



新生児期先天性気管病変の経験 — 8例の気管支造影による検討 —

与田仁志, 中島やよひ, 川上 義, 島 義雄, 岩間 直,
赤松 洋, 仲西博子¹⁾, 祐野彰治¹⁾, 橋都浩平¹⁾
日本赤十字社医療センター 新生児未熟児科 同小児外科¹⁾

Congenital Tracheal Lesions in the Neonates: Report of 8 Cases Evaluated with Bronchography

Hitoshi Yoda, Yayohi Nakajima, Tadashi Kawakami,
Yoshio Shima, Naoshi Iwama, Hiroshi Akamatsu,
Hiroko Nakanishi¹⁾, Shyoji Yuno¹⁾, Kohei Hashizume¹⁾,
Department of Neonatology and Premature Medicine, Pediatric Surgery,
Japanese Red Cross Medical Center

Abstract We report eight infants with congenital obstructive lesions of the trachea, which were diagnosed by fluoroscopic bronchography. Assisted ventilation was required in all of them due to severe dyspnea from the neonatal period and there was difficulty in removing the intratracheal tube in them.

By having fluoroscopic bronchography they were diagnosed as tracheal stenosis in four cases, subglottic stenosis in three cases, and severe tracheomalacia in one case. Four cases had associated anomalies, such as, Holt-Oram syndrome, cardiofacial syndrome and truncus arteriosus with jejunal atresia.

Bronchography using non-ionic contrast medium was performed fourteen times in eight infants. The method was useful for diagnosis of the tracheomalacia in detecting the minimal change between inspiratory and expiratory phase in short period. And it was helpful to delineate subglottic stenosis when we extubate infusing contrast medium.

Complications during and after bronchography were unexpected extubation of the tracheal tube in two cases and fever after examination in one case. Monitoring of the patient with heart rate and saturation is mandatory during the examination.

Key words Tracheal stenosis, Bronchography, Neonate

原稿受付日：1997年1月31日，最終受付日：1997年5月16日

別冊請求先：〒150 東京都渋谷区広尾4-1-22 日本赤十字社医療センター新生児未熟児科 与田仁志

はじめに

新生児期に発症した狭窄性気管病変に対し、従来より使用されている血管造影用の非イオン系造影剤を用いて、気管支造影 (digital fluoroscopic bronchography) を施行した。対象となった8症例について、その臨床的検討とともに同検査法の診断に対する有用性と検査の安全性を検討した。

対 象

症例は1994年～1995年の2年間に経験したもので、気管病変による呼吸障害のため新生児期から気管内挿管が必要で、かつ抜去困難となった症例である。8症例の在胎週数は24週～39週、出生体重は680g～3528gであり、検査の施行時期は生後16日～1歳2ヶ月でその時点での体重は1.8kg～5.2kgであった。

方 法

気管支造影は8症例に対し計14回(1～3回)施行した。施行中はバイタルサインの変化に留

意し、心電図とSpO₂モニターを装着し、また、静脈ルートを確保し自発呼吸が消失しない程度の静脈麻酔をベントバルビタールで行った。撮影は東芝DSAシステムDFP-1000Aを用い、シネモードで秒間7フレーム数で10～15秒の撮影時間とした。また、正面像は全例で施行したが本機はシングルプレーンのため側面像が必要な場合は側面像を追加した。造影剤は非イオン性ヨード化合物で血管、尿路、脊髄の造影に適応のあるIohexol (オムニパーク300)、またはIotrolan (イソビスト240) を使用し、使用量は体重当たり、0.2cc～0.6ccであった。投与方法は造影剤を使用量だけ注射器に充填させ、点滴留置針の外筒を付けてなるべく気管内チューブの内部で注入して咳そうによる造影剤の噴出を避けるようにした。狭窄部が声門下に予想される場合には予め気管チューブを浅い位置に固定し、撮影時間内に狭窄部が描出されるようさらに引き抜きながら造影した。撮影後は直ちに気管内洗浄を施行し、透視にて造影剤の消失を確認した。また、気管病変の検索には全例で気管造影の前後に気管支ファイバースコープを施

表

	在胎週 (w)	出生体重 (g)	気管主病変	原疾患(合併奇形)	手術	転帰
症例1	32	1440	気管狭窄	極低出生体重児(肋骨癒合)	端々吻合	生
症例2	34	1689	広範囲気管狭窄	総動脈幹遺残 十二指腸閉鎖、鎖肛	無	死
症例3	39	3528	気管軟化症	Holt Oram 症候群	無	生
症例4	31	1500	気管狭窄	低出生体重児	端々吻合	生
症例5	39	2310	声門下腔狭窄	Cardiofacial 症候群	気切 肋軟骨 graft	生
症例6	39	2678	声門下腔狭窄	H型気管食道瘻 (半脊椎)	気切 肋軟骨 graft	生
症例7	24	680	声門下腔狭窄	超低出生体重児	気切	生
症例8	25	916	気管狭窄	超低出生体重児	無	生

行し、造影所見の参考とした。

結 果

対象となった8症例の主たる気管病変の内訳は表に示すごとく気管狭窄4例、声門下腔狭窄3例、気管軟化症1例であった。気管造影検査による気管狭窄の診断は容易で、4例とも気管狭窄の部位および範囲が明瞭に示され、呼気相のみならず吸気相においても狭窄病変として描出された。気管支ファイバースコピーにて診断された内容とほぼ一致したが病変部の範囲および狭窄部より末梢の病変検索が可能であった。声門下腔狭窄の診断は病変部の描出にやや困難さを伴ったが、透視で気管チューブの位置を慎重に決定することで描出が可能であった。また本症例のように抜去困難となった声門下腔狭窄は気管支ファイバースコピーでも確認が難しかった。気管軟化症の診断は側面での造影がより有用で吸気相に比し、呼気相での前後径の扁平化が著しかった。造影検査後の非イオン性血管造影剤の吸収は1回ないし2回の気管洗浄を行うことで透視上容易に消失することが確認された。検査施行中の合併症としては1例で気道閉塞による徐脈が、声門下腔狭窄の2例で気管内チューブを浅くした際の事故抜管があった。使用後に1例で発熱が認められたが、検査当日から炎症反応が陽性であり、感染症の発症と重なっていた。

対象となった8症例の合併疾患としては先天性心疾患を伴うHolt-Oram症候群（右胸心、ASD, PDA, VSD合併）1例、Cardiofacial症候群（PDA合併）1例、総動脈幹遺残（十二指腸閉鎖、鎖肛合併）1例、H型気管食道瘻1例で、骨異常として肋骨癒合や半脊椎合併例も各々1例存在した。また、出生体重は1000g未満の超低出生体重児2例を含む1500g未満の極低出生体重児が3例あり、全体で6例が低出生体重児であった。正常体重児2例も気管病変に留まらず合併疾患が存在した。治療とその転帰について述べると、手術は気管狭窄に対して狭窄部切除・端々吻合が2例に行われ抜管が可能

となった。声門下腔狭窄3例に対して気管切開が行われ、広範な脳病変を持つ1例を除く2例は肋軟骨グラフトによる形成術により抜管が可能となった。気管軟化症の1例と気管狭窄の1例は無手術で抜管が可能であった。広範囲気管狭窄の1例は手術の適応なく死亡した。なお、気管狭窄の手術例2例と剖検例1例の3例は切除部分の病理検査にてcomplete cartilagenous ringと診断された。

症例呈示

対象とした8症例の中から4例を呈示する。

【症例2】広範囲気管狭窄の症例で十二指腸閉鎖・鎖肛の他、総動脈幹遺残（II型）も合併した低出生体重児である。消化管の手術後の日齢7より呼吸障害のため気管内挿管を必要とすからは抜去困難となった。生後6ヶ月時の気管支造影では気管気管支が広範囲にわたって狭小化しており気管気管支の低形成と診断した。気管支ファイバースコピーでは肉芽による狭窄を認め、それより末梢の情報は得られなかった。同時に行った血管造影との比較では総動脈幹症によるvascular ringやvascular slingは認められず、異常血管による気管狭窄は否定された。呼吸管理は難渋をきわめ、手術にいたらず7ヶ月時に敗血症で死亡した。剖検では、気管下部50%以上に及ぶ強度の狭窄を認め、全周性に軟骨形成のあるcomplete cartilagenous ringであった。また、周囲の血管による圧排はなく、肺の分葉異常（右不完全2葉、左1葉）が認められた。

【症例3】成熟児で出生したHolt-Oram症候群に合併した気管軟化症の症例である。心疾患としては右胸心、動脈管開存症、心房中隔欠損、筋性部心室中隔欠損を合併し生後1ヶ月時に動脈管開存と心房中隔欠損に対し根治術を施行した。その後も抜管は不可能で2ヶ月時に気管支造影と気管支ファイバースコピーを施行し、限局性の気管狭窄はないものの特に呼気時に気管の前後径が著しく扁平化し気管軟化症と診断した。1年間に及ぶ長期人工呼吸管理のすえ抜管

が可能であった。

【症例4】出生体重1500gの女児で生直後に呼吸窮迫症候群の人工呼吸管理と肺サーファクタントによる治療後、原因不明のDIC様の所見とともに気道出血を伴い抜管困難症となった。気管支造影では気管中央に限局性の気管狭窄を認め、吸気時、呼気時ともに狭窄所見を認め、その部位より末梢での狭窄はなかった。気管支ファイバースコープでも全周性に限局した気管狭窄を認めた。7ヶ月時、体重3668gで気管狭窄部の切除術と端々吻合術を行い抜管が可能であった。気管切除部の病理組織上気管壁は厚く、気管軟骨が全周性に輪状に狭窄しているcomplete cartilagenous ringの所見で先天性の気管狭窄と診断した。

【症例6】成熟児男児で、生直後よりの陥没呼吸を主訴に入院し、経口摂取開始後に誤飲性肺炎を併発し、この時の気管内洗浄の際に声門下の狭窄に気付かれた。バギングにより、胃胞が拡張すること、気管内に色素の代わりとなる水溶性ビタミン剤を注入し胃内からそれを証明する事でH型気管食道瘻を疑った。気管支造影検査では第1斜位で気管食道瘻を明瞭に確認することができ、気管チューブを徐々に浅くして造影することで声門下腔狭窄も確認し得た。1ヶ月で気管食道瘻の切離を、2ヶ月で気管切開を施行し、肋軟骨グラフトを用いた気管形成術を9ヶ月で行ない抜管が可能となった。

考 察

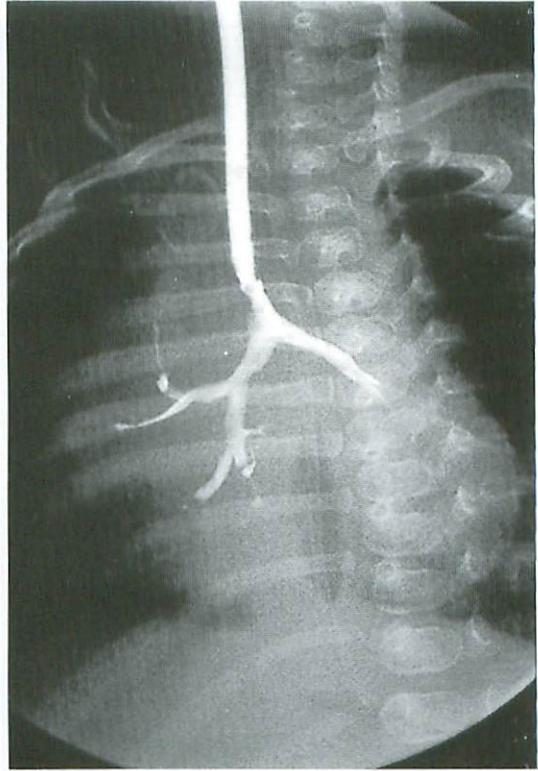
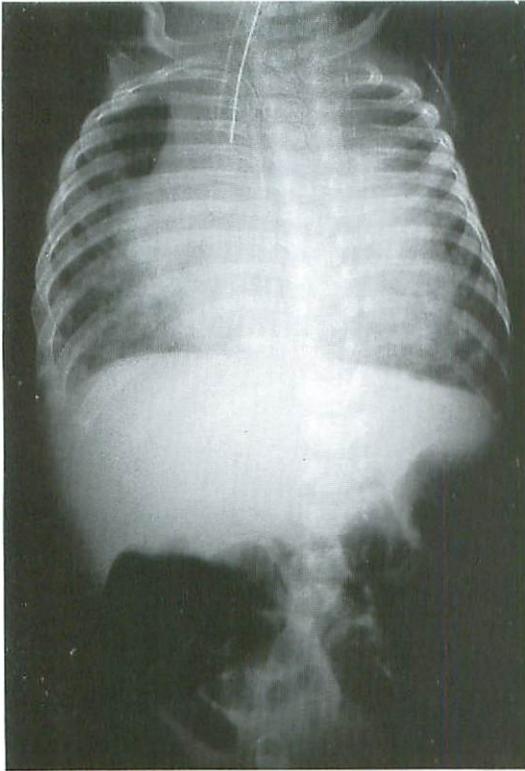
今回、我々が報告した8症例の狭窄性気管病変は気管狭窄4例、声門下腔狭窄3例、重症気管軟化症1例という内訳であった。特徴的な点として、いずれも新生児期に発症し、確定診断前から気管内挿管が必要で、かつ抜去困難となった重症例であること、合併奇形を持つ症例が多い点（4例/8例）、極低出生体重児が多い点（3例/8例）などが挙げられる。新生児期発症の狭窄性気管病変は従来の報告^{1)~3)}でも示されているように、発症時期としても好発時期にあり、かつ重症例が多いため手術困難例や死

亡例が多い。

呼吸器系以外の合併症としては心血管系の異常が多いとされるが²⁾、これには先天性気管狭窄の原因としてpulmonary artery sling (PA sling)が含まれているためである。Loeffら³⁾もPA slingは先天性気管狭窄の50%に及ぶと報告しているが、今回検討した症例にPA slingが存在しなかったのは対象とした調査期間が短く、症例数も少ないための結果であると思われる。しかし、全体として心血管系の異常は3例と決して少なくはなかった。また、四肢の奇形を伴うHolt-Oram症候群を含めると肋骨、脊椎などの骨異常も8例中3例と高率であった。

新生児例を多く検討したOrimierら⁴⁾の報告では体重も記載しており、圧倒的に正常体重児例が多い。我々の検討症例に極低出生体重児が多かったのは当センターにNICUが設置されているという施設としての特性が影響しているものと思われる。人工換気を受けた低出生体重児例では気道損傷としての壊死性気管支炎による気管狭窄⁵⁾や、同様に医原性の声門下腔狭窄の発生^{6)~8)}が近年注目をされている。しかし、今回呈示した極低出生体重児で見られた気管狭窄3例のうち手術した2例の病理所見は先天性気管狭窄に多いとされる、膜様部の存在しないcomplete cartilagenous ringであった。残る1例は狭窄部の拡張に伴って自然軽快しており、病理所見を得る機会がなかったものの、先天性の気管狭窄でも成長に伴う狭窄部の拡大例は存在する事が知られていることから⁹⁾、本症例も決して先天性を否定するものではないと思われる。

気管狭窄の形態分類にはCantrell¹⁰⁾や山本ら¹¹⁾の分類が用いられるが、これらはいずれも手術の適応や予後などと密接に関連した実用的な分類である。従って、狭窄部を含めた気管全体の形態を術前に客観的に把握する事が重要で、これには気管支造影が欠かせないと報告されている⁹⁾。気管支造影の弱点として、気管内腔の肉眼的性状が確認できない点が挙げられる



a	b
c	

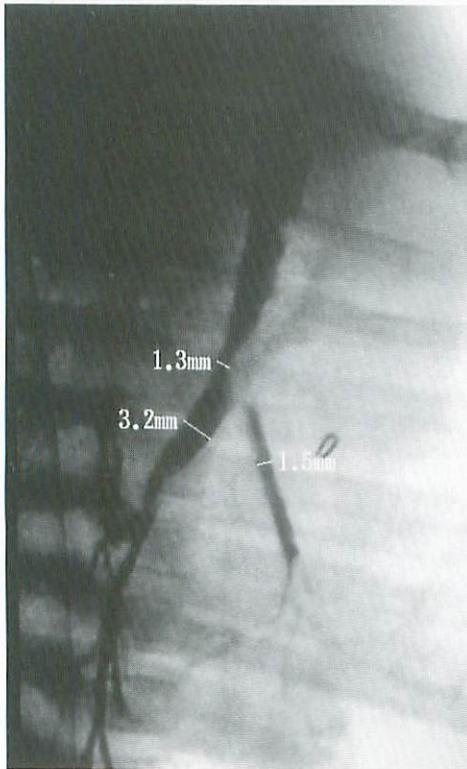
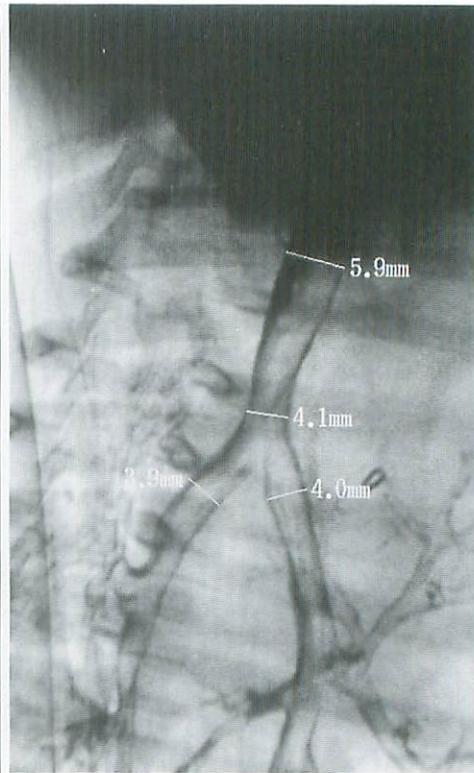
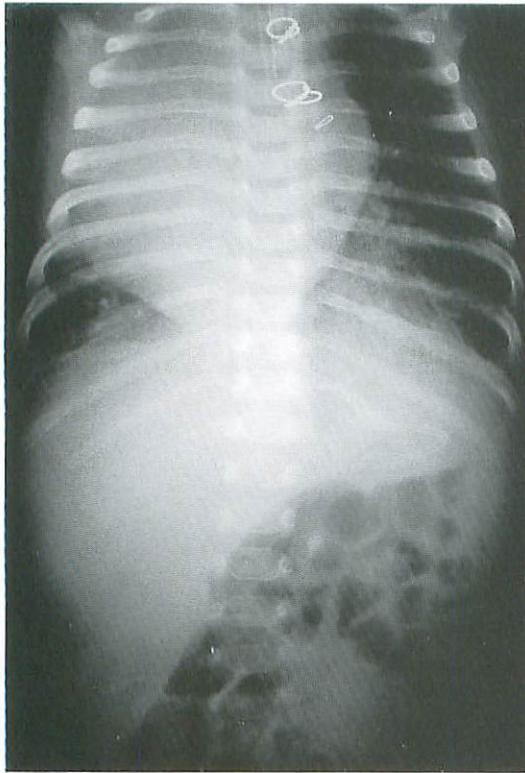
症例 2 : 広範囲気管狭窄, 総動脈幹遺残,
十二指腸閉鎖, 鎖肛

図 1 a : 胸腹部単純X線

著明な心拡大と横隔膜の平低化を認め、気管チューブは気管中央から下方への挿入は困難であった。

図 1 b, c : 気管支造影 : 吸気時(b)と呼気時(c)

気管チューブ直下の気管下部に狭窄を認め、呼気に増強する。末梢の気管支の狭細化も認めた。



a	b
c	

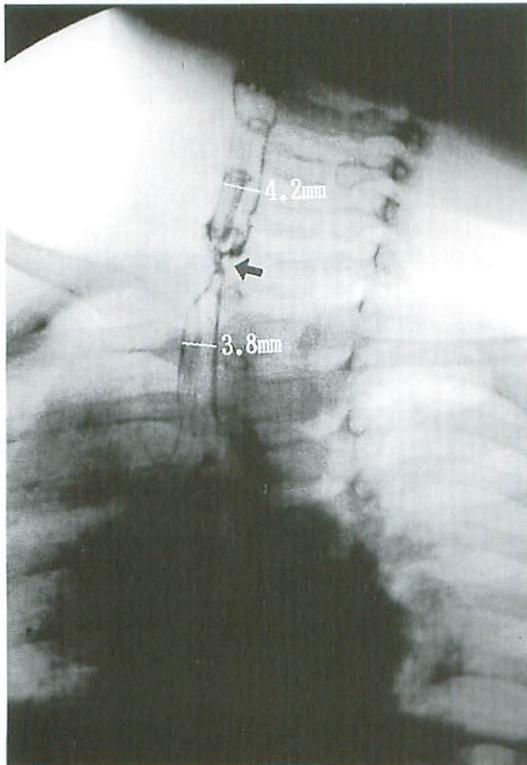
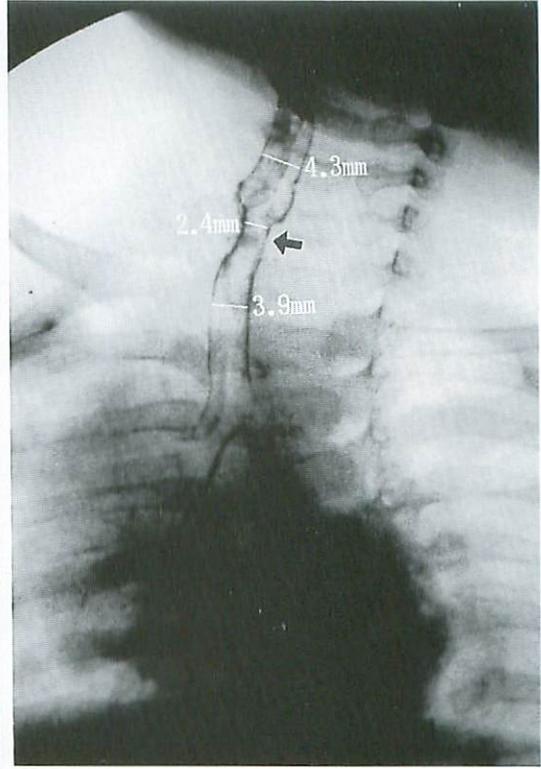
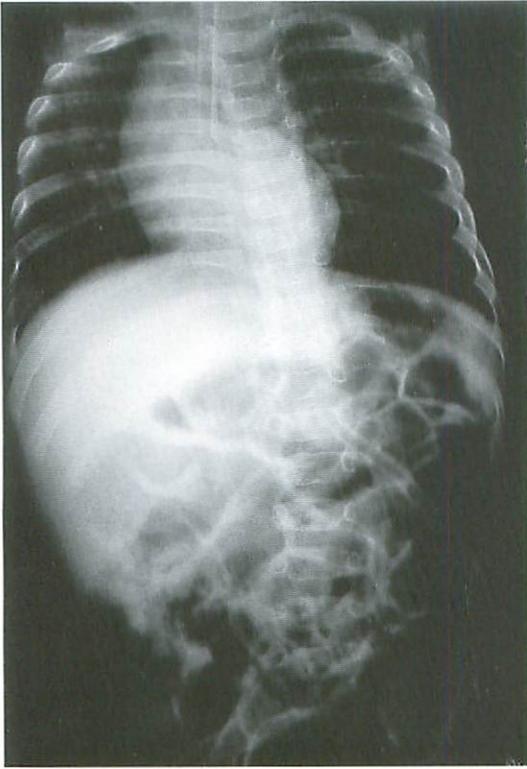
症例 3 : 気管軟化症, Holt - Oram 症候群

図 2 a : 胸腹部単純 X 線

右胸心と心拡大を認める。

図 2 b, c : 気管支造影(側面) : 吸気時(b)と呼気時(c)

呼気には気管気管支の前後径が著しく狭小化し、気管気管支軟化症の所見を呈する。



a b
c

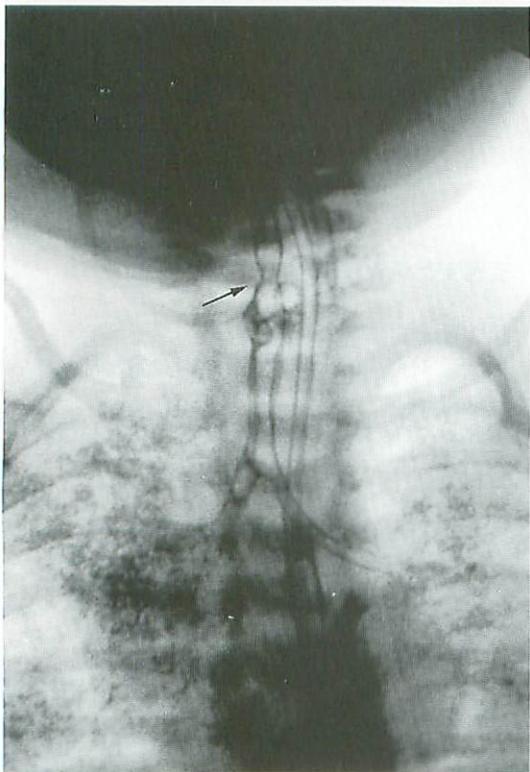
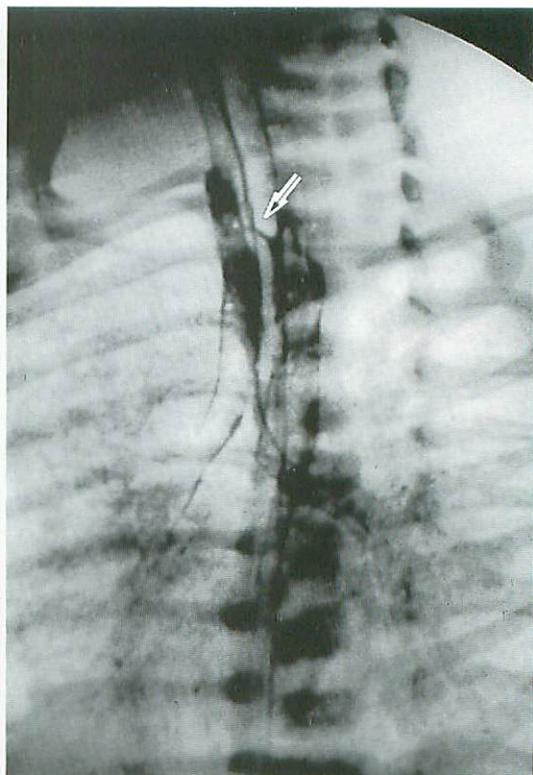
症例 4 : 気管狭窄, 低出生体重児

図 3 a : 胸腹部単純 X 線

気管チューブは狭窄部を越えて留置され, 肺野は明るい.

図 3 b, c : 気管支造影: 吸気時(b)と呼気時(c)

気管中央に限局性の狭窄を認め (←), 吸気時, 呼気時ともに狭いが, 呼気時に著明である.



a	b
c	

症例 6 : 声門下腔狭窄, H型気管食道瘻

図 4 a : 胸腹部単純 X 線

半脊椎, 肋骨癒合を認める (←).

図 4 b : 気管支造影 (第 1 斜位)

気管上方に気管食道瘻が明瞭に描出され, H 型を呈している (←).

図 4 c : 気管支造影 (正面)

気管チューブを引き抜いて造影すると, 声門下に狭窄があり (←), さらにその直下に気管食道瘻の気管側が短軸面で描出された。

が、これは気管支ファイバースコープや硬性鏡でしか術前には知り得ないため併用する必要性がある。また、気管外からの圧迫による狭窄も気管支造影ではわかりにくく、これには血管造影との組み合わせが有用なこともあるが、近年では、3D-CT¹⁶⁾やMRI^{11),12)}を用いてより非侵襲的に全体像を描出する報告がなされており、周囲の組織、大血管との位置関係をも同時に把握できる点で画期的である。我々も数例でMRIによる描出を試みたが気管内挿管例での検査の困難さ、検査時間の長さ、スライス角度や位置決めなどかなりの経験を求められる。既に挿管されているような症例では気管支造影やファイバースコープが検査としては容易であると思われた。

今回我々が用いたdigital fluoroscopic bronchographyでは透視下に造影検査を行うため、気管チューブの先端を確認しながら狭窄部位を描出する事ができ、声門下腔狭窄の描出も可能であった。ただし、この際、患児の咳そうによって気管チューブが抜けることがある点を考慮に入れる必要がある。本検査法は秒間7フレームという連続的な撮影であるため吸気と呼気の短時間の変化も明瞭にとらえられ、特に側面像の変化で気管軟化症の補助診断となりうる。気管軟化症の診断は実際には臨床症状に加え、画像診断の上でも正常者の気管内径の呼吸性変化率と比較して客観的な評価を下す必要があるとされるが¹³⁾、実際には総合的に診断しているのが現状と思われる。

従来、気管支造影に用いられていたpropylidone (Dionosil)は現在、わが国では入手不可能であり、今回は血管、脊髄、尿路系に適応のあるIohexol (オムニパーク300)、またはIotrolan (イソビスト240)を用いた。

これら非イオン系の水性造影剤の気管支造影の安全性は十分確立されているとはいえない¹⁴⁾。しかし、検査施行時のbronchospasmが少ないとする報告があり¹⁵⁾、今回の我々の経験でも造影剤に直接原因すると思える副作用は経験しなかった。

まとめとして、本検査法は連続的に吸気と呼気の短時間の変化も明瞭にとらえられ、狭窄性気管病変の診断に有用で、施行中は細心の注意と十分なモニター下でcriticalな新生児例でも比較的安全に実施が可能であった。

●文献

- 1) DeLorimier AA, Harrison MR, Hardy K, et al : Tracheobronchial obstructions in infants and children. *Ann Surg* 212 : 277-289, 1990.
- 2) 山本哲郎 : 先天性気管狭窄症—治療を通してみた病型と病態. *日小呼吸器会誌* 4 : 43-46, 1993.
- 3) Loeff DS, Filler RM, Vinograd I, et al : Congenital tracheal stenosis: a review of 22 patients from 1965 to 1987. *J Pediatr Surg* 23 : 744-748, 1988.
- 4) Metlay LA, Macpherson TA, Doshi N, et al : Necrotizing tracheobronchitis in intubated newborns : a complication of assisted ventilation. *Pediatr Pathol* 7 : 575-584, 1987.
- 5) DaSilva OP: Factors influencing acquired upper airway obstruction in newborn infants receiving assisted ventilation because of respiratory failure: an overview. *J Perinatol* 16 : 272-275, 1996.
- 6) 山本哲郎, 前田貢作, 菅野壮太郎, 他 : 声門下腔狭窄症. *小児外科* 22 : 67-72, 1990.
- 7) Manson D, Filler R, Gordon R : Tracheal growth in congenital tracheal stenosis. *Pediatr Radiol* 26 : 427-430, 1996.
- 8) Cantrell JR, Guild HG : Congenital stenosis of the trachea. *Am J Surg* 108 : 297-305, 1964.
- 9) Siegel MJ, Shachelford GD, McAlister WH : Tracheobronchography in the evaluation of anomalous left pulmonary artery. *Pediatr Pathol* 12 : 235-238, 1982.
- 10) Manson D, Babyn P, Filler R, et al : Three-dimensional imaging of the pediatric trachea in congenital tracheal stenosis. *Pediatr Radiol* 24 : 175-179, 1994.
- 11) Vogl TJ, Diebold T, Bergman C, et al : MRI in pre- and postoperative assessment of tracheal stenosis due to pulmonary artery sling. *J Comput Assist Tomogr* 17 : 878-886, 1993.

- 12) Newman B, Meza MP, Towbin RB, et al :
Left pulmonary artery sling : diagnosis
and delineation of associated tracheo-
bronchial anomalies with MR. *Pediatr
Radiol* 26 : 661-668, 1996.
 - 13) 川崎一輝, 雄本忠市 : 気管気管支軟化症. *小
児科* 30 : 603-610, 1989.
 - 14) 野口哲彦, 南部静洋, 桜井滋, 他 : 血管造影
剤を用いた Digital subtraction broncho-
graphy (DSBG) の検討. *臨床放射線* 38 :
149-154, 1993.
 - 15) Albert D : Management of suspected tra-
cheobronchial stenosis in ventilated
neonates. *Arch Dis Child* 72 : F1-F2, 1995.
-