

妊娠中に破裂した腎血管筋脂肪腫の1例

古目谷 暢¹, 松本 達也¹, 藤浪 潔¹仙賀 裕¹, 朝倉 智行², 五島 明彦³¹茅ヶ崎市立病院泌尿器科, ²朝倉医院, ³五島クリニックRUPTURE OF RENAL ANGIOMYOLIPOMA
DURING PREGNANCY: A CASE REPORTMitsuru KOMEYA¹, Tatsuya MATSUMOTO¹, Kiyoshi FUJINAMI¹,Yutaka SENG¹, Tomoyuki ASAKURA² and Akihiko GOTO³¹The Department of Urology, Chigasaki City Hospital²The Asakura Hospital³The Goto Clinic

A 39-year-old woman, who was followed because of a 4 cm asymptomatic angiomyolipoma (AML) in the left kidney, presented with an acute onset of lower left back pain in the 38th week of her first pregnancy. An ultrasound revealed an 8 cm mass suggestive of AML rupture and retroperitoneal hemorrhage. An emergency caesarean delivery was performed. A post-delivery computed tomographic scan confirmed the AML rupture and selective embolization was performed. This was a case in which the AML grew rapidly during the pregnancy; therefore, we discuss the relationship between AML and pregnancy.

(Hinyokika Kyo 56 : 261-264, 2010)

Key words : Renal angiomyolipoma, Rupture, Pregnancy

緒 言

妊娠中の腎血管筋脂肪腫 (AML) の自然破裂は稀であるが、破裂した場合には母体ショックや胎児死亡などの致死的な状況を引き起こしうるため、妊娠計画を含む周産期の治療方針の検討が重要である。今回われわれは妊娠を契機に自然破裂を来した AML の1例を経験したため、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者 : 39歳, 女性

主訴 : 左腰痛

既往歴・家族歴 : 特記事項なし

妊娠・出産歴 : 人工流産1回

現病歴 : 検診の超音波検査 (US) で左腎臓に高エコー腫瘍を指摘され、2006年8月に当科を受診し、CT検査で左腎 AML と診断された (Fig. 1a)。大きさが4 cm 弱で無症状のため、経過観察となった。2008年に妊娠し経過良好だったが、妊娠38週4日に突然左腰痛を認めたため救急外来を受診した。

現症 : 血圧 107/62 mmHg, 脈拍 61回/分と循環動態は安定していた。左側腹部痛を認めたが、婦人科的異常所見は認めなかった。

検査所見 : Hb 10.1 g/dlの貧血を認めるのみであった。

入院後経過 : US で左腎臓に径8 cm 大の腫瘍を認め、AML の破裂が疑われた。母体の循環動態は安定していたが、胎児心拍数図で遅発一過性徐脈や胎児遷延徐脈を認め、胎児機能不全を来したため緊急帝王切開を施行した。術中に左後腹膜下に血腫と思われる腫瘍が透見された。術後に CT を施行して左腎 AML の破裂と診断した (Fig. 1b)。ただちに選択的腎動脈塞栓術 (TAE) を開始した。この際、循環動態は血圧 101/72 mmHg, 脈拍93回/分と安定していたが、Hb 4.3 g/dl と著明に低下しており、輸血 (計6単位) を施行した。左腎動脈上極からの腫瘍血管の分岐と AML からの造影剤の血管外漏出を認め (Fig. 2a)、腫瘍血管を塞栓した (Fig. 2b)。母子ともに経過良好で、入院14日目に退院した。退院6カ月後の CT では左腎 AML は径3 cm まで縮小した (Fig. 1c)。

考 察

AML の妊娠中の破裂は稀で、われわれが調べた限り本症例を含めて世界 (英語論文+日本語論文) で42例、本邦で24例報告されているのみである¹⁻¹¹⁾。破裂の要因は、循環血液量の増加、子宮による物理的な圧迫、血圧上昇、増加したエストロゲンの平滑筋増殖作用による易破裂性などが挙げられる¹²⁾。US や CT によってほとんどの症例は AML と診断できるが、AML 内出血を伴う場合は高エコー腫瘍とならない場合があ

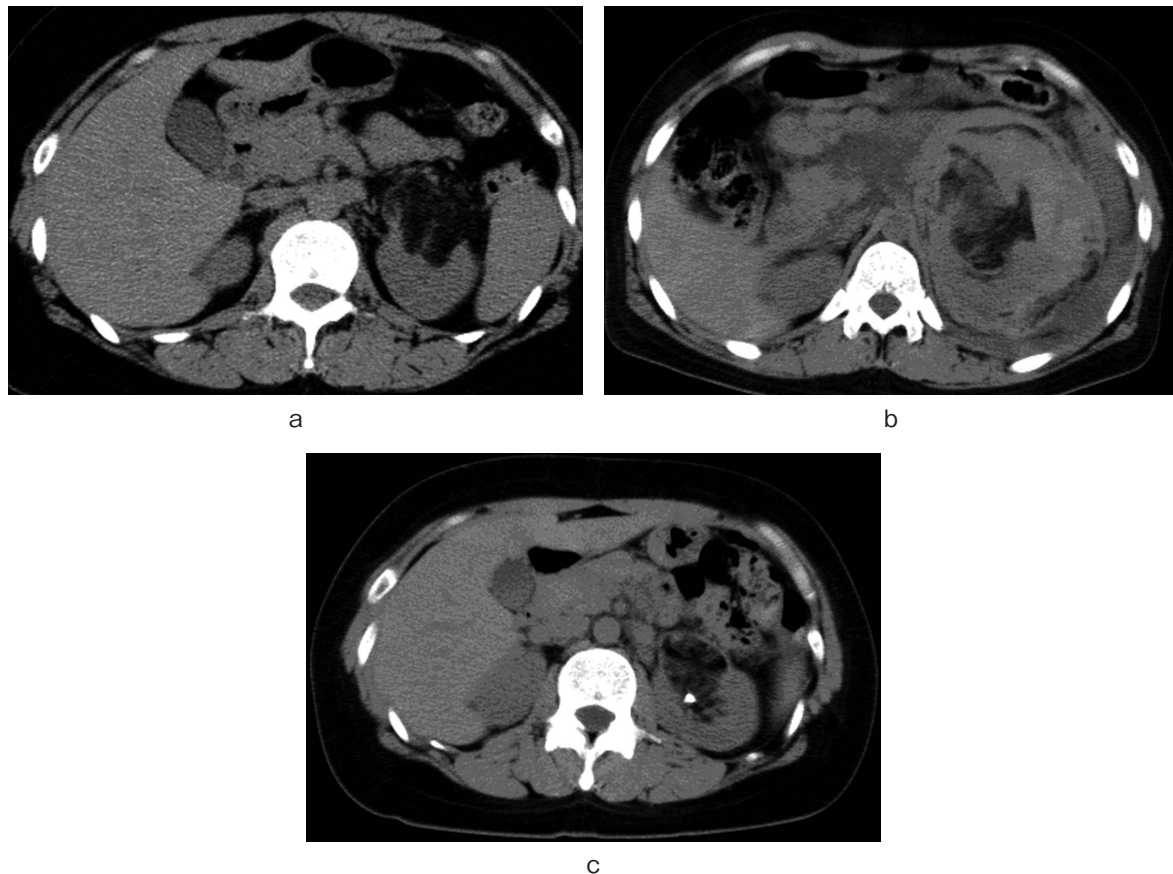


Fig. 1. CT scan shows a 4 cm angiomyolipoma in the left kidney before rupture (a), angiomyolipoma with peritoneal hemorrhage (b) and a 3 cm angiomyolipoma 6 months after embolization (c).



Fig. 2. Selective left renal arteriogram shows tumor vessels and active bleeding in the upper portion of the kidney (a). Tumor vessels and active bleeding disappear after embolization (b).

り、さらに妊娠中は画像検査が限られ、破裂早期では子宮外妊娠破裂、前置胎盤、胎盤剥離、子宮破裂などの婦人科疾患や腎自然破裂を来す腎腫瘍、血管病変、感染、結石などとの鑑別が困難である^{13,14)}。本症例は破裂前に AML と診断されていたため、鑑別診断に労することなく迅速に治療へ移行することができた。

治療に関しては、Oesterling らのアルゴリズムが参

照されることが多いが¹⁵⁾、径 4 cm 以下で症状がない AML でも破裂のリスクファクターである妊娠の可能性がある場合は TAE や、腎部分切除術あるいは腫瘍核出術などの予防的治療を検討すべきとの報告がある^{16,17)}。このため妊娠が AML 破裂のリスクファクターとなりうるか、妊娠中 AML 破裂を認めた英語論文全 20 例を検討した (Table 1)¹⁻⁵⁾。事前に AML と診断されていたのは自験例を含めてわずかに 2 例のみ

Table 1. Review of previous reports of ruptured renal angiomyolipoma during pregnancy

No	報告者	報告年	年齢	妊娠週数	主訴	出血性 ショック	治療	分娩方法	胎児 予後	AML サイズ	部位	TS
1	Kiser	1964	26	18	右側腹部痛	なし	腎摘除術	経膣分娩	出生	4	右	なし
2	Cohen	1968	35	37	右側腹部痛	なし	腎摘除術	経膣分娩	出生	1.5	右	なし
3			27	16	右側腹部痛	なし	腎摘除術	経膣分娩	出生	不明	右	なし
4	Gallagher	1978	25	40	右側腹部痛	なし	腎摘除術	帝王切開	死産	15	右	なし
5	Brodey	1982	33	10	右側腹部痛	なし	腎摘除術	経膣分娩	出生	不明	右	なし
6	Sunanta	1983	40	16	右側腹部痛	なし	腎摘除術+子宮摘除術	人工中絶	死産	12	右	なし
7	Lewis	1985	29	38	左側腹部痛	なし	腎摘除術	帝王切開	出生	不明	左	あり
8			16	20	血尿	なし	腎摘除術	不明	不明	21	右	あり
9			23	30	血尿	なし	腎摘除術	経膣分娩	出生	不明	右	なし
10	Lee	1994	29	27	左側腹部痛	あり	腎摘除術+子宮摘除	人工中絶	死産	不明	左	なし
11	Yanai	1996	30	10, 29	左側腹部痛	なし	保存的治療	帝王切開	出生	10	左	なし
12	Shah	1999	36	26, 28	血尿, 右側 腹部痛	なし	保存的, TAE	経膣分娩	出生	5	右	なし
13	Tanaka	2001	23	27	左側腹部痛	なし	保存的, 出産後 TAE	経膣分娩	出生	7	左	なし
14	Jose	2005	28	10	右腹痛	なし	TAE	経膣分娩	出生	10	右	なし
15	Storm	2006	32	39	左側腹部痛	なし	外来通院による保存的 治療	経膣分娩	出生	6.8	左	なし
16	Al	2007	28	12	血尿, 左側 腹部痛	なし	保存的治療	経膣分娩	出生	6.8	左	なし
17			31	32	血尿	あり	保存的治療, 出産後腎 摘除術	帝王切開	出生	9	左	なし
18	Koh	2007	31	12	右側腹部痛	なし	保存的治療, 腎摘除術	帝王切開	出生	12	右	なし
19	Kontos	2008	28	33	右側腹部痛	あり	腎摘除術	帝王切開	出生	7	右	なし
20	自験例	2009	39	38	左側腹部痛	なし	出産後 TAE	帝王切開	出生	8	左	なし

で、サイズは 4 cm と 8 cm であった。このため破裂前の AML のサイズを非妊娠症例と比較検討することはできなかった。破裂時の AML のサイズは中央値 7.5 cm であり、過去の非妊娠症例での検討の 7.1 cm と同様の大きさであった¹⁸⁾。ただし自験例では妊娠期間を含む18カ月で急速に増大し、この間の doubling time は5.9カ月であり、非妊娠例での過去の報告の doubling time (18.4~43.9カ月) と比べてかなり短くなっている¹⁹⁾。また、医中誌で急速に増大した AML を検索したところ、妊娠期間を含む15カ月で 4 cm から 11 cm に増大した症例⁶⁾、出産までの1カ月間で数 cm から 19 cm に増大した症例²⁰⁾を認めたが、非妊娠症例は認めなかった。多数例による今後の検討が必要だが、個別の症例に関する限り、妊娠を AML 破裂のリスクファクターと考え、予防的治療を選択肢の1つとして検討する余地があるのではないと思われる。しかし、ほとんどの AML は周産期に破裂しないため予防的治療は侵襲的で現実的ではないという考えもある。この場合でも、患者に妊娠により AML 破裂のリスクが増大する可能性を事前に説明したり、AML を密に経過観察したりは最低限行うべきだと思われる。

妊娠中 AML 破裂時の治療 (Table 1) は、13例が腎摘などの手術、4例が TAE、3例が保存的治療であった。この中には、妊娠10週に AML 破裂を来し器官形成期である12週まで待機し TAE を施行し40週

に経膣分娩した報告¹⁾や39週に AML 内出血を来し2日ごとの外来通院による保存的治療を行い経膣分娩した報告などがある²⁾。

分娩方法は、10例が経膣分娩、7例が帝王切開、2例が人工中絶、1例が不明であった。児の予後は、3例が児死亡 (うち2例は人工中絶、1例は帝王切開)、1例が不明であった。

以上の集計より、今後は AML 破裂時の止血目的で TAE や保存的治療を検討したり、出産も帝王切開ではなく経膣分娩を検討したりと、より侵襲の少ない治療を検討する余地があることが示唆される。

文 献

- 1) Jose PM, Marios G, Mohammad SK, et al.: Embolization of a bleeding renal angiomyolipoma in pregnancy: case report and review. *Cardiovasc Intervent Radiol* **28**: 265-268, 2005
- 2) Douglas WS and Joseph JM: Conservative management of a bleeding renal angiomyolipoma in pregnancy. *Obstet Gynecol* **107**: 490-492, 2006
- 3) Awni AA, Rola HA, Elijah OK, et al.: Increasing severity of haematuria with successive pregnancies in a woman with renal angiomyolipoma. *Int Urol Nephrol* **39**: 409-412, 2007
- 4) Joo LK, Ying HL, Chieh YK, et al.: Simultaneous cesarean section and radical nephrectomy for

- angiomyolipoma with spontaneous bleeding during pregnancy. *J Reprod Med* **52** : 338-340, 2007
- 5) Kontos S, Politis V, Fokitis I, et al. : Rapture of renal angiomyolipoma during pregnancy: a case report. *Cases J* **17** : 245, 2008
 - 6) 畠山真吾, 羽瀨友則, 市村 靖, ほか : 妊娠を契機として急速に増大し下大静脈腫瘍血栓を伴った腎血管筋脂肪腫の1例. *日泌尿会誌* **93** : 48-51, 2002
 - 7) 川口俊明, 岩瀨郁哉, 津久井厚, ほか : 妊娠を契機に腫瘍内破裂を来した腎血管筋脂肪腫の1例 結節性硬化症合併例. *青森中病医誌* **49** : 164-165, 2004
 - 8) 岩動一将, 佐久間芳文, 工藤茂高, ほか : 妊娠中に自然破裂し発見された腎血管筋脂肪腫の1例. *泌尿器外科* **19** : 472, 2006
 - 9) 山田佳輝, 増栄孝子, 宇野雅博, ほか : 自然破裂を繰り返した腎血管筋脂肪腫の1例. *西日泌尿* **68** : 537-540, 2006
 - 10) 田村亜紀, 金岡隆平, 藤原政治, ほか : 妊娠を契機に自然破裂した腎血管筋脂肪腫の1例. *西日泌尿* **70** : 338, 2008
 - 11) 小藺祐喜, 藤原葉一郎, 前田香子, ほか : 妊娠中に腎血管筋脂肪腫の再破裂を認めた1例. *産婦の進歩* **60** : **447**, 2008
 - 12) 螺良義彦, 高島文男 : 腎臓平滑筋腫の発生について. *日病理会誌* **41** : 139-140, 1952
 - 13) Lee JD, Chang HC, Chu SH, et al. : Massive retroperitoneal hemorrhage from spontaneous rupture of a renal angiomyolipoma during pregnancy. a case report. *J Reprod Med* **39** : 477-480, 1994
 - 14) 岡 大三, 水谷修太郎, 高尾徹也, ほか : 妊娠中, 自然破裂を契機に発見された腎血管筋脂肪腫. *泌尿紀要* **45** : 423-425, 1999
 - 15) Oesterling JE, Fishman EK, Goldman SM, et al. : The management of renal angiomyolipoma. *J Urol* **135** : 1121-1124, 1986
 - 16) Caleb PN and Martin GS : Contemporary diagnosis and management of renal angiomyolipoma. *J Urol* **168** : 1315-1325, 2002
 - 17) Yanai H, Sasagawa I, Kubota Y, et al. : Spontaneous hemorrhage during pregnancy secondary to renal angiomyolipoma. *Urol Int* **56** : 188-191, 1996
 - 18) 古賀成彦, 金武 洋, 内藤誠二, ほか : 九州地方における腎血管筋脂肪腫の臨床的検討. *西日泌尿* **69** : 698, 2007
 - 19) 辻 雅士, 小島圭二, 黒川康史, ほか : 腎血管筋脂肪腫の growth potential についての検討. *西日泌尿* **58** : 1181, 1996
 - 20) 青江尚志, 光井行輝, 高橋史朗, ほか : 妊娠中に増大した腎血管筋脂肪腫の1例. *産婦中四会誌* **38** : 268, 1990

(Received on October 5, 2009)

(Accepted on January 23, 2010)