

ARTIKEL PENELITIAN

Laporan Kasus *Ureterocele* dengan *Double Collecting* Sistem Bilateral**Suci Syamsiah Ramdhini, Freedy LP Tambunan, Ristaniah D Soetikno**Divisi Radiologi Anak Departemen Radiologi, Fakultas Kedokteran
Universitas Padjadjaran/RSUP Dr. Hasan Sadikin Bandung**Abstrak**

Ureterocele adalah kelainan kongenital pada ureter terminal. *Ureterocele* berupa massa kistik yang berdilatasi pada segmen ureter intravesikal dapat berkaitan baik dengan ureter tunggal maupun dupleks. Kelainan kongenital berupa obstruksi pada meatus dan timbulnya *ureterocele* merupakan efek hiperplasia akibat obstruksi ini. Ureter dupleks dapat terjadi pada 75% pasien *ureterocele*, sementara *single* ureter hanya 20%. Insidensi *ureterocele* sebesar 1:4.000 anak dan 4-7 kali lebih sering pada perempuan. Kami melaporkan kasus seorang bayi perempuan berusia lima bulan yang dibawa ke Rumah Sakit Hasan Sadikin tanggal 27 Maret 2019 dengan keluhan utama massa yang tampak menonjol dan hilang timbul pada lubang tempat keluar urine disertai nyeri dan mengedan saat buang air kecil dan demam dalam waktu satu bulan terakhir. Pasien merupakan anak pertama, lahir dari ibu P1A0 riwayat kehamilan cukup bulan. Pada pemeriksaan fisis genitalia eksterna, tampak benjolan berwarna putih dan lunak yang hilang timbul di daerah meatus uretra eksterna. Hasil pemeriksaan BNO-IVP, USG dan CT urologi tampak duplikasi sistem pelvokalises ginjal bilateral dan gambaran berbentuk kantung di daerah vesika urinaria menyokong *ureterocele*. Berdasar atas hasil anamnesis, pemeriksaan fisis dan pemeriksaan penunjang, pasien didiagnosis *ureterocele* dekstra, *double collecting system bilateral*, infeksi saluran kemih komplikata, dan bakteremia. Penatalaksanaan berupa pembedahan eksisi *ureterocele* dekstra dan reimplantasi ureter. Pencitraan radiologi memiliki peranan penting dalam menegakkan diagnosis *ureterocele* secara dini untuk menghindari komplikasi dan morbiditas, serta menentukan penatalaksanaan yang tepat.

Kata kunci: BNO IVP, CT scan urologi, *double collecting system*, *ureterocele*, USG**Ureterocele with Bilateral Double Collecting System : A Case Report****Abstract**

Ureterocele is a congenital abnormality in the terminal ureter. Ureterocele is dilated cystic mass in the intravesical ureteral segment may be associated with a single or duplex system. Duplex ureters occur in 75% of ureterocele patients, while single ureters are only 20%. The incidence of ureterocele is 1: 4,000 children and 4-7 times more common in girls than boys. We are reporting a five month female infant with an intermittent protruding mass from urethra, accompanied by dysuria and fever in the past one month at Hasan Sadikin General Hospital, 2019 March, 27. The baby was the first child, born by P1A0 mother with a history of term pregnancy. External genitalia examination showed protruding soft white lump in the external urethral meatus. The results of BNO-IVP, ultrasound and CT urology revealed duplications of the bilateral renal pelvocalises system and the appearance of sacs inside bladder suggesting an ureterocele. Based on history, physical and medical examination, the patient was diagnosed as right ureterocele, bilateral double collecting system, complicated urinary tract infection and bacteremia, the management was surgical excision of the right uroterocele and ureter reimplantation. Radiological imaging has a important role in obtaining an early diagnosis of ureterocele, to avoid complications and morbidity and determine an appropriate management.

Keywords: BNO IVP, double collecting system, ureterocele, urology CT-scan, USG

Received: 7 June 2020; Revised: 17 July 2020; Accepted: 30 July 2020; Published: 31 July 2020

Koresponden: Suci Syamsiah Ramdhini. Residen Radiologi, Departemen Radiologi Universitas Padjadjaran/RSUP. Dr. Hasan Sadikin Bandung. Jl Pasteur no 38 Bandung. Tel: 2034953 Pes.213 HP: 08121477890 Email: suchitz@yahoo.com

Pendahuluan

Ureterocele adalah kelainan kongenital pada ureter terminal. *Ureterocele single system* berhubungan dengan ginjal dan satu ureter, *ureterocele duplex system* berhubungan dengan duplikasi ureteral komplet pada *pole* atas ginjal.¹ Ureter dupleks dapat terjadi pada 75% pasien *ureterocele*, sementara *single* ureter hanya sebanyak 20%. Insidensi *ureterocele* sebesar 1:4.000 anak dan 4–7 kali lebih sering pada perempuan.^{2,3}

Klasifikasi *ureterocele* yang paling mudah dan sering digunakan adalah klasifikasi yang dikeluarkan oleh *Committee on Terminology of the Urologic Section of the American Academy of Paediatrics*, yakni dibagi menjadi intravesika dan ekstrasvesika. *Ureterocele* intravesika (disebut juga *orthotopic*) berada seluruhnya di dalam vesika urinaria dan dengan posisi di atas *bladder neck*, sedangkan *ureterocele* ekstrasvesika (disebut juga *ektopik*) sebagian berada di *bladder neck* atau uretra.²

Pemeriksaan penunjang sangat diperlukan untuk mengenali dan memastikan kelainan *ureterocele*. Ultrasonografi (USG) dan kedokteran nuklir kini memegang peranan penting, walaupun untuk melihat struktur anatomi IVU tetap memiliki kelebihan.⁴

Laporan Kasus

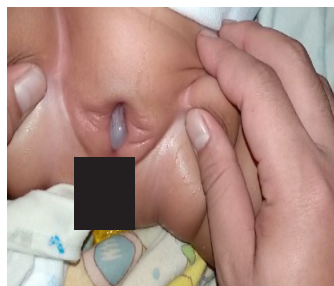
Seorang bayi perempuan berusia lima bulan dibawa ke Rumah Sakit Hasan Sadikin (RSHS) Bandung pada tanggal 27 Maret 2019 dengan keluhan utama massa yang tampak menonjol dan hilang timbul pada lubang tempat keluar urine, disertai nyeri dan mengedan saat buang air kecil, serta keluhan demam hilang timbul dalam waktu satu bulan terakhir. Perut tidak kembung, buang air besar dalam batas normal, sedangkan mual dan muntah disangkal.

Pasien merupakan anak pertama, lahir dari ibu P1A0 riwayat kehamilan cukup bulan, lahir secara *sectio caesaria* atas indikasi ketuban pecah dini dengan berat badan lahir 2.700 g, lahir langsung menangis. Ibu pasien pernah dua kali di USG di bidan saat hamil, namun hasil pemeriksaan saat itu tidak menunjukkan kelainan pada bayi.

Pada pemeriksaan fisis, keadaan umum komposmentis, tampak sakit sedang, nadi 120x per menit, respirasi 30x per menit, suhu: 39,1°C, SpO₂ 96%. Pada kepala, toraks, dan abdomen tidak tampak kelainan. Pada pemeriksaan genitalia eksterna tampak benjolan berwarna putih, lunak, berukuran 1x2 cm yang hilang timbul di daerah meatus uretra eksterna.

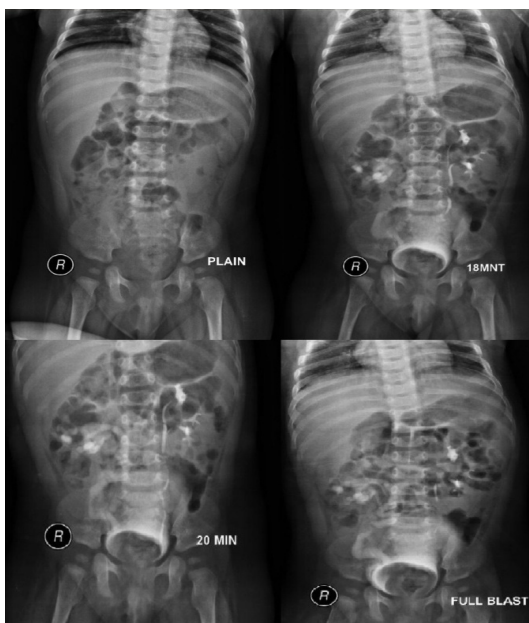
Hasil pemeriksaan laboratorium tanggal 23 Maret 2019 didapatkan Hb 11,3 g/dL hematokrit 31,8 g/dL, leukositosis 25.570 mm³, trombosit 672.000 mm³, ureum 46 mg/dL, kreatinin 0,63 mg/dL. Hasil analisis urine warna kuning, jernih, berat jenis 1,015, pH 7,0, nitrit (-), protein (+2), eritrosit (+2- +4), leukosit >50/LPB,

Pasien dirujuk ke RSHS untuk perawatan dan pemeriksaan penunjang berupa BNO-IVP, USG *kidney-ureter-bladder* (KUB), dan *CT-scan* urologi untuk penatalaksanaan lebih lanjut.



Gambar 1 Pemeriksaan Fisis di Daerah Genitalia Eksterna, Tampak Benjolan Berwarna Putih, Lunak, Berukuran 1x2 cm yang Hilang Timbul di Daerah Meatus Uretra Eksterna

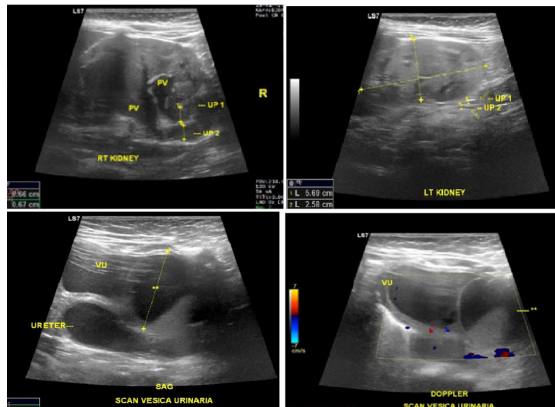
Hasil BNO-IVP tanggal 17 Maret 2019 adalah sebagai berikut: duplikasi sistem pelvokalis ginjal kanan dan *double* ureter kanan yang menyatu setinggi vertebra lumbal 4–5 disertai pelebaran ureter proksimal sampai distal kanan (menyokong gambaran *drooping lily sign* pada sistem pelvokalis ginjal kanan). duplikasi sistem pelvokalis ginjal kiri disertai *double* ureter kiri yang menyatu setinggi vertebra lumbal 4–5. Gambaran *filling defect* di daerah vesika urinaria mencurigai *ureterocele* kanan.



Gambar 2 Pemeriksaan BNO IVP Tanggal 17 Maret 2019 Terdapat Duplikasi Sistem Pelvokalis Ginjal Bilateral Disertai Gambaran *Filling Defect* Intralumen Vesika Urinaria Mencurigai *Ureterocele* Kanan

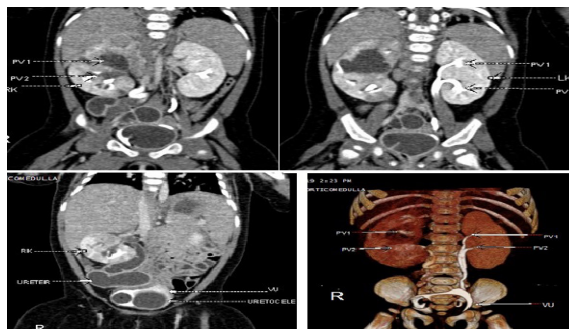
Pemeriksaan USG KUB pada tanggal 23 Maret 2019 didapatkan pelebaran *double collecting system* dan ureter proksimal ginjal kanan serta *double collecting*

system ginjal kiri, dengan gambaran hipoekoik bulat intraluminal vesika urinaria disertai *internal echo* (+) menyokong *ureterocele*.



Gambar 3 Pemeriksaan USG KUB Tanggal 23 Maret 2019 Menunjukkan Pelebaran *Double Collecting System* dan Ureter Proksimal Ginjal Kanan, dan *Double Collecting System* Ginjal Kiri, dengan Gambaran Hipoekoik Bulat Intraluminal Vesika Urinaria disertai *Internal Echo* (+) Menyokong *Ureterocele*

CT-scan urologi pada tanggal 28 Maret 2019 menunjukkan duplikasi sistem pelvokalis ginjal kanan dan *double* ureter kanan yang menyatu setinggi paravertebra lumbal 4–5 kanan, distal dari menyatunya ureter, tampak pelebaran ureter yang berkelok-kelok dan bermuara hingga ke vesika urinaria, membentuk suatu kantung ukuran 2,49x2,84 cm, menyokong *ureterocele* serta duplikasi sistem pelvokalis ginjal kiri disertai *double* ureter kiri yang menyatu setinggi paravertebra lumbal 4–5 kiri.



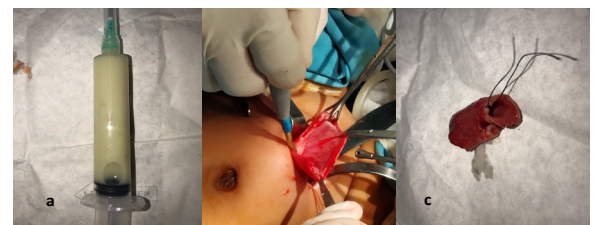
Gambar 4 Pemeriksaan CT Urologi Tanggal 28 Maret 2019 Menunjukkan Duplikasi Sistem Pelvokalis Ginjal Kanan dan *Double* Ureter Kanan yang Menyatu Setinggi Paravertebra Lumbal 4-5 Kanan, Distal dari Persatuan Ureter, Tampak Pelebaran Ureter yang Berkelok-Kelok dan Bermuara Hingga ke Vesika Urinaria, Membentuk Kantung berukuran 2,49x2,84 cm (Menyokong *Ureterocele*); Duplikasi Sistem Pelvokalis Ginjal Kiri Disertai *Double* Ureter Kiri yang Menyatu Setinggi Paravertebra Lumbal 4–5 Kiri

Berdasar atas hasil anamnesis, pemeriksaan fisis dan pemeriksaan penunjang, pasien didiagnosis *ureterocele* dekstra, *double collecting system bilateral*, infeksi saluran kemih komplikata dan bakteremia, untuk kemudian dilakukan rencana pembedahan eksisi *ureterocele* dekstra dan reimplantasi ureter.

Pada tanggal 5 April 2019 dilakukan operasi di RSHS dengan temuan intraoperasi sebagai berikut: *ureterocele* pada muara ureter kanan diameter 3 cm berisi cairan urin yang bercampur pus, ditemukan orifisium ureter kanan berdiameter 1 cm dan didapatkan ureter *lower moety* bermuara di ureter prevesika, didapatkan 2 ureter dengan diameter 1,5 cm dan 0,5 cm, serta pada saat dilakukan kanulasi tampak pus kental.



Gambar 5 Temuan Durante Operasi, Tampak *Ureterocele* pada Muara Ureter Kanan



Gambar 6 (a) Pus Kental yang Dikeluarkan dari *Ureterocele* (b) Reimplantasi Ureter Dekstra (c) *Ureterocele* yang Sudah Dieksisi

Diagnosis pascaoperasi adalah *ureterocele* dekstra, *double collecting system* bilateral yang telah dilakukan eksisi *ureterocele* dekstra serta reimplantasi ureter dekstra.

Pembahasan

Istilah *ureterocele* pertama kali digunakan oleh Leshnew pada tahun 1912 sebagai dilatasi kistik pada bagian intresikal dari ureter.¹ *Ureterocele* adalah kelainan kongenital pada ureter terminal berupa massa kistik yang berdilatasi pada segmen ureter intravesikal. *Ureterocele single system* berhubungan dengan ginjal dengan satu ureter, sementara *ureretrocele duplex* berhubungan dengan duplikasi ureteral komplet pada *pole* atas ginjal.^{1,5,6}

Patogenesis *ureterocele* akibat keterlambatan dan ketidaksempurnaan reabsorpsi dari membran yang memisahkan *ureteral bud* dari duktus mesonefrik pada embriogenesis. Membran tersebut disebut *Chwalla's membrane*.¹

Dinding luar *ureterocele* tersusun dari epitelium dan dinding dalam tersusun atas epitel ureter, di antara keduanya dihubungkan dengan jaringan ikat dan fibrin muskular. Besar *ureterocele* dapat sekitar 1 cm atau dapat sangat besar hingga mengisi lumen vesika urinaria dan prolaps melalui uretra.⁵ *Ureterocele* dapat terjadi baik pada ureter kanan maupun kiri dan berhubungan lebih sering dengan *double collecting system*.^{5,7}

Ureter dupleks dapat terjadi pada 75% pasien *ureterocele*, sementara *single* ureter hanya sebanyak 20%. Insidensi *ureterocele* sebesar 1:4.000 anak, sering pada ras Kaukasia, dan 4–7 kali lebih sering pada perempuan.^{2,5,8} Sampai saat ini angka kejadian *ureterocele* di Indonesia maupun Asia Tenggara belum tersedia data epidemiologisnya.²

Klasifikasi *ureterocele* yang paling mudah dan sering digunakan adalah klasifikasi yang dikeluarkan oleh *Committee on Terminology of the Urologic Section of the American Academy of Paediatrics*, yakni dibagi menjadi intravesika dan ekstrasvesika. *Ureterocele* intravesika (disebut juga *orthotopic*), berada seluruhnya di dalam vesika urinaria dan dengan posisi di atas *bladder neck*, sedangkan *ureterocele* ekstrasvesika (disebut juga ektopik) sebagian berada di *bladder neck* atau uretra.^{2,4,9}

Pemeriksaan penunjang sangat diperlukan untuk mengenali dan memastikan kelainan *ureterocele*. Ultrasonografi (USG) dan kedokteran nuklir kini memegang peranan penting, walaupun untuk melihat struktur anatomi IVU tetap memiliki kelebihan.^{4,10}

USG merupakan cara pemeriksaan yang mudah, noninvasif, dan juga merupakan modalitas radiologi terbaik karena merupakan prosedur yang berhasil baik (76%) dalam mendiagnosis *ureterocele* dan evaluasi hidro-ureteronefrosis. USG yang sensitif dengan gambaran *cyst within cyst* (kista di dalam kista) yang berhubungan dengan ureter yang berdilatasi dan berasal dari posisi orifisium uretra yang normal, yakni dekat margin lateral trigonum. *Ureterocele* dapat terdeteksi pada massa prenatal (*in utero*) dan diikuti sepanjang kehamilan sampai pascanatal. Deteksi dini diperlukan untuk menghindari risiko kerusakan ginjal.⁵

Intravenous urography (IVU) menggambarkan kontras yang mengisi *ureterocele* membentuk *cobra head* (kepala kobra) dengan gambaran opak berbentuk oval atau bulat yang dikelilingi bayangan halo lusen pada dinding *ureterocele*.^{5,11}

Gambaran *drooping lily sign* merupakan tanda radiografi obstruksi duplikasi pada *pole* atas yang hidronefrosis dan berfungsi kurang baik, pada IVU menunjukkan *displasement pole* bawah yang lebih inferior dan lateral, dengan jumlah kalises yang sedikit, sedangkan pada *pole* atas kalises menghilang.

Cystoureterography (VCUG) adalah merupakan pemeriksaan yang penting dan definitif untuk melihat kandung kencing, ureter distal, dan uretra pada kasus *ureterocele*. Saat pasien dicurigai *ureterocele*

melalui pemeriksaan USG, diperlukan pemeriksaan menggunakan kontras untuk memperjelas *ureterocele* pada vesika urinaria yang distensi. *Ureterocele* akan tampak sebagai *filling defect* dengan berbagai ukuran di dalam vesika urinaria. VCUG penting untuk menilai *ureterocele*.^{1,11}

CT-scan urologi dipergunakan untuk melihat massa kistik intravesika serta hubungannya dengan pelebaran ureter maupun hidronefrosis, gambaran ureter yang berdilatasi dan *turtous* dapat dengan jelas direkonstruksi pada *CT-scan*.

Magnetic resonance imaging (MRI) urogram digunakan bila pada pemeriksaan lain yang lebih ekonomis tidak dapat menjelaskan kelainan anatomi pada *ureterocele*. Kelebihan MRI dapat menampilkan informasi fungsional dan gambaran yang terperinci, terutama pada pasien dengan kelainan anatomi yang lebih kompleks.

Pemeriksaan baku emas untuk menilai fungsi ginjal adalah mempergunakan *99mTc Dimercaptouccinyl acid renal scan* (DMSA). *DMSA scintigraphy* dapat digunakan secara rutin untuk melihat kelainan pada korteks seperti infeksi dan jaringan parut, mengetahui distribusi fungsi pada ginjal dupleks, mendeteksi dan menindaklanjuti jaringan skar serta *pole* atas yang tidak berfungsi.^{9,12}

Komplikasi yang paling sering pada *ureterocele* antara lain infeksi saluran kemih (ISK), keluhan urine keruh, nyeri berkemih dan demam, terjadi pada 87,5% kasus.⁷ Kasus lain pada pasien usia 50 tahun dengan *ureterocele* ektopik mengeluhkan nyeri berkemih, demam, dan urine keruh. Pada ISK yang tidak tertangani disertai hidronefrosis baik pada orang dewasa maupun anak dapat menimbulkan keluhan pionefrosis, urosepsis, dan hiperamonia yang berisiko kegawatan.⁷

Hidroureter, inkontinensia, dan obstruksi *outlet bladder* sering juga terjadi pada *ureterocele*. Keadaan tersebut dapat menurunkan fungsi ginjal. Pada pemeriksaan fisis perlu diberikan perhatian pada pemeriksaan abdomen dan genitalia.^{8,13}

Pada beberapa kasus, obstruksi *outlet bladder* disebabkan oleh *prolaps ureterocele* ke dalam uretra. Hal tersebut dapat menyebabkan gejala obstruksi berkemih, yaitu retensi urin akut pada pasien wanita baik dewasa maupun anak.

Pada pemeriksaan genitalia eksterna tampak massa kistik yang *prolaps* pada meatus uretra eksterna, walaupun sangat jarang pada beberapa literatur, hal tersebut disimpulkan sebagai *ureterocele* yang *prolaps*.^{2,7}

Komplikasi lanjut yang dapat terjadi lainnya berupa nyeri di daerah perut, inkontinensia, serta timbul batu di dalam *ureterocele*.

Penatalaksanaan *ureterocele* tersebut berorientasi pada perbaikan gejala dan pemeliharaan fungsi ginjal.² Beberapa pilihan tata laksana termasuk pendekatan konservatif, dekompresi endoskopik, reimplantasi uretra, serta nefroureterektomi parsial atau rekonstruksi primer komplet. Pemilihan penatalaksanaan bergantung pada keadaan klinis pasien, usia, fungsi ginjal, ada tidaknya refluks maupun obstruksi, *single* atau *double collecting system*, jenis *ureterocele* ektopik atau ortotopik, serta pilihan pasien

dan dokter bedah.^{2,14}

Pada *ureterocele*, pilihan tindakan operasi adalah *trans urethral incision* (TUI) eksisi *ureterocele* yang diikuti dengan reimplantasi *common sheath*, ureteroureterostomi dan partial nefroureterektomi.¹⁵⁻¹⁷

Pada pasien ini dilaksanakan tindakan eksisi *ureterocele* dan reimplantasi ureter kanan dengan pertimbangan usia pasien dan tujuan penatalaksanaan akut abdomen dengan mendekomposisi *ureterocele*. Lebih lanjut lagi, untuk memelihara fungsi ginjal dengan mengeksisi *ureterocele* dan reimplantasi diharapkan refluks tidak terjadi lagi sehingga gejala klinis seperti infeksi saluran kemih dapat sembuh sempurna.¹⁵

Simpulan

Pada pasien ini dilakukan eksisi *ureterocele* dan reimplantasi ureter kanan dengan pertimbangan usia pasien dan tujuan penatalaksanaan akut abdomen dengan mendekomposisi *ureterocele*. Lebih lanjut lagi untuk memelihara fungsi ginjal dengan mengeksisi *ureterocele* dan reimplantasi diharapkan refluks tidak terjadi lagi sehingga gejala klinis seperti infeksi saluran kemih dapat sembuh sempurna.

Daftar Pustaka

1. Chhetri PK, Malla SK. Ureterocele - a case report. *J C Med Sci-Nepal*. 2010;6(2):38-41.
2. Rinto Hariwibowo HER. Endoscopic incision of protruding right ureterocele in a single collecting system: a case report. *Med J Indones*. 2016;25:240-4.
3. Vasey GM, Michael K. Ureterocele with duplicated collecting system. *J Diag Med Sonography*. 2016;21(1):49-55.
4. Shoklir AA, Nijman RJM. Ureterocele: an ongoing challenge in infancy and childhood. *BJU Int*. 2002;90:777-83.
5. Berrocal T, Arjonilla M, Gutie J. Anomalies of the distal ureter, bladder and urethra in children. *RadioGraphics* 2002 September-October;5(22):1139-64.
6. Schultza K, Todah LY. Genetic basis of ureterocele. *Curr Genomics*. 2016;17(1):62-9.
7. Xie D, Klopukh B, Nehrenz GM, Gheiler E. Ureterocele: review of presentations, types and coexisting diseases. *Int Arch Uro Complications*. 2017;3(1):27-32.
8. Zerín JM, Baker DR, Casale JA. Single system ureteroceles in infant and children: imaging features. *Pediatr Radiol*. 2000;30:139-46.
9. Nahar G. Ectopic ureter & ureterocele 2016. (diunduh Maret 2019) Tersedia dari: <https://www.slideshare.net/drgauravnahar/ectopic-ureter-ureterocoele>
10. Nagpal H, Chauhan R. Unilateral duplex collecting system with incomplete duplication of ureter - a case report. *Int J Res Med Sci*. 2017 May;5(5):2254-56.
11. Palmer LS. Pediatric urologic imaging. *Urologic Clin N Am*. 2006;33(3):409-23.
12. Günşar C, Mir E, Şencan A, Ertan P, Özcan CU. Pediatric ureteroceles: diagnosis, management and treatment options. *Iranian J Pediatr*. 2010 Jul 30;20(4):413-9.
13. Fernbach SK, Feinstein KA, Spencer K, Lindstrom CA. Ureteral duplication and its complication. *RadioGraphics* 1997;17:109-27.
14. Gupta M, Gupta R, Dhar S. Ureterocele. Case report. *JK Sci*. 2004 Oct-Dec;6(4):223-4.
15. Mariyappa B, Barker A, Samnakay N, Khosa J. Management of duplex-system ureterocele. *J Pediatr Child Health*. 2014;50(2):96-9.
16. Hassan FUI, Jadhav V. Ureterocele 2015. (diunduh Maret 2019). Tersedia dari: <https://www.slideshare.net/faheemandrabi/ureterocele-129103343>
17. De Jong TP, Dik P, Klijn AJ, Uiterwaal CS, Van Gool JD. Ectopic Ureterocele: results of open surgical therapy in 40 patients. *J Urol*. 2000 December;164:2040-44.