

診 療

胎盤血管の破綻により子宮内胎児死亡を招来した 胎盤羊膜下血腫の1症例

¹⁾九州大学医学部附属病院産科婦人科

²⁾九州大学医学部附属病院周産母子センター

³⁾九州大学大学院医学研究院生殖病態生理学

吉村 宜純¹⁾ 佐藤 昌司²⁾ 柳井 繁章¹⁾

月森 清巳³⁾ 平川 俊夫³⁾ 中野 仁雄³⁾

A Case Report of Intrauterine Fetal Demise and Subamniotic Hematoma Due to Suspected Rupture of Placental Vessels

Takazumi YOSHIMURA¹⁾, Shoji SATOH²⁾, Shigeaki YANAI¹⁾, Kiyomi TSUKIMORI³⁾,

Toshio HIRAKAWA³⁾ and Hitoo NAKANO³⁾

¹⁾Department of Obstetrics and Gynecology, Faculty of Medicine, Kyushu University, Fukuoka

²⁾Maternity and Perinatal Care Unit, Kyushu University Hospital, Fukuoka

³⁾Department of Obstetrics and Gynecology, Graduate School of Medical Sciences, Kyushu University, Fukuoka

Abstract We report a case resulting in intrauterine fetal demise and subamniotic hematoma due to suspected rupture of the placental vessel at 35 weeks of gestation. She was referred to our hospital at 30 weeks of gestation due to a placental mass which was diagnosed as partial hydatidiform mole or a placental septal cyst. At 35 weeks of gestation, vaginal bleeding occurred suddenly, and by ultrasonography we diagnosed the condition as intrauterine fetal demise. Blood collected in the vagina proved to be of fetal origin. The stillborn neonate was extremely pale, and both a subamniotic hematoma and a placental septal cyst were identified in the placenta, indicating that fetal blood loss lead clue to the rupture of the fetal vessels in the placenta as the cause of fetal demise.

Key words : Placental disease · Septal cyst · Subamniotic hematoma · Intrauterine fetal death

緒 言

胎盤羊膜下血腫は、胎児血管の破綻に起因して胎盤羊膜と絨毛膜板の間に形成される血腫であり、子宮内発育遅延あるいは子宮内胎児死亡の原因となることが報告されている¹⁾²⁾。筆者らは、妊娠35週に胎盤内胎児血管の破綻により子宮内胎児死亡および羊膜下血腫を招来した症例を経験したので報告する。

症 例

患者：T. A., 25歳，経妊1回経産0回。

主訴：胎盤腫瘍の精査。

既往歴，家族歴：特記事項なし。

現病歴：平成11年5月1日から7日間を最終月経として妊娠成立し，以後近医で妊婦健診を受けていた。妊娠30週1日の妊婦健診で超音波断層法上，胎盤実質内に嚢胞状部分を指摘されたため，妊娠30週3日に精査目的で当院周産母子センターに入院となった。

入院時現症および検査所見：入院時，身長156cm，体重56.6kg(非妊時体重47kg)，体温35.8℃，血圧102/56mmHg，脈拍数76/分，腹囲89cm，子宮底長30cmであり，理学的所見で異常を認めなかつ

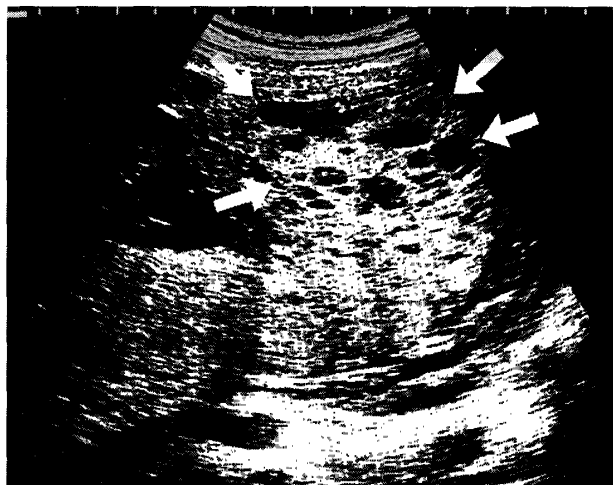


図1 胎盤の超音波断層所見(妊娠31週1日)
子宮体部水平断で、胎盤は常位で子宮後壁に付着し、正常胎盤部に連続して囊胞状部分を有する、 $8.9 \times 7.9 \times 4.5$ cmの腫瘤(→)を認める。

た。内診所見では、子宮頸管開大度0cm、展退度0%、先進度の位置はSt-3でBishop値0点であった。

超音波断層法では、児頭大横径および大腿骨長は8.4cmおよび5.1cmと胎児発育は妊娠週数相当であり、形態異常も認めなかった。羊水深度は2.7cm、超音波ドプラ法による臍帯動脈 Resistane Index 値は0.73といずれも正常であった。胎盤は常位で子宮後壁に付着し、正常胎盤部に連続して大小不同の囊胞状部分を有する $8.9 \times 7.9 \times 4.5$ cmの腫瘤を認めた(図1)。腫瘤内部に血流は認めず、臍帯付着異常も認められなかった。

胎盤腫瘍の鑑別診断のために施行した腹部MRI検査では、囊胞状腫瘍は多胞性で、信号強度はT1、T2強調像ともに低信号であり、部分胞状奇胎あるいは胎盤中隔囊胞が疑われた。

血液一般検査では、白血球数 $7.58 \times 10^3/\mu\text{l}$ 、赤血球数 $2.92 \times 10^6/\mu\text{l}$ 、血色素量8.5g/dl、血小板数 $189 \times 10^3/\mu\text{l}$ と貧血を認めた。生化学検査では、肝腎機能検査に異常を認めず、HbFは0.3%と正常であった。凝固系検査で出血時間、凝固時間、PT、APTT、FDPはおおの2分30秒、5分30秒、10.8秒、33.1秒、 $5.6 \mu\text{g}/\text{ml}$ と正常であった。TORCHスクリーニングも陰性であった。血中 β -hCG値および尿中hCG値は24ng/mlおよび $1.6 \times 10^5 \text{mIU}/$

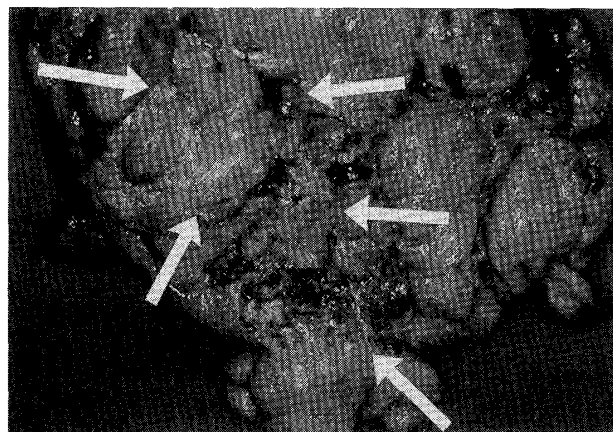


図2 胎盤母体面の肉眼的所見
正常胎盤部に連続して最大3cm径の囊胞状部分を多数認める(→)。

mlといずれも妊娠週数相当であった。胎児心拍陣痛図は心拍数基線150bpmでreactive patternであった。

以上より、妊娠31週1日、胎盤腫瘍(部分胞状奇胎あるいは胎盤中隔囊胞疑い)および貧血と診断した。

入院後の経過：入院後、母体に性器出血は認めず、妊娠中毒症あるいは甲状腺機能亢進症を示唆する所見も認められなかった。胎盤腫瘍の増大はなく、また胎児の発育および胎児心拍陣痛図および臍帯動脈血流評価による健常性の判定でも良好であったため、妊娠継続の方針とした。

妊娠35週2日、午前3時に120bpmの胎児心拍を確認後、午前5時30分に約200mlの無痛性子宮出血が出現した。母体のバイタルサインに変化はなく、理学的所見で子宮は軟で圧痛および収縮は認められなかった。腔鏡診では、外子宮口から少量の持続性出血を認めた。この際に施行した超音波断層検査で胎児心拍の停止を確認し、子宮内胎児死亡と診断した。正常胎盤部および胎盤腫瘍部の変化はなかったことから、常位胎盤早期剥離は否定的と判断した。しかしながら、その後も30分間で約50gの子宮出血が持続し、止血傾向が認められないため、胎盤剥離出血と考え子宮切開術を施行した。

開腹所見では、腹腔内出血および子宮 Couvelaire 徴候は認められなかった。子宮下部横切開で

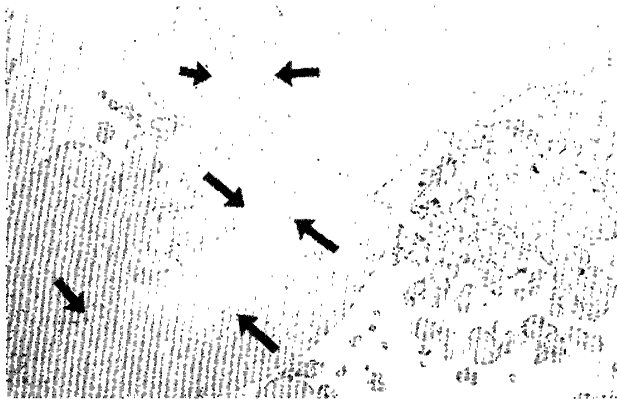


図3 胎盤嚢胞部の病理組織学的所見
絨毛の水腫様腫大, 栄養膜細胞の増生はなく, 胎盤中隔内に偽嚢胞(→)を多数認めたことより, 胎盤中隔嚢胞と診断した。

児を娩出した後, 子宮後壁に付着した胎盤を用手剥離した。羊水は非血性であった。以上の術中所見から常位胎盤早期剥離, 前置胎盤および前置血管は否定された。

胎盤所見では, 胎盤重量は910gで, 胎盤母体面に最大3cmの嚢胞状部分を多数認めた(図2)。同部の病理組織学的所見では, 胎盤中隔内の被覆上皮のない大小不同の偽嚢胞を多数認めた。絨毛の水腫様腫大および栄養膜細胞の増生所見もなかったことより, 同部位は胎盤中隔嚢胞と診断された(図3)。さらに, 胎盤胎児面には臍帯付着部位に一致して5×6cmの半球状隆起を認め(図4), ホルマリン固定後の剖面像で一部器質化した羊膜下血腫と診断した(図5)。死産児の病理解剖所見では, 児は体重2,088gの女児で, 外表奇形はなく, 表皮は高度貧血調であった。開頭, 開胸および開腹を行ったが内出血の所見はなかった。

子宮切開術後に判明した腔内貯留血分析では, 血液型はAB型で母体のA型と一致せず, さらに平均赤血球容量136fl, HbF 88%, Kleihauer-Betke染色陽性であったことから, 腔内貯留血は胎児由来と判断した。以上より, 子宮内胎児死亡の原因は胎盤内胎児血管の破綻による失血死と診断した。

母体の術後経過は良好で, 術後9日目に退院となった。

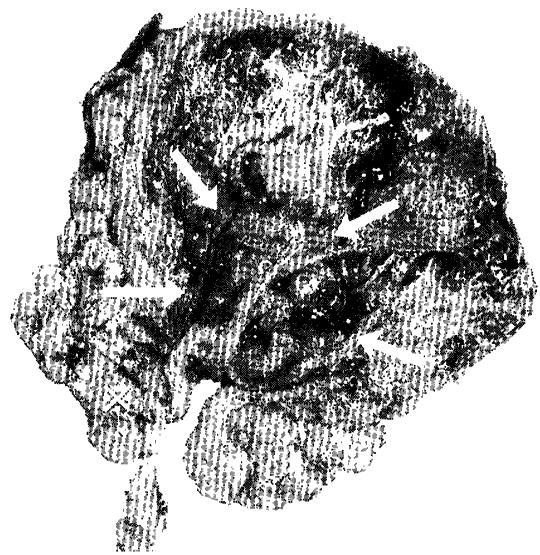


図4 胎盤胎児面の肉眼的所見
臍帯は胎盤側方に付着(*)し, その周囲に5×6cmの半球状に隆起した腫瘤を認める(→)。



図5 図4の胎盤腫瘤部における剖面像
ホルマリン固定後の臍帯付着部腫瘤剖面像。一部器質化した羊膜下血腫を認める(→)。

考 察

胎盤羊膜下血腫は胎児血管の破綻により胎盤羊膜と絨毛膜板の間に限局する血腫³⁾であり, 肉眼下胎盤胎児面に半球状に隆起した暗赤色調の腫瘤として認められる。その発生頻度, 発生時期に関する報告は明らかではないが, 妊娠中・後期に発生した場合, 子宮内発育遅延あるいは子宮内胎児死亡の原因となり得ることが報告されている¹⁾²⁾⁴⁾⁵⁾。deSaは, 病理組織学的な観点から, 本症の原因について考察している¹⁾。それによれば, 胎内での臍

帯圧迫などにより臍帯血管内圧の上昇が生じ、臍帯血管壁の脆弱化が生じ、さらに臍帯の強い牽引や臍帯血管内圧の上昇が重畳する場合に胎児血管が破綻し、羊膜下血腫が形成されるという。

羊膜下血腫は超音波断層所見上、胎盤の胎児面から隆起し、周囲との境界明瞭な腫瘤として認められること、内部エコーは時間経過とともに血腫形成初期の高輝度から次第に囊胞像に変化することが報告されている⁶⁾。本症例では、胎盤の病理組織学的検査で羊膜下血腫の一部が器質化していたことから、子宮内胎児死亡に至る以前に、すでに胎児血管が破綻して羊膜下血腫が形成されていたことが推察された。しかしながら、出血を来した時点では正常胎盤部および胎盤腫瘤部のいずれの部位にもエコー輝度の変化は認めず、また、経時的な臍帯動脈血流速度波形および胎児心拍陣痛図にも異常を認めなかった。さらに、MRI検査でも血腫を示唆する所見はなく、出生前に胎盤羊膜下血腫あるいは胎児貧血を診断することはできなかった。

一方、本症例において出生前に認められた囊胞状腫瘤は、病理組織学的検査で胎盤中隔囊胞と診断された。本囊胞は、胎盤基底板から絨毛間腔に突出する胎盤中隔が変性した偽囊胞であり、組織学的にはほとんどすべての胎盤で認められるという⁷⁾。胎盤中隔は母体由来の組織であるため、本症と胎児出血の関連は少ないと考えられ、文献的にも胎盤中隔囊胞と胎児出血あるいは羊膜下血腫との関連を論じた報告はなされていない。しかしながら、本症例を羊膜下血腫の出生前超音波診断の観点からみれば、本囊胞の存在のために超音波画像上、羊膜下血腫の診断が困難となり、このことがひいては胎児出血による子宮内胎児死亡を予防できなかった一因と考えている。

胎児出血の原因として、胎児母体間輸血、双胎間輸血症候群や自己免疫性血小板減少性紫斑病あるいは凝固因子欠乏症といった出血性疾患、前置血管を代表とする胎児付属物の異常などが報告されている^{8)~11)}。本症例においては、羊膜下血腫の存在、および母体血液学的検査、腔内貯留血検査および児の病理解剖所見から、胎児死亡の原因は

胎盤内胎児血管の破綻による胎児の急性失血と考えられた。本症例のように、子宮内で急激に失血を来す胎児および胎児付属物疾患に対して発生を予知し、かつ児の救命に向けての対応が可能か否かについては、個々の症例における病像進行の速度にも依存するため、画一的な方針の提示は困難である。しかしながら、少なくとも事前に病変部の存在が確認された症例、ないしは本症例のように胎盤腫瘤が認められる症例では、胎児の健常性悪化のリスクを念頭に置き、胎動の確認および頻回の胎児心拍陣痛図による評価を行うこと、さらに性器出血出現の際には可及的迅速に胎児出血の除外診断を行うことが必要と考えられた。

本論文の一部は、第55回日本産科婦人科学会九州連合地方部会で発表した。

文 献

1. deSa DJ. Rupture of fetal vessels on placental surface. Arch Dis Child 1971; 46: 495—501
2. Deans A, Jauniaux E. Prenatal diagnosis and outcome of subamniotic hematomas. Ultrasound Obstet Gynecol 1998; 11: 319—323
3. Fox H. Pathology of placenta. Philadelphia: WB Saunders, 1978
4. Jauniaux E, Moscoso G, Campbell S, Gibb D, Driver M, Nicolaides KH. Correlation of ultrasound and pathologic findings of placental anomalies in pregnancies with elevated maternal serum alpha-fetoprotein. Eur J Obstet Gynecol 1990; 37: 219—230
5. Kirkinen P, Jouppila P. Intrauterine membranous cyst: a case report of antenatal diagnosis and obstetrics aspects in two cases. Obstet Gynecol 1986; 67: 26—30
6. Jauniaux E, Campbell S. Ultrasonographic assessment of placental abnormalities. Am J Obstet Gynecol 1990; 163: 1650—1658
7. Fox H. SEPTAL CYSTS OF THE PLACENTA. Journal of Obstetrics & Gynaecology of the British Commonwealth 1965; 72: 745—747
8. Cohen F, Zuelzer WW, Gustafson DC. Mechanism of isoimmunization. I. The transplacental passage of fetal erythrocytes in homospecific pregnancies. Blood 1964; 23: 621—625
9. Burrows RF, Caco Chris, Kelton JG. Neonatal alloimmune thrombocytopenia: spontaneous in utero intracranial hemorrhage. Am J Hematol 1988; 28: 98—102
10. Myers S. Fetal subdural hematoma before labor. Am J Obstet Gynecol 1991; 163: 934—935
11. Vago T, Caspi E. Antepartum bleeding of injury of velamentous placental vessels. Obstet Gynecol 1988; 28: 177—178

(No. 8150 平12・11・10受付, 平12・12・18採用)