

Klinicky manifestní nezánettivá parauretrální cista corpus spongiosum bulbární uretry

A symptomatic non inflammatory paraurethral cyst in the corpus spongiosum of bulbar urethra

Ivo Novák^{1,4}, Vladimír Giblo¹, Jiří Špaček¹, Petra Kašparová², Kateřina Hojná³, Jiřina Svědřiková³

¹Urologická klinika Fakultní nemocnice a LF UK Hradec Králové

²Fingerlandův PAU, Fakultní nemocnice a LF UK Hradec Králové

³RDG centrum, s. r. o., Rychnov nad Kněžnou

⁴Urologie GIBLO – Privátní urologická ambulance, Rychnov nad Kněžnou

Došlo: 22. 2. 2022

Přijato: 22. 3. 2022

Kontaktní adresa:

MUDr. Ivo Novák, Ph.D.

Urologická klinika FN a LF UK

Hradec Králové

Sokolská 581, 500 05 Hradec Králové

e-mail: novakivo@fnhk.cz

Střet zájmů: Žádný.

Prohlášení o podpoře: Autor prohlašuje, že zpracování článku nebylo podpořeno farmaceutickou firmou.

Hlavní stanovisko práce: Článek upozorňuje na vzácné onemocnění močové trubice, cysticky dilatovanou Littrého žlázu parauretrálně v oblasti spongiózy bulb. Onemocnění se u mladších mužů může projevit náhlým zhoršením anamnesticky dlouhodobě přítomných symptomů LUTS. Trvání předchodící s lehkými LUTS symptomy bylo u našeho nemocného anamnesticky upřesněno

na osm let. Jsou probány možnosti diagnostiky, léčby a její výsledky.

Major statement: The article highlights a rare disease of the urethra, a cystically dilated Littré's gland paraurethrally in the spongy body of the bulb. In younger men, the disease can present with a sudden deterioration of long-standing LUTS. In our patient, the duration of the predisease state with mild LUTS was specified on the basis of his medical history as eight years. The diagnostic and therapeutic options as well as treatment results are discussed.

SOUHRN

Novák I, Giblo V, Kašparová P, Hojná K, Svědřiková J. Klinicky manifestní nezánettivá parauretrální cista corpus spongiosum bulbární uretry.

Prezentujeme 29letého muže s nezánettivými příznaky dolních cest močových (LUTS: bolesti varlat, obtíže s močením, dysurie, snížení proudu moče). Jako příčina LUTS byla provedenými vyšetřeními (ultrasonograficky, uretrocystoskopicky, uretrograficky a computerovou tomografií)

diagnostikována parauretrální cystická formace v corpus spongiosum bulbární uretry. Po primárně provedené perkutánní jehlové biopsii došlo k recidivě, která byla úspěšně vyléčena klasickou chirurgickou extirpací. Nemocný se po operaci nekomplikovaně zhojil. Tři měsíce po operaci byl bez subjektivních příznaků LUTS a na kontrolní transperineální ultrasonografii nebyla zhlédána ani perzistence ani recidiva cystické formace ve spongiózním tělese bulbu. Stav pacienta je v současné době tři roky stabilní. Nemocný je trvale v péči urologa, není projevů infekce v moči, ani subvezikální obstrukce (uroflowmetrii, ultrasonografie rezidua moči).

KLÍČOVÁ SLOVA

LUTS, cysta spongiózy bulbu, Littrého žláza, vyšetřovací metody, léčba.

SUMMARY

Novak I, Giblo V, Kašparová P, Hojná K, Svědíková J. A symptomatic non inflammatory paraurethral cyst in the corpus spongiosum of bulbar urethra.

We present a 29-year-old man with non-inflammatory symptoms of the lower urinary tract (LUTS: testicular pain, difficulty urinating, dysuria, decrease in urine flow). As the cause of LUTS, a paraurethral cystic formation in the corpus spongiosum bulbar urethra was diagnosed by performed examinations (ultrasonographically, urethrocystoscopically, urethrographically and by computed tomography). After the primary percutaneous needle biopsy, there was a relapse, which was successfully cured by classical surgical extirpation. The patient healed uncomplicatedly after the operation. Three months after the operation, he was without subjective LUTS and in the follow-up transperineal ultrasonography, neither persistence nor recurrence of the cystic formation in the spongy body of the bulb was found. The patient's condition is currently stable for 3 years. The patient is permanently under the care of a urologist, there are no manifestations of infection in the urine, nor subvesical obstruction (uroflowmetry, ultrasonography of urine residues).

KEY WORDS

LUTS, a cyst in the corpus spongiosum bulbous urethra, Littre's gland, examinations, treatment.

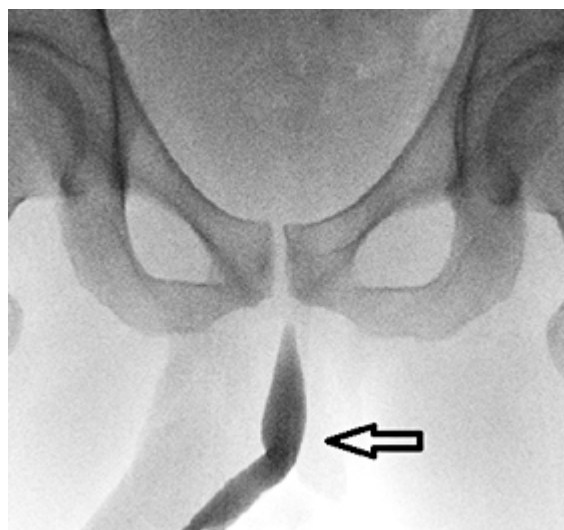
...

ÚVOD

Velké symptomatické cysticky dilatované Littrého žlázy v corpus spongiosum bulbární uretry u mladých mužů patří ke zcela výjimečným. V odborné literatuře bylo popsáno jen několik nálezů (1, 2, 3, 4).

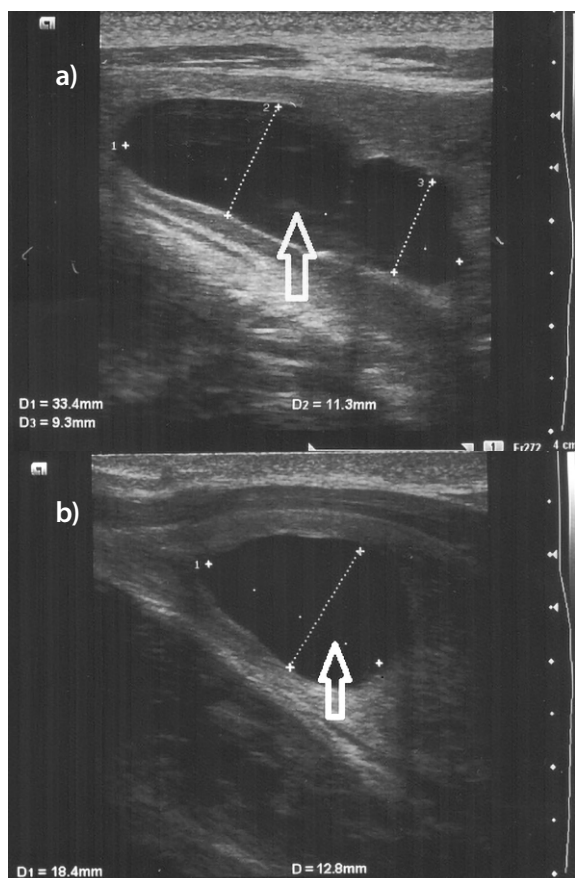
KAZUISTIKA

29letý muž se dostavil na spádové ambulantní urologické pracoviště pro akutní zhoršení symptomů dolních cest močových (LUTS: bolesti varlat, zhoršení močení, dysurie, snížení proudu moči) udávaných během posledních čtyř měsíců. Podle později na klinice podrobně odebrané osobní anamnézy



Obr. 1. Vstupní retrogradní UCG: uretra přiměřeného lumen, bez patologické komunikace, nebo útlaku parauretrálně uloženou, ultrasonograficky diagnostikovanou cystickou formací ve spongiózním tělese bulbu (šipka)

Fig. 1. Baseline retrograde UCG: the urethra with adequate lumen, with no pathological communication or compression by paraurethral cystic mass in the spongy body of the bulb (arrow) diagnosed with ultrasound



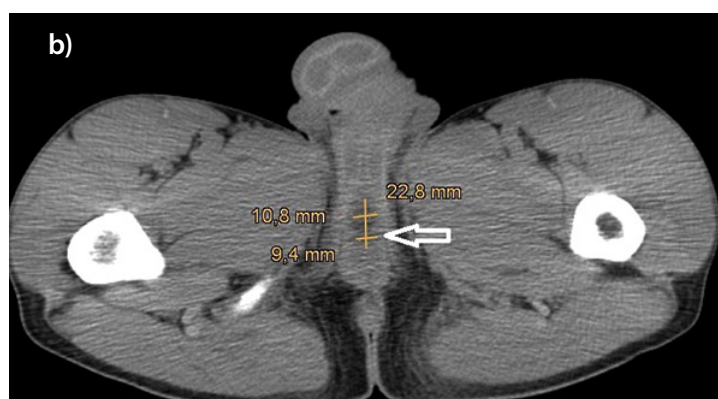
Obr. 2a, b. Vstupní USG bulbární uretry: anechogenní cystická formace spongiózního tělesa bulbu (Littreho žláza) (šipka) uložena ventrálně od močové trubice

Fig. 2a, b. Baseline ultrasound of the bulbar urethra: an anechogenic cystic mass in the spongy body of the bulb (Littre's gland) (arrow) situated ventrally to the urethra

však příznaky LUTS pociťoval podstatně déle, po dobu minimálně posledních osmi let. Neměl ale žádné infekce, neudával trauma, nepomočoval se, byl bez poruchy sexuálních funkcí (ženatý, dvě děti).

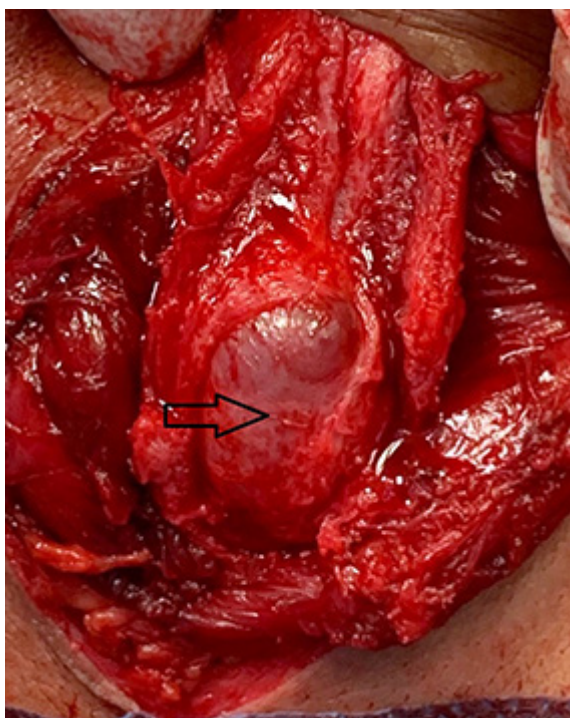
Pacient byl kompletně vyšetřen u spádového urologa. Při fyzikálním (palpačním) vyšetření byla na perineu nalezena nebolestivá rezistence cca 30 × 10 mm. Vyšetření per rectum bylo normální. Laboratorní vyšetření moče včetně kultivace bylo negativní. Transabdominální ultrasonografií (USG) nebylo zjištěno postmikční reziduum. Provedená retrográdní uretrografie (UCG) byla bez abnormalit (Obr. 1). Následně doplněná uretrocystoskopie (UCS) neprokazovala abnormální nález na sliznici bulbární uretry a potvrzovala negativní UCG nález v rozsahu celé močové trubice. Doplněná transperineální USG diagnostikovala anechogenní, cystický útvar rozměrů 33,4 × 11,3 mm obsahující čirou tekutinu a nacházející se před močovou trubicí ve spongióze bulbu (Obr. 2a, b). Perkutánní punkcí v lokální anestezii byl odsát vazký obsah cysty. Cytologické a mikrobiologické vyšetření punktátu neprokázalo maligní či zánětlivé buňky. Po provedené perkutánní punkci došlo rychle k doplnění obsahu, prokázané kontrolně provedeným transperineálním USG vyšetřením.

S touto klinickou anamnézou a výsledky přístrojových a laboratorních vyšetření byl nemocný odeslán na naše klinické urologické pracoviště ke zvážení klasické chirurgické léčby: extirpaci cystického, po perkutánním vypunktování recidivujícího



Obr. 3a, b. Vstupní CT, sagitální a transverzální řez: cystická tekutinná formace spongiózního tělesa (Littreho žláza) (šipka) v oblasti bulbu ventrálně od močové trubice

Fig. 3a, b. Baseline CT, sagittal and transverse sections: cystic, fluid-filled mass in the spongy body (Littre's gland) (arrow) in the bulbar area ventrally to the urethra



Obr. 4. Operační pohled: bulbus rozpreparovaný ve střední čáře, vypreparovaná cysta spongiózního tělesa (šipka). Močová trubice se zavedeným katétretem není patrná, skryta dorzálně pod cystou v rozpreparovaném bulbu (*m. bulbospongiosus, corpus spongiosum bulbi urethrae*)

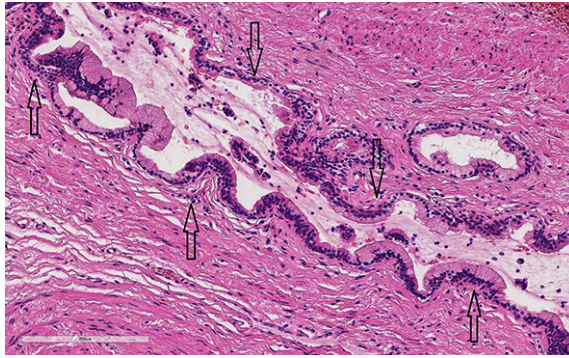
Fig. 4. Surgical view: the bulb dissected in the mid-line; the extirpated cyst of the spongy body (arrow). The urethra with a catheter in place is not evident, being obscured dorsally below the cyst in the dissected bulb (*bulbospongiosus muscle, corpus spongiosum of the bulbar urethra*)

útvary dané lokality močové trubice. Ještě před odesláním na urologickou kliniku byla ve spádovém pracovišti provedena výpočetní tomografie (CT). Vyšetření potvrdilo USG diagnózu parauretrálního cystického útvaru spongiózního tělesa bulbu, lokalizovaného ventrálně od uretry (Obr. 3a, b).

Vzhledem k již provedenému CT vyšetření jsme neindikovali doplnění literárně doporučené magnetické rezonance (MRI). Znovu naplněný cystický parauretrální útvar byl na našem urologickém pracovišti odstraněn klasicky chirurgickou extirpací. Pro odstranění jsme volili transperineální přístup ze střední incize. Předoperačně byla profylakticky podána intravenózně antibiotika a v úvodu operace

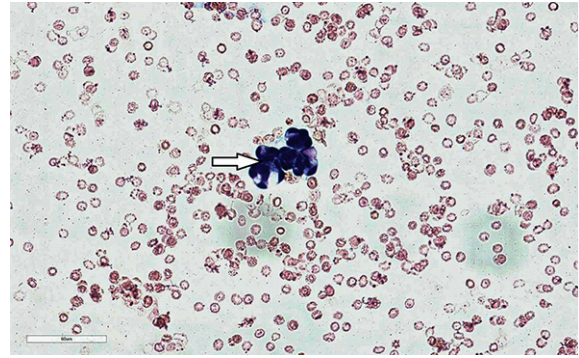
byla volně zavedena permanentní měchyřová cévka 16CH. Hmatnou cystu uloženou ve spongióze bulbu před uretrou jsme uvolnili incízi svaloviny bulbu a následně rozpreparováním spongiózního tělesa. Dorzálně cysta široce naléhala na ventrální stěnu močové trubice. Vlastní odpreparování cysty od stěny uretry bylo prováděno velmi opatrně s použitím lupových brýlí (zvětšení 3–4×). Cystický útvar byl extirpován vcelku, kompletně, bez vyprázdnění jeho obsahu. Makroskopicky jsme neprokázali spojení cysty s uretrou (Obr. 4). Během preparace došlo k drobným perforacím jemné stěny uretry se zavedenou permanentní měchyřovou cévkou. Tyto jsme ošetřili pokračující suturou vstřebatelným stehem Vicryl C 5/0 na zavedené cévce. Preparát byl vcelku odeslán na komplexní vyšetření. Kultivační vyšetření obsahu bylo negativní. Histopatologické vyšetření prokázalo původ cystické formace v dilatované Littrého žláze vystlané kubickým epitelem (Obr. 5a). Cytologické vyšetření tekutého, vazkého obsahu cysty krom krevních elementů (erytrocytů) prokázalo ojedinělé shluky nemaligních kohezivních buněk, morfoloogicky epiteliálního vzhledu (Obr. 5 b). Pooperační průběh pod empirickým krytím antibiotikem per os (Amoksiklav®) na dva týdny byl bez komplikací. Pacient byl propuštěn šestý pooperační den do domácího ošetřování s permanentní cévkou. Čtrnáctý pooperační den byla rána na perineu zhojena a byl odstraněn permanentní katétr. Po odstranění katétru nemocný močil spontánně, bez nutnosti tlaku, nepřerušovaně, bez dysurií či strangurií.

Po týdnu od odstranění močového katétru se pacient dostavil na ambulanci spádového urologa pro bolesti na perineu. Při palpačním vyšetření oblasti perinea byla hmatná drobná, nesecernující, palpačně citlivá rezistence v podkoží jinak plně zhojené rány. Následně provedené transperineální USG vyšetření prokázalo parauretrálně hyperechogenní ložisko (5 × 5 × 1 × 5 mm), hodnocené jako pooperační jizva spongiózy bulbu, a dále zevně od bulbózního tělesa směrem do podkoží středně hyperechogenní ložisko, hodnocené jako pooperační hematoma, velikostí 25 × 13 mm, v čase regredující na 7 mm (Obr. 6a, b). Popsaný regredující podkožní hematoma neměl vliv na kvalitu močení (viz shora),



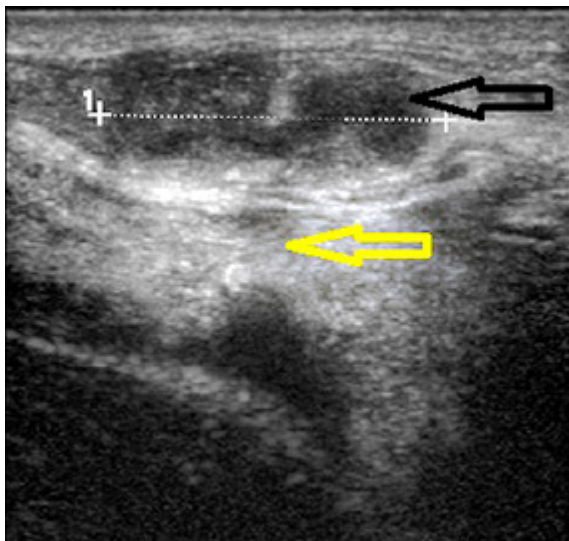
Obr. 5a. Biopsie kompletně extirpované cystické formace s obsahem: dilatovaná Littrého žláza (ohraňována šipkami) s výstelkou kubického epitelu (barvení HE, zvětšení 200×)

Fig. 5a. Biopsy of the completely extirpated cystic mass with its content: dilated Littre's gland (marked by arrows) with a lining of cuboidal epithelium. (HE staining, magnification of 200×)



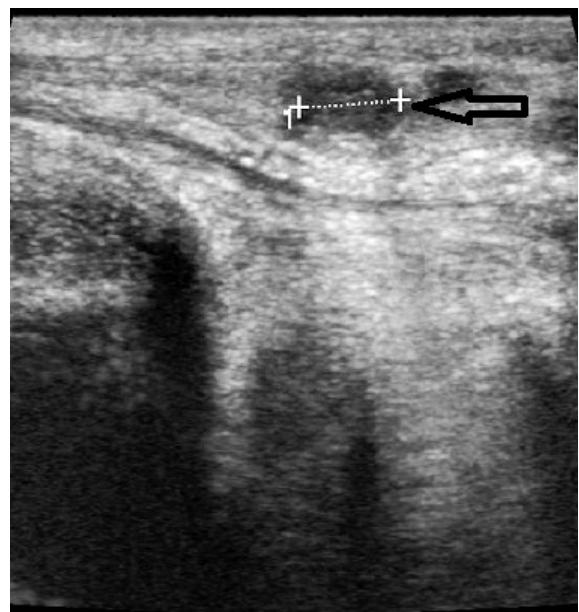
Obr. 5b. Cytologie obsahu extirpované dilatované Littrého žlázy: přítomnost krevních elementů a ojedíně nemaligních kohezivních žláзовých buněk, morfologicky epiteliálního vzhledu (šipka)

Fig. 5b. Cytology of the content of the extirpated dilated Littre's gland: the presence of blood elements and, sporadically, of non-malignant cohesive glandular cells, morphologically of epithelial appearance (arrow)



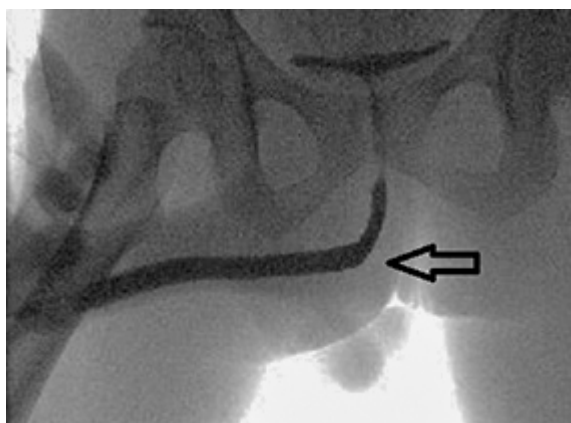
Obr. 6a. USG oblasti bulbu měsíc od operace: parauretrálně v bulbu hyperechogenní ložisko (5 × 5 × 1 × 5 mm), jizva spongiózy (žlutá šipka), zevně bulbu směrem do podkoží středně hyperechogenní ložisko – pooperační hematoma, velikosti 25 × 13 mm (šipka)

Fig. 6a. Ultrasound of the bulbar area one month after surgery: a hyperechogenic lesion (5x5x1x5 mm) paraurethrally in the bulb; scar of the spongy body (yellow arrow); a moderately hyperechogenic lesion outside the bulb extending towards the subcutis – postoperative haematoma with a size of 25 × 13 mm (arrow)



Obr. 6b. USG oblasti bulbu tři měsíce od operace: zevně bulbu směrem do podkoží, středně hyperechogenní ložisko – regredující hematoma do 7 mm (šipka), bez průkazu recidivy tekutinové expanze parauretrálně

Fig. 6b. Ultrasound of the bulbar area three months after surgery: a moderately hyperechogenic lesion outside the bulb extending towards the subcutis – regressing haematoma of up to 7 mm (arrow), with no evidence of recurrence of fluid build-up paraurethrally



Obr. 7. MUGG tři měsíce od operace: uretra bez striktury a bez patologické extravazace kontrastní látky v oblasti po extirpaci cysty spongiózy bulbu (šipka)

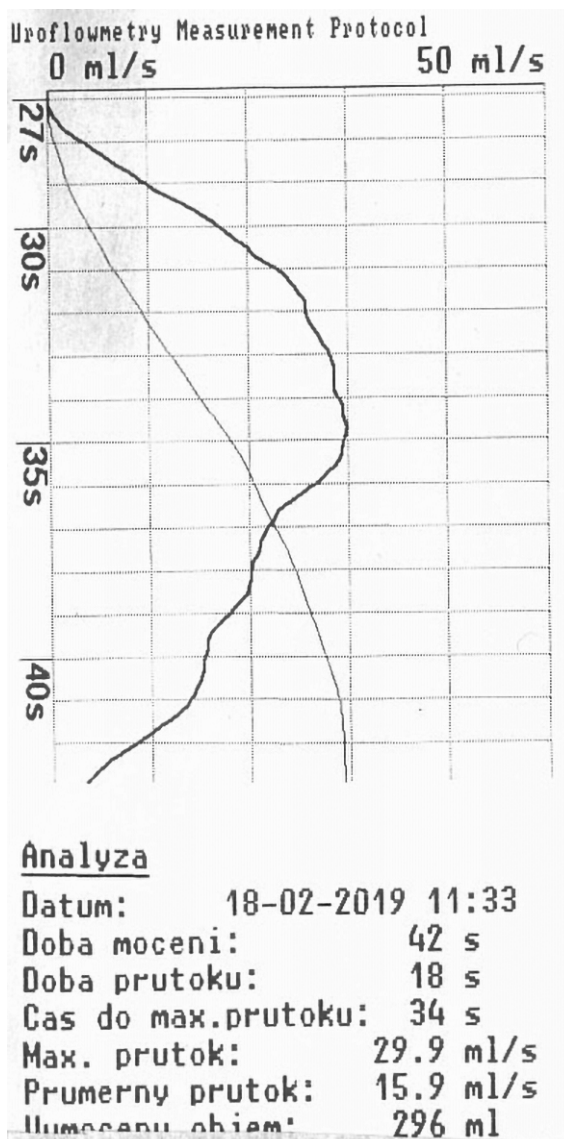
Fig. 7. VUCG three months after surgery: the urethra with no stricture and no pathological extravasation of the contrast medium in the area after extirpation of the cyst in the spongy body (arrow)

proto bylo postupováno konzervativně. Po třech měsících od operace hmatná rezistence i bolestivost na perineu zcela vymizely. Kontrolní MCUG neprokázalo patologii na bulbární uretře (jemná stěna, nezúžený lumen uretry, bez extravazátu kontrastní látky) (Obr. 7). USG neprokazovala perzistenci ani recidivu hypoechogenního cystického parauretrálního útvaru (Obr. 6 b). Na provedené uroflowmetrii (UFM) byl fyziologický nález (maximální průtok 29 ml/s, nepřerušovaná, zvonovitá křivka) (Obr. 8).

Pacient je pod trvalou dispenzarizací urologa. Tři roky je již zcela bez subjektivních potíží, jak bolestí, tak LUTS. Při opakovaných ambulantních kontrolách s fyziologickými nálezy UFM, bez USG rezidua. Nejsou prokazovány infekce moče, není objektivně průkazná subvezikální obstrukce. Transperineální USG spongiózy bulbu nedetekuje recidivu cysty, prokazuje pouze pooperační jizevnatě změny spongiózy.

DISKUZE

Přestože u žen cystické léze v oblasti uretry nejsou vzácné a literárně je uváděná incidence od 1,5 % do 5 % (5, 6), u mužů jsou parauretrální cysty raritní. V penobulbární oblasti uretry u mužů jsou pak



Obr. 8. UFM tři měsíce od operace: fyziologické hodnoty průtoků moče, neobstrukční křivka zvonovitého tvaru

Fig. 8. UFM three months after surgery: physiological values of urine flow rate; non-obstructive bell-shaped curve

nalézány nejčastěji získané divertikly, obvykle po traumatech nebo operacích. Jejich obvyklými příznaky jsou nálezy infekce a změny v proudu moče. Divertikly přední a zadní uretry jsou kongenitálního původu a jsou u mladých mužů jen vzácně popisovány (7, 8, 9, 10, 11). Parauretrální cysty spongiózy u mužů jsou pak naprostou raritou. Původ je zřejmě ve zde fyziologicky přítomných parauretrálních žlázách (Littého žlázy), podobně jako v našem

případě (2). Při uzavření krčku žlázy dochází ke hromadění obsahu a k cystické dilataci žlázy (4). Příčina obliterace může být zánětlivá, traumatická, pooperační, nemusí ale být jasně objasněna (idiopatická) (2).

Námi popisovaná idiopatická cysta Littrého žlázy spongiózního tělesa bulbu uretry patří mezi nálezy zcela unikátní, ojediněle popsané v odborné literatuře (2, 4). Podobně jako u popsáných cyst neměl náš mladý muž žádné infekční potíže. Objevením se závažnějších symptomů LUTS ve věku 29 let se řadí k věkově mladším nemocným. V odborné literatuře je uváděn věk nemocných: 25–33–43–46 let (1, 3, 2, 4).

Literárně krom cystických lézí jsou v oblasti bulbární uretry a spongiózního tělesa popisována i jiná onemocnění: zánětlivé pseudotumory, cystický hemangiom, adenokarcinom, metastázy jiných nádorů aj (12, 13, 14).

V rámci diferenciálně diagnostického postupu zjištění příčiny onemocnění je nutno využít co nejširšího spektra diagnostických metod (laboratorních, rentgenologických, endoskopických, histopatologických aj.). U našeho pacienta jsme využili v diagnostickém postupu USG, uretrocystoskopii, retrográdní UCG, perkutánní jehlovou punkci a CT (4). Nevyužili jsme vyšetření MRI, v literatuře uváděné jako diagnosticky nejpřínosnější, s ohledem na již jasné USG a CT nálezy (15).

Indikace k chirurgické revizi vychází vždy až z nálezů vyšetření, provedených v rámci diferenciálně diagnostického procesu etiologie léze. Shodně s literárními fakty jsme přistoupili k chirurgické extirpaci diagnostikované cysty spongiózy bulbu středním transperineálním přístupem (1, 4). Diagnóza cysticky dilatované Littrého žlázy byla potvrzena až histopatologickým vyšetřením excidované cysty (biopsicky a cytologicky).

ZÁVĚR

U mladších mužů při nejasné příčině náhle se objevujících, anebo zhoršujících se symptomů LUTS, je nutno pomýšlet na vzácně se objevující cysty spongiózního tělesa. V případě zjištění parauretrální, tekutinové kolekce na transperineální USG je literárně doporučováno v dalším diferenciálně diagnostickém kroku provedení MRI. Potvrzené symptomatické velké cystické léze je nutno operačně léčit. U ojediněle literárně publikovaných případů, podobně jako u našeho nemocného, může klasická chirurgická extirpace vést k ústupu subjektivních potíží. U asymptomatických, obvykle náhodných nálezů menších cystických lézí ale jednotné doporučení v přístupu neexistuje (konzervativní postup, sledování versus chirurgická extirpace).

LITERATURA

1. Weller CG. Paraurethral cyst within the corpus cavernosum urethrae. *J. Urol.* 1956; 76(1): 94–98.
2. Bujons A, Ponce de León X, Baez C, et al. Paraurethral cyst of the Littre's gland: an exceptional case. *Arch Esp Urol.* 2006; 59(6): 624–626.
3. Altunrende F, White MA, Autorino R, et al. Large Symptomatic Periurethral Cystic Lesion in a Male. *Urology.* 2011; 78: 56–57.
4. Hakenberg OW, Froehner M, Wirth MP. Symptomatic Paraurethral Corpus Spongiosum Cyst in Male Patient. *Urology.* 2000; 55(4): 590.
5. Woodhouse C, Flynn J, Blandy J. Urethral diverticulum in females. *Br J Urol.* 1980; 52: 305–310.
6. Anderson M. The incidence of diverticula in the female. *J Urol.* 1967; 98: 96–98.
7. Saenz de Cabezón Mart J, Lorente Garin J, Raventos Busquets C, et al. Acquired urethral diverticulum in males with spinal cord injury. *Arch Esp Urol.* 1995; 48: 797–803.
8. Komada S, Yoshida K, Kondo T, et al. Congenital urethral diverticulum in a male infant: a case report. *Hinyokika Kyo.* 1984; 30: 507–511.

9. **Gaboardi F, Gulfi G, Bozzala A, et al.** Congenital urethral diverticulum in the male: a twenty-one year old man with a congenital urethral diverticulum at the bulbous urethra. *Arch Ital Urol Nefrol Androl.* 1991; 63: 347–349.
10. **Sen S, Iseri C, Eryigit M.** Congenital urethral diverticulum in the male. *Urology.* 1989; 34: 129–130.
11. **Preminger G, Steinhardt G.** Male urethral diverticulum: the double density sign. *Urology.* 1985; 26: 417–419.
12. **Starzyński S, Litwak A.** Cancer of the urethra originating from Litté's Glands. *Patol Pol.* 1965; 16(2): 235–41.
13. **Krawitt LN, Schechterman L.** Inflammation of the periurethral glands of Littre simulating tumor. *J Urol.* 1977; 118(4): 685.
14. **Sacks SA, Waisman J, Apfelbaum HB, et al.** Urethral Adenocarcinoma (Possibly Originating in the Glands of Littre). *J Urol.* 1975; 113(1): 50–55.
15. **Kim B, Hricak H, Tanagho E.** Diagnosis of urethral diverticula in women: value of MR imaging. *AJR Am J Roentgenol.* 1993; 161: 809–815.