

# Sindromul *vanishing twin* și impactul său perinatal - review al literaturii de specialitate

*Vanishing twin syndrome and its perinatal consequences - literature review*

Simona Vlădăreanu<sup>1</sup>,  
Andreea Boiangiu<sup>2</sup>,  
Claudia Mehedintu<sup>3</sup>,  
Costin Berceanu<sup>4</sup>,  
Simona Popescu<sup>1</sup>

1. Departamentul Neonatologie, Spitalul Universitar de Urgență „Elias”, UMF „Carol Davila” București

2. Departamentul de Obstetrică-Ginecologie, Spitalul Universitar de Urgență „Elias”, București

3. Departamentul Obstetrică-Ginecologie, Spitalul Clinic „Nicolae Malaxa”, UMF „Carol Davila” București

4. Departamentul Obstetrică-Ginecologie, UMF Craiova

Autor de corespondență:  
Dr. Andreea Boiangiu  
e-mail: andreeaboiangiu@gmail.com

Primit: 10.01.2017  
Acceptat: 15.02.2017

## Abstract

Large scale using of assisted human reproductive techniques has increased the number of twins and multiple pregnancies. Associated to these phenomena the vanishing twin syndrome has also increased as occurrence. The studies that have been published about this subject have demonstrated a correlation between the vanishing twin syndrome and an increased perinatal risk. Chorionicity and the gestational age at which this phenomena happens act like additional perinatal risk factors. The most common obstetrical management is conservative.

**Keywords:** vanishing, papiraceus, in utero fetal death, perinatal

## Rezumat

Folosirea pe scară largă a tehnicilor de reproducere umană asistată a dus la creșterea numărului de sarcini gemelare sau multiple. Asociat cu acest fenomen a apărut și o creștere a fenomenului de vanishing twin. Studiile publicate în domeniu au demonstrat un risc perinatal crescut corelat cu apariția sindromului de vanishing. Corionicitatea și vârsta gestațională la care are loc decesul unui embrion/făt dintr-o sarcină multiplă sunt factori de risc suplimentari asociați acestei patologii. Managementul obstetrical este cel mai frecvent conservator, sub stricta monitorizare a cursului sarcinii.

**Cuvinte-cheie:** vanishing, fetus papiraceus, deces fetal in utero, perinatal

## Introducere

Tendința ultimilor ani, la nivel global, de creștere a vârstei materne la momentul concepției a dus, pe de o parte, la creșterea adresabilității tehnicilor de reproducere umană asistată, precum și la o creștere a prevalenței sarcinilor multiple și, o dată cu aceasta, și la creșterea morbidității perinatale. Majoritatea cazurilor de fertilizare *in vitro* (FIV) pornesc de la transferul intrauterin a mai mult de un embrion pentru a putea obține o sarcină, în acest mod crescând exponențial numărul de sarcini gemelare sau multiple. Odată cu dezvoltarea tehnicilor de ultrasonografie de prim trimestru, a fost descris și un concept mai nou - sindromul de vanishing twin. Acesta se referă la reducerea spontană a numărului de embrioni viabili intrauterini la o vârstă gestațională mică, însoțită de cele mai multe ori de liza totală sau parțială. Se consideră că, la mai mult de 50% dintre cazurile de sarcini confirmate cu trei sau mai mulți saci gestaționali, se va identifica fenomenul de vanishing twin până la 12 săptămâni - figura 1<sup>(1)</sup>. În ceea ce privește sarcinile gemelare, este raportată o incidență de circa 36% a procesului de reducere embrionară<sup>(1)</sup>, dar incidența corectă a acestui fenomen nu poate fi estimată, dat fiind numărul mare de cazuri subdiagnosticate - figura 2. Sindromul de vanishing twin se asociază atât sarcinilor

multiple obținute prin tehnici de fertilizare asistată, cât și sarcinilor multiple obținute spontan. Sarcinile gemelare ating un procent de circa 96% din totalul sarcinilor multiple concepute natural, 69% dintre acestea fiind dizigotice, iar restul de 31%, monozigotice<sup>(2)</sup>.

Concepte conexe sindromului de vanishing twin sunt reprezentate de *fetus papiraceus* și de „moarte fetală tardivă *in utero*”. *Fetus papiraceus* presupune moartea unui făt dintr-o sarcină multiplă, cel mai frecvent în trimestrul al II-lea de sarcină, făt care nu va mai fi complet sau aproape complet resorbit, ci mai degrabă ratatinat și aplatizat - figura 3. *Fetus papiraceus* are o incidență raportată în rândul cazurilor de sarcini gemelare de circa 0,54%<sup>(3)</sup>. Atunci când decesul unui făt apare în trimestrul al III-lea sau la sfârșitul celui de-al doilea trimestru, poartă denumirea de „deces fetal *in utero*”. În cazul tuturor acestor trei entități, studiile de specialitate au arătat o creștere a morbidității asociate. Doi factori predictorii ai posibilelor complicații care pot deriva din moartea unui embrion/fetus *in utero* sunt corionicitatea și vârsta gestațională la care acest fenomen apare. Astfel, este extrem de important de determinat, în primul trimestru de sarcină, corionicitatea. Sunt studii care au demonstrat că gemenii monocoriotici vor fi mai la risc comparativ cu cei bicoriotici, în ceea ce

privește posibilele complicații/malformații<sup>(4,5,6)</sup>. La gemenii monocoriali, riscul crescut pentru complicații fetale, în cazul geamănului supraviețuitor, se datorează anastomozelor intraplacentare existente prin care se pot transfera produși toxici de degradare a fătului mort către cel viu.

### Impact perinatal

Sindromul de vanishing twin, descris prima dată în 1945, a atras atenția cercetătorilor și a fost intens studiat, pentru evaluarea posibilelor riscuri și complicații fetale și postnatale. Asocierea acestui fenomen sarcinilor obținute prin FIV atrage cu sine complicații precum nașterea prematură sau greutatea mică la naștere, dar a fost demonstrat că reducția spontană fetală este un factor de risc independent pentru mortalitatea perinatală. De asemenea, s-a demonstrat că sindromul de vanishing twin poate altera profilul biochimic al screeningului de prim trimestru, precum și testele pentru aneuploidii<sup>(7,8)</sup>.

În ceea ce privește etiopatogenia apariției sindromului de vanishing twin, la momentul actual nu există un consens unanim acceptat, ci mai multe teorii, precum: anomalii cromozomiale, defecte de placentare sau defecte structurale care pot duce la oprirea din evoluție a unui embrion<sup>(9)</sup>.

Se consideră că oprirea din evoluție a unui embrion dintr-o sarcină multiplă la începutul primului trimestru de sarcină va fi grevată de o rată mică de complicații materne (sângerare vaginală, dureri abdominale) și fetale; în schimb, odată cu înaintarea în vârsta gestațională, atât morbiditatea maternă, cât și cea fetală vor fi în creștere. Printre complicațiile materne ale decesului unui făt dintr-o sarcină multiplă se numără infecțiile, nașterea prematură, coagularea intravasculară diseminată, distocia de obstacol prin *fetus papiraceus*, care se poate interpune între prezentație și canalul de naștere, operația cezariană de necesitate<sup>(10)</sup>.

În ceea ce privește complicațiile fetale ale fătului/feților viabili, riscul lor este de asemenea direct proporțional cu vârsta de gestație la care se petrece evenimentul. Studiile au demonstrat o relație clară între decesul de trimestru II al unui făt și apariția paraliziei cerebrale la cel viabil iar fenomenul incriminat este prezența de anastomoze intra- și interplacentare cu hipotensiune la fătul viabil și transfer de produși toxici de degradare de la cel mort<sup>(11)</sup>. *Aplazia cutis* este de asemenea o complicație frecvent descrisă ca fiind asociată unui *fetus papiraceus*<sup>(12)</sup>. Aceasta are o distribuție simetrică la nivelul trunchiului, al feselor și al membrelor inferioare, arareori asociază defecte ale tegumentului de la nivelul scalpului. Toate aceste defecte tegumentare par să fie datorate unui defect vascular cu hipoperfuzie și necroză, cel mai probabil prin trecerea de emboli de la fătul mort prin anastomozele placentare.

Decesul unuia dintre feți la o sarcină multiplă în trimestrul al II-lea târziu sau în trimestrul al III-lea, pe lângă complicațiile mai sus menționate, ridică de asemenea o dilemă în managementul obstetrical. Riscul de a-l lăsa pe geamănul supraviețuitor în mediul ostil care a cauzat decesul celuilalt, la care se coroborează riscul de diseminare a produșilor de degradare ai fătului mort, trebuie bine cântărit comparativ cu riscurile prematurității în cazul

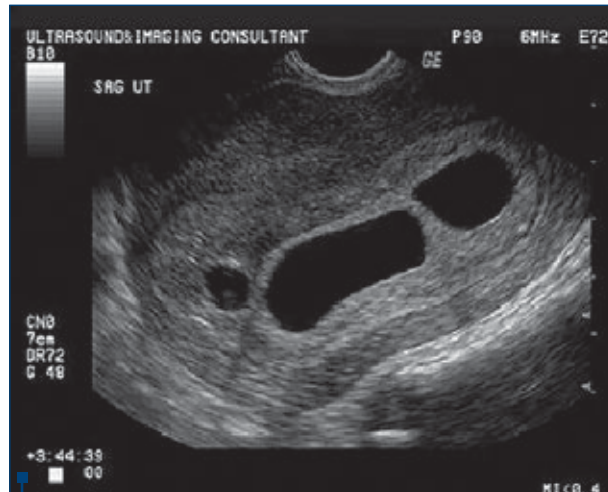


Figure 1. Fenomen de vanishing al unui embrion la o sarcină tricolorică (imagine obținută prin amabilitatea [www.fetalultrasound.com](http://www.fetalultrasound.com))

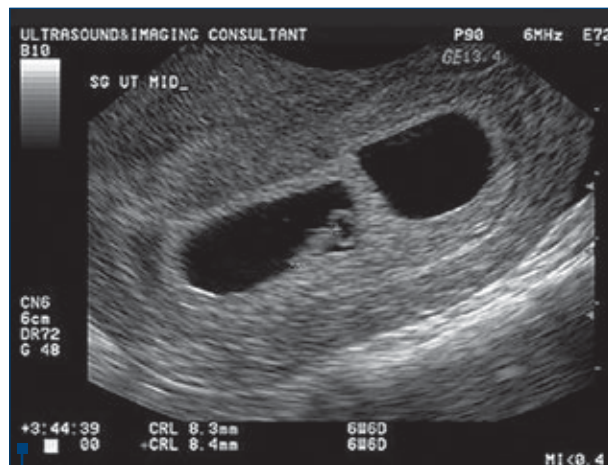


Figure 1. Fenomenul de vanishing twin - oprirea în evoluție a unui embrion la o sarcină gemelară în primul trimestru (imagine obținută prin amabilitatea [www.fetalultrasound.com](http://www.fetalultrasound.com))



Figure 3. *Fetus papiraceus* (sursă imagine: [www.wikipedia.org](http://www.wikipedia.org))

terminării cursului sarcinii. Un risc mai mare prezintă cazurile de gemeni monoziagoți, cazuri în care sunt dileme și în ceea ce privește feticidul terapeutic.

În 2014 a fost publicat un studiu<sup>(13)</sup> care a prezentat numeroase patologii asociate care au apărut la feții provenind dintr-o sarcină cu fenomenul de vanishing, printre acestea numărându-se diabetul gestațional, restricția de creștere intrauterină, greutatea mică pentru vârsta gestațională și indice Apgar mic.

Apariția de depozite de fibrină periviloase la nivel placentar, aspect descris prima dată de Jauniaux et al.<sup>(14)</sup>, pare să fie o marcă a existenței fenomenului de vanishing, uneori fiind singura dovadă a existenței acestuia. De asemenea, placenta poate asocia noduli placentari, chisturi, vili coriali degenerați, resturi embrionare.

Riscul de naștere prematură pare să fie mai mare la sarcinile unice apărute în urma fenomenului de vanishing twin, atât la sarcinile obținute natural, cât și la cele obținute prin FIV, motiv pentru care se ridică suspiciunea că sindromul VT *per se* este un factor de risc independent pentru nașterea prematură. Aceleași concluzii sunt trase

și în ceea ce privește riscul de restricție de creștere și de greutate mică la naștere<sup>(15,16)</sup>.

## Concluzii

Sindromul de vanishing twin se asociază cu un prognostic matern și fetal influențat. Acesta este un factor de risc independent pentru mortalitatea perinatală. Poate potența pozitiv riscul de malformații fetale, cel mai frecvent asociind alterarea neurologică, dar și alte defecte congenitale tegumentare, cardiace, renale etc. Din punct de vedere fiziopatologic, asocierea cu aceste defecte se datorează anastomozelor placentare și ischemiei induse de degradarea fătului mort, cu dezechilibru hemodinamic. Riscul de complicații perinatale depinde de vârsta gestațională la care se produce decesul *in utero* al unuia dintre embrioni/fetuși, precum și de corionicitate. Examinarea histopatologică a placentei poate fi uneori singura marcă a existenței unui fenomen de vanishing. Din punct de vedere obstetrical, managementul conservator este cel mai des indicat, dar sub o strictă supraveghere a sarcinii. ■

## Bibliografie

1. Dickey RP, Taylor SN, Lu PY, Sartor BM, Storment JM, Rye PH, et al. Spontaneous reduction of multiple pregnancy: incidence and effect on outcome. *Am J Obstet Gynecol.* 2002;186:77-83.
2. Cameron AH, Edwards JH, Derom R, Thiery M, Boelaert R. The value of twin surveys in the study of malformations. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol.* 1983;14:347-56.
3. Livnat E, Burd L, Cadkin A, Keh P, Ward AB. Fetus papyraceous in twin pregnancy. *Obstet Gynecol.* 1978;51(Suppl 1):41S-45S.
4. Shek NW, Hillman SC, Kilby MD. Single-twin demise: pregnancy outcome. *Best Pract Res Clin Obstet Gynaecol.* 2014;28(2):249-263.
5. Ong SS, Zamora J, Khan KS, Kilby MD. Prognosis for the cotwin following single-twin death: a systematic review. *BJOG.* 2006;113(9):992-8.
6. Benirschke K. Monozygotic twinning. *Surg Pathol Clin.* 2013;6(1):27-32.
7. Chasen ST, Perni SC, Predanic M, Kalish RB, Chervenak FA. Does a "vanishing twin" affect first-trimester biochemistry in Down syndrome risk assessment? *Am J Obstet Gynecol.* 2006;195:236-9.
8. Spencer K, Staboulidou I, Nicolaides KH. First trimester aneuploidy screening in the presence of a vanishing twin: implications for maternal serum markers. *Prenat Diagn.* 2010;30:235-40.
9. Shinnick JK, Khoshnam N, Archer SR, Quigley PC, Robinson H, Keene S, Santore MT, Sarah Hill, Patel B, Shehata BM. The Vanishing Twin Syndrome: Two Cases of Extreme Malformations Associated With Vanished Twins. *Pediatr Dev.* 2017; sagepub.com/journalsPermissions.nav.
10. Yoshida K, Soma H. Outcome of the surviving cotwin of a fetus papyraceous or of a dead fetus. *Acta Genet Med Gemellol.* 1986;35(1-2):91-8.
11. Pharoah PO, Cooke RW. A hypothesis for the aetiology of spastic cerebral palsy - the vanishing twin. *Dev Med Child Neurol.* 1997;39(5):292-6.
12. Classen DA. Aplasia cutis congenita associated with fetus papyraceous. *Cutis.* 1999;64(2):104-6.
13. Evron E, Sheiner E, Friger M, Sergienko R, Harlev A. Vanishing twin syndrome: is it associated with adverse perinatal outcome? *Fertil Steril.* 2015;103(5):1209-14.
14. Jauniaux E, Elkazen N, Leroy F, Wilkin P, Rodesch F, Hustin J. Clinical and morphologic aspects of the vanishing twin phenomenon. *Obstet Gynecol.* 1988;72(4):577-81.
15. Almog B, Levin I, Wagman I, Kapustiansky R, Lessing JB, Amit A, et al. Adverse obstetric outcome for the vanishing twin syndrome. *Reprod Biomed Online.* 2010;20(2):256-60.
16. Sazonova A, Kallen K, Thurin-Kjellberg A, Wennerholm UB, Bergh C. Factors affecting obstetric outcome of singletons born after IVF. *Hum Reprod.* 2011;26(10):2878-86.