

# AMCoR

Asahikawa Medical University Repository <http://amcor.asahikawa-med.ac.jp/>

日本内科学会雑誌 (2012.07) 101巻7号:2042～2044.

妊娠関連赤芽球癆の1例

伊藤 巧, 生田 克哉, 山本 昌代, 岡村 直香, 市來 一彦, 杉  
山 絢子, 進藤 基博, 鳥本 悦宏, 高後 裕

< 2011年11月12日第261回 北海道地方会推薦 >

妊娠関連赤芽球癆の一例

Key words: pure red cell aplasia , pregnancy

伊藤 巧<sup>1</sup>、生田克哉<sup>1</sup>、山本昌代<sup>1</sup>、岡村直香<sup>1</sup>、  
市來一彦<sup>1</sup>、杉山絢子<sup>1</sup>、進藤基博<sup>1</sup>、鳥本悦宏<sup>2</sup>、  
高後 裕<sup>1</sup>

<sup>1</sup> 旭川医科大学内科学講座 消化器・血液腫瘍制御  
内科学分野

<sup>2</sup> 旭川医科大学病院腫瘍センター

A Case of Pure Red Cell Aplasia associated with  
Pregnancy

Satoshi ITO<sup>1</sup>, Katsuya IKUTA<sup>1</sup>, Masayo  
YAMAMOTO<sup>1</sup>, Naoka OKAMURA<sup>1</sup>, Kazuhiro  
ICHIKI<sup>1</sup>, Junko SUGIYAMA<sup>1</sup>, Motohiro SHINDO<sup>1</sup>,  
Yoshihiro TORIMOTO<sup>2</sup> and Yutaka KOHGO<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Division of Gastroenterology and  
Hematology/Oncology, Department of Medicine,  
Asahikawa Medical University

<sup>2</sup>Oncology Center Asahikawa Medical University  
Hospital

### 要旨

赤芽球癆は選択的に赤血球系の産生のみが低下ないし欠損する疾患である。後天性赤芽球癆の原因には、胸腺腫、悪性腫瘍、自己免疫疾患、ウイルス感染、腎不全、薬剤などがある。症例は20歳代女性。妊娠26週に貧血を認め、骨髄検査で赤芽球系の著明な低形成を認め赤芽球癆を疑った。妊娠以外の原因を疑う所見はなく、赤血球輸血を行いながら妊娠を継続し、自然経膾分娩で出産した。その後、無治療で貧血は改善した。一連の経過より妊娠関連赤芽球癆と考えられた。



患者：20歳代、女性。

主訴：ふらつき、眩暈。

既往歴：特記事項なし。

妊娠歴：0妊0産

家族歴：特記事項なし。

嗜好歴：(煙草)なし

(アルコール)機会飲酒程度

現病歴：生来健康。妊娠26週にふらつき、眩暈を自覚し、血液検査でHb 5.9 g/dlと著明な貧血を認めた。鉄剤投与で貧血の改善を認めず、妊娠27週に当科紹介となった。ビタミンB12が低値で補充したが、Hb 4.9 g/dlと貧血は悪化したままであった。

末梢血網状赤血球数の低下があり、骨髄検査で赤芽球系統の著減を認めたことから赤芽球癆を疑った。貧血症状の持続があり入院となった。

現症：身長170.0 cm,体重72.5 kg,体温36.2℃,脈拍83回/分,整。血圧116/54 mmHg。皮膚蒼白。眼瞼結膜は強度貧血様であったが、眼球結膜に黄染は

認めなかった。胸部理学的所見には特記すべきことはなく、腹部は軽度膨隆、肝、脾は触知しなかった。下肢に浮腫はなく、表在リンパ節は触知しなかった。入院時検査所見：血液検査では Hb 4.7 g/dl、赤血球数  $1.27 \times 10^6 / \mu\text{l}$ 、Ht 13.9%、網赤血球数  $2.413 \times 10^4 / \mu\text{l}$  と著明な貧血と網赤血球数の著減を認めたが、白血球数、血小板数は基準範囲内であった。塗抹標本上において形態学的な異常は認めなかった。生化学検査では間接ビリルビン、ハプトグロビン、ビタミン B12、葉酸に異常なく、血清鉄 292  $\mu\text{g/dl}$ 、血清フェリチン 149.5 ng/ml と増加を認めた。他の生化学検査で異常はなかった。免疫血清学的検査所見では抗核抗体 640 倍、抗 SS-A 抗体 82.3 INDEX と高値を認めたが、膠原病を疑う臨床所見は認めなかった。エリスロポイエチンは 6360 mIU/ml と高値であった。パルボウイルス、肝炎ウイルスなどのウイルスマーカーは陰性であった。胸骨骨髓穿刺所見では有核細胞数  $16.8 \times 10^4 / \text{mm}^3$  と正形成骨髓であっ

たが、赤血球系細胞の著減が認められ、M/E比は16.92であった。また3系統に形態学的異常は認められなかった(図1)。G-band法による染色体分析は正常核型であった。MRI検査で胸腺腫を疑う所見はなかった。

以上の検査所見から赤芽球癆と診断した。

経過：図2に示すように貧血に対し赤血球輸血を行いながら妊娠を継続した。Hb 9.6 g/dlまで改善し、自覚症状も軽減したため退院、以後外来で赤血球輸血を行いながら妊娠を継続した。胎児の発育は順調で、妊娠38週に自然経膈分娩で出産した。その後、無治療で貧血の改善を認め、出産後5週間でHb 12 g/dlまで回復した。一連の経過より本症例は妊娠関連赤芽球癆と考えられた。出産後、外来経過観察中の採血では抗核抗体は80倍まで低下した。

児の出生後3カ月後の採血ではHb 12.5 g/dlとごく軽度の貧血を認めたが、特に問題なく発育している。

考察

赤芽球癆は選択的に赤血球系の産生のみが低下ないし欠損することを特徴とし、網赤血球と赤芽球の著明な減少あるいは消失を示す疾患である<sup>1)</sup>。後天性の赤芽球癆の原因として、胸腺腫、自己免疫疾患、ウイルス感染、腎不全、薬剤などがあるが、本症例はこれらを認めず、妊娠が関連すると推察された。

妊娠関連赤芽球癆は稀な疾患で、我々が検索しえた範囲ではこれまで12例の報告があるのみであった。その病態は明らかではないが、妊娠中のホルモン変化が自己免疫反応を引き起こしているという仮説があり<sup>4)</sup>、*in vivo*の研究ではヘム合成を抑制する何らかの物質が存在し、免疫学的機序が関与していることが報告されている<sup>2)</sup>。

これまでの文献的報告によると、妊娠中は輸血による対症療法が一般的で、分娩後3カ月以内に自然に改善するためステロイドや中絶の必要はないとされている<sup>4)</sup>。しかし、妊娠中のステロイド治療は安全であるとする報告<sup>6)</sup>もあり、12例の報告のうち



7例でステロイドを使用した経過があるため、今後の症例の集積が必要と考えられる。本症例では輸血のみで安全な妊娠を継続することができ、出産後5週間で貧血は自然回復した。

胎児への影響に関しては、抗体が胎盤を通過し赤血球系の産生を抑制する可能性が指摘されている<sup>6)</sup>。本症例では児に、3か月後の採血で軽度の貧血を認めており、今後の経過観察が必要と考えている。

また、12例の報告のうち4例で、妊娠による再発を認めており<sup>2)~5)</sup>、次回の妊娠時に再発する可能性も注意する必要がある。

#### 文献

1) Fisch P, et al: Pure red cell aplasia. Br J Haematol. 111:1010-1022, 2000.

2) 若林芳久, 高久史磨. 妊娠に合併し骨髄細胞が *in vitro* でエリトロポエチンに反応した Pure red cell aplasia の 1 例. 日本血液学会雑誌. 第 43 巻第 3 号: 514-522, 1980.

3) Majer RV, Green PJ. Recurrent reversible pure red cell aplasia in pregnancy. Clin Lab Haematol. 10:101-103,1988.

4) Choudry MA,et al:Pure red-cell aplasia secondary to pregnancy, characterization of a syndrome. Ann Hematol.86:233-237,2007.

5) Andrew CM,Rashid MR. Three episodes of acquired pure red cell aplasia restricted to pregnancy. J Perinat. Med.36:270-271,2008.

6) Kashyap R, Pradhan M. Maternal and fetal outcome in pregnancy-associated pure red cell aplasia. Obstetric case reports.30(7):733-734,2010.

## Figure legend

### 図 1 : Bone Marrow Analysis

胸骨骨髓塗抹標本（赤血球系幼若細胞はほとんど認められない）

### 図 2: Clinical Course

連絡責任者氏名：伊藤 巧（いとう さとし）

所属：旭川医科大学内科学講座 消化器・血液腫瘍  
制御内科学分野

住所：078-8510 北海道旭川市緑が丘東 2 条 1 丁目  
1-1

電話 0166-68-2462

FAX 0166-68-2469

e-mail: s-ito@asahikawa-med.ac.jp

# ☒ 1 Bone marrow analysis

---

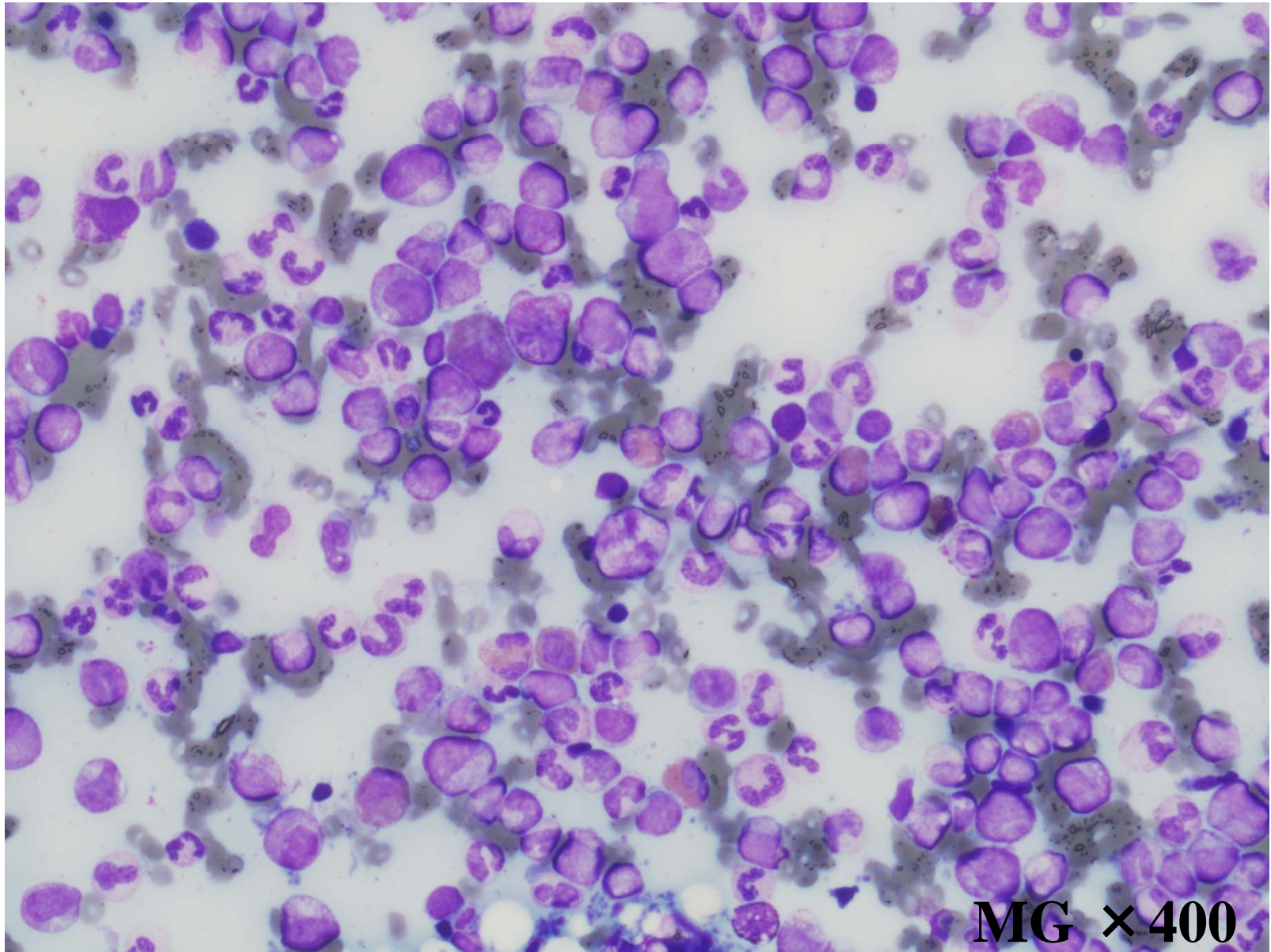


図 2 Clinical course

