

Respiratory syncytial ウイルス細気管支炎に合併した乳び胸の一例

二川奈都子^{a,b*}, 塩谷俊雄^{c,d}, 杉峯貴文^{a,e}, 守分 正^a岩国医療センター 小児科^a, 呼吸器外科^c, 岡山大学病院 小児科^b, 呼吸器乳腺内分泌外科^d,
西高松キッズクリニック 小児科^e

Chylothorax in a 3-month-old boy with respiratory syncytial virus infection

Natsuko Futagawa^{a,b*}, Toshio Shiotani^{c,d}, Takafumi Sugimine^{a,e}, Tadashi Moriwake^aDepartments of ^aPediatrics, ^cThoracic Surgery, National Hospital Organization Iwakuni Clinical Center, Yamaguchi 740-8510, Japan,
Departments of ^bPediatrics, ^dThoracic, Breast and Endocrine surgery, Okayama University Hospital, Okayama 700-8558, Japan,
^eDepartment of Pediatrics, West Takamatsu kids' clinic, Kagawa 761-0831, Japan

Chylothorax is a condition in which chyle leaks into the thoracic cavity. The causes of chylothorax can be nontraumatic, traumatic or idiopathic. The most common cause of nontraumatic chylothorax is obstruction of the thoracic duct by tumor. Traumatic chylothorax is caused by disruption of the thoracic duct, most often due to cardiac surgery or a thoracic surgical procedure, although in rare cases by cough or vomiting. We report the case of a 3-month-old boy with respiratory syncytial (RS) virus infection who presented with right chylothorax. No obstructive tumor mass was identified in the thoracic duct. Clinical symptoms of Noonan syndrome and Down syndrome, which often accompany lymphatic anomaly, were not found. Therefore, we speculate that his severe cough caused a high thoracic pressure and a disruption of the thoracic duct. He was treated by thoracocentesis and MCT milk. One month later, pleural effusion disappeared and did not recur. RS virus infection might be a rare cause of chylothorax in infants.

キーワード：RS ウイルス (respiratory syncytial virus), 細気管支炎 (bronchiolitis), 乳び胸 (chylothorax)

緒 言

乳び胸は種々の原因でリンパ液が胸腔内に漏出した状態を言い、先天性のリンパ管奇形や胸管の損傷による外傷性乳び胸、腫瘍等による胸管の閉塞からの非外傷性乳び胸、特発性乳び胸に分類される^{1,2)}。今回、respiratory syncytial (以下RS) ウイルス感染を契機に乳び胸を発症した乳児を経験したので報告する。

症 例

患 者：生後3か月の男児。

主 訴：咳嗽，努力性呼吸，哺乳不良。

周産期歴：在胎38週0日，体重 3,078 g，身長 49.0cmで出生。呼吸障害を含めて周産期に特記事項なし。

家族歴：血族婚なし，リンパ管奇形なし。5歳の姉に同時期に鼻漏あり。

既往歴：呼吸器疾患の罹患なし。運動発達遅滞なし。

予防接種歴：13価肺炎球菌ワクチン2回，インフルエンザ

桿菌b型ワクチン2回，ロタウイルスワクチン2回，4種混合ワクチン（ジフテリア，百日咳，破傷風＋不活化ポリオワクチン）1回，B型肝炎ワクチン2回投与終了。パリビスマブ（遺伝子組み換えヒト化抗RSウイルス抗体）は投与適応なく未投与。

現病歴：20XX年2月，湿性咳嗽，鼻漏のため，近医にて去痰薬の内服で加療されていたが，経過中に哺乳量低下，尿量減少，多呼吸，喘鳴があり，経皮的動脈血酸素飽和度（SpO₂）が90～94%（room air）と低値であったため，紹介入院となった。

入院時現症：体温 36.9度，SpO₂ 94%（room air）呼吸数 50/分，血圧 95/55mmHg，心拍 160/分。身長 60.2cm（-0.5 SD），体重 6,390 g（±0.0SD）。激しく啼泣し機嫌不良。湿性咳嗽，呼気延長，陥没呼吸，呻吟あり。肺：両側肺野で換気不良あり。呼気吸気共に著明な喘鳴を聴取，左右差を認めず。心：心音整，雑音なし。腹部：平坦軟，肝脾腫なし。四肢末梢冷感なし，浮腫なし，血管拡張なし，毛細血管再充満時間<2秒，特異顔貌なし，外表奇形なし，四肢，体幹の非対称なし。

入院時検査（表1）：鼻粘膜のRSウイルス迅速検査陽性。血液検査では好中球の核の左方移動を伴う白血球数増多，CRPの上昇が認められた。呼吸性のアシドーシス，二酸化

令和2年2月27日受理

*〒700-8558 岡山市北区鹿田町2-5-1 岡山大学病院小児科

電話：086-235-7249 FAX：086-221-4745

E-mail：me20074@s.okayama-u.ac.jp

炭素貯留はなし。

画像所見：胸部X線写真（臥位）では肺野浸潤影と部分的な肺気腫の混在に加えて、右肺野の透過性低下及び thorn sign を認め、右胸水貯留を疑う所見と共に縦隔の左方への偏位を認めた（図1）。胸部単純CTでは右胸水貯留と気管支陰影の増強を認めた（図2A）。肺野・縦隔にリンパ節腫大や他の腫瘤状陰影は認められなかった。

入院後経過（図3）：上記からRSウイルス細気管支炎と診断した。入院後は胃管を挿入した上で、絶食とし輸液を行った。また、低酸素血症に対しては、酸素を投与し、細菌感染の併発、乳児であることを考慮し、抗菌剤投与（セフトキシム，クラリシマイシン）を併用した。呼吸困難に対してβ刺激剤の吸入は有効であったが効果は一時的で、

表1 入院時検査所見

血液検査			生化学検査		
白血球数	10,300	/ μ L	総蛋白	6.7	g/dL
赤血球数	4.39	$\times 10^6$ / μ L	アルブミン	4	g/dL
ヘモグロビン	11.1	g/dL	AST	29	U/L
血小板	807	$\times 10^3$ / μ L	ALT	14	U/L
血液ガス（静脈血）			LDH	343	U/L
pH	7.349		CRP	3.79	mg/dL
CO ₂	51.2	mmHg	Na	139	mEq/L
HCO ₃ ⁻	27.5	mmol/L	K	5.2	mEq/L
BE	1.7	mmol/L	Cl	104	mEq/L
			BUN	10.4	mg/dL
迅速検査			CRTN	0.24	mg/dL
RSウイルス	陽性		PCT	0.17	ng/mL

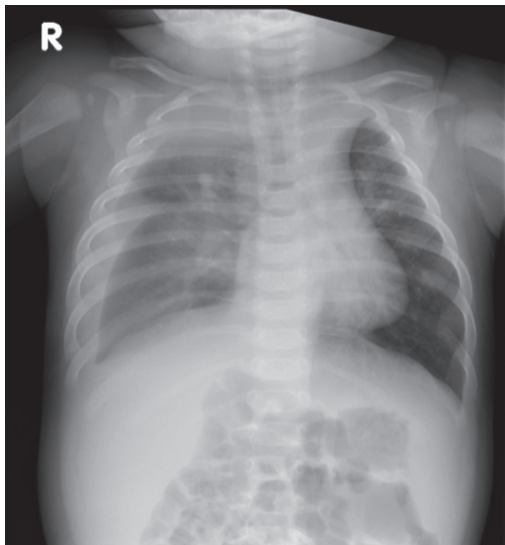


図1 入院時の胸部レントゲン写真
右胸水および右肺野の透過性低下，左下葉の局所的な気腫城変化を認める。

メチルプレドニゾロン（mPSL）投与を併用した。治療開始後、努力呼吸、低酸素血症は改善傾向となった。入院第3日に胸部単純X線検査で肺野透過性の改善、胸水の減少を認めたため、人工乳の注入を少量から開始したが、注入量漸増に伴って努力呼吸と喘鳴が再増悪し、入院第5日の胸部CTで右胸水の増加を認めた（図2B）。胸腔穿刺を施行し、検査提出用に胸水を20mLのみ採取した。採取した胸水は白色であり、胸水中の中性脂肪が883mg/dLと高値であることから乳び胸と診断した（表2）。結核菌の胃液培養、蛍光法の塗抹染色、分離培養はすべて陰性であった。また胸腹部のMRIとCTで腫瘍性病変は認めなかった。

乳び胸の診断後に再び絶食としたところ、胸水量の減少と咳嗽、喘鳴の改善を認めたため、mPSLを漸減中止した。入院第10日から中鎖トリグリセライド（MCT）ミルクの経口投与を少量から開始し、呼吸状態を見ながら増量したが、

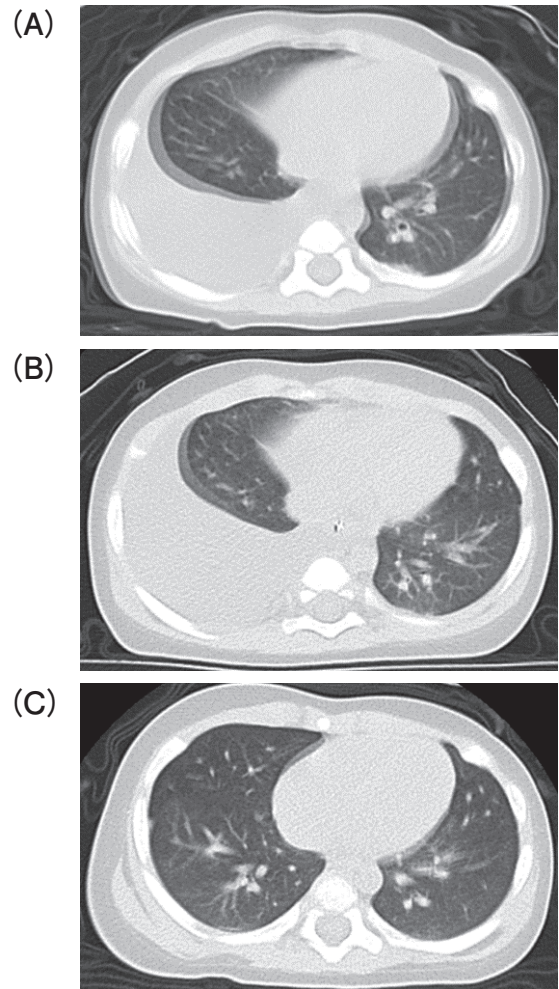


図2 胸部CT所見

A：入院時。右胸水を認める。 B：入院第5日。右胸水の増加を認める。 C：入院第53日。右胸水の消失を認める。腫瘍性病変を認めず。

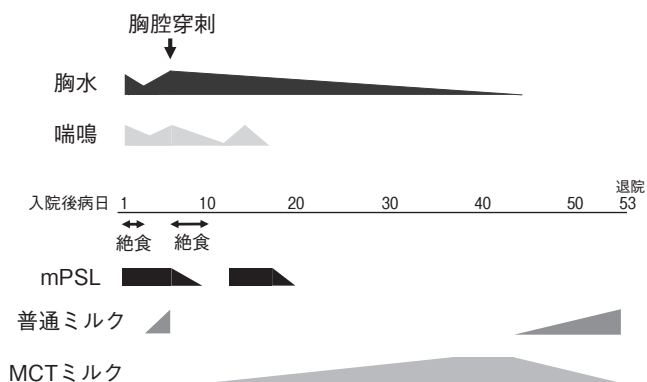


図3 入院後経過図
mPSL：メチルプレドニゾロン，MCT：中鎖トリグリセライド

表2 胸水検査結果

細胞数		
白血球数	2,500	/ μ L
好中球	10	%
リンパ球	38	%
組織球様細胞	51	%
赤血球数	0	/ μ L
生化学検査		
糖	109	mg/dL
総蛋白	3.3	g/dL
LDH	146	U/L
アデノシンデアミナーゼ	13.6	IU/mL
総コレステロール	63	mg/dL
中性脂肪	883	mg/dL

喘鳴の再燃を認めた。胸部X線写真では胸水の増悪は認めず、mPSL中止による喘鳴の再燃と考え、mPSLを再開したところ、喘鳴の改善を認めた。mPSLは入院第20日まで投与し、漸減中止したが、2回目の中止後は喘鳴の再燃なく、胸水量は引き続いて減少した。喘鳴消失後も、哺乳時や入眠時の咳嗽は数日残存したが、経時的に改善した。入院第43日の胸部X線及び胸部エコーで胸水の消失を確認し、人工乳の経口摂取を少量から開始し増量したが、胸水の再発や呼吸状態の悪化はなく、入院第53日に退院となった。

胸水消失後に再度胸部単純CTで腫瘍性病変の検索を行ったが、胸管の閉塞をきたしうる器質的疾患は認めなかった(図2C)。

現在2歳となり、制限なく食事摂取をしているが、明らかな胸水の再発はない。

考 察

乳び胸の原因は胸管の損傷、胸管壁の脆弱性、胸管の閉

塞等で起こり、大きく外傷性、非外傷性、特発性に分類される^{2,3)}。非外傷性は全乳び胸症例の50~72%を占め、腫瘍による胸管の閉塞によるものや中心静脈圧の亢進に伴うものが挙げられている^{1,4)}。外傷性は28~50%であり、原因の多くは胸部の手術である。手術以外の原因は2~3%と少数であり、頸胸部や上腹部の外傷、激しい咳嗽、嘔吐、努責に伴うものが報告されている。

リンパ液の流れる胸管は下部胸椎では胸椎の右側、奇静脈と下行大動脈の間を走行しており、第4胸椎から第6胸椎の高さで左側へと移り左静脈角に注ぐとされている^{2,3)}。外傷性乳び胸においては左右どちらの乳び胸を呈しているかで胸管の概ねの損傷部位が推測でき、本症例においては右乳び胸であることから第6胸椎以下の胸管損傷であったことが推測される。

乳び胸の治療法には内科的治療と外科的治療がある。内科的治療としては漏出部の自然閉鎖を待つ間にMCTミルクや脂肪制限を行う食事療法が一般的であり、食事療法が奏功しない場合にはソマトスタチンやオクトレオチド等の薬物治療が有効であるとの報告がある^{2,3)}。外科的治療には漏出部の縫合閉鎖、胸管結紮術、胸膜癒着術等があり、手術時期は明確に決まっていないが、概ね内科的治療を3~4週間行っても改善しない場合に外科的治療が選択されることが多い³⁾。本症例では食事療法のみで改善しており、現在は制限なく食事摂取をしているが、再発なく経過している。

咳嗽や嘔吐などに伴う乳び胸の報告は少なく、咳嗽によるものは成人例が2例、嘔吐によるものは小児例3例のみであった(表3)⁵⁻⁹⁾。これらの症例ではいずれも感染症や基礎疾患を認めていない。咳嗽時の胸腔内圧は高い時は250mmHgまで上昇するとされており¹⁰⁾、背景疾患が無い場合でも咳嗽や嘔吐などでの急激な胸腔内圧の上昇により胸管の損傷をきたし、乳び胸を発症することが稀ながらあると考えられた。

また、本症例も含め、咳嗽による乳び胸の報告には両側や右側の報告が多く、左側のみの報告が無い。これは解剖的に胸管が胸椎の左側を走行している距離に比べて右側を走行している距離が長い事や、下部胸管には細かいリンパ管の合流部が多く、破綻をきたしやすい事が原因として推測される。

小児の激しい咳嗽の原因として百日咳やマイコプラズマ肺炎、喘息等が挙げられるが、我々が検索した限りではそれらに乳び胸を合併した報告例は認められなかった。本症例において検出したRSウイルスも新生児期から乳児期にかけて激しい咳嗽を引き起こす代表疾患であり、1歳までに約半数、2歳までにはほぼ100%の小児が罹患するとされ

表 3 咳嗽・嘔吐を契機に発症した乳び胸症例のまとめ

症例	年齢 (歳)	性別	部位	契機	呼吸症状	胸痛	治療	再発
Candas et al. ⁵⁾	65	女	両側	咳嗽	+	+	食事療法	-
Adas et al. ⁶⁾		女	右	咳嗽	+	+	食事療法 胸腔ドレナージ 胸管結紮術 ソマトスタチンアナログ製剤	+
Yekeler et al. ⁷⁾	9	女	両側	嘔吐	+	-	食事療法 胸腔ドレナージ 胸膜癒着術	-
Rodrigues et al. ⁸⁾	7	女	両側	嘔吐	-	-	食事療法 胸腔ドレナージ	-
Soto-Martinez et al. ⁹⁾	2	女	右	嘔吐	+	-	食事療法 胸腔ドレナージ 胸管結紮術	記載なし
自験例	0	男	右	咳嗽	+	不明	食事療法	-

ている。1歳未満でRSウイルスに罹患した児のうち1/3が細気管支炎を発症するとされており、生後数週から数か月の間に罹患すると母体の移行抗体がある時期にも関わらず時に重症化することが知られている。RSウイルスの感染細胞は細気管支の気道上皮とされ、上皮細胞の壊死を引き起こし、浮腫や分泌物により細気管支の閉塞をきたす。一方でRSウイルス感染症は小児におけるcommon diseaseであるにも関わらずリンパ管損傷や乳び胸の合併の報告はないことからRSウイルス特異的な症状とは考えにくく、非常にまれな合併であると考えられる。また本症例では画像検索では明らかな腫瘍は認めず、結核菌の関与も否定的であり、Noonan症候群やDown症候群などのリンパ管の発生異常をきたす疾患も身体所見から否定的であった。

これらのことから本症例はRSウイルス細気管支炎による激しい咳嗽により胸腔内圧の上昇を引き起こし、胸管損傷に至った事が推測された。一方で先天性のリンパ管奇形の合併も完全には否定できていないため、今後の経過観察中に乳び胸が再発した場合はリンパ管造影やリンパ管シンチグラフィでの精査が必要であると考えられる。

結 語

RSウイルス細気管支炎に合併することが稀な乳び胸を合併した生後3か月の男児例を報告した。RSウイルス細気管支炎に伴う激しい咳嗽による外傷性乳び胸が考えられた。

本論文内容に関連する著者の利益相反はない。

文 献

- 1) Doerr CH, Allen MS, Nichols FC III, Ryu JH : Etiology of chylothorax in 203 patients. *Mayo Clin Proc* (2005) 80, 867-870.
- 2) 深堀 範, 松瀬 厚, 河野 茂 : 稀な肺疾患 特発性乳糜胸の診断と治療. *呼吸* (2009) 28, 279-283.
- 3) Tutor JD : Chylothorax in infants and children. *Pediatrics* (2014) 133, 722-733.
- 4) Valentine VG, Raffin TA : The management of chylothorax. *Chest* (1992) 102, 586-591.
- 5) Candas F, Yildizhan A, Gorur R, Isitmangil T : Is bilateral chylothorax possible after simple cough? Yes. *Asian Cardiovasc Thorac Ann* (2015) 23, 471-473.
- 6) Adas G, Karatepe O, Battal M, Dogan Y, Karyagar S, et al : Coughing may lead to spontaneous chylothorax and chylous ascites. *Case Rep Gastroenterol* (2007) 1, 178-183.
- 7) Yekeler E, Ulutas H : Bilateral chylothorax after severe vomiting in a child. *Ann Thorac Surg* (2012) 94, e21-23.
- 8) Rodrigues ALL, Romaneli MTdN, Ramos CD, Fraga AdMA, Pereira RM, et al : Bilateral spontaneous chylothorax after severe vomiting in children. *Revista Paulista de Pediatria (English Edition)* (2016) 34, 518-521.
- 9) Soto-Martinez ME, Clifford V, Clarnette T, Ranganathan S, Massie RJ : Spontaneous chylothorax in a 2-year-old child. *Med J Aust* (2009) 190, 262-264.
- 10) Sharpey-Schafer EP : Effects of coughing on intrathoracic pressure, arterial pressure and peripheral blood flow. *J Physiol* (1953) 122, 351-357.