症例報告

腹腔鏡下子宮筋腫核出術後の筋層内動静脈瘻破綻が 原因と思われる大量性器出血の1例

藤田保健衛生大学医学部 産婦人科学教室

鳥居 裕、廣田 穰、犬塚悠美、岡本治美、南 元人、松岡美杉、安江 朗、
西尾永司、西澤春紀、塚田和彦、関谷隆夫、宇田川康博

Massive hemorrhage resulting from ruptured uterine arteriovenous fistula after laparoscopic myomectomy.

Yutaka Torii, Yutaka Hirota, Hiromi Inuduka, Harumi Okamoto, Yukito Minami,
Misugi Matsuoka, Akira Yasue, Eiji Nishio, Haruki Nishizawa,
Kazuhiko Tsukada, Takao Sekiya, Yasuhiro Udagawa
Department of Obstetrics and Gynecology, Fujita Health University School of Medicine

Abstract

Recently, as laparoscopic myomectomy (LM) has become increasingly common, reports of intraoperative or postoperative complications have arisen. We experienced a case of massive hemorrhage resulting from a ruptured uterine arteriovenous fistula after LM.

A 24-year-old woman, nulligravid, presented with hypermenorrhea. She was diagnosed with an 8-cm intramyometrial leiomyoma of the posterior uterus with endometrial deformation. LM was performed. The myoma was soft, its boundaries were not clear, and there was extensive contact with endometrium. Operative time, blood loss, and enucleate weight were 181 minutes, 1,000 ml, and 298g. On a transvaginal ultrasound 25 days after the operation, a cystic lesion was noted in the area of the myomectomy. Color Doppler ultrasonography showed a fountain of blood streaming from a single artery into the cyst, while the size of the cyst was not changed. However, a massive hemorrhage erupted even as we were conferring with the patient in the medical examination room. She underwent emergency laparotomy on the same day. Pulsatile bleeding from a 1mm diameter artery in the wound of the myomectomy was observed. We examined the cyst in detail after ligating the artery. The wall of cyst was a structured fibrous myomatous capsule of a white color with a perforation of the intrauterine part. Blood infiltration and hematoma were not seen at all in the myometrium of the cyst.

We have performed LM on 406 patients in our hospital. This case was the first of its kind, so we are reporting it as a warning for consideration in the LM of the future.

Key Words: leiomyoma, laparoscopic myomectomy, arteriovenous fistula

はじめに

近年、女性の未婚・晩婚化や出産年齢の高年齢化にともない子宮筋腫核出術の実施頻度は増加している。当施設でも積極的な術式改良と慎重な適応拡大の結果^{1,4)}、2005年以降、腹腔鏡下子宮筋腫核出術 (Laparoscopic myomectomy: LM) の実

施症例数は急増傾向を示し、ここ数年におけるLMの実施頻度は全腹腔鏡手術の30%前後を占める重要な手術術式となっている。一方、LM実施数の増加に伴い、LMの術中・術後の偶発症に関する報告も散見されるようになり、LMの致死的偶発症の発現頻度を約2%とする報告もある⁵⁾。今回我々は、LM術後の重篤な偶発症である筋腫

核出部の筋層内動静脈瘻（Arteriovenous fistula: AVF）破綻が原因と思われる大量性器出血の1例を経験したので報告する。

症 例

患者：24歳、未婚（G0P0）、月経周期整、経血量は2年前から増加、月経痛中等度

主訴：過多月経、倦怠感

家族歴／既往歴：特記すべきことなし

現病歴：2年前からの過多月経と倦怠感を主訴に近医を受診。子宮筋腫の指摘を受け、腹腔鏡手術目的にて紹介受診となる。

初診時所見：

血液検査所見：Hb 6.4g/dlと高度の貧血を認めた。

他項目（生化学、凝固系検査）は異常なし。

経腔超音波検査所見：子宮体部後壁に子宮内膜変形を伴う84×76×84mmの境界がやや不明瞭な低輝度腫瘍を認めた。

骨盤内MRI検査所見：同腫瘍は、T1強調画像で子宮筋層と同一なiso intensity、T2強調画像にて境界不明瞭で、かつ腫瘍内部に点状のhigh intensity像を呈しており、子宮筋腫の変性と考えた。両側付属器に異常は認めなかった。

上記術前診断にてLMを予定した。尚、GnRHa等の薬物治療は行わなかった。

腹腔鏡手術所見：子宮筋層は妊娠時子宮の様な外観を呈していた。（図1、A）。バゾプレッシン1A/生食100ml希釈液20mlを筋層に注入後、子宮後壁筋層に超音波メスで切開を加えた途端、切開縁より動脈性の強出血を認め、止血に非常に難渋した（図1、B）。この時点で開腹手術への移行も考慮したが、2度目のバゾプレッシン1A/生食100ml希釈液15mlの追加投与にて止血効果が得られたため、腹腔鏡手術を続行した。子宮筋腫と筋層の境界は不明瞭でかつ筋腫核自体も柔らかなため核出操作が困難で、この間の操作時間の延長により出血量も増加した。筋腫は筋層より粘膜直下まで発育しており、核出時に子宮内膜の一部が穿破したため（図1、C）、これを3-0vicryl糸で2針穿破部を縫合した後に2層縫合を考慮したが、術中出血が多いため2層縫合の予定を1層縫合に変更し、可能な限り縫合面での死腔形成を考慮しながら1層での全層縫合を行った。その後、子宮筋層の2層縫合を行い腹腔内を十分に洗浄後（図1、D）、ダグラス窩にドレーンを留置して手術を終了した。本症例の手術成績を当施設での平均値と比較してみると（表1）、筋腫核径は84mmとさは

図1 腹腔鏡手術術中所見

A：子宮外観。リビド様着色を認める妊娠時子宮の様相を呈していた。
B：子宮後壁側より子宮筋腫内へ超音波メスで筋層に切開を加えた際、複数ヶ所からの持続的な動脈性出血を認め、止血困難であった。
C：核出時に子宮内膜の一部が穿破した。
D：子宮筋腫核出後の筋層縫合終了時。

表1 本症例と当院でのLM手術成績の比較

	本症例	LM手術成績 2006-2008年, n=172
手術時間	181分	210.9 (90-471)分
出血量	1,000ml	173.7 (10-2,500)ml
筋腫核最大径	84mm	71.6 (30-160)mm
平均値(range)		

ど大きなものではなく、手術時間も平均値未満にも拘らず出血量が突出して多く、このことは本症例では筋層内血流が多く比較的短時間に集中して術中出血が起きたものと考えられた。術後の病理組織学的診断は、異型性に乏しく周辺筋層と比較して密に増生する平滑筋細胞が束状、渦巻状に配列しており、核分裂像は変性部分に少数認められるのみであることから、cellular leiomyomaと診断された。

腹腔鏡手術の術後経過：経過は良好であり、術後5日目の診察・超音波検査とも異常所見なく退院した。ところが術後25日目の定期外来受診時、経腔超音波検査で子宮後壁の筋腫核出部に一致して最大径23mmの卵円形の嚢胞性病変を認め、同部に渦巻流が観察されたためカラードップラーを実施。その結果、嚢胞内の血管と思われる構造物から拍動性の噴水状血流が認められた（図2）。問診、内診そして詳細な経腹超音波カラードップラー検査に約1時間を要したが、この間、嚢胞性病

図2 腹腔鏡手術後25日目の経腹超音波断層法カラー Doppler 画像所見

嚢胞内に1本の動脈からの激しい噴水状血流が観察された。検査終了までに約1時間が経過していたが、嚢胞性病変の大きさに変化はみられなかった。

変のサイズおよび形態に全く変化がないため診察室での説明に移行した。しかしその最中、突発的な大量の性器出血（この時、患者は椅子に座っており、Gパンに浸みた血液は椅子から床に流れ落ち、床が50cm四方血液汚染された）を来した。そのため急遽、患者を内診台に上げ、子宮の双手圧迫に加え救急圧迫止血処置として子宮腔内に小児用バルーンを留置した直後の経腹超音波所見が図3である。円形のバルーンの背側に嚢胞性病変を認め、図2と同様の動脈性血流が認められ、嚢胞径も縮小していなかった。ダグラス窩にエコーフリースペースは認めなかった。内診に起因する子宮筋層内嚢胞性病変の破綻（内膜穿破）による強度性器出血と診断し、同日緊急開腹手術を行った。

図3 嚢胞性病変破裂後の経腹超音波断層法画像所見（A：Bモード、B：カラー Doppler）

経腹超音波断層法と同様に、嚢胞内へ流入する動脈性血流を認めた。子宮腔内には止血用バルーンが挿入されている。

開腹手術所見（図4）：子宮漿膜面には血腫形成による子宮筋層の膨隆や血液浸潤による色調変化等は一切認めず、筋層切開部位の決定が困難なため術中に経腹超音波を導入し、嚢胞部を同定した上で同部の子宮筋層を逆T字切開したところ（図4、曲矢印）、筋腫核出部の嚢胞性病変内背側より直径1mmほどの動脈が数ミリ突出しており、同部に拍動性出血を認めた（図4、直矢印）。動脈の単離結紮を行ったところ、この操作のみで完

全止血が可能であった。その後、嚢胞内を詳細に観察すると、嚢胞壁は前回腹腔鏡手術時の子宮筋腫核出操作で一部残存していたと思われる白色の線維性筋腫被膜から構成され小指頭大ほどの穿孔部があり（図4、矢頭）、子宮内腔との交通を認めた。嚢胞周囲に血液浸潤や血腫形成は全くなく、穿孔部を含め筋層の3層縫合を行い手術を終了した。

図4 開腹術術中所見のシェーマ

出血部位直上の子宮筋層を曲矢印のように逆T字切開した後の図である。筋腫核出部の嚢胞性病変内背側より、拍動性出血を認める直径1mmほどの動脈が数ミリ突出しており（直矢印）、嚢胞壁の一部に子宮内腔との交通を認めた（矢頭）。

開腹手術の術後経過：経過良好にて術後8日目に退院。退院時診察・超音波検査では明らかな異常所見は認めなかった。術後77日目の経腹超音波検査では、子宮後壁の筋層切開部付近に異常血流を認めた（図5）。尚、術後30日目より通常の月経を認め、術後182日目でも子宮後壁に同様の所見を認めた。その後、定期的な経過観察を行っているが現在まで再発所見は認めていない。

図5 開腹術後77日目の経腹超音波断層法カラー Doppler 画像所見（A：縦断像、B：横断像）

子宮筋腫核出部の子宮後壁を中心に、豊富な血流を認めた。

考 察

AVFとは、毛細血管を介さない血行動態を持ち、動脈と静脈双方の組織学的特性を有する複数の異なるサイズの血管変化であり、動静脈奇形 (Arteriovenous malformation: AVM) の一部として定義される^{6,7)}。その発症頻度は明らかではないが極めて稀であるとされ、典型的には不正性器出血で発症し、時に生命を脅かすほどの大量出血を来す⁷⁾。原因としては、子宮内膜搔爬や帝王切開術、あるいは正常経腔分娩後などに子宮筋へ直接的損傷が加わることで絨毛組織の壊死が引き起こされ、子宮内膜静脈叢が子宮筋層創部に取り込まれた際に生じるものと仮定される⁸⁻¹⁰⁾。診断には超音波検査、特にカラードップラー法が有用であり、類円形の辺縁平滑な低輝度を呈する嚢胞性病変内にモザイク様の乱流を有するエコー像として描出される^{11,12)}。治療法としては根治的には子宮全摘出であるが、最近では経皮的子宮動脈塞栓術 (Uterine artery embolization: UAE) がその優れた治療成績や安全性、また同時に確定診断も行うことができるという利点から第一選択とされることが多い^{10,13-15)}。その一方で、一度のUAEでは完治せず再度の処置を必要としたものや、最終的に子宮全摘出に至った症例などの報告もある^{6,16)}。

また、AVFと類似した病態として仮性動脈瘤がある。これは動脈と交通を持つ血液で満たされた腔を有し、腔は動脈壁の1層あるいはそれ以上の層構造を欠くことを特徴とし、その一部の破綻で周囲組織への出血をきたす (図6、右)¹⁷⁾。AVFでは、嚢胞性病変内での動脈と静脈の血流は完全

図6 AVFとPseudoaneurysmの概念

AVF：1) 動脈と静脈、両方の組織学的特徴を有する。2) 毛細血管を介さない血行動態を持つ。3) 嚢胞性病変内の動脈と静脈の血流は平衡状態である。
Pseudoaneurysm：1) 動脈と交通を持つ、血液で満たされた腔。2) 腔は動脈壁の1層、あるいはそれ以上の層構造を欠く。3) その一部の破綻で周囲組織への出血をきたす。(Takeda et al. J Minim Invasive Gynecol. 2008 Mar-Apr;15(2):212-6より引用)

な平衡状態であり、嚢胞性病変破裂前のカラードップラー法において噴水状の拍動性動脈血流を認めるものの、嚢胞性病変の大きさに変化はない (図6、左)。これに対し、仮性動脈瘤においては低輝度エコー帯内にびまん性の拍動性動脈血流を認めることを特徴とし、正常分娩後や骨盤内手術、特に子宮筋腫核出術後に形成されたとの報告が散見される¹⁸⁻²⁰⁾。そのいずれの場合においても、子宮筋層内嚢胞性病変の形成が拍動性動脈血流に先んじて認められているとの報告があることは非常に興味深い^{17,21)}。当院において2008年1月から2009年7月までの間に施行されたLM87症例のうち、本症例を合わせて9症例、10.3%に術後の子宮筋層内嚢胞性病変を認めた (表2)。これら症例の特徴としては、子宮後壁の筋層内筋腫で、筋

表2 LM後に嚢胞性病変を呈した症例 (2008.1~2009.7: 87症例)

症例	核出筋腫(最大径)	内膜穿破	出現時期	サイズ(mm)	転帰
1	体部前壁漿膜下 (8cm)	なし	2週間	29×22	11×6mm (1年3ヶ月後)
2	体部後壁筋層内 (5cm)	なし	2週間	15×13	消失 (3ヶ月後)
3	体部後壁筋層内 (9cm)	なし	8週間	18×6	12×6mm (6ヶ月後)
4	体部前壁筋層内 (8cm)	なし	6週間	20×10	消失 (7ヶ月後)
5	体部後壁筋層内 (7cm)	あり	8週間	10×10	消失 (4ヶ月後)
6	体部後壁筋層内 (10cm)	なし	2週間	35×20	消失 (6ヶ月後)
7	底部筋層内 (7cm)	なし	4日	31×25	19×11mm (3ヶ月後)
8	右側後壁筋層内 (10cm)	なし	3週間	22×21	消失 (2ヶ月後)
本症例	体部後壁筋層内 (8cm)	あり	3週間	23×20	多量性器出血：緊急手術

腫核径が比較的大きな（8 cm前後）症例に多いことから、このような症例では筋層の縫合結紮操作完遂度が低下し筋腫核出部に嚢胞性病変を形成したものだと思われる。この嚢胞性病変は死腔に浸出液や血液が貯留したものと推察され、一般的には死腔貯留液は生体のホメオスターシスにより自然吸収され消失するが、その一部は脆弱な筋腫核出組織に血流が形成されることによりAVFあるいは仮性動脈瘤といった病態が惹起されると考えられる。また、子宮筋層内嚢胞性病変はLM後8週間までの間に初発し、中には1年が経過しても残存している症例もみられることから、少なくともLM後3カ月間は注意深いフォローアップを行い、嚢胞性病変を認めた場合には術後筋層内血腫との鑑別を行った後、経時的に変化を追っていくことが肝要であろう。

本症例は初回手術退院時および外来受診日に経腔超音波検査で異常所見を認めなかったことから、成因としては退院後6日目以降に筋腫核出部の動脈が再疎通し筋腫核被膜を外郭とした嚢胞性のAVFが形成され、それが内診の外的操作により動静脈血流の平衡が破綻し子宮内膜側に穿破、大量の性器出血をきたしたものと結論した。反省点としては、1回目の外来診察で異常は認めなかったものの、子宮筋腫核出のハイリスク症例であるのでもう少し厳密なフォローアップを行うべきであったことである。すなわち、LM後の子宮筋層内嚢胞性病変の早期発見が行われていれば、骨盤内血管造影や血管造影CTによる血流評価およびUAEによる待機的治療も可能であるが、突然発症をきたすケースに関しては治療前に十分な情報がないまま治療方法を決断せざるを得ないばかりか、発症が病院以外の場所であると致命的な偶発症に成り得るからである。そのための対策としては、術前に子宮筋腫核の質の評価および血流分布の十分な評価を行っておくこと（自己血貯血やセルセーバーの準備）、術中にバゾプレッシン以外にも内視鏡血管クリップによる子宮動脈阻血操作を追加すること、子宮後壁筋腫では縫合操作に十分留意すること、それらに基づいた術後ハイリスク症例ではインフォームドコンセントの上厳重な管理を行うことなどが挙げられる。

本症例においては出血部位（血管）の同定が可能であったため、開腹での緊急止血術を行ない妊娠が期待できる子宮温存手術を可能とした。また本症例の病態としては、子宮筋層内嚢胞性病変破裂前の超音波検査で嚢胞内部に拍動性の噴水状血

流を認めたものの、経時的経過でその大きさや形態に変化がなかったこと、術中所見で嚢胞性病変内に突出していた動脈の単離結紮により速やかに止血されたこと、さらには嚢胞性病変周囲の子宮筋層に血液浸潤や血腫形成が全く認められなかったことから、仮性動脈瘤は否定的でありAVFと診断した。

おわりに

今回、LM術後のAVF形成が原因で大量性器出血を来した1例を経験した。当施設では2010年末までに538例のLMを行っているが本症例は初めてのケースであり、非常に稀ではあるが一旦発症すると致死性の高い偶発症であるため、今後のLMへの警鐘と反省点を踏まえ報告した。

本論文の要旨は第49回日本産科婦人科内視鏡学会において発表した。

文 献

- 1) 廣田穰, 他: 当教室における腹腔鏡下筋腫核出術の工夫－筋腫核折半翻転法の考案－, 日産婦人科内視鏡学会誌, 1998; 16: 45-50.
- 2) 西澤春紀, 廣田穰, 宇田川康博: 腹腔鏡下手術の適応（現状と展望）, 東海産婦誌, 2003; 40: 17-21.
- 3) 廣田穰, 他: 当教室における婦人科腹腔鏡下手術の歩み, 東海産婦誌, 2004; 41: 1-6.
- 4) 廣田穰, 宇田川康博: 腹腔鏡下筋腫核出術の適応と限界, 産婦治療, 2006; 92: 271-275.
- 5) Omella S, et al.: Italian multicenter study on complications of laparoscopic myomectomy. J Minim Invasive Gynecol, 2007; 14: 453-462.
- 6) Ghai S, et al.: Efficacy of embolization in traumatic uterine vascular malformations. J Vasc Interv Radiol, 2003; 14: 1401-1408.
- 7) Takeda A, et al.: Progressive formation of uterine arteriovenous fistula after laparoscopic-assisted myomectomy. Arch Gynecol Obstet, 2009; 280: 663-667.
- 8) Ghosh A, Ayers K: Uterine arteriovenous malformation following medical termination of pregnancy: a case report. Arch Gynecol Obstet, 2006; 274: 250-251.
- 9) Demir B, et al.: Acquired uterine arteriovenous malformation after caesarean section. Aust N Z J Obstet Gynecol, 2004; 44: 160-161.
- 10) Patel S, et al.: Embolization of uterine arteriovenous malformation for treatment of menorrhagia. Arch Gynecol Obstet, 2009; 279: 229-232.
- 11) Polat P, et al.: Color doppler US in the evaluation of

- uterine vascular abnormalities. *Radiographics*, 2002 ; 22 : 47-53.
- 12) Timmerman D, et al. : Color doppler imaging is a valuable tool for the diagnosis and management of uterine vascular malformation. *Ultrasound Obstet Gynecol*, 2003 ; 21 : 570-577.
 - 13) Chan CC, Chu F, Pun TC : Treating a recurrent uterine arteriovenous malformation with uterine artery embolization. *J Reprod Med*, 2003 ; 48 : 905-907.
 - 14) Vogelzang RL, et al. : Uterine arteriovenous malformation: primary treatment with therapeutic embolization. *J Vasc Interv Radiol*, 1991 ; 2 : 517-522.
 - 15) Takeda A, et al. : Diagnostic computed tomographic angiography and therapeutic emergency transcatheter arterial embolization for management of postoperative hemorrhage after gynecologic laparoscopic surgery. *J Minim Invasive Gynecol*, 2008 ; 15 : 332-341.
 - 16) O'Brien P, et al. : Uterine arteriovenous malformation: from diagnosis to treatment. *J Ultrasound Med*, 2006 ; 25 : 1387-1392.
 - 17) Takeda A, et al. : Late massive uterine hemorrhage caused by ruptured uterine artery pseudoaneurysm after laparoscopic-assisted myomectomy. *J Minim Invasive Gynecol*, 2008 ; 15 : 212-216.
 - 18) Zimon AE, et al. : Pseudoaneurysm of the uterine artery. *Obstet Gynecol*, 1999 ; 94 : 827-30.
 - 19) Higón MA, et al. : Hemorrhage after myomectomy resulting from pseudoaneurysm of the uterine artery. *Fertil Steril*, 2007 ; 87 : 417.e5-8.
 - 20) Takeda A, et al. : Early diagnosis and endovascular management of uterine artery pseudoaneurysm after laparoscopic-assisted myomectomy. *Fertil Steril*, 2009 ; 92 : 1487-1491.
 - 21) Bromley PJ, et al. : Radiologic diagnosis and management of uterine artery pseudoaneurysm: case report. *Can Assoc Radiol J*, 1997 ; 48 : 119-122.