胎児超音波スクリーニングで検出された動脈管走行異常の1例

許 春花¹⁾・福本 悟²⁾・赤松 信雄²⁾・黒崎 智美²⁾
福本 俊³⁾・田中 友美³⁾・増山 寿¹⁾

1) 岡山大学病院 産科婦人科

2) 赤穂中央病院 産婦人科

3) 小国病院

A case of unusually located ductus arteriosus detected on fetal ultrasound screening

Haruka Kyo¹⁾・Satoru Fukumoto²⁾・Nobuo Akamatsu²⁾・Tomomi Kurosaki²⁾
Shun Fukumoto³⁾・Tomomi Tanaka³⁾・Hisashi Masuyama¹⁾

1) Department of Obstetrics and Gynecology, Okayama University Hospital

2) Department of Obstetrics and Gynecology, Ako Central Hospital

3) Oguni Hospital

妊娠20週の超音波スクリーニングで走行不明な動脈管を経験した。その後の精査により、大動脈弓の右背側に回り反転することが判明した。下行大動脈との結合部は通常位置であるが、やや右よりであった。妊娠経過異常なく、出生2日目で血流は消失した。妊娠後半で動脈管の蛇行を確認することは多いが、このような極端な症例の報告は見られない。心エコー施行時、かかるvariationがあることは留意されるべきものと思われる。

A case of ductus arteriosus with an unnatural structure was detected on ultrasound screening at 20 weeks of gestation. Further scrutiny revealed that the ductus arteriosus was kinked to the right and back of the aortic arch, and inverted. It then connected slightly to the right-side wall of the descending aorta. The pregnancy was uneventful, and blood flow could not be detected in the ductus arteriosus on the second day after birth. We can observe many levels of winding and twisting of the ductus arteriosus in the third trimester of pregnancy by ultrasound. In the present case, the ductus arteriosus was considered very rare, and such variations must be noted by cardiac sonographers.

キーワード：動脈管，胎児心エコー，胎児超音波スクリーニング

Key words：ductus arteriosus, fetal echocardiography, fetal ultrasound screening

緒 言

近年の超音波診断装置の性能向上にともない、出生前の胎児超音波スクリーニング、特に胎児心エコーは広く普及してきている。当院では2012年に症例を選択して開始し、2014年には全妊婦を対象に妊娠27～28週で1回、2017年からは妊娠20週と妊娠28週の2回、超音波検査技師による胎児心臓の精査を施行している。最近、妊娠20週で特異な走行を示す動脈管症例を経験し、その診断に苦慮したため、その超音波画像並びに出生後経過に関して報告する。

症 例

39歳

既往歴：花粉症

妊娠歴：4妊1産

家族歴：マルファン症候群等の結合織異常の家族歴なし。

現病歴：不妊クリニックにて加療し、妊娠が成立した。

妊娠7週0日、初診、切迫流産にて当日入院加療し、経過良好にて退院した。以降、外来にて妊娠経過管理をしていた。

超音波所見：

妊娠20週0日に超音波スクリーニングを行った。4 Chamber View, 3 Vessel Viewのいずれにも異常は認めなかった。Three Vessel Trachea View (3VTV) で大動脈弓と動脈管の合流が呈するVサインが確認できず、動脈管と大動脈弓が交差してX状に見えた(図1)。

その1週間後に再検したところ、動脈管と下行大動脈合流部分にVサインが確認され(図2)、両者とも狭窄、拡張は認めず、血流は順行性でmosaic patternも見られなかった。しかし、動脈管は大動脈弓と交差して、その後血流は逆行性に变化して、左右が入れ替わって観察されたため、週数が進んでから再度精査をすることとした。しかしその他に、心奇形を考えるような異常所見は見られなかった。

その後妊娠26週6日に複数の検者で再度精査を行った

ところ、2方向の血流を示す動脈管ループを認めた。3VTV断面を確認し、動脈管と大動脈弓を丁寧に追跡したところ、動脈管が大動脈弓の右側にはみ出し1回転して、左鎖骨下動脈分岐部直下で右背側に鋭角をなして合流していることが判明した(図3, 4)。妊娠30週6日の心エコーで動脈管は下行大動脈と右側から順行性に合流していた(図5)。したがって、動脈管の形態はシェーマで示すと図6のようになり、動脈管が蛇行して反転したものと考えられた。

その後の妊娠経過は良好で、著変を認めず、妊娠37週4日低置胎盤にて選択的帝王切開術を施行した。新生児出生後Apgar score 1分後は9点、5分後は10点で、体重は3132gであった。出生後2日目に児の心エコー検査を施行したが、カラードプラ法ではすでに児の動脈管血

流を認めることができなかった。児の全身状態は良好で、出生後9日目に退院し、現在発育は順調である。

考 案

1. 正常胎児の動脈管

動脈管とは胎児期みられる肺動脈と大動脈をつなぐ血管であり、左右肺動脈分岐部あるいは、それに接した左肺動脈から分岐して、斜めにゆるやかに弧を描いて走行し、左鎖骨下動脈分岐部直下の下行大動脈に、鋭角をなして結合する¹⁾。胎児期には「静脈管」、「卵円孔」、「動脈管」の3つのバイパスが存在するが動脈管は右室からの血液を肺循環を通さず直接下行大動脈に送り込む胎児期独特の重要なバイパス経路である²⁾。

動脈管の発生は、原始心筒ができる妊娠5週末頃、大

図1 妊娠20週0日 3VTV所見
大動脈弓と動脈管はV字ではなくX字に、動脈管が大動脈を超える様に見えた。

図2 妊娠20週6日 3VTV所見
動脈管と大動脈合流部はV字状に確認され血流は順行性であった。

図3 妊娠26週6日
動脈管が下行大動脈の右後方に一部分突出して観察され、その直後で大動脈と合流していた。

図4 妊娠26週6日
典型的な動脈管弓が見られず、2方向の血流を示す動脈管ループを形成している。矢印は動脈管血流方向である。太矢印は大動脈横断面である。ブルーの部分は図6の①に相当、赤い部分は図6の②に相当。

図5 妊娠30週6日
図4の左よりの断面で、下行大動脈と動脈管の合流部、順行性V字型を形成している。矢印は動脈管血流方向である図6の②に相当する。

図6 正常症例(左)と本症例(右)の動脈管走行シェーマ
①動脈管前半部：逆行性にみえる部分。
②動脈管合流部：順行性にみえる部分。

動脈囊から発生する左右対称6対の咽頭弓動脈に由来する。そのうち第1, 2, 5咽頭弓動脈は退縮するが, 第3, 4, 6咽頭弓動脈が存続し, 心臓神経堤細胞由来の血管平滑筋細胞の分布や血管リモデリングにより大動脈弓とその分枝, 肺動脈中枢部, 動脈管が形成される。第6咽頭弓動脈は原始肺動脈を形成しながら大きなアーチを形成し, その後消失していき, 左第6咽頭弓動脈末梢が残って動脈管を形成する³⁾。

経膈, 経腹併用ドプラ法を用いれば早くも妊娠11週から動脈管血流が検出可能といわれ⁴⁾, 観察条件が良ければ妊娠のかなり早期より観察できる可能性がある。妊娠20週以降, 動脈管の血流速度は, 胎児のいずれの部分よりも速く週数とともに更に速くなるといわれ, 収縮期が50-140cm/secで, 拡張期は6-30cm/sec⁵⁾と報告されている。しかし, pulsatility indexは 2.46 ± 0.52 で在胎週数に無関係にはほぼ一定で⁶⁾, 動脈管蛇行症例でも血流速度は同じと言われている⁷⁾。本症例では残念ながら, 血流速度は測定されておらず, 興味もたれる点である。

超音波断層像では, 動脈管は胎児の矢状断面で肺動脈から下行大動脈へのなだらかなアーチ (ductal arch) として観察され, その右側に急峻なカーブを描いて立ち上がる大動脈弓 (aortic arch) が見られる。正常ではaortic archとductal archが1断面で同時に描出されることはない。胎児心エコースクリーニングでは3VTVで下行大動脈に流入する部分で両者が同一画面でV字状に観察される。観察ポイントとしては動脈管と下行大動脈の2本の血管が脊柱の左前方, 気管の左側にV字型に合流する, いわゆる“Vサイン”を観察することである。さらに, この2本の血管の径は同じか, 血流方向は同じかという点に注意する必要がある。動脈管の逆方向の血流は純型肺動脈弁閉鎖や三尖弁閉鎖などの右室低形成疾患や肺動脈の強い狭窄を伴うファロー四徴症などで認められるが⁸⁾, 最近ではカラードプラ法の進化により, 比較的容易に確認できるようになってきた。

2. 胎児動脈管の形態異常

動脈管の血管壁は, 通常の動脈が弾性線維で構成されているのに対し, 平滑筋細胞が豊富な筋性動脈のため, 径が縮小したり, 拡張したりする特殊な血管である²⁾。したがって, 妊娠経過にしたがい, 通常の動脈と異なり, 形が変化する可能性がある。何ら異常がみられなくても, 妊娠後期になると屈曲, 蛇行, 拡張, 収縮などのさまざまな形態が観察されることは決して少なくない。

肺動脈閉塞型の先天性心疾患, 純型肺動脈閉鎖などにおいて, 動脈管の位置異常 (大動脈弓の途中でT字型に合流するTサイン⁹⁾) や屈曲蛇行が多いことは血流量や血流方向が動脈管の走行になんらかの影響を与えている可能性をうかがわせる¹⁰⁾。

Benson et al.は妊娠20週頃に著明な屈曲, 蛇行を呈するものは2%に近く, 32週以降では35%, 38週以降では56%と増加すると報告している¹¹⁾。特に38週以降では軽度の症例を加えると97%が屈曲しており, straightのものはわずか3%に過ぎない。屈曲が高度になると画像上で動脈管が屈曲してC状に観察されたり, さらに屈曲が進むとS字状の形に観察されることもある。動脈管のこのような屈曲所見は軽度のものから高度のものまで妊娠末期になると, 決して少なくなく, 超音波診断に際し念頭におかれるべきであろう。

さらに, これらの症例の中には動脈管が拡張して嚢状になった, いわゆる動脈管瘤と称されるものがみられることがある。特に妊娠末期には, 軽度のものも含めしばしば遭遇する。満期産で出生した新生児の約9%に認められたという報告もある¹²⁾。動脈管瘤のほとんどは出生後自然閉鎖, 退縮するが, まれに瘤の破裂や, 気管, 反回神経, 横隔膜神経圧迫, 血栓塞栓症の報告も見られるため, 妊娠36週で8mm以上の動脈管径を呈するものは出生後も注意深い観察が必要であるという²⁾。

今回の症例は妊娠20週でX状の血管交差がみられ, 当初, 血管走行が不明であったが, その後妊娠週数がすすむにつれその走行を追跡することができた。この症例では先天性心疾患がみられず, このような動脈管の走行異常が妊娠の早期より発生していた可能性がある。そのため, 原因としてはこの第6咽頭弓消失過程で何らかの異常が起き, かなりの部分が遺残し長く延長し反転した可能性が考えられる。

同様の症例として, 佐藤らの報告³⁾がある。佐藤らの症例は, 我々の症例とよく似ているが, 検出されたのが出生直前であり, はたして, 妊娠早期より存在したのかどうか不明である。

動脈管は先天性心疾患などで蛇行, 拡張といった形態の変化が観察されることが多いが, 本症例のように先天性心疾患が全くないにもかかわらず大きく反転した症例報告は我々の知る限りでは見られない。

結 語

胎児心エコーによる一次スクリーニングが普及し機器・技術等が発展するに伴い, 比較的早い妊娠週数で胎児心血管系の詳細を知ることができるようになってきた。今回我々は妊娠20週頃に3VTVの異常所見を示す症例に遭遇し, 妊娠中期の検索からaortic archの右側, 背側に回り反転する動脈管を確認した。本症例はその後, 順調な経過をたどり, 出生後異常なく経過した。胎児心エコースクリーニングの普及に伴い, 動脈管の形態や走行異常, さらに動脈管瘤, 早期収縮などの異常が観察される機会が増加する可能性がある。このような動脈管の多彩なvariationがあることは超音波検査に携わる際念

頭に置かれなければならないと思われた。

本論文の要旨は日本超音波医学会第46回関西地方会学術集会にて発表した。

文 献

- 1) 吉武克宏. 新小児医学大系. 10C, 1版. 東京: 中山書店, 1985; 131-160.
- 2) 川瀧元良. 胎児心エコーのすべて. 東京: メジカルビュー社, 2017; 59-61.
- 3) 佐藤恭子, 西猛, 正岡博. 特異な走行を呈した動脈管の1例. 日小循誌 1998; 14: 418-423.
- 4) Brezinka C, Huisman TWA, Stijnen T, Wladimiroff JW. Normal Doppler flow velocity waveforms in the fetal ductus arteriosus in the first half of pregnancy. *Ultrasound Obstet Gynecol* 1992; 2: 397-401.
- 5) Huhta JC, Moise KJ, Fisher DJ, Sharif DS, Wasserstrum N, Martin C. Detection and quantitation of constriction of the fetal ductus arteriosus by Doppler echocardiography. *Circulation* 1987; 75: 406-412.
- 6) Tulzer G, Gudmundsson S, Sharkey AM, Wood DC, Cohen AW, Huhta JC. Doppler echocardiography of fetal ductus arteriosus constriction versus increased right ventricular output. *J Am Coll Cardiol* 1991; 18: 532-536.
- 7) Weichert J, Hartge DR, Roland AF. The fetal ductus arteriosus and its abnormalities-A review. *Congenit Heart Dis* 2010; 5: 398-408.
- 8) 森一博. 胎児心エコー図による動脈管の異常の診断. 日小循誌 1998; 14: 426-429.
- 9) 川瀧元良. 胎児心エコーのすべて. 東京: メジカルビュー社, 2017; 155.
- 10) 平石聰. 拡張, 蛇行を示す動脈管. 日小循誌 1998; 14: 424-425.
- 11) Benson CB, Brown DL, Doubilet PM, DiSalvo DN, Laing FC, Frates MC. Increasing curvature of the normal fetal ductus arteriosus with advancing gestational age. *Ultrasound Obstet Gynecol* 1995; 5: 95-97.
- 12) Jan SL, Hwang B, Fu YC, Chai JW, Chi CS. Isolated neonatal ductus arteriosus aneurysm. *J Am Coll Cardiol* 2002; 39: 342-347.

【連絡先】

許 春花
赤穂中央病院産婦人科
〒678-0241 兵庫県赤穂市惣門町 52-6
電話: 0791-45-1111 (代表) FAX: 0791-45-7290 (代表)
Email: xuch7857@gmail.com