頸部巨大リンパ管腫のOK-432治療経過中に気道狭窄が悪化し気道確保に難渋した新生児の1症例

緑川 陽子*¹ 橋場 英二*² 丹羽 英智*¹ 廣田 和美*¹

要約：我々は胎児診断で頸部リンパ管腫を指摘されていたが選択的帝王切開で無事出生し、生後10日に腫瘍の増大と治療を契機に上気道狭窄が増悪し、緊急気道確保が必要となった症例を経験した。本症例は通常の喉頭鏡で経口挿管が難しく、完全覚醒下に気管支鏡による経鼻挿管に3度挑戦し不成功、新生児用ビデオ喉頭鏡による経口挿管に2度挑戦し成功した。胎児気道狭窄症例は、出生前から出生後まで、産科医、小児科医、小児外科医、麻酔科医、集中治療医など診療科横断的なチームアプローチを行い、緊急気道確保が必要な状態に陥らないように治療戦略を立てることが重要であると思われた。

Key words: ①neonatal emergency intubation, ②cervical lymphangioma, ③video laryngoscope

はじめに

我々は胎児診断で頸部腫瘍を指摘され、生後10日で緊急気道確保を要した新生児症例を経験した。緊急気道確保は、経鼻ファイバースコープでは不成功であったが、エアウェイスコープ (Airway ScopeTM, AWS, 日本光電) により気管挿管が成功した。治療には診療科横断的な対応が必要であったため報告する。

症 例

患児は生後10日、女児。身長46 cm, 体重3,112 g (生後10日の時点)。

現病歴：妊娠26週より胎児頸部に腫瘍が指摘され妊娠37週にMRI検査を施行した。水平断での腫瘍径は105×68 mmであったが、気道への介入は不要で、自発呼吸が可能と判断した (Fig. 1a)。妊娠39週1日目に選択的帝王切開術で出生。出生時体重は3,150g, Apgarスコア1分値8点, 5分値9点, 頸部に液体貯留を伴う軟らかい腫瘍でありリンパ管腫と診断された。軽度の頻呼吸と間欠的な吸気性喘鳴を認めたが, SpO₂は90%以上維持可能であり気管挿管は施行され

なかった。生後4日目に覚醒下にCT検査を施行したところ、胎児期のMRIと比べ、舌は上方へ圧排、喉頭蓋の腫大を認めた。腫瘍の径は99×79 mmであった (Fig. 1b)。生後6日に嚢胞穿刺およびストレプトコックス・ピオゲネス (A群3型) Su株ペニシリン処理凍結乾燥粉末 (OK-432, 中外製薬) による硬化療法が開始された。

生後10日目、発熱、腫瘍部分の発赤・熱感が出現し、吸気性喘鳴の増悪、頻脈、頻呼吸を呈したため挿管管理の方針となった。当初小児科医によりミラー型喉頭鏡 (#0) で経口気管挿管が試みられたが、口腔内の狭小化により喉頭展開が難しく、麻酔科医の常駐する集中治療部へ緊急気道確保の要請となった。5分以内にAWSと新生児用イントロックス (M-ITL-NL, 日本光電工業), 気管支鏡システムとを持って訪床した。患児は、下顎挙上可能でバックバルブマスクによって呼吸補助されており, SpO₂ 100%に維持されていたが努力呼吸が強く上気道閉塞も著明であり、小児外科医による緊急気管切開術も考慮すべきと判断し、その要請をしつつ経口挿管操作を試みた。しかし、舌を圧排する腫瘍のため喉頭展開は困難であり、超細径ファイバース

*¹ 弘前大学大学院医学研究科麻酔科学講座 (〒036-8562 青森県弘前市在府町5)

*² 弘前大学医学部附属病院集中治療部 (〒036-8563 青森県弘前市本町53)

受付日 2019年12月10日

採択日 2020年7月22日

Fig. 1 Images of cervical lymphangioma before and after the childbirth
a)MRI image at 37 gestational age, b)CT image 4 days after the birth. The cervical tumor became bigger and pushed the tongue upward and swollen epiglottis was recognized 4 days after the birth, compared with the image at 37 gestational age.

Swollen epiglottis due to lymphangioma

Fig. 2 An nasal fiber-optic image of the larynx
It was seen that there was a swollen epiglottis, but the relatively-normal larynx. Some part of the edematous epiglottis was drawn into the larynx during the inspiration.

コープ (XP40, 先端外径2.8 mm, オリンパス) で経鼻的に喉頭の観察を行った。舌根部から喉頭蓋にかけて著明な浮腫を認め、浮腫組織の一部が吸気時に喉頭に引き込まれるような所見を認めたが、披裂部、声門の浮腫は軽度であることが判明した (Fig. 2)。そこで、内径3.5 mmのカフなし気管チューブの意識下経鼻的挿管を気管支鏡ガイド下に試みたが、完全覚醒下でのファイバー挿管は嚥下、咳嗽反射もあり困難で不成功に終わった。計3回挑戦したが、出血、浮腫の増悪な

どを危惧し、この方法を断念した。

参集した小児外科医は、頸部腫瘍のため気管の同定が困難で緊急気管切開術は容易ではなく、経口あるいは経鼻気管挿管を行うべきとの見解であった。また、OK-432治療部位に貯留したリンパ液の穿刺吸引が提案され、約80 mLのリンパ液を吸引した。しかし、その後気管支鏡により再度の喉頭観察を行ったが、喉頭の浮腫の軽減は見られなかった。そこで我々は、喉頭のファイバー所見から、舌根部から喉頭蓋をAWSで

乗り越えれば喉頭展開ができる可能性があると考え、AWSおよび新生児用イントロロックを用いたところ、喉頭展開が可能であった。しかし、自発呼吸下で声門の開閉があったこと、気管チューブに腰がなく誘導に難渋したことから、別の医師による下顎挙上とマスク換気を挟みつつ2度目の手技で挿管に成功した。その後、新生児集中治療室(neonatal intensive care unit, NICU)より手術室へ移動し、全身麻酔下での緊急気管切開術が施行された。気管切開術後は呼吸状態も安定しOK-432による硬化療法を再開し、生後2年までの間に計24回施行された。その時点で、リンパ管腫の硬化が得られたことから、リンパ管腫部分切除術を施行され、術後も気道閉塞のトラブルなく経過している。

考 察

小児・新生児の緊急気道管理では、cannot intubate, cannot ventilate (CICV)時に推奨される輪状甲状膜穿刺や外科的気道確保も新生児は成人と比較して物理的に困難である^{1)~3)}。本症例では、巨大な頸部腫瘤を有し、さらに難易度は高く、小児外科医とも協議した結果、ファイバースコープやAWSを用いた非外科的気道確保に挑戦することになった。

小児挿管困難症例において、ファイバースコープガイド下挿管は現在でもゴールドスタンダードとされ⁴⁾、声門上器具との併用は、特に小さな乳児において酸素化も保ちつつ初回の挿管成功率を上昇させることが報告されている⁵⁾。また、ビデオ喉頭鏡も小児用デバイスが開発されておりその使用頻度は上昇し、有用であるとの報告も増加している^{6),7)}。しかし、小児、特に新生児挿管困難症例に遭遇する機会は限られており、シミュレーショントレーニングや普段から正常小児症例で使用し、ビデオ喉頭鏡などの機器に習熟することの重要性も指摘されている^{4),6),8)}。

本症例は妊娠37週の胎児期の画像診断により頸部腫瘤が指摘されたが、完全な気道閉塞の可能性は低いと考えられ、ex-utero intrapartum treatment (EXIT)による気道確保は予定されなかった。また、出生後はSpO₂の低下もなく経過したため、気道確保を行わず経過を見ていた。しかし、リンパ管腫の自然増大とOK-432による硬化療法を契機に気道狭窄が増悪した。OK-432局注により呼吸困難を生じた症例は過去にも報告されており⁹⁾、またOK-432の添付文書にも副作用として注射部位腫脹(79.3%)の記載がある。本症例のような気道に関わるリンパ管腫の場合は、出生前から出生後の腫瘤増大の可能性や硬化療法などの治療に伴う急な気道狭窄のリスクなどを考慮し、産科医、

小児科医、小児外科医、放射線科医、耳鼻科医、麻酔科医、集中治療医などの診療科横断的なチームアプローチを行い、気道確保の必要性やその方法や時期などを検討し、緊急気道確保が必要な状態に陥らないように治療戦略を立てることが重要であると思われた。

さらに、我々はファイバースコープガイド下経鼻気管挿管には成功しなかったが、その時に得られた咽頭から喉頭までの観察所見がAWSによる喉頭展開のイメージを得るために有用であった。覚醒下や軽度鎮静下の経鼻気管支鏡検査は気道系に問題のある小児や乳児にも施行可能な手技とされ^{10),11)}、解剖学的特徴や狭窄の状態を事前に知るために、計画的に気管支鏡検査を施行することも有用であると考えられた。

結 語

頸部リンパ管腫は、出生後も自然増大や治療などの刺激を契機に緊急気道確保が必要となる可能性がある。個々の症例で気管切開の必要性、緊急気道確保時の手順について小児科医、小児外科医のみならず、麻酔科医、集中治療医も含めた診療科横断的な検討が必要と思われた。

症例報告については、院内倫理委員会の承認および患者・家族から書面で同意を得た。

本稿の全ての著者には規定されたCOIはない。

文 献

- 1) 木山秀哉. 小児の困難気道確保(Difficult Airway Management: DAM) 侵襲的気道確保とCICV. 日臨麻会誌 2011;31:940-5.
- 2) 久保田一政, 糟谷周吾, 深山治久, 他. 新生児の舌内甲状舌管嚢胞摘出術における全身麻酔経験: 挿管時にPentax-AWS Airway Scope™が有用であった1例. 日小児麻酔会誌 2013;19:137-41.
- 3) 星島 宏, 竹内梨紗, 今村敏克, 他. Pentax Airway Scope新生児用イントロロックが有用であったアーノルド・キアリ奇形を合併した挿管困難新生児の1症例. 麻酔 2013;62:435-8.
- 4) Fiadjoe JE, Hirschfeld M, Wu S, et al. A randomized multi-institutional crossover comparison of the GlideScope® Cobalt Video laryngoscope to the flexible fiberoptic bronchoscope in a Pierre Robin manikin. Paediatr Anaesth 2015;25:801-6.
- 5) Burjek NE, Nishisaki A, Fiadjoe JE, et al; PeDI Collaborative Investigators. Videolaryngoscopy versus fiber-optic intubation through a supraglottic airway in children with a difficult airway: an analysis from the multicenter pediatric difficult intubation registry. Anesthesiology 2017;127:432-40.
- 6) Fiadjoe JE, Kovatsis P. Videolaryngoscopes in pediatric anesthesia: what's new?. Minerva Anestesiol 2014;80: 76-82.

- 7) Lingappan K, Arnold JL, Fernandes CJ, et al. Videolaryngoscopy versus direct laryngoscopy for tracheal intubation in neonates. Cochrane Database Syst Rev 2018;6:CD009975.
- 8) Xue FS, Liu YY, Li HX, et al. Paediatric video laryngoscopy and airway management: what's the clinical evidence?. Anaesth Crit Care Pain Med 2018;37:459-66.
- 9) 笹村佳美, 工藤典代, 武宮三三, 他. OK-432局注により呼吸困難を生じ気管切開術を施行後全摘を行った頸部の嚢胞状リンパ管腫の1乳児例. 小児耳鼻 1997;18:33-7
- 10) 斎藤和智, 外山裕章, 江島 豊, 他. デクスメトミジンの気管支鏡検査での有用性: 極度の声門下狭窄と気胸を呈した小児頸部リンパ管腫の1症例. 麻酔 2016;65:1026-30.
- 11) Botma M, Kishore A, Kubba H, et al. The role of fibre-optic laryngoscopy in infants with stridor. Int J Pediatr Otorhinolaryngol 2000;55:17-20.

Abstract

A case of critical airway stenosis with difficult intubation following OK-432 treatments against giant cervical lymphangiomas in neonate

Yoko Midorikawa^{*1}, Eiji Hashiba^{*2}, Hidetomo Niwa^{*1}, Kazuyoshi Hirota^{*1}

^{*1}Department of Anesthesiology, Hirosaki University Graduate School of Medicine

^{*2}Division of Intensive Care, Hirosaki University Hospital

^{*1} 5 Zaifu-cho, Hirosaki, Aomori 036-8562, Japan

^{*2} 53 Hon-cho, Hirosaki, Aomori 036-8563, Japan

We have reported a case of massive cervical lymphangioma, which was diagnosed prenatally, and the baby was born under a elective caesarean section without any complications. However 10 days after birth, the neonate experienced exacerbated airway stenosis due to the natural and the treatment-related enlargement of the tumor. Then, emergency intubation was needed, but was difficult to perform. Finally, it was achieved using a fiber-optic scope and a video laryngoscopy. It should be noted that careful airway managements for fetal cervical tumors may be needed not only just after the birth but also for any time especially following the treatment for the tumor, because it may make the airway stenosis worse. Multidisciplinary team approach with neonatologists, pediatric surgeons, anesthesiologists, intensivists and so on are needed to save such kind of patients.

Key words: ① neonatal emergency intubation, ② cervical lymphangioma, ③ video laryngoscope

J Jpn Soc Intensive Care Med 2021;28:114-7.