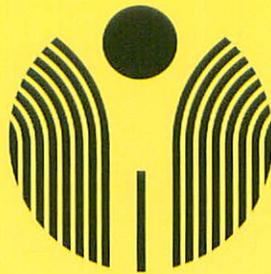


# JSPR

Vol.17 No.2 2001

Journal of  
Japanese Society of Pediatric Radiology

## 日本小児放射線学会雑誌



特集／小児外科，小児泌尿器疾患における経皮的治療法

原著論文

日小放誌  
J.J.S.P.R.

日本小児放射線学会



Journal of Japanese Society of  
Pediatric Radiology



Edited by

Eiichi Kohda, M.D. Noriko Aida, M.D.  
Teruyoshi Amagai, M.D. Kazuteru Kawasaki, M.D.  
Hiroyuki Kobayashi, M.D. Masato Takase, M.D.

## CONTENTS

### **Special Articles** *Percutaneous Techniques in Pediatric Surgery and Pediatric Urology*

- Introduction ..... Hiroyuki Kobayashi .....3
1. Percutaneous Treatment for Bile Lake in Biliary Atresia after Portoenterostomy  
..... Ryohei Kuwatsuru, et al. ....4
2. Percutaneous Transhepatic Cholangiography and Drainage for Choledochal Cysts in Children  
..... Hisami Ando .....10
3. Intralesional Injection of OK-432 in Percutaneous Treatment for Lymphangiomas  
..... Shuhei Ogita .....16
4. Percutaneous Intervention in Pediatric Urology ..... Hideshi Miyakita .....23

### **State of the Arts**

- Evaluation of MR Image for Foreign Body Aspiration in Childhood  
..... Takehito Oshio, et al. ....28
- Usefulness of <sup>99m</sup>Tc-ECD Brain SPECT in Acute Onset Pediatric CNS Diseases :  
in Comparison with CT and MRI ..... Teisuke Hashimoto, et al. ....36



## 目 次

### 特集 小児外科，小児泌尿器疾患における経皮的治療法

- 特集を企画するにあたって .....小林弘幸 .....3
1. 胆道閉鎖症におけるBile Lakeの経皮的治療法  
.....桑鶴良平，他 .....4
  2. 小児先天性胆道拡張症における経皮的診断と治療  
.....安藤久實 .....10
  3. リンパ管腫における経皮的治療法  
.....荻田修平 .....16
  4. 小児泌尿器疾患における経皮的診断，治療法  
.....宮北英司 .....23

### 原著論文

- 小児気道異物におけるMRI検査の有用性について  
.....大塩猛人，他 .....28
- Usefulness of  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD Brain SPECT in Acute Onset Pediatric CNS Diseases :  
in Comparison with CT and MRI  
.....Teisuke Hashimoto, et al. ....36

---

日本小児放射線学会平成13年度総会議事録	44
日本小児放射線学会雑誌投稿規定	47
日本小児放射線学会役員一覧	49
編集後記	50

---

# 特集

## 小児外科, 小児泌尿器疾患における経皮的治療法 *Percutaneous Techniques in Pediatric Surgery and Pediatric Urology*

### 特集を企画するにあたって

小林弘幸

順天堂大学医学部 小児外科

Hiroyuki Kobayashi

Department of Pediatric Surgery, Juntendo University School of Medicine

近年、画像診断の発達と共に、小児外科、小児泌尿器科疾患のなかで、経皮的診断および治療法にたよる疾患が多くなってきている。これらの診断、治療には、小児外科医だけでなく放射線科医、小児科医の協力が不可欠である。

今回は、そのなかでも 1)胆道閉鎖症における bile lakeの経皮的治療法 2)胆道拡張症における経皮的診断、治療法 3)リンパ管腫における経皮的治療法 4)小児泌尿器疾患における経皮的診断、治療法が、最近目覚ましい発展をとげており、採り上げさせて頂いた。

胆道閉鎖症の術後長期の合併症として、bile lakeの存在は予後を決定する大切な要因であり、定期的検査(US, CT, MRI)によりいち早く発見する必要がある。この治療法に関しては、未だ定まったものがなく、今回は、積極的に独自の方法で、経皮的治療を施行されている、順天堂大学浦安病院放射線科助教授の桑鶴良平先生にお願いし、先生の方法を様々な症例から詳細に記述して頂いた。

先天性胆道拡張症における経皮的診断と治療に関しては、近年、MRCPの発達により、適応症例は減っているものの、経皮、経肝胆道造影(PTC)や経皮経肝胆道ドレナージ(PTCD)の意義その適応について、名古屋大学小児外科教授安藤久實先生の豊富な経験から施行されている独自の方法について詳細に述べられている。

リンパ管腫の治療法に関しては未だ議論が多く、本邦におけるOK432を使用した経皮的治療法は海外でも注目の的である。今回、この治療法のパイオニアである、京都府立医科大学小児外科講師 荻田修平先生に、豊富な経験をもとに先生の治療法について述べて頂いている。

小児泌尿器疾患における経皮的診断、治療法に関しては、画像診断技術の向上とともに経皮的治療の適応について議論が多く、東海大学泌尿器科助教授 宮北英司先生の経験より、その治療の是非について述べて頂いている。

本特集が多くの会員諸兄の日常診療においてお役に立てば幸いである。

## 特集 小児外科, 小児泌尿器疾患における経皮的治療法

### 1. 胆道閉鎖症におけるBile Lakeの経皮的治療法

桑鶴良平\*, 白石昭彦, 前原忠行, 小林弘幸<sup>1)</sup>, 宮野 武<sup>1)</sup>

順天堂大学医学部 放射線科, 同小児外科<sup>1)</sup>, \*現東京臨海病院開設準備室 放射線科

#### *Percutaneous Treatment for Bile Lake in Biliary Atresia after Portoenterostomy*

Ryohei Kuwatsuru\*, Akihiko Shiraishi, Tadayuki Maehara, Hiroyuki Kobayashi<sup>1)</sup>, Takeshi Miyano<sup>1)</sup>

Department of Radiology and Pediatric Surgery<sup>1)</sup>, Juntendo University School of Medicine

\* Department of Radiology, Tokyo Rinkai Hospital

#### Abstract

Treatment of bile lake (intrahepatic biliary cyst, cystic dilatation of biliary system) was described in this article. Bile lake occurs at a high frequency in a biliary atresia patient after correctable portoenterostomy due to the obstruction by sludge or debris in tortuous narrow bile ducts. Asymptomatic bile lake is not usually treated but observed. On the other hand, symptomatic bile lake is treated by systemic chemotherapy. Aspiration of bile lake is safely performed to investigate the presence of bacterial infection, and debris or sludge. Percutaneous transhepatic cholangiography (PTC) is performed to differentiate the type of bile lake. In three types of bile lake, antibiotics injection or ethanol injection is useful for localized cyst whether communicating or non-communicating, whereas percutaneous transhepatic cholangiodrainage (PTCD) is required for generalized cystic dilatation of intrahepatic biliary system. Technically, PTC, antibiotics injection, and ethanol injection are performed under ultrasound guidance easily. However, PTCD is difficult in many cases due to biliary cirrhosis in these patients, and both careful selection of instruments and skill of PTCD are required for successful PTCD.

**Keywords:** Biliary atresia, Bile lake, Percutaneous transhepatic cholangiodrainage, Percutaneous ethanol injection therapy

#### はじめに

胆汁性肝硬変は胆道閉鎖症に対する肝門部空腸吻合術後の主たる合併症である。その原因は長期にわたる胆汁のうっ滞であるが、本疾患の病態が解明されていないため胆汁うっ滞の詳細な機序は不明である。肝硬変を伴ってくると、門脈圧亢進症による食道静脈瘤の破裂、腹水な

どの症状が出現してくる。一方、肝硬変の有無や程度にかかわらず本疾患の肝門部空腸吻合術後の経過観察時にしばしば認めるのがbile lake (intrahepatic biliary cyst, cystic dilatation of biliary system) と呼ばれる超音波、CT、MRI、PTC等の画像診断で描出される肉眼的な限局性またはびまん性の肝内胆管拡張である<sup>1-5)</sup>。Bile lakeは肝門部空腸吻合術未施行例でも見られる

病態で、結合織による偽被膜と胆管上皮に覆われており、拡張した胆管の遺残と考えられている<sup>6,7)</sup>。その原因は逆行性の胆管炎が第一に考えられているが、うっ滞した胆汁を穿刺吸引して細菌培養しても原因菌が見つからないことも多く、屈曲蛇行し、口径異なる胆管が胆砂や胆泥などの何らかの原因で閉塞もしくは高度の狭窄を来し胆汁排泄不良になり、閉塞部位によりびまん性や嚢胞状の肝内胆管の拡張を来した症例も多いと、筆者らは推察している。

治療法については、一般的なコンセンサスがなく施設により異なるのが現状だが、長引く胆汁うっ滞や胆管炎は肝硬変の進行を早めるため、肝機能温存のため抗生物質投与に加えPercutaneous transhepatic cholangiodrainage (PTCD) やPercutaneous transhepatic ethanol injection therapy (PEIT)、外科的治療等の早急な処置が選択されている<sup>8,9)</sup>。本稿では、当施設(順天堂大学)で施行している方法について解説する。

### Bile lakeの診断と分類

胆道閉鎖症術後に出現するbile lakeの発生頻度は18~36%程度<sup>1,2,8,10)</sup>と高率であり、診断は超音波検査法が最も簡便で非侵襲的である。無症状でかつ血液生化学的所見に異常がない場合は経過観察とするが、心窩部や季肋部の痛みを伴ったり、黄疸や炎症所見などの血液生化学的所見の増悪を伴った場合は治療の対象となる。これらの症状や血液生化学的所見の異常は、総胆管結石陥頓等の急性胆道閉鎖に類似しており、有症状のbile lakeの原因として急性の胆汁

うっ滞が考えられる。一方で、炎症反応が強い症例もあり逆行性胆管炎もbile lakeの一因であるが、主たる原因は慢性の胆汁排泄不良に伴う胆管の局所性またはびまん性拡張に急性の機械的な胆汁うっ滞が伴ったものであると、筆者らは考えている。

肝機能異常に関しては元来異常値が持続している症例も多く、個々の患者の通常値より数値が増悪しているかどうかで判断する。治療に先立ち、経皮的にbile lakeを穿刺して内容液の性状を調べるとともに造影を行い、周囲胆管との交通性の確認が必要である<sup>4)</sup>。PTCによるbile lakeの分類をFig.1に示す<sup>3)</sup>。Type AのNon-communicating cystはPTCDによる経過観察中にType Bに移行することがある。また、Type BのCommunicating cystがType Cのcystic dilatationに移行することもあり、これらの変化はドレナージにより胆砂、胆泥が除去され胆汁排泄障害が取り除かれたためと考えられる。Type Cのものはより年長児に多い傾向にあり、予後不良と報告されている<sup>3,11)</sup>。一方、当院でも3例のType Cの胆管拡張例を経験しているが、全例にPTCDを施行し減黄に成功するとともに胆管拡張の軽減も認めており、予後も良好でType C症例が一概に予後不良とは言えないようである。

### 治療法の選択

有症状例や血液生化学的所見の増悪症例に対する治療は、胆汁移行性が良好な抗生物質の全身投与が第一選択となる。まず抗生物質投与のみで2~3日経過を観察し難治性の場合に経皮

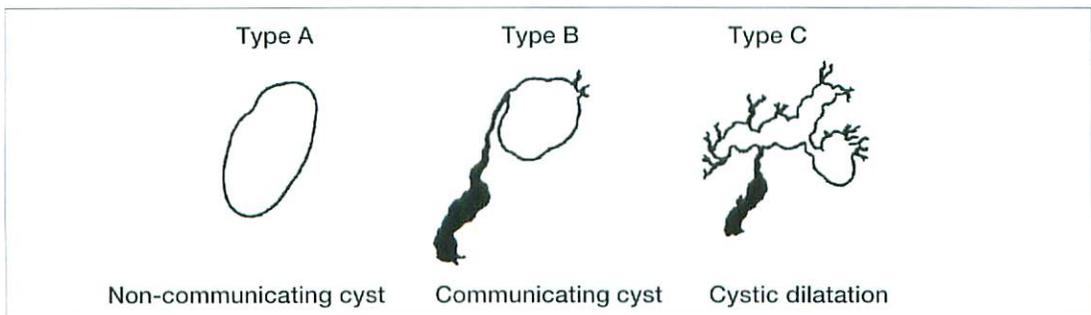


Fig.1

Type of bile lake (dilatation of the intrahepatic biliary system) after portoenterostomy in biliary atresia patient classified by Tsuchida<sup>3)</sup>.

的治療を行う施設と、すぐにbile lakeの穿刺を施行する施設に分けられるが、前述したように原因が逆行性胆管炎ではなく機械的な胆管の閉塞の場合も多く、またbile lakeの穿刺自体は比較的安全に施行されるため、当施設では積極的に経皮的にbile lakeを穿刺して内容液の性状を調べ、胆管炎合併の有無をチェックしている。その後胆管との交通性を見るためにPTCを行う。PTC後に、2 cm以下の小さなNon-communicating cystの場合は造影剤回収後抗生物質のbile lake内注入を行っていたが、現在はエタノール注入療法 (Percutaneous Ethanol Injection Therapy; PEIT) により積極的にbile lakeのablation therapyを施行している。まだ症例数は少ないが、肝機能や炎症反応の改善とbile lakeの縮小、消失が期待できる。2 cm以上の大きなNon-communicating cystにはPTC後にPTCDもしくはbile lake内抗生物質投与やPEITが適応にな

る。病状の進行例では、進行した肝硬変のため細径の針やガイドワイヤーは挿入可能でも、固い硬変肝組織の中にカテーテルを挿入、留置できないこともあり<sup>12)</sup>、PTCDの適応には慎重でなければならない。

一般的にCommunicating cystに対してもNon-communicating cystと同様に対処している。それは、bile lakeと周囲胆管との交通はかなり細いので注入したエタノールがbile lake外へ大量に流出することがないため、bile lakeに対する効果は良好で、かつ他の胆管への影響が少ないと考えられるからである。

Cystic dilatationに対しては、胆管拡張が全肝に及ぶためPTCDを第一選択としている。PTCDがうまくいかない症例に対しては手術も考慮されるが、侵襲的でもあり手術回数の増加はきたるべき肝移植が困難になるため極力避けるようにしている。

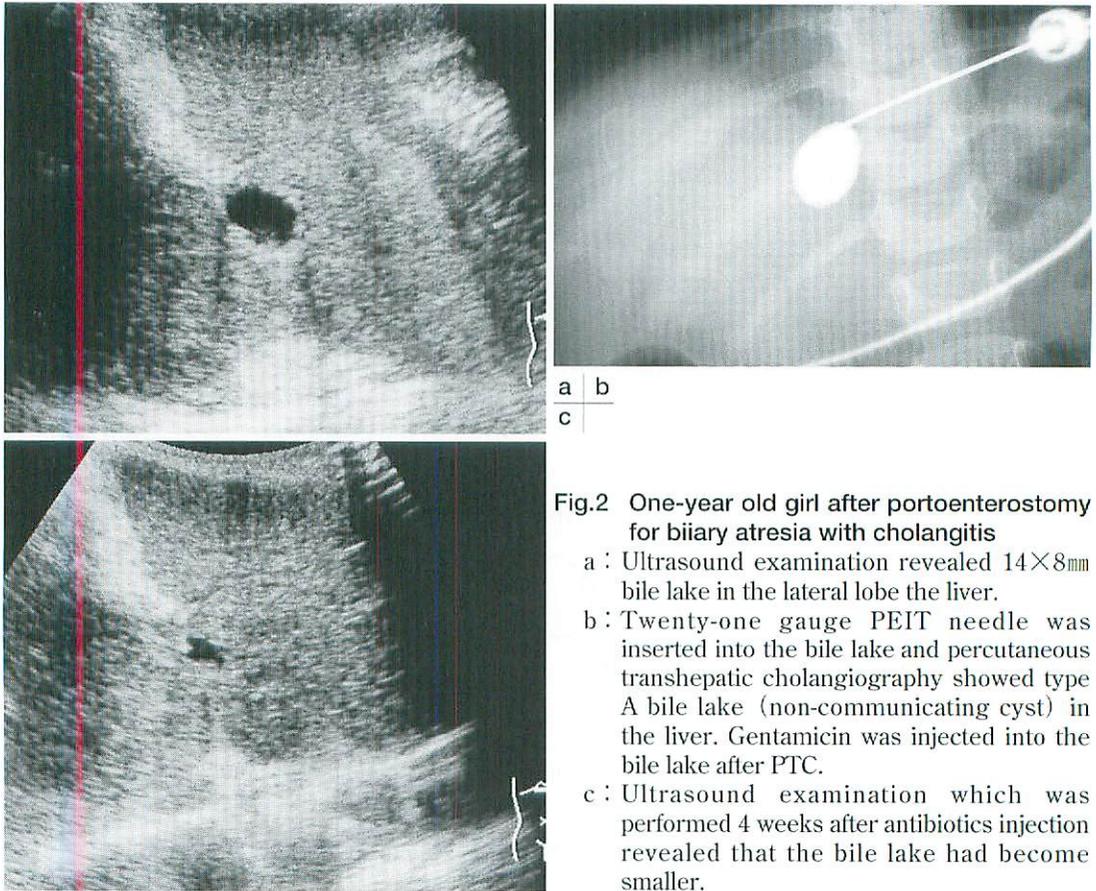


Fig.2 One-year old girl after portoenterostomy for biliary atresia with cholangitis

- a : Ultrasound examination revealed 14×8mm bile lake in the lateral lobe the liver.
- b : Twenty-one gauge PEIT needle was inserted into the bile lake and percutaneous transhepatic cholangiography showed type A bile lake (non-communicating cyst) in the liver. Gentamicin was injected into the bile lake after PTC.
- c : Ultrasound examination which was performed 4 weeks after antibiotics injection revealed that the bile lake had become smaller.

## 種々の治療法の実例

### 1) Bile lakeの穿刺吸引, 抗生物質投与 (Fig.2)

前述したようにbile lakeに対しては抗生物質の全身投与と共に積極的に超音波ガイド下にbile lakeの穿刺吸引を施行する。内容液を可能な限り吸引し細菌培養に提出する。その後は生理食塩水と1:1に希釈した造影剤をbile lake内に注入し、PTCによりbile lakeの形態、タイプを確認する。造影後再度造影剤を吸引し抗生物質を注入して手技を終了する。

### 2) PEIT (Fig.3)

PEITは肝嚢胞や腎嚢胞などの嚢胞性疾患や肝細胞癌の治療に頻用されている一般的な手技である。当施設では、21ゲージPEITニードルを用いて超音波ガイド下にbile lakeを穿刺し内容液を吸引後にPTCを施行している。その後、造影剤を吸引し吸引量とほぼ同量のエタノールを注入し10分後に回収している。これらの手技についてはまだ開発段階で、エタノールの注入量や回収の有無など考慮すべき点がある。

### 3) PTC (Fig.4, 5)

前述したように、胆道閉鎖症患者の肝臓は正常肝と比較して非常に硬く穿刺針を刺入しガイ

ドワイヤーをbile lake内や拡張した胆管内に留置できても、ダイレーターが肝内をうまく進まずカテーテルが留置できない症例に遭遇する。従って、胆道閉鎖症術後のbile lakeのドレナージ症例に対しては、1ステップドレナージセット (DUAN-5.0-20-15-PIG) (Fig.5a)もしくは胆管アクセスセット (PTCD-K-1-HIRATA-102593) といった器具を用い、カニューラやスタイレットカテーテルと共にカテーテルをbile lake内に刺入する。まず超音波ガイド下に19ゲージのロングエラストナー針でbile lakeや拡張した胆管を穿刺後に、0.018インチのマンドリルガイドワイヤー (Fig.5b)もしくは0.035インチのガイドワイヤーを挿入する。0.018インチのマンドリルガイドワイヤーを留置した場合は、その後に1ステップドレナージセットのスタイレットを抜いて5フレンチのドレナージカテーテル内に20ゲージのカニューラを通した状態 (Fig.5c)でガイドワイヤーに沿わせて挿入するか、胆管アクセスセットを22ゲージ金属カニューラを挿入したまま肝内およびbile lake内に挿入する。モニターを見ながら、ドレナージセットがbile lakeや胆管壁を貫いた時点でカテーテルのみ内腔に進める。前者の場合はカテーテルが内腔でpig

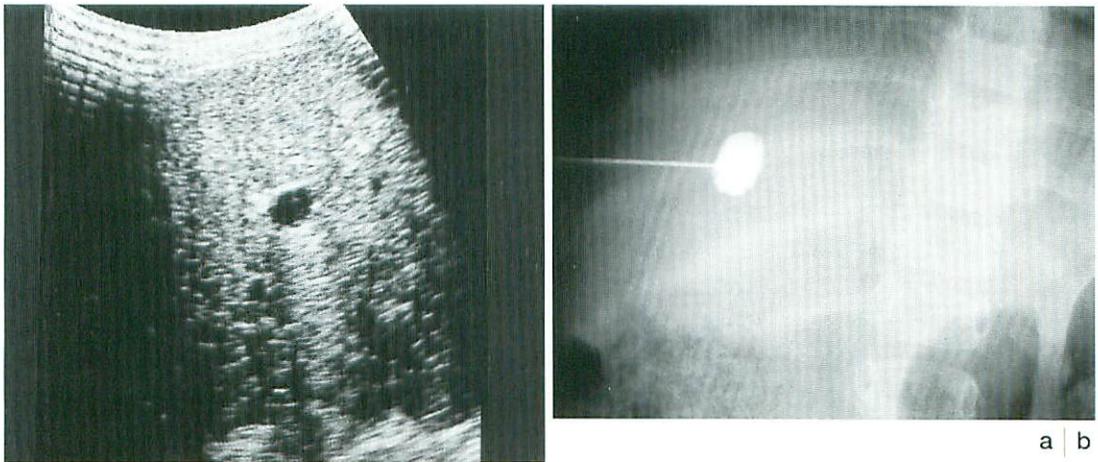


Fig.3 Two-year-old girl with biliary atresia after portoenterostomy with cholangitis

- a : Ultrasound examination showed 10×8mm bile lake in S6 of the liver. After the aspiration of internal fluid, PTC was performed.
- b : PTC showed several radiopaque materials representing debris in type A cyst. Ethanol was injected into the cyst after aspiration of the contrast material.
- The bile lake had become smaller at the ultrasound examination which was performed 4 weeks later. (not shown)

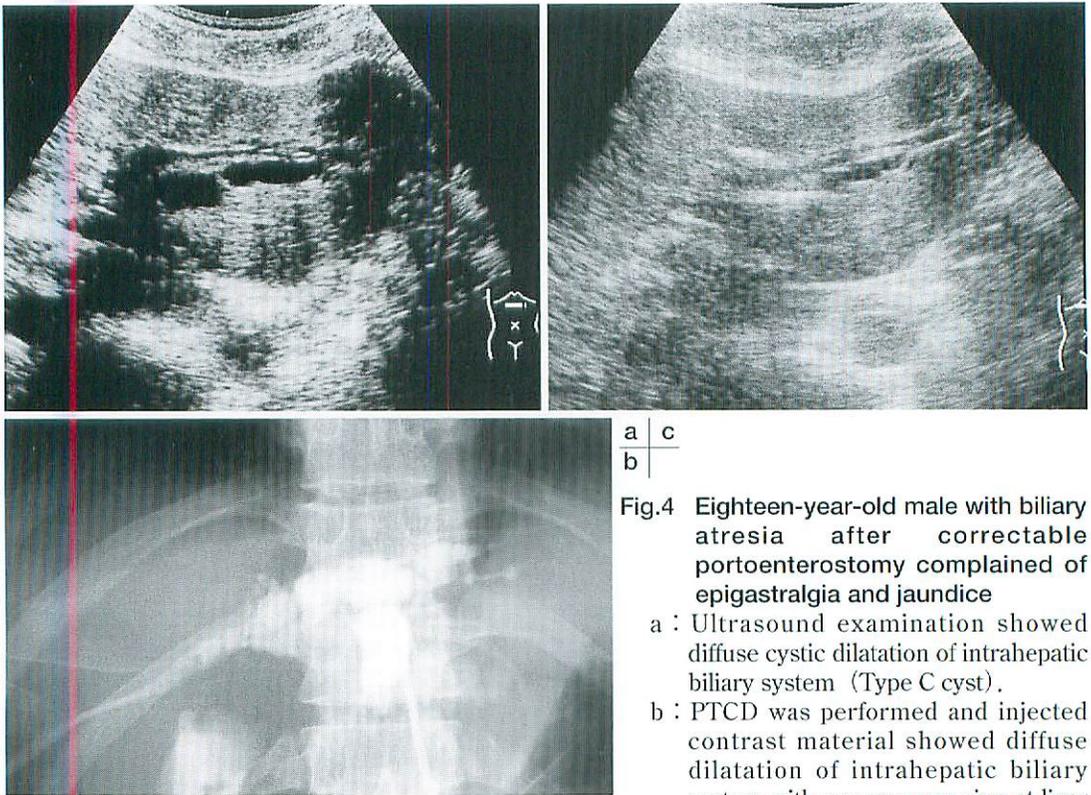


Fig.4 Eighteen-year-old male with biliary atresia after correctable portoenterostomy complained of epigastralgia and jaundice

- a : Ultrasound examination showed diffuse cystic dilatation of intrahepatic biliary system (Type C cyst).
- b : PTCD was performed and injected contrast material showed diffuse dilatation of intrahepatic biliary system with severe narrowing at liver hilum.
- c : Follow-up ultrasound examination which was performed 4 weeks later showed improvement of dilatation of intrahepatic biliary system.

tailの形になったら、20ゲージのカニューラとマンドリルガイドワイヤーを抜去して手技は終了となる。後者の場合はストレートのカテーテルなのでできればpig tailカテーテルに交換したいが、カテーテルの交換は困難なことが多い。0.035インチのガイドワイヤーをbile lake内に留置した場合は、ダイレーターでカテーテルの刺入経路を拡張してからカテーテルを挿入するが、ダイレーターの挿入も困難なことが多いのでロングテーパーのダイレーター等を用いる。

これらの手技は、通常のPTCDがガイドワイヤーを留置した時点で手技の最も困難な部分を終えたと思われるのに対し、むしろガイドワイヤーを挿入してからいかにカテーテルを留置するのが困難な点で異なっている。それは、肝硬変のためダイレーターやカテーテルの肝内およびbile lake内への挿入が難しいからである。そのため手技中に強い痛みを訴えることが多く、疼痛除去対策を十分に行う必要がある。

## おわりに

胆道閉鎖症の肝門部空腸吻合術後のbile lakeに対する経皮的治療の実際について述べた。抗生物質投与、bile lakeの穿刺吸引および抗生物質やエタノール注入、PTCD、手術療法と侵襲性が強くなっていくが、bile lakeの穿刺吸引に関しては超音波ガイド下穿刺の技術の習熟と適切な器具の使用によりほぼ安全に施行できる手技である。

一方、PTCDは、更に高度なガイドワイヤーやカテーテル操作技術が要求されるとともに特殊な器具も必要になり、侵襲が大きくなることを強調したい。当施設では、bile lakeに対する治療が進歩してきたため、近年bile lakeが原因で再手術を余儀なくされた症例が無いのが幸い

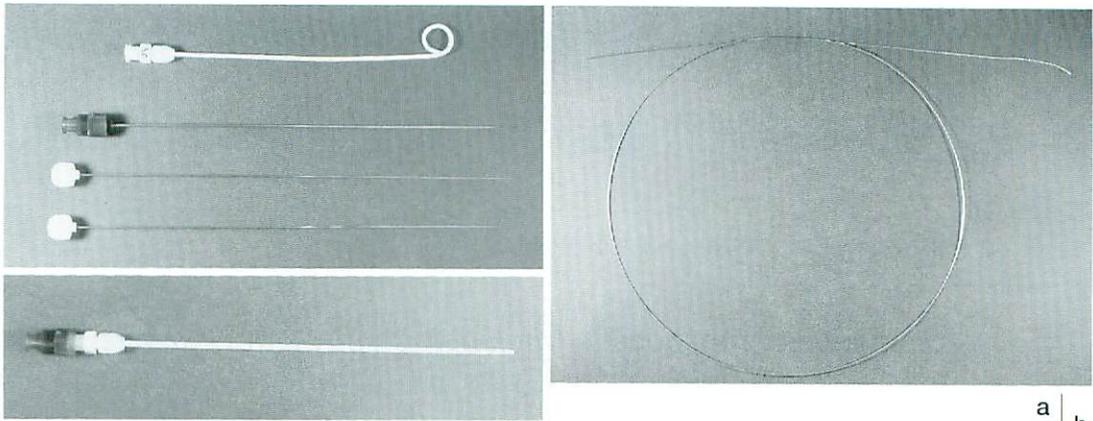


Fig.5 One step drainage set

a : Top row : 5 French pig tail catheter, Second row : 20 gauge cannula, Third row : stylet, Fourth row : obturator.

Usually, this drainage set is used to insert 5 French pig tail catheter directly into the lesion without guide wire. In that case, 20 gauge cannula and obturator are inserted into 5 French catheter to straighten the catheter. Then, at the time of puncture, stylet is inserted instead of obturator because the tip of the stylet is sharp and that of obturator is flat, and so insertion of the drainage set into the bile lake is easier with the stylet.

b : Soft tip 0.018 inch guide wire is demonstrated.

c : Twenty gauge cannula is inserted into 5 French pig tail catheter. This set is able to insert into the liver and bile lake along the 0.018 inch guide wire.

であるが、肝機能に対する影響をさらに低下させ肝移植の時期を遅らせるように、今後も研究が必要である。

### ●文献

- 1) Betz BW, Bisset III GS, Johnson ND, et al : MR imaging of biliary cysts in children with biliary atresia : clinical associations and pathologic correlation. *AJR* 1994 ; 162 : 167-171.
- 2) Takahashi A, Tsuchida Y, Suzuki N, et al : Incidence of intrahepatic biliary cysts in biliary atresia after hepatic portoenterostomy and associated histopathologic findings in the liver and porta hepatis at diagnosis. *J Pediatr Surg* 1999 ; 34 : 1364-1368.
- 3) Tsuchida Y, Honna T, Kawarasaki H : Cystic dilatation of intrahepatic biliary system in biliary atresia after hepatic portoenterostomy. *J Pediatr Surg* 1994 ; 29 : 630-634.
- 4) Werlin SL, Sty JR, Starshak RJ, et al : Intrahepatic biliary tract abnormalities in children with corrected extrahepatic biliary atresia. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 1985 ; 4 : 537-541.
- 5) Saito S, Nishida T, Tsuchida Y : Intrahepatic cysts in biliary atresia after successful hepatportoenterostomy. *Arch Dis Child* 1984 ; 59 : 274-275.
- 6) Fain JS, Lewin KJ : Intrahepatic biliary cysts in congenital biliary atresia. *Arch Pathol Lab Med* 1989 ; 113 : 1383-1386.
- 7) Fonkalsrud EW, Arima E : Bile lakes in congenital biliary atresia. *Surgery* 1975 ; 77 : 384-390.
- 8) Nakama T, Kitamura T, Matsui A, et al : Ultrasonographic findings and management of intrahepatic biliary tract abnormalities after portentoerostomy. *J Pediatr Surg* 1991 ; 26 : 32-36.
- 9) Ishii K, Matsuo S, Hirayama Y, et al : Intrahepatic biliary cysts after hepatic portoenterostomy in four children with biliary atresia. *Pediatr Radiol* 1989 ; 19 : 471-473.
- 10) Danks DM, Campbell PE : Extrahepatic biliary atresia : comments of the frequency of potentially operable cases. *J Pediatr* 1966 ; 69 : 21-29.
- 11) Kawarasaki H, Itoh M, Mizuta K, et al : Further observation on cystic dilatation of the intrahepatic biliary system in biliary atresia after hepatic portoenterostomy : report on 10 cases. *Tohoku J Exp Med* 1997 ; 181 : 175-183.
- 12) Kimura K, Hashimoto S, Nishijima E, et al : Percutaneous transhepatic cholangiodrainage after hepatic portoenterostomy for biliary atresia. *J Pediatr Surg* 1980 ; 15 : 811-816.

## 特集 小児外科, 小児泌尿器疾患における経皮的治療法

### 2. 小児先天性胆道拡張症における経皮的診断と治療

安藤久實

名古屋大学大学院医学研究科 病態外科学講座小児外科

#### *Percutaneous Transhepatic Cholangiography and Drainage for Choledochal Cysts in Children*

Hisami Ando

*Department of Pediatric Surgery, Nagoya University Graduate School of Medicine*

#### Abstract

Percutaneous transhepatic cholangiography (PTC) was performed in 26 of 145 patients with choledochal cyst, of whom 13 underwent percutaneous transhepatic cholangiodrainage (PTCD). The reasons for PTCD included persistent or increased jaundice, undiminished abdominal pain, cholangitis, and formation of intrahepatic stones. PTCD disclosed that protein plugs clogging up the common channel were the cause of abdominal pain in 5 patients. In 3 patients, irrigation with saline could wash away these plugs. The intrahepatic biliary stenosis was dilated with a balloon catheter through the PTCD route. The site of puncture was the left hepatic duct in most cases. PTCD tube was retained in 62 days on average. No complication was encountered during or after the PTCD procedure.

Some reports emphasized technical difficulty in performing PTCD for pediatric patients with choledochal cysts. However, as PTCD can be safely performed under ultrasonography combined with fluoroscopy, aggressive adoption for children is appropriate.

**Keywords :** Choledochal cyst, PTC (percutaneous transhepatic cholangiography), PTCD (percutaneous transhepatic cholangiodrainage)

#### はじめに

肝外胆管の拡張と膵胆管合流異常とを特徴とする先天性胆道拡張症（以下本症）における胆管拡張の診断には、超音波検査、CT、MRCPなどが有用であり、膵胆管合流異常の診断にはERCPやMRCPが有用である。このような非侵襲的な診断技術が発達している時代において、経皮経肝胆道造影（PTC）や経皮経肝胆道ドレナージ（PTCD）の意義ならびにその適応と、われわれが行っている手技について見解を述べる。

#### PTC・PTCDの意義と適応

##### (1) PTC

本症に対するいくつかの画像診断法の中で、無侵襲であるという理由から近年はMRCPの価値が向上しており、特に成人においては従来主流であったERCPに取って代わりつつある。しかし、幼小児においては呼吸停止に対する協力が得られ難いため、成人ほどの鮮明な画像を得ることができない。超音波診断装置も分解能が向上したものの、膵胆管合流異常や肝内胆管狭窄

部の詳細な描出が得られるほどではない。これらの理由から、われわれは原則としてERCPによる診断を行っている。しかし、激しい腹痛や黄疸を伴った例ではERCPは症状を悪化させる危険性があり、また、嚢胞切除術後に生じた胆管炎症例などにおいてはERCPが施行できないため、このような症例ではPTCが有用である (Fig.1)。

## (2) PTCD

本症の臨床症状としては腹痛、嘔気・嘔吐、発熱、黄疸、灰白色便、腫瘤触知などであるが、腹痛や黄疸を伴った例では急性腹症として発症することが少なくない。われわれはこのような症状を来す原因の多くは、嚢胞下部や共通管に嵌頓したprotein plugにより胆道内圧や膵管内圧が上昇するためであると考えている<sup>1)</sup>。これらの症状は、絶食と輸液、抗生剤投与、膵酵素阻害剤などによる保存的治療により改善することが多い。しかし、黄疸や膵炎様症状が増悪したり、重篤な胆管炎、あるいは痛みが改善しない場合には胆道減圧を行う必要があり、このような例がPTCDの適応となる。また、PTCDは明瞭な胆管像が得られるために、腹痛や黄疸などの原因を明らかにすることもできる。さらに、

PTCD瘻孔を利用して肝内胆管狭窄に対する経皮的なバルーン拡張術を行うこともできる<sup>2,3)</sup>。

## 成績

本症自験145例中26例にPTCを行い、17例に対してはPTCDを施行したが、このうち13例が小児例であった (Table)。PTC/PTCDを施行した26例中20例では、同時期に施行した各種画像診断のうち肝内胆管狭窄の形態を最も明瞭に描出することができた (Fig.2)。PTCDを施行した理由としては、黄疸の持続や増悪によるもの5例、腹痛の持続や増強によるもの2例、胆管炎や胆嚢周囲炎、あるいはこれらによる敗血症によるもの4例、肝内結石が生じたためにこれを経皮的に除去したり肝内胆管に存在する狭窄部を拡張する目的で施行したものの4例であった (2例で重複原因あり)。穿刺に用いた胆管は左肝管が12例、右肝管が4例であり、このうち3例では左右の肝内胆管をドレナージした。なお、右肝内胆管のみに穿刺された1例は他施設でPTCDを施行された後当科に紹介されたものである。PTCD施行前の総ビリルビン値は $0.2\text{mg/d}\ell\sim 12.5\text{mg/d}\ell$ 、PTCD留置期間は $62.4\pm 16.9$ 日 (mean $\pm$ SE, 17日 $\sim$ 208日)であった。なお、PTCDの術中ならびにその



Fig.1  
Percutaneous transhepatic cholangiography (PTC) in patient 3 clearly demonstrated filling defects and stenoses at the porta hepatis.

後の経過中において、PTCDに起因した合併症は経験しなかった。肝内胆管狭窄を有した4例に対し、PTCD瘻孔を利用したバルーン拡張術を施行した。PTC/PTCDにより腹痛の原因が共通管に嵌頓したprotein plugであることが明らかになった例は5例であり、このうち3例ではPTCDチューブから生食水で胆道内を洗浄することによりこれを除去することができた (Fig.3)。

## 手 技

### (1) PTCD

全例全身麻酔の下に行っている。PTCのみの場合には一般的に行われている右側胸壁から右胆管を穿刺するが、PTCに引き続いてPTCDを施行する場合には、超音波誘導下にPTC針 (TOP社製, 22G) を用いて左肝管を穿刺する。肝内胆管径が2mm以上あれば穿刺は可能である (Fig.4)。なお、直接嚢胞を穿刺することは決してしない。穿刺が完了したら穿刺プローブからPTC針を外し、延長チューブを付けて左胆管の走行がわずかに判別できる程度の少量の造影剤を注入する。次いで透視下にPTC針に誘導ワ

Table Patients underwent PTCD

Patient No.	Age	Sex	Indication	Puncture Site	Serum Bilirubin Level (mg/dℓ)	Duration (days)	Complications
1	27d	F	sepsis	Bl	10.5	148	(-)
2	2m	M	cholangitis	Bl	2.1	20	(-)
3	1y	M	jaundice	Bl	6.3	19	(-)
4	1y	F	cholangitis, abdominal pain	Bl	0.2	46	(-)
5	1y	M	jaundice	Bl	12.5	43	(-)
6	1y	F	jaundice, cholangitis	B1	2.0	26	(-)
7	4y	F	abdominal pain	B1	1.9	36	(-)
8	7y	F	dilatation of the stenosis, lithotomy	Br, Bl	0.8	88	(-)
9	8y	F	jaundice	Br	8.2	23	(-)
10	10y	F	jaundice	Br, Bl	10.0	18	(-)
11	11y	M	dilatation of the stenosis, lithotomy	Bl	8.2	208	(-)
12	12y	F	dilatation of the stenosis, lithotomy	Br, Bl	6.5	119	(-)
13	14y	F	dilatation of the stenosis, lithotomy	Bl	0.5	17	(-)

Bl : Left Hepatic Duct

Br : Right Hepatic Duct



Fig.2 Percutaneous transhepatic cholangiodrainage (PTCD) in patient 12

There are stenoses in the left hepatic duct and the common hepatic duct.



Fig.3 Percutaneous transhepatic cholangiodrainage (PTCD) in patient 5

a b

a : A filling defect in the common channel is a plugged protein.

b : The protein plug vanished after saline irrigation.



Fig.4 Percutaneous transhepatic cholangiodrainage (PTCD) in patient 1

The PTCD tube is inserted from the left hepatic duct to the cyst.

イヤー(Hakko社製 0.45×650mm)を通し、皮膚を静脈留置針を用いて拡張した後、19GのEVドレナージ針(Hakko社製、5.5Fr.)を誘導ワイヤーに被せて挿入する。最も注意を要するのはEVドレナージ針を胆管内に挿入する操作であり、胆管の存在する位置より深く入り過ぎるとガイドワイヤーが折れ曲がって外筒を挿入でき

ないし、胆管の存在する位置より浅いと外筒がささくれてしまう。透視下で胆管の位置と内針の位置を注意深く観察するのであるが、胆管と内針との前後関係がわかりにくい場合には側面像を見ると良い<sup>4)</sup>。太いチューブに入れ替える必要はない。

## (2) 肝内胆管狭窄に対する拡張術

拡張に先立ちPTCDチューブから造影を行って狭窄部を描出し、狭窄部の長さや狭窄部前後の胆管径を測定しておく。まず、滅菌オリーブ油を塗った32Gガイドワイヤーを、PTCDチューブを通して狭窄部を越え可及的に奥まで挿入する。次いで、PTCDチューブを抜去し、バルーンカテーテルをガイドワイヤー誘導下にPTCD瘻孔からゆっくりと胆管内に挿入し、バルーンの両端に付けられたマークの中央に狭窄部が位置するようにする。1回目はバルーン径の細いものを用い、2回目に狭窄部前後の胆管径とほぼ同じものを用いるようにする。2～5ccの小さい注射器に3～4倍に薄めた造影剤を詰め、ゆっくりとバルーンを拡張させると狭窄部はバルーンのくびれとして描出される。1回のバルーンの拡張時間は30秒から2分程度、拡張操作は1～3回を基本とする。

## 考 察

小児本症に対する胆道減圧方法について述べられている報告は少ない。市川ら<sup>5)</sup>は総胆管の拡張が著明な場合や膵炎症状が著しい例では総胆管外瘻とし、閉塞性黄疸が進行性で総胆管の拡張が著明でないものは胆嚢外瘻とするとしており、大塚ら<sup>6)</sup>は嚢胞に直接穿刺した6例と、右肝管にドレナージを行った5例を報告している。安藤<sup>7)</sup>らは右前胸壁から穿刺した5例のうち3例にPTCDチューブの肝外逸脱やドレナージ不良などの問題が生じ、嚢胞への直接穿刺を行った5例では1例が胆汁漏れのために緊急手術が必要となり、1例ではカテーテルが十二指腸を穿通したと報告し、小児に対するPTCDは技術的に困難であるので、開腹によるT-tubeの挿入や経胆嚢外瘻などの方が良いと結論付けている。なお、外瘻を作ると根治手術時に癒着が邪魔となるが、外瘻周囲の剥離自体は困難ではないとの報告もある<sup>8)</sup>。

小児に対するPTCDの手技において、諸家の報告している方法とわれわれの行っている方法との間に大きな違いがある。すなわち、右側(前)胸壁からの穿刺は成人では一般的に行われている方法であるが、小児では呼吸や泣泣による肝の移動が大きいため容易にチューブが肝から脱落してしまうので、われわれは肝鎌状間膜により肝が固定されていて呼吸性移動があまりみられず、かつ、肝表面に近いという理由から左外側下枝(B3)が最も適切な穿刺部位と考えている。また、右肝管に挿入する場合には前胸壁から穿刺し、肝門側より横隔膜側に向けて挿入すると抜け難い(Fig.2)。嚢胞に直接穿刺すると胆汁が吸引されるにつれて嚢胞と腹壁や肝との間に隙間ができ、胆汁が漏れる危険性が高くなるため勧められる方法ではない。

筆者は小児に対するPTCDの合併症を経験していないが、これは成人に対するPTCDを多数経験してきていることにもよる<sup>4,9)</sup>。各種の手技を試してみた結果、小児や細い胆管に対する方法としては、PTCを超音波誘導下に行い、次いで影像下にPTCDチューブを挿入するという方法が安全かつ確実であり、また、種々のドレ



Fig.5 Percutaneous transhepatic cholangio-drainage (PTCD) in patient 1  
PTCD tube is fixed on his abdomen.

ナージ針がある中で、現在使用しているものが最も穿刺し易いとの結論に至っている。なお、チューブの固定は患児が指などで引っ掛けて事故抜去しないように何重にも皮膚に固定しておく(Fig.5)。

## おわりに

小児本症に対するPTCDは、黄疸や膵炎様症状の増悪した例、重篤な胆管炎、あるいは痛みが改善しない例に対しては極めて有効であるのみならず、肝内胆管の膜様狭窄の診断やprotein plugの診断、あるいは膜様狭窄やprotein plugに対する治療などにも有用である<sup>10)</sup>。穿刺を行う場合には超音波誘導下と影像下を組み合わせることにより安全に施行できるので、小児に対してもPTCDを積極的に施行しても良いと考える。

## ●文献

- 1) Kaneko K, Ando H, Ito T, et al : Protein plugs cause symptoms in patients with choledochal cysts. *Am J Gastroenterol* 1997 ; 92 : 1018-1021.

- 2) 安藤久實, 伊藤喬廣: 肝内良性胆管狭窄に対する非手術的治療—先天性胆道拡張症に対するバルーン胆管拡張術—, 日外会誌 1992; 93: 1135-1137.
  - 3) 安藤久實, 伊藤喬廣, 長屋昌宏, 他: 胆管狭窄を伴った肝内結石症に対するバルーン胆管形成術, 臨床外科 1986; 41: 475-479.
  - 4) 安藤久實, 宮川秀一, 土江健嗣, 他: 影像下直達式PTCDをより安全に施行するための工夫, 日臨外会誌 1980; 41: 1059-1063.
  - 5) 市川 徹, 横山 隆, 檜山英三, 他: 先天性胆道拡張症の術後経過と問題点, 日小外会誌 1995; 31: 732-738.
  - 6) 大塚恭寛, 高橋英世, 岡住慎一, 他: 先天性胆道拡張症に対する経皮経肝胆道ドレナージの検討, 日小外会誌 1996; 32: 907-911.
  - 7) 安藤邦澤, 宮野 武, 山高篤行, 他: 小児先天性胆道拡張症に対する術前経皮胆道ドレナージ術の検討, 日小外会誌 1996; 32: 891-894.
  - 8) Chaudhary A, Dhar P, Sachdev A: Reoperative surgery for choledochal cysts. Brit J Surg 1997; 84: 781-784.
  - 9) 安藤久實, 星野澄人, 土江健嗣, 他: PTC像による肝門部閉塞性黄疸の分類とselective PTCD, 日消外会誌 1981; 14: 516-523.
  - 10) 宇野武治, 餅田良顯, 吉田雅行, 他: Protein plugを形成した小児肝胆管合流異常に術前PTCDが有効であった1例, 小児外科 1994; 26: 794-797.
-

## 特集 小児外科, 小児泌尿器疾患における経皮的治療法

### 3. リンパ管腫における経皮的治療法

荻田修平

京都府立医科大学附属小児疾患研究施設 外科第1部門

#### *Intralesional Injection of OK-432 in Percutaneous Treatment for Lymphangiomas*

Shuhei Ogita

*Division of Surgery, Children's Research Hospital, Kyoto Prefectural University of Medicine*

#### Abstract

Intralesional injection of OK-432 (lyophilized incubation mixture of group A *Streptococcus pyogenes* of human origin), mostly percutaneously, was found to lead to total shrinkage of lymphangiomas with no serious side effects or cosmetic problems. OK-432 solution is prepared by dissolving 0.1mg of OK-432 in 10ml of normal saline (0.9% wt/vol.). The lesion is first aspirated where this is possible. Following aspiration, OK-432 solution is injected into the cyst lumen, replacing aspirated material with OK-432 solution to a maximum dose of 0.2mg (20ml) at one injection. When aspiration of intracystic fluid is difficult, OK-432 solution is injected into the lesion at a few sites until the lesion is slightly expanded; no more than 0.2mg of OK-432 is injected at one time. Another injection is given around 6 weeks after the treatment when shrinkage of the lesion is judged insufficient around 5 weeks after the treatment. The tumor reduction rate was more than 70% (cystic; more than 90%, cavernous; around 50%) of the lesions treated with OK-432 when evaluated at 6 months after the start of treatment. Side effects occurring during treatment were fever, swelling and reddening of the tumor. The local inflammation did not cause any damage to the overlaying skin and did not lead to scar formation. OK-432 therapy is thought to be the treatment of first choice for lymphangiomas.

**Keywords: Lymphangioma, OK-432, Sclerosing therapy**

#### はじめに

リンパ管腫(Lymphangioma)は、リンパ管の先天的な形成異常とされ、拡張したリンパ管腔とこれを満たすリンパ液、そして拡張したリンパ管腔間を埋める間質組織より構成される。リンパ管腔の内壁は一層の内皮細胞よりなり、間質組織には筋肉組織、血管、弾性結合組織など

が含まれる。

リンパ管腫は、リンパ管腔の拡張の程度の大きなものより、嚢胞状リンパ管腫(Cystic lymphangioma, Cystic hygroma or Hygroma)、海綿状リンパ管腫(Cavernous lymphangioma)、単純性リンパ管腫(Lymphangioma simplex)の3群に分類されている<sup>1)</sup>。しかし、この3群を区別する明確な診断基準は認められない、加

えて、リンパ管腔の拡張の程度は単一では無く様々である。臨床的に、嚢胞状リンパ管腫は頸部(75%)や腋窩(20%)に好発し、海綿状リンパ管腫は舌、頬部、胸部、四肢、後腹膜腔等に好発する<sup>2)</sup>。

リンパ管腫は組織学的には良性疾患である。しかし、その発育形態は浸潤性で、周囲臓器との明確な境界を有しないことが大部分である。重要な神経や血管は腫瘍に圧排されるのではなく、その内部に取り込まれることが多い。

リンパ管腫に伴う症状には、周辺臓器への圧迫症状、感染に伴う症状(発赤、腫脹、圧痛)、罹患臓器の機能障害、美容上の問題等がある<sup>2)</sup>。時には、圧迫による気道閉塞や、頸部の脈管の絞扼による上大静脈症候群、骨浸潤による骨融解等を生じ、死亡例の報告も認める。

### リンパ管腫の保存的療法の歴史

リンパ管腫はその自然経過の中で、自然治癒あるいは炎症を契機として自然消退することが知られていた<sup>2)</sup>。しかしその頻度は稀である。自然消退の機序として、拡張したリンパ管腔内の炎症により管腔を被覆する内皮細胞が傷害を受け、その結果リンパ管腔壁相互の癒着が生じ、リンパ液の貯留する内腔が縮小・消失することでリンパ管腫が縮小・消退すると考えられてき

た。そこで、拡張したリンパ管腔内に炎症を惹起する方法が種々試みられてきた。リンパ管腫はその好発部位からも大部分は体表に膨隆した腫瘍として発症することから経皮的に種々の炎症を惹起する物質が腫瘍内に局所投与されてきた。しかしながら従来の方は、リンパ管腫の内皮細胞のみならずリンパ管腫周囲の正常組織も同時に傷害した。その結果、リンパ管腫の縮小と同時に周辺正常組織に癒着形成を生じ、美容的にも機能的にも満足すべきものではなかった。リンパ管腫に選択的に作用する薬剤の発見が望まれていた。

1976年、由良らによって用いられたBleomycin (BLMと略)のリンパ管腫内への局所投与は最初の有用な保存的療法であった<sup>3)</sup>。(一般的には硬化療法と呼称されている。)1978年、谷川らはBLMを油脂(S/O型)emulsionとして局所注入することで、有効率の向上を報告した<sup>4)</sup>。BLMの局所注入療法は従来の方剤に比しリンパ管腫周囲の正常組織に対する傷害作用に改善を認めるがそれでも局注部位に硬結などの癒着形成を生じ、局注後に施行された外科療法時に周辺組織との癒着形成も認められており、改善の余地を残していた。加えて、BLMは肺線維症等の重篤な副作用を有しており、本副作用の発現と総投与量が必ずしも一致しないことから施行には

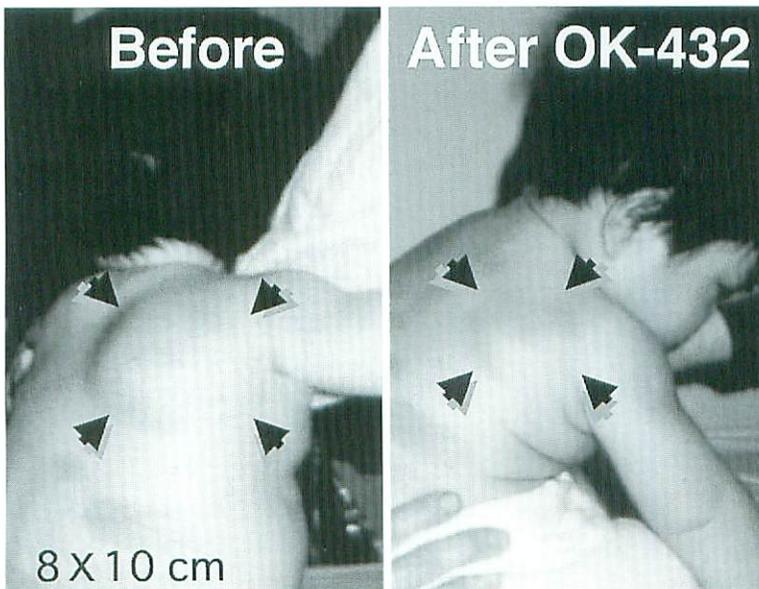


Fig.1 Female, 4-month-old  
The first case treated with OK-432 percutaneously. Photo shows subcutaneous mass at the right scapula, 8×10cm in size (left).  
After the OK-432 therapy, the lesion completely disappeared and the overlaying skin shows a normal appearance (right).

十分な注意が必要であった<sup>5)</sup>。その後1986年に、荻田らはOK-432(ピシバニール、中外製薬)の局所注入療法が、侵襲が軽微で、正常組織を傷害せず、リンパ管腫を縮小・消退に導く安全な治療法であることを見いだした<sup>6,7)</sup>(Fig.1)。その後本邦で臨床治験を終え、有効性が追認された<sup>8)</sup>。現在、OK-432局所注入療法はリンパ管腫に対する第一選択の治療法とされていることより、本稿では本療法について詳述する。

### OK-432局注療法<sup>7,9,10)</sup>

OK-432局注療法とは、A群3型溶連菌Su株の凍結乾燥製剤で、免疫賦活剤として日常診療でroutineに投与されている薬剤OK-432<sup>11)</sup>をリンパ管腫内に局所注射してリンパ管腫の縮小・消退を得る治療法である。

#### 1) 適応

発生部位：リンパ管腫の殆どは体表に膨隆した腫瘤として発症するので、経皮的治療が容易である。軀幹深部の縦隔内発生例や後腹膜発生例においても病変が体表皮下まで連続性に進展することが多く、それぞれのリンパ管腔が相互連絡性を有することから経皮的な治療が可能で

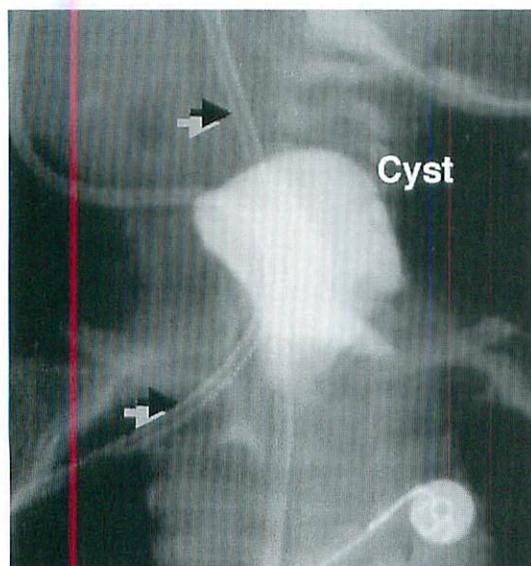


Fig.2

Percutaneously injected contrast material into cervical cyst diffuses well through the whole lesion, including mediastinal lesions.

ある (Fig.2)。

組織型：囊胞状リンパ管腫が最も良い適応である。次いで、海綿状リンパ管腫である。四肢や体幹にび漫性に広がる単純性リンパ管腫には適応がない。

年齢：治療開始年齢に制限はない。副作用として発熱を呈するので、新生児の場合はリンパ管腫による呼吸困難等の重篤な圧迫症状がなければ生後6ヵ月以後の治療開始が望ましい。また1歳半～4歳位までの間は注腸麻酔等による無意識下の施行が望ましい(拘束による精神外傷を避けるため)。胎児等でリンパ管腫が気管の近傍に存在し、出生後の治療ではリンパ管腫腫大による気道圧迫で呼吸状態の悪化が予測される場合には在胎中の治療が有用である。胎生28週頃か以降遅くても37週までに羊水穿刺術に準じて母体の腹壁より施行する。

禁忌：OK-432はpenicillin Gを含むため、ペニシリンアレルギーの患児には禁忌である。

#### 2) 手技

- a) OK-432溶液は、1KEのOK-432を10mlの生理食塩水に懸濁(1KE/10ml)して調整する。
- b) 局注方法は、超音波検査にて皮下の腫瘤の囊胞状の部分を確認し穿刺する。囊胞状リンパ管腫では、囊胞を穿刺後、内容液(通常リンパ液)を十分吸引した後、吸引した内容液と略同等量のOK-432溶液を局注する (Fig.3)。リンパ管腫の大部分は多房性であるが、拡張したリンパ管腔は互いに交通性を有するので、一つのcystへOK-432溶液を局注すればリンパ管腫全体へ拡散する。従って、個々のcystそれぞれにOK-432溶液を局注する必要はない。縦隔リンパ管腫や後腹膜リンパ管腫等の深部に存在するリンパ管腫では、OK-432溶液の囊胞内への確実な投与を確認するため溶液に造影剤(イオパミロン等)を混入して、X線透視下に局注することで確実な注入の有無を視覚化することが出来る。

海綿状リンパ管腫では穿刺に十分な大きさの囊胞を認めないことが多い。通常は腫瘤の中心部を経皮的に穿刺する。内容液の穿刺吸引が困難か不可能のことが多い。

OK-432溶液を腫瘍が軽度膨隆する程度まで圧を加えて局所注入する (Fig.4), 刺入点を中心に上下左右へ針先を移動させ追加投与することが薦められる。舌への局注は全身麻酔下に舌尖の1/3から局注を開始し、順次舌根部へ移動する分割投与が望ましい。

c) 投与量は、1回あたりの上限は2KE (20ml)

を原則とする。投与後5~6週間後の効果判定で十分な縮小を認めない場合には追加投与を施行する。投与間隔は6週間毎あるいはそれ以上間隔を開けることが大切である。例外として、初回投与後に発熱または局所の炎症反応の何れも認められない場合においては、1週間後に再投与する。年齢、

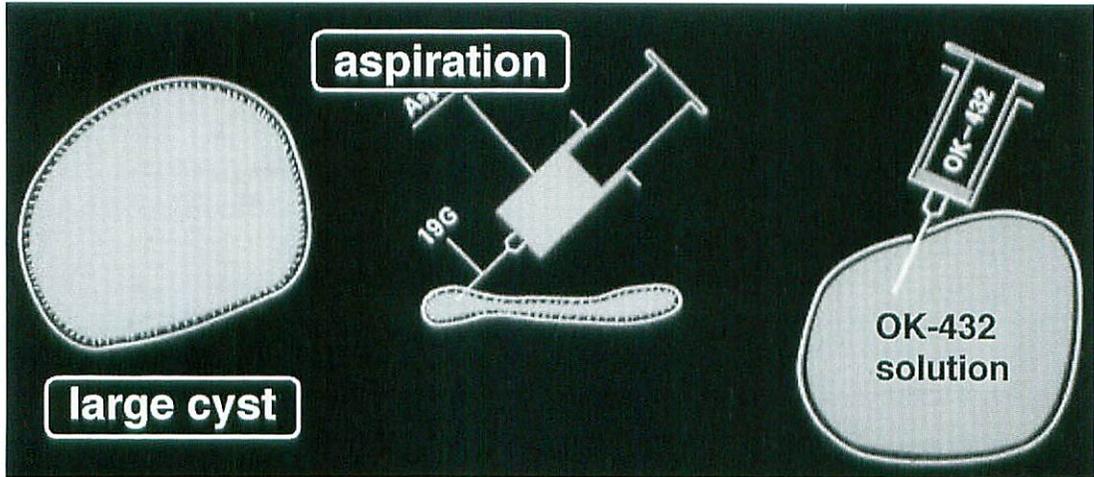


Fig.3

This illustrates the procedure of OK-432 therapy for cystic lymphangiomas. After the aspiration of as much intracystic fluid as possible, aspirated fluid was replaced by OK-432 solution, but not exceeding 0.2mg of OK-432.

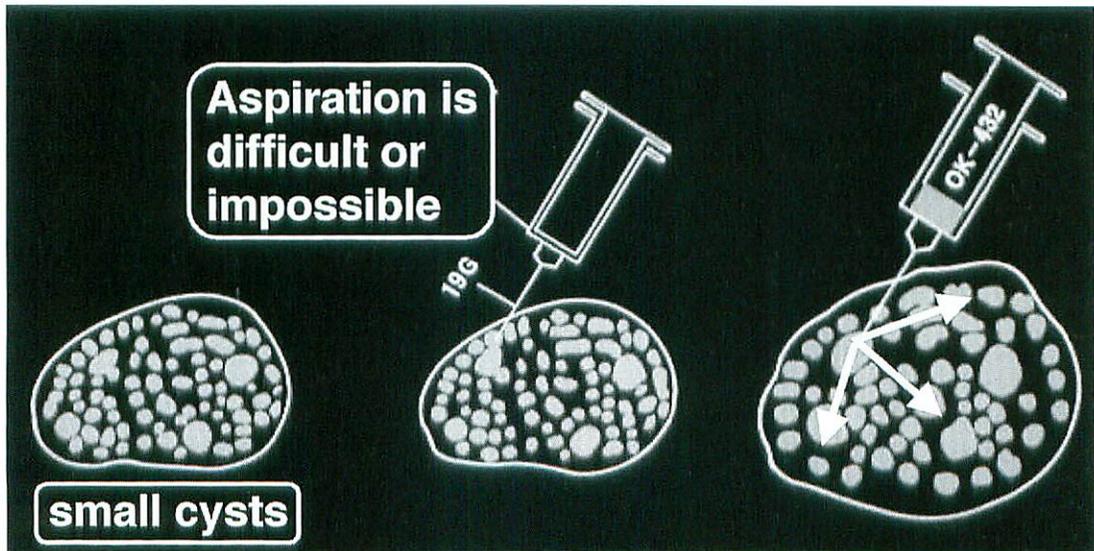


Fig.4

This illustrates the procedure of OK-432 therapy for cavernous lymphangiomas. OK-432 solution is injected into the lesion at a few sites. Intercommunication among the cysts exists, and therefore injected OK-432 diffuses throughout the lesion. No more than 0.2mg of OK-432 is injected at one time.

体重による投与量の補正は行わない。ただし、新生児では予定投与量の半量より開始するのを原則とする。投与回数は嚢胞状リンパ管腫で2回、海綿状リンパ管腫で部位5~6回までを目安とする。海綿状リンパ管腫ではMRI検査のT2強調画像でリンパ管腫内の高輝度領域の消退の有無で治療継続か終了の判断をする。本療法の総投与回数に制限はない。

### 3) OK-432療法の治療経過

OK-432局注後約6時間頃より発熱を認め、38~39℃台が2~4日続く。発熱は解熱剤に良く反応する。腫瘍の発赤・腫脹・疼痛は投与翌日頃より生じ、疼痛は圧迫すると痛い程度で、自発痛は訴えない。これら局所の炎症所見は部位により異なるが3~10日間位続く。その後、投与前の大きさを約1ヵ月間持続し、ある日を境に急速に縮小するのが一般的である (Fig.5)。(投与間隔を6週間以上とするのはこの理由に

よる。)

舌リンパ管腫の経過は特異で、投与直後より舌表面のリンパ管腫は暗赤色に変色する。舌の腫大は他の部位より永く持続し、数週間に及ぶことが多い。この間、舌表面のリンパ管腫よりの出血や痂皮、舌苔等の付着を認める。

### 4) OK-432療法の効果

治療効果の判定は前回治療の約6週間後に施行する。効果は従来、リンパ管腫の容積の縮小の程度により判定されている。すなわち、著効(腫瘍がほぼ完全に縮小し、美容的にも優れたもの)、有効(腫瘍が50%以上縮小し、美容的にも優れたもの)、縮小(腫瘍の縮小が50%以下のもの)、無効(腫瘍の縮小が認められなかったもの)の4群で評価。

嚢胞状リンパ管腫では約90%に有用(著効・有効)で投与回数の平均は1.8回である。一方、海綿状リンパ管腫では、投与回数の平均は6.2回で、約半数に有用(著効・有効)である<sup>12)</sup>。リ

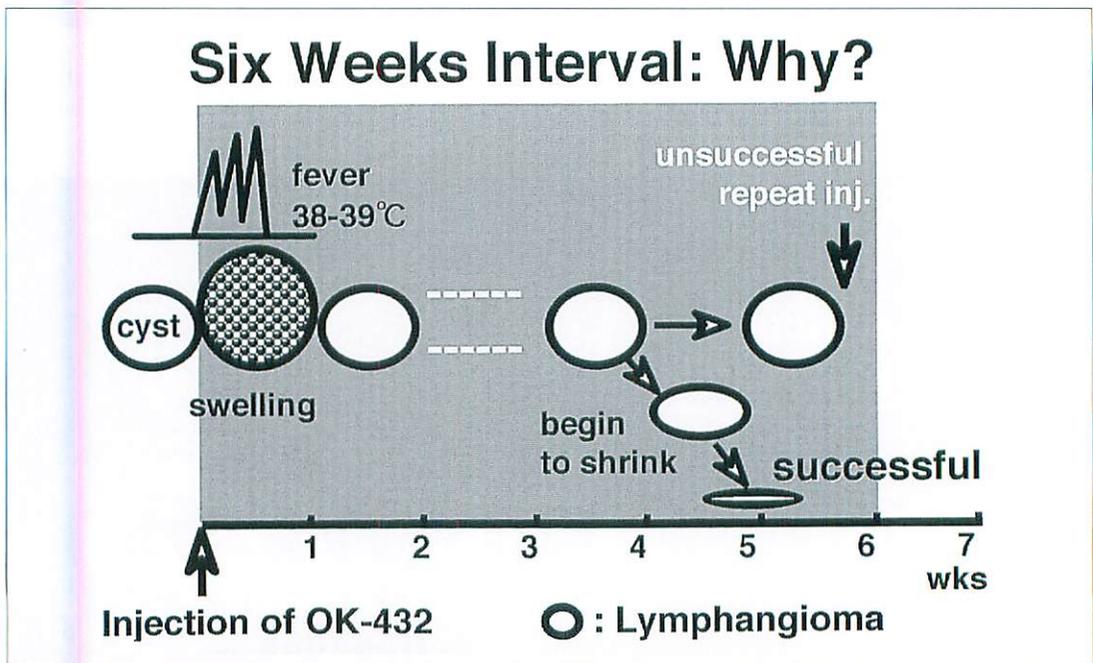


Fig.5

This illustrates a clinical course of OK-432 therapy. A typical response includes a fever of 38 to 39 degree centigrade approximately six hours after injection and swelling of the lesions one day after. An inflammatory response may develop two to five days after the initial injection. After that, lesions maintain the previous size for 4 to 5 weeks and begin to shrink around 5 to 6 weeks after the previous injection of OK-432.

リンパ管腫研究会の臨床治験の報告では、嚢胞状リンパ管腫を対象に、OK-432溶液を1ヵ月間に2回局注し、2ヵ月後および6ヵ月後に判定した。結果、2ヵ月後の判定で81%に有用で、6ヵ月後では90%に有用と報告されている<sup>8)</sup>。

本法は、嚢胞状リンパ管腫に極めて有用な治療法である。その理由として、OK-432療法では拡張したリンパ管腔内の内容物が排除され、その結果このスペースが縮小・閉鎖することで、リンパ管腫の縮小・消退を生じていると推察されているので<sup>12)</sup>、リンパ管腫全体に占める拡張したリンパ管腔の割合の大きな嚢胞状リンパ管腫では腫瘍縮小が著明となる。一方、海綿状リンパ管腫では、リンパ管腫全体に占める拡張したリンパ管腔の割合が小さく、このリンパ管腔内の内容物が排除されても(OK-432の効果があっても)間質組織は遺残するので、全体として著明な縮小が得られない結果となる

(Fig.6)。(MRIのT2強調画像は、この内容物の減少・消退の描出に有用である。)自験例では海綿状リンパ管腫の約30%が前述したような結果(縮小)を呈した。リンパ液を含んだ管腔が虚脱すれば、炎症等の合併症の防止が可能となり、また腫瘍容積を縮小するために部分切除しても遺残腫瘍の再発を生じないことが確認されている<sup>13)</sup>(Fig.7)。

#### 5) 副作用

発熱と局所の炎症所見が一般的な副作用である。ほぼ全例に38～39℃台の発熱(2～4日間)と局所の腫脹・発赤・圧痛等の炎症所見(3～10日間)を認める。特殊なものとして、舌リンパ管腫では舌苔や痂皮形成を生じ、時に出血を認める。気管近傍のリンパ管腫では、腫瘍の一過性の腫脹により気道を圧迫し、呼吸障害を生じる危険性がある。頸部の両側に発生し、両側の頸動静脈を巻き込む場合には呼吸障害と共に

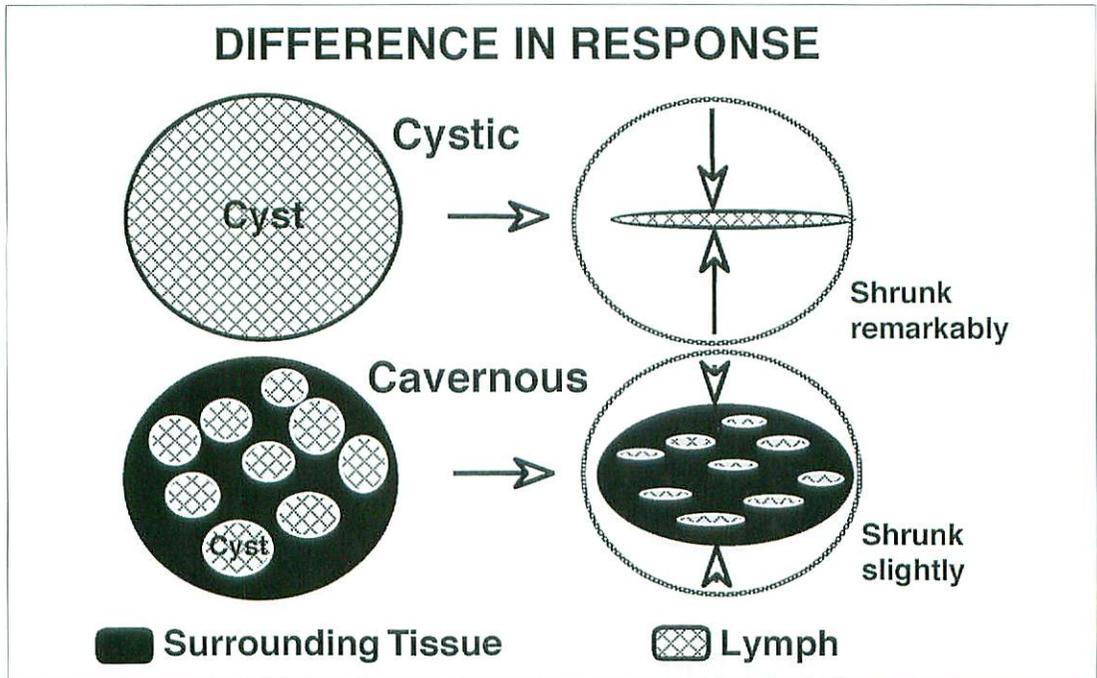


Fig.6

This illustrates a speculation about the difference in response rate between cystic and cavernous lymphangiomas. Intralesional injection of OK-432 prevents accumulation of lymph fluid and lead to shrinkage of the lesions. Therefore, if the proportion of cystic space in the lesion is large, subsequent shrinkage of the lesion is speculated to be remarkable. The proportion of cystic spaces of the cavernous lymphangiomas is estimated to be too small to obtain an adequate shrinkage of the mass.

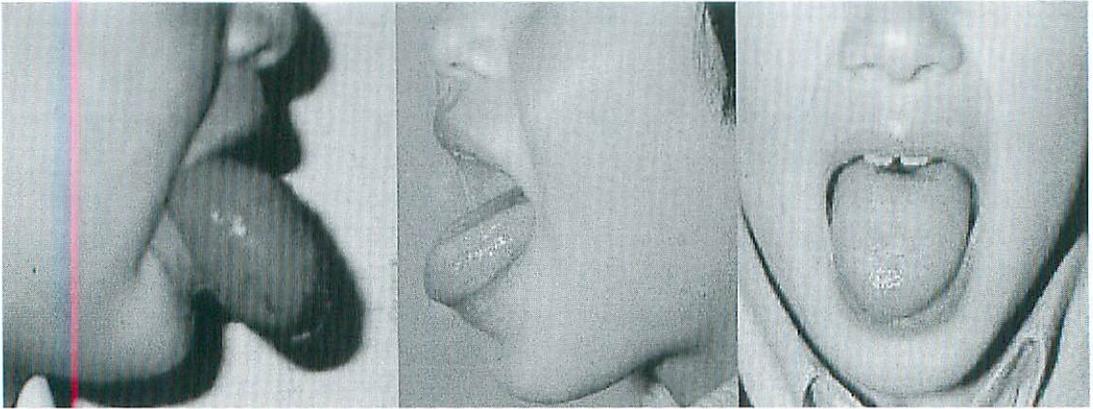


Fig.7 Cavernous lymphangioma in the tongue (male, 7yr.)

When a sufficient shrinkage of the lymphangiomas (esp., cavernous) is not observed with a few courses of injection of OK-432, partial resection of the lesion can be followed in order to reduce the size of the partially responsive lesion to adjust to its normal size. (Left) : Photo shows cavernous lymphangioma arising in the tongue. (Right) : V-shaped resection of the tongue secondary to OK-432 therapy was performed. Despite inadequate resection, no recurrence has been noted. Tongue shows a normal appearance.

上大静脈症候群を生じる危険性がある。

#### まとめ

OK-432局注療法は、手技が平易で、高い腫瘍縮小効果を有し、しかも治療部位に何ら障害を残さず、美容的にも極めて優れている。OK-432投与そのものによる重篤な副作用も認められず、リンパ管腫の第一選択の治療法として有用である。

#### ●文献

- 1) Landing BH, Farber S : Tumors of the cardiovascular system, in atlas of tumor pathology. Washington, D.C., Armed Forces Institute of Pathology, 1956.
- 2) Ravitch MM, Rush BF Jr : Cystic hygroma. Pediatric surgery (4ed), Chicago, Year Book Medical Publishers, 1986, p533-539.
- 3) 由良二郎, 橋本 俊, 水野 孝, 他 : 小児の頸部腫瘍, 特に嚢胞状リンパ管腫とBleomycinの効果について, 小児外科・内科 1976 ; 8 : 279-285.
- 4) 谷川允彦, 里村紀作, 田中統一, 他 : 軟部腫瘍, 特に嚢胞性リンパ管腫の治療, 外科治療 1978 ; 39 : 419-426.
- 5) 中條俊夫, 佐伯守洋, 小方 卓, 他 : 嚢胞状リンパ管腫の治療とその成績—273例の分析に基づいた治療方針—, 小児外科 1984 ; 16 : 931-938.
- 6) 荻田修平, 伝 俊秋, 高橋俊雄 : OK-432の局所注入による小児嚢胞状リンパ管腫の治療経験, 外科 1987 ; 49 : 421-3.
- 7) Ogita S, Tsuto T, Tokiwa K, et al : Intracystic injection of OK-432 : a new sclerosing therapy for cystic hygroma in children. Br J Surg 1987 ; 74 : 690-691.
- 8) 小児リンパ管腫研究会 : OK-432の小児リンパ管腫に対する臨床第Ⅲ相試験, 日小児外会誌 1995 ; 31 : 29-36.
- 9) Ogita S, Tsuto T, Deguchi E, et al : OK-432 therapy for unresectable lymphangiomas in children. J Pediatr Surg 1991 ; 26 : 263-270.
- 10) Ogita S, Tsuto T, Nakamura K, et al : OK-432 therapy in 64 patients with lymphangioma. J Pediatr Surg 1994 ; 29 : 784-785.
- 11) Ishida N, Hoshino T : A Streptococcal preparation as a potent biological response modifier OK-432 (2ed), Amsterdam, The Netherlands, Excerpta Medica, 1985.
- 12) Ogita S, Tsuto T, Nakamura K, et al : OK-432 therapy for lymphangioma in children : why and how does it work? J Pediatr Surg 1996 ; 31 : 477-480.
- 13) Ogita S, Higuchi K, Kimura O, et al : Therapia con OK-432 en lingangiomas de lengua. Revista Cirugia Infantil 1998 ; 8 : 145-148. (Spanish)

## 特集 小児外科, 小児泌尿器疾患における経皮的治療法

### 4. 小児泌尿器疾患における経皮的診断, 治療法

宮北英司

東海大学医学部 泌尿器科

#### *Percutaneous Intervention in Pediatric Urology*

Hideshi Miyakita

*Department of Urology, Tokai University School of Medicine*

#### Abstract

Since the first percutaneous nephrostomy was described by Goodwin and associates in 1995 for the decompression of an obstructed collecting system, this technique has become a vital tool for the urologist. The field of endourology has evolved to encompass all procedures performed on the urinary tract via a percutaneous route. With refinement of endourologic techniques and advancement in the quality and variety of instruments that may be applied percutaneously, the urologist has attacked more complex problems such as pelvi-ureteric obstruction, and urolithiasis in children.

Percutaneous intervention in pediatric urology was described for various diagnostic and therapeutic purposes in this paper.

**Keywords :** Percutaneous intervention, obstructive uropathy, endourology

小児尿路疾患の代表的なものとして、先天性水腎症（腎盂尿管移行部狭窄、膀胱尿管移行部狭窄など）がある。また下部尿路閉塞症により尿路障害を来す場合もある。これらの小児の病変部がまだ器官形成・発達の途中にあることや尿の流れという水力学的な特性を考慮した場合、尿流を改善する目的や、また低侵襲性手術や処置として経皮的処置がある。その最も代表的かつ多く施行されているものに腎瘻からのアプローチがある。経皮的腎瘻造設術は、1955年Goodwinら<sup>1)</sup>によって閉塞性尿路障害に対して除圧を目的として、最初に報告されて以来、現在では泌尿器科のみならずinterventional radiologyとして日常的に施行されている。最近では超音波や器具の進歩により経皮的腎瘻造設術は安全かつ容易に施行できるようになった。

経皮的腎瘻造設術の適応はTableに示す。

最近の経皮的アプローチは単なる腎瘻造設だけでなく経皮的手術も多く行われるようになってきた。腎盂形成術後の尿流障害に対して内視鏡を用いた腎盂切開などにも応用されている。

#### 経皮的診断

経皮的診断には腎盂内圧測定、順行性腎盂造影や腎機能評価がある。

#### I. 腎盂内圧測定 (Pressure flow study-Whitaker test)

腎瘻から一定の速度で生理食塩水を注入し、腎盂内圧を測定する検査法で上部尿路通過障害の判定に役立つ。腎盂内への注入速度を10ml/分とした場合、腎盂内圧と膀胱内圧の差が15cmH<sub>2</sub>O以下では非閉塞型と判定される<sup>2)</sup>。し

Table Indication for percutaneous nephrostomy in children

1. Temporary drainage  
Primary obstruction (pelviureteric or ureterovesical junction stenosis)  
Secondary obstruction (reimplant, post-pyeloplasty)
2. Pressure perfusion studies (Whitaker test)
3. Antegrade imaging of the urinary tract
4. Evaluation of kidney function and recoverability
5. Percutaneous endopyelotomy
6. Percutaneous stone extraction
7. Antegrade placement of internal stents
8. Proximal drainage (urinary fistulae, ureteral extravasation)
9. Fungus balls (removal and irrigation)
10. Cyclophosphamide cystitis

かし、検査としては侵襲のある検査のため頻用されているものではない。

## II. 順行性腎盂造影

排泄性腎盂造影で水腎症は認められるものの、その原因となる狭窄部位がわからない場合、通常、逆行性腎盂造影を行うが、何らかの理由で検査が出来ない場合に腎臓を直接穿刺し順行性に尿路を造影する。

## III. 腎機能評価

分腎機能をみる時に各々の腎から排泄される尿や、その時間を調べる時に腎瘻を造設する場合があるが、侵襲的であるため現在はほとんど行われない。これに代わるものとして核医学検査が一般的であり糸球体濾過量(GFR)や有効腎血漿量(ERPF)を知ることができる。

## 経皮的処置および治療

### I. 一時的腎瘻造設術

あらゆる原因による上部尿路閉塞に対して、腎盂内圧の上昇による腎機能障害進展防止、かかる状態での感染による高熱発作やウロセプシス(urosepsis)の危険防止、急性閉塞では激しい側腹部痛の寛解などを目的とし、特に小児泌尿器科領域では、先天性腎盂尿管移行部狭窄による水腎症に遭遇することが多いため、熟知しておかなければならない手技である。原発性水腎症だけでなく続発性水腎症すなわち腎盂形成術後、膀胱尿管新吻合術後に尿流通過障害がみられた場合に一時的に待機する場合にも施行されることがある。このような場合、永久的な尿路変更ではなく、一時的腎瘻造設術であるこ

とを明記しておく必要がある。

### II. 経皮的手術

最近、低侵襲性手術のひとつとして内視鏡手術が多く行われるようになり、泌尿器科領域では器具の発達とともに小児泌尿器科領域でも盛んに行われるようになってきた。代表的なものとしては、内視鏡的腎盂切開術(Endopyelotomy)、経皮的腎結石砕石術(Percutaneous nephrolithotripsy)があり、その他真菌塊の除去なども行われる。

### 経皮的腎瘻造設方法

1. 麻酔；小児の場合、この手技を安全に行うためには全身麻酔下に行うべきである。しかし、高年齢時の場合は局所麻酔と鎮静剤・鎮痛剤の併用で事足りる場合がある。
2. 準備物品；X線透視装置、超音波装置、超音波穿刺用プローベ、腎瘻造設用セット(Fig.1)、ガイドワイヤー、造影剤
3. 処置および体位；前処置は特に特殊なもの

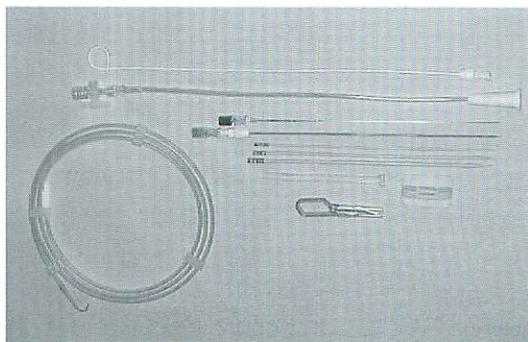


Fig.1 Nephrostomy puncture set

は無く、全身麻酔をする場合に当日の禁食のみでよい。体位は患側を上にした斜位で行う。

4. 穿刺方法；小児の場合に経皮的に腎瘻を造設時に大人に施行する時とは異なって、いくつかの注意点がある。

1) 小児の腎臓は大人に比べて後腹膜腔内で低い位置に存在する。

2) 透視で見た場合、前腎杯が側方に見え、後腎杯が正中側に見える。すなわち腎が外旋した状態になっている。

3) できるだけ腎実質を通り腎杯そのものに穿刺するようにする。腎盂に直接穿刺すると腎血管の損傷を来すことがある。

これらを踏まえ、超音波穿刺用プローブを用い、拡張した腎杯をめがけて22Gテフロン針を穿刺し、尿の逆流があれば造影剤を注入し腎盂を造影する。次いでテフロン針を通してガイドワイヤー（筆者は腎盂損傷を防ぐためやわらかいラジフォーカスガイドワイヤーを用いている）を腎盂内に挿入し、これをイントロデューサーにして穿刺経路の拡張を行い、シングルJ（pig tail）カテーテルを挿入する。この際、ピールアウェイダイレーターを用いると便利である。2歳以上の患児には8Fr、2歳以下の場合4もしくは6Frのカテーテルを留置する。刺

入部をナイロン糸で固定しさらにテープでカテーテルを固定する。小児の場合、体動で抜けることがあるため固定には十分注意を払う必要がある。

### 経皮的内視鏡下腎盂切開術 (Percutaneous endopyelotomy)

Davis<sup>3)</sup> のintubated ureterostomyの原理に則し、切開後留置したステント周囲に尿管組織が再生し狭窄がとれることを狙いとするものである。1983年にWhitfieldとWickham<sup>4,5)</sup>らにより提唱され、従来のopen surgery（腎盂形成術）に代替する術式として広く普及した。

1. 麻酔；小児の場合、この手技を安全に行う

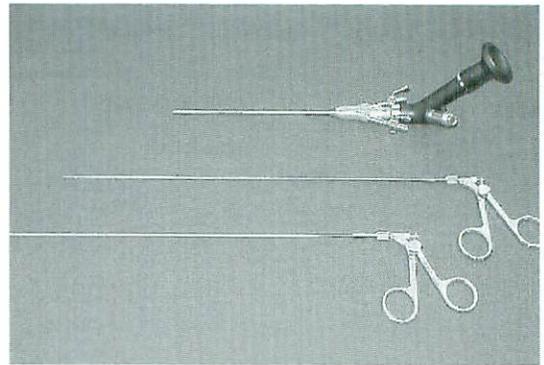


Fig.2 Equipment for endopyelotomy in children  
The 9.5Fr pediatric cystoscope with straight working channel.

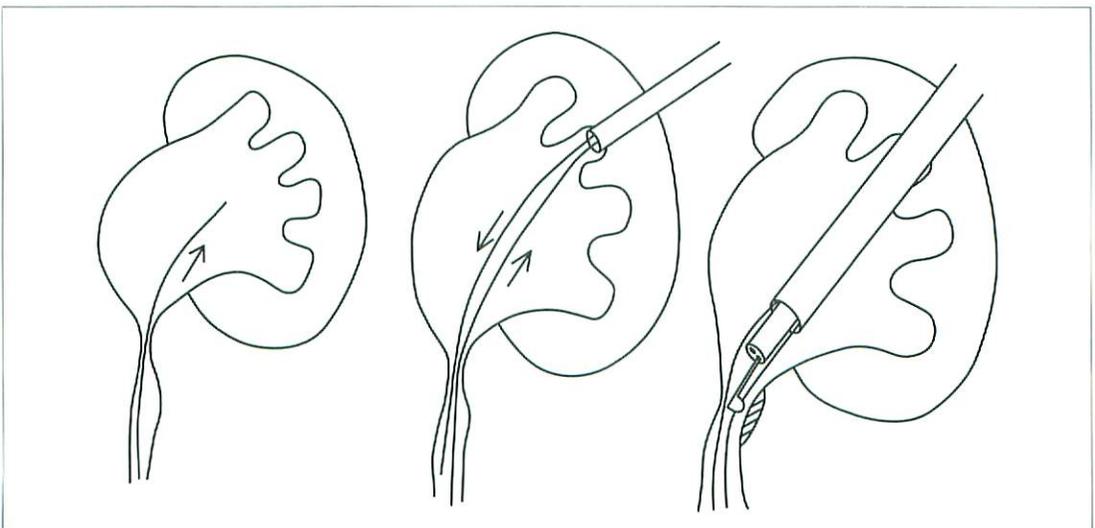


Fig.3 Illustration of technique for endopyelotomy

ためには全身麻酔下に行うべきである。

2. 準備物品；X線透視装置，腎盂鏡（筆者はスレートワーキングチャンネルの小児用膀胱鏡を用いている，Fig.2）ガイドワイヤー，切開刀（ナイフもしくはレーザー）
3. 体位；患側を上にした斜位もしくは腹臥位で行う。
4. 手技；手術の手順をまとめると以下のようになる（Fig.3）.
  - ①碎石位でガイドワイヤーを逆行性に腎盂内へ挿入
  - ②斜位もしくは腹臥位で上もしくは中腎杯を穿刺
  - ③穿刺経路の拡張，腎瘻の作成
  - ④腎瘻からガイドワイヤーの引き出し
  - ⑤腎盂切開鏡の腎盂内挿入，狭窄部切開
  - ⑥腎瘻作成，必要があれば切開部の拡張
  - ⑦ステント留置（ダブルJカテーテル）

腎瘻が作成してあれば②③は不要である。さらに小児の場合，内視鏡が9Frくらいのもを用い，腎瘻経路を確保するためピールアウェイダイレーターシースを使用すると内視鏡の出し入れが容易である。Fig.4は腎盂尿管移行部狭窄症に対し経皮的内視鏡下腎盂切開術を施行したもので，腎盂からの良好な排出を認める。

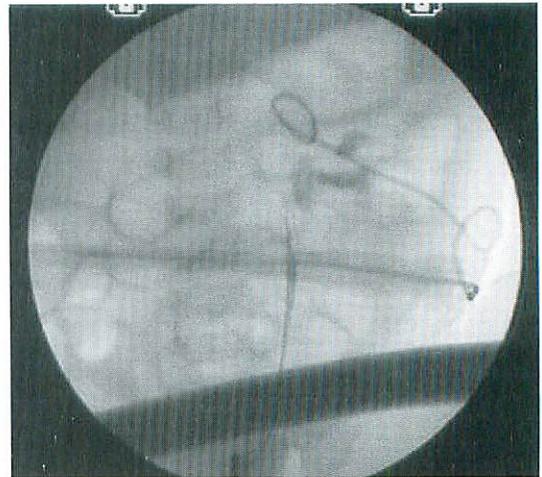


Fig.4 Pyelogram shows contrast medium being expelled from pelvis to ureter after endopyelotomy

### 経皮的腎結石碎石術 (Percutaneous nephrolithotripsy)<sup>6)</sup>

結石だけでなく真菌塊を取り出す場合も同じ手技である。前処置や麻酔は経皮的内視鏡下腎盂切開術の時と同様である。

1. 準備物品；X線透視装置，腎盂鏡（筆者はスレートワーキングチャンネルの小児用膀胱鏡を用いている，Fig.2）ガイドワイヤー，結石碎石装置【超音波碎石装置（ソノトロート），電気水圧碎石装置（Electrohydraulic lithotripter, EHL），レーザー碎石装置，圧

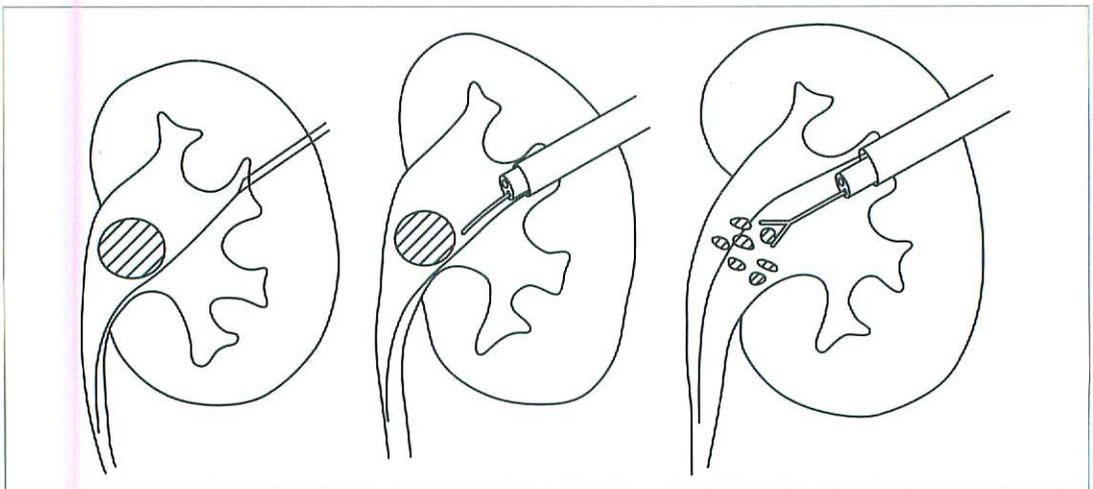


Fig.5 Illustration of percutaneous nephrolithotripsy

縮空気衝撃碎石装置（リソクラスト）など】

2. 体位；患側を上にした斜位もしくは腹臥位で行う。
3. 手技；手術の手順をまとめると以下のようになる (Fig.5).
  - ①腎瘻作成、穿刺経路の拡張、確保
  - ②セーフティガイドワイヤーを留置
  - ③腎盂鏡の腎盂内挿入、碎石
  - ④結石除去
  - ⑤尿管ステント、腎瘻留置
  - ⑥術後腎瘻を抜去後、ステントを抜去する。

#### その他の経皮的処置

巨大膀胱や膀胱尿管逆流があり上部尿路が拡張している場合、クレアチニンが上昇した時に根治的手術までの待機時期に膀胱瘻を経費的に造設する場合がある。拡張した膀胱を超音波で確認しながら膀胱内腔にテフロン針を穿刺し、

ガイドワイヤーを挿入し、それをガイドにピッグテイルカテーテルを留置する。

#### ●文献

- 1) Goodwin WE, Casey WC, Woolf W : Percutaneous trocar (needle) nephrostomy in hydronephrosis. JAMA 1955 ; 157 : 891-894.
- 2) Whitaker RH : Methods of assessing obstruction in dilated Ureters. Br J Urol 1973 ; 45 : 15-21.
- 3) Davis DM : Ureterostomy ; A new operation for ureteral and ureteropelvic stricture. Surg. Gynecol Obstet 1943 ; 76 : 513-523.
- 4) Whitfield HM, Mills V, Wickham JEA : Percutaneous pyelolysis ; An alternative to pyeloplasty. Br J Urol 1983 ; 55 : 93-96.
- 5) Wickham JEA, Kellet MJ : Percutaneous pyelolysis. Eur Urol 1983 ; 9 : 122-124.
- 6) Young AT, Hunter DW, Castaneda-Zuniga WD, et al : Percutaneous extraction of urinary calculi ; use of the intercostals approach. Radiology 1985 ; 154 : 633-638.

原 著 論 文

# 小児気道異物におけるMRI検査の有用性について

大塩猛人, 日野昌雄, 大下正晃

国立療養所香川小児病院 外科

## Evaluation of MR Image for Foreign Body Aspiration in Childhood

Takehito Oshio, Masao Hino, Masa-aki Oshita

Department of Surgery, National Kagawa Children's Hospital

**Abstract** From January 1994 to December 1999, 17 cases of foreign body aspiration were treated in our institute. Among them, MR images were obtained in eight patients diagnosed to have aspiration of radiolucent foreign bodies. Six cases were male and two were female. Duration between presentation to us and the episode of aspiration was five hours to 30 days. Of the foreign bodies, four were peanuts and the remaining four were : green pea, pistachio, carrot and confectionery respectively. Plain X-ray film findings showed emphysema on the affected lung in all cases except for case 3 who, showed normal findings, having consulted us five hours after aspiration of peanut.

In all of the cases, MR image showed foreign bodies in each airway system. Peanuts and pistachio demonstrated high intensity. Green pea, carrot and confectionery showed intermediate or relatively high intensity. Location of each foreign body in the bronchus was detected easily, and it was confirmed using bronchoscopy. In case 6, peanuts were seen in the right upper lobe bronchus and right bronchus intermedius. MRI of the carrot in case 7 revealed a square shape. All of the foreign bodies were removed using a balloon catheter under bronchoscopy.

MRI is very useful to diagnose radiolucent airway foreign bodies. Location, number, form of foreign bodies, and associated complications of lung were detected before their removal.

**Keywords** Foreign body aspiration, MRI, Childhood, Peanut

### はじめに

小児の気道異物の診断と治療には細心の注意を要する。われわれはX線透過性気道異物について、その摘出前にMRI検査を施行し診療上極

めて有用であったので報告する。

### 対象と方法

1994年1月1日より1999年12月31日までの6年間に当院にて小児の気道異物17症例を経験し

原稿受付日：2000年10月19日、最終受付日：2001年3月15日

別刷請求先：〒765-8501 香川県善通寺市善通寺町2603番地

国立療養所香川小児病院 外科 大塩猛人

た。その全症例において胸部X線単純写真を撮影し、また症例により、胸部X線透視、動脈血液ガス分析などを施行した。全症例において摘出前に気道異物と診断した。X線透過性異物で、患者の一般状態(高度の発熱、呼吸不全、他の合併症などの見られない症例)、MRI室の使用状況、摘出術開始までの時間的關係などを考慮して、MRI検査が施行できた8症例を対象とした。

MRIは東芝磁気共鳴イメージング装置MRI-50A/Ⅲを、コイルは頭部QDコイル(BRAIN QD)を使用した。各種条件は各症例にて異なった。スライス厚は5~8mm(症例4, 5, 7は7mm, 症例3は8mm)とした。TR/TE/FAではTR/TEは各症例にて異なったが、FAは全例90であった。FOVはT1強調画像では20×20cmで、T2強調画像では25×25cmであった。前額断、横断の他に、気道に沿った断面にて小さな異物の描出に努めた。全症例において、トリクロフォスナトリウム(トリクロロール)経口(20~80mg/kg)、抱水クロラール(エスケレ)坐薬(30~50mg/kg)または両者の使用にて鎮静を計った。

## 結 果

8症例の結果をTableにまとめた。同期間内に経験した17例の小児の気道異物症例の受診時年齢は11ヵ月より14歳11ヵ月までで、異物の種類はピーナッツ7件、歯牙4件のほかに、注射針、プラスチック片、グリーンピース、ピスタチ

オ、人参、おかき(柿の種)の各1件であった。これらのうちX線透過性異物で、8症例においてMRI検査を施行した(Table)。8症例の異物はピーナッツ4件、グリーンピース、ピスタチオ、人参、おかき(柿の種)各1件であった。MRI検査を施行した全症例において異物が描出され、その気道上における存在部位が判明した。その後まもなく、全身麻酔下に気管支鏡にて異物を確認し、バルーンカテーテルを使用して異物を摘出した。異物が摘出された後の経過は良好であった。以下、各症例について詳述する。

### 症例1: 11ヵ月、女児

主訴: 長引く咳嗽

経過: 30日前から咳嗽が持続していた。近医を受診して感冒と診断され治療を受けたが改善せず、当院を受診した。その後、問診にて30日前にピーナッツを摂取したことが判明した。胸部単純X線写真(正面像)にて右下肺過膨張を認め、右気管支異物と診断した。患児の一般状態は良好であり、異物摘出術の準備の間にMRI検査を施行した。

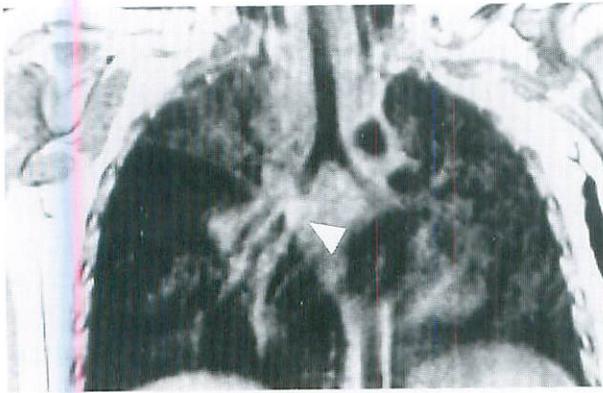
MRI所見: T1強調画像にて、異物は右下葉気管支と思われる部位に高信号(脂肪組織と同程度)に、更に右下葉肺過膨張が描出された(Fig.1)。T2強調画像にても同様に、異物は高信号に描出された。

Table Eight cases of foreign body aspiration

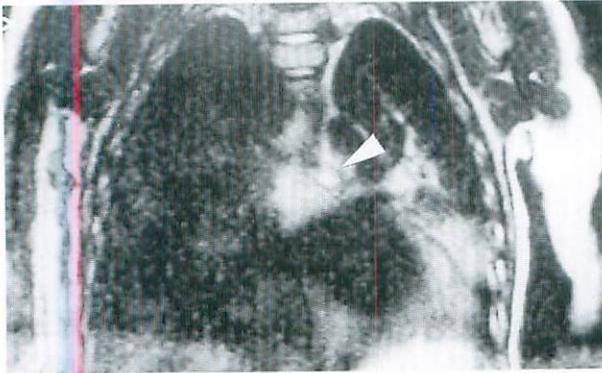
No.	Age (months)	Sex	Duration	Foreign bodies	Chest X-ray	MRI	Intensity	Bronchus
1	11	F	30D	peanut	emphysema	T-1,T-2	high	R lower lobe B
2	11	M	11D	peanut	pneumonia	T-1,T-2	high	L main B
3	11	M	5H	peanut	normal	T-1	high	R B intermedius
4	14	M	9H	greenpea	emphysema	T-1	intermediate	L main B
5	18	F	1D	pistachio	emphysema	T-1	high	L lower lobe B
6	16	M	1D	peanuts	emphysema	T-1	high high	R upper lobe B R B intermedius
7	21	M	8H	carrot	emphysema	T-1	relatively high	R main B
8	19	M	9D	confectionery	emphysema	T-1	relatively high	L main B

F: female, M: male, D: days, H: hours, R: right, L: left, B: bronchus,

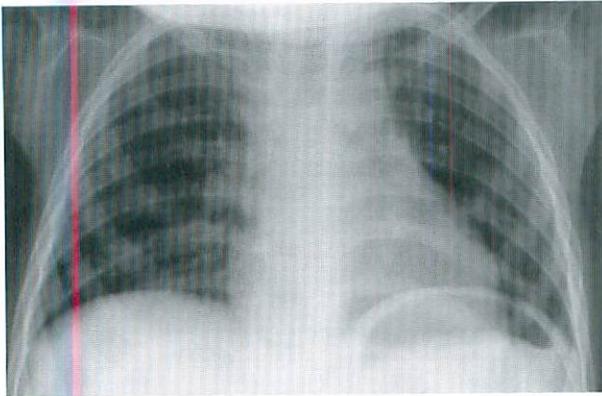
T-1: T1 weighted MR image, T-2: T2 weighted MR image



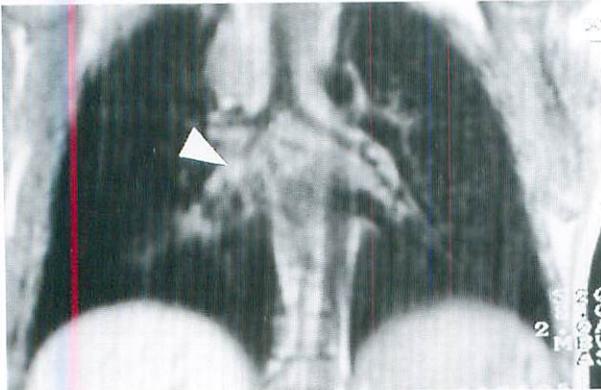
**Fig.1 Case 1**  
Coronal T1-weighted MR image (TR/TE : 500/15) showed a high intensity in the right lower lobe bronchus (arrowhead).



**Fig.2 Case 2**  
Coronal T2-weighted MR image (TR/TE : 3000/100) demonstrated a peanut as a hyperintense lesion in the left main bronchus (arrowhead).



**Fig.3 Case 3**  
A plain chest X-ray film showed no abnormalities.



**Fig.4 Case 3**  
Coronal T1-weighted MR image (TR/TE : 500/15) revealed a high intensity in the right bronchus intermedius (arrowhead).

**症例 2：11 ヶ月，男児**

主訴：長引く咳嗽

経過：咳嗽が持続し 2 日後小児科を受診して肺炎と診断され 3 日間入院した。退院後も発熱が続き当科に紹介された。胸部単純X線写真（正面像）にて左肺炎像を呈していた。その後、問診にて11日前ピーナッツを食べたことが判明し気道異物によると診断した。気管支鏡検査の前にMRI検査を施行した。

MRI所見：T1 強調画像およびT2 強調画像にて、異物は左主気管支に高信号に描出された (Fig.2)。

**症例 3：11 ヶ月，男児**

主訴：喘鳴

経過：ピーナッツを食べていて咳き込んだ。その後、喘鳴が続くため来院した。5 時間を経過した胸部単純X線写真（正面像）では異常所見を認めなかった (Fig.3)。また、胸部の聴診では

左右差はなかった。気道異物と診断し、更に確認の目的でMRI検査を行った。

MRI所見：T1 強調画像にて異物は右中間気管支幹で高信号に描出された (Fig. 4)。

**症例 4：1 歳 2 ヶ月，男児**

主訴：喘鳴

経過：グリーンピースが入ったお菓子を食べた後喘鳴が続き、近医を受診して気道異物が疑われ紹介された。誤嚥 9 時間後の胸部単純X線写真（正面像）にて縦隔の右方偏位と左全肺過膨張を認め気道異物と診断した。異物摘出前にMRI検査を行った。

MRI所見：T1 強調画像にて、異物は左主気管支でそれを閉塞するようにやや高信号（筋組織と同程度）に描出された (Fig. 5)。

**症例 5：1 歳 6 ヶ月，女児**

主訴：長引く咳嗽



**Fig.5 Case 4**

Coronal T1-weighted MR image (TR/TE : 725/20) demonstrated an intermediate signal intensity in the left main bronchus (arrowhead).



**Fig.6 Case 5**

Coronal T1-weighted MR image (TR/TE : 547/40) showed a high signal intensity in the left lower bronchus (arrowhead).

経過：ピスタチオを食べていて転倒した。咳嗽が続く翌日来院した際の胸部単純X線写真(正面像)にて、縦隔の右方偏位と左全肺過膨張を認め異物誤嚥と診断した。異物摘出前にMRI検査を行った。

MRI所見：T1 強調画像にて、異物は分岐直後の左下葉気管支に高信号に描出された(Fig.6)。

**症例 6：1 歳 4 ヶ月，男児**

主訴：喘鳴

経過：姉が落としたピーナッツを拾って食べた後喘鳴が続く。翌日近医を受診して異物誤嚥が疑われ紹介された。胸部単純X線写真(正面像)にて右全肺過膨張をみとめ気道異物と診断した。異物摘出前にMRI検査を施行した。

MRI所見：T1 強調画像にて、右上葉気管支および中間気管支幹の2カ所に高信号域が描出され、異物が2個存在すると診断した(Fig.7)。

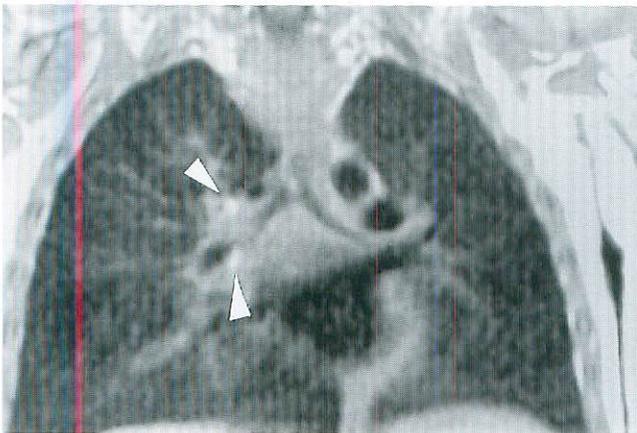
中間気管支幹の異物の摘出は容易であった。右上葉気管支の異物はその分岐角度が鋭でファイバースコープにて直視はできたが摘出は不能であり、手術も含めて摘出法を再考慮することとした。3日後の胸部単純X線写真(正面像)にて右上葉過膨張のみとなった。そこで右上葉気管支の分岐角度が鈍に変化したのではないかと考えられた。

MRI再検査所見：T1 強調画像にて、異物を含む右上葉気管支は足側に押し下げられ右主気管支からの分岐角度が鈍となっており、摘出は容易になっていると判断した。再度異物摘出を試みたところ、極めて容易に摘出できた<sup>1)</sup>。

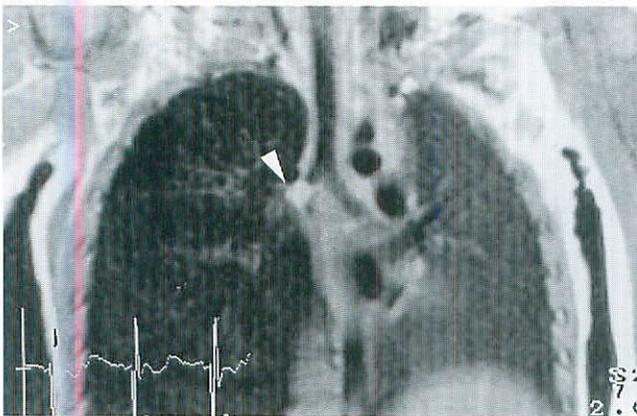
**症例 7：1 歳 9 ヶ月，男児**

主訴：喘鳴

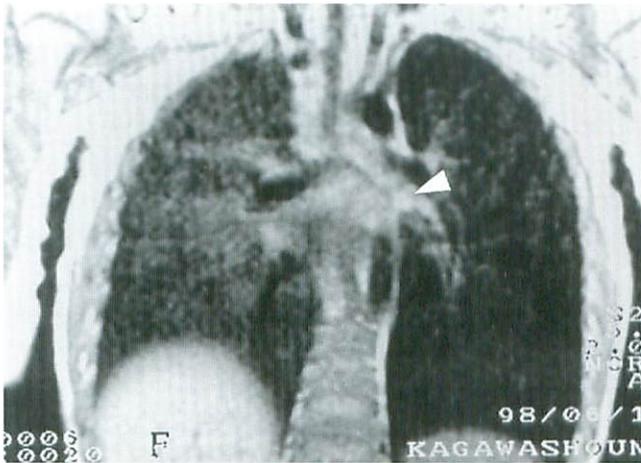
経過：炒めた人参入りのおかずを含む朝食を泣きながら摂取していて食物を誤嚥した。近医を



**Fig.7 Case 6**  
Coronal T1-weighted MR image (TR/TE : 350/15) demonstrated two hyperintense areas located in the right upper lobe bronchus and right bronchus intermedius (arrowheads).



**Fig.8 Case 7**  
Coronal T1-weighted MR image (TR/TE : 590/20) revealed a square shaped and relatively high signal intensity in the right main bronchus (arrowhead).



**Fig.9 Case 8**  
Coronal T1-weighted MR image (TR/TE : 350/15) showed a relatively high signal intensity in the left main bronchus (arrowhead).

受診して気道異物が疑われ紹介された。8時間を経過した胸部単純X線写真(正面像)にて右全肺過膨張が認められ異物誤嚥と診断した。異物摘出前にMRI検査を行った。

MRI所見：T1強調画像にて、異物は右主気管支にその太さを越える程の四角形のやや高信号として、更に右肺過膨張が描出された(Fig.8)。摘出は比較的容易であり、異物は1辺約8mmの立方体の形状をした人参であった。

#### 症例8：1歳7ヵ月，男児

主訴：長引く咳嗽

経過：おかき(かきの種)を食べた後咳嗽が続き翌日某医に入院した。7日目に気道異物と診断され、異物を鉗子や吸引にて可及的に除去されたが、異物が残存して呼吸の改善が得られず9日目に紹介された。胸部単純X線写真(正面像)にて左全肺過膨張を認め異物の残存が疑われ、その後の状況を知る目的にてMRI検査を行った。

MRI所見：T1強調画像にて、異物は左主気管支でやや高信号(筋組織と同程度)に描出された(Fig.9)。

### 考 察

#### 1. 小児の気道異物について

小児の気道異物は、その診断と治療は容易ではなく、それに関する文献には枚挙に暇がない。時には致命的ともなり、近年でも死亡例の報告

がみられる<sup>2,3)</sup>。異物の種類は小児の身近に存在する様々な物が報告されている。なかでも各種のナッツ類、豆類、その他種々の異物があるが、以前からピーナッツが最も多く報告されており、自験例でも同様であり17例中7例がピーナッツで、MRIを施行した8例中4例がピーナッツであった。

#### 2. 小児気道異物の診断について

小児の異物誤嚥の診断には問診が重要である。保護者の観察していない場所での誤嚥の発生もあり、気道異物の7~12%がその既往歴に気づかれていないと言われ<sup>4)</sup>、確定診断および治療の開始が遅延する場合がある<sup>3)</sup>。自験例1および2でも摘出までに長期間を要した原因と考えられる。

気道異物の診断には聴診の他に画像検査が極めて有用である。胸部単純X線写真(正面像)の撮影が施行され、X線非透過性異物では診断は比較的容易である。X線透過性異物では診断に難渋する場合がある。多くの症例で縦隔移動、肺過膨張、肺炎、無気肺などの異常所見がみられる。しかし、正常像を示す場合<sup>3)</sup>もあり、その率は9~24%と言われている<sup>4)</sup>。自験例3では、誤嚥後短期間に来院しており胸部X線写真に異常所見を見出せなかった。吸気時および呼気時の胸部X線写真の撮影の比較によるHolzknecht signが重要であるが、小児では意図的な撮影は困難なことも多い<sup>5)</sup>。胸部X線透

視は横隔膜の可動性、左右肺の含気の差および縦隔の移動を吸気時および呼気時に比較でき、明瞭に観察できる検査法である。また、他のX線学的検査法として、CT撮影のほかに、シネ連続撮影<sup>5)</sup>、肺血流シンチ<sup>4,6)</sup>を施行し有効であったとする報告もあるが、これらは一般的ではない。

### 3. 気道異物におけるMRIの有用性

近年、本邦にて小児の気道異物にMRI検査を施行した報告が散見されている<sup>1,4~10)</sup>。これらの報告の異物の種類はピーナッツおよび栗<sup>10)</sup>のみであるが、われわれはピーナッツ4例の他、グリーンピース、ピスタチオ、人参、おかきの各1例にMRI検査を施行して、全例に異物を描出できた。

ピーナッツとピスタチオは皮下脂肪組織と同程度の高信号に描出された。一方、グリーンピース、人参、おかきは筋組織かそれ以上程度の信号に描出された。ピーナッツは脂肪成分が多くMRI T1強調画像にて高信号に描出されると言われている<sup>4~9)</sup>。栗<sup>10)</sup>も同様である。一般に摂取する前の成分分析で、ピスタチオ、アーモンド、ピーナッツにおいて50%前後の脂肪が含まれている。また、自験例2で示したごとくピーナッツではT2強調画像にて高信号に描出される。一方、グリーンピース、人参、おかきでは脂肪成分は1%にも満たない。しかし、空気や血流などのMRI上信号としての描出がほとんどない胸部において、特に管腔である気道上でその内腔に固形物として存在するので、撮影方向や条件を工夫すれば高信号でなくても異物を描出できると思われる。すなわち、X線透過性の気道異物の全てに適応があると考えられる。

呼吸障害を伴う小児の気道異物において、その摘出前にMRI検査を施行することには異論もある。撮影時間が長く、鎮静剤の使用が必要であり、緊急性、呼吸状態の悪い場合も考えると、MRI検査は第一に選択されるべきでないともされている<sup>11)</sup>。しかし、三浦ら<sup>5)</sup>は胸部では画像上鑑別を要する疾患もほとんどなく初心者でも容易に異物の診断ができる利点を強調した。今泉ら<sup>4)</sup>は従来の放射線検査が異物介在に伴

う間接的な所見を観察していたのに対して、MRIは異物そのものを描出しており画期的な検査法であるとした。特に、誤嚥の既往歴が不明な症例や保護者が誤嚥物質を断定できない場合に診断価値が大きく、放射線被曝の問題もない。大きさ、位置、破片の数、周囲組織の状態などを示すことから、その後十分な態勢で摘出ができ、リスクを減らすことに寄与するとした。

自験例においてもMRI検査は有用であり、その後の異物摘出に有意義であった。自験例2では胸部単純X線でみられた肺炎像の内にピーナッツを、自験例3では胸部単純X線では異常がなかったがピーナッツを、自験例6では異なった気管支にピーナッツそれぞれ1個を、自験例7では立方体の人参の形態をそれぞれ描出できた。特に、自験例6では既に報告<sup>1)</sup>したが、右上葉気管支に存在したピーナッツの摘出の難易性の判断について極めて有用であった。

一般に、気道異物が疑われた際には、X線写真、胸部透視、血液ガス検査などが施行され診断が可能である。更にMRI検査を施行する場合には、各施設でのMRIの使用状況、緊急性、患児の全身状態など、そして費用の問題<sup>5)</sup>もある。しかし、問診、聴診、各種検査などで既に診断されていてもMRI検査をすれば、上記のごとく多くの情報を得ることができ、その後の摘出術を含む治療に極めて有用であると考えられる。なお、MRI検査は異物がT1強調画像にて描出できればT2強調画像の撮影の必要性はないと考える。

気道を含むあらゆる異物誤嚥の症例において摘出術を行う場合には、直前の画像検査が重要である。すなわち、異物は時間の経過とともに移動することがしばしば経験される。MRI検査にて異物を確認しながら2日後に摘出を試みた症例では、同部位に異物が認められず、症状が持続し3日後の再MRI検査で別の気管支に異物が移動していたことが判明したとする報告もある<sup>8)</sup>。MRI検査も含め、諸般の事情により検査後から摘出術開始までに時間の経過した症例では、術前に再確認すべきかもしれない。場合によっては異物の位置を誤認し、むしろ患児に無用の負担を掛けることにもなり得る。

## まとめ

1. 1994年1月1日から1999年12月31日までの6年間に17例の小児気道異物を経験した。これらの内のX線透過性異物において、8例に異物摘出前に鎮静下にMRI検査を施行した。
2. MRI検査を施行した8例の異物は、ピーナッツ4例、グリーンピース、ピスタチオ、人參、おかき（柿の種）各1例であり、全症例において異物が描出された。
3. 異物のMRI上の描出程度は、ピーナッツとピスタチオは皮下脂肪組織と同程度の高信号であった。グリーンピース、人參、おかきでは筋組織かそれ以上程度の信号に描出された。気道異物において、固形物であれば種類を問わずMRI検査にて描出できる可能性が高い。
4. MRI検査を施行することにより診断を確定することのみならず、異物の存在部位、大きさ、形態、数、摘出術の難易度などの情報をえることができ、その後の異物摘出術に極めて有用である。

(本論文の要旨は第36回日本小児放射線学会(東京)において発表した。)

## ●文献

- 1) 大塩猛人, 日野昌雄, 福山充俊, 他: 右上葉および中間幹気管支に同時に存在した気道異物の治療経験, 小児外科 1998; 30: 1114-1118.
- 2) 古賀慶次郎, 川城信子, 荒木昭夫, 他: 気道異物により死亡した小児の14剖検例の検討, 日気食会報 1991; 42: 323-329.
- 3) 城 一也, 監物久夫, 中村博史: 小児気道異物の早期診断における症状の重要性, 日小外会誌 1997; 33: 705-710.
- 4) 今泉了彦, 岩中 督, 松本正智, 他: ピーナッツ気道異物の診断とMRI, 小児外科 2000; 32: 74-79.
- 5) 三浦靖徳, 貴田 修, 赤羽道子, 他: 小児気道異物(ピーナッツ)に対するMRI診断の有用性について, 小児科診療 1994; 57: 1839-1842.
- 6) 我那覇仁: 気管, 気管支異物, 小児看護 1991; 14: 1387-1391.
- 7) 雫本忠市: 気道異物, 小児科診療 1992; 55: 914-918.
- 8) 山嵜達也, 菊池 茂, 大内敏宏, 他: ピーナッツ気道異物に対するMRIの応用, 日気食会報 1992; 43: 363-369.
- 9) Kitanaka S, Mikami I, Tokumura A, et al: Diagnosis of peanut inhalation by MRI. *Pediatr Radiol* 1992; 22: 300-301.
- 10) 南 有紀, 家根旦有, 田中 治, 他: MRIで確定診断し得た小児気道異物の1例, 日気食会報 1994; 45: 50-53.
- 11) 小笠原昇: 気管・気管支異物, 新外科学大系, 30巻-B, 和田達雄監修, 東京, 中山書店, 1991. p317-329.

原著論文

## Usefulness of $^{99m}\text{Tc}$ -ECD Brain SPECT in Acute Onset Pediatric CNS Diseases : in Comparison with CT and MRI

Teisuke Hashimoto, Hiroko Chikatsu, Hiromune Nishiyama, Hiroko Endo, Tatsuo Kono, Fumitoshi Imura, Shigeko Kuwashima, Natoru Saiki, Mutsuhisa Fujioka  
Department of Radiology, Dokkyo University School of Medicine

**Abstract** **PURPOSE** : To assess the usefulness of regional cerebral blood flow (rCBF) measured by  $^{99m}\text{Tc}$ -L, L-ethyl cysteinyl dimer (ECD) brain SPECT in the acute onset type of pediatric central nervous system (CNS) diseases.

**MATERIALS and METHODS** : Thirteen children (7 girls, 6 boys, 4 month-12 years of age) who were diagnosed with 9 cases of viral encephalitis, two cases of febrile convulsion and one each of migraine and metabolic disorder underwent  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT, CT and/or MRI within one week interval.

**RESULTS** : The incidence of abnormal findings in the 13 patients was 96.4% (30/31) on  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT, 17.6% (3/17) on CT and 63.6% (14/22) on MRI. The positive detection rate of  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT was statistically ( $P < 0.01$  by a  $\chi^2$  and/or Fisher's exact probability test) higher than those of CT and MRI. And the changes in rCBF were demonstrated.

**CONCLUSION** :  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT is a useful examination for the diagnosis and follow up management in patients with the acute onset type of pediatric CNS diseases.

**Keywords**  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT, MRI, CT, Acute onset type of pediatric CNS diseases

### INTRODUCTION

Recent progress in neuroimaging studies has thrown much light on the etiology of acute hemiplegia syndrome (AHS). Early diagnosis and therapy during the first 2 or 3 days of symptomatic illness are essential if high mortality and serious neurologic sequelae are to be avoided<sup>1, 2)</sup>. For the early diagnosis, estimation by  $^{99m}\text{Tc}$ -L, L-ethyl cysteinyl dimer

(ECD) brain SPECT can be helpful but reported cases are rare<sup>3)</sup>. In this paper, we present 13 cases of acute onset type of pediatric CNS diseases estimated by  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT, and compared with CT and/or MRI.

### MATERIALS and METHODS

Thirteen children (7 girls, 6 boys, 4 month-12 years of age) who were diagnosed with 9 cases of viral encephalitis, two cases of febrile

原稿受付日：2001年1月9日，最終受付日：2001年1月31日

別刷請求先：〒321-0293 栃木県下都賀郡壬生町大字北小林880

獨協医科大学放射線医学教室 橋本禎介

**Table 1 Breakdown of the 13 patients**

Encephalitis	9
Influenzal encephalitis	2
HHV-6 (human herpes virus type-6) encephalitis	2
Herpes simplex virus (HSV) encephalitis	1
Measles encephalitis	1
Limbic encephalitis	1
Other encephalitis (etiology unknown)	2
Febrile convulsion	2
Migraine	1
Metabolic disorder	1
<b>Total</b>	<b>13</b>

convulsion and one each of migraine and metabolic disorder, underwent  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT, CT and/or MRI within one week interval. The breakdown of the patients is shown on **Table 1**.  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT to evaluate the regional cerebral blood flow (rCBF) was performed 20 minutes after an intravenous injection of 310-800 MBq of  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD. Thirty-one rCBF SPECT studies were done in 13 patients. SPECT was performed using a triple-head system (Toshiba GCA-9300A/HG) equipped with ultra-high-resolution fanbeam collimators and interfaced to a dedicated computer. Data were collected for continuous 5 rotations (3 minutes for one rotation) in a  $128 \times 128$  matrix. Acquired data were reconstructed using 3-dimensional Butterworth-Wiener filter (order, 8.0 ; cutoff frequency, 0.13 cycle per pixel) after applying a Shepp & Logan back projection filter. Plain and/or post contrast enhancement CT was performed 17 times in 13 patients. Brain MR with or without Gd-DTPA enhancement was done 22 times in 13 patients. MR examinations were performed at 1.5 T (SHIMADZU MAGNEX150). MR imaging parameters included a  $256 \times 256$  matrix and 6-mm-thick sections (with a 1.5-mm intersection gap) and axial scanner spin-echo (SE) T1-weighted sequence of 600-710/15/1 (TR/TE/ excitations) and a T2-weighted sequence of 3800-4600/110/1.

## RESULTS

Thirty-one rCBF SPECT studies were performed in 13 patients with acute onset type of pediatric CNS diseases. In two of 13 patients marked regional high uptake was shown. And, in three of them, faint regional high uptake in the acute phase within a week after onset. Twenty-five studies showed regional low uptake in the subacute and chronic phases. One study showed normal regional uptake. Five lesions with regional high uptake changed to low uptake, and two lesions improved to normal uptake on follow up studies. On the comparative studies with MRI, 14 of 22 studies showed cortical thickness, high intensity area on T2 weighted images. In 3 of 17 studies, CT scan showed brain edema and brain atrophy. The incidence of abnormal findings in the 13 patients was 96.4% (30/31) on  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT, 17.6% (3/17) on CT and 63.6% (14/22) on MRI. The positive detection rate of  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT was statistically ( $P < 0.01$  by a  $\chi^2$  and/or Fisher's exact probability test) higher than those of CT and MRI, as shown in **Table 2** and **Table 3**.

## CASE REPORTS

<Case 1>A 6-year-old girl with herpes simplex virus (HSV) encephalitis. On the day of admission she exhibited high fever, repeated vomiting and slight weakness of the right upper limb. Nuchal rigidity was present. Patellar tendon reflex was reduced and Babinsky reflex was positive on the same right side. CT scan on admission and MRI obtained on the 5th day revealed no remarkable abnormality (**Fig.1a,b**).  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT on the 8th day after admission showed markedly increased rCBF on the left cerebral hemisphere (**Fig.1c**).  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT performed on the 27th day disclosed larger areas of decreased rCBF in the left cerebral hemisphere (**Fig.1d**). MRI obtained 4 and 19 month later also revealed no remarkable abnormality. On the follow-up  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT performed 19 month later, decreased

Table 2 Positive detection rate of  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD SPECT and CT

	Positive detection rate%		
	SPECT	CT	p-value
Encephalitis	100.0 (21/21)	21.4 (3/14)	P<0.01
HSV encephalitis	100.0 (7/7)	0.0 (0/3)	P<0.01
Influenzal encephalitis	100.0 (4/4)	0.0 (0/2)	N.S.
HHV-6 encephalitis	100.0 (4/4)	66.7 (2/3)	N.S.
Measles encephalitis	100.0 (2/2)	50.0 (1/2)	N.S.
Limbic encephalitis	100.0 (1/1)	0.0 (0/1)	N.S.
Others	100.0 (3/3)	0.0 (0/3)	N.S.
Febrile convulsion	100.0 (4/4)	0.0 (0/1)	N.S.
Migraine	100.0 (2/2)	0.0 (0/1)	N.S.
Metabolic disorder	0.0 (0/1)	0.0 (0/1)	N.S.
Total	96.4 (27/28)	17.6 (3/17)	P<0.01

Table 3 Positive detection rate of  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD SPECT and MRI

	Positive detection rate%		
	SPECT	MRI	p-value
Encephalitis	100.0 (21/21)	66.7 (10/15)	P<0.01
HSV encephalitis	100.0 (7/7)	66.7 (2/3)	N.S.
Influenzal encephalitis	100.0 (4/4)	0.0 (0/2)	N.S.
HHV-6 encephalitis	100.0 (4/4)	100.0 (4/4)	N.S.
Measles encephalitis	100.0 (2/2)	0.0 (0/1)	N.S.
Limbic encephalitis	100.0 (1/1)	100.0 (1/1)	N.S.
Others	100.0 (3/3)	100.0 (3/3)	N.S.
Febrile convulsion	100.0 (4/4)	100.0 (3/3)	N.S.
Migraine	100.0 (2/2)	0.0 (0/2)	N.S.
Metabolic disorder	0.0 (0/1)	0.0 (0/1)	N.S.
Total	96.4 (27/28)	61.9 (13/21)	P<0.01

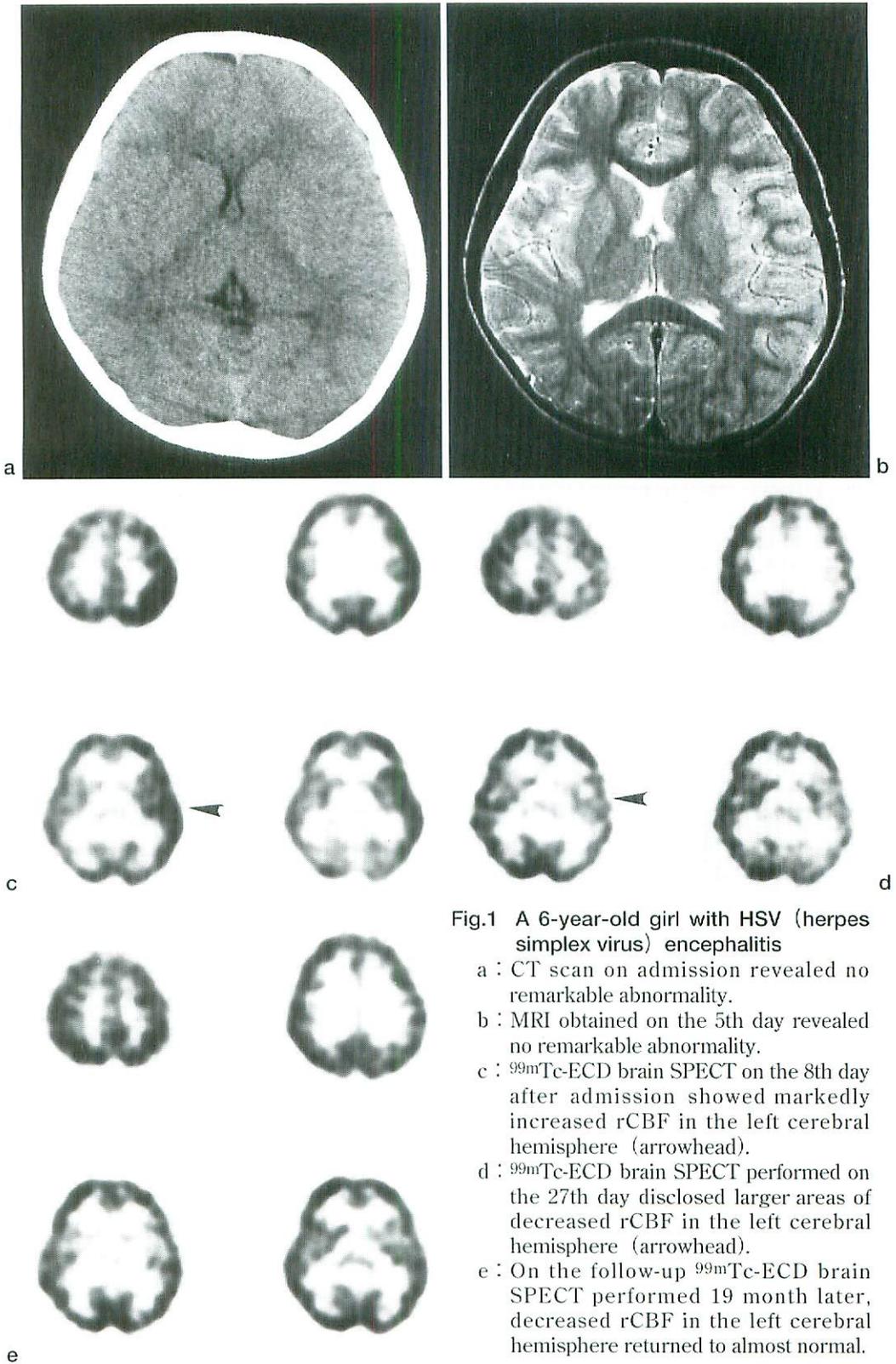
rCBF in the left cerebral hemisphere had returned to almost normal (Fig.1e).

<Case 2>An 11-year-old girl with migraine. Her family history was positive for migraine in her brother, father and paternal uncle. On the day of admission she complained of right temporal headache and right neck pain after which unconsciousness, left hemiplegia and eye deviation to the right side developed. CT scan on admission and MRI obtained on the 4th day revealed no remarkable abnormality (Fig.2a).  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD Brain SPECT on the 4th day after admission showed markedly increased rCBF on the right cerebral hemisphere (Fig.2b). MRI

obtained 40 days after admission revealed no remarkable abnormality either.  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD Brain SPECT performed on the 40th day disclosed larger areas of decreased rCBF in the right cerebral hemisphere (Fig.2c).

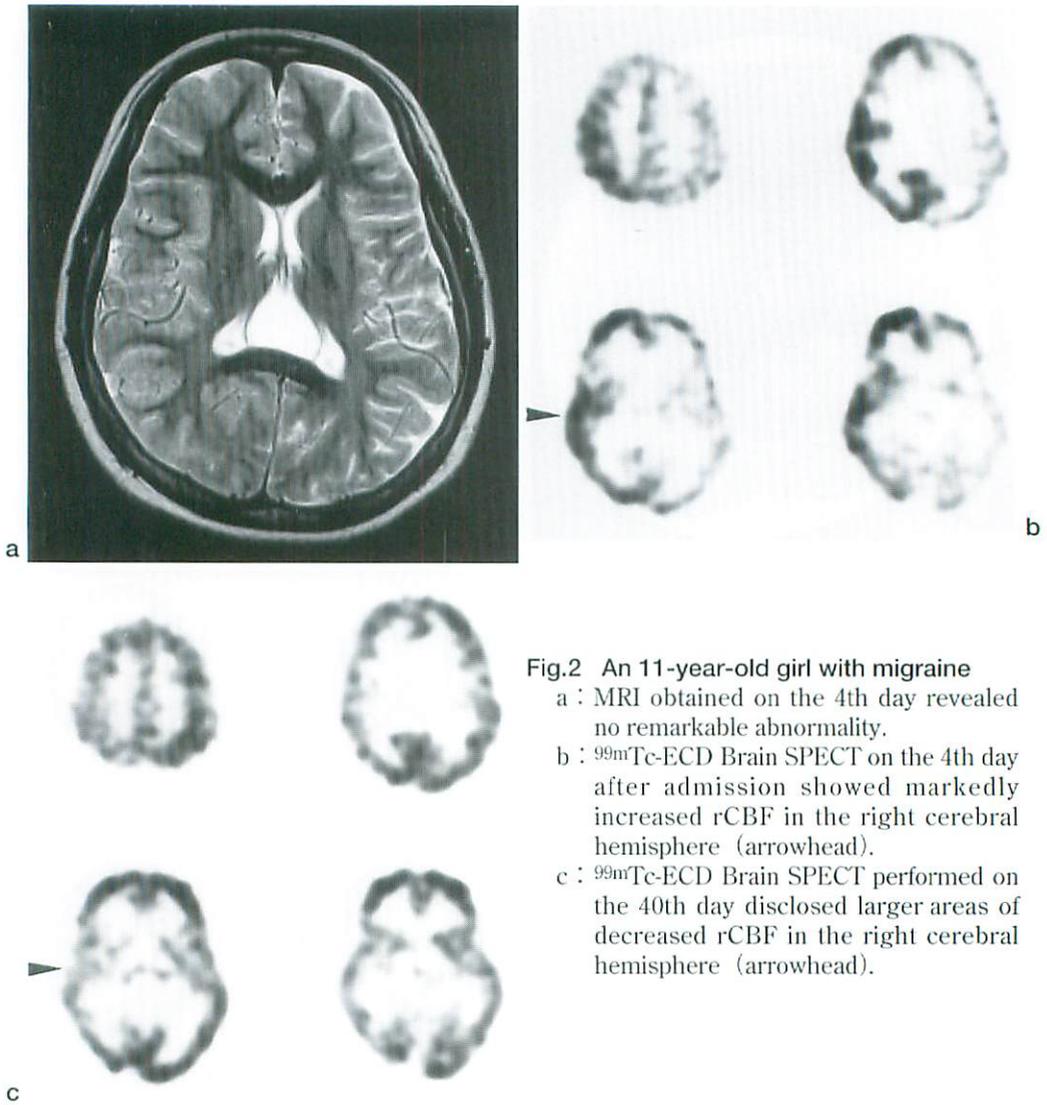
## DISCUSSION

Acute hemiplegia syndrome (AHS) is a generalized name for sudden onset of an acute hemiplegia in infants and children, caused by acute encephalopathy, cerebral vascular diseases, brain tumor and central nervous infectious diseases and so on. The acute encephalopathy type of acute hemiplegia syndrome frequently



**Fig.1** A 6-year-old girl with HSV (herpes simplex virus) encephalitis

- a : CT scan on admission revealed no remarkable abnormality.
- b : MRI obtained on the 5th day revealed no remarkable abnormality.
- c :  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT on the 8th day after admission showed markedly increased rCBF in the left cerebral hemisphere (arrowhead).
- d :  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT performed on the 27th day disclosed larger areas of decreased rCBF in the left cerebral hemisphere (arrowhead).
- e : On the follow-up  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT performed 19 month later, decreased rCBF in the left cerebral hemisphere returned to almost normal.



**Fig.2 An 11-year-old girl with migraine**

- a : MRI obtained on the 4th day revealed no remarkable abnormality.
- b :  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD Brain SPECT on the 4th day after admission showed markedly increased rCBF in the right cerebral hemisphere (arrowhead).
- c :  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD Brain SPECT performed on the 40th day disclosed larger areas of decreased rCBF in the right cerebral hemisphere (arrowhead).

results in serious neurologic sequelae and an explanation of its pathophysiological mechanism would be highly desirable. AHS which is estimated by  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT has rarely been described previously<sup>3)</sup>.

For the cerebral perfusion imaging agents,  $^{123}\text{I}$ -IMP,  $^{99m}\text{Tc}$ -HMPAO and  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD are clinically available.  $^{123}\text{I}$ -IMP is useful for the detection of cerebral ischemia, because of its sensitivity, non-invasiveness and accurate reflection of the cerebral blood flow distribution<sup>4)</sup>.  $^{99m}\text{Tc}$ -HMPAO has been shown to improve the sensitivity and accuracy of cerebral imaging in cases of epilepsy,

dementia and stroke<sup>5~7)</sup>. Using  $^{123}\text{I}$ -IMP and  $^{99m}\text{Tc}$ -HMPAO several cases of viral encephalitis have been reported previously<sup>8~11)</sup>. But studies of viral encephalitis estimated by  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD have rarely been reported. Hirayama et al reported<sup>12)</sup> one case of respiratory syncytial virus encephalitis. Nagamachi et al reported<sup>3)</sup> 6 cases of viral encephalitis estimated by  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD.

The use of SPECT in viral encephalitis has been controversial. Nagamachi et al reported<sup>3)</sup> a case of HHV-6 encephalitis which showed hyperperfusion in the affected area (bilateral

frontal and left fronto-temporal lobes) on  $^{99m}\text{Tc}$ -HMPAO SPECT examined 23 days after onset. The hyperperfusion phenomenon of increased rCBF which is revealed on the radionuclide brain SPECT is recognized in cases of viral encephalitis, especially in HSV encephalitis. Increased rCBF has been described in the ictal phase of focal epilepsy<sup>13)</sup> and in the luxury perfusion phase of stroke<sup>14)</sup>, but in the report of Launes et al<sup>15)</sup>, the magnitude and duration of increased rCBF in these two conditions were considerably less than those seen in HSV encephalitis. Nara et al reported<sup>9)</sup> a case of acute encephalitis which exhibited hyperperfusion. The neurologic outcome of that case was poor. According to Lee et al<sup>16)</sup>, in stroke or HSV encephalitis, hyperperfusion is believed to be induced by tissue acidosis from the end product of impaired cellular metabolism. Therefore, the demonstration of hyperperfusion indicates necrosis of brain tissue.

In contrast, Kao et al reported<sup>17)</sup> that  $^{99m}\text{Tc}$ -HMPAO brain SPECT in the acute phase in 17 of their 18 cases, including HSV, Epstein-Barr virus and Japanese B virus encephalitis, had increased rCBF in the initial brain SPECT scans. Follow-up brain SPECT showed that 12 of 17 cases had normal second brain SPECT and 5 cases had decreased rCBF. The group of patients with normal rCBF on the follow-up brain SPECT had a better clinical outcome (no neurologic defect) than those with decreased rCBF (learning disability or decreased intelligence). They concluded that  $^{99m}\text{Tc}$ -HMPAO brain SPECT has a high diagnostic accuracy as well as good localization in children with viral encephalitis, and serial  $^{99m}\text{Tc}$ -HMPAO brain SPECT should serve as a good guide for predicting the outcome in children with viral encephalitis. The decreased rCBF may suggest more severe damage to the brain secondary to viral encephalitis. This could explain the observation that patients with decreased rCBF had poor clinical outcomes.

Jarjour reported<sup>18)</sup> that it is important to

emphasize that SPECT studies cannot quantify absolute values of brain perfusion. Only marked regional asymmetric findings will be seen. Global changes most likely will be missed.

In some of our cases initial brain SPECT could not detect increased rCBF but showed already decreased rCBF. Three reasons for these results are considered.

First, when SPECT study is done, the timing of the examination seems very important. If the SPECT was done in the acute phase of illness, it might have shown hyperperfusion in the affected area. Nagamachi et al reported<sup>3)</sup> 1 case of influenzal virus encephalitis estimated by  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT.  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT obtained 3 days after onset revealed increased rCBF. Follow-up  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD brain SPECT showed decreased rCBF in the same area.

Second is what radio pharmaceutical is used.  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD does not show reperfusion hyperemia in the subacute phase of a stroke<sup>19, 20)</sup>. Fazekas et al reported<sup>21)</sup> that hypofixation of  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD leads to failure to detect the characteristic findings of temporal lobe hyperemia in acute herpes simplex encephalitis.  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD is hydrolyzed to polar metabolites by deesterification<sup>22)</sup>. The decrease of  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD activity indicates the absence or reduction of this enzymatic process in the inflammatory lesion of encephalitis.  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD may be a better indicator of the extent of tissue damage and prognosis than the visualization of hyperemia<sup>20, 23)</sup>.

Third, the toxicity of the relevant viruses is considered. Nagamachi et al reported<sup>3)</sup> that MRI showed no remarkable abnormality in 51.4% of hypoperfused SPECT lesions of viral encephalitis. About 30% of hypoperfused areas returned to normal on follow-up SPECT. Maeda et al reported<sup>24)</sup> a case of influenza B virus encephalitis. Although MRI showed no remarkable abnormality,  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD SPECT revealed decreased rCBF. Follow-up  $^{99m}\text{Tc}$ -ECD SPECT showed no focal decreased rCBF. The decreased rCBF revealed on the previous

SPECT disappeared and returned to normal. Fujii et al reported<sup>25)</sup> a case of influenzal encephalitis which revealed larger areas of decreased uptake on <sup>123</sup>I-IMP SPECT, although the patient has no apparent neurologic sequelae. They discussed that decreased uptake on brain SPECT indicates that neuronal function has been impaired and/or that the peripheral circulation is disturbed but not suggestive of widespread infarction or necrosis.

It is important to know the normal distribution of the cerebral perfusion tracers in the infants and younger children. Tokumaru et al reported<sup>26)</sup> that by age 3 months, the activity appeared in the frontal and temporal cortices but was still lower than that in the parietal and occipital cortices. At 8 months of age, the activity in the frontal and temporal cortices and basal ganglia was lower still, and by 2 years of age, the pattern of <sup>123</sup>I-IMP SPECT uptake resembled that of adults. Thus the time course of the changes in <sup>123</sup>I-IMP uptake in the developing brain as detected by SPECT is similar to that of myelination and most likely reflects an overall topologic maturational pattern of the brain. Therefore in some of our cases initial brain SPECT might show relatively hyperperfused rCBF in the bilateral frontal and temporal lobes in comparison to the normal infantile distribution of cerebral perfusion tracers.

### CONCLUSION

<sup>99m</sup>Tc-ECD brain SPECT is a useful examination for the diagnosis and follow up management in patients with the acute onset type of pediatric CNS diseases.

### REFERENCES

- Whitley RJ, Soong SJ, Dolin R, et al : Adenosine arabinoside therapy of biopsy-proved herpes encephalitis : National Institute of Allergy and Infectious Disease : collaborative antiviral study. *N Engl J Med* 1977; 279 : 289-294.
- Whitley RJ, Alford CA, Hirsch MS, et al : Vidarabine versus acyclovir therapy in herpes simplex encephalitis. *N Engl J Med* 1986 ; 314 : 144-149.
- Nagamachi S, Jinnouchi S, Kodama T, et al : Usefulness of rCBF SPECT in patients with Encephalitis : Comparison Study with MRI. *Kakuigaku* 1997 ; 34 : 7-17.
- Shirasaka Y, Ito M, Okuno T, et al : Sequential [<sup>123</sup>I] IMP-SPECT in acute infantile hemiplegia. *Pediatr Neurol* 1989 ; 5 : 306-310.
- Biersack HJ, Stefan H, Reichmann K : <sup>99m</sup>Tc-HM-PAO brain SPECT and epilepsy. *Nucl Med Commun* 1987 ; 8 : 513-518.
- Ell PJ, Cullum I, Costa DC : Regular cerebral blood flow mapping with <sup>99m</sup>Tc-labelled compound. *Lancet* 1985 ; 2 : 50-55.
- Smith FW, Gemmel HG, Sharp PF : The use of <sup>99m</sup>Tc-HMPAO for the diagnosis of dementia. *Nucl Med Commun* 1987 ; 8 : 525-528.
- Luanes J, Nikkinen P, Lindroth L, et al : Diagnosis of acute herpes simplex encephalitis by brain perfusion single photon emission computed tomography. *Lancet* 1988 ; 2 : 1188.
- Nara T, Nozaki H, Nishimoto H, et al : Brain perfusion in acute encephalitis : relationship to prognosis studied using SPECT. *Pediatr Neurol* 1990 ; 6 : 422.
- Schmidbauer M, Podreka I, Wimberger D, et al : SPECT and MR imaging in herpes simplex encephalitis. *J Comput Assist Tomogr* 1991 ; 15 : 811.
- Kao CH, Wang SJ, Mak SC, et al : Viral encephalitis in children : Detection with technetium-99m-HMPAO brain single-photon emission CT and its prediction of outcome. *Am J Neuroradiol* 1994 ; 15 : 1369.
- Hirayama K, Sakazaki H, Murakami S, et al : Sequential MRI, SPECT and PET in respiratory syncytial virus encephalitis. *Pediatr Radiol* 1999 ; 29 : 282.
- Franck G, Sadzot B, Salmon E, et al : Regional cerebral blood flow and metabolic rates in human focal epilepsy and status epilepticus. *Adv Neurol* 1986 ; 44 : 935-948.
- Spreafalco G, Gammelli F, Gadola G, et al : Luxury perfusion syndrome in cerebral vascular disease evaluated with technetium-99m-HM-PAO. *Clin Nucl Med* 1987 ; 12 : 217-218.
- Launes J, Nillinen P, Lindroth L, et al : Diagnosis of acute herpes simplex encephalitis by brain perfusion single photon emission computed tomography. *Lancet* 1988 ; 2 : 1188-1191.
- Lee RGL, Hill TC : N-isopropyl (I-123) p-iodoamphetamine brain scans with single photon

- emission tomography : Discordance with transmission computed tomography. *Radiology* 1982 ; 145 : 795-799.
- 17) Kao CH, Wang SJ, Mak SC, et al : Viral encephalitis in children : detection with technetium-99m HMPAO brain single-photon emission CT and its value in prediction of outcome. *Am J Neuroradiol* 1994 ; 15 : 1369-1373.
  - 18) Jarjour IT : Brain perfusion in acute encephalitis (letter to editor). *Pediatr Neurol* 1991 ; 7 : 392.
  - 19) Lassen NA, Sperling B : Technetium-99m-bicisate reliably images CBF in chronic brain diseases but fails to show reflow hyperemia in subacute stroke : report of a multicenter trial of 105 cases comparing Xe-133 and Tc-99m-bicisate (ECD, Neurolite) measured by SPECT on same day. *J Cereb Blood Flow Metab* 1994 ; 14 : 44-48.
  - 20) Tsuchida T, Nishizawa S, Yonekura Y, et al : SPECT images of technetium-99m-ethyl cysteinate dimer in cerebrovascular diseases : comparison with other cerebral perfusion tracers and PET. *J Nucl Med* 1994 ; 35 : 27-31.
  - 21) Fazekas F, Roob G, Payer F, et al : Technetium-99m-ECD SPECT fails to show focal hyperemia of acute herpes encephalitis. *J Nucl Med* 1998 ; 39 : 790-792.
  - 22) Walovitch RC, Franceschi M, Picard M, et al : Metabolism of Tc-99m-L, L-ethyl cysteinate dimer in healthy volunteers. *Neuropharmacology* 1991 ; 30 : 283-292.
  - 23) Brass LM, Walovitch RC, Joseph JL, et al : The role of single-photon emission computed tomography brain imaging with Tc-99m-bicisate in the localization and definition of mechanism of ischemic stroke. *J Cereb Blood Flow Metab* 1994 ; 14 : 91-98.
  - 24) Maeda A, Miyamae T : Viral encephalitis. Quantitative cerebral perfusion SPECT for therapy. Tokyo, Medicalview, 1999, p102-103.
  - 25) Fujii Y, Kuriyama M, Konishi Y, et al : MRI and SPECT in influenzal encephalitis. *Pediatr Neurol* 1992 ; 8 : 133-136.
  - 26) Tokumaru AM, Barkovich AJ, O'uchi T, et al : The evolution of cerebral blood flow in the developing brain: evaluation with iodine-123 iodoamphetamine SPECT and correlation with MR imaging. *Am J Neuroradiol* 1999 ; 20 : 845-852.
-