

診 療

子宮動脈塞栓術後に妊娠・分娩に至った子宮動静脈奇形の2症例

倉敷中央病院産婦人科

*小野レディースクリニック

岡田 雅美 本田 徹郎 玉井 彦明
 塩田 麻理 梅岡弘一郎 中堀 隆
 長谷川雅明 馬岡 陽* 高橋 晃

Two Cases of Successful Pregnancy and Delivery after
 Transarterial Embolization for Arteriovenous Malformation of the Uterus

Masami OKADA, Tetsuro HONDA, Hikoaki TAMAI, Mari SHIOTA,
 Kouichiro UMEOKA, Takashi NAKAHORI, Masaaki HASEGAWA,
 Yo UMAOKA* and Akira TAKAHASHI

Department of Obstetrics and Gynecology, Kurashiki Central Hospital, Okayama

**Ono Ladies Clinic, Hyogo*

Abstract Uterine arteriovenous malformation (AVM) is rare, and only eight cases of pregnancy after transarterial embolization (TAE) have been reported. Here we present two cases of successful pregnancy after TAE for uterine AVM. Two Japanese women, aged 28 and 27, who had undergone artificial abortion two and three times, respectively, had massive genital bleeding, and were diagnosed as having uterine AVM. Both women became pregnant after TAE. At term one delivered a 3,166-gr baby vaginally and the other a 2,562-gr baby cesarean section. This is the first report of pregnancy after TAE for AVM in Japan.

Key words : Uterus · Arteriovenous malformation · Transarterial embolization · Pregnancy

緒 言

症 例

子宮動静脈奇形(arteriovenous malformation, 以下AVM)は稀な疾患であり, 1926年に初めて報告¹⁾されて以来, 現在までに70余例の英文報告と²⁾, 約10例の和文報告³⁾がみられる。本疾患は, 大量の性器出血の訴えにて受診することが多く, 従来は子宮全摘術が一般的な治療であったが, 約15年前からは子宮温存を望む症例に対して子宮動脈塞栓術(transarterial embolization, 以下TAE)が施行されるようになってきた。海外においては, TAE後に妊娠に至った症例も8例が報告されているが, 本邦においては今のところ報告例はない。今回TAE後に妊娠・分娩に至った子宮AVMの2症例を経験したので, 文献的考察を加えて報告する。

症例1

症例: 間○宏○, 28歳, 未婚女性。

主訴: 不正性器出血。

既往歴: 特記すべきことなし。

家族歴: 特記すべきことなし。

妊娠歴: 2経妊0経産。26歳と28歳に妊娠3カ月にて人工妊娠中絶術を受けた。

現病歴: 28歳(平成8年3月下旬)に妊娠3カ月にて他医にて人工妊娠中絶術を受け, 同年5月上旬に初回の月経があった。同年5月25日に突然大量(500g以上)の性器出血があり, 当科を受診した。子宮は鶯卵大で, 子宮体部に軽い圧痛が認められた。経膈超音波にて子宮体部の右壁に, 直径4cmのhypoechoic lesionが認められ, ドップラー

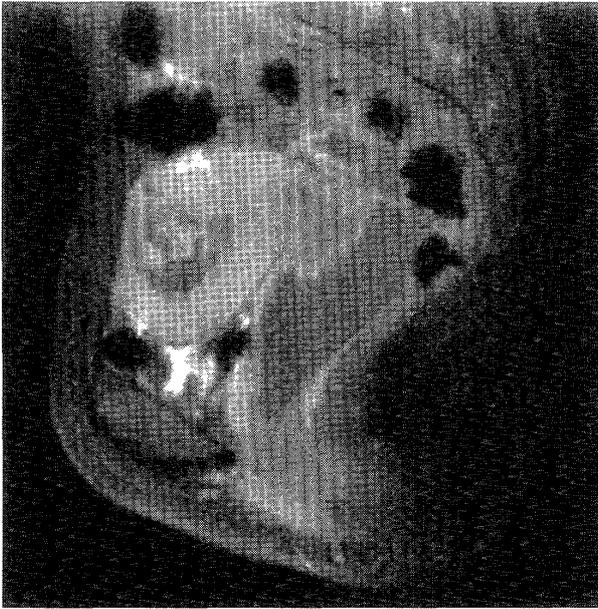


図1 症例1の矢状断面T2強調造影MRI

子宮内膜直下の子宮筋層に拡張蛇行した血管が認められる。子宮腔内および腔内に血液の貯留が認められる。

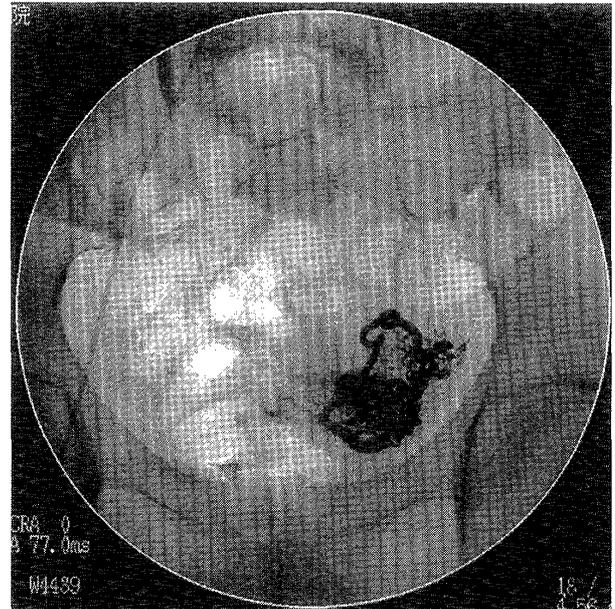


図2 症例2の骨盤血管造影

左内腸骨動脈造影所見。左子宮動脈の末梢に、拡張した血管像を介して早期に静脈が造影される所見が認められる。

超音波にて動脈性血流と静脈性血流が混在する像が認められ、AVMが疑われた。同日骨盤MRI(図1)を撮影したところ、子宮内膜直下の子宮筋層に拡張蛇行した血管が認められ、AVMと診断された。未婚であり妊孕性を温存するために、同日両側子宮動脈に対するTAEが施行された。血管造影によって、輸入動脈、nidus、輸出静脈という特徴的な所見が認められ、子宮AVMと確定診断され、左右子宮動脈からコイルを注入してAVMの塞栓が行われた。流入血管はほとんど塞栓されたが、一部の拡張血管は残り、右卵巣動脈からの血流が示唆されたが、選択的卵巣動脈の造影は施行されなかった。術後性器出血は著明に減少し、術後34日目に退院した。

その後結婚し、TAE施行後1年4カ月目に妊娠した。妊娠6～7週と24～36週に切迫流早産にて加療を要したが、妊娠39週に3,166gの女児を経膈分娩した。産褥の経過も順調であった。

症例2

症例：坂○紀○，27歳，未婚女性。

主訴：不正性器出血。

既往歴：特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

妊娠歴：3経妊0経産。24歳と26歳に妊娠2カ月にて人工妊娠中絶術を受けた。27歳に妊娠4カ月に流産し子宮内容除去術(D&C)を受けた。

現病歴：27歳(平成8年3月下旬)に妊娠4カ月に流産し他医にて子宮内容除去術を受け、同年4月上旬に初回の月経があった。同年5月5日から少量の性器出血が持続し、同医にて5月24日に再度子宮内容除去術を受けた。5月26日から再び少量の性器出血がみられていたが、6月1日に突然大量の性器出血があり、当科に紹介された。子宮は正常大で、ダグラス窩に圧痛が認められた。ドップラー超音波にて子宮前壁に血流が認められAVMが疑われた。著明な貧血が認められ、8単位の輸血を要した。骨盤MRIで子宮前壁に血管像がみられ、AVMと診断された。6月3日、血管造影にて、AVMと確定診断され、両側子宮動脈に対するTAEが施行され、性器出血は著明に減少した。ところが6月8日に行ったドップラー超音波では、AVMにおける血流量は、むしろTAE施行前よりも増加していた。そこで、左卵巣機能の障害を与える可能性を本人に説明し同意を得たうえで、6月13日に、両側子宮動脈と左卵巣動脈の塞栓術

を追加施行した。6月17日のドップラー超音波で、AVMの血流量は著明に減少していた。その後、性器出血もなく、6月19日に退院した。

TAE施行後3カ月目に妊娠した。妊娠8～14週と30～36週に切迫流早産にて加療を要した。妊娠40週に陣痛発来にて入院し、分娩第1期に胎児仮死を来し帝王切開術にて2,562gの男児を娩出した。胎盤に多数の梗塞が認められた。産褥の経過は順調であった。

2症例とも、産後のMRI検査では子宮AVMの再発所見は認められなかった。

考 察

緒言でも述べたように子宮AVMは稀な疾患である。当科においても子宮AVMに対してTAEを行ったのは今回の2症例が初めてであった。

子宮AVMには後天的なものと先天的なものがあると一般に考えられている。後天的なものは、子宮内容除去術を含む手術による機械的損傷、子宮内避妊具、絨毛性疾患や子宮体癌、感染などがその発生原因であると考えられている²⁾。一方、これらの既往のない婦人にも子宮AVMの報告例があり、また、妊娠34週で死産した女児の剖検例における子宮AVM⁴⁾や、小児期からしばしば性器出血のみられた症例³⁾などがあることから、先天的な子宮AVMも存在するものと考えられている。今回の2症例はいずれも子宮内容除去術の既往があり、この手術が子宮AVMの成因となった可能性がある。

報告例の多くは20～40歳代であるが、これまでの報告例の最高年齢は72歳である⁶⁾。一般に子宮AVMは、大量の性器出血を主訴として受診する。しかし、無症状で、他疾患にて摘出された子宮に偶然に発見されることもしばしばある²⁾。

診断としては、子宮筋層内に拡張した血管性腫瘤をとらえることが重要である。双合診にて子宮に動脈性拍動を触知することがあるとされる²⁾。従来は、子宮AVMの確定診断には血管造影が最も有用であったが、これには侵襲性が高いという欠点がある。これにかわる非侵襲的な診断法として以下のものが挙げられる。超音波診断では、子宮筋層内に拡張した血管像がhypoechoic areaと

して認められることが多い。近年では、カラードップラーあるいはパルスドップラーが普及してきており、子宮筋層内に動脈性血流と静脈性血流とが混在している像が描出され、AVMの診断にきわめて有用であるとされている⁷⁾。また、造影CTやMRIも腫瘤の質的診断に有用である。今回の2症例においても、診察室にて超音波ドップラーにて子宮筋層内に血流のある病変が見出され、MRIにてAVMであることが確定され、最後に診断と治療をかねて血管造影が施行された。

子宮AVMの治療としては、大量の性器出血を呈している場合、患者に挙児希望がなければ子宮全摘術が行われる。挙児希望がある場合には子宮動脈のTAEが第一選択となる。子宮AVMに対するTAEの成功例は1982年に初めて報告され⁸⁾、以後報告が続いている。塞栓には、金属コイル、ポリビニルアルコールスポンジ、ゼラチンスポンジ、isobutyl 2-cyanoacrylate、バルーン、thrombin、lead microsphereなどが使用されている²⁾⁹⁾。また最近、子宮AVMに対して麦角類であるmethylergonovine maleateを投与したところAVMが消退したという報告がある¹⁰⁾。追加報告がないので一般的治療となりうるかについては不明であるが、TAEよりもさらに非侵襲的治療であり、今後の検討が期待される。

TAE施行後の妊娠はわれわれの知る範囲では8例が報告されている^{8)9)11)～16)}。1例は妊娠継続に対する不安が強く患者の希望にて妊娠16週に中絶術を受けているが¹¹⁾、他の症例ではすべて生児が得られており早産4例、満期産3例である。早産の1例は妊娠30週に腹痛が生じ、fetal distressが認められ帝王切開で1,389gの児を分娩している¹²⁾。新生児の血液からListeriaが検出されているがfetal distressの原因は不明である。2例目は前置胎盤で妊娠32週に性器出血が増量し帝王切開で1,240gの児を分娩している¹³⁾。3例目は妊娠34週に分娩している(児体重および分娩様式は不明)¹⁴⁾。4例目は妊娠35週に陣痛が発来し2,600gの児を経膣分娩している¹⁵⁾。満期産の3例は、既往手術があり予定帝王切開にて分娩の2例(児はそれぞれ3,100gと2,710g)⁸⁾⁹⁾と経膣分娩(児は

3,962g)の1例である¹⁶⁾。今回報告した2症例ではいずれも胎児の発育は良好であったので、今回の2症例を含めた10例をみると、妊娠32週で1,240gの1児を除いて児の発育は良好で胎児発育遅延は認められず、子宮動脈TAEによる子宮胎盤血流の低下が生じる可能性は低いと考えられる。なお、症例2において一側卵巣動脈にTAEを行ったが、他の妊娠症例にはこのような例はなく、今回は副作用がなかったものの、この処置の必要性の判断は困難である。また、分娩様式としては原則として経膈分娩を行ってよいと考えられる。しかし、TAE施行後の妊娠は本症例を含めわずかに10例であり一般にどのような妊娠経過をとるのかは判断できないので、注意深い周産期管理が必要であろう。

また未治療の子宮AVMを合併した妊娠で、妊娠38週に突然腹腔内出血を生じ、子宮胎盤血流の低下からfetal distressが生じたという報告がある¹⁷⁾。子宮AVMによる出血は性器出血が一般的であるが、AVMの血管破綻の部位によっては出血が腹腔に向かう可能性があると考えられる。AVM治療後の妊娠においては、AVMの再発の有無に注意を払い、再発があれば稀には腹腔内出血を起こすことを念頭に置く必要があると思われる。

結 語

子宮AVMは稀な疾患であるが大量の性器出血に遭遇した場合には本疾患の可能性を考慮して治療にあたり、AVM患者に挙児希望があればまず保存的治療を試みるべきであり、その後の妊娠においては慎重な周産期管理が必要であると考えられた。

文 献

1. Dubreuil G, Loubat E. Aneurysme cirsoïde de l'uterus. *Ann Anat Pathol* 1926; 3: 697—718
2. Hoffman MK, Meilstrup JW, Shackelford DP, Kaminski PF. Arteriovenous malformations of the uterus: an uncommon cause of vaginal bleeding. *Obstet Gynecol Surv* 1997; 52: 736—740
3. 徳永修一, 安藤正明, 西内敏文, 山崎史行, 本山洋明, 吉岡 保. 子宮動脈奇形(arteriovenous malformation)の1症例. *日産婦誌* 1997; 49: 1011—1014
4. Kasznica J, Nisar N. Congenital vascular malfor-

5. Ghosh TK. Arteriovenous malformation of the uterus and pelvis. *Obstet Gynecol* 1986; 68 (suppl): 40—43
6. Diwan RV, Brenman JN, Selim MA, McGrew TL, Rashad FA, Rustia MU, Bellon EM. Sonographic diagnosis of arteriovenous malformation of the uterus and pelvis. *J Clin Ultrasound* 1983; 11: 295—298
7. Musa AA, Hata T, Hata K, Kitao M. Pelvic arteriovenous malformation diagnosed by color flow Doppler imaging. *Am J Radiol* 1989; 152: 1311—1312
8. Forssman L, Lundberg J, Scherstén T. Conservative treatment of uterine arteriovenous fistula. *Acta Obstet Gynecol Scand* 1982; 61: 85—87
9. Arredondo-Soberon F, de Mola JRL, Shlansky-Goldberg R, Tureck RW. Uterine arteriovenous malformation in a patient with recurrent pregnancy loss and a bicornuate uterus. *J Reprod Med* 1997; 42: 239—243
10. Flynn MK, Levine D. The noninvasive diagnosis and management of a uterine arteriovenous malformation. *Obstet Gynecol* 1996; 88: 650—652
11. Vogelzang R, Nemcek A, Skrtic Z, Gorrel J, Lurain J. Uterine arteriovenous malformations: primary treatment with therapeutic embolization. *J Vasc Interv Radiol* 1991; 2: 517—522
12. Tacchi D, Loose HW. Successful pregnancy after selective embolization of a post-molar vascular malformation: case report. *Br J Obstet Gynecol* 1988; 95: 814—817
13. Chapman DR, Lutz MH. Report of a successful delivery after nonsurgical management of a choriocarcinoma-related pelvic arteriovenous fistula. *Am J Obstet Gynecol* 1985; 153: 155—157
14. Gaens J, Desnyder L, Raat H, Stockx L, Wilms G, Baert AL. Selective transcatheter embolization of a uterine arteriovenous malformation with the preservation of the reproductive capacity. *J Belge Radiol* 1996; 79: 210—211
15. Poppe W, Van Assche FA, Wilms G, Favril A, Baert A. Pregnancy after transcatheter embolization of a uterine arteriovenous malformation. *Am J Obstet Gynecol* 1987; 156: 1179—1180
16. Chow TWP, Nwosu EC, Gould DA, Richmond DH. Pregnancy following successful embolisation of a uterine vascular malformation. *Br J Obstet Gynecol* 1995; 102: 166—168
17. Simpson I, Ng A, Griffin C. A rare cause of an acute abdomen in late pregnancy. *Aust NZ J Obstet Gynecol* 1995; 35: 435—436

(No. 7993 平10・10・30受付, 平10・12・14採用)