

小児特発性縦隔気腫の2例

管 博美 石井 茂樹 中谷 圭吾

要約：小児特発性縦隔気腫の2例を経験したので報告する。症例1は14歳男児。気管支喘息の既往歴があり薬物療法中で、6ヵ月以上発作なく経過。長距離走の最中に出現した胸痛を主訴に当科受診。呼吸困難や喘鳴、低酸素血症は認めず、理学所見上の異常はなかったが、胸部X線で縦隔気腫を認めたため同日入院。症例2は9歳女児。生来健康で、明らかな誘因なく出現した前胸部痛を主訴に当科受診。呼吸困難や喘鳴、低酸素血症は認めないが、前胸部に軽度の圧痛が見られた。胸部X線で縦隔気腫と皮下気腫を認めたため同日入院。両者とも安静のみで症状は次第に軽快し、気腫も徐々に軽減した。気腫消失後に運動を再開したが、その後も再発を認めていない。胸部CT検査は気腫の範囲や程度を詳細に評価するのに有用だったが、本例も含めて大半は自然軽快するため、その適応は胸部X線で同定困難な症例や症状が進行性の症例に限るなど、今後検討の余地があると思われた。

〔平成24年10月31日入稿，平成24年11月21日受理〕

はじめに

小児における縦隔気腫は、外傷や気管支喘息発作時、呼吸不全に対する人工呼吸管理中に続発するもの以外は、比較的まれといわれている。われわれは、特発性縦隔気腫の小児2症例を経験したので、文献的考察を加え報告する。

症 例

患者1：14歳，男児。主訴：胸痛。家族歴：特記事項なし。既往歴：12歳（中学1年生）の頃から気管支喘息を指摘され、モンテルカスト，テオフィリンの内服およびフルチカゾンの吸入を継続中で、2009年4月以降，発作なし。胸痛歴なし。現病歴：2009年10月3日，野球部の練習で朝9時から昼の休憩以外は走っていた（右前腕を痛めてボールを握れないため）。14時半ごろから前胸部痛が出現し，17時の運動終了後も軽快しないため，19時頃，夜間急病センターを受診した。胸部X線検査で縦隔気腫を認めたため，当科紹介入院となった。入院時現症：体重50kg，体温36.9℃，脈拍112回/分，呼吸数28回/分，

宮崎市小児診療所（宮崎市）

吸気時に胸痛あり，頸部と胸部で握雪感や圧痛は認めなかった。聴診上心音，肺胞音ともに正常で，Hamman's signは認めなかった。入院時検査所見：経皮的酸素飽和度（SpO₂）は100%で，静脈血ガス分析でも二酸化炭素分圧（PCO₂）は43.8mmHgと正常範囲だった。血液検査で白血球数12,000/ μ L（好中球比率73.3%），CK336 IU/Lと軽度高値を認めたが，CRPは0.08mg/dlだった。12誘導心電図は異常なし。胸部X線では気管左外側に線状の透亮像を認めた（図1）。入院後経過：入院時，胸痛以外の症状はなく呼吸困難も認めないため，安静にて経過観察とした。10月4日（第2病日）も胸痛は持続したが悪化なく，呼吸困難や低酸素血症を認めなかった。10月5日（第3病日）に前頸部皮膚の握雪感と圧痛を認めたが，胸痛はやや軽減していた。同日の胸部単純CT検査では，左前肺底区域気管支周囲から頸部皮下に及ぶ気腫を認めた（図2）。胸部X線では入院時に認めた透亮像の若干の改善を認めた。胸痛は改善傾向で呼吸状態は安定していたため，同日退院し，以後はかかりつけ医にフォローをお願いした。第6病日には胸痛は消失し，さらに1週間後から運動を再開したが，以後再発を認めていない。

患者2：9歳6ヵ月，女児。主訴：胸痛。家族歴：

母と祖母が喫煙者。既往歴：特記事項なし。気管支喘息を指摘されたことなし。現病歴：2009年12月1日昼頃に、特に誘因なく突然前胸部痛が出現した。その後も胸痛が持続したため23時頃夜間急病センターを受診し、胸部X線で縦隔気腫を認めたため、当科紹介入院となった。入院時現症：体重28kg、体温36.6℃、脈拍96回/分、呼吸数20回/分、前傾姿勢であった（胸を張ると胸痛の軽度増強あり）。頸

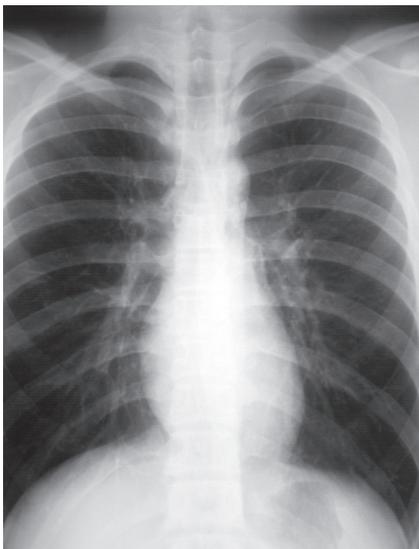


図1. 症例1 入院時胸部X線像。
気管左外側に気腫像を認める。



図2. 症例1 胸部CT像（第3病日）。
左前肺底区域気管支周囲から気管周囲に及ぶ
気腫像を認める。

部に異常を認めず、胸骨左縁第2肋間付近に軽度の圧痛があり、聴診は異常所見なく、Hamman's signは認めなかった。入院時検査所見：SpO₂は99%で、静脈血ガス分析ではPCO₂ 40.5mmHgと異常を認めなかった。白血球数16,200/ μ L（好中球比率80.2%）と上昇を認めたがCRP値の上昇は認めなかった。胸部X線では気管左外側に縦隔気腫と右頸部に皮下気腫を認めた（図3）。入院後経過：胸痛も自制内で呼吸状態に問題ないため、安静のみで経過観察とした。12月2日（第2病日）の胸部単純CT検査では、縦隔内から頸部皮下にかけて気腫像を認めたが、気腫の原因となるような病変は認めなかった（図4）。胸痛は徐々に軽減し、12月4日（第4病日）の胸部X線でも気腫の増悪は認めなかったため、同日退院



図3. 症例2 入院時胸部X線像。
気管左外側に気腫像と右頸部皮下に気腫像を
認める。



図4. 症例2 胸部CT像（第2病日）。
気管分岐部周囲に気腫像を認める。

とした。退院後、胸痛は消失したが、退院1週間後の胸部X線でも縦隔気腫が縮小しているものの残存していたため、激しい運動のみ制限した。約3週間後には胸部X線上の気腫は消退したため、運動制限を解除した。以後、再発を認めていない。

考 察

特発性縦隔気腫は、1939年にHamman¹⁾により基礎疾患や誘因なく発症する縦隔気腫と定義された。しかし近年では、基礎疾患を有していても、外傷や外科的処置および基礎疾患に起因しない場合も、特発性縦隔気腫とされている²⁾。今回の2症例のうち症例2はHammanの定義した“狭義の”特発性縦隔気腫と診断できる。一方、症例1は基礎疾患に気管支喘息を有していたが、3ヵ月以上発作を認めず発症前後も喘鳴など喘息発作を疑う状態が見られなかったことから、“広義の”特発性縦隔気腫と診断可能と思われる。

特発性縦隔気腫の発生頻度は、Abolnikら²⁾がまとめた各施設の救命センターからの報告で1,800～42,000人に1人とされ、施設間でのばらつきが大きい。さらに、高柳ら³⁾による本邦における成人領域も含めた調査では、1984年以前と比較して2005年までに報告数が5倍以上に増加している。この理由としては、縦隔の描出に優れたCTがX線で見逃されていた気腫を確認できるようになったことがあげられている。本例でも、胸部X線では同定困難な部位にも胸部CTで気腫を確認できた。したがって施設間の頻度のばらつきの理由の一つとして、CTを含めた画像診断の適応の違いにより、軽微な縦隔気腫が見逃されている可能性が考えられる。

発症誘因は激しい運動、大声、咳嗽などの肺胞内圧を上昇させるものが多く、高柳らは、約半数(49%)にこれらの誘因を認めたと報告している。一方、症例2のように明らかな発症誘因がないものも34%と報告している³⁾。

発生機序は、何らかの原因による肺胞内圧の上昇が、肺血管鞘をとりまく肺胞の破壊を引き起こし、縦隔内の平均気圧が肺実質よりも低いために、漏出した空気は呼吸運動とともに肺血管鞘に沿って胸部や上肢、頸部に移動すると考えられている⁴⁾。もし

縦隔内圧が過度に上昇すれば緊張性の縦隔気腫や気胸を起こす原因となるが、皮下に移動することで縦隔内圧の上昇を抑えることができるため、重篤な経過に至るのは稀である。

縦隔気腫の症状では90～100%の頻度で胸痛があり、他には呼吸困難や嚥下困難、頸部痛、斜頸、発音障害、腹痛などがある。村上ら⁵⁾の報告では皮下気腫は約80%に合併するとされている。

診断に関しては胸部X線検査が第一選択となるが、気管分岐部のような同検査で同定しにくい個所の診断や少量の気腫の同定には、胸部CT検査が有用である。しかし全例CT検査を施行することは、本疾患の大半が自然治癒することを考慮すると、被爆の面と医療コストの面からも議論の余地がある。少なくとも、本疾患が疑われるにもかかわらず胸部X線検査で診断できない場合や、重篤な合併症(縦隔炎や緊張性縦隔気腫)が危惧される場合にはCT検査が必要と考えられる。また、発症前に嘔吐を認めた例や、嚥下または経口摂取による胸痛の増強がある症例、発熱や炎症反応上昇を伴い縦隔炎が否定できない症例では、特発性食道破裂の鑑別のため、食道造影が必要である。

治療は、一般的に安静や酸素吸入、鎮痛薬投与などの対症療法である。本症例でもどちらも無治療で軽快した。巨大な縦隔気腫、すなわち緊張性縦隔気腫が疑われる場合は縦隔ドレナージを必要とすることがあるが、村上ら⁵⁾の成人も含めた報告ではまれとされている。

特発性縦隔気腫は一過性の症状の増悪を認めることはあるが、2日から15日にかけて大半は自然治癒する⁵⁾。発症数日後に急激な増悪をたどった報告はなく、再発はまれで、5%未満と報告されている³⁾。しかし肺胞の脆弱が原因である場合は、肺胞内圧を上昇させる運動等の行為が再発を招く可能性は否定できない。学童期の患者では活動性も高く、運動については注意が必要と思われる。本症例でも画像で改善を認めるまでは激しい運動は制限していたが、運動制限解除の基準や時期に関するエビデンスはなく、今後の検討が必要である。

参考文献

- 1) Hamman L. Spontaneous mediastinal emphysema. Bull Johns Hopkins Hosp 1939 ; 64 : 1-21.
- 2) Abolnik I, Lossos IS, Breuer. Spontaneous pneumomediastinum. A report of 25 cases. Chest 1991 ; 100 : 93-5.
- 3) 高柳博久, 小森 学, 中山次久, 他. 特発性縦隔気腫 6 症例の検討. 日気食会報 2007 ; 58 : 574-81.
- 4) Macklin C C. Transport of air along sheaths of pulmonic blood vessels from alveoli to mediastinum. Arch Int Med 1939 ; 64 : 913-26.
- 5) 村上莊一, 川村 健, 中西喜嗣, 他. 特発性縦隔気腫の1例 - 過去10年間の本邦報告の検討 -. 日呼外会誌 2001 ; 15 : 713-7.

Two Child Cases of Spontaneous Pneumomediastinum

Hiromi Kan Shigeki Ishii Keigo Nakatani

Miyazaki-City Shouni Shinryousho, Japan

Abstract

We report two child cases of spontaneous pneumomediastinum. Case 1 : A 14-year-old boy admitted to our hospital, with a complaint of chest pain after distance running. On admission, he did not have dyspnea, wheeze, or palpable subcutaneous emphysema. Chest X-ray examination and CT scan showed mediastinal and subcutaneous emphysema. Case 2 : A 9-year-old girl visited our hospital, with a complaint of chest pain without triggering episodes. On admission, she did not have dyspnea or wheeze, but had mild tenderness at the second left sternal border. Chest X-ray and CT scan findings revealed mediastinal and right cervical subcutaneous emphysema. We closely observed both cases only with bed rest in the hospital. Subsequently, their chest pain resolved, and they were discharged in about a week.

Key words : child, spontaneous pneumomediastinum