

耳鼻咽喉科疾患についての検討

研究分担者 守本 倫子
(国立成育医療研究センター病院感覚器・形態外科部耳鼻咽喉科)

研究要旨

小児慢性特定疾患治療研究事業に気管狭窄として登録されている症例について検討を行った。気管狭窄として登録されている疾患の 70% 近くは咽頭や喉頭などの上気道の狭窄に伴う病態であった可能性が考えられた。頭蓋顔面奇形などは治療と共に気道のトラブルが少なくなってくる可能性もあり、年次ごとに経過を追っていくことで病態や治療、予後が明らかになり、将来的には社会福祉政策に反映させることができると考えられる。

研究協力者:

二藤隆春(東京大学耳鼻咽喉科 講師)

A. 研究目的

2015 年より慢性呼吸器疾患に認定されていた「気管狭窄」が、気道狭窄という群となり喉頭狭窄や咽頭狭窄、気管狭窄および気管・気管支軟化症を含むようになった。これらの登録はまだ始まったばかりであり、どの程度の症例数があるのか推測の域をでない。しかし、今までも咽頭・喉頭狭窄が病態でありながら、気管狭窄として登録していた症例も少なくなく、今後は正確な登録により実態の調査が可能になると考えられる。

平成 25 年度、26 年度の小慢事業登録データにおける気管狭窄症例を比較検討することを目的とした。

B. 研究方法

<平成 28 年度>

対象と方法

小児慢性特定疾患治療研究事業登録データ解析

平成 25 年度の小慢事業登録データを用い、慢性呼吸器疾患 3355 例のうち気管狭窄として登録されていた 1012 例(30%)について、咽頭狭窄や喉頭狭窄などが疑われる症例を検索した。発症 2 歳以下での気管狭窄例に限って検討を行った。

<平成 29 年度>

対象と方法

小児慢性特定疾患治療研究事業登録データ解析

平成 26 年度の小慢事業登録データを用い、慢性呼吸器疾患 3,009 例のうち気管狭窄として登録されていた 985 例(32.7%)について、咽頭狭窄や喉頭狭窄などが疑われる症例を検索した。

(倫理面の配慮)

本研究で用いた小児慢性特定疾患治療研究事

業における医療意見書登録データは、申請時に研究への利用について患児保護者より同意を得た上で、更に個人情報情報を削除し匿名化してデータベース化されている。したがって、匿名化された事業データの集計・解析に基づく理論的研究であり、被験者保護ならびに個人情報保護等に関する特別な倫理的配慮は必要ないものと判断した。

小慢登録データの解析については、国立成育医療研究センター倫理審査委員会による倫理審査(受付番号:1637)による承認済をうけた。

C. 研究結果

<平成 28 年度>

「慢性呼吸器疾患」の内訳

慢性呼吸器疾患 3355 例のうち、気管狭窄と登録されていたのは 1012 例(30%)であった。これは慢性肺疾患 1371 例(41%)に次いで多く、続いて気管支喘息(17%)、先天性中枢性低換気症候群 220 例(9%)であった(図 H28-1)。

気管狭窄症例について、喘息症状がないこと、また気管切開などの治療介入が必要であったものの、人工呼吸器の装着や酸素投与が必要ではない症例を抽出した。その結果を図に示す(図 H28-2)。

気管狭窄と初回診断がついた例は、ほぼ 0 歳時であり、少なくとも 2 歳以下で診断がついていた。発症 2 歳以下の症例 746 例について気管切開の有無について検討をおこなった。

先天性に気道が狭窄しており、2 歳以下で気管切開をされた例が、746 例中 618 例(83%)であったが、そのうち 451 例(73%)は人工呼吸器などを必要とせず、上気道狭窄に伴うものであることが示唆された。気管切開を行わなかった 148 例のうち bi-PAP などの呼吸器装用が 40 例、在宅酸素治療のみが 55 例であった(図 H28-3)。

<平成 29 年度>

慢性呼吸器疾患の平成 25 年度、26 年度の内訳を示す(図 H29-1)。平成 25 年度、26 年度それぞれ

の慢性呼吸器疾患のうち、気管狭窄と診断されていた症例はそれぞれ 3,355 例、3,009 例であった。全体的に登録されている人数が減少している傾向にあった。気管狭窄症例について、喘息症状がないこと、また気管切開などの治療介入が必要であったものの、人工呼吸器の装着や酸素投与が必要ではない症例を抽出した。

平成 25 年、26 年共に気管狭窄は 30%、32.7%と同じ割合であった(図 H29-2a, H29-2b)。

2 歳以下で診断されていた症例は 862 例であり、気管切開をうけていた例は 665 例(77%)であった。そのうち 490 例は人工呼吸器が必要とせず、357 例は酸素も必要としていなかった。気管切開を行わなかった 197 例のうち bi-PAP などの呼吸器装用が 54 例、在宅酸素治療のみが 65 例であった(図 H29-3)。

D. 考察

H28 年度は特に 2 歳以下の先天性気管狭窄と登録されていた症例において、多くは上気道狭窄症例が含まれている可能性が考えられた。気管切開を行ったものの、呼吸器装用など下気道または中枢性疾患が疑われる疾患は 27%であった。また気管切開を行わなかった症例でも酸素投与などが必要な症例は 93 例あり、合計 544 例(73%)は頭蓋顔面奇形などの奇形に伴う咽頭狭窄や喉頭狭窄などの上気道狭窄が原因の可能性は否定できない。H29 年度も同様で、2 歳以下の先天性気管狭窄と登録されていた症例において、気管切開を受けたものの、呼吸器装用や酸素治療などの下気道または中枢性疾患の合併も疑われる症例は 308 例であり、357 例は上気道狭窄のみの障害と推測された。また、気管切開をうけず、人工呼吸器や酸素投与が必要ない 77 例もエアウェイなどを使用しているなどの上気道狭窄が原因の可能性は高かった。

例えばリーチャーコリンズ症候群などの下顎低形成やクルーゾン症候群のような顔面正中部の低形成では、4-5 歳頃から下顎延長術や上顎形成術などを行い、10 歳頃までに気管カニューレを抜去

することが可能となる症例も少なくない。こうした症例の治療や予後について、実態は病院ごとの報告に頼るしかなかったことが問題であった。しかし、H27年よりようやく気道狭窄というカテゴリーの中で、咽頭狭窄や喉頭狭窄という概念で別に登録事業が開始されている。周知が不徹底でまだ登録は十分ではない可能性はあるが、これらの症例が年齢とともにどのような治療が行われているか検討していくことで、症例全体としての治療、治療効果、予後などを明らかにすることが可能となるだろう。

E. 結論

気管狭窄と登録されている症例について検討を行った。H25,26年の気管狭窄例を比較検討したが、ほとんど変化なかった。

現在の小児慢性疾患データでは、気道狭窄(咽頭、喉頭)による対象症例がどのくらいいるのか、予測が困難である。

気管切開、CPAPなどの呼吸補助装置、酸素の使用がない症例では、経鼻エアウェイなどで加療している可能性は高い。本研究事業に正しく登録されることでこうした頻度や病態、治療の実態が明らかになると、社会福祉政策に反映されることが期待できる。

F. 研究発表

学会発表

- 1) 守本倫子: 小児慢性特定疾患と小児の身体障害者認定. 第117回日本耳鼻咽喉科学会学術講演会, 名古屋, 2016.5.19
- 2) 水野貴基、和田友香、守本倫子: 新生児・乳児の上気道狭窄に対する経鼻エアウェイの有効性に関する検討. 第12回日本小児耳鼻咽喉科学会、平成29年6月2日、宇都宮市
- 3) 水野貴基、和田友香、藤野修平、他: 新生児・乳児の上気道狭窄に対する経鼻エアウェイの有効性に関する検討. 第53回日本周産期・新生児医学会、平成29年7月17日、横浜市

G. 知的財産権の出願・登録状況(予定を含む。)

1. 特許情報/実用新案登録/その他
なし/なし/なし

慢性呼吸器疾患 3355例 (平成25年)

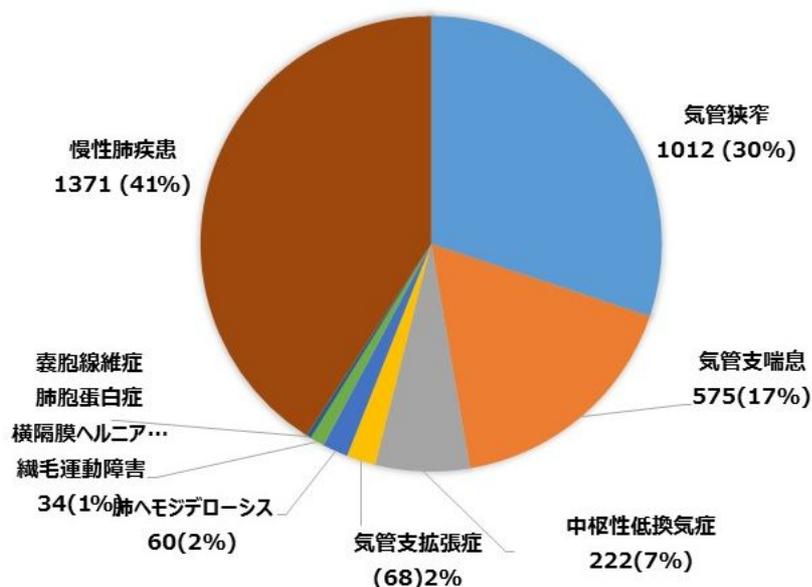


図 H28-1.

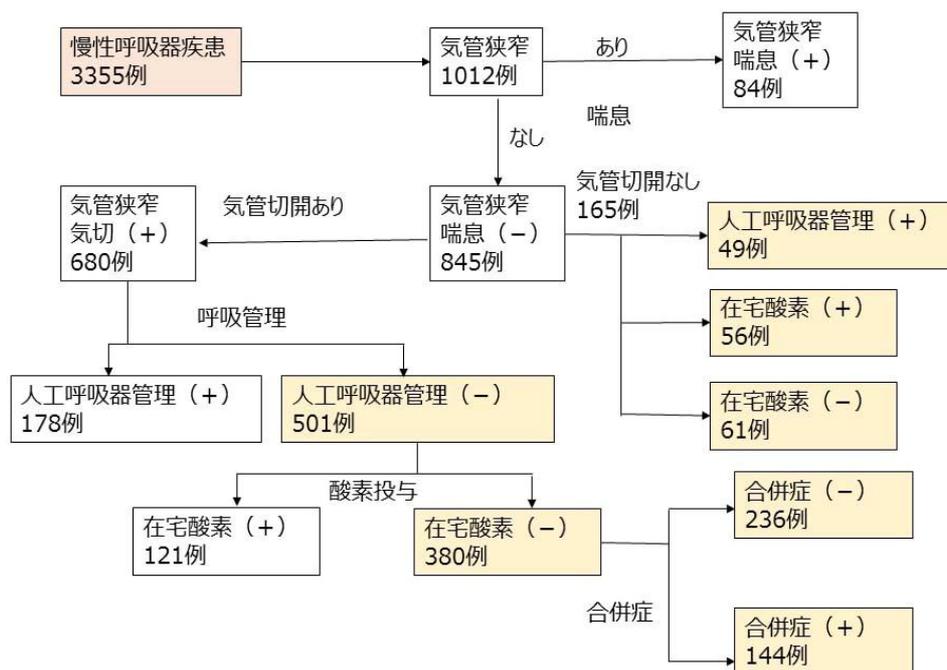


図 H28-2. 平成 25 年度の小児慢性病的疾患治療研究事業・慢性呼吸器疾患分類での気管狭窄登録疾患内訳

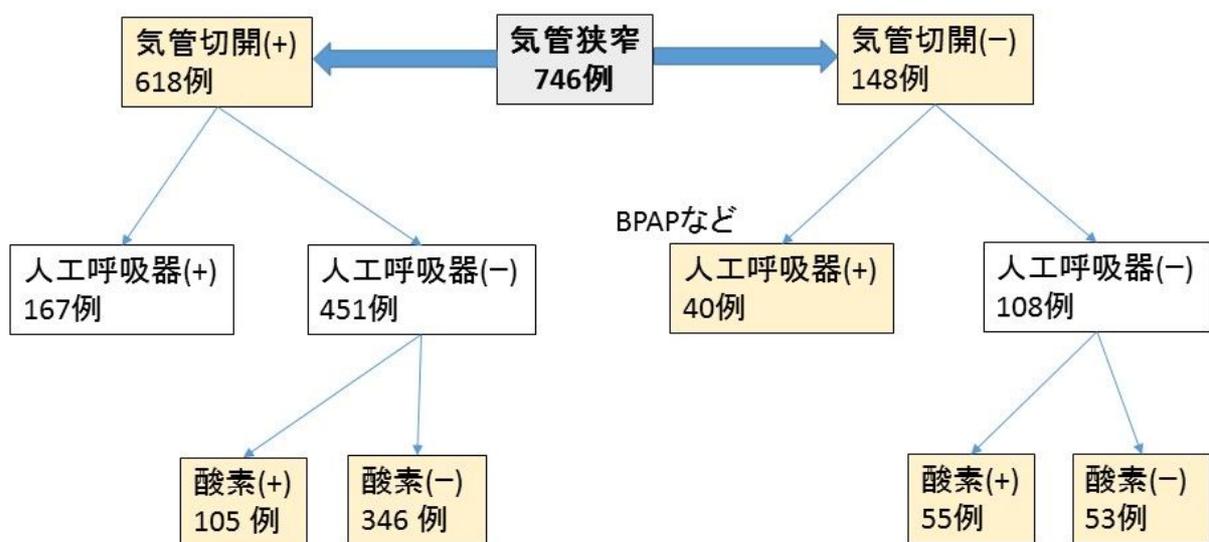


図 H28-3.2 歳以下の気管狭窄症例 746 例についての内訳

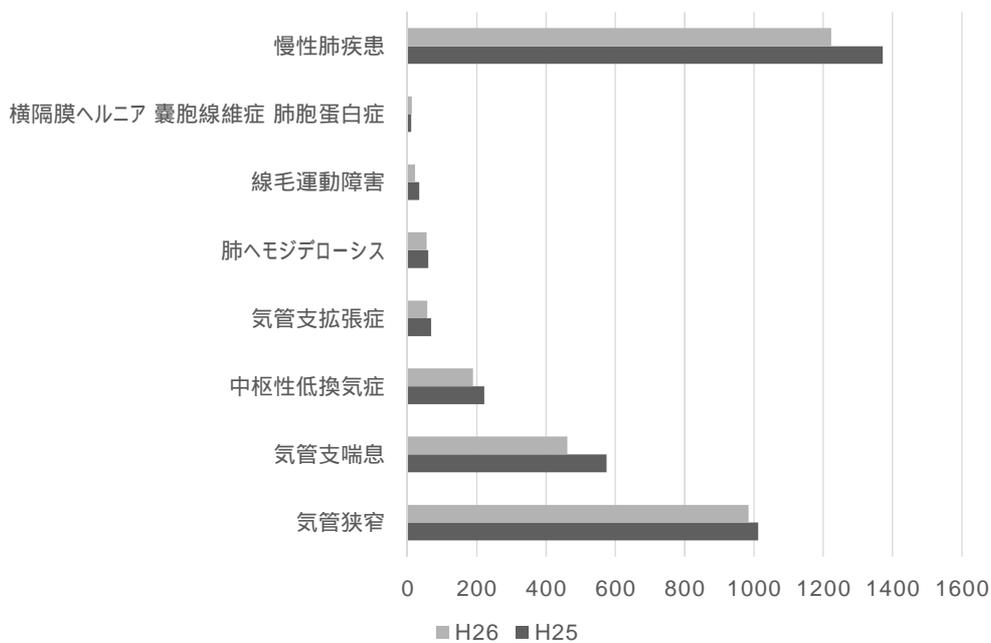


図 H29-1. 平成 25 年度および平成 26 年度の慢性呼吸器疾患の内訳

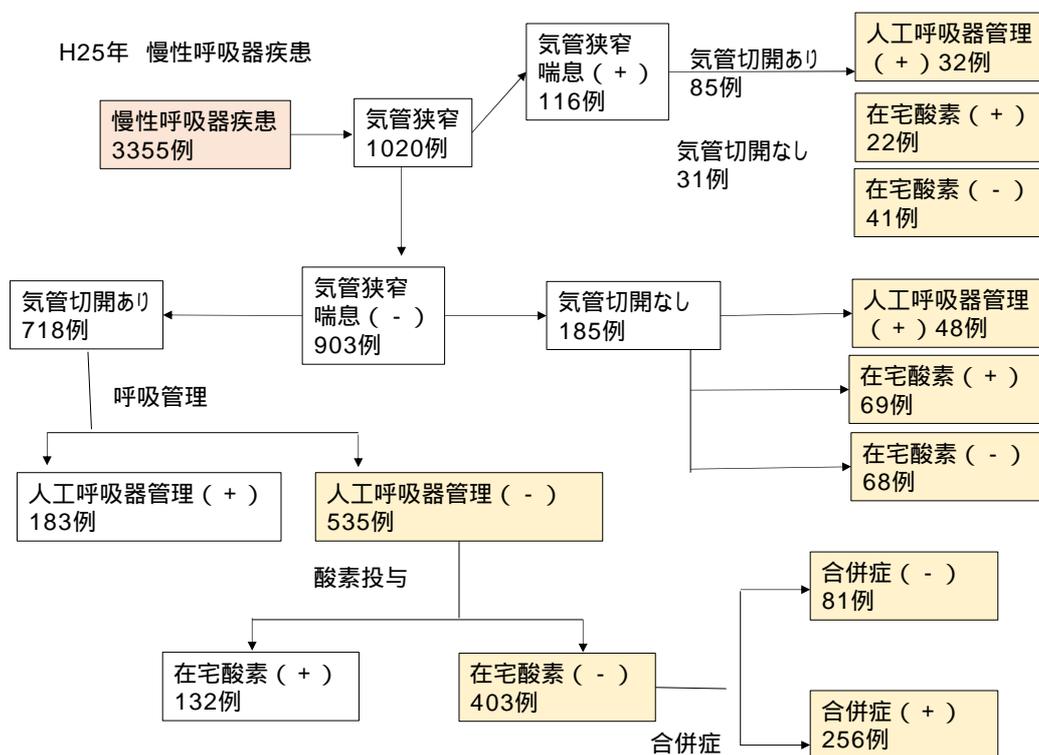


図 H29-2a. H25 年度慢性呼吸器疾患症例 (n=3,355 例)

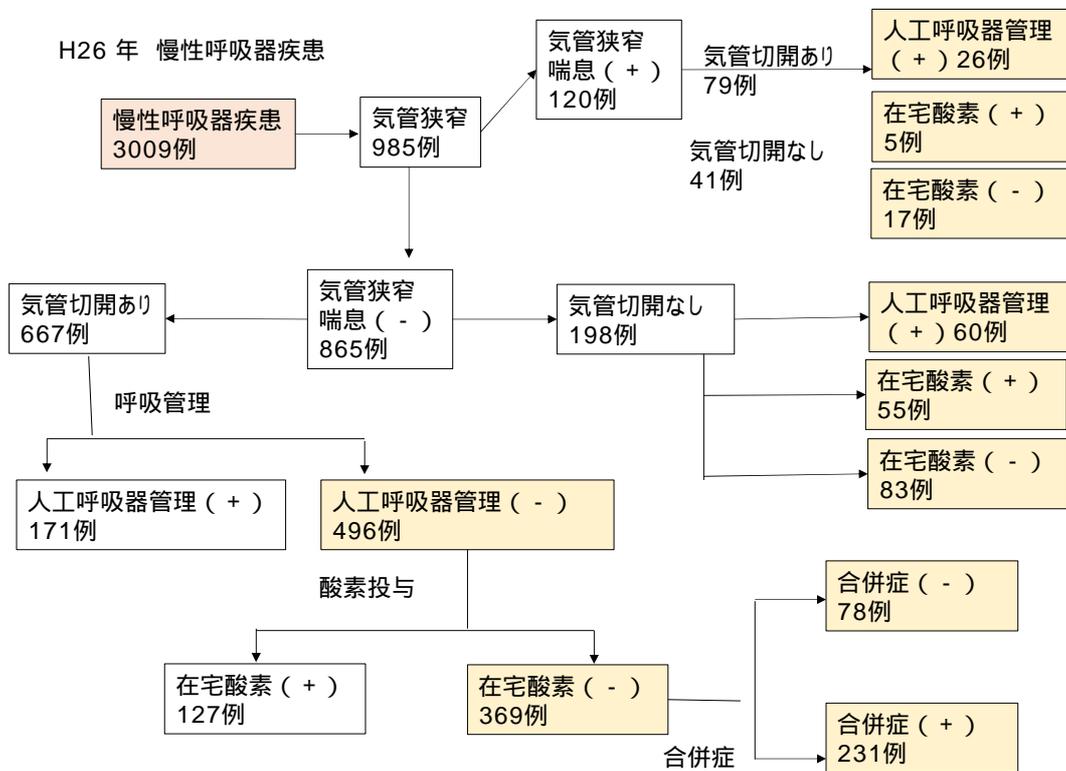


図 H29-2b . H26 年度慢性呼吸器疾患症例 (n=3,009 例)

H26年小慢データより 発症2歳以下の気管狭窄 862例について

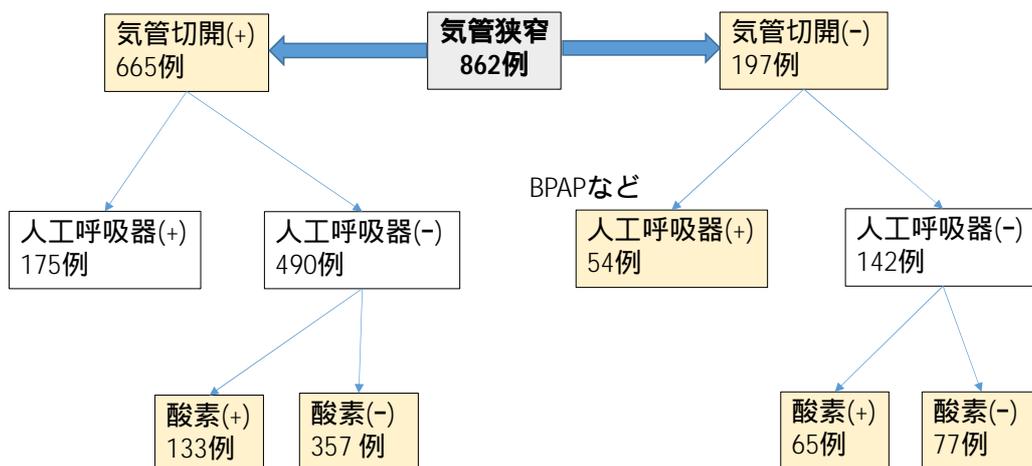


図 H29-3 . 2 歳以下発症の気管支狭窄についての分析

