

## 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医長)

### 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、特に発症 2 歳以下の症例に限定して検討を行った。おそらく 70% 近くは咽頭や喉頭などの上気道の狭窄に伴う病態で登録されていたと考えられた。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。

### 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。

### B. 研究方法

#### 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。

#### (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。

### C. 研究結果

#### 「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、在宅酸素のみが 55 例であった。(図3)

## D. 考察

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かった症例は 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。

例えばトリーチャーコリンズ症候群などの下顎低形成やクルーズ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。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

# 慢性呼吸器疾患 3355例 (平成25年)

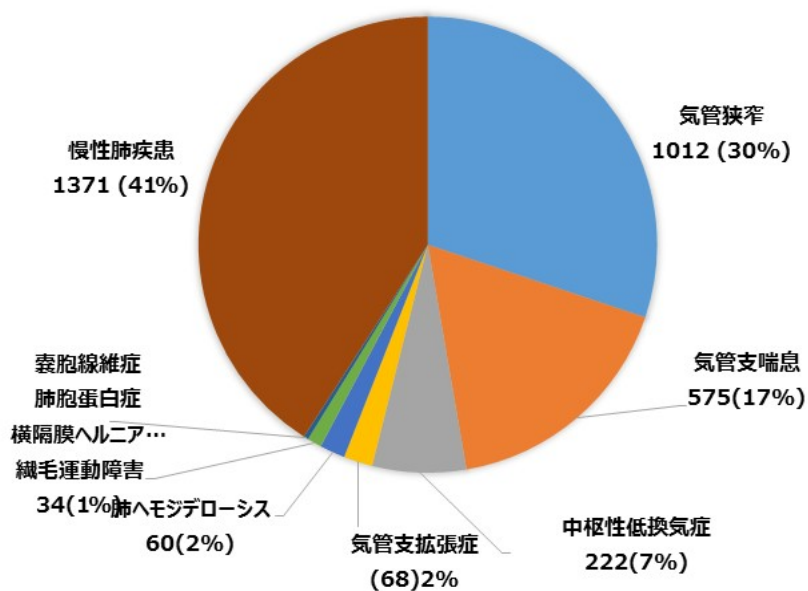


図 1

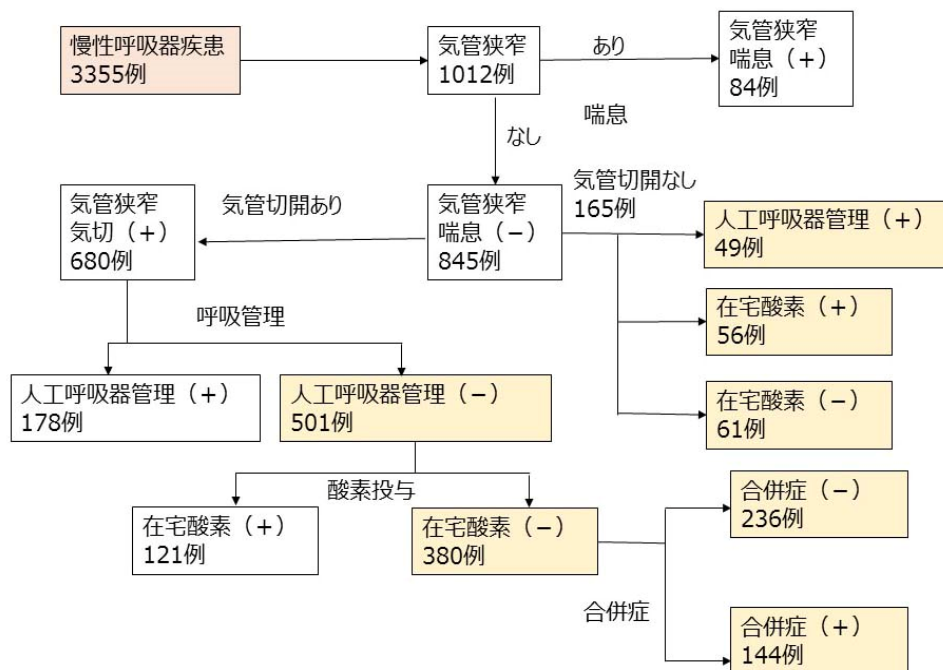


図 2 平成 25 年度の小児慢性病的疾患治療研究事業・慢性呼吸器疾患分類での気管狭窄登録疾患内訳

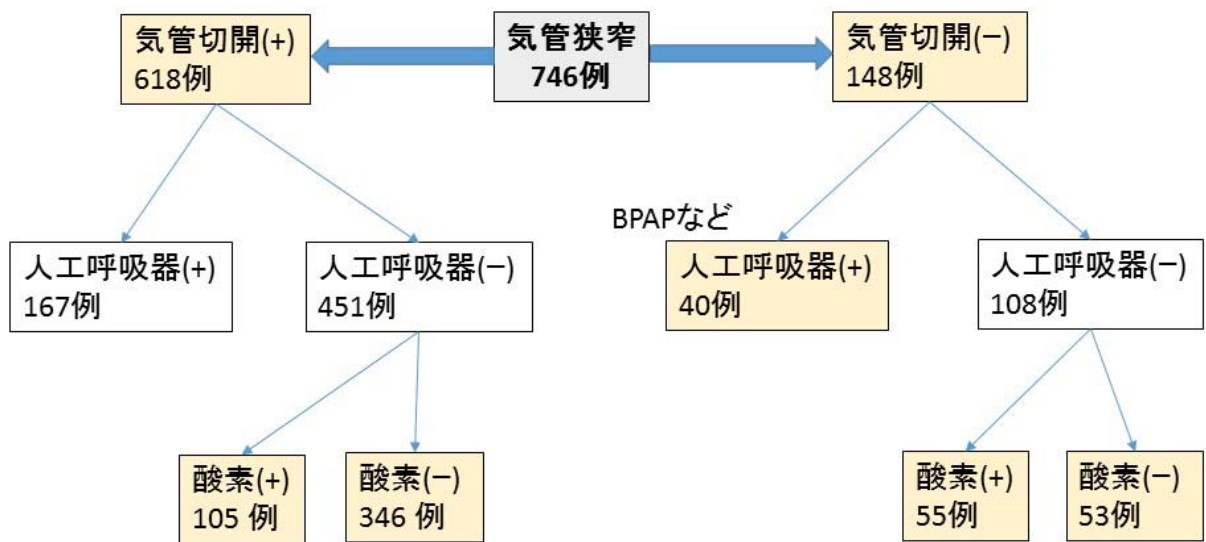


図 3 2歳以下の気管狭窄症例 746 例についての内訳