

症例報告 / Case Report

「鼻ふさぎ」試験で確定診断された強制的鼻呼吸者の一例： 4P-症候群による精神発達遅滞児周術期管理の問題点

望月利昭、栗田忠代士、佐藤重仁
浜松医科大学 麻酔・蘇生学

要旨

1歳6ヶ月の4P-症候群による精神発達遅滞児の口唇鼻形成術の麻酔を経験した。抜管直後、手術中に詰めた綿球による両鼻孔閉鎖に由来する上気道閉塞を観察した。手術後第14日の「鼻ふさぎ」試験ビデオ撮影により患児が強制的鼻呼吸者であると確定診断した。強制的鼻呼吸が4P-症候群児に特有なものか精神発達遅滞児の一般的症状なのかは不明だが、なんらかの舌-軟口蓋中枢性呼吸調節機構の未熟性が患児の強制的鼻呼吸に関与すると推察した。本症例では術前に「鼻ふさぎ」試験による強制的鼻呼吸の評価を行い、口唇鼻形成術の術後管理には気管チューブによる鼻孔ステントを計画しておけば、この上気道閉塞は回避できたかもしれない。また、この強制的鼻呼吸の評価は手術後気道管理難易度予測評価の一助となったかもしれない。

キーワード：強制的鼻呼吸、精神発達遅滞、4P-症候群、口唇形成術、鼻ふさぎ試験

はじめに

出生直後新生児は強制的鼻呼吸者、すなわち鼻呼吸は可能であるが口呼吸は不可能の状態であり、口呼吸が完成するのはほぼ月齢6ヶ月であると報告されている¹⁾。今回我々は1歳6ヶ月の4P-症候群による精神発達遅滞児の口唇鼻形成術の麻酔を経験し、抜管直後に両鼻孔閉鎖に由来する完全上気道閉塞を観察した。手術後第14日の用手的両側鼻孔閉塞いわゆる「鼻ふさぎ」試験のビデオ撮影により患児が強制的鼻呼吸者であると確定診断したので報告する。

現病歴

患児は在胎39週にて正常分娩、2094gであり、apgar scoreは1分、5分とも10点であった。乳児期の染色体分析により4P-症候群と診断された。両側口唇裂に対して、体重約6kgとなった時点で形成術を行う方針であった。痙攣発作と呼吸器感染のため2回予定手術が延期され、今回一般状態が改善したため手術予定された。

所見

年齢1歳6ヶ月、身長69cm、体重5914g、未だに定額は認められなかった。両側口唇裂および顎裂を認めたが口蓋裂は認めなかった。睡眠時無呼吸は指摘されず、痙攣はバルブプロ酸ナトリウムおよびクロパザムにて制御された。心エコー上圧較差29mmHgの大動脈弁狭窄が認められたが心不全所見を認めなかった。

経過

前投薬なしで手術室入室、静脈路はすでに確保されていた。硫酸アトロピン0.1mg、チオペンタール30mg、ベクロニウム0.6mgによる急速導入後、下顎挙上法にてマスク換気を行った。換気に困難はなかった。内径3.5mmのRAEチューブを気管挿管した。喉頭展開時に気管を右後方に圧迫することによりCormack分類はGrade3よりGrade2に変化した。空気、酸素、セボフルランで麻酔維持した。両側口唇形成術に鼻形成術が追加され手術時間2時間48分で手術は終了した。手術終了時、両側鼻孔は綿球で閉塞された。手術終了後セボフルランの吸入を中止、気管反射、咽頭反射、自発呼吸、自発開眼がそれぞれ出現することを確認、硫酸アトロピン0.12mg、ネオスチグミン0.36mgを投与した後に抜管した。抜管直後より横隔膜および外肋間筋収縮による呼吸運動を観察したが、両側前胸部、側胸部で呼吸音を聴取せず、かつ呼気二酸化炭素も検出されなかった。完全上気道閉塞と判断し、直ちに下顎挙上法によるマスク換気を行い気道確保と酸素化を行った。このマスク換気は麻酔導入時のマスク換気と同じ麻酔科医が同じ手技を用いて行った。完全上気道

連絡先：〒431-3192 静岡県浜松市半田山1-20-1
浜松医科大学 麻酔・蘇生学
望月利昭
TEL:053-435-2286 FAX:053-435-2284
e-mail:toshiaki@hama-med.ac.jp

閉塞時間は60秒であり、この間にSpO₂の低下を観察しなかった。両鼻孔の綿球を除去したところ完全上気道閉塞は解除され、酸素6 L/分投与下に自発呼吸にてSpO₂が98-99%に維持可能となった。麻酔時間は4時間9分であった。(図1)

病室帰室後、酸素3 L/分投与下に自発呼吸にて経過観察された。SpO₂が90%以下に低下したとき、看護師による両鼻孔吸引が行われ、気道分泌物もしくは凝血塊が鼻孔から除去されるとSpO₂は100%に上昇した。この現象は患児の睡眠時、すなわち病室帰室4時間後から手術後第1日の朝まで1-2時間ごとに繰り返された。

手術後第1日より注射器を用いて授乳を開始した。授乳中にSpO₂が85-88%に低下した場合授乳を中断した。授乳時のむせ込み時には両鼻孔のミルクを吸引すると酸素3 L/分投与下にSpO₂は96-99%は回復した。

睡眠時のSpO₂低下に対応するため、酸素投与が手術後第23日まで行われた。睡眠時のSpO₂低下が起こらなくな

り、授乳によるSpO₂低下が中断により自然回復することが確かめられたため手術後第25日に退院した。

図2に術前、術直後の患児の顔貌を示す。術前写真では4P-症候群に特徴的とされる、ギリシャ戦士のヘルメット様鼻と形容される幅広い鼻翼と両側口唇裂、小顎症が観察される。術後写真では両側口唇形成術のため鼻孔の狭小化が観察される。

手術後第14日に母親の了解と立ち会いの下空気呼吸での患児の呼吸状態をビデオ撮影した。(図3)両側鼻孔を検者の示指および中指で閉塞する、いわゆる「鼻ふさぎ」試験を行うと完全上気道閉塞が発生した。SpO₂は16秒の「鼻ふさぎ」時間により前値96%から74%に低下した。この鼻ふさぎ解除後18秒でSpO₂は95%に上昇した。

なお、本症例を経験後、5例の精神発達遅滞児の術前診察時に「鼻ふさぎ」を試みたところ2例で完全気道閉塞を観察した。1例では呼吸音を聴取したものの陥没呼吸を観察した。

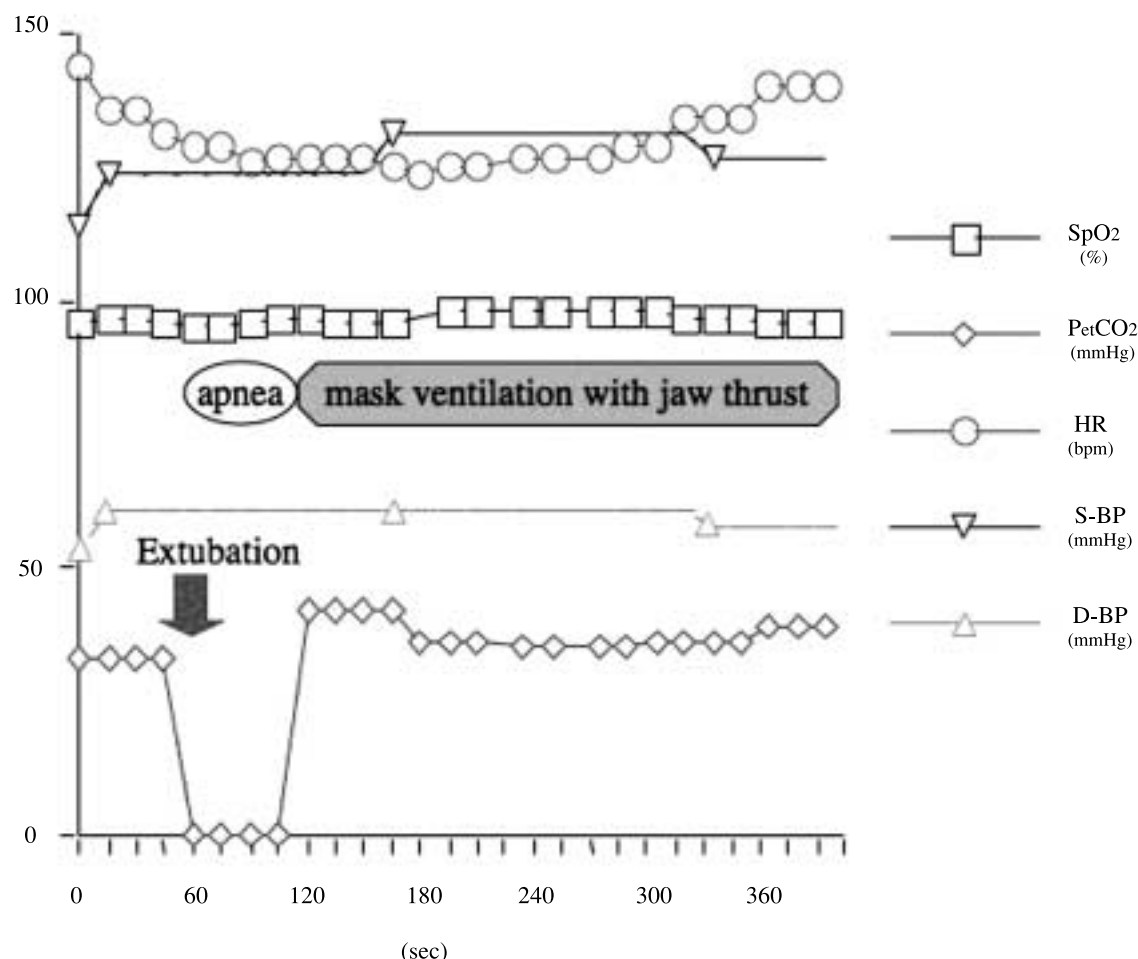


図1 抜管から気道確保再開までの経過

抜管直前のバイタルサインの変化を示す。抜管直後より完全上気道閉塞が発生した。直ちに下顎挙上法によるマスク換気で気道確保と酸素化を行った。完全上気道閉塞時間は60秒であり、この間にSpO₂の低下を観察しなかった。両鼻孔の綿球を除去したところ完全上気道閉塞は解除され、酸素6 L/分投与下に自発呼吸にてSpO₂が98-99%に維持可能となった。

HR:心拍数、S-BP:収縮期血圧、D-BP:拡張期血圧



術前（正面・側面）

手術直後

図2 術前、術直後の患児の顔貌を示す。術前写真では4P-症候群に特徴的とされる、ギリシャ戦士のヘルメット様鼻と形容される幅広い鼻翼と両側口唇裂、小顎症が観察される。術後写真では両側口唇形成術のため鼻孔の狭小化が観察される。



図3 両側鼻孔閉塞「鼻ふさぎ」試験中の患児を示す。検者の示指と中指で両鼻孔を同時に閉塞する。パルスオキシメトリにより試験の評価をする。写真では肋間の陥没も観察される。鼻をつまむなどの機械的刺激は行わない。

考 察

出生直後新生児は強制的鼻呼吸を行っており、口呼吸をほぼ全行うことが可能になるのはほぼ月齢6もしくは体重6 kgとされている¹²⁾。本症例では体重は5914 gとわずかに6000 gを下回っていたが、月齢にして18ヶ月と月齢6ヶ月を大きく上回っていたため、精神発達遅滞はあるものの、強制的鼻呼吸者であるとの認識なく予定手術、麻酔を行った。抜管直後に完全上気道閉塞が観察されたが、両鼻孔の綿球を除去したのみで酸素6L/分投与下自発呼吸でSpO₂ 98-99%に維持可能となった。

Bruppacherら³⁾はアデノイド患児における吸入麻酔緩徐導入時の気道確保法を評価した。彼らは頭部後屈法では一回換気量が回復せず、マスク-咽頭圧較差は増加したが、下顎挙上法では一回換気量が前値に回復し、マスク-咽頭圧較差も増加しなかったと述べている。下顎挙上法では舌-軟口蓋の気道が維持されることで気道確保がなされると推測される。

本症例では抜管直後に下顎挙上法を行うことで完全上気道閉塞は解除され、SpO₂低下は未然に回避された。両鼻孔が綿球によって閉塞されたため鼻呼吸が不可能だった上、舌-軟口蓋の気道が何らかの理由で閉塞したために、抜管直後の完全上気道閉塞が発生したものと推測する。

小顎症がある上に、挿管操作や手術操作による口腔内浮腫を併発し、口腔内気道閉塞を起こした機序が疑われた。しかし、両鼻孔の綿球を除去しただけで自発呼吸でのSpO₂の維持が可能であったため、この機序による影響は最小限であると考えた。

本症例では用手的両側鼻孔閉塞いわゆる「鼻ふさぎ」試験による完全上気道閉塞が手術後第14病日のビデオ撮影により確認された。この完全上気道閉塞は残存麻酔薬の影響もしくは口腔内浮腫による気道閉塞ではなく患児の上気道の機能的問題であることが明確となった。

本症例では病室帰室後も鼻孔閉塞によるSpO₂低下を観察した。このSpO₂低下は睡眠時で著明であった。また、授乳中のSpO₂低下も観察した。精神発達遅滞児では中枢性の横隔膜収縮直前咽頭筋群収縮機構が减弱しているため睡眠時無呼吸が発生しやすいとされる⁴⁾。本症例ではこの機序に加え、強制的鼻呼吸者であり、かつ、両側口唇裂閉鎖を行ったため鼻孔が狭小化してしまった。術前では分泌物などにより鼻孔閉塞が起こったとしても口唇裂のために鼻呼吸のための気道は十分な開通性が保たれていたであろう。術後では鼻呼吸のための気道は両鼻孔の開存性に依存することになった。患児が強制的鼻呼吸者であったことに加え、鼻呼吸のための気道開存性が制限されてしまったために、術前には問題にならなかった、睡眠時に顕著となり鼻孔吸引により改善するSpO₂低下と授乳中のSpO₂低下の問題が顕在化したのであろう。

4P-症候群の麻酔経験は2例報告されている⁵⁾⁶⁾が強制的鼻呼吸であったとする報告はない。Mossら¹⁾は、新生児

においては成長とともに喉頭蓋が下降することにより口呼吸が可能になると解剖学的観点から報告している。本症例では新生児期より体格は成長しているため、この解剖学的問題は強制的鼻呼吸に関与しないと考えられる。強制的鼻呼吸では呼吸ガスは鼻腔のみを通過し、口腔を通過することができないことが問題である。本症例の、手術後、とくに睡眠時に著明となり鼻孔吸引にて改善するSpO₂低下の機序には、従来提示されている精神発達遅滞児の咽頭筋群中枢性呼吸調節機構未熟性⁴⁾のみならず、別の舌-軟口蓋中枢性呼吸調節機構の関与を推測しなければならぬ。

本症例の強制的鼻呼吸が4P-症候群に特徴的の症状か、もしくは精神発達遅滞児一般に存在する症状かは不明のままである。しかし、本症例を経験後、5例の精神発達遅滞児の術前診察時に「鼻ふさぎ」を試みたところ2例で完全気道閉塞を観察した。1例では呼吸音を聴取したものの陥没呼吸を観察した。精神発達遅滞児に強制的鼻呼吸者が多いかどうかは今後の検討が待たれるが、精神発達遅滞児の周術期管理には経鼻的栄養チューブの挿入など鼻孔を閉塞させうる処置が必要なことが多い。また、手術後の気道管理に難渋することも多い。

この「鼻ふさぎ」試験施行には特別な器具を必要としない。評価としては図3に示すごとくパルスオキシメトリを用いると定量的であるが、聴診や視診でも評価できるので簡便である。また、患児の呼吸状態が安定している時期に行うのであれば回復に時間を要しないため、非侵襲的であるといえる。なお、検者の母指と示指で患児の鼻翼をつまんで両鼻孔を閉塞させる「鼻つまみ」は鼻孔閉塞のほかに疼痛刺激の要因が加わるため、強制的鼻呼吸の診断には適切でない²⁾と考える。

本症例で2週間以上の気道管理を要したことの二因に、強制的鼻呼吸者であったことがあげられる。精神発達遅滞児においては、術前に「鼻ふさぎ」試験を行い、強制的鼻呼吸者であるかどうか評価することは手術後の気道管理難易度の予測に有用だろうと推測する。

Sullivan⁷⁾は口唇裂手術後の機械的鼻孔閉塞による上気道閉塞症状を改善するために気管チューブをステントに応用した。本症例でも「鼻ふさぎ」試験を行い強制的鼻呼吸者であることを術前に把握しておけば、Sullivanの方法を用いることで抜管直後の上気道閉塞を回避できたかもしれない。

結 論

1歳6ヶ月の4P-症候群児の両側口唇形成術において、抜管直後に両側鼻孔閉塞に由来する上気道閉塞を経験した。手術後第14日の「鼻ふさぎ」試験ビデオ撮影にて患児が強制的鼻呼吸者であると確定診断した。本症例の強制的鼻呼吸はなんらかの舌-軟口蓋中枢性呼吸調節機構の未熟性に由来するものと推測した。本症例においては「鼻ふ

さぎ」試験を術前評価に取り入れておれば、抜管直後の上気道閉塞による無呼吸は回避できたかもしれない。また、手術後の気道管理難易度の予測にも有用だったかもしれない。

精神発達遅滞児に強制的鼻呼吸者が多いかどうかは今後の調査が期待される。

なお、この報告の要旨は第11回日本小児麻酔学会大会(静岡)で発表した。

文 献

- 1 Moss ML: The veloepiglottic sphincter and obligate. Nose breathing in the neonate. J Pediatr 1965; 67: 330-1.
- 2 長井靖夫、佐藤篤、近内育夫、他: 乳児の口呼吸確立時期の検討. 日小児科学会誌 1992; 96: 1702-5.
- 3 Bruppacher H, Reber A, Keller JP, et al: The effects of common airway maneuvers on airway pressure and flow in children undergoing adenoidectomies. Anesth Analg 2003; 97: 29-34.
- 4 Seddon PC, Khan Y: Respiratory problems in children with neurological impairment. Arch Dis Child 2003; 88: 75-8.
- 5 Dearlove OR and Sharples A: Anaesthesia and partial deletion of chromosome 4. Anaesthesia 1996; 51: 206.
- 6 間宮秀樹、福田謙一、一戸達也、他: 4p-症候群患者の全身麻酔下歯科治療における周術期管理. 障害者歯科 2001; 22: 178-81.
- 7 Sullivan WG: Respiratory distress following cleft lip repair: The role of obligatory nasal breathing in the infant. Ann Plast Surg 1988; 20: 590-2.

A case report of the obligatory nose breather with severe neurological impairment by the 4P- syndrome happened to be found by the upper airway obstruction and the apnea event immediately after extubation during general anesthesia to the bilateral cleft lip repair.

Toshiaki Mochizuki, Tadayoshi Kurita, Shigehito Sato

Department of Anesthesiology and Intensive Care, Hamamatsu University School of Medicine

1-20-1 Handa-yama, Hamamatsu-city, Shizuoka-pref, 431-3192, Japan

Abstract

A child aged 1 year and 6 months with severe neurological impairment by 4P- syndrome was found as an obligatory nose breather by the clinical symptoms immediately after extubation during the general anesthesia. This diagnosis was settled by the bilateral nostril occlusion test recorded in videotapes after 14th day of the surgery. It is unknown whether the origin of the obligatory nose breathing on this child is the characteristics of 4P- syndrome or the neurological impairment symptoms which was not described before, we speculated the obligatory nose breathing of this child was caused by the immaturity of the respiratory center, which controlled the airway between the soft palate and the tongue. The complete upper airway obstruction event just after extubation of this child may be prevented when the bilateral nostril obstruction, so called "fill the nostrils" test was performed preoperatively and when nasopharyngeal airway stent produced by endotracheal tube was prepared. Furthermore, the "fill the nostrils" test might predict the difficulty of the upper airway management to this child.

Keywords: obligatory nose breathing, neurological impairment, 4P-syndrome, cleft lip repair, bilateral nostril occlusion test

Clin Pediatr Anesth 2006;12:123-127