

診 療

発作性上室性頻拍を合併した胎児心房中隔瘤の1症例

九州大学医学部婦人科学産科学教室

*九州大学医学部附属病院周産母子センター

柳井 繁章 佐藤 昌司* 中山 英樹*

小柳 孝司* 中野 仁雄

Antenatal Diagnosis of Fetal Atrial Septal Aneurysm Possibly Causing Paroxysmal Supraventricular Tachycardia

Shigeaki YANAI, Shoji SATOH*, Hideki NAKAYAMA*,

Takashi KOYANAGI* and Hitoo NAKANO

Department of Gynecology and Obstetrics, Faculty of Medicine, Kyushu University, Fukuoka

**Maternity and Perinatal Care Unit, Kyushu University Hospital, Fukuoka*

Abstract We report a case of atrial septal aneurysm possibly causing paroxysmal supraventricular tachycardia (PSVT), successfully diagnosed in utero. The fetus was noted to have supraventricular premature contraction (SVPC) at 32 weeks' gestation, and at 36 weeks' two-dimensional echocardiography revealed a redundant membranous structure at the level of the foramen ovale bulging into the left atrial cavity, indicating atrial septal aneurysm. The SVPC consequently shifted to PSVT at 37 weeks. An attempt at pharmacological conversion with transplacental digoxin administration was ineffective and cesarean delivery was performed. After birth, PSVT was completely converted to sinus rhythm at the 27th neonatal day and atrial septal aneurysm spontaneously disappeared by 5 months.

Key words : Antenatal diagnosis · Atrial septal aneurysm · Paroxysmal supraventricular tachycardia · Fetal echocardiography

緒 言

心房中隔瘤は、Lang and Posselt によって最初に報告された心腔内形態異常である¹⁾。筆者らは、妊娠32週に上室性期外収縮を発症し、超音波断層法で出生前に胎児心房中隔瘤と診断できた症例を経験したので報告する。

症 例

患者：M. N., 31歳，経妊3回経産1回。

既往歴：特記事項なし。

家族歴：父親が糖尿病。

妊娠分娩歴：21歳，妊娠8週，人工妊娠中絶。27歳，妊娠9週，自然流産。29歳，妊娠40週，4,086g男児，経陰分娩。

現病歴：平成7年3月31日より7日間を最終月経として妊娠が成立し，以後近医で妊婦健診を受けていた。妊娠32週の妊婦健診時に胎児の心調律

の不整がみられ，以後不整脈の頻度が増加するため，妊娠36週5日に精査目的で当科を紹介され，入院となった。

入院時現症：身長159cm，体重63.7kg，体温36.7℃，脈拍76bpm (beats per minute)，血圧110/62 mmHg，子宮底長34cm，腹囲84.5cm，内診所見は子宮頸管開大度0cm，展退度40%，先進部の位置SP-3，Bishop 値は1点であった。

入院時検査所見：白血球数6,320/ μ l，赤血球数328万/ μ l，血色素量10.1g/dl，ヘマトクリット値31.2%，血小板数23.5万/ μ l。尿一般検査，生化学検査，糖負荷試験(75gGTT)に異常なく，TORCH検査陰性，抗核抗体，抗SS-A抗体および抗SS-B抗体は，いずれも陰性であった。

超音波断層法所見：胎児発育は当該妊娠週数相当で，胸腹水，皮下浮腫および心嚢液は認めなかつ

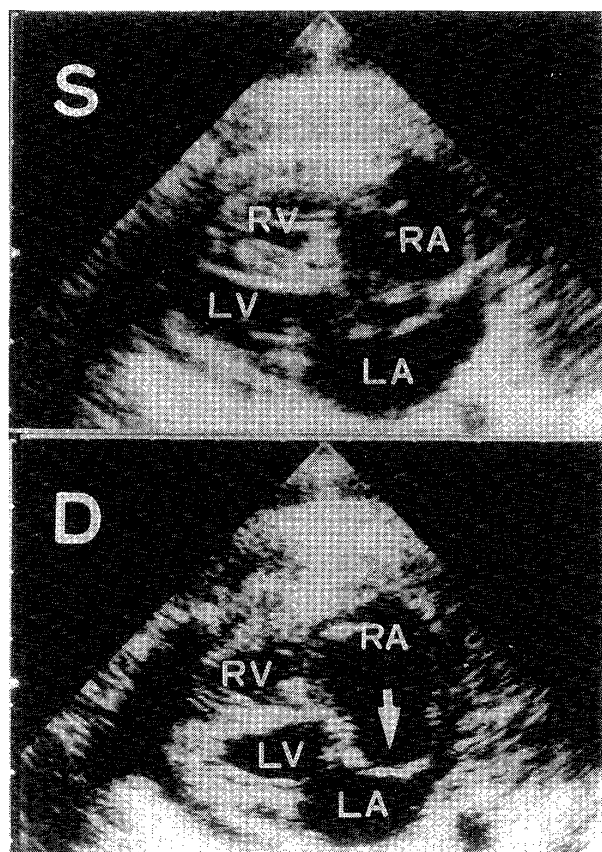


図1 超音波電子スキャンを用いた胎児心四腔断面像(妊娠36週5日)

心室拡張期には、幅15mmにわたって突出する(↓)膜様構造を認める。心室収縮期には、心房中隔に接する膜様構造の膨隆は消失している。

S：心室収縮期，D：心室拡張期，RA：右心房，LA：左心房，RV：右心室，LV：左心室

た。胎盤は子宮後壁常位付着であった。羊水深度は3cmで羊水量は正常であった。

心四腔断面像(妊娠36週5日)では心拡大所見は認めず、心房中隔の中央部に、心室拡張期には左心房内に幅15mmにわたってドーム状に突出し、心室収縮期には消失する膜様構造物が認められた(図1)。カラードプラ法では、膜様構造物の頭側端に位置する裂孔を通じて右心房から左心房内に流入する卵円孔通過血流が観察された。以上の所見から胎児心房中隔瘤と診断された。

dual-Mモード法(妊娠36週5日)で、心房の心拍数は140～170bpmで3～7心拍ごとに出現する上室性期外収縮(supraventricular premature contraction：SVPC)が認められた。心室の心拍数は80～110bpmで、SVPCに対応する心室の収縮は認め

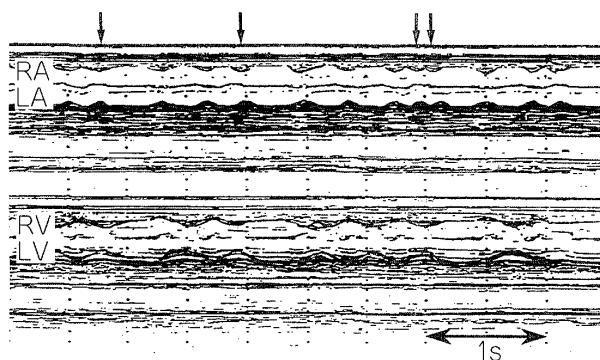


図2 胎児心の dual-M モード法(妊娠36週5日)
3～7心拍ごとに房室ブロックを伴う上室性期外収縮(↓)を認める。

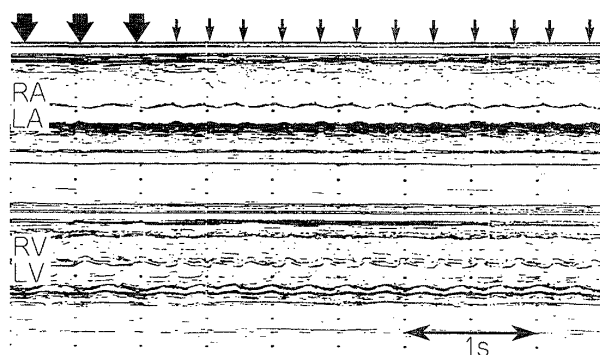


図3 胎児心の dual-M モード法(妊娠37週4日)
発作性上室性頻拍の M モード像。心拍数：200～220 bpm。洞調律(↓)と上室性期外収縮(↓)を認める。

られなかった(図2)。右心室と左心室の拡張終期径は各々、12mmおよび10mmで心室の拡張は認めなかった²⁾。fractional shortening(FS)は、正常洞調律時に右室26%、左室30%であり、心収縮率は正常であった。以上の所見から、心室あるいは房室結節の不応期に起因した房室ブロックを伴うSVPCと診断した。

入院後経過：妊娠37週0日、SVPCの頻度が漸増し、妊娠37週4日には、胎児心拍数陣痛図(CTG：Cardiotocogram)で2分間から5分間持続する200～220bpmの頻脈を認めるようになった。dual-Mモード法で、胎児の心房、心室ともに200～220bpmの収縮を認め、発作性上室性頻拍(Paroxysmal supraventricular tachycardia：PSVT)と診断された(図3)。同日測定した右心室と左心室の拡張終期径は各々、12mmおよび10mmで、妊娠36週5日の時点と変化はなかった。また、FSは右室20

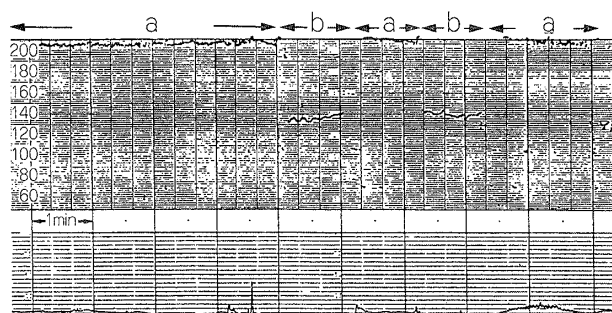


図4 ジゴキシシン開始後, 2日目における胎児心拍数陣痛図

心拍数基線200~220bpmの頻脈部分(←a→)と140~160bpmの正常心拍数部分(←b→)とを認める。

%, 左室25%と心収縮率にも異常は認めなかった。

PSVTを洞調律に復して胎児心機能低下を予防すること, および分娩時のCTG判定を可能にすることを目的に, 経胎盤的ジギタリス療法によるpharmacological conversionを開始した。妊娠37週5日に急速飽和量として0.75mg, さらに維持量として妊娠37週5~6日の2日間, 0.25mg/日のジゴキシシンを母体に経口投与し, 胎児心拍数の変化を観察したが, 投与開始後もPSVTの減少は認められなかった(図4)。維持量投与中の母体のジゴキシシン血中濃度は0.77ng/mlであった。経胎盤的ジギタリス療法の効果が認められないこと, および妊娠37週に達していることから, ジゴキシシンの投与方法および投与量の変更による胎内治療は断念して胎外治療の適応と判断し, 選択的帝王切開術(妊娠37週6日)を施行した。

母体の術後経過は良好で, 産褥8日に退院となった。

新生児経過: 児は男児で身長は46cm, 体重は3,560g, 1分Apgar値は8点, 5分Apgar値は8点, 臍帯動脈血pHは7.320であった。臍帯静脈血のジゴキシシン濃度は0.72ng/mlであった。児の心拍数は190~240bpmと頻脈であった。呼吸数は66/分, チアノーゼ, 心雑音はなく, 腹部膨満および肝脾腫も認めなかった。胸部X線単純写真で, 心胸郭比は58%で, 心弓の突出はなかった。

心電図によって, 心拍数200~240bpmの頻拍を伴うPSVTと診断された(図5)。超音波電子スキャンを用いた心四腔断面像で, 出生前と同様に卵円

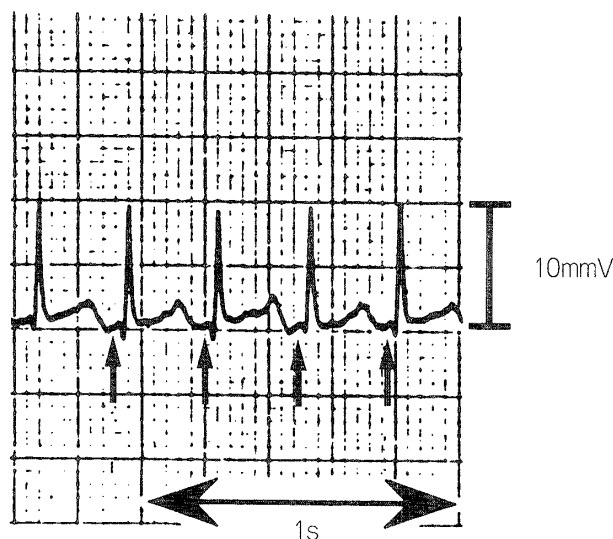


図5 新生児(第1生日)上室性頻拍発作時の心電図
心拍数は190~240bpmで, QRS波に先行するP波(↑)を認める。

孔部に左心房側に突出する12×7mmの膜様構造が観察され, 心房中隔瘤であることが確診された。

PSVTに対して, Adenosine triphosphate(ATP)を0生日に1.0mg(0.3mg/kg)を計3回急速静注法により, さらに同日, 3.0mg(1.0mg/kg)に増量して投与し, 加えて冷水タオルによる顔面刺激も試みたが, 効果を認めなかった。1生日よりジゴキシシンの急速飽和を開始した。ジゴキシシンの急速飽和量は, 0.05mgの静脈内投与とし, さらに維持量として一日あたり0.03mgの経口投与を行った。ジゴキシシン投与後の血中濃度は, 投与後2時間に4.42ng/mlに上昇した後, 48時間後には有効血中濃度(1.28ng/ml)に低下したため, 維持量の投与を開始した。その後の血中濃度は1.25~1.30ng/mlと, 有効血中濃度内で推移した。PSVTは, 同日, 一旦洞調律(120~140bpm)に復した。その後, 1日に数回再発する状態が続いていたが, 27生日までにはPSVTは完全に消失した。生後5カ月までに心房中隔瘤も徐々に縮小した。生後6カ月にジゴキシシンの投与を中止したが, 以後不整脈は認めず, 児は順調に成長している。

考 察

心房中隔瘤は, 心房中隔の先天的な結合組織の欠損に起因する疾患で, 中隔筋層から剥離した心内膜が心房内に瘤を形成する心腔内形態異常であ

る。本症の発生機序には、先天的な心房壁の脆弱性に加え^{3)~5)}、三尖弁閉鎖などの先天性心形態異常⁶⁾⁷⁾あるいは不整脈⁸⁾に伴う血行動態の変化が心房圧上昇を招き、その結果、二次的な変化として心房中隔瘤が生じると考えられている。心エコー法を用いれば、成人では0.2~2.0%の頻度で本症が検出される^{3)~7)}。Stewart and Wladimiroffによれば、胎児の心房中隔瘤の頻度は0.6%(8/1,273)であったという⁹⁾。

本症は、胎児心の四腔断面像で心房中隔壁から左心房腔内に突出する心房中隔の膜様構造として観察される。心室拡張期に左心房径の1/2以上にわたる膜様物の突出が認められる状態が本症を診断する基準である⁹⁾。筆者らの症例は、彼らの基準によく合致する所見であった。

心房中隔瘤の存在そのものが機械的あるいは流体力学的に心腔内血行動態の変調を来し、胎児・新生児の心機能不全を惹起したとの報告は認められない。本症は胎児・新生児における上室性不整脈の原因疾患のひとつとみなされている。胎児期に上室性不整脈を呈した148例のなかで8例(5.4%)に心房中隔瘤が認められたと報告されている⁹⁾。Rice et al.も同様に胎児上室性不整脈と本症との関連が高いことを示している⁸⁾。筆者らの症例では、上室性期外収縮の発生頻度が妊娠週数の進行に伴って漸増し、妊娠37週には発作性上室性頻拍に移行した。心房中隔瘤が上室性期外収縮あるいは発作性上室性頻拍といった上室性不整脈を引き起こす機序は明らかでないが、心房中隔瘤の基部に異所性調律中枢が見出された症例が報告されていること¹⁰⁾を参照すれば、心房中隔瘤が側副伝導路あるいは異所性調律中枢として機能していることが示唆される。本症例では、上室性期外収縮に房室ブロックを伴っていた。心房中隔瘤に房室ブロックを伴うという報告はなく、またdual-Mモード記録上、上室性期外収縮時の心室収縮に代償期が存在していたことから、本症例の房室ブロックは心室ないしは房室結節の不応期によるものと考えられた。

本症の予後は、主として不整脈の種類と発生頻度によって規定される。上室性期外収縮のみの症

例では、胎児期および新生児期に治療を要した報告はない。しかしながら、本症例のように発作性上室性頻拍、心房粗動あるいは心房細動といった頻拍性不整脈を合併した症例では、胎児期および新生児期に心不全の発症を認めることがあることから、治療の適応となる⁹⁾¹¹⁾。治療は内科的な治療が主である。文献的には、胎児の頻拍性不整脈に対する第一の選択剤はdigoxinであり、無効な場合にquinidine, procainamide, amiodaroneあるいはverapamilなどの他の薬剤を併用するという方法が主流である¹²⁾¹³⁾。投与経路に関しては、経胎盤的投与が一般的であるが、母体血中のジギタリス濃度が有効血中濃度であるにもかかわらず臍帯血中濃度が有効濃度に達しない症例、あるいは母体側にジギタリスの副作用が出現した例では、ジギタリスの羊水内投与、臍静脈内投与および胎児筋肉内投与が試みられている^{12)~16)}。一方、新生児期における治療の第1選択薬はAdenosine triphosphate(ATP)であり、無効例あるいは副作用の強い例ではジギタリス療法が行われる¹⁷⁾。さらに内科的治療の無効な新生児に対しては、外科的中隔瘤切除の報告もなされている¹¹⁾。本症例では胎児期に経胎盤的ジギタリス療法を試みたが、臍帯血中のジギタリス濃度が有効血中濃度(1.0~2.0ng/ml)に達せず、効果を得るに至らなかった。しかしながら治療開始時期が妊娠37週であったことから、投与薬および投与方法の変更を断念して胎外治療を選択した。さらに新生児期におけるATP投与も無効であり、第2選択薬であるジギタリス療法によって不整脈は徐々に消失した。胎児心房中隔瘤に頻拍性不整脈を併発した症例では、妊娠週数の早い場合には、積極的な経胎盤的ジギタリス治療を考慮すべきであり、無効な場合には投与薬および投与方法の変更による胎内治療を試みるべきと考える。

胎児不整脈症例における分娩様式の選択は、分娩中における胎児健常性の評価の可否によって決定される。分娩中の胎児管理には、一般的に胎児心拍数陣痛図が用いられる。しかしながら、上室性頻拍症および完全房室ブロックのように洞調律から逸脱した心調律を有する疾患では、胎児心拍

パターンによる胎児健常性の判定が不可能である。文献的には、心房収縮を連続測定することによって経膈分娩を試みた報告¹⁸⁾あるいは破水後に胎児頭皮採血および胎児 SpO₂をモニタリングすることによって胎児低酸素症および胎児アシドーシスの存否を診断した報告もなされている¹⁹⁾²⁰⁾が、一般的には選択的帝王切開術が施行されているのが現状である²¹⁾。本症例では、持続する上室性頻拍のために胎児心拍数陣痛図を用いた胎児低酸素症および胎児アシドーシスの存否の判定が困難であったこと、加えて未破水例であり、頸管成熟も不十分であったことから選択的帝王切開術を施行した。

文 献

1. Lang FJ, Posselt A. Aneurysmatische Vorwölbung der fossa ovalis in den linker Vorhof. Wein Med Wochenschr 1984 ; 84 : 392—396
2. Koyanagi T, Hara K, Satoh S, Yoshizato T, Nakano H. Relationship between heart rate and rhythm, and cardiac performance assessed in the human fetus in utero. Int J Cardiol 1990 ; 28 : 163—171
3. Silver MD, Dorsey JS. Aneurysms of the septum primum in adults. Arch Pathol Lab Med 1978 ; 102 : 62—65
4. Wolf WJ, Casta A, Sapire DW. Atrial septal aneurysm in infant and children. Am Heart J 1987 ; 113 : 1149—1153
5. Roberts WCL. Aneurysm (redundancy) of the atrial septum (fossa ovale membrane) and prolapse (redundancy) of the mitral valve. Am J Cardiol 1984 ; 54 : 1153—1154
6. Hanley PC, Tajik AJ, Hynes JK, Edwards WD, Reeder GS, Hagler DJ, Seward JB. Diagnosis and classification of atrial septal aneurysm by two-dimensional echocardiography : Report of 80 consecutive cases. J Am Coll Cardiol 1985 ; 6 : 1370—1382
7. Barbosa MM, Pena JLB, Motta MMS, Fortes PRL. Aneurysms of the atrial septum diagnosed by echocardiography and their associated cardiac abnormalities. Int J Cardiol 1990 ; 29 : 71—78
8. Rice MJ, McDonald RW, Reller MD. Fetal atrial septal aneurysm : A cause of fetal atrial arrhythmias. JACC 1988 ; 12 : 1292—1297
9. Stewart PA, Wladimiroff JW. Fetal atrial arrhythmias associated with redundancy/aneurysm of the foramen ovale. J Clin Ultrasound 1988 ; 16 : 643—650
10. Miyamura H, Nakagomi M, Eguchi S, Aizawa Y. Successful surgical treatment of incessant automatic atrial tachycardia with atrial aneurysm. Ann Thor Surg 1990 ; 50 : 476—478
11. Varghese PJ, Simon AL, Rosequist GC, Berger M, Rowe RD, Bender HW. Multiple saccular congenital aneurysms of the atria causing persistent atrial tachyarrhythmias in an infant : Report of a case successfully treated by surgery. Pediatrics 1969 ; 44 : 429—433
12. Truccone N, Mariona F. Intrauterine conversion of fetal supraventricular tachycardia with combination of digoxin and verapamil. Pediatr. Pharmacol. 1985 ; 5 : 149—153
13. Rey E, Duperron L, Gauthier R, Lemay M, Grignon A, LeLorier J. Transplacental treatment of tachycardia-induced fetal heart failure with verapamil and amiodarone : a case report. Am J Obstet Gynecol 1985 ; 153 : 311—312
14. Hamamoto K, Iwamoto HS, Roman CM, Benet LZ, Rudolph AM. Fetal uptake of intraamniotic digoxin in sheep. Pediatr Res 1990 ; 27 : 282—285
15. Gembruch U, Manz M, Bald R, Ruddel H, Redel DA, Schlebusch H, Nitsch J, Hansmann M. Repeated intravascular treatment with amiodarone in a fetus with refractory supraventricular tachycardia and hydrops fetalis. Am Heart J 1989 ; 118 : 1335—1338
16. Hallak M, Neerhof MG, Perry R, Nazir M, Huhta JC. Fetal supraventricular tachycardia and hydrops fetalis : Combined intensive, direct, and transplacental therapy. Obstet Gynecol 1991 ; 78 : 523—525
17. Greco R, Musto B, Arienzo V, Alborino A, Garofalo S, Marsico F. Treatment of paroxysmal supraventricular tachycardia in infancy, with digitalis, adenosine-5'-triphosphate, and verapamil : a comparative study. Circulation 1982 ; 66 : 504—508
18. Kleinman CS, Copel JA, Hobbins JC. Combined echocardiographic and doppler assessment of fetal congenital atrioventricular block. Br J Obstet Gynaecol 1987 ; 94 : 967—974
19. Sherman SJ, Featherstone LS. Congenital complete heart block and successful vaginal delivery. J perinat 1997 ; 17 : 489—491
20. 天野 完, 平野聡子, 西島正博. 胎児動脈血酸素飽和度(SpO₂)モニタリングの意義. 日産婦誌 1996 ; 48 : 96—102
21. Stewart PA, Tonge HM, Wladimiroff JW. Arrhythmia and structural abnormalities of the fetal heart. Br Heart J 1983 ; 50 : 550—554

(No. 7999 平10・10・5 受付, 平10・12・14採用)