

巨大胎盤血管腫により羊水過多，早産期前期破水をきたし， 診断後早期に胎児を娩出した一例

産婦人科 安藝 恵，杉並 興，村山 有美，小林 弘尚，中妻 杏子
堀江 克行，佐々木聖子

4cmを超える巨大胎盤血管腫は8,000～50,000妊娠に1例とまれな疾患である。その合併症として羊水過多，早産，胎児貧血，胎児心不全，胎児発育不全などの重篤な異常を引き起こすことから，診断後は嚴重な周産期管理が求められる。今回われわれは，9cm大の巨大胎盤血管腫のため羊水過多，早産期前期破水をきたした症例を経験した。胎盤血管腫の予後不良因子として，腫瘍が巨大であること，腫瘍が臍帯付着部に存在すること，腫瘍内部の血流が豊富であることが報告されており，本症例はこれらをすべて満たすものであった。小児科と協議の上，早期に児を娩出することで，児への心負荷を避けることができ，母児ともに良好な転帰となったので報告する。

keywords : placental tumor, chorangioma (chorioangioma), polyhydramnios

1. 緒言

胎盤血管腫は胎盤に発生する良性腫瘍の中で最も頻度の高い腫瘍であり，全妊娠の約1%に認められるとされる。しかし，そのうち巨大胎盤血管腫として臨床的に診断される頻度は8,000～50,000妊娠に1例と非常にまれである。われわれは羊水過多，早産期前期破水を契機に胎盤腫瘍の診断に至った1例を経験したので報告する。

2. 症例

23歳，1妊0産，既往歴として乳児血管腫(いちご状血管腫)にてレーザー治療歴がある。その他特記事項なし。

(1) 現病歴

自然妊娠成立し前医受診，胎児頭殿長(CRL)より分娩予定日を決定し妊娠管理を開始した。妊娠24週5日の妊婦健診における腹部超音波検査により胎盤に血腫あるいは腫瘍様の腫瘤影を認めていた(ただしサイズの計測はなし)。この頃より急速に増悪する腹部緊満感を認めていた。

妊娠28週2日の妊婦健診時の腹部超音波検

査にて最大羊水深度(MVP: 8cm以上で羊水過多)が13cmと羊水過多を認め，1週間後の受診を指示されていたが，妊娠29週0日に破水感を自覚したため前医受診し，完全破水と診断され当院に搬送となった。

当科初診時の膣鏡診では多量の羊水流出を認め，子宮口は閉鎖しているが，経膣超音波断層法にて頸管長7mmと短縮していた。腹部超音波断層法にて羊水インデックス(AFI: 24cm以上で羊水過多)39.31cm，MVP 11.72cmと多量の羊水が流出しているにもかかわらず依然として羊水過多を示していた。児に明らかな形態異常はなく，胎児推定体重は1,645g(+1.4SD)，心胸郭面積比(CTAR: 正常値20～35%)は33%であり胎児心拡大や胎児水腫の所見は認められなかった。胎児中大脳動脈収縮期最高血流速度(MCA-PSV)は50.25cm/s(≒1.29Multiples of the median: MoM)で軽度の貧血(ヘモグロビン値が在胎週数の中央値の0.65～0.84倍)¹⁾を示唆する所見であった。胎盤を検索すると胎盤中央の臍帯付着部直下に8.6×6.0cm大の境界明瞭な充実性腫瘤を認め，腫瘤は胎盤よりやや低輝度であり，カラードップラー法では内部に豊富な血流を認めた(図1)。

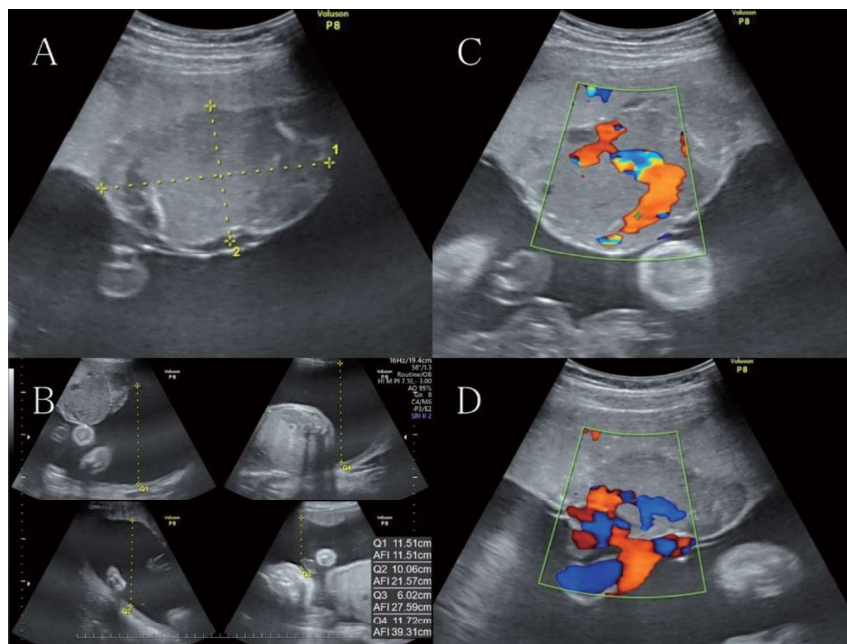


図1. 腹部超音波所見

- A) 胎盤より羊水腔に突出する 8.6×6.0 cm大の境界明瞭な充実性腫瘤を認める。
 B) AFI 39.31cmと羊水過多を認める。
 C) カラー Doppler 法で腫瘤内部に豊富な血流を認める。
 D) 腫瘍は臍帯附着部直下に位置する。

胎児心拍数陣痛図(cardiotocography : CTG)では、中等度の基線細変動を認め、胎児の健全性(well-being)は確認されたが、5～10分間隔で子宮収縮を認めた。切迫早産と診断して塩酸リトドリンの持続静脈内投与、胎児肺成熟促進のためベタメタゾン筋肉内投与、胎児脳保護のため硫酸マグネシウムの持続静脈内投与を開始した。

(2) 検査所見

胎児超音波検査：胎児推定体重1,645g(+1.4SD)，男児，第1頭位，胎児に明らかな形態異常は指摘できず。胃泡あり，膀胱あり。胸水・腹水・心嚢水なし。CTAR 33%，MCA-PSV 50.25cm/s(=1.29MoM)PI 2.58RI 0.93，臍帯動脈(UA)PI 0.72RI 0.52，静脈管(DV)波形異常なし。破水し多量の羊水が流出しているがAFI 39.31cm，MVP 11.72cmと依然として羊水過多を示している。胎盤中央の臍帯附着部直下に 8.6×6.0 cm大の境界明瞭な充実性腫瘤を認める。腫瘤は胎盤よりやや低輝度であり，カラー Doppler 法では内部に豊富な血流あり。

母体血液検査：WBC：9,800/ μ L，RBC：400

万/ μ L，Hb：12.3g/dL，Plt：32.9万/ μ L，CRP：1.12mg/dL，TP：8.5g/dL，Alb：2.9g/dL，T-Bil：0.2mg/dL，AST：26IU/L，ALT：12IU/L，LDH：307IU/L，BUN：4.1mg/dL，Cre：0.54mg/dL，Na：137mEq/L，K：4.2mEq/L，Cl：105mEq/L

MRI：胎盤の臍帯附着部胎児面に、辺縁明瞭な 9.5×6.2 cm大の腫瘤あり，腫瘤内を臍帯との交通のある血管が走行していた。腫瘤の大部分はT2強調像で胎盤と比較して低信号，T1強調像で等信号であり胎盤血管腫が疑われた(図2A, B)。T2強調像で腫瘍辺縁に血液貯留を反映していると考えられる高信号域を認めた(図2C)。T1強調像でも辺縁に血液貯留を反映していると考えられる高信号域を認めた(図2D)。内子宮口が開大しており，また羊水過多を認めた。

(3) 入院後経過

妊娠29週1日に施行した単純MRIにおいて胎盤血管腫が疑われ，小児科と協議の上，巨大胎盤血管腫であり，経過から今後児に過剰な血流が流入することが想定されるため，胎児に心

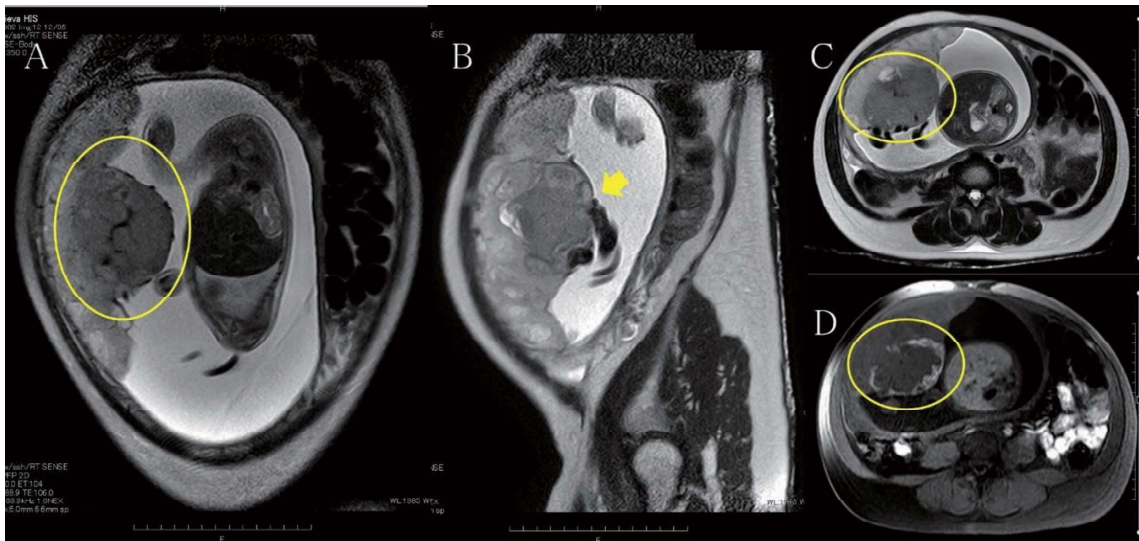


図2. MRI 所見

- A) T2 強調 (冠状断像)：胎盤の胎児面から羊水腔に突出する $9.5 \times 6.2\text{cm}$ 大の境界明瞭な充実性腫瘍を認める。腫瘍は胎盤よりわずかに低信号で胎盤血管腫が疑われる。
 B) T2 強調 (矢状断像)：胎盤の臍帯付着部直下に胎盤血管腫を認める。
 C) T2 強調 (横断像)：腫瘍辺縁に血液貯留を反映していると考えられる高信号域を認める。
 D) T1 強調 (横断像)：腫瘍の大部分は胎盤と等信号である。腫瘍辺縁に血液貯留を反映していると考えられる高信号域を認める。

負荷が生じる前の娩出が望ましいと判断した。妊娠 29 週 2 日に緊急帝王切開術を施行した。

手術所見：妊娠 29 週 2 日，胎盤血管腫合併妊娠のため緊急帝王切開術を施行した。手術時間は 1 時間 5 分，術中出血量は羊水量込みで 1,200mL であった。腫瘍は胎盤と同時に娩出され，腫瘍を含めて胎盤総重量は 584g であった。

(4) 母体の術後経過

術後経過良好であり，術後 8 日目に自宅退院とした。

(5) 児の出生後経過

出生男児は体重 1,458g (0.9SD) で Apgar score は 7/8 点 (1/5 分値) であり，臍帯血ガス分析では pH7.330, BE-2.9, Hb は 12.0g/dL (新生児の貧血の基準値 在胎週数 26 ~ 29 週 $12.9 \pm 1.4\text{g/dL}$) と貧血は認められず，明らかな心不全や皮下浮腫も認められなかった。29 週 2 日の早産であり出生後より持続陽圧呼吸療法 (CPAP) が開始された。日齢 25 日 (修正 32 週 6 日) 高流量経鼻カニューラ酸素療法 (HFNC) へ変更となり，日齢 35 日 (修正 34 週 2 日) に HFNC 療法は終了となった。日齢 54 日 (修正 37 週 0 日) 施行の頭部 MRI では軽微な上衣下出血が認められたが，その他脳室周囲白質軟

化症を疑う所見は認めなかった。日齢 61 日 (修正 38 週 0 日) に体重 2,406g で自宅退院とした。

(6) 胎盤病理所見

肉眼的病理所見：胎盤総重量は 584g，大きさは $18\text{cm} \times 18\text{cm} \times 1\text{cm}$ ，臍帯の長さは 39cm。臍帯付着部直下に $9.5 \times 10 \times 4.5\text{cm}$ の肉眼的に境界明瞭な淡黄色～褐色の腫瘍を認めた (図 3A)。腫瘍は血管の怒張が目立っていた (図 3B)。ホルマリン固定後の胎盤腫瘍断面は，正常胎盤と境界明瞭な充実性腫瘍を認め，血液貯留のため暗赤色を呈していた (図 3C)。

病理組織診断：Placenta, resection: Products of conception, with large chorangioma (chorioangioma, placental hemangioma)。

病理組織所見：絨毛膜絨毛は congestive な多数の血管に富み，いわゆる chorangiosis 様を思わせる点もあり，虚血性変化，フィブリン塊，梗塞，壊死，切開化などは著明ではない。肉眼的に腫瘍として認められた部分は，hemangiomatous な，密な血管増生により成る mesenchymal tissue の所見を呈し，いわゆる large chorangioma (chorioangioma, placental hemangioma) の所見を呈する (図 4)。

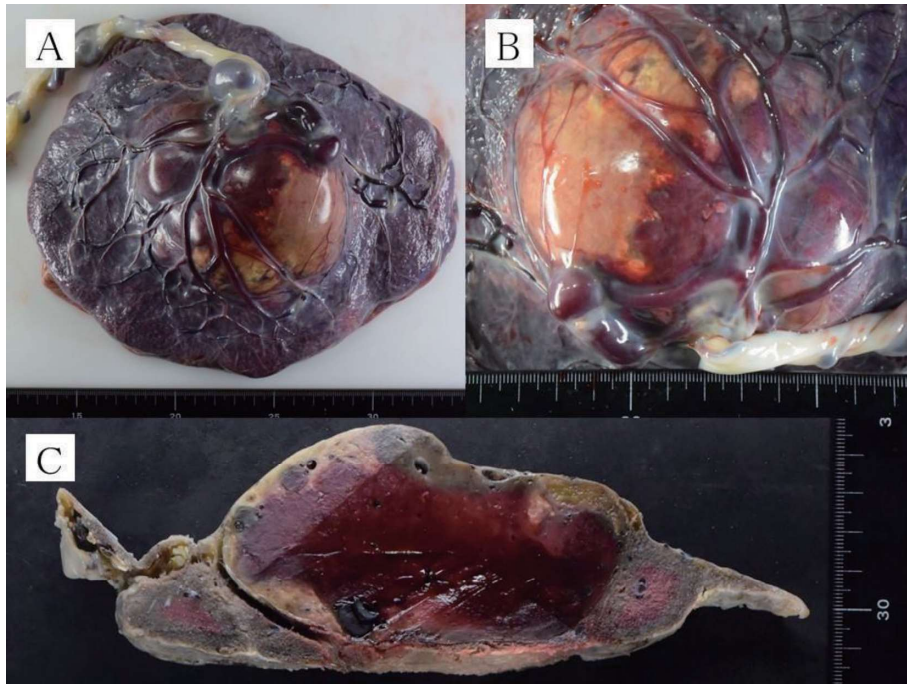


図3. 胎盤の肉眼的病理所見

- A) 胎盤中央の臍帯付着部位直下に境界明瞭な淡黄色～褐色の腫瘍を認める。
 B) 腫瘍の大きさは9.5 × 10cmで血管の怒張が目立つ。
 C) ホルマリン固定後の胎盤切片 図の上方が胎児面で下方が母体面である。正常胎盤と境界明瞭な充実性腫瘍を認め、その断面は血液貯留のため暗赤色を呈している。

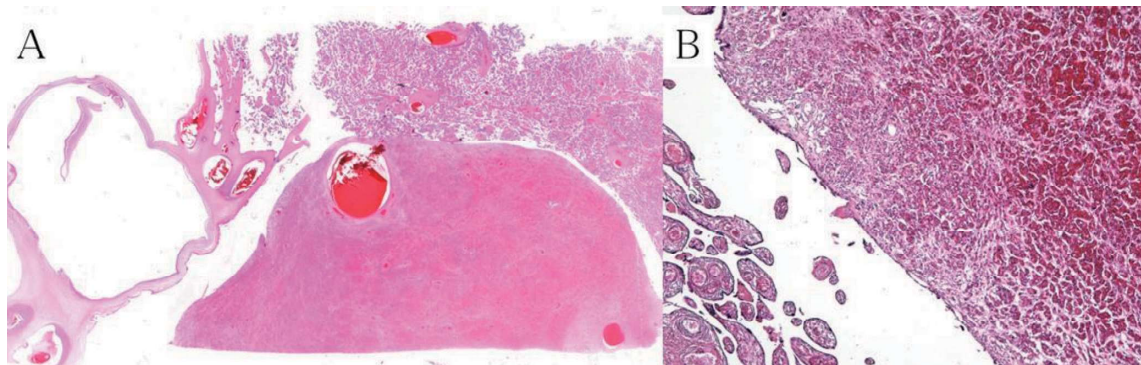


図4. 胎盤腫瘍病理所見 (HE 染色)

- A) 弱拡大: 胎盤腫瘍内には毛細血管だけでなく、大小の血管を認める。
 B) 強拡大: 正常絨毛(左)と胎盤腫瘍(右)との境界部。毛細血管の密な増生を認める。

3. 考 察

胎盤血管腫は1798年にClarkeらにより初めて報告された非絨毛性の胎盤腫瘍である²⁾。胎盤血管腫は胎盤に発生する良性腫瘍の中で最も頻度の高い腫瘍であり、胎盤の詳細な検索を行えば全妊娠の約1%に認められるとされるが、本症例のように直径4cmを超える巨大胎盤血管腫は8,000～50,000妊娠に1例とまれな

疾患である^{3,4)}。巨大胎盤血管腫では羊水過多、胎児発育不全、胎児水腫、胎児貧血などを合併する頻度が高くなると言われており、胎児機能不全や胎児死亡も起こりうる。

相馬らは(1)組織学的に多数の毛細血管の拡張が認められる血管腫型、(2)未熟な細胞に富む実質組織からなり血管形成が少ない細胞型、および(3)硝子様変性、フィブリノイド変性、壊死や石灰を伴う変性型と(4)それらが混在す

る混合型の4つに分類している⁵⁾。超音波所見としては円形の見出しの腫瘍として描出されることが多く、胎盤とほぼ同等のエコー輝度を呈する。カラードップラー法を用いると、血管腫型では豊富な血流が描出される^{3, 6)}が、細胞型や変性型の場合には血流があまり観察されないため、胎盤早期剥離や絨毛膜下血腫との鑑別が困難となることもあり、慎重に確認する必要がある。

合併症としては羊水過多、胎児心不全、胎児貧血・血小板減少、胎児発育不全や胎児死亡が挙げられる。羊水過多症は胎盤血管腫の14～51%に合併するとされている^{4, 7, 8)}。羊水過多の原因については、動静脈シャントに伴う胎児心拍出量の増大による胎児腎血流の増加⁹⁾、腫瘍の臍帯静脈圧迫による浸出液の増大¹⁰⁾、巨大な血管腫表面を通じての漏出¹¹⁾が考えられている。胎児心不全はシャントによる胎児心拍出量の増大が原因と考えられている。胎児貧血は腫瘍内の微小血管障害が物理的に赤血球や血小板を破壊すること¹²⁾や、胎児血の絨毛間腔への流入による母児間輸血症候群¹³⁾などが原因で起こると報告されている。Watterらは64文献112症例のシステマティックレビューにて、早産が62%、羊水過多が51%、胎児水腫の徴候が35%、胎児発育不全が14%、胎児貧血が13%、と報告している。新生児の予後は死亡が13%、死産が13%、良好が71%、報告なしが3%であった⁷⁾。またLiuらの自験例16症例の報告では胎児発育不全が18.8%、羊水過多が18.8%、羊水過少が18.8%、胎児心不全が12.5%、子宮内胎児死亡が12.5%であった⁸⁾。

胎盤血管腫の予後決定因子としてLiuらは、腫瘍径、腫瘍内の血流の程度、腫瘍の発生部位を挙げている⁸⁾。大きさが4cmを超えると合併症が多くなると報告されており、Zanardiniらも同様の結果を報告している¹⁴⁾。Jauniauxらは腫瘍内血管の豊富さも合併症を引き起こす独立した因子であると論じている³⁾。最大径3cmで腫瘍内部に血流を伴った2例では羊水過多症

を合併し34週、36週で早産になったが、最大径7cmで腫瘍内部に血流をとまわない2例では合併症なく39週と40週で自然経膈分娩したことを報告しており、胎盤血管腫内が無血管であれば合併症は起こらず、血管が豊富であればサイズにかかわらず予後が悪いと結論付けている³⁾。またSepulvedaらやLiuらは腫瘍の発生部位としては、臍帯付着部にあるということが予後不良因子であると報告している^{8, 15, 16)}。本症例は腫瘍の最大径は9cmで、カラードップラー法で内部に豊富な血流を認め、腫瘍発生部位は臍帯付着部直下と前述したすべての予後不良因子に当てはまっていた。

合併症をきたした胎盤血管腫合併妊娠での児の娩出時期については、正期産あるいは正期産に近い症例の場合はすみやかに妊娠を終了することが第一選択になるが、一方早期で病変を指摘し得た症例の場合は児の未熟性が問題となるので、可能な限りの妊娠期間延長が求められる¹⁷⁾。そのための対症療法としては、羊水量を減少させることにより減圧し子宮収縮を抑えるための羊水穿刺・除去や、重度の胎児貧血を認めるような症例では胎児輸血が行われることがある。胎盤血管腫自体に対する根本治療としては血管腫への流入血管の焼灼、アルコール注入、コイル塞栓などの治療報告がある¹⁵⁾。Watterらは、システマティックレビューではこれらの対症療法や根本治療を行った場合の予後を検討しており、治療群と無治療群で予後に有意差は認められなかったと報告している。治療介入は妊娠28週未満に行われている症例がほとんどであった⁷⁾。本症例では完全破水の状態であり、胎児貧血の予測も軽度で留まっていたことから、羊水除去や胎児輸血などの対症療法の適応はなかった。また妊娠29週で推定体重も妊娠週数通りであることから、胎外生活が可能と考えられ、侵襲的リスクを冒してまで根本治療を行う必要性も認められないと考えられた。

妊娠期間を延長する場合には、頻回な腹部超音波検査にて胎児心拡大や胸腹水の貯留の有無

により胎児心不全徴候を，MCA-PSVにより胎児貧血を評価し，それが娩出時期の決定に有用であったとする報告がいくつかある^{18, 19)}．一方，実際に胎児心不全が進行した結果，低酸素虚血性脳症を起こし，長期にわたり嚴重な管理が必要となった症例の報告もある¹⁷⁾．本症例では24週ごろより急速に腹部が膨満し，破水後もAFI 39cmと羊水過多を認めており，また胎盤血管腫自体の特性も予後不良因子をすべて満たすものであったことより，病態がまさに進行している状態であったと考えられる．結果的には出生後の新生児には貧血は認めなかったが，MCA-PSVは複数回計測し，1.29MoM(=軽度貧血)¹⁾に近い値が持続しており，少なからず児の血流への影響がある可能性が示唆された．小児科と協議の上，児への心負荷が進行する前の娩出が望ましいと判断し，妊娠29週での緊急帝王切開を決定した．出生児には明らかな心拡大や皮下浮腫，胸腹水，貧血を認めず，これまでの経過は良好である．胎児循環に影響を及ぼす前に娩出することで児への影響を減らすことができた1例であった．娩出時期の決定には，小児科と密に連携すること，症例に予後不良因子がないか確認することが肝要であると考えられた．

4. 結 語

羊水過多，早産期前期破水を契機に胎盤腫瘍の診断に至った1例を経験した．胎盤血管腫合併妊娠ではさまざまな合併症をきたす可能性があり，児の娩出時期の決定には小児科との連携と，予後不良因子の確認が重要である．

文 献

- 1) Mari G, Deter RL, Carpenter RL et al.: Noninvasive diagnosis by Doppler ultrasonography of fetal anemia due to maternal red-cell alloimmunization. Collaborative Group for Doppler Assessment of the Blood Velocity in Anemic Fetuses. *N Engl J Med* **342**(1): 9-14, 2000.
- 2) Clarke J: Account of a tumour found in the substance of the human placenta. *Phil Trans R Soc* **88**: 361-368, 1798.
- 3) Jauniaux E, Ogle R: Color Doppler imaging in the diagnosis and management of chorioangiomas. *Ultrasound Obstet Gynecol* **15**(6): 463-467, 2000.
- 4) Fox H. Non-trophoblastic tumours of the placenta. In: *Pathology of the placenta*. 2nd ed. London: W. B. Saunders;1997. p. 354-382.
- 5) 相馬広明, 吉田啓治, 高山雅臣 他: 胎盤の腫瘍－絨毛膜血管腫(Chorangioma)とその臨床的意義. *臨床婦人科産科* **31**(2): 103-111, 1977.
- 6) Prapas N, Liang RI, Hunter D, et al.: Color Doppler imaging of placental masses: differential diagnosis and fetal outcome. *Ultrasound Obstet Gynecol* **16**(6): 559-563, 2000.
- 7) Al Wattar BH, Hillman SC, Marton T, et al.: Placenta chorioangioma: a rare case and systematic review of literature. *J Matern Fetal Neonatal Med* **27**(10): 1055-1063, 2013.
- 8) Liu H, Gu W, Li X: Natural history and pregnancy outcome in patients with placental chorioangioma. *J Clin Ultrasound* **42**(2): 74-80, 2014.
- 9) McInroy RA, Kelsey HA: Chorioangioma (haemangioma of placenta) associated with acute hydramnios. *J Pathol Bacteriol* **68**(2): 519-523, 1954.
- 10) Wallenburg HC: Chorioangioma of the placenta. Thirteen new cases and a review of the literature from 1939 to 1970 with special reference to the clinical complications. *Obstet Gynecol Surv* **26**(6): 411-425, 1971.
- 11) Kotz J, Kaufman MS: Chorioangioma of the placenta : Review and report of a case.

- Med Ann District Columbia. **8**: 106-110, 1939.
- 12) Bauer CR, Fojaco RM, Bancalari E, et al.: Microangiopathic hemolytic anemia and thrombocytopenia in a neonate associated with a large placental chorioangioma. *Pediatrics* **62**(4): 574-577, 1978.
- 13) Hadi HA, Finley J, Strickland D: Placental chorioangioma: prenatal diagnosis and clinical significance. *Am J Perinatol* **10**(2): 146-149, 1993.
- 14) Zanardini C, Papageorghiou A, Bhide A, et al.: Giant placental chorioangioma: natural history and pregnancy outcome. *Ultrasound Obstet Gynecol* **35**(3): 332-336, 2010.
- 15) Sepulveda W, Wong AE, Herrera L, et al.: Endoscopic laser coagulation of feeding vessels in large placental chorioangiomas: report of three cases and review of invasive treatment options. *Prenat Diagn* **29**(3): 201-206, 2009.
- 16) 自見倫敦, 中後聡, 柴田貴志 他: 羊水過多をきたし, 胎児心不全に至った18cmの巨大胎盤血管腫の1例. *産婦人科の進歩* **64**(4): 490-494, 2012.
- 17) 平岩幹, 大関健治, 金彰午 他: 急速に増大し短期間で胎児に心不全, 低酸素性虚血性脳症を来した胎盤血管腫の1例. *日本周産期・新生児医学会雑誌* **55**(3): 790-794, 2019.
- 18) 西村淳一, 上田敏子, 河崎あさひ 他: 羊水過多症, 胎児貧血を合併した巨大胎盤血管腫の1例. *日本周産期・新生児医学会雑誌* **49**(4): 1308-1312, 2013.
- 19) 伊賀崎麻里, 勝又佳菜, 深田せり乃 他: 胎児中大脳動脈収縮期最高血流速度測定が胎児娩出時期決定に寄与した巨大胎盤血管腫の一例. *日本周産期・新生児医学会雑誌* **56**(3): 522-526, 2020.