

Remission of Atelectasis Based Congenital Bronchial Stenosis in VLBWI

Masatoshi NAKAMURA^{1,2)}, Kouzi IDE¹⁾, Mariko MORI^{1,2)},
Takashi SETOUE^{1,2)}, Makoto TSUTSUMI^{1,2)}, Chizuru HASHIGUCHI^{1,2)},
Shinkai INOUE^{1,2)}, Ryutaro KINOSHITA^{1,2)}, Eiji OHTA^{1,2)},
Toshiko MORI^{1,3)}, Shinichi HIROSE^{1,2)}

¹⁾ Department of Pediatrics, Faculty of Medicine, Fukuoka University

²⁾ Division of Neonatology, Center for Maternal, Fetal and Neonatal Medicine, Fukuoka University Hospital

³⁾ Department of Pediatrics, Fukuoka Sanno Hospital

Abstract: Atelectasis can lead to congenital bronchial stenosis while also sometimes developing into pulmonary infection. Recurrent pulmonary infections require a pneumonectomy. A newborn female presented with very low birth weight and was delivered at 27 weeks 4 days gestation. She weighed 1152 g and had an Apgar score of 2 points (at one minute) and 6 points (at 5 minutes). She was intubated at birth and given an intratracheal injection of ST-A, followed by respiratory care. A chest X-ray taken at birth showed atelectasis in section S6 of the left lung; it remained after one year. The infant remained intubated for 30 days after birth, thereafter her breathing stabilized and she was discharged from the NICU at 118 days. physiotherapy was continued during ambulatory treatment at home with the help of her parents. A chest X-ray showed that her atelectasis had disappeared one year after birth. Family administered physiotherapy proved to be an effective remedy and surgical treatment was thereby avoided.

Key words: Bronchial stenosis, Atelectasis, Newborn, VLBWI, physiotherapy

1歳4カ月に軽快した 先天性気管支狭窄にもとづく無気肺の極低出生体重児例

中村 公紀^{1,2)} 井手 康二¹⁾ 森井真理子^{1,2)} 瀬戸上貴資^{1,2)} 堤 信^{1,2)}
橋口 千鶴^{1,2)} 井上 真改^{1,2)} 木下竜太郎^{1,2)}
太田 栄治^{1,2)} 森 聡子^{1,3)} 廣瀬 伸一^{1,2)}

¹⁾ 福岡大学医学部 小児科

²⁾ 福岡大学病院総合周産期母子医療センター 新生児部門

³⁾ 福岡山王病院 小児科

要旨：【はじめに】 気管支狭窄症にともなう無気肺は比較的まれな疾患であるが、無気肺や、繰り返す肺炎の原因として注意を要する疾患である。【症例】 症例は在胎 27 週 4 日、出生体重 1152 g で出生した。気管挿管し新生児呼吸窮迫症候群に対し人工サーファクタントの気管内注入をおこなった。人工サーファクタント注入後の胸部 X 線で右 S2 領域に無気肺が認められた。同無気肺が消失しないため気管支鏡をおこなったところ右気管支に狭窄が見られた。呼吸状態は安定していたため、日齢 30 に計画抜管した。抜管後も無気肺は残存していたが呼吸状態は安定しており、家族に在宅での理学療法について説明・指導を行い日齢 118 に退院し外来フォローとなった。生後 1 歳 4 カ月時の胸部 CT で無気肺の消失を確認し、以後 6 カ月が経過しているが再発を認めていない。【考察】 児の成長と家族による根気強い理学療法によって軽快したと推測される症例であった。家族への適切な説明と治療協力によって軽快した症例として報告する。

キーワード：先天性気管支狭窄症、無気肺、理学療法、新生児、極低出生体重児

はじめに

Betremieux らによると、先天性気管支狭窄症は呼吸管理を要した新生児の 1～3% とされている比較的まれな疾患である¹⁾。同疾患に続発する無気肺は、呼吸器感染の温床となり肺炎を繰り返す際は、肺葉切除や気管形成術の適応となる。今回我々は在宅での理学療法を継続し、生後 1 歳 4 カ月に軽快した先天性気管支狭窄にもとづく無気肺の極低出生体重児の症例を経験した。家族への指導と理学療法の実践・児の成長により肺炎を繰り返すことなく経過したので報告する。

症 例

産科歴

自然妊娠成立後、特に経過に異常なく近医でフォローされていた。在胎週数 27 週 4 日、切迫早産のため当院産科に緊急母体搬送となり、子宮口全開大しており同日経陰分娩にて出生した。出生体重 1152 g の女児で、アプガースコア 2 点（1 分）／6 点（5 分）であった。

表 1

| |
|---|
| (症例) 在胎週数 27 週 4 日 出生体重 1152 g アプガースコア 2 点 (1 分) / 6 点 (5 分) |
| (出生時血液ガス所見) 静脈血液ガス所見 (肺サーファクタント注入後) pH 7.309 PCO ₂ 48.7 mmHg HCO ₃ ⁻ 23.7 mmHg BE -2.3 入院時胃液中 SP-A 615 [ng/ml] |

出生後の経過

出生後、直ちに気管挿管し NICU へ入室。胸部 X 線写真では Bommssel III であり、新生児呼吸窮迫症候群と診断した (図 1)。人工サーファクタント 1 V を注入し、



図 1 入院時胸部 X P (人工サーファクタント注入前)

人工呼吸管理を開始した。出生時の検査所見を表 1 に示す。人工サーファクタント注入後の胸部 X 線写真で、肺野の透過性改善にともない右 S2 領域に無気肺が認められた (図 2)。日齢 1 の呼吸状態は安定していたため、人工サーファクタントの再注入はおこなわず、陽圧換気での無気肺の改善を期待して、人工呼吸管理を続行した。また、理学療法は体位変換と気管内吸引 (shallow 法) を用いた。日齢 9 に計画抜管をおこない nasal DPAP (以下 n-DPAP と略す) へ変更したが無呼吸発作が頻発し再挿管した。胸部 X 線写真上で肺野の透過性低下を認めたため慢性肺疾患への進行を考え、ヒドロコルチゾンの静

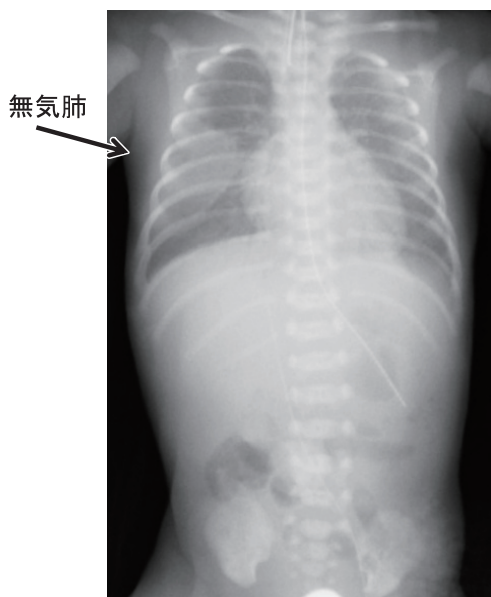


図2 日齢1 (人工サーファクタント注入後)

脈内投与を開始した。これにより肺野の透過性は改善したが、無気肺は残存していた。日齢20に胸部CT撮影をおこない、右上葉B2閉塞とS2の無気肺を指摘され、右気管支の狭窄が疑われた(図3)。去痰剤の内服と左側臥位での体位ドレナージを開始した。レントゲン所見に改善が見られないため日齢23に気管支ファイバーをおこなったところ右気管支の狭窄が認められた。(直径2mmのファイバーでの観察のため狭窄部位の撮影はできなかった)。以降も無気肺残存していたが呼吸状態安定していたため、日齢30に計画抜管をおこないn-DPAPへ移行した。以降、胸部X線写真で無気肺のフォローアップを行うも、無気肺は消失せず残存していた。日齢85に胸部CTで再評価をおこないS2に無機肺の残存を確認した(図4)。

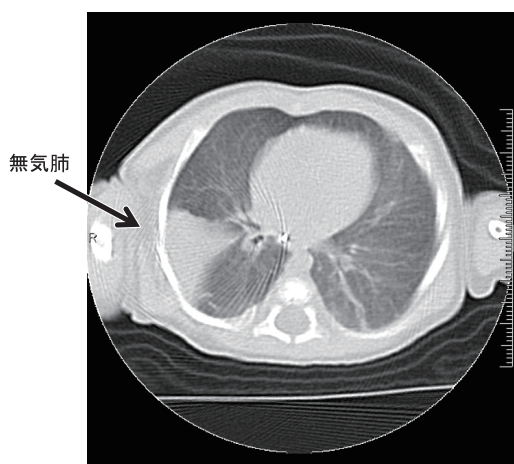


図3 胸部単純CT (日齢20)

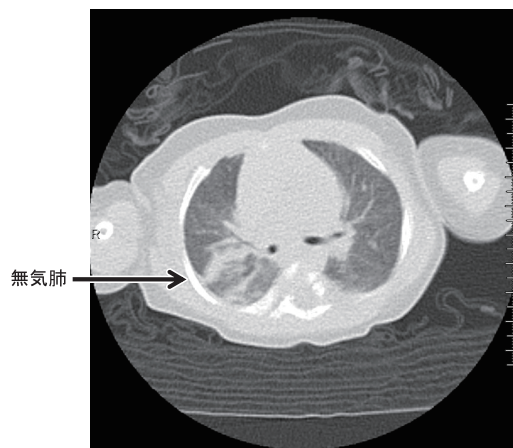


図4 胸部単純CT (日齢85)

日齢118に無気肺は残存していたが呼吸状態も安定しており、現在呼吸管理の必要がなく経過中反復性の肺炎も認められないことから、ご両親に児の成長に伴う狭窄の軽減を期待して自宅での理学療法を続行していただき外来で経過観察を行っていく方針であること、今後呼吸器感染を繰り返す場合に手術的治療を検討することを説明した。ご両親の同意を得て自宅で去痰剤の内服、気管支拡張剤の吸入と理学療法(左側臥位での体位ドレナージ、右胸部の軽打法)を行っていただくこととし、体重3640gで退院した。生後4カ月と8カ月に胸部フォローアップCTを撮影したが、無気肺は残存していたが肺炎の合併なく経過した。

1歳2カ月に肺炎の診断で9日間の入院加療を受けた。退院時も無気肺残存していた(図5)。1歳4カ月、外来での胸部X線写真で無気肺消失を確認した(図6)。

1歳11カ月に3DCT撮影をおこなった。患児の右中気管支管は直径約4mmと細く、左主気管支の直径6mmと比較し狭窄が見られ、また右上葉枝も細い印象を受

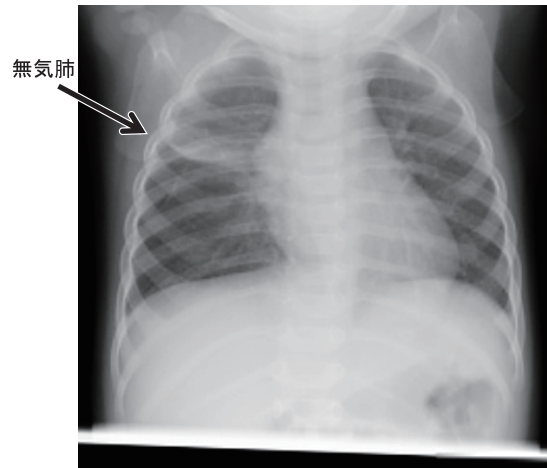


図5 胸部単純X P (生後1歳2カ月)



図6 胸部単純XP (生後1歳4カ月)

けた (図7). その後も無気肺の再発は認めず, 肺炎の発症も認めていない.

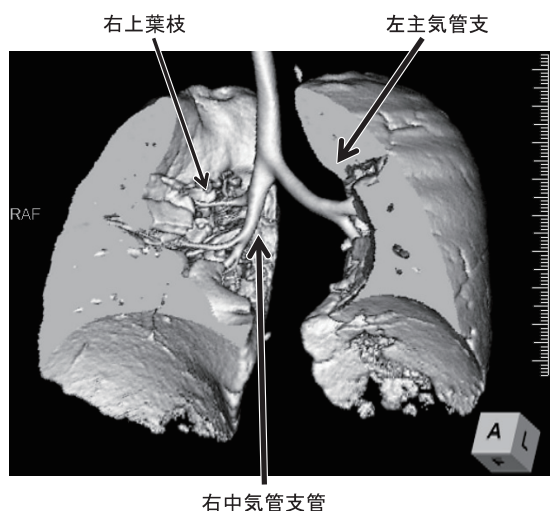


図7 胸部3D-CT (生後1歳11カ月)

考 察

新生児発症の先天性気管支狭窄は, 先天的な気管組織の形成異常に起因する¹⁾. 通常, 気管挿管し Positive end-expiratory pressure (以下 PEEP と略す) をかけ気管内を陽圧に保つことで呼吸が確保できるが, 無気肺や再挿管を繰り返さし, 胸部 CT や気管支鏡で診断にいたる. 出生時に先天性気管支狭窄症が認められる頻度は人工呼吸管理を必要とした新生児の 1 ~ 3 % との報告があり, 繰り返す無気肺や抜管困難症の原因として鑑別しなければならない疾患である¹⁾. 気管支狭窄の治療として気管支鏡によるバルーン拡張術の報告もあるが 11 例中

4 例が死亡しており, 安全な治療とは言い難く, 画一的な治療法はないと述べられている¹⁾. また, 気管支鏡による気管吸引と気管切除を行った症例報告もある²⁾. 近年の報告では明らかな呼吸障害例に対して 3DCT にて確定診断を行い, バルーン拡張術やステント留置術, 気管支切除術などを行っている^{3, 4)}. 児は極低出生体重児であり, ①人工呼吸器からの離脱, ②感染の反復がないことを目標として治療を行った. 呼吸器離脱のためのウィーニングを進めながら看護師による理学療法を継続したが無気肺は軽快しなかった. 臨床的には呼吸状態は改善し, 人工呼吸器からの離脱が可能と判断し計画抜管した. 入院中に肺炎の合併なく経過したため, 呼吸器感染を繰り返す場合は手術的治療も考慮することの説明をおこなったうえで, 家族に退院を前から理学療法の指導を行う方針とした. 退院後も家族による理学療法(吸入, 体位ドレナージ, 軽打法)を続けていった結果, 1歳4カ月の胸部X線写真で, 無気肺の消失が確認された.

今回の症例が理学療法によって軽快した背景には, 児の成長に伴う改善が期待できたことや, 無気肺が残存していたものの, 人工呼吸管理から順調に離脱できたことがあげられる. 3D-CT で認められた気管支の右上葉枝の狭窄により S2 領域に無機肺を発症したと考えられた⁵⁾. 新生児発症の先天性気管支狭窄による無気肺は, 日々成長していくは新生児において, 理学療法を続けることで肺葉切除をすることなく自然軽快が期待できる可能性を持つ疾患と考えられる. 今回のように人工呼吸管理からの離脱に成功し, 呼吸器感染を繰り返すことがない場合, 家族教育を行い理学療法による長期治療にて軽快を待つことを選択肢として持つべき疾患であると思われた.

文 献

- 1) P Betremieux, C Treguier, P Pladys, J Bourdiniere, G Leclech, C Lefrancois : Tracheobronchography and balloon dilatation in acquired neonatal tracheal stenosis. Archives of Disease in Childhood. 72:F3-F7, 1995
- 2) H. S. Nagaraj, Roger Shott, Richard Fellows, Uraib Yacoub Louisville, Kentucky: Recurrent Lobar Atelectasis Due to Acquired Bronchial Stenosis in Neonates. J of Pediat Surg P411-415, 1980
- 3) Christoph M. Heyer, MD, Thomas G. Nuesslein, MD, David Jung, MD, Soeren A. Peters, MD, Stelan P. Lemburg, MD, Christian H. L. Rieger, MD, Volkmar Nicolas, MD: Tracheobronchial Anomalies and Stenoses. Radiology. 242P542-P549 (2007)
- 4) D. Albert: Management of suspected tracheobronchial stenosis in ventilated neonates. Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed 72:F1-F2 (1995)
- 5) 雫本忠市, 吉田豊, 小児科学大全 呼吸器 P55-57 (1990)
(平成 23. 4. 5 受付, 平成 23. 5. 31 受理)