

症例報告

動脈管クリップによる左主気管支圧排のために左無気肺を来した
超低出生体重児の1例

岡 俊太郎^{1)*}, 川崎 秀徳²⁾, 金井 雅代¹⁾, 石黒 秋生¹⁾,
加部 一彦¹⁾, 側島 久典¹⁾, 田村 正徳¹⁾

1) 埼玉医科大学総合医療センター 小児科

2) 京都大学医学部附属病院 遺伝子診療部

在胎24週6日、669gにて出生した女児。動脈管開存症(PDA)に対して日齢5に動脈管クリッピング術を施行し、術後に左完全無気肺を認めた。

気道の評価目的で日齢64に気管支鏡検査を行ったところ、左主気管支の内腔が右に比べ細く、外側からの圧排所見を認めた。また、同日施行した胸部CTにて、左主気管支に近接して動脈管クリップが位置しているのを確認した。以上より、動脈管閉鎖術に用いたクリップが左気管支を圧排していると判断した。左無気肺はAirway pressure release ventilation (APRV)による呼吸管理を行うことで改善を得た。日齢65に抜管し、経鼻的持続陽圧換気(N-CPAP)による呼吸補助を開始した。日齢77に呼吸補助をhigh flow nasal canula (HFNC)に変更した。抜管後は無気肺の再発を認めず、日齢141に修正44週、体重2466gで、慢性肺疾患に対して在宅酸素療法を導入して退院となった。

J Saitama Medical University 2018; 45(1): 18-22

(Received March 29, 2018/Accepted May 30, 2018)

Keywords: PDA clipping, postoperative complications, atelectasis, bronchial obstruction, bronchoscopy

内科的治療が奏功しない動脈管開存症(PDA)に対して多くの場合外科的な介入が選択される。外科的治療法として、以前は動脈管結紮術、切離術が行われてきたが、10年ほど前からより手技が容易でより安全かつ確実に動脈管閉鎖が可能なクリッピング術が選択されるようになってきている。症例の蓄積は十分ではないが、これまでに合併症として、肺損傷、肺出血、胸水、乳び胸や、脊髄障害、反回神経麻痺、横隔神経麻痺、動脈管の再開通などが報告されている。今回我々は、動脈管クリッピング術に使用した手術用クリップの左主気管支圧排により、左無気肺発症を認めた症例を経験した。本症例では特殊な呼吸管理法を用いたことで無気肺が改善し、その後の再発も認められなかった。これまで動脈管クリップによる圧排を原因として無気肺を呈した症例報告は少なく、かつ呼吸管理により改善した報告はないため、本症例の経過を報告する。

症 例

在胎週数24週6日、出生体重669gの女児。二絨毛膜二羊膜(DD)双胎の診断で、出生前は当院産婦人科にて定期的に外来を受診していた。在胎21週5日、切迫流産の診断で管理入院となった。入院後、子宮収縮抑制剤の投与が開始となり、第1子はやや胎児発育遅延(FGR)の傾向を認めたが、比較的体重増加は順調であった。

妊娠24週5日、母体に下腹部痛が出現した。子宮破裂の診断で緊急帝王切開術施行となり、本児はDD双胎の第2子として出生した。

【蘇生時経過】

Apgar Score: 3 (1分)/7 (5分)/8 (10分)

出生後啼泣なく速やかに用手換気を開始した。臍帯ミルキングを施行の上、生後9分で気管挿管を施行した。挿管後も酸素化改善に乏しく、サーファクタント0.7Vを3方向に気管内投与し、その後酸素化改善を認めた。FiO2:

*著者連絡先: 埼玉医科大学総合医療センター 小児科 新生児部門 〒350-8550 埼玉県川越市鴨田1981 Tel: 049-228-3890 FAX: 049-226-2325
E-mail: k0185920@kadai.jp [平成30年3月29日受付/平成30年5月30日受理]

○著者全員は本論文の研究内容について他者との利害関係は有しません。

0.30 で用手換気をしながら NICU へ入院した。

【入院後経過】

出生体重：669 g 身長：30.5 cm 頭囲：22.0 cm 胸囲：18.0 cm

【身体所見】

顔色，末梢の皮膚色良好 皮膚はやや脆弱 外表面の奇形なし 外性器は正常女性型

大泉門平坦

胸部：肺音清，左右差なし 心音整，雑音なし

腹部：平坦軟，蠕動音は聴取されず

【血液検査所見】

・動脈血液ガス検査

pH: 7.544 pCO₂: 22.2 mmHg pO₂: 93.3 mmHg
HCO₃⁻: 19.1 mmol/L Lac: 5.5 mmol/L BE: -3.1 mmol/L Glu: 56 mg/dL

・血算

WBC: 4100/μl RBC: 377万/μl Hb: 16.2 g/dl Hct: 44.7%
MCV: 118.6 fl MCH: 43.0 pg MCHC: 36.2 g/dl
Plt: 18.4万/μl
白血球分画 BAND: 4.0% SEG: 34.0% MONO: 6.0%
LYMPH: 56.0%

・生化学検査

TP: 3.6 g/dL Alb: 2.5 g/dL CK: 164 U/L CK-MB: 99 U/L
AST: 39 U/L ALT: 4 U/L LDH: 357 U/L
Cr: 0.53 mg/dL UA: 5.0 mg/dL BUN: 7 mg/dL Na: 140 mEq/L
Cl: 109 mEq/L K: 4.4 mEq/L Mg: 4.6 mg/dL Ca: 7.7 mg/dL
IP: 4.3 mg/dL T-Bil: 2.1 mg/dL D-Bil: 0.7 mg/dL
IgG: 273 mg/dL IgM: 4.8 mg/dL

【超音波検査】

・心臓

AV-VA concordant 心奇形なし

下大静脈：1.3 mm

卵円孔：1.3 mm flow: L → R

三尖弁逆流：2度

動脈管：2.6 mm flow：両方向性

左肺動脈収縮期血流：69.9 cm/s 拡張期血流 22.7 cm/s

LA/Ao 比：1.5

左室駆出率：85%

・頭部

脳室内出血なし その他明らかな出血・腫瘍性病変・奇形なし

脳室周囲高エコー輝度領域：右1度 左1度

・腹部

胆嚢確認可

右腎臓：26.0×15.0 mm 左腎臓：27.4×15.8 mm

奇形なし，水腎症なし

【入院時胸部レントゲン】

(Fig. 1：サーファクタント補充療法後)

入院後は循環管理目的で出生4時間後からドパミン，出

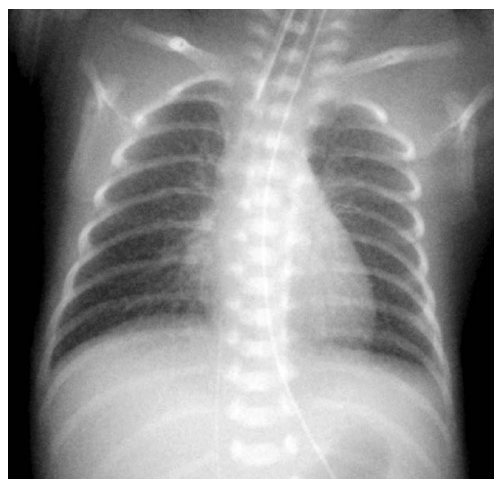


Fig. 1 入院時（日齢0）の胸部レントゲン。サーファクタント補充療法後，肺野の透過性に左右差は認めない。

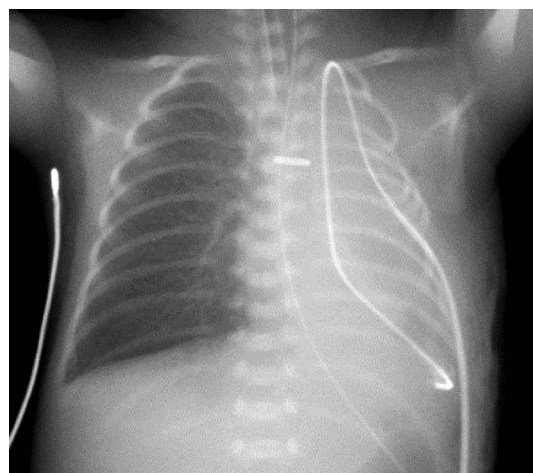


Fig. 2 日齢5の胸部レントゲン像。PDA クリッピング術後に左無気肺をきたした。

生24時間後からドパミン持続静脈投与を開始した。出生4時間の超音波検査で動脈管は2.6 mm 開通しており，血流短絡方向は左→右であった。PDA に対する内科的治療として，日齢0 から1 にかけてインドメタシンを初回治療量として0.2 mg/kg/dose，日齢2 に0.1 mg/kg/dose 投与した。しかし，インドメタシン投与後も動脈管の閉鎖は得られず，次第に前大脳動脈の拡張期血流低下，体血流の減少を認めるようになった。PDA が症候化し，また内科的治療が奏功しないと判断したため，日齢5 に動脈管クリッピング術を施行した。術中の動脈管外径は4.0 mm であった。帰室後はSIMV による人工呼吸管理を継続したが，呼吸状態は不良で術前よりも高い換気設定を要した。胸部レントゲン撮影を行ったところ左無気肺，右肺の過膨張所見を認めた (Fig. 2)。

術中に鎮静，筋弛緩を行っていたため気道分泌物の貯留による無気肺を考慮して，日齢7 にサーファクタントによる肺野の洗浄，およびサーファクタント投与を施行した。サーファクタント投与後 high frequency oscillation (HFO)

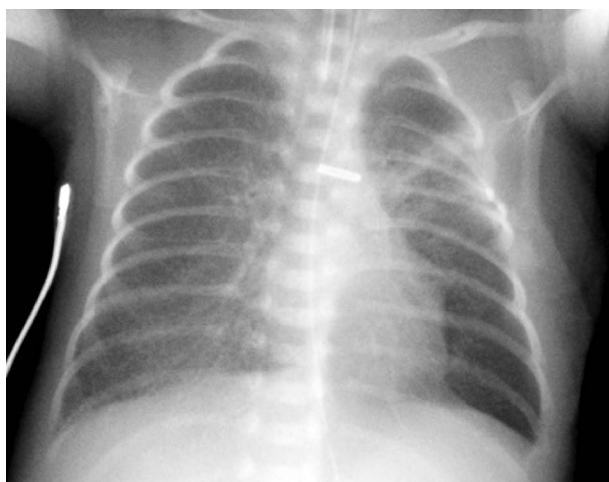


Fig. 3 日齢9の胸部レントゲン像. 無気肺改善後.

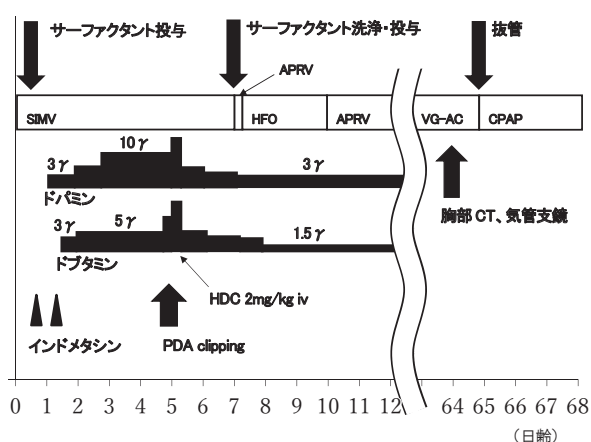


Fig. 4 治療経過.



Fig. 5 日齢64の胸部CTの横断像. 動脈管クリップ (矢印) が左気管支を圧迫している.

モードでの呼吸管理を行ったが無気肺は改善せず残存した. 日齢9に Airway pressure release ventilation (APRV) モードへと変更したところ, 無気肺は改善傾向となった (Fig. 3).

その後は, 徐々に栄養を強化しながら体重増加を促した. 体重増加に伴い, 徐々に呼吸器条件のウィーニングを進めた. 長期挿管による気管軟化症などの合併症の有無を評価



Fig. 6 日齢64の胸部CTの冠状断像. 動脈管クリップ (矢印) が左気管支を圧迫している.

するため, 日齢64に気管支鏡検査を施行した. その際に, 左主気管支を外側から圧排する無拍動性の構造物を認めた. 気管軟化症や気管支軟化症の所見は認めなかった. 同日胸部CT検査を施行したところ, 動脈管のクリップが左主気管支を圧排していることが判明した (Fig. 4, 5, 6).

抜管後の無気肺や気腫性変化のリスクが高いと想定されたが, 長期の人工呼吸管理による肺へのデメリットを憂慮して, 日齢65に抜管し, N-CPAPによる呼吸補助を開始した. 日齢77に呼吸補助をHFNCに変更した. 抜管後は無気肺を発症せず, 呼吸管理に難渋することなく経過した. 呼吸補助を中止すると酸素化を維持できず, 慢性肺疾患による酸素化障害と診断し, 日齢141にhome oxygen therapy (HOT)を導入 (酸素投与0.2 L/min) して退院とした.

考 察

動脈管クリッピング術に使用した手術用クリップにより無気肺を発症した症例を経験した. 本邦では, 未熟児動脈管開存症に対して動脈管クリッピング術が施行されるようになってから10年程度であり, 症例蓄積は十分ではない. 特に, 合併症としての動脈管クリップによる気管支圧排による気道閉塞の報告は数例の症例報告のみにとどまる^{1,2)}. まれではあるが重篤な呼吸障害を来しうる合併症であるため, 本症例の経過についてもここに報告した.

気管支の走行や大動脈弓の走行は正常変異の幅が広いことが, 予期困難なクリップによる気管支の圧排を生じてしまう可能性が考えられる. また, 本症例では出生時体重が669 gと小さく, 完全閉鎖に必要なサイズの動脈管クリップが児の体格に比して大きく気管支を圧排しやすかった可能性も考えられる.

L. L. Harris ら³⁾ がPDA結紮術後に左主気管支の閉塞を認めた症例を報告している. この症例では, 左反回神経障害による左声帯麻痺を発症し, 結果嚥下機能障害を呈し生後11か月で胃瘻造設術を施行されている. 前述した動脈管クリップによる気管支圧排により気道閉塞を起こした2症

例では、いずれも左気管支圧排により左無気肺を生じており、外科的なクリップ解除を要していた^{1,2)}。

本症例ではHFOによる人工呼吸管理では無気肺の改善は認められなかったが、APRVモードで肺のリクルートメントを図ったところ、無気肺が改善した。HFOは一定の平均気道内圧下に死腔換気量以下の換気を行う換気法であり、長期人工呼吸管理を要する早産児の肺保護を目的に広く用いられている。一方、APRVは長いcontinuous positive airway pressure (CPAP) 相と間歇的な開放圧相からなる人工換気法であり、新生児領域では一般的な換気法ではない。APRVモードでは、HFOと同程度の平均気道内圧とするため高いCPAP圧の設定となったが、結果として動脈管クリップによる機械的圧迫が一部解除されたと考えられる。その後は体重増加に伴い徐々に呼吸器条件を下げられた。その後の無気肺の再発を認めず、明らかな気道閉塞症状も認められなかったため、クリップの外科的な除去は施行しなかった。過去の症例報告では全てクリップの除去が行われていたが、本症例では高い気道内圧をかけることにより閉塞が解除される可能性もあることが示された。APRVは外科的処置を行う前に試みてもよい換気法かもしれない。ただし、早産児においては、その際は気胸や慢性肺疾患などの圧損傷による合併症に対して十分に注意する必要がある。

PDAに対する最善の治療法に関しては、いまだに議論の余地が残されている⁴⁻⁷⁾が、動脈管クリッピング術は内科的治療が奏功しない症例に対して、有効な治療法の一つとなる。しかし、起こりうる合併症の一つとして、動脈管クリップによる気管支圧排があることを念頭に置く必要があると考える。本症例では診断が合併症改善後となったが、無気肺等の気道閉塞を術後に認めた場合には、気管支鏡検査

やCT検査を行い、鑑別をすすめる必要が有ると思われる。

文 献

- 1) 森本典行, 佐藤威仁, 岩間 晋, 新屋苑恵, 西脇公俊. 超低出生体重児における動脈管結紮術後に、結紮クリップが原因で気管支閉塞を来し再手術となった一例. *Cardiovascular Anesthesia* 2016; 20: 234.
- 2) 坂有希子, 阿部正一, 松原宗明. 未熟児動脈管開存手術後に左主気管支閉塞をきたし再手術を要した1例. *日本小児循環器学会雑誌* 2014; 30: s348.
- 3) Harris LL, Krishnamurthy R, Browne LP, Morales DL, Friedman EM. Left main bronchus obstruction after patent ductus arteriosus ligation: an unusual complication. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2012; 76: 1855-6.
- 4) Sung SI, Chang YS, Chun JY, Yoon SA, Yoo HS, Ahn SY, et al. Mandatory closure versus nonintervention for patent ductus arteriosus in very preterm infants. *J Pediatr* 2016; 177: 66-71.
- 5) Elhoff JJ, Ebeling M, Hulsey TC, Atz AM. Potential unintended consequences of a conservative management strategy for patent ductus arteriosus. *Congenit Heart Dis* 2016; 11 (1): 52-7.
- 6) Youn Y, Moon CJ, Lee JY, Lee C, Sung IK. Timing of surgical ligation and morbidities in very low birth weight infants. *Medicine* 2017; 96 (14): e6557.
- 7) Letshwiti JB, Semberova J, Pichova K, Dempsey EM, Franklin OM, Miletin J. A conservative treatment of patent ductus arteriosus in very low birth weight infants. *Early Hum Dev* 2017; 104: 45-9.

A case of an extremely low birth weight infant with left lung atelectasis resulting from obstruction of the left main bronchus PDA closure

Shuntaro Oka^{1)*}, Hidenori Kawasaki²⁾, Masayo Kanai¹⁾, Akio Ishiguro¹⁾,
Kazuhiko Kabe¹⁾, Hisanori Sobajima¹⁾, Masanori Tamura¹⁾

1) Department of Neonatology, Saitama Medical Center, Saitama Medical University

2) Department of Genetics, Kyoto University Hospital

This is a case report of a female baby born at 24 weeks and 6 days of gestation, with a birth body weight of 669 grams. On her fifth day of life (DOL), she received a ductus arteriosus clipping surgery. After surgery she suffered from complete left lung atelectasis, which was recovered using airway pressure release ventilation. Bronchoscopic findings to estimate airway patency was done on DOL 64 and revealed obstruction of left main bronchus by an extra-bronchial mass. A chest CT showed the PDA's clip located adjacent to the left main bronchus and was suspected to be causing its kinking. She was extubated on DOL 65 to nasal CPAP (N-CPAP), and weaned off to high flow nasal canula (HFNC) from DOL 77. Her breathing was stable and she had no recurrence of atelectasis. On DOL 98 she switched to nasal canula oxygen and was discharged to home on DOL 141 and placed on home oxygen therapy (HOT).