

子宮内胎児死亡を来した有窓胎盤の1例

片山 幸子・新居 真理・笠井 可葉・土肥 直子・沖津 修

つるぎ町立半田病院 産婦人科

A case of placenta fenestrata that resulted in intrauterine fetal death

Sachiko Katayama・Mari Nii・Kana Kasai・Naoko Doi・Osamu Okitsu

Department of Obstetrics and Gynecology, Tsurugi Municipal Handa Hospital

有窓胎盤とは、胎盤内部に実質が一部欠損し窓状にみえるものをいう。有窓胎盤はこれまで数例の症例報告を認めるのみの稀な胎盤異常であり、胎児・新生児予後への関与など臨床的問題も明らかにされていない。今回我々は、有窓胎盤が子宮内胎児死亡の原因と考えられた症例を経験したので報告する。

Placental fenestrata is one of the variations in placental morphology, which involves the lack of placental tissues in some areas. Placental fenestrata rarely occurs, and only a few cases have been reported so far; the clinical problems concerning fetal and neonatal prognosis have not yet been clarified. Here, we report a case in which placenta fenestrata was thought to be the cause of intrauterine fetal death.

キーワード：有窓胎盤，子宮内胎児死亡，抗Jr^a抗体

Key words：placenta fenestrata, intrauterine fetal death, anti-Jr^a

緒言

有窓胎盤とは、胎盤内部に実質が一部欠損し窓状にみえるものをいう¹⁾。有窓胎盤はこれまで数例の症例報告を認めるのみの稀な胎盤異常であり、胎児・新生児予後への関与など臨床的問題も明らかにされていない。今回我々は、有窓胎盤が子宮内胎児死亡の原因と考えられた症例を経験したので報告する。

症例

33歳

妊娠歴 4妊1産（自然流産2回，人工妊娠中絶0回）

既往歴 なし（前回妊娠時 不規則抗体陰性）

輸血歴 なし

現病歴 近医で妊娠を確認，予定日決定後，妊娠管理目的で当科を紹介され，妊娠10週4日に当院初診した。妊娠12週4日妊娠初期検査でWBC 9590/ μ l，Hb 13.6g/dl，PLT 31.9×10^4 / μ l，RPR（-），TP抗体（-），HBs抗原（-），HCV抗体（-），HIV-1,2抗原・抗体（-），風疹抗体HI 16倍，随時血糖 112mg/dl，血液型 AB型 RH（+），不規則抗体は多数項目で陽性となり，反応に特異性がないため抗体の同定に至らなかった。このような高頻度抗原に対する抗体のなかで，胎児に影響する可能性のあるものとして抗Jr^a抗体を想定し，日本赤十字社血液センターに確認検査を依頼したところ，抗Jr^a抗体と同定され，稀な血液型Jr^a抗原陰性であることが判

明した。抗体価は64倍であった。抗Jr^a抗体は，以前は胎児・新生児溶血性貧血には関与しないとされていたが，最近では胎児貧血例の報告がある。よって，以後の妊婦健診では，超音波ドップラー法によるMCA-PSVを用いて胎児貧血の評価を行った。

妊娠24週4日 推定体重805g（+0.2SD），MCA-PSV 26.7cm/s，胎児水腫（-）

妊娠26週4日 推定体重991g（-0.4SD），MCA-PSV 31.5cm/s，胎児水腫（-）

妊娠中期検査 WBC 12410/ μ l，Hb 13.0g/dl，PLT 35.2×10^4 ，抗体価64倍

妊娠28週4日 推定体重1193g（-0.9SD），MCA-PSV 32.8cm/s，胎児水腫（-），抗体価64倍

いずれもMCA-PSVは，1.5MoM（multiples of the median）以上の上昇を認めていなかった²⁾（図1）。またいずれの妊婦健診においても血圧や尿蛋白の異常を認めておらず，超音波検査でも胎児・胎盤に明らかな異常は認めていなかった。妊娠30週4日に妊婦健診目的に受診した。問診で5日前からの胎動消失の訴えがあり，経腹超音波検査で確認したところ，胎児心拍を認めず，皮下浮腫や胸腹水も認めず，明らかな外表奇形も認めなかった。羊水量も正常で，胎盤に異常所見は認めなかった。推定体重1156g（妊娠28～29週相当），抗体価は64倍であった。推定体重や胎動の自覚から，5日前頃に子宮内胎児死亡したと思われる。妊娠28週までのMCA-PSVは特に上昇なく，胎児水腫も認めないことから，重症貧

血による子宮内胎児死亡の可能性は低く、他の要因がある可能性が高いと考えた。妊娠30週6日、1050gの女児を死産した。児に皮下浮腫はなく、重症貧血を疑わせる所見はなかった。明らかな外表奇形はなく、浸軟は1度と認められた。臍帯には巻絡や結節、過捻転を認めなかった。臍帯付着部は中央付着、過捻転や絞扼は認めなかったが臍帯血管がワルトン膠質に包まれないまま卵膜上を走行している卵膜付着の状態であった。血管数は正

常（臍帯動脈2本、臍帯静脈1本）、臍帯の色調は正常白色であった。胎盤は重量204g、胎児面の色調は正常、形状は楕円型、卵膜の黄染は認めなかった。胎盤母体面の色調は暗褐色、石灰化や白色梗塞は認めず、血腫や辺縁出血は認めず、腫瘤も認めなかった。胎盤中央に径5×3cmの絨毛欠損部があり、この欠損部卵膜の上に臍帯が付着していた。胎盤の肉眼的所見から有窓胎盤と診断した（図2）。胎盤の切り出し切片でも、臍帯付着

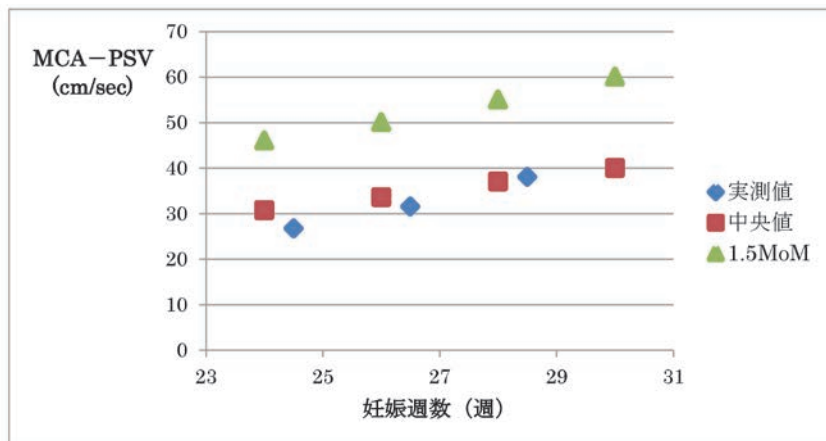


図1 妊娠中のMCA-PSVの推移
MCA-PSVの上昇は認めていなかった。

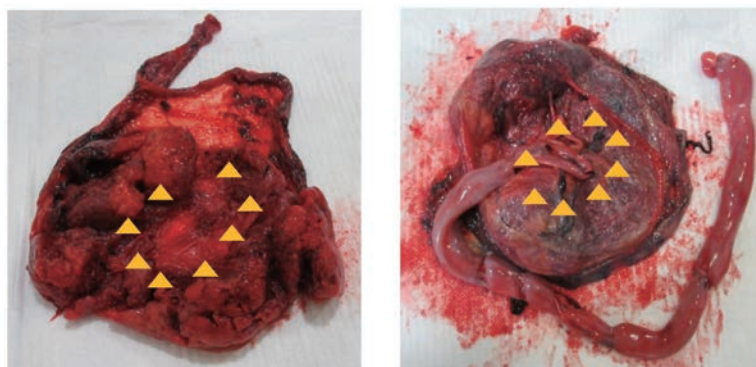


図2 胎盤 左が母体面、右が胎児面
中央に径5×3cmの絨毛欠損部（▲）があり、この欠損部直下の卵膜上に臍帯が付着していた。



図3 胎盤病理
臍帯付着部では絨毛が大きく欠損していた。

部では絨毛が大きく欠損しており（図3）、臍帯胎盤病理所見は、出血を伴う梗塞が全体の20～30%に認められた。好中球浸潤や細菌の存在など明らかな感染徴候は認めなかった。ご夫婦は流死産絨毛・胎児組織染色体検査は希望されず、病理解剖の同意は得られなかった。

考 案

有窓胎盤とは、胎盤内部に実質が一部欠損し窓状に見えるものをいい、非常に稀な胎盤異常である¹⁾。このような胎盤の形態異常の成因は、妊卵の着床部位、着床様式、子宮内膜の異常とされている³⁾。子宮内膜が非薄な子宮峡部や側壁では栄養不足により胎盤の発育が阻害される。過度に深くまたは浅く、基板を広くまたは狭く着床することも関係する。子宮内膜の発育不全、炎症、内膜搔爬、内膜ポリープ、子宮筋腫および瘢痕形成不全などにより基底脱落膜における栄養不全のために胎盤形成不全を生じる。本症例では自然流産歴が2回あるが、過去の記録が残っておらず、そのいずれかで子宮内容清掃術を受けたかどうかは不明である。

有窓胎盤では絨毛欠損部の直下に臍帯が付着している場合があるが、本症例もこれにあてはまっており、臍帯が胎盤実質でなく卵膜に付着していた。臍帯卵膜付着では、ワルトン膠質に包まれないむき出しの臍帯血管が臍帯付着部と胎盤実質との間の卵膜上を走行している。ワルトン膠質は、その弾力で正常の臍帯血管を外力から守っているが、卵膜付着ではワルトン膠質が欠如するため、臍帯血管が慢性的に、あるいは子宮収縮や胎動に伴って圧迫されやすい⁴⁾。

本症例では、胎盤に梗塞が多発していた。胎盤梗塞は、子宮血流の影響、初期からの胎盤の形成不全、感染、妊娠高血圧症候群が原因でおこるといわれている⁵⁾。その他、抗リン脂質抗体症候群を指摘する成書⁶⁾もある。今回は感染や妊娠高血圧症候群は認めず、着床部位は正常で子宮筋腫や内膜ポリープも合併していない。着床部位異常、子宮筋腫、子宮内膜ポリープ以外の何らかの原因で子宮内膜の発育不全があり、胎盤の形成が未発達となった結果、絨毛が一部欠損し有窓状になったり、胎盤梗塞が発生したりしたのではないかと推察される。

胎児死亡の原因として、本症例では母体が稀な血液型Jr^a抗原陰性であることから、血液型不適合妊娠が挙げられる。しかし本症例では、妊娠経過中にMCA-PSV値の上昇はみられず、不規則抗体価の上昇もなく、胎児水腫の所見もみられなかったことから、Jr^a不適合が直接の死亡の原因とは考えられない。また、本症例では組織学的な胎盤梗塞を認めたため、胎盤機能不全が胎児死亡につながった可能性を完全には否定できないが、継続的な妊婦健診において明らかな胎児発育不全を認めていな

いことから、その可能性は低いと思われる。結果的に、有窓胎盤に伴う臍帯卵膜付着のため、胎動など何らかの機転により臍帯血管の強い圧迫が生じて血流が途絶え、胎児死亡が引き起こされた可能性が最も高いと考える。しかしながら、2回の自然流産歴がある上に今回の死産が生じたという観点からは、本症例には不育症としての精査を行うことが望まれる。多発胎盤梗塞の原因としての血栓性素因や抗リン脂質抗体症候群を除外診断する必要があると思われる。

有窓胎盤は、非常に稀な胎盤異常であり、世界でも症例報告はほとんどなく、胎児の予後に影響を与えなかったという報告もあれば⁷⁾、児発育へ負の影響を示したという報告もある⁸⁾。このような胎盤形態異常を念頭におきながら日常診療を行うことは難しいが、胎盤形態異常の成因から考えると、妊娠初期に妊卵の着床部位を確認、妊娠中期までに胎盤位置、臍帯付着部の確認を必ず行うという基本姿勢を心がけることが、胎盤形態異常の診断につながるとと思われる。今回Jr^a不適合妊娠に気をとられ、妊婦健診における超音波検査で胎児付属物の観察が足りなかったと反省させられた。

本症例のように、有窓胎盤や胎盤梗塞の成因となりうる子宮内膜発育不全の存在が示唆される症例では、妊娠前の管理方法としてカウフマン療法を行い子宮内膜の状態をリセット・調整する方法も考えられる。さらに子宮内膜の血流不全による子宮内膜発育不全に対し、エストロゲンやプロゲステロン製剤が効かない難治性のものには血流促進作用のあるビタミンE、L-アルギニン、シルデナフィル錠が子宮内膜発育不全に有効との報告もある⁹⁾。また近年は、慢性子宮内膜炎という疾患概念が注目されており、子宮内腔の培養検査や子宮鏡検査、抗生物質療法なども考慮する必要がある。さらに妊娠成立後は、低用量アスピリンやヘパリン療法も選択肢として挙げられる。

以上、非常に稀な胎盤異常である有窓胎盤から胎内死亡に至ったと推定される症例を報告した。

文 献

- 1) 周産期委員会. 胎盤のみかた. 日本産婦人科学会. 2017-2018, http://www.jsog.or.jp/activity/pdf/shusanki_taibannomikata.pdf. [2021.9.4]
- 2) Mari G, Deter RL, Carpenter RL, Rahman F, Zimmerman R, Moise KJ, Dorman KF, Ludomirsky A, Gonzalez R, Gomez R, Oz U, Detti L, Copel JA, Bahado-Singh R, Berry S, Martinez-Poyer J, Blackwell SC, for the Collaborative Group for Doppler Assessment of the Blood Velocity in Anemic Fetuses. Noninvasive diagnosis by Doppler ultrasonography of fetal anemia due to maternal

- red-cell alloimmunization. N Engl J Med 2000; 342 (1): 9-14.
- 3) 山本政太郎. 胎盤形態異常の臨床的観察. 産科と婦人科 1975; 42(5): 741-746.
- 4) 長谷川潤一. 臍帯付着部異常の診断の必要性. 周産期医学 2018; 48(3): 333-336.
- 5) 長谷川潤一. 28胎盤梗塞. 公共社団法人日本産婦人科医会, <https://www.jaog.or.jp/lecture/28-%E8%83%8E%E7%9B%A4%E6%A2%97%E5%A1%9E/>. [2021.9.30]
- 6) Cunningham FG, Leveno KJ, Bloom SL, Hauth JC, Rouse DJ, Spong CY. Williams OBSTETRICS, 23th edn. New York: Mc Graw Hill Medical, 2010; 579.
- 7) 福井理仁, 片山幸子, 木内理世, 山本哲史, 古本博孝, 堀口英久. 超音波検査にて妊娠経過を観察した有窓胎盤の一例. 現代産婦人科 2020; 69(2): 209-212.
- 8) 小柳美津佳, 宮本守員, 大下珠緒, 羽田平, 平野由花, 高崎和樹, 川内華佳, 石橋弘樹, 笹秀典, 古谷健一. MRI検査が全前置胎盤に合併した有窓胎盤の診断に有用だった一例. 日本周産期・新生児医学会雑誌 2019; 55(2): 543.
- 9) 高崎彰久, 田村博史, 三輪一知郎, 杉野法広. 難治性不妊症とその対策. 産婦人科治療 2009; 98(2): 113-120.

【連絡先】

片山 幸子
つるぎ町立半田病院産婦人科
〒779-4401 徳島県美馬郡つるぎ町半田中藪 234-1
電話: 0883-64-3145 FAX: 0883-64-4138
E-mail: iru7111111@i.softbank.jp