小児声門下狭窄症の手術的治療

*円谷 英一, 石橋 康, 松井 道夫

**小河原 昇, 鯨井 和朗, 沢木 修二

Surgical Correction of Subglottic Stenosis in Children

Eiichi Tsumuraya, M.D., Yasushi Ishibashi, M.D. and Michio Matsui, M.D.

Department of Otolaryngology, Kanagawa Children's Medical Center, Yokohama

Noboru Ogahara, M.D., Kazuro Kujirai, M.D. and Shuji Sawaki, M.D.

Department of Otolaryngology, School of Medicine, Yokohama City
University, Yokohama

Two cases with congenital subglottic stenosis and four cases with acquired subglottic stenosis in children were treated at the authors' clinic during the past 10 years (1970-1979).

In the present paper, treatment of these cases is discussed. In five cases decannulation was successful.

After tracheostomy, the granulation tissue of the subglottic area was resected using the surgical microscope. A tracheal T-tube was set in place via tracheostoma. After six weeks of tracheal T-tube insertion, a tracheal cannula was used for four weeks prior to the closure of the stoma. Systemic administration of antibiotics and steroids and local administration of steroids were essential in treating these cases.

We believe that subglottic stenosis should be corrected surgically, even in small children.

はじめに

医療の進歩に伴い、とくに循環器系を中心として、積極的な治療が行われる症例がふえている。このため、術後長期にわたり、気管内挿管を行ったり、補助呼吸を必要とする症例も多くなった。この気管内挿管の合併症として、肉芽形成、声門下狭窄、反回神経麻痺などの報告が増加している。原因面からの予防手段として、挿管チューブの形状、材質の改良、消毒法の工夫、呼吸管理法の改善などが行われているが、なお合併症の発生は予防しきれていない。

小児における声門下狭窄では、呼吸困難が強度であれば気管切開を行い、その後は、ある程

度まで成長を待つというのが一般的な治療方法であった。しかし、最近は、積極的な治療を試みた報告がふえている。それらは、単にブジーで拡張をはかるものから、喉頭を截開して軟骨などの移植を行うものまでいろいろあり、その侵襲度は大いに異なる。小児においてはとくに、その精神発達の面からも発声のもたらす影響は大きいと思われる。

われわれの施設でも、以前は成長を待つ立場であったが、最近の5年ほどは、以上の観点から積極的に手術的治療を試みている。そして、6症例について各種の方法を試みたので、その結果を報告し、病態に応じた治療方針のたて方を中心に考察を加えてみよう。

*神奈川県立こども医療センター耳鼻咽喉科

**横浜市立大学医学部耳鼻咽喉科

表1 症 例 の ま と め

症 例

症例1 5カ月
男性

現病歴

妊娠、出産ともに異常はなかったが、出生時より喘鳴が続いていた。昭和49年11月12日

	年 齢	性別	原 因	挿管期間	治 療 法	Tチューブ留置期間	ステロイド
1	5カ月	男	先天性	—	拡張術(ブジールング)	—	全 身
2	6歳 2カ月	〃	挿管後	9日間	LMS下の肉芽除去 Tチューブ留置	40日間	〃
3	4歳 2カ月	〃	〃	24日間	〃	50日間	〃
4	2カ月	〃	〃	60日間	〃	56日間	全身・局 所
5	7カ月	〃	〃	50日間	1. 喉頭形成術 2. LMS下の肉芽除去, Tチューブ留置	56日間	〃
6	3歳 10カ月	〃	先天性	—	LMS下の肉芽除去・T チューブ留置	41日間	〃

より、上気道感染のため呼吸困難となり、チアノーゼも出現した。このため当センターへ紹介された。喉頭ファイバースコープにて、声門直下の粘膜肥厚、とくに輪状軟骨前壁部の肥厚が認められた。声門下は約2.5mm 径しかあいていなかった。ほかに左副耳、左停留睾丸、真性包茎も合併していた。

治療

気管開窓術の後、ステロイドの投与を続けたところ、成長のためもあり、徐々に狭窄症状は軽快してきた。約半年後の昭和50年5月22日より、週1回食道ブジーによる拡張術を開始した。6月19日より輪状軟骨が視野に入ってきたので、同部の電気凝固を行った。同年7月まで、前後9回にわたり拡張術を行った結果、狭窄部分は6mm 径まで拡大された。しかし、その後心因反応がおこったため、容易に気管カニューレを抜くことはできなかった。そこで、精神科にて加療し、昭和51年2月2日気管カニューレの抜去に成功した。その後現在まで、新しい肉芽の発生もみられず経過は順調である。

症例2 6歳2カ月 男性

現病歴

妊娠、出産ともに異常はなかったが、生後、口唇、爪床のチアノーゼがとれないため、昭和47年10月6日当センター循環器科に入院した。心血管撮影にて大血管転位症の診断をうけた。昭和53年11月7日、大血管転位根治マスタード術を行った。その後11月16日まで、9日間経鼻挿管をつづけていた。抜管後しばらくは異常はなかったが、12月1日になり呼吸困難をきた

写真1 症例2 術前の内視鏡所見。

写真2 症例2 術後の内視鏡所見。

し、耳鼻科へ併診となった。ただちに喉頭ファイバースコープにて、全周性の声門下狭窄を確認した。

治療

抗生物質とステロイドの投与により、呼吸困難は軽快した。しかし、その後の1カ月間にさらに2回呼吸困難をおこし、2度とも同様の投

薬にて症状はおさまった。昭和54年1月11日、気管開窓術を行い、つづいて、LMS (laryngo micro surgery) で肉芽を除去し、気管内に8 mm 径のTチューブを留置した。声門下の肉芽は膜様であり、中央に約2 mm 径の穴があいているのみであった(写真1)。1月25日再びLMSで観察すると、声門直下の左側に白くやわらかい、広基性の肉芽が認められた。そこで再び肉芽を除去し、9 mm 径のTチューブを、声門上までつき出すようにして挿入した。3月8日Tチューブを抜去し、7 mm 径の気管カニューレを挿入した。各操作後1~2週間はステロイドの投与を行い、抗生物質は全期間にわたって投与した。3月28日の喉頭直達鏡の所見では、前連合部にわずかに膜様のものが残るのみであった(写真2)。そこで、カニューレを抜去し、テープにて気管孔を閉鎖した。3月31日退院し、その後は呼吸困難の再発もなく、経過は順調である。

症例3 4歳2カ月 男性

現病歴

妊娠、出産ともに異常なく、生後の成長も正常であった。昭和49年11月10日、腸重積のため某病院にて緊急手術を行った。翌日より高熱となり、呼吸困難のためICUにて経鼻挿管を24日間続けた。昭和53年2月21日、嘔声、喘鳴、鎖骨上窩の陥凹などを主訴として当科へ来院した。喉頭ファイバースコープにて、声門下に全周性の肉芽を確認できた。

治療

抗生物質とステロイドの投与により、呼吸困難症状が軽快したため、保存的治療をつづけていた。しかし、昭和53年10月頃より再び、発熱、呼吸困難をくりかえすようになった。昭和54年1月11日、LMS下に声門下の肉芽を除去し、8 mm 径のTチューブを留置した。声門下の肉芽は、声帯より約1 cm 下方で、中央に丸く穴のあいた厚さ約2 mm の膜様物であった(写真3)。その後、抗生物質とステロイドの投与を続け、昭和54年3月2日にTチューブを抜去し、8 mm 径のカニューレに交換した。その後、時々気管孔をふさぎ、様子をみていたが、

写真3 症例3 術前の内視鏡所見。

写真4 症例3 術後の内視鏡所見。

呼吸困難もおきないため、3月28日カニューレを抜去し、気管孔をテープにて閉鎖した。この時の喉頭所見では声門下の膜様物は全くなっていた(写真4)。3月30日退院しその後呼吸困難の再発もなく経過は順調である。

症例4 2カ月 男性

現病歴

40週の満期産ながら、出生時体重は2000gであった。特発性呼吸窮迫症(肺硝子膜症)のため、約2カ月間気管内挿管を続けた。抜管すると呼吸困難をきたすため当センターへ紹介された。昭和52年10月5日、直接喉頭鏡にて声門下の肉芽を確認した。狭窄は、輪状軟骨の高さで全周にわたる厚さ約5 mm の膜様物によるものであった。また、幽門狭窄もみとめられた。

治療

昭和52年10月8日、気管開窓術を行い、気管

内に挿管していたチューブを抜去した。10月11日, 幽門筋切開術を行った。12月23日, LMSにて声門下の肉芽を除去した。ステントは用いなかった。

その後再び同部位に肉芽の増生がみられたので, 昭和53年3月30日, 喉頭截開術, 喉頭気管形成術を行い, ステントを留置した。

5月23日, ステントを除去したが, その後再び肉芽が充満してしまった。昭和53年9月26日, LMS下に再び肉芽を除去し, 7mm径のTチューブを挿入した。昭和54年1月16日, Tチューブを抜去してみたが, 気管孔をとじると, 著明な呼吸困難がおこるため, 2日後再びTチューブを挿入した。同月30日にはさらにTチューブを8mm径のものに交換した。6月28日, LMS下にTチューブを抜いて声門下を観察したところ, 狭窄はまったくなかった。しかし, 1カ月後再び肉芽の発生がみられ, 8月16日再び8mm径のTチューブを挿入した。8月27日, Tチューブを挿入したまま退院し, 外来にて経過をみていた。10月2日, Tチューブを抜去し, カニューレにかえたが, その後徐々に狭窄が再び生じてきた。昭和55年1月9日再入院した。LMSによる喉頭の所見は, 声門下約2mmぐらいのところから下に約1cmの厚みをもった狭窄ができていた。中央には径約3mmの穴があいていた。

そこで, 喉頭を截開し, 輪状軟骨から第3気管輪までのあいだを前方開大し, 8mm径のTチューブをおいたうえに肋軟骨を移植した。現在の予定では, 3カ月後にTチューブを抜去する予定でいる。この例ではとくに若かったことと, 狭窄部の厚みのあったことが, 治療に手間どった原因と考えている。

症例5 7カ月 男性

現病歴

妊娠, 出産ともに異常はなかったが, 生後1カ月のとき心雑音を指摘された。昭和53年3月1日, 心血管撮影を行い, 心房中隔欠損症の診断をうけた。4月18日, かぜをひき, 全身状態が悪化したために経口にて気管内挿管を行った。4月23日にはバードレスピレーターを装着した。全身状態が改善したため, 5月8日と5月

写真5 症例6 入院時著明な胸郭の陥凹がみられた。

29日とに抜管を試みたが呼吸状態が悪化するためにできなかった。6月3日, 耳鼻科を受診し, 喉頭ファイバースコープにて声門下の肉芽が確認された。肉芽は声門直下にあり, 後端に径約2mmの隙間を残すのみであった。

治療

6月13日 気管開窓術を行い, LMS下に肉芽を除去し, デササメサゾン2mgを局注し, 径7mmのTチューブを挿入した。その後, 3回, LMS下の操作を試みたが, 全身状態が悪化したため十分できず, 現在もTチューブを挿入したままで, 成長を待っている。

症例6 2歳5カ月 男性

現病歴

妊娠, 出産には異常はなかったが, 出生時より喘鳴があった。昭和53年4月15日, 当科に受診し, 先天性声門下狭窄症の診断をうけた。その後とくに症状もみられなかったが, 昭和54年になってから, 1月と6月とに上気道感染のための呼吸困難がおこった。その都度, 抗生物質とステロイドの投与により呼吸困難は改善した。7月7日, 手術的治療を目的とし, 当センターへ入院した。入院時, 長期にわたる呼吸困難のための胸郭の変形がみられた(写真5)。7

月7日, 気管開窓術を行い, 7月12日には, LMS下に肉芽を除去してケナコルト40mgを局注し, 径7mmのTチューブを留置した。肉芽は声門直下より2~3mmの厚さで前方を中心に増生しており, 気管腔は後部 $\frac{1}{3}$ ぐらいあいていた。Tチューブの上端より再び肉芽の増殖がみられたので, 7月26日再びLMSを行い, 肉芽を除去し, ケナコルトの局注を行い, 声門上までとどくTチューブに変更した(写真6, 7)。9月5日, Tチューブを抜去し, カニユーレを装着した。

9月27日, LMSにて声門下を観察したところ, 声門下の肉芽はなかったが, 前連合部よりポリープ様のものが生じていたので切除し, ケナコルトの局注を行った。10月15日, 再びLMS下に観察し, 再狭窄のないことを確認したのでカニユーレを抜去し, 気管孔をテープで閉鎖した。その後現在まで再発はなく, 経過は順調である。

考 按

小児の声門下狭窄症の場合, 大人とは異なり, 全体に小さいため手術的操作が加えにくい。また, 肉芽もおこりやすく, 患者自身あるいは家族の治療に対する理解も少ないため, 保存的治療中にカニユーレのトラブルなどで死亡する率も高いといわれている。さらに, 気管内挿管後におこったもの場合は, 重大な基礎疾患のあることが多く, 積極的な処置とはかく敬遠され, 消極的な治療となりやすい。しかし, 小児の場合その発声機能の有無は, 精神発達上重大な影響をおよぼすことは容易に予想される。また, 症例6のように胸郭の発達その他の全身的影響も見逃すことはできない。

小児の声門下狭窄症の原因としては, 第1に気管内挿管の普及があげられる。気管内挿管が, 気管切開より安全であり容易な手技であるため広く普及したこと, また, 全身麻酔も気管内挿管によって行うのが一般的となり, 総挿管回数の増加したことが理由であろう。第2の理由としては, 手術そのものが高度化し, とくに心臓の手術の普及に伴い, 術後呼吸管理の行われることが多くなったことがある。Strong¹⁾によれば補助呼吸の行われた場合その5~6%

写真6 症例6 Tチューブ装着中の写真。
栓をしても呼吸ができる。

写真7 症例6 Tチューブ装着中の側面レントゲン写真。声門上までTチューブの先端がでている。

表2 小児声門下狭窄症の治療方法

保存的治療	<ol style="list-style-type: none"> 1. 成長を待つ。 2. ステロイド, 抗生物質などの薬物投与。
手術的治療	<ol style="list-style-type: none"> 1. 拡張術(ブジールグ)。 2. 内視鏡下の肉芽除去, ステント留置。 3. 喉頭截開による喉頭形成術。

に声門下狭窄が発生するという。これを予防するためには, 今後, 気管内チューブの大きさ, 形状, 材質, 固定方法などについて, より一層の改良が加えられなければならない。

声門下狭窄症の治療としてわれわれの臨床ではこれまで、成長を待つのが基本方針であった。しかし、聴力障害児と同様の情緒不安定が、声門下狭窄のため気管カニューレを装着している子供にもみられる。こうした心理的な面からも早期に発声を可能とさせる治療が望ましいと考えるようになった。文献上でも、ある程度まで成長を待つという Holinger²⁾, Krajina³⁾ らの意見と、気管切開を行っている場合の気道トラブルの多さから早期治療をすすめる Fearon⁴⁾, Cotton⁵⁾ らの意見とがある。

手術的治療方法としては、気管開窓術を行った上で拡張術を併用する方法、肉芽を除去したのち、ステントを挿入する方法、および、各種の喉頭形成術がある(表2)。だが当然のことながら全ての症例に画一的にあてはまる方法はなく、各々の症例にあわせて一番適切な方法を考えるべきである。

ブジーによる拡張術は、侵襲の度合いも少なく、1回毎の手間もかからない。症例1のように、狭窄部のうすい場合は、ステロイド、抗生剤と併用しながら行うのがよいと思う。しかし、反面、何回も行うことが必要であり、狭窄を完全にとることが難しいし、効果が不確実であるという欠点もある。

この点を改良するために、拡張あるいは肉芽を除去したあとにステントを留置する方法が考えられた。ステントの形状としては、Montgomery⁶⁾ 以来のTチューブと、それ以外の棒状のチューブとに大きくわけられる。両者には決定的な優劣はないが、われわれはTチューブの方が優れると考えている。その理由は、固定がしやすいこと、挿入抜去が容易なこと、気道も自然に近く、しかも自然発声が可能なことなどである。短所としては、上下にあいているために、誤嚥しやすいことがあげられるが、写真7のように声門上まで入れておいても、看護上よく注意して少量ずつ嚥下させれば1~2日で小児はなれるものである。われわれは、このための嚥下性肺炎を併発した症例を経験していな

図1 小児声門下狭窄症の治療計画 (Time schedule)

い。ほかには、円柱状をしているために、抜去後嗄声があるが、それも徐々に軽快する。

ステントを留置する期間についてはいろいろな意見がある。気管の喘々吻合をした場合のように3週間で十分だとするものから、3カ月以上の長期間留置すべきであるという意見までわかれていいる。しかし、動物実験では約5週間で粘膜の修復はおわるとされており、われわれは、6週間前後を標準としている。長期間おけばそれだけ確実ではあるが、手術の目的である短期治療に相反することになる。われわれの経験では、肉芽を除去した部分にきちんとTチューブがあたっていた場合は、これを除去した後に再び狭窄する例は少なく、Tチューブのきちんとあたっていなかった部分から肉芽が増殖し、再狭窄をきたす例が多かった。

喉頭を截開して声門下に達する喉頭形成術は、明視下に肉芽を除去できる点では一番完全である。肉芽を除去したあとそこにステントを留置するのが一般的であるが、拡大された管腔に対応する外壁として、耳介軟骨、肋軟骨、舌骨、甲状軟骨の一部などを使うこともある。それぞれにより結果が報告されているが、このように小児にとって侵襲の大きい方法をとるのは、内視鏡的に操作できないほど厚みがあり、かつ範囲の広い狭窄の場合に限られる。

手術的治療と併用する薬剤としては、一般的には、ステロイドの局所注入が有効である。また同薬剤の全身投与も各種の手術後一定期間必要であると考えている。抗生物質の投与は、局

所における感染を抑制し、肉芽の発生をおさえる作用があり、その上、嚥下性肺炎の予防の面からも欠かすことはできない。

以上より、われわれの考える治療方針を模式的に示せば図1のようになる。まず気管開窓術を行い、ただちにLMSにて声門下の肉芽を除去し狭窄をとる。その上でステロイド（トリアムシノロン40～80mg）を局所注入する。ついで気管孔より長めのTチューブを挿入し、声門上まで出ていることを確認する。これを6週間留置し、LMS下にTチューブを抜去し、声門下狭窄のないことを確認する。もし肉芽があれば再び肉芽を除去し、さらに太目のTチューブを入れ6週間以上待つ。肉芽がなければステロイドの局注のみを行い、気管カニューレに変更する。カニューレは毎日交換し時々気管孔をテープでふさいで呼吸困難がおこらないかを試してみる。

4週間後、再びLMS下に声門下を観察、狭窄の有無をたしかめる。狭窄のない場合は、カニューレを抜去し、気管孔をテープでふさぐ。この部分の美容的形成術は5～6歳になってから行う。それぞれの手術的操作のあとは、プレドニゾロンを体重1kgあたり1mgの日量で開始し、3週間で漸減させる。抗生物質は全期間投与を続ける。以上の方法により2～3歳以上ならば、多くの場合治療は成功する。不幸にしてこの方法で十分な気道が得られないときは、喉頭形成術を併用しなければならない。すなわち、全ての症例にはじめから喉頭形成術を適用する必要はないと思う。

ま と め

6例の小児声門下狭窄症の患者に積極的な治療を行い、5例に成功し、1例経過観察中である。その結果につき考察をくわえ、つぎのような結論を得た。

1. 気管切開を必要とするほど狭窄がひどい場合は、年齢が低くても手術的治療を試みるべきである。

2. 手術的治療としては、気管開窓術を行いLMS下に肉芽を除去し、Tチューブを留置するのが簡単で、かつ確実である。喉頭形成術は、以上の方法で失敗した例にのみ行う。

3. 局所へのステロイド注入と、全身へのステロイド、抗生物質の投与は必要である。

（本論文の要旨は、1979年11月の第31回日本気管食道学会にて報告した。）

文 献

- 1) Strong, R.M. and Passy, V.: Endotracheal intubation. Complications in neonates. Arch. Otolaryngol., 103 : 329-335, 1977.
- 2) Holinger, P.H., Kuntnick, S.L., Schild, J.A. and Holinger, L.D.: Subglottic stenosis in infants and children. Ann. Otol., 85 : 591-599, 1976.
- 3) Krajina, Z. and Vecerina, S.: Chronic stenosis of the larynx in children. J. Laryngol. Otol., 93 : 81-88, 1979.
- 4) Fearon, B. and Cotton, R.: Surgical correction of subglottic stenosis of the larynx in infants and children. Progress report. Ann. Otol., 83 : 428-431, 1974.
- 5) Cotton, R.: Management of subglottic stenosis in infancy and children. Ann. Otol., 87 : 649-657, 1978.
- 6) Montgomery, W.W.: Silicone tracheal T-tube. Ann. Otol., 84 : 71-75, 1974.
- 7) Rabuzzi, D.D. and Reed, G.F.: Intrathoracic complication following tracheotomy in children. Laryngoscope, 81 : 939-946, 1971.
- 8) Waggoner, L.G., Belenky, W.M. and Clark, C.E.: Treatment of acquired subglottic stenosis. Ann. Otol., 82 : 822-826, 1973.
- 9) Fearon, B. and Ellis, D.: The management of long term airway problems in infants and children. Ann. Otol., 80 : 669-677, 1971.
- 10) Parkin, J.L., Stevens, M.H. and Jung, A.L.: Acquired and congenital subglottic stenosis in the infant. Ann. Otol., 85 : 573-581, 1976.
- 11) Jazbi, B., Goodwin, C., Tadmek, D. and Faulkner, S.: Idiopathic subglottic stenosis. Ann. Otol., 86 : 644-648, 1977.
- 12) Schofield, J.: Conservative treatment of subglottic stenosis of the larynx. Arch. Otolaryngol., 95 : 457-460, 1972.
- 13) Duvall, A.J. and Bauer, W.: An endoscopically introducible T-tube for tracheal stenosis. Laryngoscope, 87 : 2031-2037, 1977.
- 14) Tonkin, J.P. and Harrison, G.A.: The surgical management of the laryngeal complications of prolonged intubation. Laryngoscope, 81 : 297-307, 1971.
- 15) Goode, R.L. and Shinn, J.B.: Long term stenting in the treatment of subglottic stenosis. Ann. Otol., 86 : 795-798, 1977.
- 16) Gerwat, J. and Bryce, D.P.: The management of subglottic laryngeal stenosis by resection

- and direct anastomosis. Laryngoscope, 84 : 940-957, 1974.
- 17) Crysdale, W.S. and Platt, L.J.: Division of posterior cricoid plate in young children with subglottic stenosis. Laryngoscope, 86 : 1451-1458, 1976.
- 18) Mulraney, T.J. and Miller, D.: Endolaryngeal cryosurgery. Arch. Otolaryngol., 102 : 226-229, 1976.
- 19) Croff, C.B., Zub, K. and Borowiecki, B.: Therapy of iatrogenic subglottic stenosis. A steroid antibiotics regimen. Laryngoscope, 89 : 482-489, 1979.
- 20) Fearon, B., Crysdale, W.S. and Bird, R.: Subglottic stenosis of the larynx in the infant and child. Method of management. Ann. Otol., 87 : 645-648, 1978.
- 別刷請求：〒233 神奈川県横浜市南区六ッ川
2-134-4
神奈川県立こども医療センター耳鼻科
円谷 英一
- (投稿受付 1980年3月5日)