特 発 性 縦 隔 気 腫 再 発 例

岸部 幹¹⁾²⁾・吉野 和美¹⁾²⁾・和田 哲治¹⁾
金井 直樹¹⁾・原 保明²⁾

A Recurrent Case of Spontaneous Mediastinal Emphysema

Kan Kishibe and Kazumi Yoshino

(Kitami Red Cross Hospital, Asahikawa Medical College)

Tetsuji Wada and Naoki Kanai

(Kitami Red Cross Hospital)

Yasuaki Harabuchi

(Asahikawa Medical College)

Spontaneous mediastinal emphysema is a rare condition that primarily occurs in young, thin, healthy adults. It is rare for cases of spontaneous mediastinal emphysema to recur. Recently, we experienced a recurrent case of spontaneous mediastinal emphysema. A 17-year-old boy came to our hospital complaining of chest pain and dyspnea. His chest computed tomography (CT) showed mediastinal emphysema with cervical emphysema. He was hospitalized and treated with bed rest and antibiotics to prevent infection. Mediastinal air resolved completely after 6 days of hospitalization. Seven weeks following the first episode of spontaneous mediastinal emphysema, the patient was readmitted with a second episode of cervical pain. He was hospitalized again and treated with bed rest and antibiotics to prevent infection. Mediastinal air resolved completely after 4 days of hospitalization. Recurrent spontaneous mediastinal emphysema has been documented only in our patient and 6 others in Japan.

Key words : recurrence, spontaneous mediastinal emphysema, cervical emphysema

はじめに

縦隔気腫は外傷や、気管支喘息といった呼吸器の基礎疾患を持つ者に発症することが多いが、特に誘因がなく健康な者に発症する場合には特発性縦隔気腫と定義され比較的まれな疾患である。また、縦隔気腫は頸部皮下気腫を高率に伴い、耳鼻咽喉科にも受診することが多い疾患である。今回われわれは、やせと喫煙が気道脆弱性に関与して発症したと思われる再発した特発性縦隔気腫の1例を経験したので報告する。

症 例

症例：17歳，男性。

主訴：前胸部痛，呼吸困難感。

現病歴：平成14年2月28日，何の誘因もなく胸痛と呼吸困難感があり，当院救急外来を受診した。頸・胸部CTにて中咽頭右側壁から気管分岐部まで頸部縦隔気腫を認め，当院外科に同日に入院した。翌日に当科を紹介され受診となった。

既往歴，家族歴：特記事項なし。

嗜好：喫煙40～60本／日。

1) 北見赤十字病院耳鼻咽喉科

2) 旭川医科大学耳鼻咽喉科・頭頸部外科学講座

表 1 初診時血液検査所見

WBC	7650/ μ l
Neut	63.7%
Lymph	26.2%
AST	15 IU/L
ALT	11 IU/L
LDH	154 IU/L
ALP	423 IU/L
CRP	<0.26 mg/dl

初診時現症：身長 166 cm, 体重 48 kg, BMI 17.4, 血圧 115/75 mmHg, 脈拍 105/分, SpO₂ 100%, 体温 36.8°C. 頸部触診では右側頸部に握雪感を伴う皮下気腫を認めた. 胸腹部の聴診, 触診では異常を認めなかった. 咽喉頭所見では, 両声帯にやや発赤を認めるも他に異常を認めなかった.

初発時検査所見：血液一般検査では白血球, CRP の上昇を認めず, 生化学検査でも異常は認めなかった (表 1). 胸部単純 X 線にて, 右鎖骨上窩に皮下気腫像を認める以外に縦隔, 肺に異常は認めなかった. 頸・胸部 CT 検査では, 右喉頭外側面～胸鎖乳突筋裏面～気管分岐部まで気腫像を認めた (図 1 上段). 肺にはブラ, プレブ等異常を認めなかった.

初発時臨床経過：原因不明のため食道穿孔も疑い絶食とし, 入院後より予防的にセフォペラゾンナトリウム：スルバクタムナトリウム合剤 2g/日を開始した. 前頸部から胸部にかけての痛みは発症後 2 日で消失し, 気腫は 2 日後の CT で減少傾向にあり (図 1 下段), 発症後 6 日目の胸部単純 X 線検査でも皮下気腫像は消失した. 軽度の咳嗽も認めたがこれも 2 日でほぼ消失した. 血液検査では 4 日後に軽度 CRP の上昇を認めたが発熱は認めなかった. 原因検索として 3 月 4 日に食道造影を, 3 月 6 日に気管支ファイバーを施行したが異常はみつからなかった. 以上より特発性縦隔気腫と診断した. たばこの本数も多く, 咳等で気道内圧の上昇を引き起こし, 再発の原因にもなりうることから, 禁煙をすすめて, 3 月 7 日退院とした. ところが, 退院後 43 日目 (平成 14 年 4 月 20 日) に何の誘因もなく左頸部疼痛と呼吸困難感があり, 当院外科を受診した. CT にて左頸部～縦隔に気腫を認め当科紹介となった. 禁煙はしていなかった.

再発時現症：咽喉頭に異常を認めず. 触診では, 左鎖骨上窩を中心に握雪感を認めた.

再発時検査所見：血液一般検査では白血球, CRP の上昇を認めず, 生化学検査でも異常は認めなかった (表 2). 頸・胸部 CT 検査では, 左頸動脈間隙から, 胸鎖乳突筋の裏面, 鎖骨上窩, 胸骨裏面, 気管分岐部周囲に気腫を

図 1 気腫の経過 (初発時)

上段：初診時 CT, 下段：2 日後 CT. 初診時の CT では右喉頭外側面～胸鎖乳突筋裏面～気管分岐部まで気腫像 (矢頭) を認める. 気腫は 2 日後の CT で減少傾向にある.

表 2 再発時血液検査所見

WBC	9710/ μ l
Neut	62.1%
Lymp	27.1%
AST	17 IU/L
ALT	21 IU/L
LDH	136 IU/L
ALP	388 IU/L
CRP	<0.26mg/dl

認め、腹部大動脈周囲にも気腫が存在していた (図 2)。また、今回も肺にはブラ、プレブ等は認めなかった。

再発時臨床経過：咳が多く、頸部から胸部の疼痛により咳嗽発作が起きていると考えられ、その咳嗽発作により気腫の悪化が懸念されたため、麻酔科と相談し ICU 入室の上、後頸部から硬膜外ブピバカイン持続注入を開始した。注入の翌日には疼痛も消失して咳も止まった。また、予防的抗生剤としてセフォペラゾンナトリウム：スルバクタムナトリウム 2g/日とし、7日間点滴した。気腫は 2 日後には左鎖骨上窩以外はほぼ消失しており、4 日後には CT 上認めなかった (図 3)。血液検査で初診時に白血球の軽度上昇と 2 日後に CRP の軽度上昇を認めたが、発熱は認めなかった。ICU には 4 日間入室した。今

度も原因検索として 5 月 7 日に気管支ファイバー、5 月 10 日に食道造影を行ったが瘻孔は認めなかった。今回も禁煙を強くすすめて、5 月 10 日に退院とした。以後はこれまでに再発を認めていない。

考 察

特発性縦隔気腫は 1939 年に Hamman¹⁾ により「外傷や基礎疾患を持たないものに特に誘因なく発症した縦隔気腫」と定義されたが、この定義を満たす症例はきわめて少ないとされている。したがって、現在では基礎疾患のない健康な人に突然発症した場合も広義の特発性縦隔気腫として扱われている。比較적まれな疾患とされており、発生頻度は入院患者の 0.003%²⁾ から 0.05%³⁾ との報告がある。金林ら⁴⁾ による本邦報告例 (150 例 / 1985-2004 年) のまとめでは主訴として胸痛 62.7%、呼吸困難 29.3%と呼吸器科的症状が多いが、頸部痛 25.3%、咽頭痛 16.7%と耳鼻咽喉科領域の主訴もまれではない。また、頸部皮下気腫を 80%程度の症例に認めるとの報告もある⁵⁾。初診時の診療科としては内科 (50.7%) に次いで耳鼻咽喉科が 23.2%の頻度で初診している⁴⁾。よって、本疾患が耳鼻咽喉科を初診することもまれではないと考えられる。

縦隔気腫の発生機序としては、何らかの誘因により肺

図 2 再発時 CT 検査

上段：縦隔条件，下段：肺野条件。肺野条件の方が軟部組織と気腫とのコントラストがつき分かりやすい。左頸動脈間隙から、胸鎖乳突筋の裏面、鎖骨上窩、胸骨裏面、気管分岐部周囲に気腫 (矢頭) を認め、腹部大動脈周囲にも気腫が存在する。

図3 気腫の経過（再発時）

上段：再発時 CT，中段：2 日後 CT，下段：4 日後 CT．気腫（矢頭）は 2 日後には左鎖骨上窩以外はほぼ消失しており，4 日後には CT 上認めない．

血管鞘近傍の肺泡内圧が上昇し，これにより肺泡が破裂して漏出した空気が肺血管鞘の被膜を剥離しながら血管に沿って肺門部に達し縦隔気腫となる Macklin 説⁶⁾ が有力とされている．縦隔から頸部皮下へは cervicothoracic continuum（臓側間隙，頸動脈間隙，咽後間隙，危険間隙，椎前間隙）を介して波及しやすい．肺泡が破裂する原因については先天的または後天的な脆弱性に肺泡内圧の上昇（一般に安静呼吸時の肺泡内圧は $-1 \sim +1$ cmH₂O であるが，怒責時は 100～110 mmHg にも達する⁷⁾）といわれている．）が加わり発症するものと考えられている．臨床的には楽器吹奏，過度の発声，激しい運動，咳嗽発作などの発症誘因を有している症例が多い．また，本疾患の発症年齢，性別，身体的特徴について堀越ら⁸⁾ は痩せた若年男性に多発する，石森ら⁹⁾ は BMI が 18～22 前後（平均 19.4 ± 3.6 ）の長身痩せ型が多いと報告している．これらは特発性自然気胸のそれと類似（若年発症，男性に多い，痩せ型）している¹⁰⁾．このことから，特発性自然気胸は胸膜直下のブレブの破裂が原因であるがこれと同様に，本疾患も肺血管鞘近傍のブレブの破裂が原因と考察する報告もある¹¹⁾¹²⁾．

診断はあくまでも除外診断である．鑑別診断としては，特発性食道破裂と気道損傷が挙げられる．食道破裂では激的な胸部痛，心窩部痛を認め，炎症所見も高度になり

やすく臨床的には鑑別は容易とされている⁴⁾．気道損傷も強力な外力によることが多いため詳細な病歴聴取により鑑別は容易と考えられている⁴⁾．しかし，これらの疾患は縦隔洞炎を高率に起こしうるため判断を誤れば致命的となる場合もある．よって，これらをより確実に除外するためには食道造影や気管支ファイバーをすることが重要と考える．また，本疾患では胸痛もきたしうるため虚血性心疾患との鑑別が必要な場合もある．この際，心電図所見で縦隔気腫でも T 波逆転，ST 偏位，低電位などの非特異的变化を示す¹³⁾ ので注意が必要である．本疾患は画像検査が有用であり，胸部単純 X 線検査と胸部 CT 検査により確定される．胸部単純 X 線では，正面像での縦隔から頸部にかけての気体による透亮像および縦隔内の気体によって輪郭が明らかになった縦隔胸膜影，側面像においては胸骨下腔に多い気体の存在と周囲の気体による気管の浮き彫り，皮下気腫や気胸の合併を認めるとされている¹⁴⁾．しかし，胸部単純 X 線では 30% 程度に縦隔気腫を見逃しているという報告もあり¹⁵⁾ 可能であれば胸部 CT を撮像すべきである．CT の条件については肺野条件の方が周囲軟部組織と気腫とのコントラストがついてより鮮明に気腫が描出される¹⁶⁾．

治療はほとんどが保存的加療でよく，気腫は多くの症例で 7～10 日間の安静で吸収されると報告がある¹⁷⁾．た

表 3 本邦における特発性縦隔気腫の再発症例

報告者	年度	性別	年齢	再発期間	誘因	BMI	気腫消失
岡部ら ²⁰⁾	1992	男	15	1 年	食事／運動	ND	ND/3 日後
岩崎ら ²¹⁾	1993	男	20	8 ヶ月	運動／なし	21.1	ND/4 日後
久我ら ²²⁾	1993	男	26	2 年	発声／発声	ND	4 日後／7 日後
廣瀬ら ²³⁾	1995	男	19	1 年 8 ヶ月	嘔吐／運動	22.0	8 日後／9 日後
Shindo ら ²⁴⁾	1995	女	24	3 年 7 ヶ月	嘔吐／嘔吐	17.7	ND
阪田ら ²⁵⁾	2003	男	16	17 日	大声／大声	16.7	6 日後／8 日後
本症例	2004	男	17	7 週	なし／なし	17.4	6 日後／4 日後

初発時／再発時 ND：記載なし

だし、縦隔圧が高くなり静脈還流量が減少し循環不全をきたし縦隔ドレナージを余儀なくされた症例も報告されている¹⁸⁾。また、村上ら⁵⁾の本邦報告例の集計によると 7.9%の症例で縦隔ドレナージや気管切開等の外科的処置が施行されている。入院させるか否かは議論のあるところである。村上ら⁵⁾の本邦報告例の集計によれば約 10%の症例は外来通院で加療を受け、約 90%は入院にて加療を受けている。ほとんどの症例が予後良好であるが、気腫が進行し両側気胸も合併しこれらにより呼吸停止をきたした症例も報告されており¹⁸⁾、数日の入院が望ましいと考える。発症後 24 時間は気腫拡大の可能性がある、症状の悪化、握雪感の拡大が認められれば再度単純 X 線、CT 検査を行い確認する必要があるとする報告もある¹⁹⁾。また、われわれの渉猟しえた限りでは本症に続発する縦隔洞炎の報告は認められなかった。

自験例では初発時から 7 週間後に再発を認めた。特発性縦隔気腫で再発を認めた本邦における報告例はわれわれの渉猟しえた限りでは、自験例を含めて 7 例報告されている^{20)～25)}。表 3 にまとめを示す。男性が 6 例、女性が 1 例であり、年齢の中央値は 19 歳であった。性差、好発年齢については、非再発例と比べて差はないと思われる。初発から再発までの期間は最短では 17 日であり、長くて 3 年 7 ヶ月であった。自験例のように誘因が特になく再発した症例は岩崎ら²¹⁾の再発時のとき以外は報告がなかった。自験例では BMI が 17.4 とかなり低い数値であった。特発性縦隔気腫では BMI の平均が 19.4⁹⁾、19.7⁵⁾ との報告があるが、BMI の記載がある再発報告例 5 例のうち、3 例でそれらの平均値より下回っていた。再発例では BMI が特に低い傾向にあると考えられた。また、再発例の治療予後に関しては 3～9 日で気腫消失をみており、非再発例と同じく予後良好と考えられる。ま

た、自験例では未成年にもかかわらず、煙草を 1 日に 40～60 本も喫煙していた。もともとあるやせが原因の気道脆弱性と喫煙の慢性気道刺激により、何ら誘因なく発症し再発もきたしたのではないかと推測された。

結 語

再発した特発性縦隔気腫の症例を報告した。初発時・再発時ともに保存的加療で気腫が消失し予後良好であった。再発例の本邦における報告は自験例を含めて 7 例であり、再発はまれである。特に BMI が低い症例では再発することもありえるので、これらの症例では気道圧を上昇させうる行為には注意が必要と考えられた。

参考文献

- 1) Hamman L : Spontaneous mediastinal emphysema. Bull Johns Hopkins Hosp 64 : 1～21, 1939.
- 2) Abolnik I, Lossos IS and Breuer R : Spontaneous pneumomediastinum. A report of 25 cases. Chest 100 : 93～95, 1991.
- 3) 山科秀樹, 松浦雄一郎, 田村陸奥夫, 他 : 特発性縦隔気腫の 1 治験例. 広島医 34 : 259～262, 1981.
- 4) 金林秀則, 北村剛一, 大塚康司, 他 : 特発性縦隔気腫の 1 症例. 耳展 47 : 158～162, 2004.
- 5) 村上壮一, 川村 健, 中西喜嗣, 他 : 特発性縦隔気腫の 1 例 過去 10 年間の本邦報告例の検討. 日呼外会誌 15 : 713～717, 2001.
- 6) Macklin CC : Transport of air along sheaths of pulmonic blood vessels from alveoli to mediastinum. Arch Intern Med 64 : 913～926, 1939.
- 7) 真島英信 : 生理学. 326 頁, 文光堂, 東京, 1989.
- 8) 堀越祐一, 花島恒雄, 森田武子, 他 : 健康人に発症した特発性縦隔気腫の 5 例 本邦報告例の集計ならびに本症の個体要因に関する検討. 日胸臨 42 : 476～482, 1983.
- 9) 石森章太郎, 木村啓二, 関口展代 : 過去 15 年間に経験した

- 縦隔気腫 20 例の臨床的検討. 呼吸 17 : 809 ~ 813, 1998.
- 10) 小橋吉博, 米山浩英, 矢野達俊, 他 : 特発性縦隔気腫と特発性自然気胸症例の臨床像の比較検討. 臨と研 76 : 532 ~ 536, 1999.
- 11) 莊田恭聖, 松島敏晴, 原 宏紀, 他 : 明らかな誘因ならびに誘因なく発症した縦隔気腫の 1 例. 日胸 41 : 439 ~ 443, 1982.
- 12) Varkey B and Kory RC : Mediastinal and subcutaneous emphysema following pulmonary function tests. Am Rev Respir Dis 108 : 1393 ~ 1396, 1973.
- 13) 森本啓介, 松田成人, 金岡 保, 他 : 呼吸器疾患を伴わない特発性縦隔気腫の 2 例 本邦報告例の検討. 日胸臨 53 : 79 ~ 83, 1994.
- 14) 佐藤俊郎, 佐藤 実, 山崎岐男 : 特発性縦隔気腫について. 日胸 31 : 725 ~ 730, 1972.
- 15) Kaneki T, Kubo K, Kawashima A, et al. : Spontaneous pneumomediastinum in 33 patients: yield of chest computed tomography for the diagnosis of the mild type. Respiration 67 : 408 ~ 411, 2000.
- 16) 織田成人, 平澤博之 : 【胸部外傷 診断・治療の進歩】 各種病態・形態とその対処法 皮下・縦隔気腫. 救急医 26 : 1745 ~ 1748, 2002.
- 17) 藤井正彦, 仁木寛治, 仁木由子, 他 : 剣道練習中の発声により発症した特発性縦隔気腫の 1 例. 日胸臨 58 : 215 ~ 218, 1999.
- 18) 鮎橋研一, 大浜永俊, 伊巻尚平, 他 : 帰宅途上呼吸停止をきたした特発性縦隔気腫の 1 例. 日救急医学会関東誌 18 : 590 ~ 591, 1997.
- 19) 日高博之, 道津安正, 谷口治子, 他 : 軽い胸痛で救急外来を受診した特発性縦隔気腫の 2 例. 日胸臨 52 : 1048 ~ 1052, 1993.
- 20) 岡部陽三, 木村恭之, 西村俊郎, 他 : 特発性頸部皮下気腫. 日気管食道会報 43 : 457 ~ 461, 1992.
- 21) 岩崎昭憲, 草野卓雄, 上田 仁, 他 : 特発性縦隔気腫 2 例の臨床的報告. 日胸臨 52 : 548 ~ 551, 1993.
- 22) 久我むつみ, 池田 稔, 多賀谷泰弘 : 発声練習により生じた頸部および縦隔気腫例. 耳鼻臨床 86 : 869 ~ 873, 1993.
- 23) 廣瀬 敬, 鹿間裕介, 佐野 弘 : 再発をきたした 1 例を含む特発性縦隔気腫の 3 例. 日胸疾患会誌 33 : 1293 ~ 1296, 1995.
- 24) Shindo Y, Kurumada T, Ohta U, et al. : A recurrent case of spontaneous mediastinal emphysema. Tokai J Exp Clin Med 20 : 1 ~ 7, 1995.
- 25) 阪田裕二郎, 礪部 威, 春田吉則, 他 : 短期間で再発した特発性縦隔気腫の 1 例. 日胸臨 62 : 947 ~ 953, 2003.

原稿受付 : 平成18年 1 月24日
原稿採扱 : 平成18年 3 月15日
別刷請求先 : 岸部 幹
〒078-8211 旭川市1条通24-111
JA北海道厚生連 旭川厚生病院