現代産婦人科　Vol.73 No.2，2024 年，pp.161-164

妊娠37週に妊娠中の特発性腹腔内出血（SHiP）による母体出血性ショック，子宮内胎児死亡を来した一例

濱田　真彰・築澤　良亮・岡田　秀治・伊藤　佑奈・川口優里香
坂井　裕樹・田中奈緒子・横畑　理美・森川　恵司・谷　和祐
植田麻衣子・関野　和・依光　正枝・上野　尚子・児玉　順一

広島市民病院　産科・婦人科

Case of maternal hemorrhagic shock and intrauterine fetal death due to spontaneous intraperitoneal hemorrhage at 37 weeks of gestation

Masaaki Hamada・Yoshiaki Tsukizawa・Shuji Okada・Yuna Ito・Yurika Kawaguchi
Yuki Sakai・Naoko Tanaka・Satomi Yokohata・Keiji Morikawa・Kazumasa Tani
Maiko Ueda・Madoka Sekino・Masae Yorimitsu・Naoko Ueno・Junichi Kodama

Department of Obstetrics and Gynecology, Hiroshima City Hiroshima Citizens Hospital

Spontaneous hemoperitoneum in pregnancy（SHiP）とは妊娠中ないし産褥42日までに突然発症する特発性の非外傷性腹腔内出血であり，重篤な周産期アウトカムと関連する。今回妊娠37週に発症したSHiPの一例を経験したため，文献的考察を含めて報告する。症例は26歳１妊０産。19歳時に右卵巣粘液性嚢胞腺腫に対して腹腔鏡下右付属器摘出術を施行された。妊娠37週０日に突然の腹痛が出現し，救急搬送された。来院時意識レベルJCSⅡ-10，収縮期血圧80mmHg，心拍数140回/分，顔面蒼白を認めた。経腹超音波検査にて胎児心拍消失，子宮周囲に液体貯留を認めた。造影CT検査早期相にて子宮体部右側に造影剤漏出像を認めたため，腹腔内出血及び妊娠37週子宮内胎児死亡として緊急開腹止血術及び帝王切開術を行った。子宮体部右側の卵巣固有索切除部血管表面に５mm大の出血性部位を認め，同部位から動脈性の強出血を認めた。また，出血部および子宮後面，左卵巣，広間膜後葉に子宮内膜症組織を認めた。胎児及び胎盤を娩出後，出血点を縫合止血した。母体は術後５日に自宅退院となった。
SHiPは，非外傷性に発生する特発性腹腔内出血の総称であり，その危険因子として子宮内膜症が報告されている。また，生殖医療の進展により，子宮内膜症を有する女性の妊娠機会が増加しており，子宮内膜症が背景にある症例では，今後SHiPの発症率および重症度が増加する可能性がある。SHiPは急性の腹痛およびショックを呈する稀な疾患であるが，母体および胎児の死亡原因となる可能性があるため，妊娠および周産期における急性腹症の鑑別診断において考慮する必要がある。

Background: Spontaneous hemoperitoneum in pregnancy (SHiP) refers to idiopathic nontraumatic intra-abdominal bleeding that occurs spontaneously during pregnancy or within 42 days postpartum and is associated with serious perinatal outcomes.
Case presentation: A 26-year-old primigravida woman at 37 weeks of gestation with a history of laparoscopic right salpingo-oophorectomy (for an ovarian mucinous cystadenoma at age 19) presented with sudden abdominal pain. Abdominal ultrasonography revealed intrauterine fetal death and a massive echo-free space around the uterus. Early-phase contrast-enhanced computed tomography showed extravasation on the right side of the uterine body. Emergency cesarean section and direct surgical ligation were performed. A 5 mm hole with arterial bleeding was identified in the area where the ovarian ligament had been removed from the right side of the uterine body. Additionally, endometriosis tissue was found at the bleeding site. After delivery of the fetus and placenta, the bleeding point was sutured for hemostasis. The mother was discharged 5 days postoperatively.
Conclusion: SHiP is a general term for idiopathic intra-abdominal hemorrhage occurring non-traumatically during pregnancy or postpartum. Endometriosis has been reported as a risk factor for SHiP. With advancements in reproductive medicine, the chances of pregnancy in women with endometriosis have increased, and assisted reproductive technology has been associated with higher SHiP incidence and severity in these women. Therefore, careful pregnancy management is essential.

キーワード：SHiP，特発性腹腔内出血，子宮内膜症
Key words：Spontaneous intraperitoneal hemorrhage in pregnancy, endometriosis

緒　　言

Spontaneous hemoperitoneum in pregnancy（SHiP）は妊娠中ないし産褥42日までに突然発症する特発性の非外傷性腹腔内出血であり，重篤な周産期アウトカムと関連する[1)]。今回妊娠37週に発症したSHiPの一例を経験したため，文献的考察を含めて報告する。

症　　例

26歳，１妊０産。19歳時に右卵巣粘液性嚢胞腺腫に対して腹腔鏡下右付属器切除術を施行された。そのほか月経困難症，過多月経の既往歴があった。自然妊娠にて妊娠成立し，妊娠初期に妊娠分娩管理目的に当院紹介された。妊娠経過，胎児発育ともに異常は認めなかった。妊娠37週０日未明に突然の腹痛を発症し，当院救急搬送された。遠方に在住の患者であり，搬送依頼より１時間後に当院へ到着した。来院時診察所見では，身長149cm，非妊娠時体重43kg，意識レベルはJCSⅡ-10（呼びかけで開眼），顔面蒼白，皮膚湿潤であった。血圧は80/40mmHg，脈拍数は140回/分（Shock Index: 1.75），腹部全体の圧痛と，胎動減少を認めた。腟鏡診では出血はなく，内診では子宮口の開大は認めなかった。経腹超音波では胎児心拍は消失しており，子宮周囲にEcho free spaceを認めた。血液所見ではWBC16,800/μL，Hb 7.5g/dL，Plt 8.1×10^4/μL，フィブリノゲン317mg/dLであった。性器出血や板状硬，子宮収縮は認めず，常位胎盤早期剥離を積極的に疑う所見は認められなかった。また，羊水減少や胎児に子宮外脱出所見もなく，子宮破裂を積極的に疑う所見も認めなかった。産科DICスコア６点であった。緊急で施行した腹部－骨盤部単純及び造影CT検査では肝表面に及ぶ腹水を認め，子宮体部右側漿膜面に造影剤漏出像を認めた（図１，２）。十分なインフォームド・コンセントの上，子宮表面からの出血による出血性ショック及び子宮内胎児死亡として全身麻酔下にて緊急開腹止血術，帝王切開の方針とした。

開腹時より腹腔内に大量の出血を認めた。腹腔内出血により出血点の同定が困難であったため，速やかに児を娩出した後出血部位の確認し，止血操作を図った。右卵巣固有索切除部，子宮後面に血管表面に５mm大の穴を認め，同部位より動脈性の強出血を認めた。縫合止血を行い，止血を得た。また，右卵巣固有索子宮後面，左卵巣，広間膜後葉に広範に子宮内膜症組織の付着を認めた（図３，４）。子宮後面，左卵巣，広間膜後葉に認めた子宮内膜症組織はバイポーラーで焼灼した。子宮後面の子宮内膜症性組織が疑われる部位を生検したところ，少量の平滑筋組織を含む脱落膜変化を示す間質組織を認め，子宮内膜症の妊娠後変化として矛盾はなかった（図５）。新生児は男児，体重は2228g，心拍は認めなかった。出血量は3,110g（羊水込み），輸血量は赤血球濃厚液12単位，新鮮凍結血漿製剤６単位，濃厚血小板製剤10単位，フィブリノゲン製剤３gであった。母体は出血性ショックによりバイタルが不安定であったため，術後挿管下でICU入室となり，術後１日目に抜管し，同日一般病床に転棟となった。術後経過は良好であり，術後５日目に退院した。月経再開日より，子宮内膜症の改善目的にジエノゲスト２mg内服を開始し，本人相談の上次回妊娠希

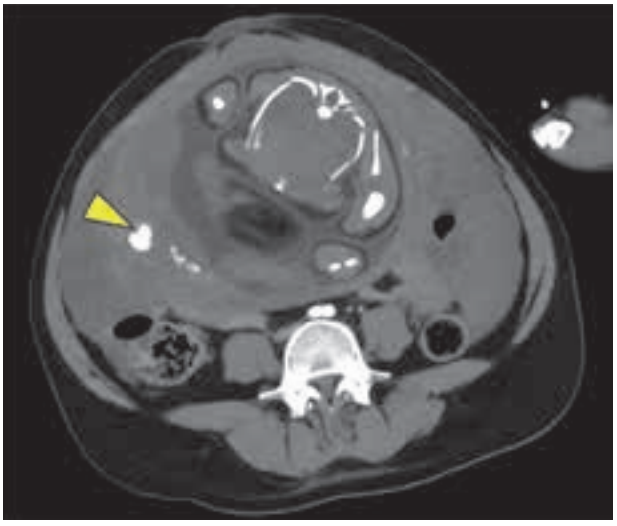

図１　腹部造影動脈相CT検査水平断
図は腹部造影CT検査の出血部位を示す。右側子宮表面に造影剤漏出像を認めた（矢頭）。

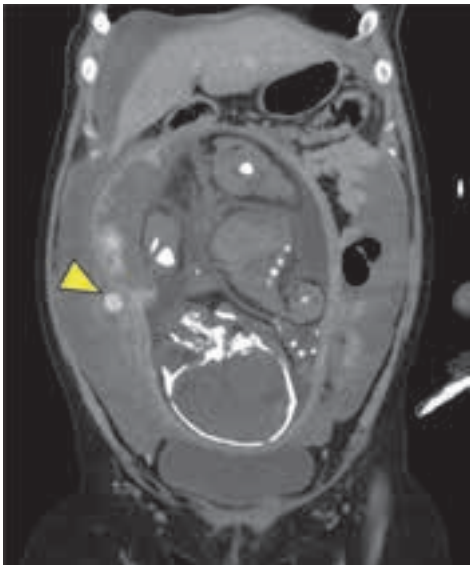

図２　腹部造影CT平衡相冠状断
右側子宮表面に造影剤漏出像を認め，動脈性出血が疑われた（矢頭）。

図３　術中所見：
図は子宮後面を示す。右卵巣固有靱帯切除部の血管表面に５mm大の血管破綻，動脈性出血を認めた。

図４　術中所見：
図は凝固止血処理後の出血部位を示す。
血点周囲に子宮内膜症組織を認めた。

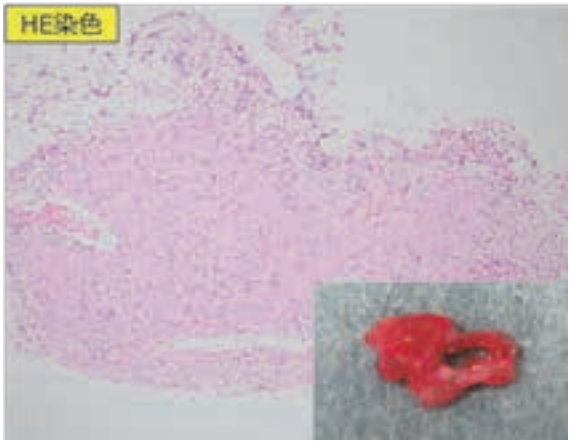

図５　子宮後面の子宮内膜症性組織が疑われる部位の生検を示す。
脱落膜変化を示す間質組織を認め，妊娠時の子宮内膜症病変の部分像として矛盾しなかった。

望があるため，術後６ヶ月内服の方針とし外来管理中である。

考　　案

SHiPは妊娠中ないし産褥42日までに発症する子宮破裂，子宮外妊娠，帝王切開に関連した出血に起因しない外科的介入または塞栓術を必要とする自然発症の非外傷性腹腔内出血である[1)]。本邦の母体死亡率は３％，胎児死亡率は10％と報告されており，緊急性の高い産科的危機的出血を来たす疾患である。Lier *et al.*の報告では母体死亡率は1.7％と予後は比較的良いが，周産期死亡率は27％と予後は不良であった[1)]。Hagimoto *et al.*が本邦で行った調査では発症時期は3rd Trimesterが最も多く，次いで産褥期に多く，妊娠1st Trimesterでの発症はなかった。これは子宮体積の増加に伴い，子宮壁の進展や妊娠後期の子宮収縮の増加がSHiPの発症に影響している可能性があると考えられる[4)]。

Brosens *et al.*の報告ではSHiPの主な症状は急性腹症（95％），出血性ショック（47.5％），胎児心拍異常（40％）と報告されている[2)]。このため，主症状から妊娠中・産褥期における他の疾患との鑑別が極めて困難であり，術前診断は不明（37％），常位胎盤早期剥離（26％），子宮破裂（11％），急性虫垂炎（26％）であったと報告されている[1,3)]。Hagimoto *et al.*の研究では子宮硬直が常位胎盤早期剥離と誤診されることが胎児死亡と相関関係にあったと報告されている。また，母体出血による胎盤血流量の低下，子宮硬直及び頻収縮が胎児予後不良に影響すると報告している[4)]。

本症例では常位胎盤早期剥離や子宮破裂を疑う所見は認めず，子宮筋層漿膜面の動脈性出血を認めたため，SHiPが疑われた症例であった。

しかしながら，遠方に在住されている患者であり，搬送依頼から当院現着までに１時間を要したため，胎児低酸素状態が持続したことにより胎児死亡に至ったと考えられる。より発症早期に治療介入ができていれば，児の予後を改善できた可能性は考えられた。発症から早期の診断，児の娩出，ショックバイタルの改善，バイタルの安定化が重要であると考える。

SHiPは子宮内膜症との関連が報告されている。Lier *et al.*の報告ではSHiPを発症した妊婦59例中33症例が子宮内膜症を認めた[1)]。なお子宮内膜症33例のうち，22例（66.7％）は妊娠前，８例（24.2％）は妊娠中，３例（9.1％）は妊娠後に診断された。子宮内膜症の病期と出血の重症度については，両者の間に相関関係を認めなかった[1)]。子宮表面に慢性炎症を引き起こすことから新生血管が増生し，さらに妊娠による子宮に還流する血液

量の増加により脆弱な血管の拡張の破綻がSHiPの誘因と考えられる。また，子宮手術とSHiPの発症の関連について報告した文献は少ないが，子宮内膜症性嚢胞の術後，卵巣腫瘍摘出術後にSHiPを発症したと報告されている[7]。本症例では腹腔鏡下右付属器切除術後であり，手術部の血管露出部の破綻から大量出血に至ったことが推測される。また術中所見で同部位に子宮内膜症組織が付着していたことからもリスクの高い状態であったことが予想されたが，腹腔鏡下右付属器切除を施行した際の術中所見では子宮内膜症は認めなかった。月経困難症を認めていたことから子宮内膜症の可能性を念頭におく必要がある。子宮内膜症の可能性のある症例ではSHiPを鑑別診断にあげ，早期診断，治療介入が胎児予後改善に繋がると考える。

生殖補助医療（ART）の普及に伴い，子宮内膜症既往の患者の妊娠が増加する可能性がある。不妊症全体の５－15％は子宮内膜症が原因であり，腹腔鏡検査にて不妊症でない女性の6.7％，不妊症女性の９－50％に子宮内膜症を認められると報告されている[5, 6]。本邦で行われた2017年のレビューでは，SHiP59症例のうち10例（32％）がART後妊娠であった[4]。ARTの発展に伴い，子宮内膜症を有する女性の妊娠例は増加していることから稀な疾患ではあるが，今後SHiPが増加することが考えられる。妊娠中・産褥期の急性腹症，出血性ショックの例に遭遇した際には，患者背景，リスク因子も踏まえ本疾患を鑑別すべき疾患として念頭におく必要がある。

結　　語

妊娠37週にSHiPにより母体出血性ショック及び子宮内胎児死亡を来たし，緊急帝王切開ならびに開腹止血術を施行した一例を経験した。SHiPには特徴的な臨床症状はないため診断は非常に困難であるため，母体出血性ショックを認める症例ではSHiPを念頭におく必要がある。

文　　献

1）Lier M, Malik R, Ket J, Lambalk C, Brosens I, Mijatovic V. Spontaneous hemoperitoneum in pregnancy（SHiP）and endometriosis - A systematic review of the recent literature. Eur J Obstet Gynecol Reprod Biol 2017; 219: 57-65.

2）Brosens I, Lier C, Mijatovic V, Habiba M, Benagiano G. Severe spontaneous hemoperitoneum in pregnancy may be linked to in vitro fertilization in patients with endo-metriosis: a systematic review. Fertil Steril 2016; 106: 692-703.

3）Ginsburg K, Valdes C, Schnider G. Spontaneous utero-ovarian vessels rupture during pregnancy: three case reports and a review of literature. Obstet Gynecol 1987; 69: 474-6.

4）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 Gynaecol 2021; 47: 2646-2652.

5）Moghissi K, Wallach E. Unexplained infertility; Fertil Steril 1983; 39(1): 5-21, 249-262.

6）WHO Scientific Group. Recent Advances in Medically Assisted Conception 1992; 820: 1-111.

7）Vuong A D B, Pham T H, Nguyen X T, Trinh N B, Nguyen P N, Ho Q N. Spontaneous hemoperitoneum in the second and third trimester of pregnancy: two uncommon case reports at Tu Du Hospital, in Vietnam and a literature review. Int J emerg Med 2023; 16: 26.

【連絡先】
濱田　真彰
広島市民病院産科・婦人科
〒730-8518　広島県広島市中区基町 7-33
電話：082-221-2291　FAX：082-223-2236
E-mail：mhcambs@gmail.com