

●症 例

窒息による上気道閉塞を契機に発症した肺胞出血の1例

床島 眞紀¹⁾ 三好かほり¹⁾ 芦谷 淳一²⁾

要旨：症例は76歳，非喫煙女性，専業主婦．1999年4月昼食時に食べ物をのどにつまらせたため強い怒責を繰り返して吐き出したが，その直後から咳嗽，血痰が出現した．呼吸困難を自覚したため当院を受診したところ，胸部レントゲンおよびCTで両肺野にびまん性にスリガラス状陰影を認めた．血液検査では白血球数の上昇と軽度のLDH上昇，著明な1型低酸素血症が見られた．気管支鏡検査を施行したところ可視範囲に出血源と推測される病変はなく，気管支肺胞洗浄液が血性であったため肺胞出血と診断した．入院後，呼吸困難および動脈血液ガス所見が改善傾向であったため，酸素投与のみで経過観察したところ自覚症状，胸部画像所見，動脈血液ガスとも改善した．明らかな肺胞出血の原因となる基礎疾患はなく，窒息による上気道閉塞が肺胞出血の原因となったと考えられた．

キーワード：窒息，上気道閉塞，肺胞出血，陰圧性肺胞出血，ヘモジデリン貪食肺胞マクロファージ，ストレス侵襲

Asphyxia, Upper airway obstruction (UAO), Alveolar hemorrhage, Negative pressure pulmonary hemorrhage (NPPH), Hemosiderin content of alveolar macrophage, Stress failure

緒 言

肺胞出血はさまざまな疾患に伴っておこる肺病変であり，その原因として Goodpasture 症候群，抗好中球細胞質抗体関連血管炎，全身性エリテマトーデスなどの膠原病，特発性肺血鉄症などが知られている．今回われわれは肺胞出血の原因となる明らかな基礎疾患のない患者において，窒息による上気道閉塞を契機に発症した肺胞出血の1例を経験した．本邦では上気道閉塞が原因で肺胞出血を起こした報告はなく，貴重な症例と思われたため文献的考察を含めて報告する．

症 例

症例：76歳，女性，専業主婦．喫煙歴なし．

既往歴：高血圧のため近医で内服治療中．

家族歴：特記事項なし．

経過：1999年4月昼食時にアク巻き（灰汁巻き）を食べようとしたところ咽喉につまらせた．強い怒責を繰り返して間もなく吐き出したが，その直後から血痰が出現し，呼吸困難を自覚するようになったため当院を受診した．胸部X線（Fig. 1）および胸部CT（Fig. 2）を施

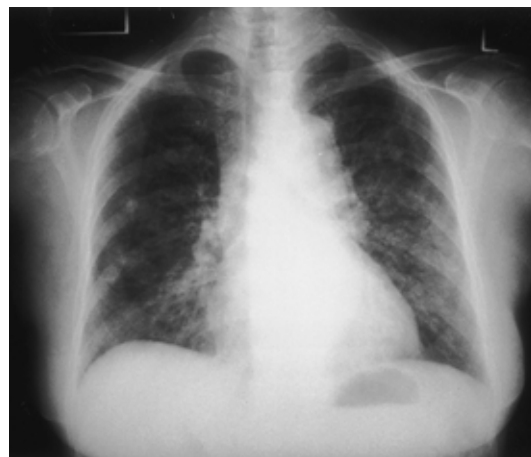


Fig. 1 Chest radiograph on admission, showing ground glass opacities in both lung fields.

行したところ，両肺野にびまん性スリガラス状陰影を認めた．身体所見ではチアノーゼやパチ状指は認めなかった．呼吸音清，心音純で，この他にも明らかな異常所見は認めなかった．また，これまで手のこわばりやレイノー現象，関節痛なども自覚したことはなかった．血液検査（Table 1）では，末梢白血球数や血清LDH値の上昇を認めたが，肝機能や腎機能，血液凝固能は正常であった．動脈血液ガスでは著明な1型低酸素血症が見られた．入院翌日気管支鏡検査を施行したところ粘膜には異常所

〒889-1692 宮崎県宮崎郡清武町大字木原 5200

¹⁾宮崎市郡医師会病院内科

²⁾宮崎医科大学第三内科

（受付日平成14年10月23日）

見はなかった．右中葉枝に楔入し気管支肺胞洗浄（以下 BAL）を施行したところ，BAL 液は 1 液から 3 液が血性であり，肺胞出血が考えられた．入院後には咳嗽，呼吸困難などの臨床症状が改善していたため経鼻酸素投与

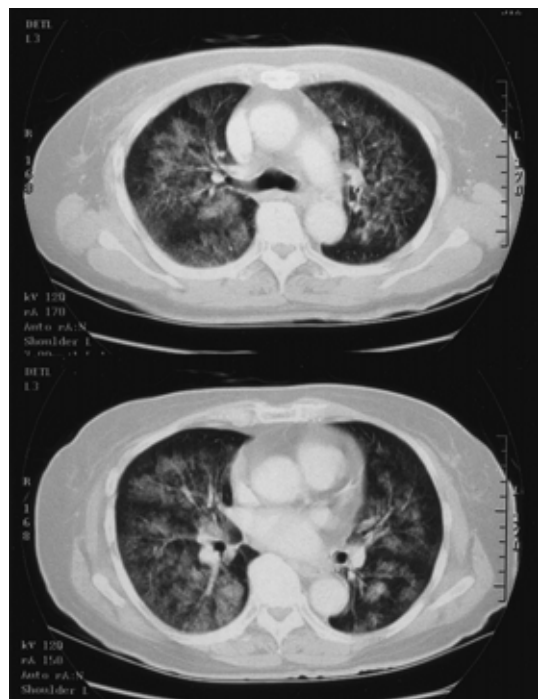


Fig. 2 Chest CT scan on admission, showing ground glass opacities.

のみで経過観察したところ，徐々に呼吸困難などの臨床症状および胸部 X 線所見は改善した．また，入院後 CRP が 10.0 mg/dl まで上昇したが，窒息後に誤えん性肺炎を合併したと考え抗生剤を投与したところ，間もなく炎症所見は陰性化した．入院第 9 日目に再度気管支鏡検査を施行したところ，BAL 液は 1 液から 3 液が淡血性でヘモジデリン貪食肺胞マクロファージを認めた．本例は出血傾向を惹起する薬剤服用歴はなく，血液検査では出血傾向を呈するような凝固異常も認めなかった．抗糸球体基底膜抗体は陰性，膠原病関連マーカー，抗好中球細胞質抗体（以下 ANCA）も陰性であり，肺胞出血の原因となる明らかな基礎疾患は認めなかった．臨床経過から窒息による上気道閉塞を契機に発症した negative pressure pulmonary hemorrhage (NPPH) と考えた．入院後末梢血ヘモグロビン値，ヘマトクリット値が一時的に低下したが間もなく改善した．血痰や呼吸困難は消失し，画像所見，血液ガス所見が改善したため 1999 年 5 月退院した（Fig. 3）．以後，近医にて定期外来通院していたが肺胞出血の再発はなかった．同年 12 月に胸部 CT（Fig. 4）を施行したところ，スリガラス状陰影はみられなかった．血液検査では白血球数，血清 LDH 値，動脈血液ガスはすべて正常範囲であった．その後も近医で定期的に外来通院しているが，発症 3 年後も症状，画像所見上再発なく経過している．

Table 1 Laboratory findings on admission

Hematology		Serology	
WBC	14,400 / μ l	CRP	0.0 mg/dl
Nt.	81.8 %	ANA	< $\times$ 20
Ly.	14.1 %	Mycoplasma Ab	< $\times$ 40
Eo.	0.2 %	Cold agglutination reaction	< $\times$ 4
RBC	350×10^4 / μ l	Anti-GBM Ab	< 5 EU/ml
Hb	11.7 g/dl	C-ANCA	< 10 EU
Hct	35.1 %	PIVKA-II	17 mAU/ml
PLT	12.6×10^4 / μ l	Lysozyme	8.5 μ g/ml
Biochemistry		Vit. K2	0.1 ng/ml
TP	7.0 g/dl	ACE	9.2 IU/l
alb	64.5 %	Coagulation	
γ -glob	11.3 %	PT	81.6%, 12.8 s
GOT	54 IU/l	APTT	28.1 s
GPT	61 IU/l	Blood gas analysis, room air	
LDH	482 IU/l	pH	7.43
BUN	21.0 mg/dl	PaO ₂	44.8 Torr
Cre	0.7 mg/dl	PaCO ₂	36.0 Torr
Glu	159 mg/dl	HCO ₃ ⁻	23.6 mM/l
		BE	0.3 mM/l

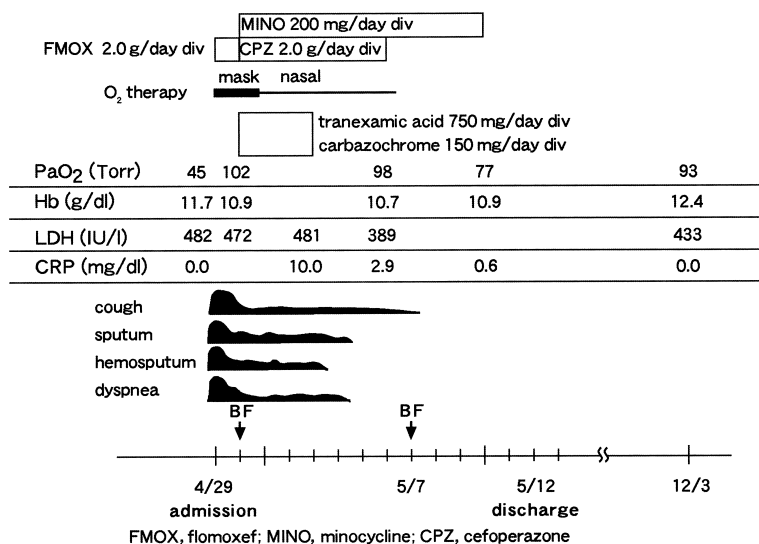


Fig. 3 Clinical course.

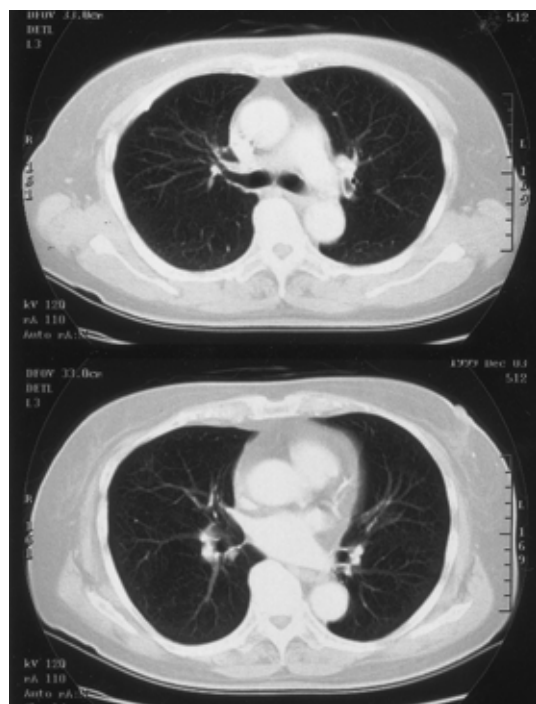


Fig. 4 Chest CT 7 months after discharge.

考 察

肺胞出血の原因としては、その分類上 1) Goodpasture 症候群に代表される抗糸球体基底膜抗体に関連したもの、2) SLE などの免疫複合体疾患に伴うもの、3) ANCA 関連血管炎に伴うもの、4) 上記以外の特発性肺血鉄症、急性肺損傷、薬剤投与に関連したものに区別される¹²⁾。最近では ANCA 関連血管炎に伴う肺胞出血が注目されており、文献的にこれまで報告されていた特発

性肺血鉄症の一部に、ANCA 関連血管炎による肺胞出血が含まれていた可能性も指摘されている³⁾。また微小な気管支動脈瘤などが原因になることがあり、このような場合には気管支動脈造影が原因検索に有用であることもある^{4,5)}。

本例は、精査したかぎりでは肺胞出血を起こすような明らかな基礎疾患を認めず、血痰や呼吸困難等の症状が窒息して強く咳込んだ直後から出現し、その後自然軽快したことから考えると、窒息による上気道閉塞が肺胞出血の原因になったと考えられた。その機序として、上気道の閉塞によって胸腔内が著明な陰圧になり、機械的損傷によって肺胞毛細血管壁が破綻することで出血を起こす stress failure によるものが考えられている⁶⁾。急激な上気道閉塞によって胸腔内が著明な陰圧を呈し肺水腫を起こすことは良く知られていることである^{7,8)}が、肺胞出血も同様の機序と考えられている。すなわち、陰圧の程度が小さいときには low-protein edema を生じ、さらに陰圧が大きくなると high-protein edema を生じる。さらに著明な陰圧を呈したときには肺胞毛細血管壁が破綻し出血を起こすと考えられる。

競走馬あるいは陸上競技者において、時に血痰や咯血が見られることがある。競走馬や競技者が激しい運動を行うと肺胞腔内には赤血球や蛋白の滲出が見られるが、これらについても肺胞毛細血管壁の機械的損傷による stress failure が原因である。これらの現象については実験的に確認されていることである^{9,10)}。これを exercise induced pulmonary hemorrhage といい、今回我々の経験した NPPH に共通した病態と考えられる。肺毛細血管圧がウサギで 40 mmHg、犬で 70 mmHg、競走馬で 100 mmHg にまで上昇した場合、stress failure による肺毛

細血管壁の破綻を来す³⁾とされている .

NPPH による呼吸困難などの症状は , 発症後 24 時間以内に改善傾向がみられるため , ステロイド治療などは不要で多くの場合酸素投与などの対症療法で良い . しかしながら , 呼吸困難が強い場合や低酸素血症が著明な場合には気管内挿管し人工呼吸管理下に陽圧呼吸を行う必要があることもある⁸⁾ .

本邦には上気道閉塞に伴う肺胞出血の報告はなく , 非常に興味深い症例と思われたため , 文献的考察を含めて報告した .

本論分の主旨は , 第 248 回内科学会九州地方会 (2000 年 2 月 , 福岡) にて発表した .

文 献

- 1) Steven MA, Warren BG, David ME, et al : Diffuse pulmonary hemorrhage : A review and classification. *Radiology* 1985 ; 154 : 289—297.
- 2) Henry MT, Richard SI : Classification of diffuse intrapulmonary hemorrhage. *Chest* 1975 ; 68 : 483—484.
- 3) 萩原恵里 : 肺胞出血 . *日内会誌* 2001 ; 90 : 1393—1398.

- 4) 阿久澤浩司 , 高橋典明 , 前原瑞穂 , 他 : 咯血症例に対する気管支動脈造影 (BAG) の有用性について . *気管支学* 2002 ; 24 : 75—79.
- 5) 京樂由佳 , 伊井敏彦 , 平塚雄聡 , 他 : 気管支動脈瘤を認めた咯血の 1 例 . *気管支学* 2002 ; 24 : 542—545.
- 6) David RS, Anjli M, Atul M, et al : Negative pressure pulmonary hemorrhage. *Chest* 1999 ; 115 : 1194—1197.
- 7) Charles EO, George AG, Fritz MZH : Pulmonary edema as a complication of acute airway obstruction. *JAMA* 1977 ; 238 : 1833—1835.
- 8) David W, Deborah S : Pulmonary edema due to upper airway obstruction in adults. *Chest* 1988 ; 94 : 1090—1092.
- 9) Susan RH, Robert BS, William RH, et al : Intense exercise impairs the integrity of the pulmonary blood-gas barrier in elite athletes. *Am J Respir Crit Care Med* 1997 ; 155 : 1090—1094.
- 10) John BW, Odile MC, James HJ, et al : Stress failure of pulmonary capillaries in racehorses with exercise-induced pulmonary hemorrhage. *J Appl Physiol* 1993 ; 75 : 1097—1109.

Abstract

A Case of Negative Pressure Pulmonary Hemorrhage (NPPH) due to Upper Airway Obstruction Induced by Asphyxia

Masatoshi Tokojima, Kahori Miyoshi and Jun-ichi Ashitani¹⁾

Department of Internal Medicine, Miyazaki Medical Association Hospital,
738-1 Hunato, Shinbyu-cho, Miyazaki-shi, Miyazaki-ken, Japan

¹⁾Third Department of Internal Medicine, Miyazaki Medical College,
5200 Kihara, Kiyotake-cho, Miyazaki-shi, Miyazaki-ken, Japan

A non-smoking 76-year-old woman was admitted to our hospital complaining of cough, bloodstained sputum and difficulty in breathing that had developed while she was eating a meal. The initial diagnosis was upper airway obstruction. Her past history revealed no major illness, except that she was under medication for the treatment of hypertension. On examination, chest radiography and computed tomography (CT) scans showed diffuse ground glass opacities in both lungs, and bronchoalveolar lavage studies further yielded findings compatible with pulmonary hemorrhage. The patient's symptoms and hypoxemia improved gradually without any specific treatment. Laboratory data showed no specific underlying cause, such as vasculitis or collagen vascular disease, for the pulmonary hemorrhage. We therefore reached a diagnosis of a negative pressure pulmonary hemorrhage (NPPH) caused by upper airway obstruction. Follow-up examinations after 7 months showed no abnormal findings in the chest radiography or arterial blood gas analysis. To our knowledge, this is the first case of negative pressure pulmonary hemorrhage in Japan.