乳幼児の喉頭・気管狭窄の臨床的検討

中平 光彦・岸本 誠司・齋藤 春雄・土師 知行*

Laryngotracheal Stenosis in Infancy and Childhood

Mitsuhiko Nakahira, Seiji Kishimoto and Haruo Saito

(Kochi Medical School)

Tomoyuki Haji

(Kurashiki Chuo Hospital)

This paper describes the safe management of laryngotracheal stenosis in infancy and childhood. We treated 10 such patients over a 12 year period at the Kochi Medical School Hospital : 4 with congenital stenosis, 4 immature neonates on ventilators and 2 others on ventilators (one viral croup and one drowning). In 6 of these 10 patients (4 immature cases and 2 others), the stenosis was a result of prolonged intubation.

With 7 patients the initial treatment was the application of a T-tube stent. Of these 7 patients, 2 of the treatments were successful, one patient died and the other four patients were treated using the trough method.

With a total of 6 patients (including the 4 patients who initially had T-tube stents), the trough method was employed. Of these 6 patients, 5 of the treatments were successful : of these, 4 patients had composite auricular free grafts performed and one did not require it.

During the treatments, 3 patients died, the causes of death were not related to the treatments. Two died of tracheomalacia and one of leukemia.

Although it took an average of 28 months to complete, we recommend the trough method with the use of composite auricular free grafts as the safest and most reliable laryngotracheal reconstruction for infants and children due to the low success rate of initial using T-tube stents.

Key words : laryngotracheal stenosis, T-tube stent, composite auricular free graft, tracheomalacia, laryngotracheal reconstruction

はじめに

喉頭気管狭窄に対する気道再建法についてはこれまで数多くの方法が報告されている^{1)~6)}(表1)。特に乳幼児の上気道狭窄においては、喉頭気管の発育への影響を考え可能な限り保存的に治療すべきであるが、狭窄が高度な場合には外科的再建が必要となる。従来より我々は乳幼児の高度声門下狭窄の治療に、安全で治療効果の確実なことから段階的手術法を行ってきた。今回、当科で経

験した乳幼児の喉頭気管狭窄例について臨床的検討を行い、治療法ならびに治療の困難であった症例の特徴について考察を加えて報告する。

対 象(表2)

当科において過去12年間に経験した乳幼児の喉頭・気管狭窄例は10例で、性別は男児5例、女児5例であった。

表 1 喉頭気管狭窄に対する
主な治療法

1. Tチューブ留置法¹⁾
2. 一期的手術
 - a) 内視鏡下瘢痕切除²⁾
 - b) 喉頭気管形成
 - Réthyの方法³⁾
 - Evansの方法⁴⁾
 - Cottonの方法⁵⁾
3. 段階的手術⁶⁾

結 果

1) 狭窄の原因

10例中 6 例が挿管後の後天性狭窄であった。その内 4

例が未熟児でその挿管期間は、75日から172日(平均135日)の長期に及んでいた。

2) 狭窄部位

9 例が声門下に病変を認め、うち 2 例が声門部に、また、別の 1 例は気管に重複して狭窄部位が存在した。気管狭窄を認めた 2 例はいずれも気管軟化症によるものであった。

3) 治療経過(図 1)

a) 気管切開

全例に気管切開による気道の確保を行った。未熟児例では、生下時より気管内挿管が行われ数回にわたり抜管が試みられたが結局、全例生後 6 カ月までに気管切開を要した。先天性狭窄例では、当初より気管切開が行われ

表 2 乳幼児の喉頭気管狭窄症例

症例	性	気切時期	原 因	狭窄部位	治 療	結 果
1	女	2ヵ月	未熟児⇒挿管	声門下	喉頭気管形成	良
2	女	6ヵ月	未熟児⇒挿管	声門下	Tチューブ留置	良
3	女	5ヵ月	未熟児⇒挿管	声門下+声門	喉頭気管形成	良
4	女	5ヵ月	未熟児⇒挿管	声門下+気管	Tチューブ留置	死亡
5	男	1歳	仮性 ⇒ 挿管 クループ	声門下	喉頭気管形成	良
6	男	1歳8ヵ月	溺水 ⇒ 挿管	声門下	Tチューブ留置	良
7	男	1歳6ヵ月	先天性狭窄	声門下	喉頭気管形成	死亡
8	女	4ヵ月	先天性狭窄	声門下+声門	喉頭気管形成	良
9	男	1ヵ月	先天性狭窄	声門下	喉頭気管形成	良
10	男	11ヵ月	先天性狭窄	気管	気管カニューレ	死亡

図 1 治療経過のまとめ

た例が多かった。

b) Tチューブ留置

気管切開にひきつづき7例に対しTチューブ留置を行い内腔の確保を行った。軽度の狭窄の2例ではこれにより気切孔の閉鎖が可能となった(気管切開から閉鎖までの期間は、症例2では1年4ヵ月、症例6では1年5ヵ月)しかし、症例4および10はTチューブあるいは気管カニューレ装着の段階で気管軟化症に起因する合併症のため1歳前後の早期に死亡した。

c) 段階的喉頭気管形成術(表3, 図2～図5)

Tチューブの留置のみでは内腔の確保が困難な4例(4例のTチューブ留置期間は、4ヵ月から22ヵ月で平均11ヵ月)およびTチューブ挿入が困難なほど高度の狭窄を有する2例の計6例に対しては、1歳5ヵ月から2歳4ヵ月(平均1歳10ヵ月)の間に喉頭気管溝を作製した。未熟児の2例では、喉頭気管溝の作製は2歳を過ぎてから行った。

その内の5例に対して6ヵ月から17ヵ月(平均9.6ヵ月)の内固定の後、耳介軟骨による複合組織移植を行い気道を再建した。症例8では、開窓部が内腔の狭窄をきたすことなく自然に狭小化したので複合移植による再建を必要としなかった。

結果は、治療途中で白血病のため死亡し閉鎖まで至らなかった症例7以外の残り5例で気切孔閉鎖が可能となった。抜管時の年齢は、2歳1ヵ月から3歳3ヵ月(平均2歳7ヵ月)であった。結局、気管切開から気切孔閉鎖まで13ヵ月から35ヵ月(平均28ヵ月)を要したことになる。

図2 喉頭気管溝形成(症例3)

喉頭気管溝にステントとしてTチューブ留置。側管は2分割して固定に用いた。

図3 10ヵ月後、気道内腔が安定した時点で喉頭気管溝の閉鎖を行った。

表3 段階的喉頭気管形成術施行症例

症例	Tチューブ留置期間	喉頭気管溝作製の年齢	複合耳介組織移植による喉頭気管再建の年齢	抜管の年齢
1	-	2歳1ヵ月	2歳8ヵ月	3歳
3	22ヵ月	2歳3ヵ月	3歳1ヵ月	3歳3ヵ月
5	4ヵ月	1歳5ヵ月	2歳1ヵ月	2歳1ヵ月
7	8ヵ月	2歳4ヵ月	3歳8ヵ月	死亡
8	-	1歳8ヵ月	-	2歳3ヵ月
9	8ヵ月	1歳6ヵ月	2歳	2歳2ヵ月
平均	11ヵ月	1歳10ヵ月	2歳8ヵ月	2歳7ヵ月

図4 耳介後面より複合耳介組織採取. 採取後の創部は一期的に縫縮した.

図5 皮膚面を気道内腔に向けた複合耳介組織を気管壁に縫合固定. 創面は気管切開孔を除き, 局所皮弁にて被覆した. 気管切開孔は, 2カ月後に縫縮して閉鎖した.

4) 予後不良例(表4)

我々の症例のうち再建途中で死亡した例が3例あった. いずれの死因も治療法に起因したものではなく, 表に挙

げた合併症による死亡であった.

考 案

1) 原因について

近年, 新生児に対する集中医療体制の充実と共に, 呼吸機能に高いリスクを有する新生児に対し気管内挿管による長期の呼吸管理を行う症例が増加してきている. それに伴って挿管による後天性声門下狭窄症例も増加している⁷⁾⁸⁾. 今回の検討において後天例6例のうち4例が未熟児例であり, そのうちには生下時体重が1000g以下の例も2例含まれていた. 今後は, 気管内挿管を要する未熟児の救命率の向上とともに挿管チューブの材質や形状の改良, サイズの選択および挿管技術の向上など声門下狭窄を予防する気道管理の確立が望まれる.

一方, 先天性狭窄は4例あり, うち3例で, 全身的な合併症(症例7: 神経線維腫症, 症例8: CHARGE症候群, 症例10: ダウン症候群)が存在した. 未熟児例や重症先天異常例においては, 全身的にも問題のある症例が多く, 局所治療のみならず全身管理の困難さがあり, 死亡例においては現段階の医療技術でも救命の限界を超えていたと考えた.

2) 治療法について

本疾患を取り扱う上で最も問題となるのは, 治療方法の選択とその時期である. 喉頭気管狭窄の主な治療法として, 表1に示した方法が挙げられる. さきに述べたごとく, 全身的にも問題点を持つ未熟児例が増加しており, 治療も安全で確実な方法を選択する必要がある. その点から我々は, 田辺ら⁹⁾¹⁰⁾が報告している喉頭気管狭窄の治療方針に準じ, 症例に応じてTチューブ留置法と段階的喉頭気管形成術を用いてきた.

Tチューブについては, 留置により抜管し得たのは軽度狭窄の症例2と6のわずか2例のみであった. 高度の

表4 予後不良例

症例	部位	問題点	治療	死因
4	声門下気管	未熟児, BPD 気管軟化症	Tチューブ	呼吸不全
7	声門下	神経線維腫症 白血病	喉頭気管形成	白血病
10	気管	ダウン症候群, 鎖肛 肺高血圧, 気管軟化症	気管カニューレ	心不全

狭窄をきたした6例に対しては、平均11カ月のチューブ留置にも関わらず十分な気道が確保できず、軟骨の枠組みの拡大を要した。それらの症例ではいずれもほぼ1歳半を過ぎるまでは保存的治療を続け、可能な限り気管の成長を待ってから喉頭気管溝作製に踏み切った。これは、外科的治療を行う場合においても患児の成長に伴う気管内腔の増大が治療結果に与える影響が大きいとの廣戸¹¹⁾の指摘に従った。また喉頭気管溝作製後の内固定期間も平均9.6カ月と十分間隔をおき、狭窄が確実に改善された後、複合耳介軟骨により喉頭気管溝を閉鎖した。複合耳介軟骨による閉鎖法は、肋軟骨⁵⁾や鼻中隔軟骨¹²⁾を利用する方法に比べ侵襲も少なく採取も容易であることから、幼小児症例に適した方法とされる¹⁰⁾。その結果、我々の症例において他因死の1例を除けば、段階的喉頭気管形成術を行った全例が抜管可能となった。

一方、段階的喉頭気管形成術における最大の欠点は気道の再建完成までに非常に長期間を要することであり、今回の検討でも気管切開から閉鎖まで平均28カ月を要している。しかし、治療の各段階における患者の平均体重で検討してみると1歳未満に気管切開を行った4症例では、表5に示したごとく複合耳介組織移植および抜管は10 kg 前後に行われており、体重のみから見ると通常の乳幼児であれば1歳前後に治療が完了したことになる。未熟児症例や合併症を有する症例であったため、十分な成長を待って各段階を経ていったことが、治療終了時点の遅れにつながったと考えられ、必ずしもこの段階的喉頭気管形成術が飛び抜けて他の方法より時間がかかるわけでないことが示された。また、本法は喉頭気管溝を作製することにより狭窄部位を明視下において処置できるだけでなく、術後の内固定のために留置するTチューブ

の管理も容易となり乳幼児の場合最も信頼の出来る方法であると考えた。内固定の際のTチューブは、患者の気管径に見合ったできるだけ大きいものを選択した。また、発声に関しては再建の途中でもTチューブに栓をするなどうまく利用すれば可能であった。

田辺ら¹⁰⁾は、本手術により移植された軟骨の変化について長期的観察が必要であると述べているが、その点についても喉頭気管形成術を行ったうち2例は、7年以上の長期観察が行われており、再建後の再狭窄例もないことから長期的にも問題ないと考えられる。

治療の途中に採用したTチューブ留置法は、治療期間も短く症例を選べばその有用性は高い。しかし保存的には治療が困難とされる挿管性声門下狭窄例が増加している現在、段階的喉頭気管形成術は安全かつ確実な効果が得られる点で我々の経験からも今後さらにその有用性は増すものと思われた。

3) 予後不良例について(表4)

今回の検討において気道再建に失敗した3例のうち2例が気管軟化症を伴っていた。気管軟化症を伴った小児声門下狭窄の治療として、Froehlich 氏¹³⁾は、Tチューブ留置による4例の抜管成功例を報告し、Tチューブが有用であると述べている。従来よりシリコン製チューブは気管内粘膜に対する刺激が少ないとされている¹⁾が、我々の経験では、特に乳幼児の場合は、長期留置でチューブの先端に肉芽が増生しやすくチューブの径や長さの留意が必要であった。佐藤ら¹⁴⁾は、自験例の検討から分泌物などによる内腔閉塞の危険性を考えると外径6 mm (内径4 mm) のTチューブが最小限度であるとしている。しかしながら未熟児例の症例4においては、気管の高度の発育不全も認め(図6)外径6 mm のTチューブ挿入によっても気管内に肉芽を形成し内腔確保が大変困難であった(図7)。本例は気管軟化症の悪化により呼吸不全のため1歳1カ月に死亡した。ダウン症候群の症例10も同様にカニューレの刺激により気管内に肉芽を生じた。本例においては気管軟化症のため、生来存在していた肺高血圧症が増悪し心不全のため1歳で死亡した。

Tチューブやカニューレによる気管軟化症の治療は、主として成長に伴う気管内腔の拡張を期待する保存的治療である。しかし未熟児例では気道の成熟化が遅れたり、あるいは重症の先天異常例では全身的合併症により気道の成長を待つことが難しい場合には予後は不良となりうる。

表5 1歳未満に気管切開を行った4例の各治療段階での平均体重(kg) (段階的喉頭気管形成術施行症例)

治療段階	平均体重(kg)	
気管切開	3.3	(3.0-4.0)
喉頭気管溝作成	8.3	(7.4-9.8)
複合耳介組織移植	9.8*	(8.5-11.0)
抜管	10.0	(8.1-12.4)

* 複合耳介組織移植のみ3例の平均

図 6 胸部単純X線(症例4)
気管の発育不全を認める(矢印).

図 7 Tチューブ内の内視鏡所見(気管方向)(症例4)
気管内に肉芽の形成を認める. 内腔はほとんど閉塞している.

残る1例の症例5においては急性骨髄性白血病を合併し死亡した. 神経線維腫症は悪性腫瘍の合併頻度が高いことが知られており¹⁵⁾, 致死の疾患を合併することの多い先天異常例では十分な全身疾患に対する配慮が必要であると考えられた.

ま と め

当科において過去12年間に経験した乳幼児の喉頭気管狭窄例10例につき臨床的検討を行い次の結果を得た.

1. 原因別には, 後天性狭窄が多く, 中でも未熟児に対する長期気管内挿管によるものが4例あった.

2. 高度狭窄例が大半であり, その治療法として複合耳介軟骨移植による段階的喉頭気管形成術は, 安全で確実な効果が得られ, 乳幼児に適した再建法の1つであると考えた.

3. 再建途中に死亡した3症例の死亡原因は, いずれも治療法に起因するものではなく, 合併する気管軟化症や致死の疾患に起因したものであった.

なお本論文の要旨は, 第20回日耳鼻中四国地方部会(平成6年11月6日, 於山口市)にて発表した.

文 献

- 1) Montgomery WW : T-tube tracheal stent. Arch Otolaryngol 82 : 320~321, 1965.
- 2) Strong MS, Healy GB, Vaughan CW, et al : Endoscopic management of laryngeal stenosis. Otolaryngol Clin North Am 12 : 797~805, 1979.
- 3) Réthi A : An operation for cicatricial stenosis of the larynx. J Laryngol Otol 70 : 283~293, 1956.
- 4) Evans JNG and Todd GB : Laryngo-tracheoplasty. J Laryngol Otol 88 : 589~597, 1974.
- 5) Cotton R : Management of subglottic stenosis in infancy and childhood; review of a consecutive series of cases managed by surgical reconstruction. Ann Otol Rhinol Laryngol 87 : 649~657, 1978.
- 6) Bryce DP and Lawson VG : The "trough" method of laryngotracheal reconstruction. Ann Otol Rhinol Laryngol 76 : 793~803, 1967.
- 7) Evans JNG : Stenosis of the larynx. Scotto-Brown's Otolaryngology vol. 6 5th ed. (ed by Kerr AG). pp 495~502, Butterworths, London, 1987.
- 8) 荻野高敏, 神田康司, 川北 章, 他 : 気管支肺異形成(BPD)に合併した声門下狭窄3症例に対する気管切開の経験. 新生児誌 25 : 635~638, 1989.

- 9) 田辺正博, 土師知行, 楠本健夫, 他 : 幼小児の喉頭, 気管狭窄の治療. 日気食会報 33 : 281~286, 1982.
- 10) 田辺正博, 土師知行, 一色信彦 : 耳介複合移植片による声門下狭窄の治療. 日形会誌 2 : 352~358, 1982.
- 11) 廣戸幾一郎 : 喉頭気管狭窄の治療. 耳鼻 22 : 679~687, 1976.
- 12) Krizek TJ and Kirchner JA : Tracheal reconstruction with an autogenous mucochondrial graft. Plast Reconstr Surg 50 : 123~130, 1972.
- 13) Froehlich P, Truy E, Stamm D, et al : Role of long-term stenting in treatment of pediatric subglottic stenosis. Int J

Pediatr Otorhinolaryngol 27 : 273~280, 1993.

- 14) 佐藤信清, 末永 通, 酒井 昇, 他 : T-tube による幼小児の気道狭窄の治療経験. 日気食会報 38 : 70~75, 1987.
- 15) Brasfield RD and Gupta TKD : Von Recklinghausen's disease ; a clinicopathological study. Ann Surg 175 : 86~104, 1972.

原稿受付 : 平成 7 年 2 月 1 日
原稿採択 : 平成 7 年 3 月 29 日
別刷請求先 : 中平光彦
〒783 南国市岡豊町小蓮
高知医科大学耳鼻咽喉科学教室