ed è diretta alla soppressione del tramite fistoloso. In ogni caso, comunque, è bene attendere 3-6 mesi dalla sua insorgenza data la possibilità di una guarigione spontanea e perché nel frattempo si delimitino e si stabilizzino i tessuti vicini.

Per il passato alcuni AA.^(16,18) sono ricorsi alla causticazione endoscopica transuretrale, che fu presto abbandonata per l'elevato tasso di recidive e per il pericolo di un ampliamento dell'orifizio vescicale del tramite fistoloso. Anche in caso di guarigione clinica, inoltre,⁽¹⁹⁾ si corre il rischio di esporre la paziente ad una rottura uterina o vescicale in caso di gravidanza.

Per questi motivi si ricorre attualmente all'intervento chirurgico, che potrà essere eseguito per via vaginale, solo in caso di fistola vescico-cervico-vaginale, o per via addominale transperitoneale od extraperitoneale. La via più seguita è di gran lunga la transperitoneale con apertura della plica vescicouterina e scollamento dei due organi fino a dominare la fistola. Essa sembra la meno indaginosa e la più razionale in quanto offre un campo operatorio assai più ampio delle altre due e quindi una maggiore esattezza dell'intervento.

Alcuni AA.^(3,20) hanno pure seguito la via transvescicale.

Si potrà eseguire contemporaneamente la legatura delle tube, qualora la paziente

non desideri altre gravidanze, o l'isterectomia in casi di fistole molto ampie, di concomitante patologia uterina e nelle donne prossime alla menopausa.

OSSERVAZIONE PERSONALE

V.L., di anni 27. Normoconformata, in buone condizioni generali. Nulla da rilevare nell'anamnesi patologica remota, tranne una appendicectomia a 8 anni.

Alla fine della 1^a gravidanza, il 31-VIII-1972, viene sottoposta a taglio cesareo trasversale sul segmento inferiore, per rottura prematura delle membrane e inerzia uterina primitiva. Dimessa guarita in 13^a giornata, dopo un decorso operatorio normale, apirettico.

Il 15-III-1975, secondo taglio cesareo sul segmento inferiore, per discinesia cervico-segmentaria e sofferenza fetale, in gravidanza a termine. Durante l'intervento, è stata praticata lisi delle aderenze fra anse intestinali e vescica. Dimessa guarita in 12^a giornata.

La paziente riferisce che né dopo il primo, né dopo il secondo cesareo fu applicato catetere vescicale a dimora, né accusò disturbi della minzione.

Dopo 4 mesi dal secondo cesareo la paziente, ancora amenorrea, notò la comparsa di ematuria massiva della durata di 5 giorni, e accompagnata da modesti dolori alla regione ipogastrica. Non disuria, né stranguria, né incontinenza d'urina, ma solamente lieve pollachiuria. Non perdite ematiche dalla vagina.

A distanza di 26 giorni da questo episodio comparve una mestruazione scarsa, della durata di 4 giorni, accompagnata, per lo stesso periodo di tempo, da ematuria. Questi mestruai, associati ad urine ematiche, si ripresentarono, ciclicamente, nei mesi successivi, a distanza di 28-30 giorni l'uno dall'altro con gli stessi caratteri.

La paziente fu ricoverata due volte in reparto medico per cistite emorragica e una volta in reparto chirurgico per ematuria massiva da cistite da corpo estraneo (punti di sutura in seta sulla parete vescicale posteriore da pregresso cesareo), infine nel nostro reparto.

E.O.G.: buone le condizioni generali. Nulla da rilevare a carico dei vari organi ed apparati. In particolare le regioni lombari sono simmetriche e ben conformate, i punti pielici e ureterali (superiore, medio ed inferiore) non sono dolenti, i reni non si palpano e la manovra di Giordano risulta negativa bilateralmente.

Visita ginecologica: genitali esterni e collo uterino da nullipara; corpo uterino poco più grosso della norma, in asse, mobile, non dolente alla pressione. Annessi regolari.

Nella norma i comuni esami del sangue. Nell'esame delle urine eseguito in 12^a giornata del ciclo si repertano, nel sedimento, discreto numero di leucociti e rare emazie; in quello eseguito in 18^a giornata, il giorno dopo l'isterografia, si rinvennero alcuni leucociti e numerosi eritrociti.

Urografia: reperto normale. La fase cistografica non ha evidenziato tramite fistolosi vescico-uterini.

Isterografia: cavità uterina di grandezza normale. Durante il riempimento, dalla parte anteriore del collo, si evidenziano numerosi tramite fistolosi, alcuni dei quali in comunicazione con la vescica, che viene parzialmente riempita con il mezzo di contrasto (Fig. 1).

Cistoscopia: introduzione del cistoscopio non dolorosa. Capacità vescicale 250 ml. Mucosa del trigono iperemica, meati ureterali normali. Nel pavimento vescicale, a circa 3 cm dal legamento interureterico, si notano 3 orifizi, di cui il



FIG. 1 - Alla isterografia il mezzo di contrasto opacizza la cavità uterina e, contemporaneamente, penetra in vescica attraverso i tramiti fistolosi.



FIG. 2 - Si mettono in evidenza tre orifici fistolosi vescicali di cui il più ampio è attraversato dalla Klemmer.

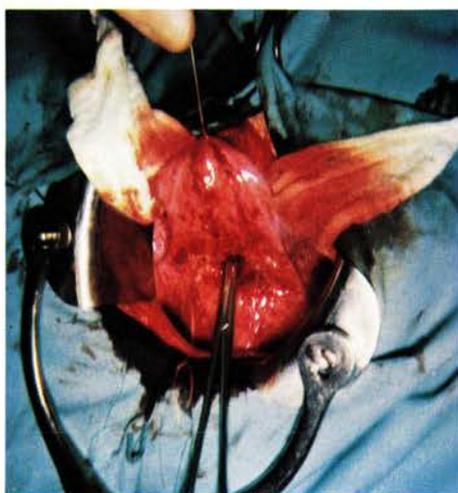


FIG. 3 - La pinza di Klemmer penetra attraverso l'orificio uterino del tramite fistoloso.

laterale sinistro del diametro di circa mezzo cm, ricoperti in parte da fibrina.

La vescica viene poi riempita con una soluzione di indacocarminio, ma questa non compare in vagina attraverso il canale cervicale nemmeno invitando la paziente a mingere.

Confermata così l'esistenza di fistole vescico-uterine multiple, la paziente viene sottoposta ad intervento chirurgico il 12-XII-1975.

Intervento: escissione della cicatrice ombelico-pubica da pregressi tagli cesarei. Lisi delle aderenze fra omento e peritoneo parietale. L'utero è di volume normale, l'annesso di sinistra è sano, l'ovaio destro presenta micropolicistosi. La vescica risulta stirata molto in alto, fino a ricoprire quasi completamente la parete anteriore dell'utero. A livello dell'istmo la vescica è saldata all'utero da un piastrone cicatriziale che viene sezionato separando così i due organi ed evidenziando a carico della parete uterina una soluzione di continuo del diametro di 1 cm e 3



FIG. 4 - Isterografia di controllo che conferma il buon risultato dell'intervento.

orifizi fistolosi a carico della parete vescicale posteriore (Fig. 2). Una klemmer introdotta nella breccia uterina (Fig. 3) fuoriesce senza difficoltà attraverso l'orificio uterino esterno. Si recentano i tessuti vescicali e uterini e si esegue la plastica della parete vescicale in due strati con catgut cromico n. 0, comprendendo la sola muscolare, e la sutura della breccia uterina con catgut cromico n. 1 al di sopra di una sonda di Hegar n. 6 per evitare la stenosi, sonda che viene subito rimossa per via vaginale. Si interpone tra le due suture un lembo di omento. Chiusura della parete a strati. Catetere di Foley a permanenza.

Il decorso post-operatorio fu regolare, afebrile.

La prima mestruazione comparve in 12^a giornata dall'intervento, senza ematuria

e senza dolori e così le successive. Il catetere fu tolto in 16^a giornata e la paziente dimessa in 18^a.

Abbiamo eseguito una cistoscopia e una isterografia di controllo (Fig. 4), dopo 4 mesi dall'intervento, che confermano la guarigione clinica ed anatomica delle fistole.

CONCLUSIONI

Nel caso venuto alla nostra osservazione, la sintomatologia iniziata con una tipica sindrome di Youssef (²¹) (menouria periodica, amenorrea secondaria apparente, perfetta continenza urinaria) si è sostituita nei cicli successivi con menouria associata a mestruì per via vaginale. Mai è comparsa incontinenza di urina.

Essendo la lesione a livello dell'istmo e venendo perciò a mancare la funzione sfinterica di esso, la continenza urinaria potrebbe essere spiegata da una sorta di valvola vescicale unidirezionale.

Dal lato etiologico, la fistola da noi osservata è sicuramente conseguente ad un taglio cesareo. Questa è, del resto, la causa più frequente delle fistole vescico-uterine. Poiché le indicazioni al taglio cesareo attualmente vanno chiaramente aumentando, ne scaturisce la necessità di una tecnica scrupolosa nell'esecuzione anche di questo intervento.

RIASSUNTO

Gli AA. descrivono un caso di fistola vescico-uterina post-cesareo venuto alla loro osservazione, soffermandosi sulla etiopatogenesi, sintomatologia e possibilità di riparazione chirurgica di detta fistola.

BIBLIOGRAFIA

1. Bitker M., Dimopoulos C.: *J. Urol.*, 70, 915, 1964. - 2. Saporiti E.: *Chir. Urol.*, 9, 375, 1967. - 3. Ljubovic E.: *Z. f. Urol.*, 63, 669, 1970. - 4. Tapparelli E., Toffol A.: *Atti Soc. Med. Bolzano*, 16, 53, 1967. - 5. Fornero A.: *Arch. It. Urol.*, 14, 78, 1937. - 6. Burr G.C.: *J. Urol.*, 41, 906, 1939. - 7. Simeoni C.M., Piana L., Bossi G.: *Bull. Gyn. Obst.*, 2, 156, 1968. - 8. Clemente D.: *Il Policlinico (Sez. Prat.)*, 38, 113, 1931. - 9. Frasson U.: *Urol.*, 8, 54, 1941. - 10. Ragucci N.: *Trattato Italiano di Ostetricia e Ginecologia*, Vol. III, Ed. PEM, Roma. - 11. Rangoni A.G.: *Min. Gin.*, 20, 82, 1968. - 12. Lision J., Combret C., Gomez A.: *J. Urol.*, 73, 159, 1967. - 13. Fuchs H., Westman A.: *Acta Physiol. Scand.*, 10, 350, 1945. - 14. Palmer R., Liesse A.: *C. R. Soc. Biol.*, 140, 284, 1946. - 15. Laffont A., Ezes H.: *Gyn. Obst.*, 46, 248, 1947. - 16. Musset R., Mazingarbe A.: *Presse Méd.*, 58, 763, 1950. - 17. Nourse M.H., Wishard W.N.: *J. Urol.*, 72, 374, 1954. - 18. Moonen W.A.: *J. Urol.*, 61, 515, 1955. - 19. Gula G., Badalà S., Ricciardi N.: *Clin. Gin.*, 3, 164, 1969. - 20. Willson-Pepper J.K.: *Brit. J. Urol.*, 37, 433, 1965. - 21. Youssef A.F.: *Am. J. Obst. Gyn.*, 72, 759, 1957.