



気管支ファイバースコープと気管支造影の比較 —気管支閉鎖症での検討—

中島千賀子, 横山美貴, 宮川知士, 土屋康子, 雉本忠市
国立小児病院 呼吸器科

Bronchography vs Bronchofiberscopy : Which is more useful in the diagnosis of bronchial atresia ?

Chikako Nakajima, Yoshiki Yokoyama, Tomoo Miyakawa,
Yasuko Tsuchiya, Chūichi Kijimoto

Department of Pulmonology, National Children's Hospital

Abstract We compared the usefulness of bronchography(BG) with that of bronchofiberscopy(BS) in the diagnosis of bronchial atresia in five patients. Bronchograms showed no filling of the affected bronchus in all five cases, and compression of the adjacent bronchi in four of them. In two cases the adjacent bronchi were so deviated that angiography was needed to differentiate from other diseases. On the other hand, BS showed absence of the orifice of the affected bronchus in only two cases. In the remaining three cases BS showed no abnormality. Moreover, BS provided no information concerning deviation of the bronchi or subsegmental area in these children. In conclusion BG is more useful than BS in the diagnosis of BA.

Key words Bronchial atresia, Bronchography, Bronchofiberscopy

はじめに

小児呼吸器疾患には、解剖学的異常に基づく疾患が比較的多い。気管支造影剤の生産が中止された今日では、気管支造影は一般的に行われなくなったが、気管支の先天異常について、他の検査手段で十分な情報が得られるのか疑問である。今回、私達は気管支閉鎖症の診断において、気管支造影と気管支ファイバースコープを比較し、その有用性を検討した。

対 象

対象は過去2年間に国立小児病院呼吸器科に入院した気管支閉鎖症5症例。年齢は3歳11カ月から8歳1カ月で、性別は男児3名、女児2名である。気管支閉鎖部位は右上葉3例、左上葉2例で、区域枝レベルの閉鎖は4例、亜区域枝レベルの閉鎖は1例であった。また、1例は気管支原性嚢胞、1例は慢性気管支炎を合併していた。

原稿受付日：1996年11月1日、最終受付日：1997年2月20日

別刷請求先：〒154 世田谷区太子堂3-35-31 国立小児病院 呼吸器科 中島千賀子

方 法

検査は吸入麻酔による全身麻酔下に気管支ファイバースコープに引き続き気管支造影を行った。検査の合併症は1例もなく、全例、検査2日後に退院している。また、症例に応じて胸部CT、肺換気、血流シンチグラフィー、肺動脈造影などを行った。気管支ファイバースコ

ピー所見と気管支造影所見を比較し、気管支閉鎖症の画像診断について検討した。

症例呈示

症例 1

3歳11カ月男児。3カ月前から湿性咳嗽が続く、近医で胸部単純レントゲン写真上異常陰影を指摘され当科に紹介された。患児は生後1カ

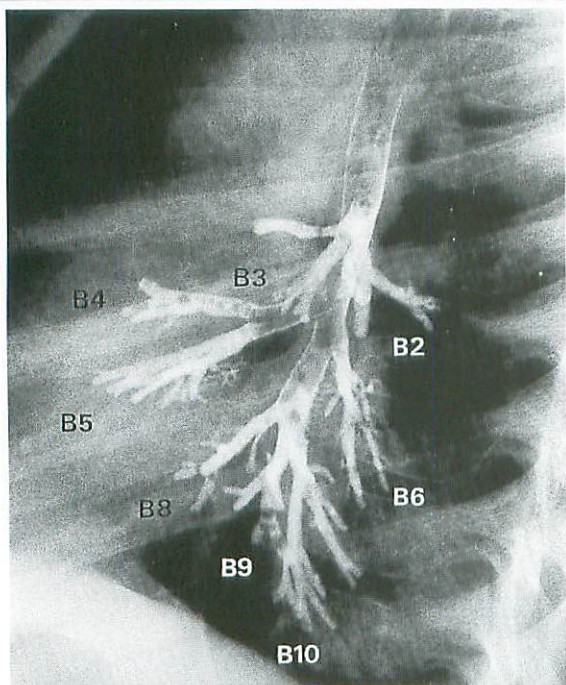
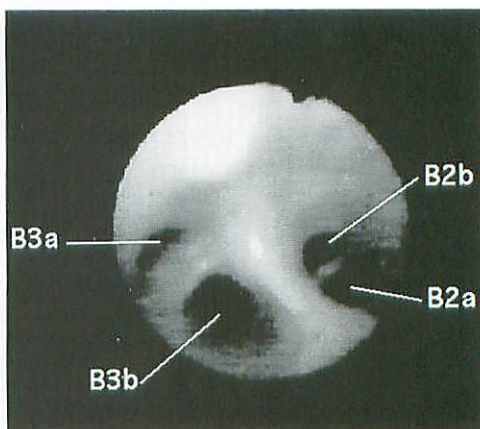
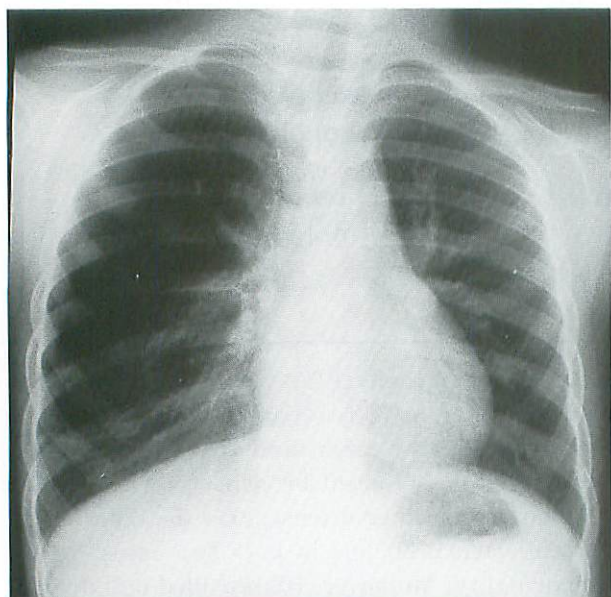


図1. 症例1

a : 胸部単純レントゲン写真

右上葉の過膨張と右中下葉の容積の低下を認める。

b : 気管支ファイバースコープ

右上幹からB2a, bとB3a, bを認めるが、B1のorificeを認めない。また、気管支粘膜の発赤とリンパ組織の増殖を認める。

c : 気管支造影(側面像)

右B1は造影されず、B2, B3は下方に圧排されている。

月時から2回肺炎の既往がある。

胸部単純レントゲン写真では右上葉の過膨張と中下葉の容積の減少を認めた(図1. a)。胸部CTでは肺炎区域の気腫状変化、特に末梢の囊胞状の変化を認めた。bronchomucoceleを思わせる結節状陰影は認めなかった。気管支ファイバースコープでは右B1のorificeを認めなかった(図1. b)。気管支壁は全体に凹凸不整で発赤を認め、慢性炎症が示唆された。気管支造影でも同様に右B1は造影されず、右B2、B3は下方に圧排されていた(図1. c)。肺換気シンチ(^{81m}Kr)でR:L=65:100、肺血流シンチ($^{99m}\text{Tc-MAA}$)でR:L=45:100。共に右S1区域の欠損像を認めた。

右B1の気管支閉鎖症と診断し、右上葉切除術を行った。B1の中枢端は主気管支側に残存してたと考えられ、切除標本の病理学的検索では閉鎖部位を確認することはできなかった。S1を中心に肺実質は強い気腫状変化と、高度の気管支拡張所見、気管支周囲の慢性炎症所見を認め、気管支閉鎖症に典型的な所見であった。

症例 2

4歳3カ月女児。生後5カ月頃から上気道炎に伴い喘鳴が出現し、喘息様気管支炎としてフォローアップされていた。3歳9カ月時に肺

炎に罹患し、胸部レントゲン写真上異常陰影を指摘され当科に紹介された。

胸部単純レントゲン写真では右上葉の過膨張、上葉肺門近傍のV字状腫瘤影、及び中肺野の囊胞状陰影、S5の無気肺と中下葉の容積の減少を認めた。胸部CTでは上葉前区域の気腫状変化とその肺門側のbronchomucoceleを思わせるV字状腫瘤陰影と中下葉間の囊胞を認めた。中下葉の一部は無気肺になっていた。気管支ファイバースコープでは右B3のorificeを認めなかった(図2. a)。右中葉分岐部は上方からの圧排で扁平になっており、また肺底枝は細く分泌物の貯留のため末梢まで観察できなかった。気管支造影では、右上幹の分岐は低位で、右B3は造影されなかった。中葉枝は下方に圧

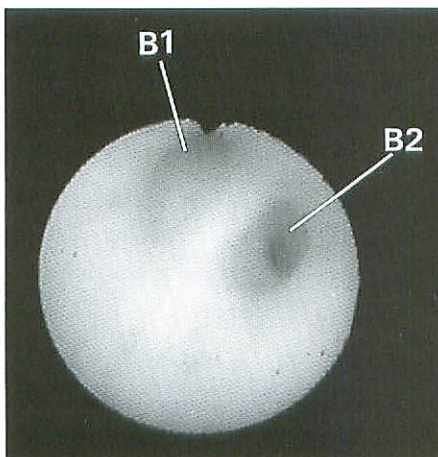
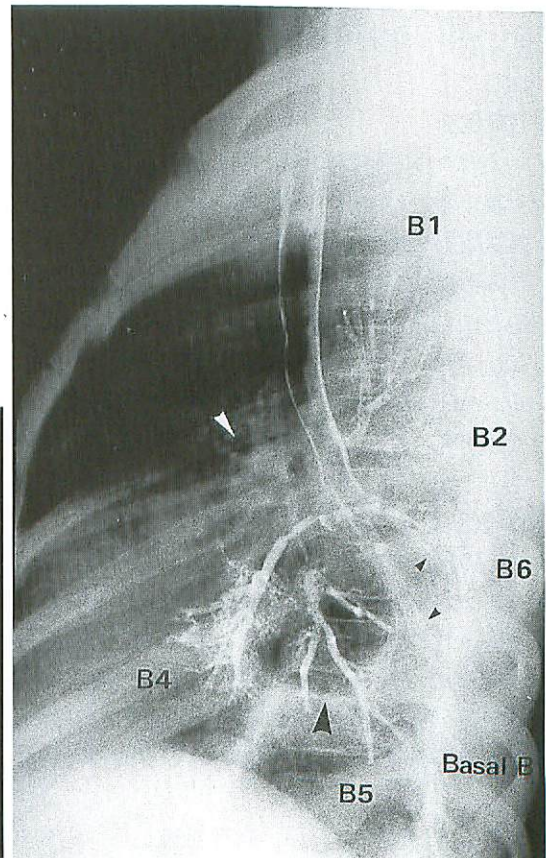


図2.
症例 2



a : 気管支ファイバースコープ

右上幹からB1とB2を認めるが、B3のorificeを認めない。

b : 気管支造影(側面像) : 右B3は造影されず、S3の肺門近傍に結節陰影を認める(◇)。中葉枝は下方に圧排され、中下葉間に囊胞を認める(▶)。下葉枝は造影不良で換気の低下が示唆される。また軽度の拡張性変化を認める(▶)。

a | b

排され、肺底枝との間に嚢胞を認めた。肺底枝の末梢は造影不良で換気の低下が示唆された。また、肺底枝に拡張性変化を認めた(図2. b)。肺動脈造影では気腫状区域はA3支配で、気管支造影と合わせ右B3気管支閉鎖と確定した。肺換気シンチ(^{81m}Kr)でR:L = 100:146, 肺血流シンチ($^{99m}\text{Tc-MAA}$)でR:L = 100:144. 共にS3の欠損像を認める。

以上より中下葉間の気管支原性嚢胞を伴った右B3気管支閉鎖と診断し、右S3区域切除、嚢胞切除術を行った。病理所見では右B3の閉鎖を確認した。その末梢側にはcysticに拡張し内腔に粘液を充満する気管支を認めその周囲はlipid pneumoniaが見られた。末梢の肺実質は気腫状であった。中下葉間の嚢胞は気管支壁からなり著しい慢性炎症細胞浸潤が見られ、一部に軟骨を認めた。嚢胞は気管支原性と考えられた。

症例 3

2歳4カ月時から肺炎を3回繰り返している4歳4カ月の女児。胸部単純レントゲン写真上異常陰影を指摘され来院した。

胸部単純レントゲン写真では、右上葉の過膨張と肺門近傍の小結節状陰影を認めた(図3. a)。胸部CTでも、右S3の気腫状変化とbronchomucoceleを認めた(図3. b)。気管支ファイバースコープでは右上幹からは一見4分岐に見えるが、B1, B2, B3に相当するorificeを認め(図3. c)、更にB3は2分岐していた。

気管支造影側面像ではB1, 2は後方へ、B3の一部は外側下方へ、中下葉枝は下方にそれぞれ圧排されていた(図3. d)。気管支造影正面像ではB3の一部が造影されず、右B3の亜区域枝の閉鎖が疑われた。肺動脈造影で右A3bに伴走する気管支を認めず、右B3b気管支閉鎖と診断した。

右上葉切除術を行い、病理組織から、右B3b気管支閉鎖が確認された。閉鎖気管支の末梢では内腔に粘液が貯留した気管支のcysticな拡張とその周囲のlipid pneumoniaの所見を認め、肺内出血も見られた。末梢の肺実質は瀰漫

性に肺胞構造の拡張を認めた。

症例 4

2歳1カ月時から3回肺炎を繰り返し、胸部単純レントゲン写真上異常陰影を指摘され来院した。

胸部単純レントゲン写真では左上葉が過膨張であった。胸部CTでは左肺尖部に気腫状の変化を認めたが結節状陰影を認めなかった。気管支ファイバースコープでは左上幹からの分岐は正常に見えた(図4. a)。但し、左B1+2と思われた亜区域枝は2分岐であった。気管支造影では左B1+2は造影されなかった。B3及び舌区枝は正常であった(図4. b)。肺動脈造影では気腫状区域はA1+2支配で、A1+2に伴走する気管支を認めず、左B1+2閉鎖症と確定した。

左上葉切除術を行った。病理所見ではB1+2は索状物で内腔を認めず、S1+2のみならず、S3, S4の瀰漫性の気腫状変化、末梢気管支の拡張を認めた。

症例 5

8歳1カ月男児。3歳時に風邪症状があり撮影した胸部単純レントゲン写真で偶然左上肺野の嚢胞状陰影を指摘されたが、保存的に経過を見ていた。今回、嚢胞感染を起こし、精査目的で当科に紹介された。

胸部単純レントゲン写真では左上葉に鶏卵大の嚢胞状陰影を認めた。胸部CTでは左上葉の嚢胞を認め、その周囲はやや透過性が亢進していたが、気腫状の変化や周囲の圧排像などは明らかではなかった。気管支ファイバースコープでは左上幹は前方から圧排され、後下方への偏位が著しかった。左B1+2, B3は正常と判断した(図5. a)。気管支造影検査では左B3が造影されなかった(図5. b)。B4はやや下方に圧排されていた。左B3からの気管支原性嚢胞、または左B3の気管支閉鎖症と診断した。

左上葉切除を行い、病理所見からは左B3気管支閉鎖と診断され、嚢胞は内腔に粘液が充満し拡張したB3bであった。肺実質は細気管支周囲への細胞浸潤、肺胞内へのマクロファージの浸出、肺胞壁の軽度肥厚を認めた。

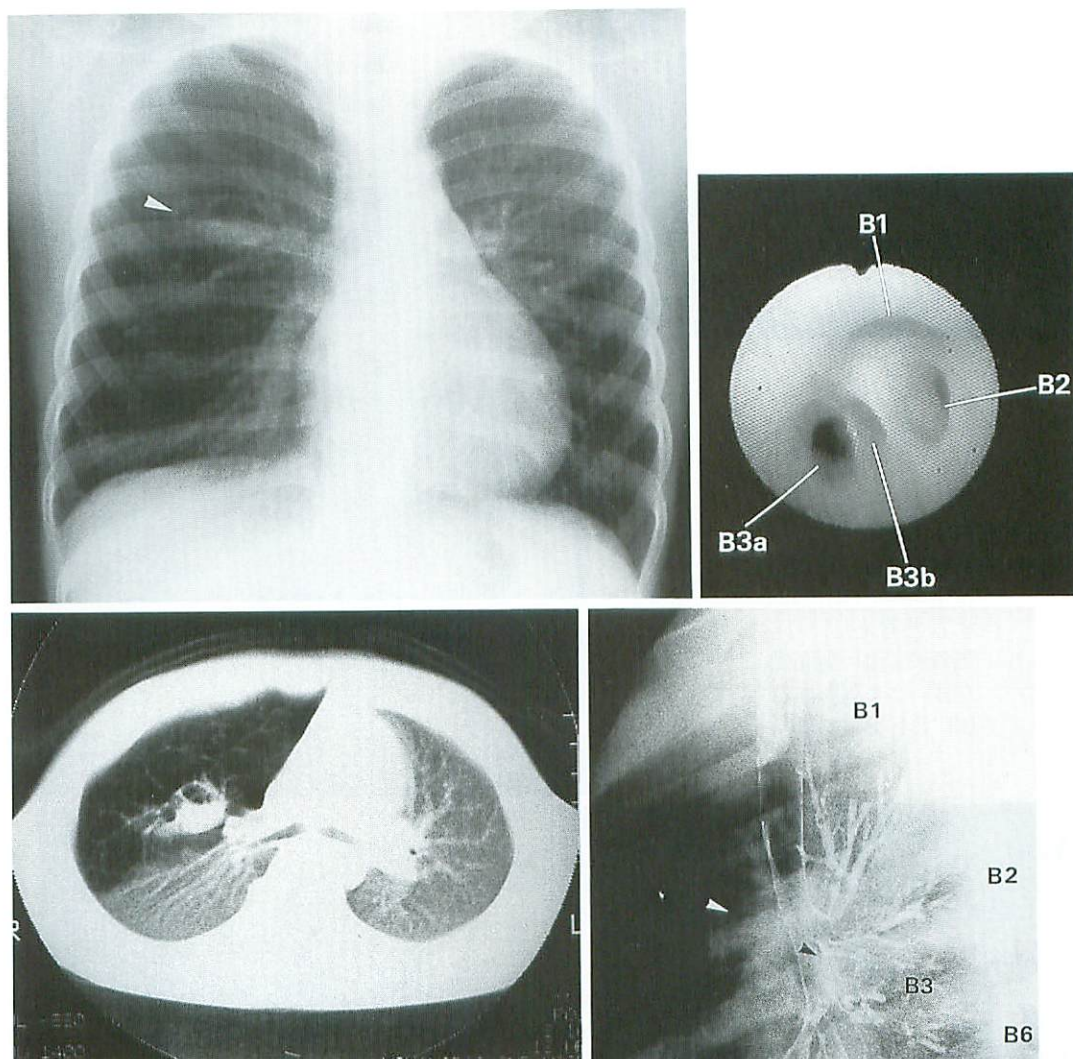
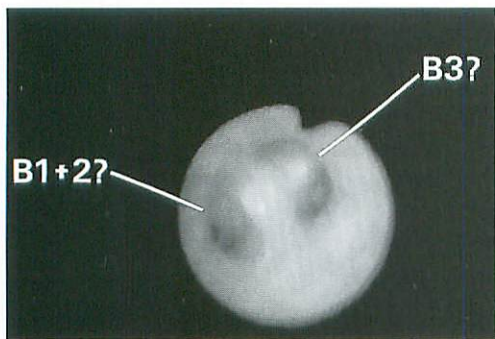


図3. 症例3

- a : 胸部単純レントゲン写真：右上葉の過膨張と肺門近傍の小結節陰影 (▷) を認める。
- b : 胸部CT：右S3の気腫とbronchomucocoeleを認める。
- c : 気管支ファイバースコープ：右上幹からはB1, B2, B3のorificeを認める。
- d : 気管支造影(側面像)：右B3は外側下方に圧排されている (▶)。B3の末梢は造影されない。S3の肺門近傍に結節状陰影を認める (▷)。中葉枝も下方に圧排されている。

a	c
b	d



a | b

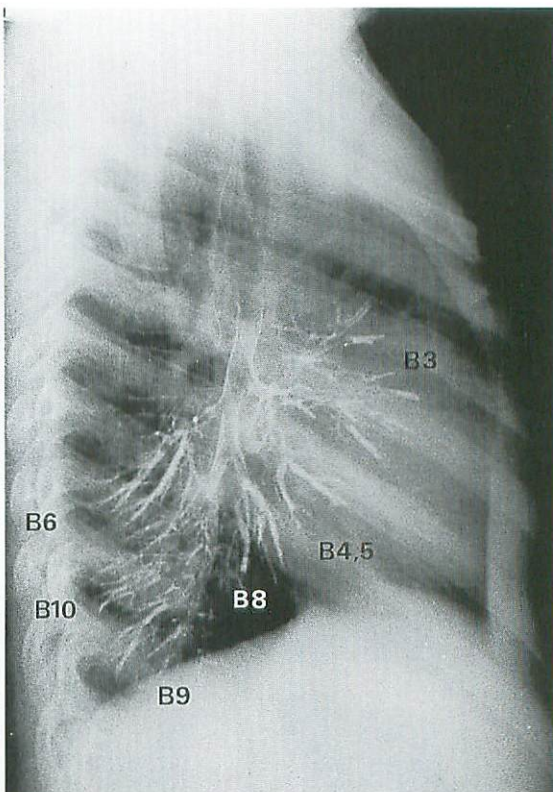
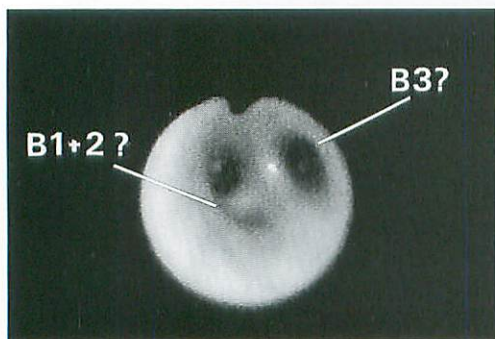


図4. 症例4

- a : 気管支ファイバースコープ
左上幹のorificeはB1+2, B3に相当すると考えた.
b : 気管支造影(側面像)
左B1+2は造影されない.
B3, B4, B5は正常.



a | b

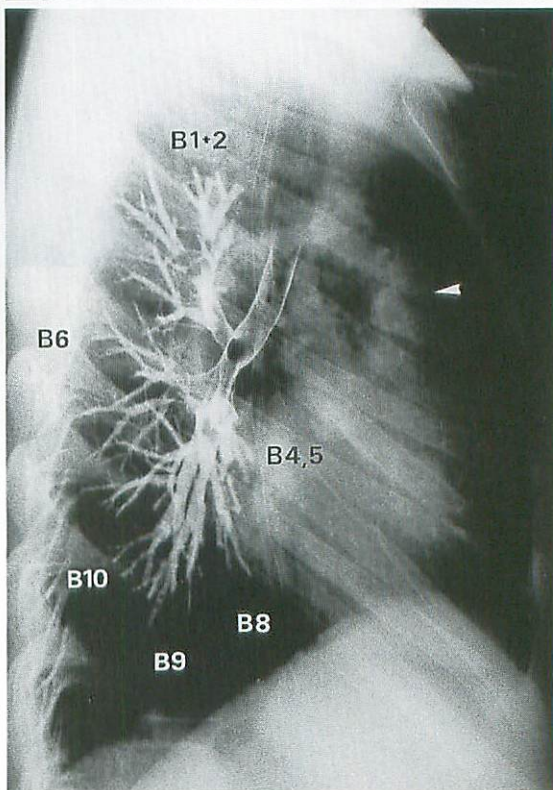


図5. 症例5

- a : 気管支ファイバースコープ
左B1+2, B3のorificeを認める.
b : 気管支造影(側面像)
左B3は造影されず, S3には巨大な嚢胞を認める(▷). B4, 5は下方に圧排されている.

結 果

病理所見と気管支ファイバー所見, 気管支造影所見を表1に示す。気管支ファイバースコピーでは, 5例中2例(症例1, 2)で区域枝のorificeの欠損を認め, 気管支閉鎖と診断したが, 他の3例(症例3, 4, 5)は正常と判断した。retrospectiveに考えると, この3例のうち症例3は亜区域枝の閉鎖であったので区域枝までは正常でファイバースコピーによる診断は無理であった。しかし, 2例(症例4, 5)は左上葉の区域枝の閉鎖であった。閉鎖以外の所見としては, 慢性炎症を示唆する気管支粘膜の発赤や凹凸不整, 中等量から多量の気管支分泌物を認めた。

気管支造影では全例で当該気管支の造影欠如を, 4例(症例1, 2, 3, 5)で隣接気管支の圧排所見を認めた。しかし, 症例5はbronchomucoceleが非常に大きく, また周囲の気腫状変化も著明でなかったため気管支原性嚢胞との鑑別が困難であった。

また, 胸部単純レントゲン写真及び, 胸部CTで気管支閉鎖症に典型的な肺葉または区域の気腫状変化とその肺門近傍の結節状陰影を認めたのは, 5例中2例(症例2, 3)であった。他の

2例(症例1, 4)は気腫状変化のみ, 残りの1例(症例5)は巨大嚢胞と周囲の僅かな透過性の亢進であった。

肺動脈造影を行った3例(症例2, 3, 4)では, 病変部位のvascularityは低下しているが動脈支配は正常であった。亜区域枝閉塞の症例3と, 気管支の偏位が強い症例4では, 閉鎖部位の確定に肺動脈造影と気管支造影との対比が必要であった。

考 案

先天性気管支閉鎖症は, 胎生5~16週の気管支分化過程で生ずる気管支の病変で, 形成された気管支樹の中樞側が血行の途絶により閉鎖すると考えられている^{1~6)}。

本症は1953年Ramsayらが提唱し比較的稀な疾患と考えられていたが, 近年, その概念が定着したためか本邦のものも含めると現在までに100余りの報告があり, 当科でも過去10年間で16例を経験している。

1978年以降の報告で気管支ファイバースコピー及び気管支造影所見の記載のある39例(気管支ファイバースコピーと気管支造影の両方行っていたのは18例)の所見を表2に示

表1. 結 果

症例	年 齢	性別	病理所見 閉鎖部位	気管支ファイバー所見		気管支造影所見	
				orifice欠損	その他	造影欠損	隣接気管支の圧排
1	3歳11ヵ月	男	右B1	右B1	気管支粘膜発赤, 凹凸不整, 分泌物中等量	右B1	あり
2	4歳3ヵ月	女	右B3	右B3	気管支粘膜軽度発赤, 分泌物多量, 右中葉分岐部扁平	右B3	あり
3	4歳4ヵ月	女	右B3b	なし	気管支粘膜発赤, 右中下葉分泌物多量, 右中間幹前後に扁平	右B3b?	あり
4	4歳1ヵ月	男	左B1+2	不明	両下葉で分泌物多量	左B1+2	なし
5	8歳1ヵ月	男	左B3	不明	気管支粘膜軽度発赤	左B3?	あり

す¹⁻²³⁾。気管支造影で病変気管支が造影されなかったのは27例(79%)で、隣接気管支の圧排像を認めたのは7例(21%)であった。異常所見を認めなかったのは、区域枝以下の閉鎖⁷⁻⁸⁾や、過剰気管支の閉鎖の症例^{13,14)}であった。今回の症例では5例中全例で閉鎖気管支は造影されず、5例中4例で隣接気管支の圧排像を認めた。気管支ファイバースコープの所見ではorificeの欠損が7例(32%)、気管支壁のdimpleが1例(4%)であった。残りの64%は気管支ファイバースコープでは診断できていない。今回の症例でも閉鎖気管支の部位やレベル、気管支の偏位の強さによっては気管支ファイバースコープでの診断は困難であることがわかった。すなわち、正常でも左上葉はvariationがあり特に症例4,5では気管支の偏位が強かったため、気管支ファイバースコープではorientationが難しかった。また亜区域枝の閉鎖であった症例3は気管支ファイバースコープでは診断できず、小児の気管支ファイバースコープでは区域枝より末梢気管支の観察には限界があると考えられる。以上より気管支造影検査の方が信頼性の高い検査法と考えられる。しかし気管支の偏位が強く診断が困難な症例はもとより、気管支閉鎖

症に部分肺静脈環流異常症を合併する症例の報告もあることから、可能な限り肺血管造影も行い気管支造影と比較するべきである。

気管支閉鎖症のレントゲン上の特徴は肺門近傍の結節状、または分岐した腫瘤状陰影とその末梢肺野の透過性の亢進である。最近の報告の中にはCTやMRIだけで診断可能であるとする文献もみられる。¹²⁻¹⁶⁾しかし、過去の報告を分析すると、気管支閉鎖症のnatural courseは新生児期には病変部の含気を認めず無気肺を呈しているが^{2,3)}、その後側副路からの換気で過膨張になり気腫状の変化を認め、加齢と共にbronchomucoceleが顕著になると考えられる¹⁷⁾。従って小児期には必ずしも典型的と言われるレントゲン像を示さない。今回の症例でも5例中2例しか典型的レントゲン像を呈さなかった。この2例も気管支原性嚢胞の合併や亜区域枝の閉鎖であることから胸部CTだけによる診断は不可能であった。

肺換気、血流シンチグラフィーは病変部の欠損像と病変部以外の機能を推定できるが、非特異的な質であり気管支閉鎖症の診断にはあまり有用ではない。

今回の検討から、小児では胸部CTや気管支

表2. 過去に報告された39例の気管支ファイバー及び気管支造影の所見

	気管支ファイバーと気管支造影 両方行った症例 n = 18	全症例 n = 39
気管支ファイバー所見		
dimple	0	1 (4%)
orifice欠損	6 (33%)	7 (32%)
異常なし	12 (67%)	14 (64%)
気管支造影所見		
当該気管支欠損	13 (72%)	27 (79%)
隣接気管支圧排	3 (16%)	7 (21%)
欠損+圧排	2 (11%)	4 (11%)
異常なし	4 (22%)	4 (11%)

ファイバースコープで気管支閉鎖症が診断できる症例は限られており、診断を気管支造影に頼らざるを得ない症例があることがわかった。

気管支ファイバースコープは気管支粘膜の状態、分泌物の量と性状なども観察でき、炎症の程度や出血の有無などを直接見るができるが、気管支分岐の立体的構築の異常、気管支拡張症など気管支内径の変化を全体的に知るためには、気管支造影が必要である。

結 語

気管支閉鎖症の診断における気管支ファイバースコープと気管支造影の有用性を比較検討した。現時点では気管支閉鎖症の診断は胸部CTや気管支ファイバースコープだけでは不十分で気管支造影が必要であると考えられた。

●文献

- 1) Ronald LM, Robert JJ, Frederick CK, et al : Bronchial atresia. *Am Thorac Surg* 25(3) : 184-192, 1978.
- 2) Schuster SR, Harris GBC, Reid L, et al : Bronchial atresia : a recognizable entity in the pediatric age group. *J Pediatr Surg* 13(6D) : 682-689, 1978.
- 3) Kuhn C, Kuhn JP : Coexistence of bronchial atresia and bronchogenic cyst : diagnostic criteria and embryologic considerations. *Pediatr Radiol* 22 : 568-570, 1992.
- 4) William HM, James RW Jr, James PC : Main-stem bronchial atresia : intrauterine sonographic diagnosis. *AJR* 148 : 364-366, 1987.
- 5) 獅子原孝輔, 戸島洋一, 大和田英美, 他 : 肺静脈環流異常を伴い胸痛を主訴とした先天性気管支閉鎖症の1例. *日胸疾会誌* 27(1) : 81-86, 1989.
- 6) Jardin MR, Remy J, Gosselin B : Bronchial atresia: diagnostic criteria and embryologic considerations. *Diagn Interv Radiol* 1 : 45-51, 1989.
- 7) Mori M, Kidogawa H, Shigematsu S, et al : Bronchial atresia : report of a case and review of the literature. *Jpn J Sug* 23 : 449-454, 1993.
- 8) 巽浩一郎, 山本 弘, 鈴木 光 : Bronchial atresiaの1手術例. *日胸疾会誌* 22(1) : 46-51, 1984.
- 9) 小川晴彦, 藤村正樹, 近藤邦夫, 他 : 部分肺静脈環流異常を伴い閉塞性肺炎を反復した先天性気管支閉鎖症の一切除例. *日胸疾会誌* 29(7) : 873-877, 1991.
- 10) 野村保史, 安田幸彦, 西村 寛, 他 : 過剰気管支に発生した先天性気管支閉鎖症の1例. *臨放* 35 : 875-878, 1990.
- 11) 正岡 昭, 水野武郎, 辻 秀樹, 他 : 過剰気管支に発生した気管支閉鎖症. *胸部外科* 38(2) : 139-142, 1985.
- 12) Alan MC, Eric HS, Ralph JA : Computed tomography in bronchial atresia. *AJR* 135 : 1097-1099, 1980.
- 13) Saul F, Eric NCM : A case report of segmental bronchial atresia : radiologic evaluation including computed tomography and magnetic resonance imaging. *J Thorac Imag* 3(1) : 53-57, 1988.
- 14) 水谷良行, 蜂屋順一, 石川博敏, 他 : Bronchial atresiaの2例 - CT, MRIを中心として - . *断層映像研究会雑誌* 16(3) : 222-224, 1989.
- 15) Kinsella D, Sissons G, Williams MP : The radiological imaging of bronchial atresia. *Br J Radiol* 65 : 681-685, 1992.
- 16) Rossoff LJ, Steinberg H : Bronchial atresia and mucocele : a report of two cases. *Resp Med* 88 : 789-791, 1994.
- 17) Alex JH, Tepas III JJ, James LR, et al : The natural history of bronchial atresia - serial observations of a case from birth to operative correction. *J Thorac Cardiovasc Surg* 79 : 868-872, 1980.
- 18) 朝田政克, 矢野 諭, 川上義和, 他 : 先天性気管支閉鎖症の1切除例 - 本邦43例の文献的考察 - . *日胸外会誌* 39(4) : 91-96, 1991.
- 19) Adrian JW, Samuel RS : Bronchial atresia with a bronchogenic cyst - evidence of early appearance of atretic segments. *Chest* 87(3) : 396-398, 1985.
- 20) 秋元 学, 上村良一, 渡辺洋宇, 他 : Bronchial atresia に esophageal duplication cystを合併した1例. *気管支学* 11(5) : 475-480, 1989.