

妊娠24週死産後に子宮仮性動脈瘤を来した1例

新家 朱理・徳毛 敬三・根津 優子・佐々木佳子・平松 祐司

岡山市立市民病院 産婦人科

A case of uterine pseudoaneurysm after stillbirth at 24 weeks of pregnancy

Akari Shinya・Keizo Tokumo・Yuko Nezu・Keiko Sasaki・Yuji Hiramatsu

Department of Obstetrics and Gynecology, Okayama City Hospital

産後大量出血の原因の一つに、子宮仮性動脈瘤がある。多くは帝王切開や子宮内膜搔爬術後に生じている。今回、妊娠23週に胎内死亡となり、死産後に子宮仮性動脈瘤から大量出血を来した症例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。症例は31歳、1妊0産。前医A医院で凍結融解胚移植にて妊娠成立した。妊娠初期には絨毛膜下血腫と妊娠悪阻にて、A医院と当院で入院加療した。症状軽減し、里帰り先のB病院で妊婦健診をしていたが、妊娠23週に胎児水頭症となり、その後胎児死亡が確認され、妊娠24週0日にプレグランディン腔坐剤を投与して死産となった。胎盤遺残は認めなかったが、出血を繰り返していた。

産褥17日目に自宅にて大量出血し、当院産婦人科に緊急入院となった。経膈超音波検査では子宮筋層の血流は豊富であったが、明らかな胎盤遺残は認めなかった。一旦止血が得られたため退院となったが、その後も出血が持続したため、ダイナミックCTを施行し、子宮底部に複数の子宮仮性動脈瘤を認めた。出血が持続しており、大量出血のリスクもあるため、産褥29日目に子宮動脈塞栓術を施行し止血した。

子宮仮性動脈瘤は比較的稀な疾患であるが、大量出血を来しうるため、本疾患を念頭に置いた診断が重要であると考えられる。治療選択肢として子宮動脈塞栓術が有用であると思われた。

Uterine artery pseudoaneurysms can cause postpartum hemorrhage, with many of these cases developing after cesarean section or endometrial curettage. We report a case of uterine artery pseudoaneurysm after stillbirth in a 31-year-old primigravida who had become pregnant by in vitro fertilization. She was hospitalized for the treatment of subchorionic hematoma and emesis in the first trimester; however, fetal hydrocephalus was found at 23 weeks of gestation and the baby was stillborn at 24 weeks and 0 days of gestation. She had complained of repeated genital bleeding, but no residual placental mass was found in the uterus. On the 17th day postpartum, she was urgently hospitalized because of extensive bleeding. Vaginal color Doppler ultrasound revealed abundant blood flow in the myometrium, and dynamic enhanced computed tomography (CT) revealed several aneurysms at the bottom of the uterus. Uterine artery embolization (UAE) was performed after obtaining informed consent on the 29th day postpartum, and the bleeding finally resolved. It is relatively rare for uterine pseudoaneurysms to cause postpartum hemorrhage, but if bleeding persists for a long period of time, the possibility of this disease should be considered. Color Doppler and contrast-enhanced CT help in diagnosis, and UAE is useful for treatment.

キーワード：子宮仮性動脈瘤、産後出血、子宮動脈塞栓術

Key words：uterine pseudoaneurysm, postpartum hemorrhage, uterine artery embolization

緒 言

子宮仮性動脈瘤は、子宮内の動脈壁が破綻し、血管外に血液が漏出し器質化した壁を形成して瘤状になったものである¹⁾。帝王切開^{2) 3)}や子宮内膜搔爬術後⁴⁾、経膈分娩後^{5) 6) 7)}に生じており、破裂すれば大量出血を来し致命的となりうる疾患である。今回、妊娠23週に胎内死亡となり、死産後に子宮仮性動脈瘤から大量出血を来し、子宮動脈塞栓術を施行した症例を経験したので報告する。

症 例

患者は31歳、1妊0産、既往歴に特記事項なし。前医A医院でホルモン補充周期の凍結融解胚移植にて妊娠成立した。初期に絨毛膜下血腫と妊娠悪阻に対しそれぞれA医院と当院で入院加療した。症状軽減し、里帰り先のB病院で妊婦健診を受けていたが、妊娠23週1日に胎児水頭症と診断され、その翌日に胎児死亡となり、妊娠24週0日にプレグランディン腔坐剤を投与して死産となった。児は女児で身長28 cm、体重490 g、分娩時出血量は250 mlであった。産褥5日目に性器出血を認め、B病

院で子宮収縮剤を処方された。胎盤遺残は認めなかったが、自宅帰宅後も性器出血を繰り返していた。

産褥17日目に自宅にて大量出血し、当科に緊急入院となった。意識清明だが顔面蒼白で倦怠感と腹痛があり、過呼吸様であった。血圧 107/63 mmHg, 脈拍 107/分, SpO2 99%, 体温 36.7°C, 血液検査では, WBC 4440/ μ l, RBC 223 万/ μ l, Hgb 7.0 g/dl, Plt 32.7 万/ μ l, APTT 36.0 秒, PT 90%, Fib 278 mg/dl, D-D 0.2 μ g/ml, CRP 0.12 mg/dl, BUN 7 mg/dl, Cr 0.55 mg/dl, AST 13 IU/L, ALT 10 IU/L, hCG 8.0 mIU/mLであった。内診では性器出血は少量, 子宮は後屈し鷲卵大であった。経膈超音波では子宮内膜 5 mm で, 子宮前壁の内膜寄りに 1 cm 大の嚢胞状腫瘤を認め, 腫瘤内と子宮前壁に豊富な血流を認めた (図1)。子宮収縮剤の点滴を行い, 翌日Hgb 6.0 g/dlまで低下したため, 赤血球製剤 (RBC) 4 単位輸血を行った。骨盤単純MRIで子宮の豊富な血流を反映したflow voidを認めたが, 明らかな胎盤遺残は同定できなかった。入院後は性器出血を認めなかったため, 産褥20日目に退院となったが, その後出血が再開した。

産褥25日目に造影ダイナミックCT (図2) にて, 子宮底部に造影効果を認める複数の動脈瘤を認め, 子宮仮性動脈瘤と診断した。出血が持続しており, 大量出血のリスクから, 子宮動脈塞栓術を本人に勧めた。妊孕性温存の希望が強く, 同意が得難かったが, 実母がB病院でセカンドオピニオンを受け, 当院と同様の方針を示されたため, 最終的には本人・家族の同意が得られた。産褥29日目に当院へ再入院し, 子宮動脈塞栓術を施行した (図3)。子宮仮性動脈瘤は左子宮動脈から栄養され, 右側の子宮動脈は関与していなかった。子宮左底部筋層への栄養血管を選択的にゼラチンスポンジにて塞栓し, 仮性動脈瘤は消失した。塞栓範囲は子宮体積の2割程度であった。術後合併症を認めず, 産褥31日 (塞栓術後2日) に経膈超音波にて子宮前壁の嚢胞状腫瘤の消失と血流の減少を認め (図4), 退院となった。

産褥40日 (塞栓術後11日) で月経発来した。月経量は通常量で, その後の月経も整順であった。産褥7ヵ月でA医院での凍結融解胚移植にて妊娠し, 妊娠38週2日 で2486 gの女児を他院にて経膈分娩した。分娩時出血量 250 gで胎盤娩出も問題なかった。

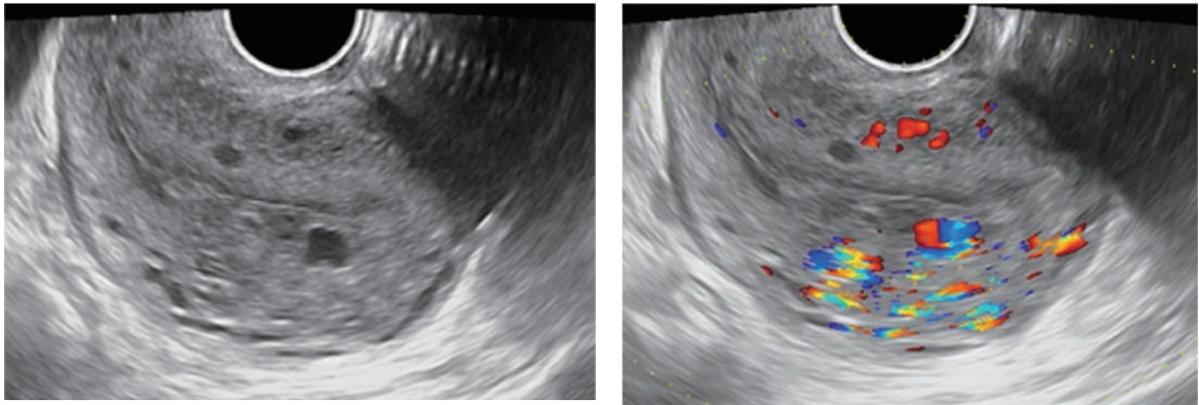


図1 産褥17日経膈超音波検査

(左) 子宮前壁に 1 cm 大の嚢胞状腫瘤を認める
(右) カラー Doppler にて嚢胞状腫瘤と子宮前壁に血流を豊富に認める

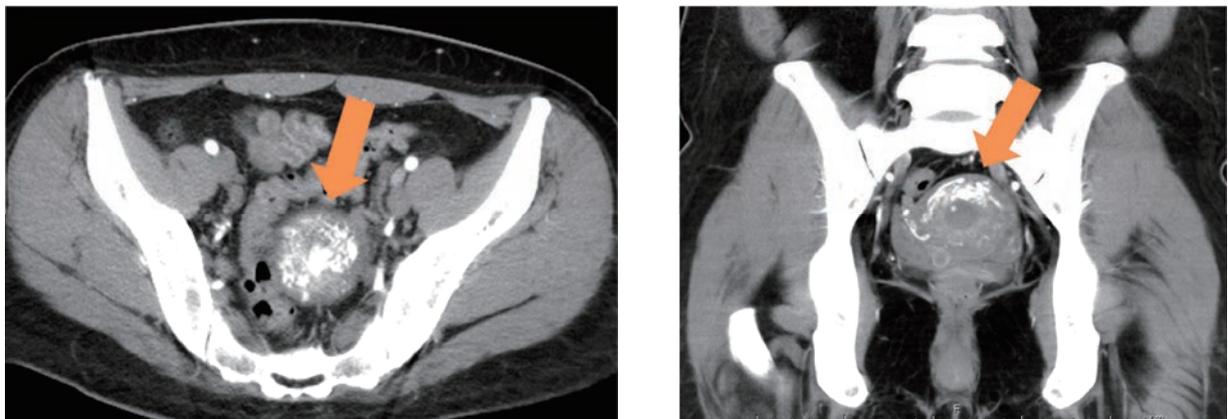


図2 産褥25日ダイナミックCT

(左) 冠状断 (右) 前額断ともに子宮底部に強い早期造影効果を伴う, 複数の拡張血管構造を認める

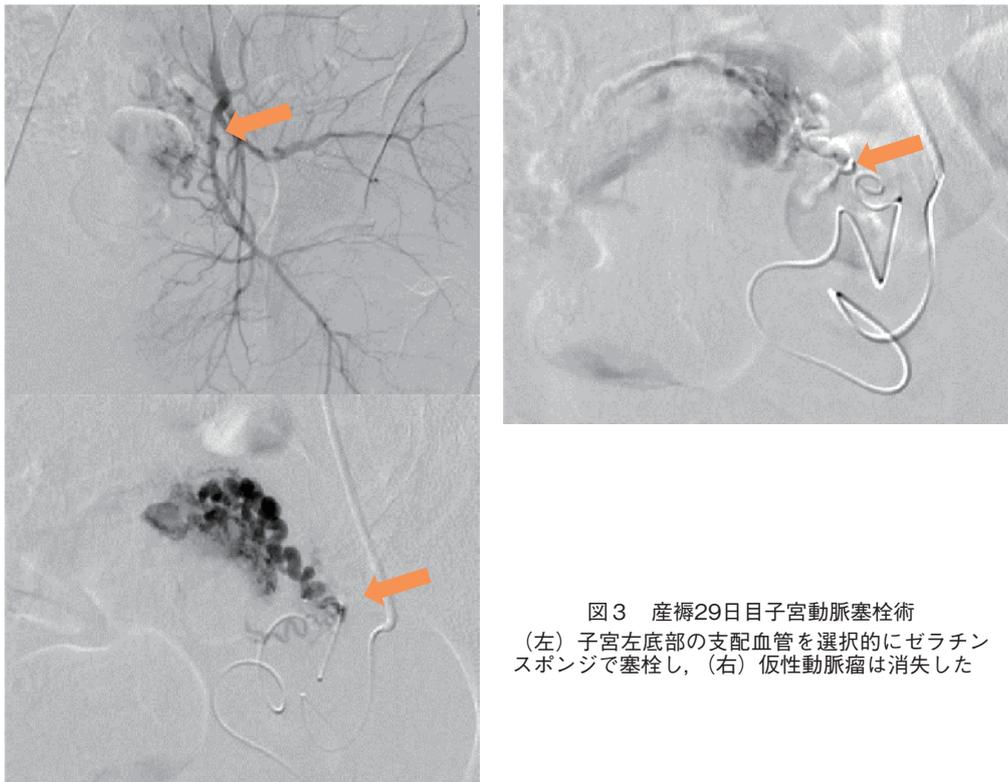


図3 産褥29日目子宮動脈塞栓術
 (左) 子宮左底部の支配血管を選択的にゼラチン
 スポンジで塞栓し, (右) 仮性動脈瘤は消失した

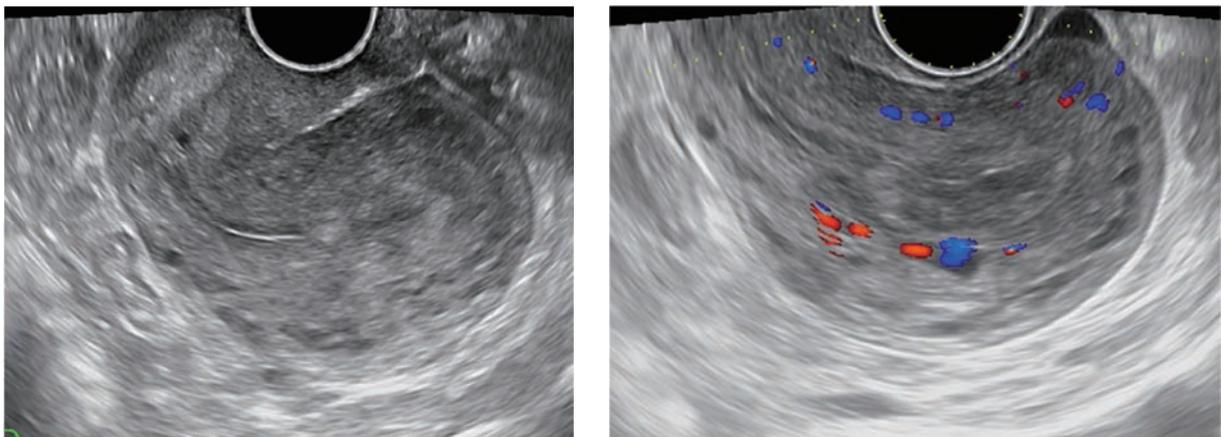


図4 子宮動脈塞栓術後2日目(産褥31日目)経膈超音波検査
 (左) 子宮前壁の低エコー腫瘍は消失した
 (右) カラー Doppler にて子宮前壁の血流減少を認めた

考 察

子宮仮性動脈瘤は、子宮内の動脈壁が外傷などにより破綻し、血管外に血液が漏出し周囲に器質化した壁を形成し、瘤状になったものである¹⁾。帝王切開術^{2) 3)}、子宮頸管拡張、子宮内膜搔爬、子宮筋腫核出術⁴⁾、円錐切除術⁸⁾、経膈分娩後^{5) 6) 7)}などで起こりえる。Dohan et al.は産後出血588症例のうち18例(3.06%)に骨盤内の仮性動脈瘤を認め、その多くが子宮動脈からの発生であったと報告している⁷⁾。子宮仮性動脈瘤は、主に分娩後24時間以降6週間以内の産後2次性出血の原因のうち

のひとつとされるが、帝王切開術から4ヵ月後に発症したとの報告³⁾もあり、産後数ヵ月たってからの出血の際にも注意が必要である。仮性動脈瘤は、壁が三層性(外膜・中膜・内膜)構造である真性動脈瘤と異なり、外膜のみあるいは周囲結合組織に覆われているため、自然破裂リスクが高く、止血と再出血を繰り返す特徴がある⁵⁾。超音波カラー Doppler にて、低エコー域に流入する渦巻き状の血流 'swirling blood flow' や、収縮期に流入し拡張期に流出する血流 'yin-yang sign (陰陽図)' が特徴的な超音波所見である²⁾。その他、造影MRIや造影CT⁹⁾、血管造影などにも診断される。特に造影ダ

イナミックCT検査は有用で、早期相に仮性動脈瘤が強く濃染され、破裂している場合は後期相にて造影剤が周囲へ広がる血管外漏出像が特徴的である。本症例においては、経腔超音波カラードプラにて血流を伴う嚢胞状腫瘍と子宮筋層の豊富な血流を認めたが、骨盤単純MRIでは確定診断には至らなかった。造影ダイナミックCTにて子宮仮性動脈瘤と診断できたため、造影剤の使用が診断には必要であると思われる。

産後出血に対して、胎盤遺残の診断のもとに子宮内容除去術が行われることが多いが、施術前に超音波カラードプラを行うことで、本症例のように正確な診断の一助となることがあり、重要であると考えられた。

子宮仮性動脈瘤の治療法は未だ確立されていないが、子宮動脈塞栓術が最も有用な選択肢の一つとされている^{6) 7)}。その他、単純子宮全摘術や子宮動脈結紮術、一時的な止血法としてのメトロイリント留置などが行われる。未破裂で小さい子宮仮性動脈瘤においては、自然軽快したとの報告¹⁰⁾もあり、症例に応じた対応が必要であると思われる。

子宮動脈塞栓術は低侵襲であり、産褥出血に対して約93~96%の高い成功率が示されている¹¹⁾。前出のDohan et al.の報告では、骨盤内の仮性動脈瘤18症例すべてに動脈塞栓術を行い、止血が得られている。子宮動脈塞栓術の合併症として、発熱や疼痛、子宮内膜炎、子宮腔内癒着症、子宮壊死、骨盤内感染、鼠径部の血腫形成、卵巣機能低下などが挙げられ、それらの発現率は5~9%である¹²⁾。塞栓物質として、一時的塞栓物質であるゼラチンスポンジと、永久塞栓物質である金属コイルやn-butyl-2-cyanoacrylate (NBCA) などがある。永久塞栓物質は塞栓効果が高く確実に止血できる可能性が高いが、子宮虚血の恐れがあり、一時的塞栓物質と比べて使用報告例が少ない⁷⁾。また一般的に、子宮仮性動脈瘤の径が大きい場合や血管の再開通時に再出血を起こすことがあり、再度子宮動脈塞栓術が必要となる可能性がある¹³⁾ため、十分なインフォームドコンセントが重要と思われる。

子宮動脈塞栓術後の妊孕性や妊娠・分娩の安全性は重要な課題である。Gaia et al.は、産後出血に対してゼラチンスポンジを塞栓物質として使用した子宮動脈塞栓術施行例107例中99例(92.5%)に月経再開を認め、妊娠を希望する29症例のうち18例(62%)でのべ19回の妊娠に至り、18例が正常出産で健常児を得たと報告している。しかし、そのうち3例で胎盤の位置異常による分娩出血のため再塞栓術を要したと報告している¹⁴⁾。また、Kim et al.は産後出血を来した骨盤内の仮性動脈瘤33症例に対して、永久塞栓物質であるNBCAを使用して動脈塞栓術を行い、追跡できた31例中29例で月経再開を認め、妊娠希望の12例中10例(83.3%)が自然妊娠したと

報告している。そのうち1例は子宮外妊娠であったが、9例では正期産で健常児を得られたと報告している¹⁵⁾。

また、Inoue et al.は産後出血に対して子宮動脈塞栓術が施行された211例(ゼラチンスポンジ193例、金属コイル11例、NBCA 4例、塞栓物質不明3例)を検討し、妊娠希望の76症例のうち40例(52.6%)が妊娠したと報告している。妊娠継続できた30例のうち5例(16.7%)に癒着胎盤を合併し、全例で子宮全摘術を施行したと報告している¹⁶⁾。

子宮動脈塞栓術後の妊娠では、より慎重な管理と癒着胎盤や分娩時出血などのハイリスク状態を想定した分娩が望ましいと考えられる。

結 語

子宮仮性動脈瘤は比較的稀な疾患であるが、死産後の大量出血として発症する症例がある。特に二次性の産後出血においては、本疾患を念頭に置いた早期の診断と治療介入が重要であると考えられた。

文 献

- 1) Goldberg J, Pereira L, Berghilla V. Pregnancy after uterine artery embolization. *Obstet Gynecol* 2002; 100: 869-72.
- 2) 正岡駿, 田中里美, 伊藤早紀, 助川幸, 西澤しほり, 村瀬佳子, 植木典和, 矢田昌太郎, 金田容秀, 田中利隆, 三橋直樹. 帝王切開後に形成された子宮仮性動脈瘤の1例. *静岡産科婦人科学会雑誌* 2019; 8(1): 52-60.
- 3) Chummun K, Kroon N, Flannelly G, Brophy D. Severe Postcoital Bleeding From a Uterine Artery Pseudoaneurysm 4 Months After Cesarean Delivery. *Obstet Gynecol* 2015; 126(3): 638-641.
- 4) Soyer P, Fargeaudou Y, Morel O, Boudief M, Le Dref O, Rymer R. Severe postpartum hemorrhage from ruptured pseudoaneurysm: successful treatment with transcatheter arterial embolization. *Eur Radiol* 2008; 18(6): 1181-1187.
- 5) 水谷浩徳, 三好潤也, 黒田くみ子, 吉松かなえ, 桑原知仁, 荒金太, 福松之敦. 自然経腔分娩後の子宮内仮性動脈瘤による大量出血に対し子宮動脈塞栓術で止血を行った1例. *日本周産期・新生児医学会雑誌* 2016; 52(1): 215-219.
- 6) Kwon HS, Cho YK, Sohn IS, Hwang HS, Seo KJ, Park WI, Seo YS. Rupture of a pseudoaneurysm as a rare cause of severe postpartum hemorrhage: analysis 11 cases and a review of the literature. *European Journal of Obstetrics & Gynecology and Reproductive Biology* 2013; 170: 56-61.

- 7) Dohan A, Soyer P, Subhani A, Hequet D, Fargeaudou Y, Morel O, Boudief M, Gayat E, Barranger E, Le Dref O, Sirol M. Postpartum Hemorrhage Resulting from Pelvic Pseudoaneurysm: A Retrospective Analysis of 588 Consecutive Cases Treated by Arterial Embolization. *Cardiovasc Intervent Radiol* 2013; 36: 1247-1255.
- 8) Moon G, Jeon S, Nam KH, Choi S, Sunwoo J, Ryu A. Pseudoaneurysm of uterine artery causing intra-abdominal and vaginal bleeding after cervical conization. *Obstet Gynecol Sci* 2015; 58(3): 256-259.
- 9) Ogoyama M, Nakamura H, Ugajin A, Nagayama S, Suzuki H, Takahashi H, Baba Y, Usui Y, Matsubara S, Ohkuchi A. Usefulness of dynamic computed tomography for diagnosing and evaluating uterine artery pseudoaneurysms in women with late postpartum hemorrhage not complicated by retained products of conception. *J Obstet Gynecol Res* 2020; 46(2): 249-255.
- 10) Takahashi H, Baba Y, Usui R, Ohkuchi A, Kijima S, Matsubara S. Spontaneous resolution of post-delivery or post-abortion uterine artery pseudoaneurysm: A report of three cases. *J Obstet Gynecol* 2016; 42: 730-733.
- 11) Olowoyeye OA. Uterine artery pseudoaneurysm in a patient with persistent vaginal bleeding. *J Vasc Ultrasound* 2012; 36(3): 210-212.
- 12) Kirby JM, Kachura JR, Rajan DK, Sniderman KW, Simons ME, Windrim RC, Kingdom JC. Arterial embolization for primary postpartum hemorrhage. *J Vas Interv Radiol* 2009; 20: 1036-1045.
- 13) Soyer P, Dohan A, Dauty R, Guerrache Y, Ricbourg A, Gayat E, Boudief M, Sirol M, Ledref O. Transcatheter Arterial Embolization for Postpartum Hemorrhage: Indications, Technique, Results, and Complications. *Cardiovasc Intervent Radiol* 2015; 38: 1068-1081.
- 14) Gaia G, Chabrot P, Cassagnes L, Calcagno A, Gallot D, Botchorishvili R, Canis M, Mage G, Boyer L. Menses recovery and fertility after artery embolization for PPH: a single-center retrospective observational study. *Eur Radiol* 2009; 19: 481-487.
- 15) Kim GM, Yoon CJ, Seong NJ, Kang SG, Kim YJ. Postpartum haemorrhage from ruptured pseudoaneurysm: efficacy of transcatheter arterial embolization using N-butyl-2-cyanoacrylate. *Eur Radiol* 2013; 23: 2344-2349.
- 16) Inoue S, Masuyama H, Hiramatsu Y. Efficacy of transarterial embolization in the management of postpartum haemorrhage and its impact on subsequent pregnancies. *Aust N Z J Obstet Gynecol* 2014; 54: 541-545.

【連絡先】

新家 朱理

岡山市立市民病院産婦人科

〒700-8557 岡山市北区北長瀬表町3丁目20番1号

電話：086-737-3000 FAX：086-737-3019

E-mail：shinya.akari@tokushima-u.ac.jp