

報 告

頸部痛を主訴に来院した特発性縦隔気腫の小児の2例

東京女子医科大学医学部小児科学

サハラ	マスミ	イトウ	ヤスシ	ヨシイ	ケイスケ	キシ	タカユキ
佐原	真澄	伊藤	康	吉井	啓介	岸	崇之
カラキ	カツジ	サカウチ	マサコ	オオサワ	マ	キ	コ
唐木	克二	坂内	優子	大澤	真木	子	

(受理 平成24年12月4日)

Two Pediatric Cases of Spontaneous Pneumomediastinum with Neck Pain as the Initial Symptom

Masumi SAHARA, Yasushi ITO, Keisuke YOSHII, Takayuki KISHI,
Katsuji KARAKI, Masako SAKAUCHI and Makiko OSAWA

Department of Pediatrics, Tokyo Women's Medical University School of Medicine

The patients were 10- and 13-year-old boys. Both had an initial symptom of neck pain, and they were diagnosed with spontaneous pneumomediastinum (SPM). We consider that the SPM was probably caused by vigorous exercise, *i.e.*, swimming and swinging a bat. Both healed spontaneously and have not relapsed to date.

Neck pain in children is often caused by lymphadenitis, meningitis, orthopaedic disease, and muscle pain. However, this symptomatology is less frequent than headache, chest pain, and limb pain. When encountered with a patient who has sudden-onset neck pain, SPM should be considered in the differential diagnosis.

We believe that the following symptoms after vigorous exercise will help with the early detection of SPM: chest pain following neck, pharyngeal, or swallowing pain, worsening of neck pain caused by neck retroflexion, and exacerbation of chest pain caused by deep breathing.

Key Words: neck pain, spontaneous pneumomediastinum, subcutaneous emphysema, exercise

緒 言

小児における頸部痛は、リンパ節炎、髄膜炎などの炎症性疾患、整形外科疾患、筋痛などが原因となることはよく経験するが、症候学としての記載は少ない¹⁾。今回我々は、頸部痛を主訴に来院し、特発性縦隔気腫と診断が付いた小児例を2例経験した。本症はまれな疾患で安静のみで治癒することが多いため、軽症例などは小児の頸部痛、胸痛例で見逃されている可能性もあり、日々の診療で鑑別疾患の1つとして念頭におく必要がある。

症例1

患者：10歳の男子。

主訴：頸部痛。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：特記事項なし。

現病歴：午前中は特に症状なく、水泳の検定を受けた。午後サッカーの練習場に向かう途中から徐々

に首の痛みが出現し、痛みのために練習はほとんど見学している状態であった。その後、左胸部に軽度の痛みを自覚していたが、呼吸苦はなかった。頸部痛が持続するため、当院救急外来を受診した。

身体所見：身長140.6cm、体重30.9kg。ボディマス指数(BMI)は15.6でやせぎみであった。体温37.0℃、SpO₂：98%、心拍数57回/分、血圧118/—mmHg。多呼吸は認めなかった。陥没・肩呼吸などの呼吸困難徴候なし。全身状態は比較的良好であった。口腔内異常なし。嚥下痛あり。右頸部から鎖骨周囲にかけ軽度の握雪感あり。頸部リンパ節、耳下腺の腫脹なし。頸部硬直なし。左前頸部に圧痛あるが明らかな発赤・腫脹・熱感なし。呼吸音清で減弱・左右差なし。肺雑音なし。心音純で心雑音なし。腹部、四肢は異常なし。歩行は可能。深吸気時に胸痛は増強。頸部後屈で頸部痛の増強を認めるため、立・坐位では頸部前屈位であった。

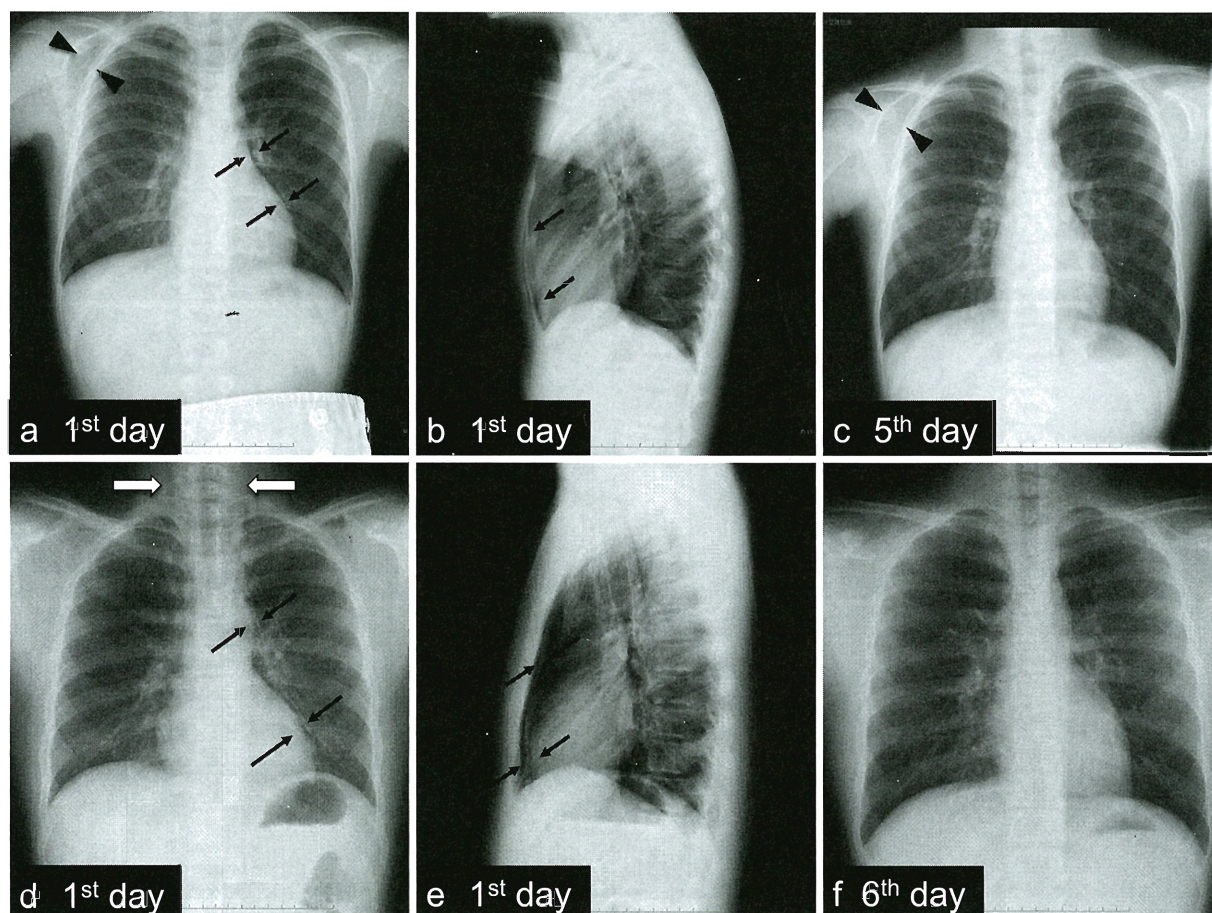


Fig. 1 Chest X-rays. (a, b) In case 1, pneumomediastinum along the left heart shadow (black arrows) and subcutaneous emphysema (arrowheads) are visible on the first hospital day; on the 5th hospital day (c), the subcutaneous emphysema around the clavicle has disappeared except for some gas along the left heart shadow. In case 2, (d, e) pneumomediastinum along the left heart shadow (black arrows) and subcutaneous emphysema (white arrows) are seen on the first hospital day; (f) both have disappeared on the 6th day.

検査所見：血液・尿検査では異常なし。心電図は異常なし。胸部X線では肺野には異常なし。頸部と縦隔に線状の透亮像（矢印）を呈し、縦隔気腫と診断した（Fig. 1a, b）。右鎖骨周囲には皮下気腫（矢頭）を認めた（Fig. 1a）。胸部CTでは、声門から心臓の位置まで、気管に沿った縦隔気腫と皮下気腫を認めた（Fig. 2a, b, c）。

臨床経過：患者事情により入院せず外来通院としたが、自宅安静と翌日の再診を指示し、また症状増悪時には必ず再診するよう指導した。頸部痛は当日の夜から経時的に軽減した。第5病日には心臓左縁にわずかな線状透亮像を認めるのみで、鎖骨周囲の皮下気腫も吸収された（Fig. 1c）。また、第11病日に施行した胸部CTでは、縦隔気腫は完全に吸収されていた（Fig. 2d, e, f）。以降、現在まで再発は認めていない。

症例 2

患者：13歳の男子。

主訴：頸部痛、胸痛。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：5歳時に頸部リンパ節炎に罹患。

現病歴：自宅にて重りを付けたバットの素振り後に就寝し、翌朝右頸部痛が出現した。同時に咽頭、嚥下痛も自覚した。その後次第に心窩部痛、肩～背部痛が出現し近医を受診した。前医受診時に、胸部聴診上呼吸に一致した捻髪音を認め、胸部X線で縦隔に透亮像を認め、当院紹介受診となった。

身体所見：身長158.0cm、体重56.0kg、BMI指数は22.4と標準であった。体温37.4℃、SpO₂99%、心拍数75回/分、血圧106/59mmHg。全身状態は良好。口腔内異常なし。咽頭痛あり。右頸部に握雪感あり。頸部に圧痛、腫脹、熱感なし。呼吸音清で減弱・左

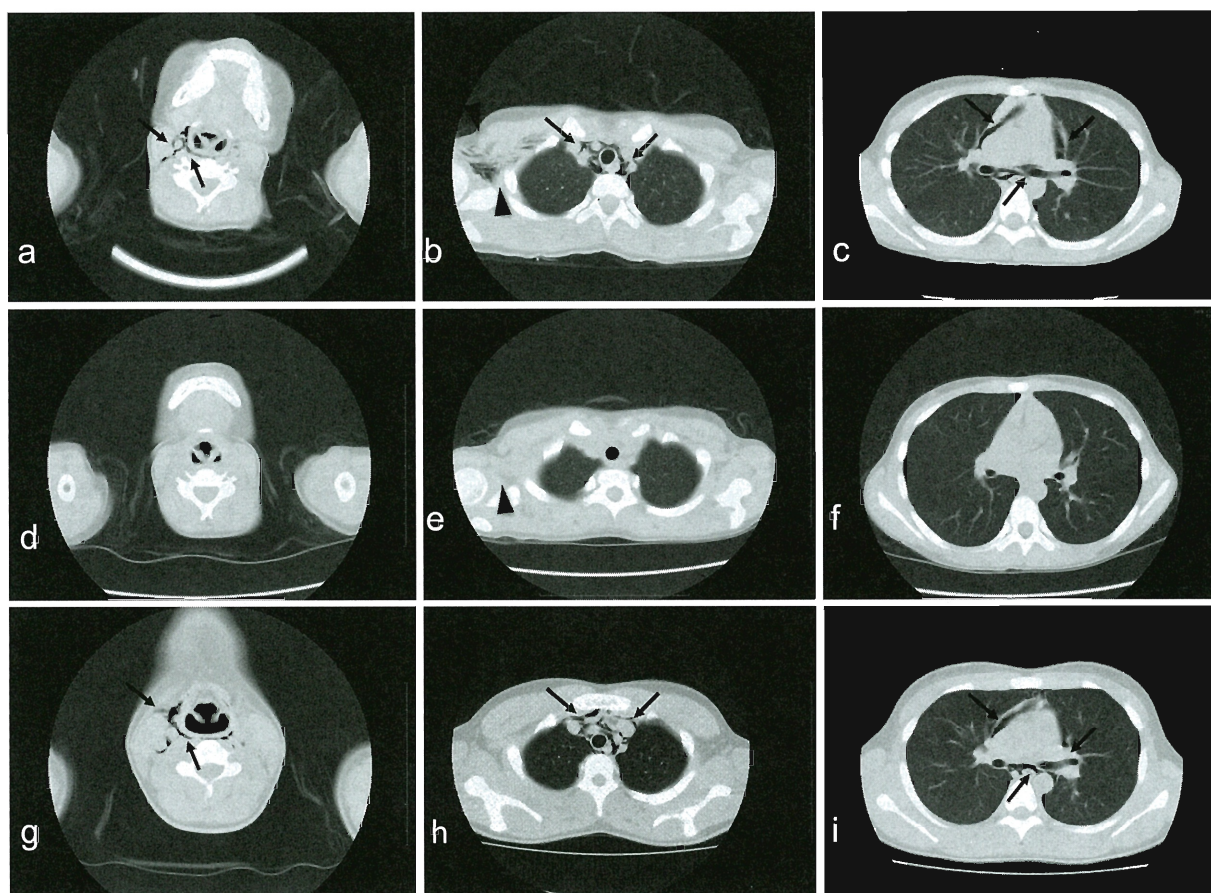


Fig. 2 Chest and neck computed tomography. a-c) In case 1, pneumomediastinum is seen from the glottis to the heart (long arrows) on the first hospital day, with subcutaneous emphysema (arrowheads). d-f) In case 1, the pneumomediastinum and subcutaneous emphysema have disappeared on the 11th hospital day. g-i) In case 2, gas is seen from the glottis to the heart on the first hospital day.

右差なし。胸骨左縁にて Hamman 徴候陽性。心音純で心雑音なし。心窩部に圧痛あり。深吸気時に胸痛、頸部後屈で頸部痛の増強を認めた。

検査所見：血液・尿検査で異常なし。心電図異常なし。胸部 X 線で肺野には異常なし。頸部と縦隔に線状透亮像(矢印)を認め、縦隔気腫と診断した(Fig. 1d, e)。胸部 CT では、声門から心臓の位置まで、気管周囲に沿って広がる縦隔気腫を認めた (Fig. 2g, h, i)。

臨床経過：入院にて保存的に経過観察した。翌日には頸部痛の自覚症状も消失し、呼吸状態もよく、経鼻酸素投与を中止した。第 3 病日には吸気時・体動時の胸痛が消失した。第 6 病日の胸部 X 線では、ほぼ気腫は吸収され消失していた (Fig. 1f)。第 7 病日に退院とし、現在まで再発を認めていない。

考 察

外傷、手術、肺感染症、喘息、食道・気管損傷などに続発する二次性縦隔気腫の経験は少なくはな

い。しかし、縦隔気腫の中には明らかな原因疾患がなく突然発症するものがあり、それらは特発性縦隔気腫と呼ばれ、小児では比較的まれな疾患である^{2)~4)}。特発性縦隔気腫の概念は 1939 年に Hamman により提唱され⁵⁾、今日では「病的ではない何らかの誘因を有しているが、基礎疾患を有しない健康人に突然発症したもの」として扱われている²⁾³⁾⁶⁾。わが国における特発性縦隔気腫の詳細な臨床症候のまとめが、村上らにより報告されている³⁾。平均年齢は 19.9 歳で、若年男性に好発し、BMI の平均は 19.7 とやせ気味に多い。特発性縦隔気腫の随伴症状として、胸背部痛が 69.8%、頸部痛 38.1%、胸部不快感 7.9%、不機嫌 17.5%、咽頭痛 11.1%、その他に胸部不快感、頸部不快感、失語なども認めた。発症状況は、就寝・食事・軽作業時などで特別な誘因がないものが 39.7%、サッカー・水泳・野球などの運動・怒鳴り・出産・排泄など気道内圧上昇を伴う誘因があるエピソード時が 60.3% となっていた。治療・対策と

して経過観察が92.1%, 外科治療が7.9%で, 措置として入院は89.6%, 帰宅は10.4%であった。発症機序としては, Macklinの説が有力で何らかの誘因による肺胞内圧の上昇で肺胞が破裂し, 肺胞内の空気が血管鞘を剥離しながら肺門部に達し縦隔気腫を形成すると言われている⁷⁾。当院で経験した特発性縦隔気腫の2例とも, 水泳やバット素振りなどの運動負荷が誘因となり, 瞬間的に胸腔内圧が上昇し, 肺胞が破綻して縦隔気腫を発症した可能性を考えた。特発性縦隔気腫と診断するためには, 食道や気道損傷による続発性縦隔気腫を除外することが必要である。自験2症例は明らかな外傷機転や, 喘息を含めた胸部基礎疾患の既往はなく, さらに先行する症状を伴わない突然発症であった。疼痛も自制内であり, 胸部CTでも遊離ガス像以外に出血などの所見は認めず, 続発性縦隔気腫の可能性は低いと考え, 上部消化管内視鏡検査などは施行せずに経過観察した。

頸部痛は, 頭痛, 胸痛, 四肢痛, 腹痛に比べ, 症候学としての記載は少なく, 右田らも小児の日常診療の中で「頸部の痛み」を主訴とする患児を見ることが比較的まれであると述べている¹⁾。頸部に存在する皮膚, 皮下組織, 血管, 筋, リンパ節, 唾液腺, 甲状腺, 気道, 食道, 頸椎, 頸髄などの組織・臓器に起因する疼痛, あるいは頭部, 胸部からの放散痛が頸部痛として自覚される。疾患・病態別には, 炎症性, 外傷・破壊性, 循環障害性, 腫瘍性, 代謝性疾患などがあり, 小児においては炎症性疾患が鑑別にあがることが多い。頸部痛を主訴に受診し, 胸部X線で特発性縦隔気腫と診断された症例もあるが, 報告は少ない⁴⁾⁸⁾。特発性縦隔気腫における頸部痛の合併は, 6~50%であった³⁾⁹⁾。中村らの報告では8例中8例に頸部・咽頭痛を認めたが, そのうち2例は胸背部痛を伴わなかった²⁾。胸痛の合併頻度は60~90%という報告例が多いので³⁾⁹⁾。胸背部痛はなく頸部痛のみが初発症状となる縦隔気腫の症例があることも知っておくべきである。怒責を伴うスポーツなどの後に認める「頸部痛・咽頭痛・嚥下痛が先行する胸痛」, 「頸部後屈による頸部痛悪化」, 「深吸気での胸痛増悪」などの症状は, 縦隔気腫の早期発見の手がかりになると考えた。

また特発性縦隔気腫の予後は良好で, 再発はまれであるとされている¹⁰⁾。本症はまれな疾患であり, 安静のみで自然治癒することが多いため²⁾⁶⁾¹⁰⁾。軽症例

などは小児の頸部痛, 胸痛例で見逃されている可能性もある。縦隔気腫は一般的に安静のみの保存的経過観察で予後良好といわれているが¹²⁾。発熱や炎症反応上昇など縦隔炎合併が懸念される場合には抗菌薬投与などを施行するべきである²⁾。緊張性縦隔気腫による循環障害, 縦隔炎, 皮下気腫に伴う気道閉塞を合併すると重篤な状態に至り¹⁰⁾。縦隔切開, ドレナージ, 気管切開などの処置が必要となることに留意しなければならない¹³⁾。

結 論

スポーツの後に頸部痛を主訴に来院し, 特発性縦隔気腫と診断された2例を経験した。本症は小児においてまれな疾患であるが, 突然発症した頸部痛の鑑別として考える必要がある。

開示すべき利益相反状態はない。

文 献

- 1) 右田 真: 頸部の痛み—小児科の立場から—。小児科 49: 1504-1509, 2008
- 2) 中村昭博, 伊藤重比呂, 田村和貴ほか: 特発性縦隔気腫症例の臨床的検討。日本呼吸器外科会誌 16: 686-691, 2002
- 3) 村上壮一, 川村 健, 中西喜嗣ほか: 特発性縦隔気腫の1例(過去の10年間の本邦報告例の検討)。日本呼吸器外科学会 9: 83-87, 2001
- 4) 磯部賢論: 頸部痛を主訴に受診した特発性頸部・縦隔気腫の1例。日本小児呼吸器疾患学会雑誌 17: S105, 2006
- 5) Hamman L: Spontaneous mediastinal emphysema. Bull John Hoskin Hosp 64: 1-21, 1939
- 6) 柏崎ゆたか, 畠山淳司, 渡邊友博ほか: 特発性縦隔気腫の1例。小児科 12: 1951-1952, 2008
- 7) Macklin CC: Transport of air along sheaths of pulmonary blood vessel from alveoli to mediastinum. Arch Intern Med 64: 913-926, 1939
- 8) 清水希和子, 白井潤二, 今井丈英ほか: 特発性縦隔気腫の2例。日本小児呼吸器疾患学会雑誌 20: S88, 2009
- 9) Chalumeau M, Le Clainche L, Sayeg N et al: Spontaneous pneumomediastinum in children. Pediatr Pulmonol 31: 67-75, 2001
- 10) 阿部 大, 佐川倫子, 深澤基児ほか: 特発性縦隔気腫の12例。日本呼吸器外科学会雑誌 4: S549, 2010
- 11) 阪本 仁, 小阪真二, 土屋恭子ほか: 特発性縦隔気腫症例の臨床的検討。日本呼吸器外科学会 23: 918-923, 2009
- 12) 工藤翔二, 高橋典明, 堀江孝至ほか: 縦隔疾患。「内科学(第八版)Ⅱ」(杉本恒明・小俣政男・水野美邦編), pp894-895, 朝倉書店, 東京(2003)
- 13) 早川賢一, 白井利雄, 松野康成ほか: 特発性縦隔気腫の3例。岐阜厚生連医誌 18: 23-27, 1997