

症例報告

胎児心エコー所見をもとに早期娩出し救命できた ハイリスク仙尾部奇形腫の胎児例

高橋 実穂¹⁾, 堀米 仁志¹⁾, 加藤 愛章¹⁾, 野崎 良寛¹⁾, 林 立申¹⁾,
中村 昭宏¹⁾, 齋藤 誠¹⁾, 濱田 洋実²⁾, 瓜田 泰久³⁾, 須磨崎 亮¹⁾

¹⁾ 筑波大学医学医療系小児科

²⁾ 筑波大学医学医療系産婦人科

³⁾ 筑波大学医学医療系小児外科

Successful Preterm Delivery of a Fetus with High-risk Sacrococcygeal Teratoma Based on Fetal Echocardiographic Findings

Miho Takahashi-Igari¹⁾, Hitoshi Horigome¹⁾, Yoshiaki Kato¹⁾, Yoshihiro Nozaki¹⁾, Lisheng Lin¹⁾,
Akihiro Nakamura¹⁾, Makoto Saito¹⁾, Hiromi Hamada²⁾, Yasuhisa Urita³⁾, and Ryo Sumazaki¹⁾

¹⁾ Department of Child Health, Faculty of Medicine, University of Tsukuba, Ibaraki, Japan

²⁾ Department of Obstetrics and Gynecology, Faculty of Medicine, University of Tsukuba, Ibaraki, Japan

³⁾ Department of Pediatric Surgery, Faculty of Medicine, University of Tsukuba, Ibaraki, Japan

A solid giant sacrococcygeal teratoma (SCT) may cause high-output heart failure in a fetus. The mortality rate increases with the development of fetal hydrops. In this study, we report a case of a rapidly growing fetal SCT, in which early delivery was carried out based on fetal echocardiography findings. Tumor resection immediately after delivery resulted in survival of the baby. The mother was referred to our hospital at 19 weeks of gestation. The tumor length increased rapidly from 11.2 cm at 29 weeks to 15.6 cm at 30 weeks. Fetal magnetic resonance imaging showed a large, predominantly solid type of SCT without extension into the pelvic space (Altman type I). At 30 weeks, the fetal combined cardiac output was elevated to 1,350 mL/kg/min, but no signs of hydrops were observed. After repeated evaluation with fetal echocardiography, a cesarean section was conducted at 32 weeks and 3 days. This decision was based on progressive cardiomegaly, development of right ventricular dysfunction and tricuspid regurgitation, and abnormal distribution of cardiac output. Intervention timing plays a critical role in the survival of a fetus with high-risk SCT, and repeated echocardiographic evaluation of the fetal cardiovascular dynamics is essential.

Keywords: giant sacrococcygeal teratoma, high-output heart failure, fetal echocardiography, preterm delivery

充実性の巨大な胎児仙尾部奇形腫は高心拍出性心不全を伴いやすく、胎児水腫に至ると致死率が上がる。急速に増大した仙尾部奇形腫を伴う胎児に対し、胎児心エコー所見に基づいて早期娩出を計画し、分娩直後に腫瘍摘出術を施行し、合併症なく救命できた胎児例を報告する。症例は妊娠 19 週の胎児。妊娠 28 週から 30 週にかけて腫瘍長径が 11.2 cm から 15.6 cm へと急速に増大した。胎児 MRI では腫瘍は充実性優位で骨盤腔内への進展のないタイプ (Altman I 型) であった。30 週の胎児心エコーでは胎児水腫はないが、両心拍出量は 1,350 mL/kg/min と著明に増加していた。経時的に胎児心エコーを施行し、心拡大の進行、右室収縮能の低下、三尖弁閉鎖不全の出現、心拍出量の分布の変化を契機に

2016 年 3 月 19 日受付, 2016 年 5 月 25 日受理

著者連絡先: 〒305-8575 茨城県つくば市天王台 1-1-1 筑波大学医学医療系小児科 高橋実穂

doi: 10.9794/jspccs.32.328

32 週 3 日に帝王切開と腫瘍摘出術を施行した結果、後遺症なく胎児を救命することができた。ハイリスクの胎児仙尾部奇形腫は治療介入のタイミングが胎児の予後を左右するため、胎児心エコーによる継続的な血行動態評価が不可欠と考えられた。

はじめに

仙尾部奇形腫は新生児腫瘍の中で最も頻度が高く、出生 35,000~40,000 人に 1 人とされている¹⁾。組織型はほとんどが良性であり、摘出術により予後は良好であることが多い。しかし、胎児診断された大きな仙尾部奇形腫では胎児・新生児死亡率が高い²⁾。巨大で急速に増大する、充実成分の多い仙尾部奇形腫はハイリスクである。これは腫瘍への Vascular steal による高心拍出性心不全や胎児水腫、羊水過多による早産、腫瘍内出血、腫瘍破裂、母体の Mirror 症候群などをきたすためである。本邦の出生前診断された仙尾部奇形腫の調査研究では、分娩週数 31 週未満が胎児・新生児死亡の最大のリスク因子であると報告されている³⁾。児の未熟性の問題は避けては通れないが、胎児水腫にいたる前に、積極的に早期娩出 (27~32 週) して治療介入することにより、予後を改善できる症例が含まれることが報告されている⁴⁾。早期娩出のタイミング、治療介入の方法については腫瘍自体の評価以外に、胎児心エコーでの継続的な血行動態の評価が重要である。

症 例

症例は胎児臀部腫瘍を指摘されて当院産婦人科に紹介された妊娠 19 週の胎児である。胎児エコーでは仙尾部奇形腫 (sacroccygeal teratoma: SCT) が疑われ、腫瘍長径は 11.2cm (28 週 2 日) から、15.6cm (30 週 2 日) と増大した。胎児 MRI では腫瘍は仙尾部から尾側に分葉状に突出しており、骨盤内への進展はなかった。腫瘍は T2 強調画像で比較的高信号を呈し、内部に微小嚢胞構造をもつ充実性成分が主体であった。脂肪を含んでおり奇形腫に矛盾しない所見であった。充実成分内部に T1 強調画像で高信号、T2 強調画像で低信号を呈する部分があり腫瘍内出血を伴っている可能性も考えられた。また充実性成分の辺縁に大きな嚢胞成分が認められたが、羊水と比べて T1 強調画像での信号が高いため、嚢胞内成分は血性である可能性も考えられた。以上から充実成分主体の SCT で AltmanI 型と考えられた (Fig. 1)。

妊娠 30 週 3 日に胎児心臓外来に紹介された。心臓の構造異常はなかった。総心横径 (Total cardiac dimension: TCD) 35.7mm、心胸郭断面積比 (Cardio-

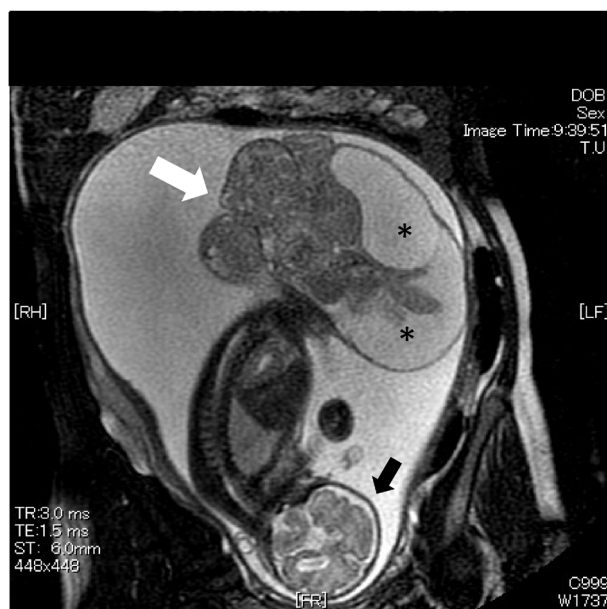


Fig. 1 Fetal magnetic resonance imaging sagittal view at 30 weeks and 3 days of gestation

The image shows a huge sacroccygeal teratoma (white arrow) without extension into the intra-pelvic space (Altman type I) on the opposite side of the fetal brain (black arrow). The tumor predominantly comprised a solid component with cystic lesions (asterisks).

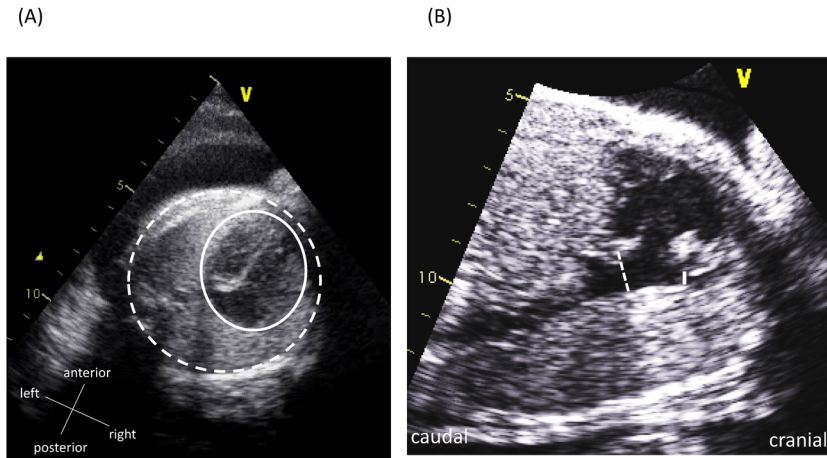


Fig. 2 Fetal echocardiography at 30 weeks and 3 days of gestation

(A) In the four-chamber view, the cardiothoracic area ratio is 36% (mild cardiomegaly), despite marked elevation in combined cardiac output. (B) In the sagittal view, the inferior vena cava appears to be dilated compared with the superior vena cava.

thoracic area ratio: CTAR) 36%と心拡大は軽度であった (>35%: 心拡大). 四腔断面像では左右のバランスはよく房室弁逆流は認められなかった (Fig. 2). しかし, 上大静脈径 4.5 mm に比し, 下大静脈径 7.5 mm と拡張していた. 2D ドプラ法から求めた両心拍出量 (Combined cardiac output: CCO) は 1,350 mL/kg/min と著明に増大していた. 右室拍出量 (RVCO): 左室拍出量 (LVCO) = 67:33 であり, 心拍出の分布はほぼ正常範囲であった. この時点では右室径短縮率 (RVFS) 30%, 左室径短縮率 (LVFS) 37%と保たれていた. 臍帯動脈および静脈のドプラパターンは正常範囲であり, 胎児水腫は認められなかった. BPS (Biophysical profile score) 10/10 であった. 羊水過多が認められた.

腫瘍のエコーおよび MRI 所見, 胎児心エコー所見からハイリスク SCT であると判断し, 治療介入の検討を開始した. 胎児心エコー所見の推移を Table 1 に示す. 31 週 4 日では CTAR 43%と増加し, CCO 1,200 mL/kg/min (RVCO: LVCO = 62:38), RVFS 33%, LVFS 33% (>28%) であった. 軽度ではあるが三尖弁閉鎖不全が認められた. 胎児水腫は認められなかった. 32 週 0 日には心房中隔瘤を形成しており卵円孔が狭小化したことに加え, 高心拍出状態のために相対的卵円孔狭窄が起こっている機序も推測された. RVCO: LVCO = 86:14 と心拍出分布が極端に右室側へ偏位し, RVFS は 22%と低下が認められた. これは卵円孔狭小化により右室前負荷が著明に増大し, その結果右室は機能不全を起こし, 収縮能低下に至ったと考えられた. 右室が担う心拍出量が多いため

Table 1 Changes in parameters and findings by fetal echocardiography (present case)

Parameters and findings	Gestational age at examination		
	30w3d	31w4d	32w0d
CTAR (%)	36	43	44
CCO (mL/kg/min)	1,350	1,200	1,030
RVCO: LVCO	67:33	62:38	86:14
RVFS/LVFS (%)	30/37	33/33	22/38
MCA-PSV (cm/s)	71	72	40
Hydrops	—	—	—
Other findings	—	Tricuspid regurgitation	FO restriction
CVPS	9	9	8

CTAR: Cardiothoracic area ratio, CCO: combined cardiac output, RVCO: right ventricular cardiac output, LVCO: left ventricular cardiac output, MCA-PSV: middle cerebral artery-peak systolic velocity, FO: foramen ovale, CVPS: Cardiovascular profile score (Huhta, 2005). 5 Categories = ① hydrops ② venous Doppler ③ CTAR ④ cardiac function (TV/MV) ⑤ arterial Doppler, Full score: 10 points = no abnormal signs.

に CCO の絶対値も低下傾向になったと判断した. 産婦人科, 小児外科, 小児科 (新生児, 循環器), 麻酔科と調整の上, 32 週 3 日に帝王切開に至った. 巨大な SCT が認められた. 腫瘍右側壁から少量出血があり羊水は血性であったが, 幸いにも腫瘍の破綻はなかった (Fig. 3).

Apgar スコアは 1 分 1 点, 5 分 3 点であった. 生後 1 分 20 秒で気管挿管し, 生後 1 分 30 秒で末梢静脈ラインを確保した. 徐脈に対して胸骨圧迫やボスミン静



Fig. 3 A large sacroccocygeal teratoma (22×25×14 cm) before resection

脈内投与を要した。生後9分の心エコーで心臓の構造や収縮能の低下がないことを確認した。生後22分に臍帯動脈ラインを留置した。臍帯静脈カテーテルは挿入できず、最終的に内頸静脈からのカットダウンに切り替えた。生後77分にサーファクタント気管内投与した。短時間の両親との面会の後、蘇生室から手術室へ移動した。生後93分でSCT切除術が開始された。同定した正中仙骨動静脈の結紮切離により循環動態が安定し、最終的に3時間19分で手術は終了した。最終出血量は270mLで、術中に濃厚赤血球580mL、新鮮凍結血漿180mL、濃厚血小板90mLの輸血を要した。腫瘍重量1,800g (22×25×14cm)で、骨盤内への進展はなくAltman I型で、病理診断は未熟奇形腫 (grade 3) であった。

腫瘍を除した児の体重は1,506gで、術後急性期はドーパミン、ホスホジエステラーゼIII阻害薬、ハイドロコチゾンの投与やアルブミン・生理食塩水などの負荷を要した。次第に循環呼吸は安定し、日齢13に気管チューブを抜管し、日齢20に二相性持続陽圧呼吸療法 (SiPAP) を離脱した。日年齢57に2,100gで退院した。生後2か月 (修正40週) の頭部MRIでは左小脳半球と左尾状核近傍にわずかな旧出血巣が認められたのみであった。四肢の運動障害はなく、排便や排尿の問題も今のところない。出生時AFP 639,520 ng/mLと著明に上昇していたが、切除後はすみやかに低下し、AFP 29.2 ng/mLで、CTで再発や転移を疑う所見はない。

考 察

出生後に診断されたSCTに比べ、胎児SCTの予後は不良である⁵⁾。人工中絶を除くと46%が胎内あるいは新生児期に死亡している。

2000年から10年間における本邦で出生前診断された仙尾部奇形腫の後方視的検討によれば、31週未満に出生した症例、胎児水腫徴候の有無、腫瘍の大きさ、腫瘍増大速度、腫瘍の構成成分が予後予測因子であった³⁾。腫瘍の大きさについては、最大径12cm以上の症例の死亡率が有意に高く、腫瘍最大径/児頭大横径 (BPD) ≥ 1.6 が予後不良であった。腫瘍増大速度については、腫瘍最大径の増加率 ≥ 0.6 cm/週が予後不良であった。また、腫瘍構成成分では充実型、嚢胞型、混合型のうち、充実型あるいは混合型のうち充実優位型が予後不良であった。本症例でも腫瘍最大径/BPDは2.6、腫瘍増大速度2.2 cm/週、充実優位型であり、これらの予後不良因子に該当した。腫瘍容積増加率 (cm³/週) ≥ 61 だと予後不良であり、さらに165 (cm³/週) だと子宮内死亡のリスクが非常に高い⁶⁾。最近MRI計測値の予後不良因子の報告もあり^{7,8)}、腫瘍容積指数 (cm³/g) = 腫瘍容量/推定体重 ≥ 0.12 、腫瘍充実成分容積指数 (cm³/g) = 充実成分/推定体重 ≥ 0.09 などである。Table 2にそのまとめを示す。本症例の組織型は未熟奇形腫であり、再発や転移などを含めた死亡率に関係するため⁹⁾、注意が必要である。

Children's Hospital of Philadelphia (CHOP) の検討では、ハイリスク胎児SCTは“watchful waiting”のpolicyでは救命できないため、症例を選んでむしろ27~32週で早期娩出することで予後を改善できている⁴⁾。28週未満で高心拍出性心不全による胎児水腫の初期なら胎児手術 (直視下腫瘍切除術) により救命の可能性があるが、骨盤腔への進展がないか、あっても軽度であるAltman I型やII型で、かつ重症の胎盤水腫がなく、Mirror症候群などの母体合併症のない症例に限られる。28週以降あるいは27週以降でも高心拍出性心不全の進行がみられる場合、腫瘍内出血がみられる場合、ドプラやBPSや心拍など胎児well-beingに異常がある場合、羊水過多のために分娩がコントロールできない場合は、子宮内死亡を回避するために帝王切開で早期娩出をすることを提案している。母体あるいは胎盤に問題がなければEXIT (Ex-utero intrapartum treatment) も考慮されるとしている。EXITとは帝王切開時に胎盤循環を維持した状態で胎児の気道を確保することであり、血

Table 2 Reports of prognostic factors in sacrococcygeal teratoma

Factor	Modality	Findings or Index	Poor prognosis	Our case
Hydrops	US	Skin edema+effusion	yes	no
Size of tumor	US	Maximum diameter of tumor/BPD	≥ 1.6	2.6
	MRI/US	Tumor volume/EFW (cm^3/g)	≥ 0.12	N.D
Tumor growth rate	US	Maximum diameter growth rate (cm/week)	≥ 0.6	2.2
	US	Tumor volume growth rate (cm^3/week)	> 61	N.D
Tumor components	US	Cystic ($\geq 90\%$)	Solid or predominantly solid	Predominantly solid
		Predominantly cystic (50–90%)		
		Predominantly solid (50–90%)		
		Solid ($\geq 90\%$)		
	MRI	Solid tumor volume/EFW (cm^3/g)	> 0.09	N.D

US: ultrasound, MRI: magnetic resonance imaging, BPD: biparietal diameter, EFW: estimated fetal weight, N.D: not done.

Table 3 Reports of fetal echocardiographic findings of cardiac output and hydrops (including in sacrococcygeal teratoma)

Author (year)	Numbers of cases	Study parameters	Results
Hofsraetter, et al. (2006)	$n=100$	Hydrops and CVPS	Median CVPS was 6 in hydrops fetalis. CVPS ≥ 8 survived in all case.
Statile, et al. (2013)	$n=35$	CCO and CVPS	An inverse relationship between CCO and CVPS in the fetus with high cardiac output. 13 fetuses with CPVS <8 , 11/13 had a CCO $>625 \text{ mL/kg/min}$.
Rychik (2004)	27 fetuses with 72 echocardiograms	CCO and IUFD	Fetuses with high output (CCO $>750 \text{ mL/kg/min}$) and/or evidence of reversal of diastolic flow in the umbilical artery was died in utero.
Tongsong, et al. (2010)	$n=69$	Venous Doppler studies in low-output and high-output hydrops	The umbilical vein pulsations were found in 78.9% of the fetuses with low-output hydrops but only 28.0% of fetuses in high-output group.

CVPS: Cardiovascular profile score (Huhta, 2005). 5 Categories=① hydrops ② venous Doppler ③ CTAR ④ cardiac function (TV/MV) ⑤ arterial Doppler. Full score: 10 points =no abnormal signs.

行動態が安定した中で、より迅速に腫瘍の治療にのぞめるメリットがある。胎児治療については open fetal surgery 以外にも、侵襲が少ないレーザー凝固や高周波凝固 (radiofrequency ablation: RFA)、コイル塞栓などに期待があるが、子宮内死亡や早産などもみられ、胎児水腫に陥った 30 週未満での出生は予後が非常に悪い¹⁰⁾。本症例でも結果として 32 週での分娩であったこと、かつ胎児水腫になる前に娩出したことが救命の第一歩につながった。分娩直後の腫瘍破綻から出血をきたし手術まで到達できない症例や、術中術後に出血が原因で死亡した症例もあり、出血をいかにコントロールするかも救命のうえでは重要である³⁾。出生後に手術に先行して塞栓術や RFA を行って出血をコントロールする試みもなされているが、アプローチの問題、時間的制約、急激な高カリウム血症などの問題もある¹¹⁻¹³⁾。本症例ではその余裕はなく、むしろ手術時間を短縮するためには塞栓術や RFA は選択し

なかった。

胎児エコーや MRI の計測などからハイリスク SCT を早くから認識し、高心拍出状態であることを確認することは、娩出時期を計画する上で非常に重要である。早期娩出といっても 27~32 週には幅があり、胎児心不全そして胎児水腫の前兆をいかにとらえるかということが求められるが、実際には何を指標にしたらいいか明確な答えはない。CCO と CTAR は相関して増加するが¹⁷⁾、ばらつきがあるため CTAR のみでは心不全徴候とはいえない。高心拍出状態では心拡大は代償機転でもあり、心拡大の程度や心不全の有無は心拍出量だけできまるわけではない。高心拍出性心不全は心臓の代償不全がくる前に胎児水腫に進行する¹⁸⁾ため、いかに胎児水腫になる前に分娩するかは難しい。胎児水腫と胎児心エコー所見のいくつかの報告を Table 3 にまとめた。原因に関係なく、胎児水腫と CVPS (Cardiovascular Profile Score) は関係があり、

胎児水腫例の CVPS の中央値は 6 点で、8 点以上だと全例生存している¹⁴⁾。CVPS は Huhta が提唱したスコアで、①胎児水腫の有無（腔水症、皮下水腫）②静脈波形（臍帯静脈、静脈管）③心胸郭断面積比④心機能（RVFS, LVFS あるいは全収縮期 TR あるいは MR）⑤動脈波形（臍帯動脈）の 5 項目について各 2 点満点で（合計 10 点）計算する。値が低いほど状態が悪いことを意味する。胎児心不全の総合評価として推奨されており、点数を追跡することで心不全の悪化をとらえる¹⁵⁾。両心拍出量（Combined cardiac output: CCO）が多いほど CVPS が低くなることが報告されており¹⁶⁾、CVPS が低くなれば高心拍出状態がすすんでいることになる。胎児の CCO の正常値は 425～550 mL/kg/min といわれているが、CCO が 750 mL/kg/min を超える症例や、臍帯動脈の拡張期逆流のあった症例は子宮内死亡が多いと報告している¹⁷⁾。低心拍出性心不全・胎児水腫とは違って、高心拍出性心不全・胎児水腫は、臍帯静脈の拍動は必ずしも認められない¹⁸⁾。高心拍出状態では静脈管の Preload index は有意に低いことから、臍帯静脈の拍動は中心静脈圧の上昇を示しておらず、臍帯静脈の拍動は指標になりにくい。本症例でも相当の高心拍出状態であったものの、臍帯静脈の拍動はみられなかった。しかし心拡大の進行、右心室径短縮率の低下、三尖弁閉鎖不全がみられた時点で CVPS は 9 点から 8 点に低下し、さらに正常の心拍出分布から外れた右室拍出量の増加がみられたことに注意し、拡張期途絶や胎児水腫のない状態で計画的に娩出できた。本症例ではハイリスク SCT と判断し早期娩出にそなえて入院管理にした。NST（non-stress test）と母体合併症の有無の評価を毎日行い、隔日で産科医がエコーで腫瘍の変化、胎児 well-being, CTAR, 腔水症の有無を評価した。小児循環器医は胎児心エコーによる血行動態の詳細な評価を最低週 1 回は行い、その所見に応じて間隔を短くした。胎児心エコーのフォローアップ間隔は症例によって一定ではないものの、血行動態の変化に着目し密にフォローする必要があると思われる。

結 語

ハイリスク仙尾部奇形腫の胎児に対して、胎児心エコー所見をもとに早期娩出を計画し、救命することができた。細心の摘出術および周術期管理を行い、現時点で合併症のない救命を得られたが、未熟奇形腫であるため、AFP や画像のフォローが必要である。

利益相反

本論文について、開示すべき利益相反（COI）はない。

付 記

本稿の内容は、第 21 回日本胎児心臓病学会（2015 年 2 月、東京）で発表した。

引用文献

- 1) Brace V, Grant SR, Brackley KJ, et al: Prenatal diagnosis and outcome in sacrococcygeal teratoma: A review of cases between 1992 and 1998. *Prenat Diagn* 2000; **20**: 51–55
- 2) Wilson RD, Hedrick H, Flake AW, et al: Sacrococcygeal teratomas: Prenatal surveillance, growth, and pregnancy outcome. *Fetal Diagn Ther* 2009; **25**: 15–20
- 3) Usui N, Kitano Y, Sago H, et al: Outcomes of prenatally diagnosed sacrococcygeal teratomas: the results of a Japanese nationwide survey. *J Pediatr Surg* 2012; **47**: 441–447
- 4) Robal JL, Moldenhauer JS, Khalek N, et al: Early delivery as an alternative management strategy for selected high-risk fetal sacrococcygeal teratomas. *J Pediatr Surg* 2011; **46**: 1325–1332
- 5) Hedrick HL, Flake AW, Cromblehime TM, et al: Sacrococcygeal teratoma: Prenatal assessment, fetal intervention, and outcome. *J Pediatr Surg* 2004; **39**: 430–438, discussion, 430–438
- 6) Coleman A, Shaaban A, Keswani S, et al: Sacrococcygeal teratoma growth rate predicts adverse outcomes. *J Pediatr Surg* 2014; **49**: 985–989
- 7) Coleman A, Kline-Fath B, Keswani S, et al: Prenatal solid tumor volume index: Novel prenatal predictor of adverse outcome in sacrococcygeal teratoma. *J Surg Res* 2013; **184**: 330–336
- 8) Rodriguez MA, Cass DL, Lazar DA, et al: Tumor volume to fetal weight ratio as an early prognostic classification for fetal sacrococcygeal teratoma. *J Pediatr Surg* 2011; **46**: 1182–1185
- 9) Yoneda A, Usui N, Taguchi T, et al: Impact of the histological type on the prognosis of patients with prenatally diagnosed sacrococcygeal teratomas: The results of a nationwide Japanese survey. *Pediatr Surg Int* 2013; **29**: 1119–1125
- 10) Van Mieghem T, Al-Ibrahim A, Deprest J, et al: Minimally invasive therapy for fetal sacrococcygeal teratoma: Case series and systematic review of the literature. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2014; **43**: 611–619
- 11) Cowles RA, Stolar CJH, Kandel JJ, et al: Preoperative angiography with embolization and radiofrequency ablation as novel adjuncts to safe surgical resection of a large, vascular sacrococcygeal teratoma. *Pediatr Surg Int* 2006; **22**: 554–556
- 12) 田中秀明, 高安 肇, 藤野明浩, ほか: 巨大仙尾部奇形腫の新生児期手術と周術期管理. *小児外科* 2008; **40**: 823–827
- 13) Lahdes-Vasama TT, Korhonen PH, Seppanen JM, et al: Preoperative embolization of giant sacrococcygeal teratoma in a premature newborn. *J Pediatr Surg* 2011; **46**: E5–E8

- 14) Hofstaetter C, Hausmann M, Eik-Nes SH, et al: A cardiovascular profile score in the surveillance of fetal hydrops. *J Matern Fetal Neonatal Med* 2006; **19**: 407–413
- 15) Donofrio MT, Moon-Grady AJ, Hornberger LK, et al: American Heart Association Adults with Congenital Heart Disease Joint Committee of the Council on Cardiovascular Disease in the Young and Council on Clinical Cardiology, Council on Cardiovascular Surgery and Anesthesia, and Council on Cardiovascular and Stroke Nursing: Diagnosis and Treatment of fetal cardiac disease: A scientific statement from the American Heart Association. *Circulation* 2014; **129**: 218–242
- 16) Statile CJ, Cnota JF, Gomien S, et al: Estimated cardiac output and cardiovascular profile score in fetuses with high cardiac output lesions. *Ultrasound Obstet Gynecol* 2013; **41**: 54–58
- 17) Rychik J: Fetal cardiovascular physiology. *Pediatr Cardiol* 2004; **25**: 201–209
- 18) Tongsong T, Tongprasert F, Srisupundit K, et al: Venous Doppler studies in low-output and high-output hydrops fetalis. *Am J Obstet Gynecol* 2010; **203**: 488e1–6