

マイコプラズマ感染に併発した plastic bronchitis の 1 例

北 沢 博, 新 堀 哲 也**, 村 田 祐 二
 斉 藤 由 佳, 早 坂 薫, 佐 古 恩
 今 井 香 織, 中 山 東 城, 渡 邊 庸 平
 近 岡 秀 二, 植 松 貢, 高 柳 勝
 安 藤 幸 吉*, 山 本 克 也, 大 竹 正 俊

はじめに

Plastic bronchitis は樹枝状の粘液栓の形成を特徴とする疾患であり, 20 世紀初期より報告はあるが小児での報告は少ない。当科でマイコプラズマ感染症に併発し, 気管支鏡を用いた粘液栓の除去が有効だった plastic bronchitis の症例を経験したので報告する。

症 例

患児: 10 歳, 女児

家族歴, 既往歴: 特記事項なし

主訴: 発熱, 咽頭痛, 咳嗽

現病歴: 2001 年 6 月中旬より 38°C 台の発熱, 咽頭痛が出現したため近医を受診し, 内服薬を処方

された。翌日, 症状の改善は見られず, 下痢が出現した。第 2 病日, 咳嗽, 下痢の症状が持続する

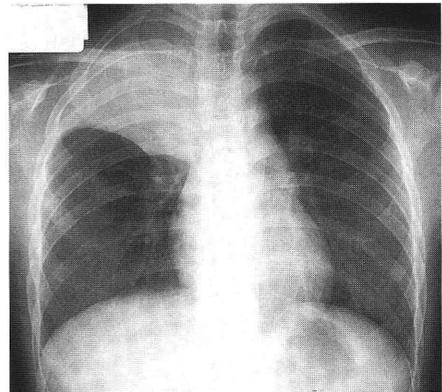


図 1. 入院時の胸部単純 X 線写真: 右上葉に無気肺を認める

表 1. 入院時検査成績

WBC	6,800/ μ l	GOT	23 IU/l	CRP	4.27 mg/dl
RBC	482 \times 10 ⁴ / μ l	GPT	15 IU/l	寒冷凝集反応	256 倍
Hb	13.1 g/dl	ALP	353 IU/l	マイコプラズマ抗体	40 倍
Ht	39.4%	LDH	455 IU/l	総 IgE	72 IU/ml
Plt	18.9 \times 10 ⁴ / μ l	BUN	11 mg/dl		
Seg	50%	Cre	0.5 mg/dl		
Eo	3%	TP	6.9 g/dl	尿検査	異常なし
Mo	11%	Alb	3.8 g/dl	血液ガス分析	異常なし
Ly	20%	Na	138 mEq/l		
At.Ly	1%	K	4.1 mEq/l	鼻腔培養	陰性
		Cl	102 mEq/l	静脈血培養	陰性

仙台市立病院小児科

*同 麻酔科

**東北大学医学部小児病態学分野

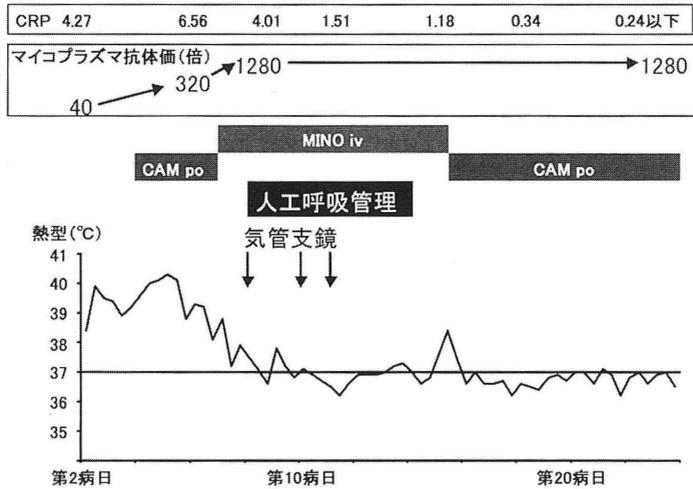
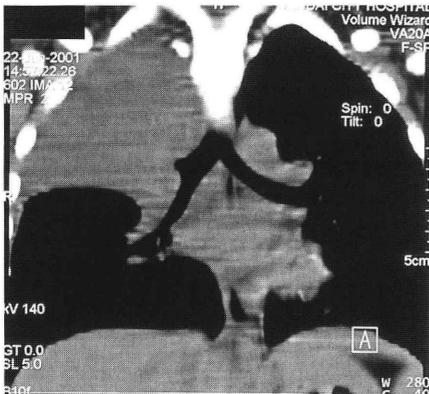


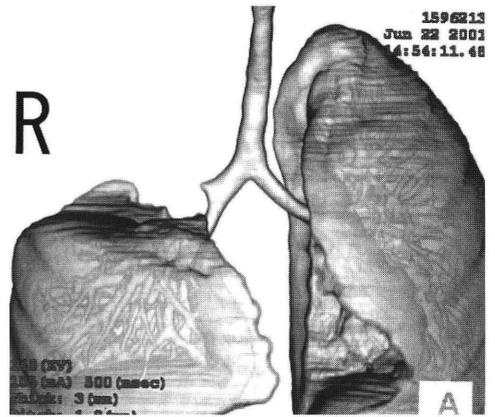
図2. 臨床経過 (MINO iv: 塩酸ミノサイクリン静注, CAM po: クラリスロマイシン経口)



a



b



c

図3. 第4病日胸部CT所見: a) 右上葉気管支の閉塞, 右上葉の虚脱が認められる. b) 冠状断像: 右上葉気管支の閉塞が明らかである. c) 3D CT像: 右上葉気管支の途絶, 上葉の虚脱が明らかである.

ため同医を再受診し胸部単純 X 線撮影にて右肺上葉に無気肺を認めたため, 当科を紹介され, 入院となった。

入院時現症: 体重 30 kg, 体温: 38.4°C, 酸素飽和度 (以下 SpO₂) 99% (room air)。意識清明, 頸部リンパ節触知せず, 咽頭部発赤を認めた。聴診

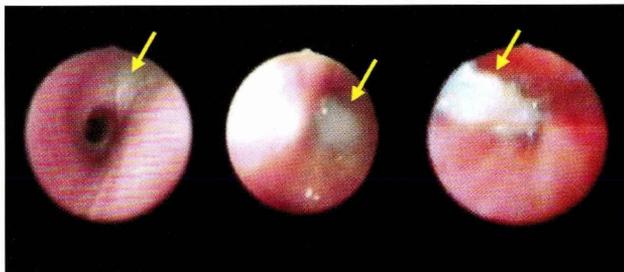


図4. 第8病日に施行した1回目の気管支鏡にて気管支を完全に閉塞する粘液栓を確認した(矢印)

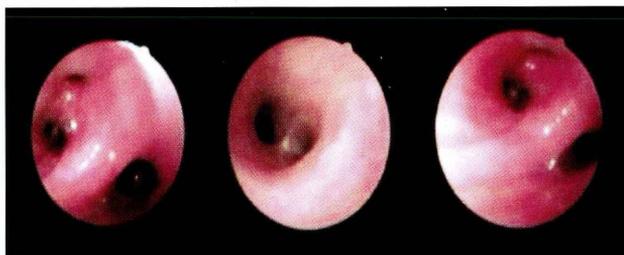


図5. 第11病日に施行した3回目の気管支鏡では粘液栓は殆ど見られなかった

上ラ音は聴取されなかったが呼吸音は右側で減弱していた。心臓、腹部など他に異常所見はみられなかった。

入院時検査所見(表1): CRPは4.27と上昇していたが、血算では異常を認めなかった。尚、この時点ではマイコプラズマ抗体は40倍、鼻腔細菌培養検査の結果は陰性だった。

胸部単純X線像(図1): 右上葉に無気肺を認めた。

経過(図2): 入院後、アミノフィリン持続静注、抗生剤静注、塩酸プロムヘキシシン静注、サルブタモール吸入、鎮咳去痰薬の内服にて治療を開始した。第4病日、症状の改善がみられず、胸部単純X線でも改善が認められないため胸部CT(図3)を施行し、右上葉気管支の閉塞、右上葉の完全な虚脱及び胸水の貯留を認めた。マイコプラズマ抗体は320倍まで上昇しておりクラリスロマイシン(以下CAM)の内服を追加した。その後、解熱傾向が見られるも咳嗽の改善はなく、第7病日のマイコプラズマ抗体は1,280倍まで上昇し、CAM経口投与を塩酸ミノサイクリン(以下MINO)静注に変更した。画像上の改善も見られないため第8

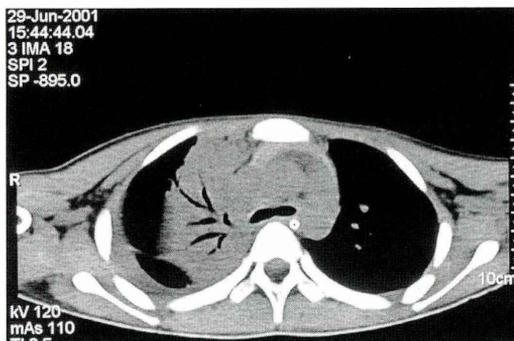


図6. 第11病日の胸部CTにてair bronchogramが認められた

病日、全身麻酔下で気管支鏡を施行した。気管支鏡にて右上葉気管支を完全に閉塞する粘液栓が認められた(図4)。吸引により可視範囲内のものを吸い上げることを試みたが痰は硬く、弾力性が強く吸引は充分に行えなかった。検査終了後、抜管せず、ICUにて人工呼吸管理となり、去痰剤静注及び吸入、体位ドレナージや用手胸郭圧迫換気補助(スクイーミング)などの理学療法を用いて積極的に痰の排出を促す治療を開始した。聴診上右上葉の呼吸音は改善せず第10病日、11病日に再

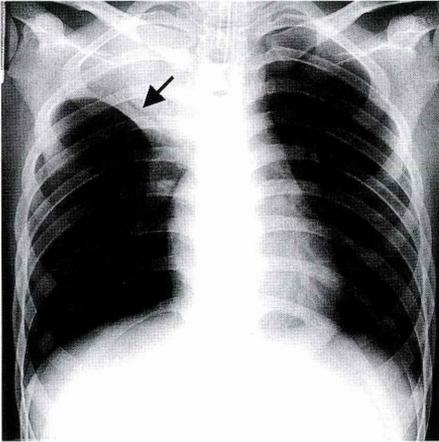


図7. 第12病日の胸部X線写真上 air bronchogram 像が認められた (矢印)

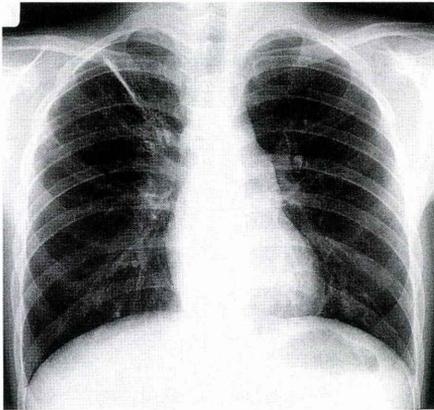


図8. 退院時の胸部X線写真では右上葉の無気肺は消失し、換気は良好だった

度気管支鏡を施行し直接粘液栓を吸引した。粘液栓は1回目の検査時より軟らかくなっており吸引は容易になっていた。3回目の気管支鏡終了時点では可視範囲内に粘液はほとんど見られなかった(図5)。気管支鏡終了後の胸部CTにて無気肺部分に air bronchogram 像が出現し、右上葉下部の含気量の増加を認めた(図6)。2回目の気管支鏡以降、気管内チューブより吸引される痰は徐々に軟らかくなり、吸引される量も増加した。聴診上右上葉の呼吸音は改善し、第12病日の胸部単純X線撮影上も含気の改善を認め(図7)、2日後に抜管となった。

抜管後は自力で痰を喀出し、翌日より食事再開、鎮咳去痰剤などの内服薬を再開した。その後、熱が再度出現したが2日で解熱し、第16病日にMINO 静注をCAM 経口投与に変更し、第22病日に点滴を抜去し、アミノフィリンを中止、静注の抗生剤を中止した。第24病日、咳嗽は持続するものの自力で痰の排出はできており、全身状態良好で画像所見の改善(図8)も著明であったため退院となった。その後、再発はなく抜管後1ヶ月の胸部単純X線では異常陰影は完全に消失していた。

考 察

Plastic bronchitis の報告は20世紀初期よりあるものの、いまだその病態については不明な点が多い¹⁾。Plastic bronchitis の特徴は比較的サイズの大きな樹枝状の粘液栓による気管支の閉塞であり、fibrinous bronchitis, pseudomembranous bronchitis, Hoffman's bronchitis, cast bronchitis などの疾患名でも報告されている^{2,3)}。又、同様に気管支の粘液栓形成を特徴とする mucoid impaction を plastic bronchitis と区別して扱う報告も存在する⁴⁾が臨床症状、画像所見及び病理学的に両者を鑑別する明確な方法はなく、同一の疾患として扱っても良いと思われる。

Plastic Bronchitis の原因は不明だが、(i) アレルギー素因(気管支喘息など)、(ii) 呼吸器感染症、(iii) 先天性心疾患が主な原因と考えられる。アレルギー素因の関与は古くから知られており、気管支喘息やアレルギー性気管支肺アスペルギルス症に続発した症例の報告は多い。粘液栓形成の危険因子には以下のものが含まれる：① 気管支平滑筋収縮による気管支の物理的狭窄、② 炎症による気管分泌物の増加、③ 外気の乾燥による喀痰の水分率の低下、④ 二次的な上気道感染による粘液の産生促進⁵⁾。先天性心疾患又はその術後では胸腔のリンパ系の循環異常(手術手技によるものが多い)が原因で気管支分泌物産生が過剰となり、それが粘液栓形成を促進すると考えられている^{6,7)}。上記以外では、精神的な因子や環境因子(煙、粉塵)が plastic bronchitis の誘因となった報告もあるが²⁾ そのような症例は少なく本

病態に直接関与するとは考えにくい。

臨床症状は多彩であり、発熱、喘鳴、咳嗽の他に気管支閉塞による急激なチアノーゼの出現など呼吸困難症状を呈する重症例も見られる。長さが数センチにもおよぶ樹枝状の粘液栓が咳き込みの際に咯出されることがあり、成人ではそれをもって plastic bronchitis の診断にいたることが可能である。しかし、小児ではそのような粘液栓の咯出はほとんど見られず臨床症状で診断するのは困難なことが多い。閉塞した気管支の末梢側は無気肺になり、聴診上その部位の呼吸音の減弱を認める。その他に聴診上湿性ラ音や気管支狭窄音を聴取することもあり、粘液栓の端が気管支壁から剝離し、呼吸により響くことにより“bruit de drapeau”（旗の音）を聴取することもある^{2,8)}。

血液検査では特異的な所見はなく CRP の上昇や白血球増多などの炎症所見は見られることは多いが診断的な意義は高くない。そのため plastic bronchitis の診断は画像診断が第一選択となる。胸部単純 X 線撮影では閉塞した気管支の末梢部分の無気肺形成を認め、肺炎による浸潤影や胸膜の炎症所見、胸水などを認めることがある。CT でも同様の所見が確認できる他、閉塞部位を正確に確認できることが可能なため施行する意義は高い。しかし診断の確定には粘液栓の確認が必須と言える。そのためには咯出された粘液栓を確認することが最も侵襲が少なく望ましい方法であるが、一部の症例では気管支鏡検査にて粘液栓の確認が必要となったこともある。治療効果の判定及び病状経過の把握には上記の画像診断（単純 X 線撮影や CT）や気管支鏡が用いられるが、前者の方が患者に対する負担が少なく好ましい。小児では痰の咯出が困難であり、全身麻酔が必要となる気管支鏡検査は実施困難なため plastic bronchitis の診断に至らない例が多い。

多くの報告で微生物学的検索も施行されたが plastic bronchitis の原因になるような特定の病原体は現段階では発見されていない。

粘液栓は病理学的に大きく 2 つのタイプに分類される。Seear らの報告ではフィブリンを主体とし、好酸球などの炎症性細胞を多く含むものを

Type I、ムチン主体で細胞成分が少ないものを Type II と分類している⁹⁾。粘液栓周囲では気管支粘膜細胞の異型性や杯細胞の過形成⁵⁾も見られ、それらの所見は粘液の過剰分泌や気管支粘膜の炎症を反映している。上記の Seear 分類で Type I のものの形成には炎症が関与しており、気管支喘息や呼吸器感染症患者で見られる。一方では Type II に分類されるものは先天性心疾患を持つ患者に多く見られる。

Plastic bronchitis の治療で最も重要なことは粘液栓の速やかな除去である。気管支鏡を施行した例では鉗子で粘液栓を取り出す方法が効果的であるが、粘液栓が軟らかく掴むことが困難な例が多くその場合は鉗子を用いて粘液栓を細かく砕きその後それを吸引する方法が有効である。粘液栓除去後、臨床症状は速やかに改善するため、症状が出現してから 4 週以内に気管支鏡的粘液栓除去を行うことを勧める報告もある¹⁰⁾。粘液栓の咯出を促進するために十分な補液と加湿、去痰剤の併用、呼吸器理学療法、吸入療法も有効と思われる^{4,11-13)}。また、気管支喘息、肺炎などの基礎疾患や合併し得る二次感染の治療も必要であり、積極的な抗生剤の投与を行い、気管支拡張剤やステロイド剤の併用も有効とされている¹¹⁾。先天性心疾患、及びその術後の患児に出現した粘液栓の原因はリンパ系の循環異常とされており、上記の一般的な治療のみでは再発が多い。胸管結紮を試みて、有効であった症例報告がある⁶⁾。又、ウロキナーゼを使用し速やかな症状の改善が得られた症例もある¹⁴⁾。

小児での plastic bronchitis の報告は少ない。最も若いもので生後 3 ヶ月より見られるという報告がある⁸⁾が症例報告のほとんどは 1 歳以上の患児を対象としている。その理由は診断が困難であるところにあると考えられる。子供の場合、咽頭部が狭いため実際にサイズの大きい樹枝状の粘液栓を咯出することは難しい。気管支から上がった粘液栓が口から出るとは少なく、食道の方に嚥下されてしまうことが多いと考えられる。Pérez-Soler による報告では喘鳴、咳嗽を呈する 72 人の小児で起床直後の胃内容の吸引を行い検査したと

ころ高率に粘液塊が検出された¹⁵⁾。そのため、小児での plastic bronchitis の診断のための一つの手口ではあると思われるが、胃からの粘液塊の吸引が全て「気管支の閉塞を起こす樹枝状の粘液栓」という重症な病態を反映するかについては疑問が残り、一般的な肺炎、気管支炎の痰塊も含まれている可能性が高いと思われる。気管支鏡検査が小児では非常に難しいことも診断を困難にする理由の一つに挙げられる。小児の気管支鏡は全身麻酔下で気管内挿管の上施行されることが多く、早い段階から積極的に行われることは少ない。ただし、呼吸症状の悪化、呼吸不全の出現、全身状態によっては緊急に気管内挿管のうえ気管支鏡的粘液栓除去が必要とされる場合もあり、その必要性を常に考慮し治療にあたるのが重要と思われる。

Plastic bronchitis の予後は一般的には良いとされている^{2,3)}が再発を繰り返す症例の報告もある^{2,16)}。他方では、急激に呼吸困難を引き起こしそれにより致命的な経過をたどる症例もあるため、早期に治療を開始することが望ましい。小児の場合、先天性心疾患に合併した plastic bronchitis は他のものより予後が悪く、死亡率も高いとされている^{6,7,14)}。

本症例の特徴は基礎疾患としてのマイコプラズマ感染症が診断されたことである。Plastic bronchitis を発症する際に呼吸器感染症の合併を呈する症例は多いものの、その原因となる病原体がはっきりしている症例はほとんど存在しない。20世紀前半の報告では肺結核が基礎疾患になっている症例は見られるが、近年では特定の感染症が plastic bronchitis と合併している症例報告はない。本症例のようにマイコプラズマ感染症を合併している報告は現段階では確認されていない。当科にてマイコプラズマ肺炎のみならず、細菌性肺炎などで無気肺を形成する症例を他にも多数経験している。しかし補液、抗生剤、去痰剤、吸入療法で改善する症例がほとんどであり、気管支鏡は施行せず、樹枝状の粘液栓の喀出も確認できず plastic bronchitis の診断に至らなかった。無気肺を呈する小児例での plastic bronchitis の頻度は不明であるが実際には診断できずに改善していく

例も多数存在すると思われる。呼吸困難を呈する疾患を経験した時に常に plastic bronchitis を念頭に置き、呼吸苦が強い場合は速やかな気管支鏡的粘液栓除去を施行するのが重要と思われる。

ま と め

1) マイコプラズマ感染に併発した plastic bronchitis の症例を報告した。薬物療法での症状の改善が得られなかったため気管支鏡を施行し、粘液栓の除去が効果的だった。

2) 小児での plastic bronchitis の診断は非常に難しく、本症例では気管支鏡にて気管支を閉塞する粘液栓が確認され診断に至った。

3) Plastic bronchitis では気管閉塞による突然の呼吸困難を示すことがある。その時に、早期の粘液栓の除去が非常に有効なため、小児例でも気管支鏡を用いた治療の施行を常に念頭に置く必要がある。

尚、本論文の要旨は第 192 回日本小児科学会宮城県地方会 (2001 年 11 月, 仙台市) にて発表した。

文 献

- 1) Bettmann M: Report of a case of fibrinous bronchitis, with a review of all cases in the literature. *Am J Med Sci* **123**: 304-329, 1902
- 2) Johnson SR et al: Plastic bronchitis. *Thorax* **15**: 325-332, 1960
- 3) Kao NL et al: Cough productive of casts. *Ann allergy asthma immunol* **76**: 231-233, 1996
- 4) Bowen A et al: Plastic bronchitis: large, branching, mucoid bronchial casts in children. *AJR* **144**: 371-375, 1985
- 5) Morgan AD et al: Mucoid impaction of the bronchi in relation to asthma and plastic bronchitis. *Thorax* **23**: 356-369, 1968
- 6) Languelin J et al: Bronchial casts in children with cardiopathies: the role of pulmonary lymphatic abnormalities. *Pediatr Pulmonol* **28**: 329-336, 1999
- 7) Brogan TV et al: Plastic bronchitis in children: a case series and review of the medical literature. *Pediatr Pulmonol* **34**: 482-487, 2002

- 8) Cairns-Bazarian A et al: Plastic bronchitis: an unusual cause of respiratory distress in children. *Pediatr Emerg Care* **8**: 335-337, 1992
- 9) Seear M et al: Bronchial casts in children: a proposed classification based on nine cases and review of the literature. *Am J Respir Crit Care Med* **155**: 364-370, 1997
- 10) Müller W et al: Diagnostic implications and treatment of massive spontaneous atelectasis in childhood. *Pediatr Pulmonol* **2**: 65-69, 1986
- 11) Nandkishore R et al: Plastic bronchitis: an unusual complication associated with sickle cell disease and the acute chest syndrome. *Pediatrics* **100**: 139-141, 1997
- 12) Fairshter RD et al: Large bronchial casts. *Arch Intern Med* **139**: 522-525, 1979
- 13) 深澤康德 他: 粘液栓除去により著明な改善をみた Plastic Bronchitis の 1 例. *小児科臨床* **50**: 37-40, 1997
- 14) Quasney MW et al: Plastic bronchitis occurring late after the Fontan procedure: treatment with aerosolized urokinase. *Crit Care Med* **28**: 2107-2111, 2000
- 15) Pérez-Soler A: Cast bronchitis in infants and children. *Am J Dis Child* **143**: 1024-1029, 1989
- 16) Jett JR et al: Plastic bronchitis: an old disease revisited. *Mayo Clin Proc* **66**: 305-311, 1991