

無呼吸発作で発症した新生児

急性喉頭蓋炎の1例

野替正二, 高柳勝, 阿部淳一郎
中川洋, 渡辺修一, 加藤義明

はじめに

急性喉頭蓋炎は主として乳幼児に発症する疾患で、喉頭蓋と喉頭上部の炎症により嗄声、嚥下困難が出現し進行すれば数時間のうちに気道の狭窄によって呼吸困難、ショック状態を惹起して死に至ることもある。このため小児科領域において緊急性の高い疾患の一つといえる。今回我々は新生児期に無呼吸発作・チアノーゼにより発症した急性喉頭蓋炎の一例を経験したので若干の考察を加えて報告する。

症 例

患児: Y.O. 生後 24 日 女児

主訴: 無呼吸発作, チアノーゼ

家族歴, 妊娠分娩歴: 特記すべきことなし

現病歴(図1): 患児は昭和63年2月23日, 在胎38週4日, 出生体重3,210gで正常分娩により出生した。アプガールスコアは1分8点, 5分10点。羊水に混濁はなく, 黄疸, 感染徵候も認めなかった。出生直後の呼吸状態は安定し, 周産期に異常なく生後5日目に退院となった。第16生日より咳嗽, 咳痰を認めるようになり, 数日後にはチアノーゼも出現するようになったため某院に入院となった。同院において新生児期に無呼吸をきたす疾患の診断のために髄液検査, 頭部CT, 脳波, 心エコー, 心電図, 聴性脳幹反応(ABR)などを施行されたが陽性所見が得られず, その後は一旦落ち着いたため退院となった。しかし, その後も息を止めて真っ黒になるという状態に陥ったために, 再度同院へ入院し, 対症療法を行ない軽快し

たが, その後に乳児突然死症候群(SIDS)のrisk babyとして当科へ紹介となった。

入院時現症: 体格, 栄養は共に中等度で外表奇形は認めない。顔貌は蒼白で, 体動は不活発であり, 刺激には反応するものの傾眠状態であった。啼泣とともに四肢は大理石様となり容易に無呼吸発作が起こった。発熱, 黄疸は認めない。大泉門は平坦で項部硬直等の髄膜刺激症状及び深部反射等の異常は認めず, Moro反射等の原始反射も正常であった。また胸部, 腹部に異常所見は認められなかった。

入院時検査所見(表1): 末梢血液像, 電解質, 血液生化学, 尿検査では明らかな異常所見はなく, 炎症所見も認めなかった。咽頭培養では正常細菌叢のみを検出した。胸部レ線では心拡大はなく, 肺血管陰影は正常であり, 肺の過膨張像のみを認めた。足底穿刺による血液ガス分析では, pH 7.332, pCO_2 48.2 mmHg, PO_2 56.5 mmHg, BE -1.3 mEq/l, Sat. 86.6% と軽度の呼吸性アシドーシスを認めた。

入院後経過: 入院後, 哺乳時及び理学療法施行時に突然の咳こみに続く無呼吸発作が頻発し容易にチアノーゼをおこした。このため, 入院2日目

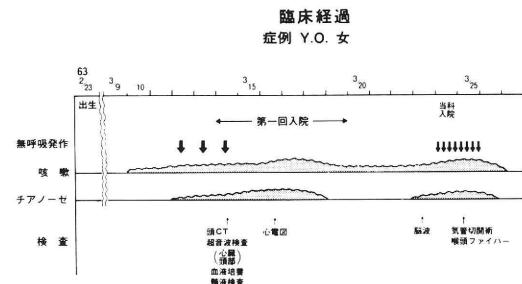


図1.

表1. 入院時検査成績

血液学的検査			生化学的検査		
WBC	8000	/mm ³	GOT	24	IU
RBC	419	×10 ⁴ /mm ³	GPT	16	IU
Hb	13.8	g/dl	ALP	457	IU
Ht	44.2	%	LDH	432	IU
PLT	31.1	×10 ⁴ /mm ³	T-B	1.5	mg/dl
			T-P	5.5	g/dl
血清・免疫学的検査			Alb	3.9	g/dl
CRP	<0.22	mg/dl	BUN	11	mg/dl
百日咳抗体	<10倍		Cr	0.5	mg/dl
			UA	11	mg/dl
咽頭培養			IgG	600	mg/dl
Streptococcus viridans (+++)			IgA	29	mg/dl
血液ガス分析			IgM	54	mg/dl
pH	7.332		Na	138	mEq/l
pCO ₂	48.2	mmHg	K	4.7	mEq/l
pO ₂	56.5	mmHg	Cl	106	mEq/l
BE	-1.3	mEq/l	Ca	9.6	mg/dl
HCO ₃	24.9	mEq/l	P	6.5	mg/dl
Sat.	86.6	%			

に頸部側面のレ線撮影を施行したところ、喉頭附近に気道を閉塞するような形で存在する、長径約1 cm 程の橢円形の塊状陰影を認めた(図2-a)。これがチアノーゼ発作の原因である可能性が濃厚であり、放置すれば気道の完全閉塞から死に至る危険もあったため耳鼻咽喉科スタッフと協議し気管切開術を施行した。術直後に施行した喉頭ファイバースコープではレ線上認められていたmassは著明に腫大した喉頭蓋であることが判明した(図2-b)。喉頭蓋は高度に腫張し、気道の狭い窄のために声帯は視認が難しかった。術後は症状は劇的に改善した。以上から患児の繰り返す無呼吸発作の原因は腫張した喉頭蓋による気道の閉塞であると考え、急性喉頭蓋炎と診断した。その後は経管栄養、補液、抗生素(PIPC 150 mg/kg/day + CMZ 100 mg/kg/day)の投与を行ない、喉頭蓋の浮腫の軽減のため、プレドニゾロン(1 mg/kg/day)を術後3日間のみ使用した。頸部側面レ線像及び喉頭ファイバースコープにより経過を観察したが、術後7日目にはレ線上明らかなmassは消失した

(図2-c)。喉頭ファイバースコープ上では術後6日目には喉頭蓋の腫張が残存していたものの(図2-d),術後10日目, 20日目にはほぼ正常に復した(図2-e, f)。経管栄養も順調であり、入院26日目には、気管カニューレの抜去が可能となった。切開部は肉芽の形成などによる閉塞は惹起せずに治癒した。術後30日目には経口哺乳が可能となり、その後は経過良好で5月14日(入院52日目)に退院となった。

考 察

無呼吸発作は20秒以上の呼吸停止が見られるか、20秒以内の呼吸停止でも徐脈(100/min以下)を伴う場合と定義されている。小児科領域においては重篤な疾患に伴うことが多く、新生児期では未熟性に起因するもののほか、中枢神経系、心肺疾患、感染症、体液電解質の異常、低血糖などの一症状であることが多い(表2)。無呼吸発作は原因により3つのタイプに分けられる。このうち呼吸中枢からの刺激の異常により胸郭や横隔膜の運



図 2-a.

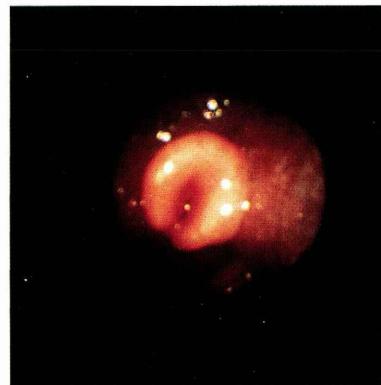


図 2-d.



図 2-b.



図 2-e.

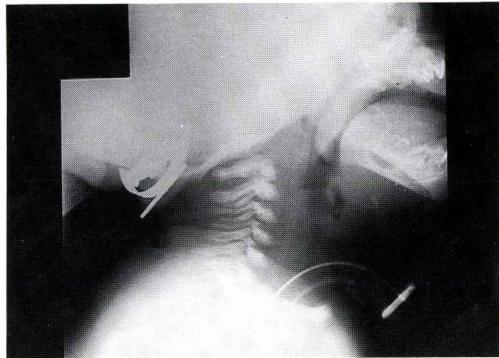


図 2-c.



図 2-f.

動とともに気流の停止するものを中枢性無呼吸 (central apnea), 気道の閉塞が存在するために胸郭や横隔膜の呼吸運動にもかかわらず気流が停止するものを閉塞性無呼吸 (obstructive apnea) とよんでいる。また最初は中枢性無呼吸と同様だが,

その後出現する努力性呼吸にもかかわらず気流が停止したままの状態を混合性無呼吸 (mixed apnea) と呼ぶ。鑑別診断のポイントとしては無呼吸発作時の胸郭の運動や喘鳴, 嘎声, 陥没呼吸の有無, またけいれん発作や神経学的症候の異常の有無等である。

表2. 無呼吸発作をきたす新生児疾患

1. 未熟性に起因するもの
低出生体重児一次性無呼吸
2. 中枢神経系疾患
頭蓋内出血, 髓膜炎, 先天奇形
3. 呼吸器疾患
RBS, MAS, 肺炎
上気道の閉塞
4. 先天性心疾患
5. 消化器疾患
横隔膜ヘルニア, 先天性食道閉鎖症
胃食道逆流現象
6. 全身性疾患
低血糖症, 低Ca血症, 低Na血症
敗血症
先天性代謝異常

(会田による)

有無などが重要である¹⁾。施行すべき検査としては一般検査に加えて sepsis work up, 頭部 CT, 頭部および心臓超音波検査, 脳波が重要で, また心拍・呼吸・経皮的酸素分圧・酸素飽和度などのモニタリングが必要である。閉塞性無呼吸を疑う場合には頸部側面レ線撮影を行なう。神経筋疾患の診断のために筋電図や筋生検が必要な場合もある。本症例では当初施行された検査で中枢神経, 心肺疾患は否定的であった。原因不明の無呼吸発作を起こしていた児が後に乳児突然死症候群で死亡することがあるという報告もあり²⁾, 本症例は当初は乳児突然死症候群の risk baby と考えられた。しかし入院後の観察では患児は発作時には覚醒し, また発作は哺乳や咳嗽と関係し, 痙攣や項部硬直は認めなかった。このため, 喘鳴や呼吸音の異常は認めなかったが閉塞性無呼吸の可能性も高いと考えられ, 検索のため頸部側面レ線撮影を施行したことが診断の契機となった。

急性喉頭蓋炎は1歳から就学前の児に起こる疾患で好発年齢は2歳から4歳である。検索し得たなかで最も早期に発症した症例は生後6カ月であった³⁾。症状としては感染による症状と, 肿大した喉頭蓋による気道の閉塞症状が主であり, 高熱, 呼吸困難, 吸気性喘鳴, 嘸下困難, 嘎声, チアノーゼ, 流嚥などが多い。適切な治療が為されなければ

ば数時間のうちに気道の完全閉塞に進展し死に至ることもある。今回我々が経験した症例は生後16日目の発症であり, 過去の報告に比して非常に早期に発症している。また主な症状は無呼吸発作, チアノーゼであり, 咳嗽, 喘鳴なども軽度で, 炎症所見にも乏しかった。これらの点で本症例は非定型的であり, 診断が遅れた一因であろうと考えられた。急性喉頭蓋炎の起炎菌としては一般的に *Haemophilus Influenzae* group B が多いとされているが, 本症例においては常在菌しか検出されなかった。しかし, Bass らは本疾患に於て, 常在菌が患者の過半数から検出されたと報告しており⁴⁾, 咽頭培養の結果のみで本疾患を安易に否定はできないと考えられる。

本症例の診断においては obstructive apnea を疑うことより始まり, 頸部側面レ線撮影において腫大した喉頭蓋が観察できたことが有用であった。この方法は疑陽性はあるものの⁵⁾ 簡便に施行でき喉頭, 声門下の狭窄の有無を知ることができる^{4,6)}。またレ線上, 気道の狭窄を認めない場合には laryngomalacia, 声帯麻痺などを示唆している可能性もあるため, 当科では喘鳴, 陥没呼吸, チアノーゼなどの呼吸困難を呈している児には積極的に施行している。一方, 本症例においては喉頭ファイバースコープによって病変部の炎症の推移を直接視認でき, 非常に診断能力に優れているという印象を受けた。これによって喉頭蓋の発赤, 肿張の消失を目安として⁶⁾ 抜管の時期の選択が可能であった。喉頭ファイバースコープは喉頭上部, 声帯などの自然な動きが観察でき, 児に与える侵襲も少ないと生後すぐ施行できるという利点もある⁷⁻⁹⁾。小児は気道が狭く, 呼吸器疾患も多いことを考えると, 小児科領域でも積極的に導入すべき検査と考えられた。適応としては喘鳴, 弱声, 咳嗽, 無呼吸発作, 呼吸困難, 異物の検索などに有用である。最近当科では両側性の声帯麻痺, laryngomalacia など従来の検査では診断の難しかった症例を耳鼻咽喉科に依頼し喉頭ファイバースコープにより早期に診断し得ている。

急性喉頭蓋炎の治療としては気道の確保が最も重要であるとされている。Cantrell らの報告¹⁰⁾に

よれば急性喉頭蓋炎 738 例のうち、気管切開術 314 例、気管内挿管例 216 例の死亡率はそれぞれ 0.86%, 0.92% であったのに対し、いずれも施行しなかった 214 例の死亡率は 6.1% であり気道確保の必要性を示している。気管切開と気管内挿管のいずれを選択するかは議論があるが、手術が要らず入院期間の短縮が可能なことや気管狭窄などの合併症が殆ど無いことから後者を主流とする報告もある^{11,12)}。しかし気管内挿管は粘液栓によりチューブトラブルが起りやすく往々にして致死的であり、一方気管切開術は入院期間は長いがチューブの管理は容易であるとして推奨する意見もある¹³⁾。我々は気道確保の手段として気管切開術を選択した。これは頸部側面レ線撮影上、気道の狭窄が強く挿管チューブが入らないと思われたことや、病変部に刺激を与えることで気道が完全に閉塞することを危惧したためである。どちらを選択するかはこのように患児の状態や、その施設の耳鼻科医、麻酔科医、小児科医の経験に基き協議のうえ決定するのが良いと思われる。気道が確保されたならばその管理と、適切な抗生素の投与、補液他の全身管理を行なう。抗生素として我々はPIPCとCTXを用いたが文献的にはABPCを主体として要すればchloramphenicolを使用することが多いようである。しかしchloramphenicolは副作用の問題があり、ABPCは耐性菌の出現から使いづらい印象がある。本症例のように培養にて常在菌のみ検出することも多いため我々は最初からより抗菌スペクトラムの広い抗生素を用いるようにしている。

結 語

出生後、早期に無呼吸発作で発症した急性喉頭蓋炎の一例を報告した。

急性喉頭蓋炎等の上気道の疾患の診断には喉頭ファイバースコープ及び頸部側面レ線撮影が有用であった。

気管内挿管か気管切開術かの選択は患児の状態と小児科、耳鼻咽喉科、麻酔科スタッフの協議により決定するのが望ましいと考えられた。

最後に本症例について貴重な資料の提供と共に御指導御助言を頂きました仙台市立病院耳鼻咽喉科部長 菊田 宣男先生に深謝致します。

文 献

- 1) Alfred, N. Krauss, M.D.: Apnea in infancy: pathophysiology, diagnosis, and treatment. New York State Journal of Medicine, Fed. p. 89-96, 1986.
- 2) Beal, S.M.: Some epidemiological factors about sudden infant death syndrome (SIDS) in South Australia. New York, Academic Press, p. 15-28, 1983.
- 3) Benjamin, B. and O'Reilly, B.: Acute epiglottitis in infant and children. Ann. Otol. **85**, 565-572, 1976.
- 4) Bass, W., Steele, W. and Wiebe, A.: Acute epiglottitis. JAMA **229**, 671-675, 1974.
- 5) 枝庭康伸、山中龍宏: クループ 38 例の臨床的検討、小児科臨床 **41**, 203-209, 1988.
- 6) Diaz, H.M.D. and Lochhart, H.M.D.: Early diagnosis and airway management of acute epiglottitis in children. Southern Medical Journal. **75**, 399-403, 1982.
- 7) Fan, L.M.D. and Flynn, W.M.D.: Laryngoscopy in naonates and infants: Experience with the flexible fibroptic bronchoscope. The Laryngoscope **91**, 451-456, 1981.
- 8) Vauthy, A.M.D. and Reddy, R.M.D.: Acute upper airway obstruction in infants and children, evaluation by the fibroptic bronchoscope. Ann. Otol. **89**, 417-418, 1980.
- 9) Hawkins, B.M.D. and Clark, W.M.D.: Flexible laryngoscopy in naonates, infants, and young children. Ann. Otol. Rhinol. Laryngol. **96**, 81-85, 1987.
- 10) Cantrell, W.M.D., Bell, A.M.D. and Morioka, T.M.D.: Acute epiglottitis: intubation versus tracheostomy. Laryngoscope **88**, 994-1005, 1978.
- 11) Davis, H.W., et al.: Croup and epiglottitis, The Pediatric Clin. of North America, **28**, 4., 1981.
- 12) Milko, A.M.D., Marshak, G.M.D. and Striker, W.M.D.: Nasotracheal intubation in the treatment of acute epiglottitis. Pediatrics **53**, 674-677, 1974.

- 13) Odetoyinbo, F.R.C.S. : A comparison of intubation and tracheostomy in the management of acute epiglottitis in children in tropics. *J. Laryngology & Otology*, **100**, 1273-1278, 1986.