先天性気管狭窄の1例

*上村卓也 **荒牧元

***今野草二

先天性の気管狭窄は非常にまれな疾患とされている。しかし、新生児あるいは幼児において、種々の程度の呼吸困難を生じ、さらに致死にまでおよぶために早期発見並びに早期治療が要求される。近年、気管食道科、小児外科、麻酔科等の進歩に伴い、この種の疾患に対する関心が増し、とくに治療の関係より心臓血管系の異常による気管狭窄に対する注意がはられる様になった。

最近我々は動脈管開存症及び左肺動脈の走行異常を伴った先天性気管狭窄の1例を経験したので剖検所見及び若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：1年10ヵ月、女子。

初診及び入院：昭和39年7月24日。

主訴：吸気性呼吸困難。

既往歴：肺炎。

家族歴：特記することはない。

現病歴：分娩は正常であつたが、生下時よりすでに喘鳴が認められ、母乳の吸引力が弱かつた。体重は標準をやや上まわつた。生後2ヵ月、肺炎に罹患し、その際、心疾患を指摘された。昭和39年4月上旬（1年4ヵ月）風邪をひき、38°C発熱、鼻漏、咳嗽、呼吸困難及びチアノーゼを生じ某内科に入院した。そして肺炎の診断のもとに抗生物質投与を受け7日目に軽快、退院したが、その後も風邪をひく度に喘鳴の増強、呼吸困難、チアノーゼをおこすので昭和39年7月24日当院外科に入院した。

入院時所見：身長83cm、体重10.1kg。吸気性呼吸困難及び喘鳴が認められるが、チアノーゼはなく、頭部、腹部、四肢に異常はない。胸部において吸気の際、鎖骨上窩が陥凹し、左第2肋間において胸骨左縁に最強点をもつ Continuous murmur が聴診された。

血圧：110/70

血液所見：血色素量80% Sahli, 赤血球数 415×10^4 , 白血球数7800, 血小板, 血液像に異常なく、梅毒血清反応陰性。

尿所見：蛋白(-), 糖(-), ウロビリノーゲン(-)。

胸部レ線撮影では軽度の肺陰影の増強及び心肥大があり、又逆行性大動脈造影により肺動脈の同時造影が認められ、従つて Continuous murmur 等の所見とともに動脈管開存症と診断された。一方気道通過障害に対しては Vascular ring を疑い、断層撮影、食道造影を行なつたが特記する所見はなかつた。そのため8月20日耳鼻科において全身麻酔下に気管支鏡検査を行なつた。咽頭、喉頭、声帯に異常を認めず、20×0.5cmの気管支鏡を声門下腔に挿入したが以下の気管への挿入は中途までしか行ないえず、気管分岐部を認めることは出来なかつた。8月26日、気管支造影を行なうために直接喉頭鏡による喉頭展開後、直径2mmの心臓カテーテル用チューブを気管内に挿入したところ、反射的に呼吸が停止し、チアノーゼを生じたので、チューブを抜去したところ、すぐに呼吸は回復した。9月7日、今度は全身麻酔下に麻酔用気管チューブを通して造影剤(Dionosil)を注入し、気管分岐部上の狭窄像を見出すことが出来た(第1図)。同日、外科において左第三肋間開胸による動脈管結紮術——1.5×1.0cmの動脈管を認め結紮——を行なつた。術中気管及びその周囲を観察した結果、分岐部より上方約2cmにわたり直径約0.8cmの気管狭窄のあることを

* 東京女子医科大学耳鼻咽喉科学教室（主任：岩本彦之丞教授）助教授

** 助手

*** 東京女子医科大学心臓血圧研究所（所長：榊原 仟）助手

第1図 気管支造影

確かめた。又気管分岐部直上で気管と食道間を横行する左肺動脈幹の走行異常を認めたが気管を圧迫しているとは考えられなかった。その他、血管輪等の異常はなく、周囲からの気管の圧迫は認められなかった。この狭窄自体に対する手術的操作は行なわなかった。患者は術後呼吸困難、チアノーゼが続き、気管切開を行なったが、13時間後に換気不全のため死亡した。

剖検並びに組織学的所見：心臓血管系においては動脈管開存に対して行なわれた結紮直後の状態で、心臓は肥大していたが、心内の奇形は認められなかった。又気管分岐部直上を気管、食道間で横行する左肺動脈幹の走行異常を認めたが、他の走行異常や他の器官の奇形はなかった。両肺、肝、腎にはウツ血が存在した。気管は分岐部より上部約2cmにわたり、外径8mm、内径4mmの限局性の狭窄を示した。狭窄部以外は、外径12mm、内径8mmであつた。この気管を組織的に調べると、狭窄部より上部では著明な所見として上皮下の結合組織の増殖、粘液層の萎縮がみられた。この傾向は狭窄部直上に至るまで変りないが(第2図)、場所により軟骨輪の一部が線維性組織によつておきかえられる傾向があつた。気管軟骨輪は通常よりも数が多

第2図 気管狭部組織像窄

第3図 気管狭窄部

く、小軟骨で構成されていた。狭窄部では個々の軟骨が小さく、一部では軟骨が不規則に欠損し(第3図)、膜様部が規則的な longitudinal な走行を示していなかった。従つて、全体として気管輪が小さく、さらに上皮下の結合組織層の肥厚が気管内の狭小を強めていた。

考 按

気管の奇形については我が国及び諸外国の文献にかなりの報告をみるが本症例のような気管輪に原因する先天性気管狭窄は我が国の1946～1964年の文献では探し得ず、諸外国においても Holinger, Fineberg, Ferguson, Weber, 等により若干例が報告されているにすぎない。Holinger は気管の先天異常を第一表のように分類し、この中最も多く見られるものは狭窄あるいはウェブであると述べている。(第1表)

先天性の気管狭窄には気管輪の欠損、気管膜様部の欠損による気管輪の閉鎖、分節のない気

第 1 表

-
- A. Constriction of the trachea.
 - 1. Cartilage deformity
 - 2. Anomalous deformity
 - 3. Webs
 - B. Evaginations and Outgrowths.
 - 1. Tracheoceles, diverticuli, cysts
 - 2. Fistulae
 - 3. Tracheal lung
 - C. Abnormal bifurcation or deviation.
-

管管、その他胸腺の肥大などの周囲器官による圧迫、ウェブ等があり、これらの狭窄に先天性の食道閉鎖及び気管食道瘻を伴うことがある (Holinger)。最近、気管や食道の狭窄の原因として心臓血管系の先天異常による圧迫が注意をひいている。その種類としては第 2 表に示す様なものがある。(第 2 表)

第 2 表

-
- 1. Vascular ring
 - 2. Double aortic arch
 - 3. Patent ductus aorticus
 - 4. Abnormally originated right subclavian artery
-

Ricker は The Children Memorial Hospital (USA) において 12 年間に 41 例の先天性の血管系異常により生じた気管、気管支、食道の圧迫例——外科的処置を要した——を報告している。我々の症例においても血管系の異常による気管の圧迫が疑われ、左肺動脈の走行異常及び動脈管開存症が見い出されたが、これらによる圧迫は認められなかった。先天性気管狭窄の症状としてみられるものは特に出生時からの呼吸困難で、狭窄の程度により単純な吸気性の喘鳴から、急激なチアノーゼを伴う呼、吸気性の呼吸困難まで、症例によつて様々な程度の症状を呈する。又時には Seal bark とも云われる頑固な brassy cough があり、母乳等の吸引力も弱いことがある。ほとんどの例において、既往に数回の Bronchopneumonia の罹患が認められる。泣き声は clear である。気管狭窄の他に血管系の異常による食道の圧迫も加われば嚥下困難、嘔吐などの症状も加わる。この場合その症状は半固形、あるいは固形の食事を摂取し始める時期に認められやすい。

診断に際しては Bronchoscopy によるその狭

窄部位の発見、並びに Bronchography によるその程度の診断が必要である。しかしこのいずれも全麻下の、充分な全身状態の管理のもとに行なわなければならない。その他に必要なに応じて胸部レ線撮影、断層撮影、又心臓血管系の異常による圧迫が疑われる場合には食道造影、食道鏡検査、血管造影、さらに外科的開胸検査が行なわれる。

治療は手術的方法によらねばならないが、気管自体の奇形による場合は現在のところ、適当な形成法がない。まず気管切開を行ない、狭窄部までポリエチレンチューブを挿入し、一時的に気道の確保を行なう方法も考えられている。しかし Popov の経験では先天性気管狭窄の 15 例すべてが 2～9 歳の間に死亡していることから今後のこの方面における進歩がまたれるところである。

ま と め

1 年 10 ヶ月の女子で、動脈管開存症及び左肺動脈の走行異常とともに先天性気管狭窄をもつ 1 症例について報告し、あわせて文献的考察を行なつた。

稿を終るに当り、岩本彦之丞教授及び榊原仟教授の御校閲を感謝致します。

本論文の要旨は第 17 回日本気管食道科学会総会において発表した。

参 考 文 献

- 1) Banfai, (1962) : Z. Laryng. Rhinol., 41, 552—554.
- 2) Beickert, P. (1959) : HNO. (Berl.), 7, 325—326.
- 3) Dallachy, R. (1961) : J. Laryng., 75, 685—695.
- 4) Ferguson, C. F. and Flake, C. G. (1956) : Ann. Otol., 63, 1056—1081.
- 5) Fineberg, C. and Stotman, C. (1959) : J. thorac. Surg., 37, 214—219.
- 6) Heikel, P. E. (1957) : Ann. Paediatr. fenn., 3, 22—26.
- 7) Holinger, P. H., and Johnston, K. C. (1948) : Ann. Otol. 57, 807—827.
- 8) Holinger, P. H., Johnston, K. C., Parchet, V. N. and Zimmerman, A. A. (1952) : Ann. Otol., 61, 1159—1180.
- 9) Holinger, P. H. (1957) : Dis. Chest., 31, 613.
- 10) Holinger, P. H. (1961) : J. Laryng., 75, 1—44.
- 11) Popov, P. (1958) : Zbl. allg. Path. path. Anat., 98, 241—243.
- 12) Ricker, W. L. (1954) : Pediat. Clin. N. Amer., 1, 181.

observed.

The Experience of Treatment, by Injection of Radon Seeds with Bronchoscope, of a Bronchial Cancer at End Stage

Z. Kawakubo M.D. et al.

Tokyo Medical College Dep. of O-R-L.
Kosei Central Hospital Dep. of O-R-L.

A 60-year-old male had operation of laryngectomy and telecovalt irradiation 20,000 r for larynx cancer in 1964.

About 2 years later, came to admission, he had heavy subjective symptomata; dyspnea, dysphagia, chest-pain and severe cachexia etc., Left atelectasis was found by chest X-ray so called pan-cost type, and E.K.G. showed heavy impediment of the heart.

Bronchoscopic examination found expression on the right bronchus and obstructive gigantic tumor on the left bronchus, and its tumor was determined epithelioid carcinoma by histologic examination.

It depends upon un-efficacious of operation or irradiation. Accordingly, we had prove, directly injection of Rd. seeds (1 mc $\times$ 7) with bronchoscope.

About 3 days later, subjective symptomata was disappeared, and 7 days later atelectasis was extinguished at the chest X-ray. But patient died due to heart debility on 45 days later.

Autopsy showed pericarditis carcinomatosa, but already bronchus tumor was extinguished by macro-examination. It was considered very efficacious rescue that bronchoscopic application of Rd. seeds to obstructive tumor for acute dyspnea of bronchial cancer at the end stage.

A Case Report on Congenital Stenosis of the Trachea

T. Uemura, M.D. et al.

Tokyo Women's Medical College

This is a case of 1 year and 10 month old female baby, who was admitted to Tokyo Women's Medical College, because of chief complaint of a stridor.

She had been suffering from frequent upper respiratory infection with cyanosis, dyspnoea and occasional pneumonia.

Diagnosis of patent ductus arteriosus (PDA) was confirmed by various clinical examinations, including retrograde aortic angiography.

Also a localized stenosis of trachea was found by bronchoscopy and bronchography under the general anesthesia.

A surgical ligation of DA. was carried out for PDA, however, the patient expired postoperatively from insufficient ventilation.

A Case of Spontaneous pneumothorax associated with Diagnostic Procedure of esophagoscopy

M. Hattori M.D. et al.

Department of Otorhinolaryngology of
Fukushima Medical College

The diagnostic procedure of esophagoscopy was carried out in a 68-year-old man with a complaint of dysphagia.

Though the procedure was carried out easily without a injury of esophageal wall, the patient complained of dyspnoea (with cyanosis) three hours after this procedure.

Immediate roentgenologic examination revealed a spontaneous Pneumothorax of the right thorax, and he was cured by continuous suctioning of air from his right thorax.

This senile patient had been a coal-miner for 40 years, and suffered from pulmonary silicosis associated with severe pulmonary