

緊急帝王切開時に診断がついたSpontaneous hemoperitoneum in pregnancy (SHiP) の1例

佐々木佳子・平松 祐司・川西 貴之・大道 千晶・根津 優子・徳毛 敬三

岡山市立岡山市市民病院 産婦人科

Spontaneous hemoperitoneum in pregnancy diagnosed during the emergency cesarean section: A case report

Keiko Sasaki・Yuji Hiramatsu・Takayuki Kawanishi・Chiaki Omichi・Yuko Nezu・Keizo Tokumo

Department of Obstetrics and Gynecology, Okayama City Hospital

Spontaneous hemoperitoneum in pregnancy (SHiP) は、妊娠中から産褥期における外傷、子宮破裂、卵巣出血、異所性妊娠を除く急性腹腔内出血である。頻度は稀だが、周産期予後不良となりうる疾患である。症状が非特異的なため、緊急帝王切開の開腹時に確定診断がつくことが多い。今回、緊急帝王切開時に初めて診断がついたSHiPを1例経験した。症例は40歳、1妊0産。子宮筋腫合併妊娠で経陰分娩は困難と判断されたため、帝王切開での分娩予定だった。妊娠37週0日、急性腹症のため、救急車で受診となった。受診時、vital signは正常で、不規則な子宮収縮を認めた。経陰超音波でダグラス窩に血腫様のエコー像を認める他は、胎児心拍数陣痛図、経腹超音波、血液検査に異常を認めなかった。腹痛の確定診断は得られなかったが、緊急帝王切開の方針とした。開腹時、腹腔内に150ml程度の出血を認めた。子宮筋腫表層の血管からの出血と子宮頸部後壁からの出血を認め、この時点でSHiPの診断がついた。術中出血量は735mlで、児は出生体重2,504g、Apgar score 8点(1分)/8点(5分)、臍帯動脈pH7.32だった。母児ともに経過良好であった。妊娠中の急性腹症では、鑑別診断の1つにSHiPを念頭に置き、腹腔内出血の有無を検索する必要がある。そして、診断後は母体と胎児の状態を総合的に判断し治療方針を立てることが重要である。

Spontaneous hemoperitoneum in pregnancy (SHiP) is defined as acute intraperitoneal hemorrhage during pregnancy or puerperium, excluding trauma, uterine rupture, ovarian hemorrhage, or ectopic pregnancy. Although it is a rare disorder, its perinatal prognosis is poor. A definitive diagnosis is made upon opening the abdominal cavity during a cesarean section. We report the case of a 40-year-old primiparous woman diagnosed with SHiP during an emergency cesarean section. It was complicated by uterine myoma; hence, cesarean section was performed. At 37 weeks of pregnancy, the patient visited the emergency room due to sudden abdominal pain. Fetal cardiotocography showed reassuring fetal status and irregular uterine contractions, while the results of transabdominal ultrasound and blood tests were normal. Transvaginal ultrasonography revealed a small hemorrhage in the pouch of Douglas. As the onset of labor was not spontaneous, cesarean section was performed. Laparotomy revealed bleeding from the vessels on the surface of the uterine myoma and uterine cervix. At that time, she was diagnosed with SHiP. The Apgar scores were 8 points at 1 min and 8 points at 5 min; the umbilical artery pH was 7.32. If a pregnant woman complains of abdominal pain, SHiP must be considered and intraperitoneal hemorrhage should be assessed.

キーワード：spontaneous hemoperitoneum in pregnancy (SHiP)、腹腔内出血、急性腹症、妊娠

Key words：spontaneous hemoperitoneum in pregnancy (SHiP), hemoperitoneum, acute abdomen, pregnancy

緒 言

Spontaneous Hemoperitoneum in Pregnancy (以下SHiP) は、妊娠中から産褥期における外傷、子宮破裂、卵巣出血、異所性妊娠を除く急性腹腔内出血である¹⁾。発症時期は妊娠後期が最多で、頻度は10,000分娩に1例と稀だが、母体死亡率が1.7%、周産期死亡率は27%と高く、周産期予後不良となりうる疾患である^{2) 3)}。症状が非特異的なため診断が困難で、確定診断は帝王切開で開腹した時に初めてつくことが最も多

い⁴⁾。

今回、我々は、急性腹症で発症し、確定診断がつかないまま行った緊急帝王切開で初めて診断されたSHiPを経験したので、文献的考察を含めて報告する。

症 例

症例は40歳、1妊0産。既往歴、家族歴に特記すべきことなし。自然妊娠で、10cm大の子宮筋腫を合併していたため、妊娠10週5日に近医より当院に紹介となった。妊娠経過は良好だった。妊娠32週3日、分娩様式を

決定するためにMRIを行ったところ、児頭より下方に筋腫を認めた(図1)。経膈分娩は困難と考えられたため、妊娠37週3日で選択的帝王切開と子宮筋腫核出術を行う方針となった。

妊娠37週0日、朝食後に突然強い腹痛が出現し、持続していたため、救急車で受診となった。受診時、呼吸は促迫していたが、vital signは異常なかった。胎児心拍数陣痛図はreassuring fetal status (以下RFS) で(図2)、不規則ではあるが、患者本人の自覚する子宮収縮を認めた。破水や性器出血はなく、経腹超音波で胎盤の異常も認められなかった。経膈超音波でダグラス窩に境界不明瞭な、低エコーで内部が不均一な腫瘤を認めた(図3)。卵巣出血時の超音波像に類似する所見であり、血腫と推測された。他に異常所見なく、血液検査も異常はなかった(表1)。

急性腹症のため、救急車で受診したものの、診察時には痛みは軽快し、軽度の腹痛を認めたものの、全身状態

は落ち着いていた。腹痛の確定診断はつかなかったが、正期産であり、痛みを伴う子宮収縮を認めることから、予定していた帝王切開を行うこととした。

開腹時、腹腔内に150ml程度の出血を認めた。定型的な帝王切開術を完遂後に出血部位の確認を行った。子宮頸部後壁に10cm超の漿膜下筋腫を認め、筋腫直上の漿膜下を走行する数本の血管の断裂による出血が確認された(図4-①)。筋腫核出後、ダグラス窩の血腫を除去すると、新たに子宮頸部後壁からの出血を認めた(図4-②)。術中出血量は735mlで、児は出生体重2,504g、Apgar score 8点(1分)/8点(5分)、臍帯動脈pH7.32だった。

術後は貧血もなく、経過は良好だった。児は呼吸障害を認めることなく順調に経口哺乳が進んだ。術後6日目に母子共に退院した。

考 案

今回の症例は、選択的帝王切開での分娩を計画していた。妊娠37週0日、急性腹症のため救急車で受診となった。胎児心拍数陣痛図は不規則な子宮収縮を認めた。RFSだったが、受診時には呼吸が促迫するほどの痛みであったため、陣痛発生や常位胎盤早期剥離を念頭において検査を進めた。超音波では胎盤後血腫を認めず、血液検査では肝腎機能、凝固機能は正常だった。経膈超音波でダグラス窩に血腫を疑う像を認めたが、vital signが正常であったため、特記すべき所見ではないと考えた。腹痛の確定診断はつかず、症状は軽快していたが、患者の不安が強く、正期産であったため、緊急帝王切開を行った。開腹時に腹腔内に出血を認め、この時点でSHiPの診断がついた。本症例が帝王切開を予定していなかった場合、緊急帝王切開の判断が行えたかどうか、不安が残る。

SHiPの主な症状は、急性腹症(70%)、循環血液量減少性ショック(18%)で3rd trimesterに発症することが

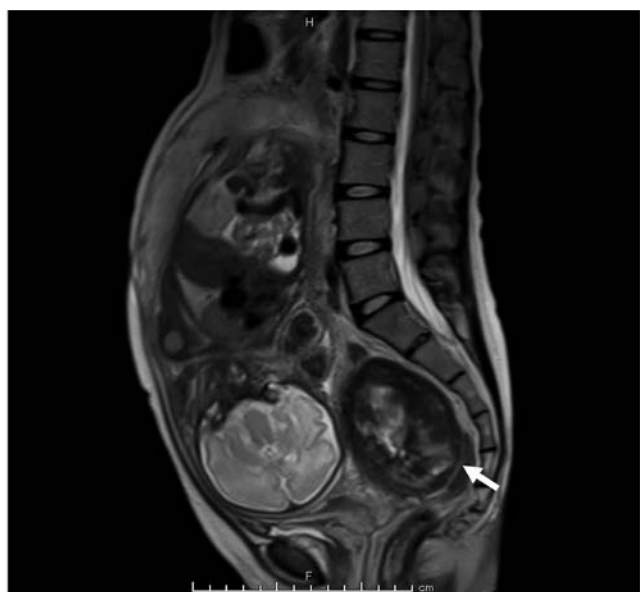


図1 妊娠37週3日のMRI(長径10cmの子宮筋腫を認めた。)

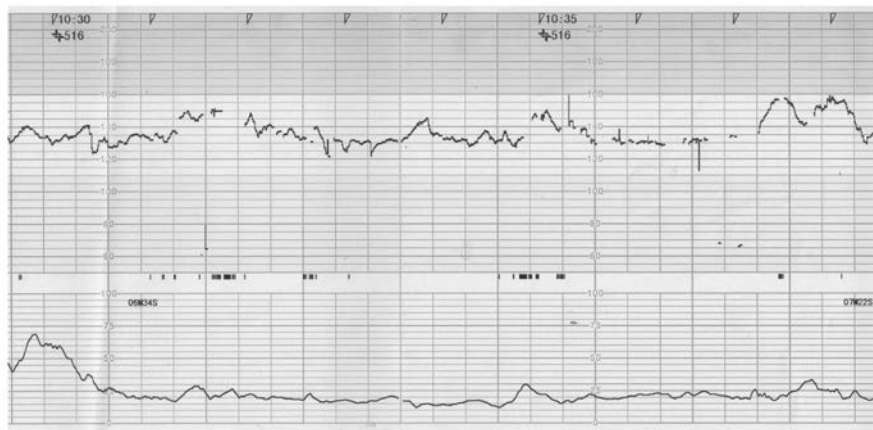


図2 受診時の胎児心拍数心電図

多い⁵⁾。症状が非特異的であるため、診断は容易ではない。確定診断は緊急帝王切開を行った際の開腹時につくことが多く、術前診断としては、原因不明の腹腔内出血(37%)、常位胎盤早期剥離(26%)、子宮破裂(11%)、急性虫垂炎(7%)が挙げられる⁶⁾。

診断は、腹部所見と超音波検査が決め手となるが、妊娠後期では妊娠子宮により経膈超音波での腹腔内出血の診断は難しく、経腹超音波や腹骨盤CTが診断に有用となる場合がある⁷⁾。被曝のリスクを考慮し、妊娠中のCTは敬遠されがちだが、妊娠中の腹痛ではSHiPを疑っ

て腹腔内出血を検索する必要があると、診断が困難な場合は、腹骨盤CTも考慮するべきと考える。

SHiPのリスク因子として、子宮内膜症と生殖補助医療(assisted reproductive technique)による妊娠、が報告されており、出血部位は子宮漿膜後壁や子宮傍組織の子宮卵巢血管叢とされている³⁾。子宮筋腫の破裂や肝臓表面、脾臓、血管周囲類上皮細胞腫瘍や動静脈奇形からの出血症例も認められる^{4) 8) 9) 10)}。Brosens et al.のレビュー-25症例の検討では、出血部位の90%が子宮後壁または子宮傍組織で、52%に肉眼的に子宮内膜症病変を認め、出血部位の生検が可能であった5例すべてにおいて組織学的に血管新生と脱落膜化を特徴とした子宮内膜病変を認めている¹¹⁾。出血の原因として、子宮の増大や脱落膜化した子宮内膜症組織が退縮したため、近接した血管が破綻すること、循環血液量の増加に加え、排便・性交・陣痛などで腹圧が上昇することにより、血管内圧が上昇し血管が破綻すること、が考えられる⁵⁾。

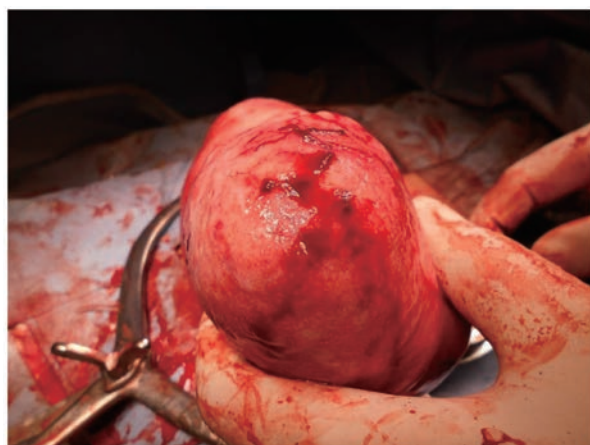
今回の症例は、子宮筋腫表面の血管と子宮頸部後壁からの出血を認めた。子宮内膜症病変は認められなかった。一般に、30～49歳の経産婦で筋腫の直径が10～16cmの症例で表面の血管からの出血が起こりやすい、との報告がある¹²⁾。出血が起こる機序として、10cm以上の筋腫では、表面の血管が引き延ばされていて破綻し



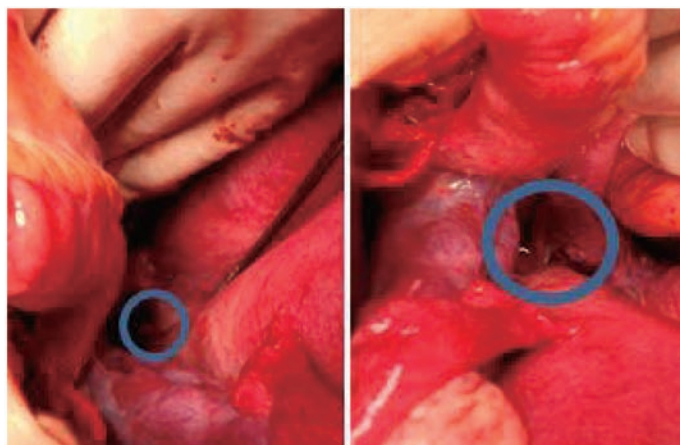
図3 経膈超音波(ダグラス窩に血腫様エコー像を認めた。)

表1 受診時の血液検査所見

WBC	6540/ μ l	AST	23 IU/L
RBC	365 $\times 10^4$ / μ l	ALT	12 IU/L
Hb	11.4 g/dl	LDH	229 IU/L
Ht	34.2%	APTT	29.4 sec
Plt	19.6 $\times 10^4$ / μ l	PT	94 %
CRP	0.12 mg/dl	PT INR	1.05 INR
Cr	0.64 mg/dl	Fib	356 mg/dl
血糖	103 mg/dl		



①子宮筋腫表層の血管からの出血



②子宮頸部後壁からの出血

図4 腹腔内所見

やすい状態になっていること、筋腫が増大することにより栄養血管が分断されること、胎児発育や胎動による子宮の変形や腹圧の上昇により静脈がうっ血し、筋腫表面の血管が破綻すること、が考えられる⁸⁾。本症例は、当院初診時より10cm大の子宮筋腫があり、筋腫の周囲には著明な血流を認めていた。筋腫の表面に血管が豊富に存在し、子宮の変形や腹圧の上昇により破綻したと考えられる。

1950年のHodgkinson et al.の報告では母体死亡率は49.3%と高値であるが²⁾、輸血医療の進歩により改善され、2017年のLier et al.のシステマティック・レビューでは、母体死亡率は1.7%まで減少しているが、周産期死亡率は27%と高く、新生児予後は依然として不良である³⁾。新生児予後が不良である理由として、母体の循環血液量の減少により胎児胎盤循環が悪化するから、という考えがある。しかし、全国の周産期センターから集計したSHiP35症例を検討したHagimoto et al.によると、母体の腹腔内出血量と児の臍帯動脈のpHに相関関係は認められなかった¹⁰⁾。また、臍帯動脈のpHで分類した新生児予後の不良群では良好群と比較すると、32週未満の早産や、術前診断が常位胎盤早期剥離であったものが多かった¹⁰⁾。SHiPでは、腹腔内出血の刺激によって、常位胎盤早期剥離と同様に持続的な子宮収縮を起こすことが報告されている。母体の循環血液量の減少によるものに加え、持続的な刺激による子宮収縮や子宮の過緊張が胎児機能不全を伴い、それが新生児予後の悪化につながると考えられる。

SHiPの治療方針として明確なガイドラインはないが、止血と同時に帝王切開術を行う方針と、止血のみを行い妊娠を継続する方針がある¹³⁾。出血源が特定でき、止血可能で胎児機能不全を伴わない場合は、妊娠継続が可能であり、早産に伴う合併症を減らすことができる。佐久間らは、妊娠33週2日で発症し、胎児機能不全を伴わないSHiPを保存的に管理し、再出血を起こした時点で帝王切開を行い、新生児予後が良好な症例を報告している¹⁴⁾。SHiPでは、母体の循環動態や妊娠週数、胎児の状態を総合的に判断して管理を行う必要がある。

今回、帝王切開時に診断がついたSHiPを1例経験した。急性腹症の妊婦では、鑑別診断の1つとしてSHiPを念頭に置く必要がある。腹腔内出血の検索を行い、超音波検査で不明瞭な場合は腹骨盤CTを行い、診断がついた場合は母体と胎児の状態を総合的に判断し治療方針を立てることが重要である。

文 献

- 1) Kapila P. Fatal non-traumatic spontaneous hemoperitoneum in second trimester of pregnancy-autopsy findings. *J Forensic Leg Med* 2011; 18: 139-140.
- 2) Hodgkinson CP, Choristensen RC. Hemorrhage from ruptured utero-ovarian veins during pregnancy. Report of three cases and review of the literature. *Am J Obstet Gynecol* 1950; 59: 1112-1117.
- 3) Lier MC, Malik RF, Ket Johannes CF, Lambalk CB, Brosene IA, Mijatovic V. Spontaneous hemoperitoneum in pregnancy (SHiP) and endometriosis-a systematic review of recent literature. *Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol* 2017; 219: 57-65.
- 4) Sameer H, Bishr A, Nasreen H, Jessica R. Spontaneous intraperitoneal hemorrhage in the third trimester of pregnancy: Clinical suspicion made the difference. *J Obstet Gynecol Res* 2018; 44: 161-164.
- 5) Foley MR, Sonek JD, Lavender M, Zuspan FP. Spontaneous rupture of uteroovarian veins in pregnancy: Two case reports. *Am J Obstet Gynecol* 1987; 156: 962-964.
- 6) Ginsburg KA, Valdes C, Schnider G. Spontaneous utero-ovarian vessels rupture during pregnancy: Three case reports and review of literature. *J Obstet Gynecol* 1987; 69: 474-476.
- 7) Lier MCI, Malik RF, van Waeborghe JHTM, Maas JW, van Rumpt-van de Geest DA, Coppus SF, Berger JP, van Rijn BB, Janssen PF, de Boer MA, de Vries JIP, Jansen FW, Brosens IA, Lambalk CB, Mijatovic V. Spontaneous hemoperitoneum in pregnancy and endometriosis: a case series. *BJOG* 2017; 124: 306-312.
- 8) Swarray-Deen A, Shirley A, Brown M, Coleman J. Rare complication of fibroids in pregnancy: Spontaneous fibroid rupture. *J Obstet Gynecol Res* 2017; 43: 1485-1488.
- 9) Nitahara K, Sasaki M, Ichikawa S, Tsuji K, Yoshida Y. Rupture of perivascular epitheloid cell neoplasm at 34weeks' gestation: A nonendometriosis case of spontaneous hemoperitoneum in pregnancy. *J Obstet Gynecol Res* 2017; 45: 709-713.
- 10) Hagimoto M, Tanaka H, Osuga Y, Miura K, Saito S, Sato S, Sugawara J, Ikeda T. Nationwide survey (Japan) on spontaneous hemoperitoneum in pregnancy. *J Obstet Gynecol Res* 2021; 47: 2646-2652.
- 11) Brosens IA, Fus L, Brosen JJ. Endometriosis is a risk factor for spontaneous hemoperitoneum during

pregnancy. Fertil Steril 2009; 92: 1243-1245.

- 12) Ihama Y, Miyazaki T, Fuke C. Hemoperitoneum due to rupture of a subserosal vein overlying a uterine leiomyoma. Am J Forensic Med Pathol 2008; 29: 177-180.
- 13) Jang JH, Kyeong KS, Lee S, Hong SH, Ji I, Jeong EH. A case of spontaneous hemoperitoneum by uterine vessel rupture in pregnancy. Obstet Gynecol Sci 2016; 59: 530-534.
- 14) 佐久間早希, 関口将軌, 大石愛菜, 稲垣麻衣, 栗原大地, 関文恵, 蓬田裕, 中村玲子, 辰巳崇征, 宮坂尚幸. 出血を反復したspontaneous hemoperitoneum in pregnancy (SHiP) の1例. 東京産婦会誌 2020 ; 69 : 235-239.

【連絡先】

佐々木佳子

岡山市立岡山市民病院産婦人科

〒700-8557 岡山県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：keichima0823@yahoo.co.jp

