

症 例

Bi-level positive airway pressure で著明な低酸素血症が
改善した小児肥満低換気症候群の 1 例

松澤 邦明* 新家 興** 塚口 勝彦*
岡村 英生* 田村 猛夏* 木村 弘***

要旨：症例は5歳男児。幼児期より、高度肥満、夜間の呼吸異常、いびきを認め、平成12年12月に減量目的で当院小児科に入院。パルスオキシメータで著明な夜間低酸素血症を認め、終夜ポリソムノグラフィ (Polysomnography; 以下略 PSG) を施行し、小児肥満低換気症候群と診断した。当初、Continuous positive airway pressure (以下略; CPAP) を試みたが compliance 不良のため、Bi-level positive airway pressure (以下略; BiPAP) を導入し、著明な低酸素血症の改善を認めた。小児での同疾患では BiPAP 導入例は少なく、貴重な症例と考える。

キーワード：小児肥満低換気症候群，小児睡眠呼吸障害，肥満，Bi-level positive airway pressure (BiPAP) Child Obesity Hypoventilation Syndrome，Child Sleep Disordered Breathing，Obesity，BiPAP

緒 言

睡眠時無呼吸症候群 (Sleep Apnea Syndrome; 以下略 SAS) は、1976年 Guilleminault らが睡眠中の頻回の無呼吸と日中過剰傾眠などが特徴的な症候群として提唱している¹⁾。小児でも SAS は稀ではなく、その頻度は2%程度とも言われており、無治療の小児 SAS は成長障害や精神発達障害、肺性心などの重篤な病的状態をもたらすことがある²⁾。小児 SAS の原因の多くは、扁桃肥大や扁桃アデノイドによるものである³⁾。

SAS の内で、肥満低換気症候群 (Obesity Hypoventilation Syndrome; 以下略 OHS) は、高度の肥満、肺泡低換気を伴った重症型と位置づけることができ、ピックウィック症候群 (Pickwickian syndrome) とほぼ同義といえる⁴⁾。OHS は、右心系の合併症がしばしば認められるのも特徴とされている⁵⁾。

今回我々は、BiPAP により著明な低酸素血症と右心負荷所見の改善を認めた小児 OHS 症例を経験した。若干の文献的考察も含め報告する。

症 例

症例：5歳男児。

〒630 8053 奈良県奈良市七条2丁目789番地

* 国立療養所西奈良病院内科

** 同 小児科

*** 奈良県立医科大学第2内科

(受付日平成15年3月18日)

Table 1 Laboratory findings on admission

1. Hematology		3. Serology	
RBC	477 × 10 ⁴ /μl	CRP	0.7 mg/dl
Ht	41.2%	TSH	2.4 μU/ml
Hb	13.5 g/dl	T3	1.3 ng/ml
WBC	12,180/μl	T4	10.3 μg/dl
Plt	37.8 × 10 ⁴ /μl	GH	1.33 ng/ml
2. Biochemistry		ACTH	33 pg/ml
GOT	30 IU/l	Cortisol	10 μg/dl
GPT	23 IU/l	4. Blood gas analysis (room air)	
γ-GTP	23 IU/l	pH	7.378
LDH	269 IU/l	PaO ₂	79 mmHg
ALP	698 IU/l	PaCO ₂	51.6 mmHg
BS	77 mg/dl	5. UCG	
BUN	8.7 mg/dl	RV dilatation	
Cr	0.36 mg/dl	TR3 +	
UA	7.3 mg/dl	estimated systolic	
T-cho	167 mg/dl	PAP	50 mmHg
TG	38 mg/dl		
Na	138 mEq/l		
K	4.4 mEq/l		

主訴：夜間の呼吸異常，いびき。

既往歴：特記すべき事項なし。

現病歴：幼児期より、高度単純性肥満、夜間の呼吸異常、いびきを認め、平成12年12月に減量目的で当院小児科に入院した。パルスオキシメータで著明な夜間低酸素血症を認めたため PSG を施行した。

入院時現症：身長 117 cm，体重 43.8 kg，BMI 32.0 kg/m²，肥満度 104%，血圧 110/70 mmHg。扁桃腺腫大認

Table 2 PSG data

• Total sleep time: 503 min			
• Respiratory events			
Obstructive apnea: 29 times			
Hypopnea: 294 times			
• Respiratory disturbance index 38.0			
• SpO ₂ :	mean	74%	
	lowest	40%	
	%Time in SpO ₂ < 90%	79%	

めず、咽頭軽度狭小化、甲状腺腫認めず。心雑音なし、呼吸音正常。神経学的所見なし。下腿浮腫なし。成長遅延認めず。

入院時検査所見 (Table 1): 末梢血では多血症は認めなかった。白血球の増加を認めたが、分画は異常なく、その後白血球は正常化した。生化学所見では、アルカリフォスファターゼ、尿酸値の上昇を認めた。その他では、甲状腺機能は正常範囲で、成長ホルモンも年齢補正で正常範囲であった。ACTH、コルチゾールも特に異常は認めなかった。

日中に行った血液ガスでは pH 7.378, PaO₂ 79 mmHg, PaCO₂ 51.6 mmHg, と軽度の低酸素血症と高炭酸ガス血症を認めた。心電図では右心系圧負荷の所見を認めた。心エコーでは、右心系の拡大を認め、三尖弁逆流波形による推定収縮期肺動脈圧は約 50 mmHg に達した。

PSG 所見 (Table 2): 入院時の PSG は、HEALTH-DYNE 社製 ALICE 3 を用い、標準的方法で行った。解析は終夜画面を 30 秒毎に専門医の手により解析した。無呼吸の判定は大人での通常の 10 秒ではなく、小児の判定で用いられる 5 秒以上を有意な無呼吸と判定した。低呼吸は前後の安定した呼吸より 50% 以上の換気量あるいは気流の低下が 5 秒以上持続したものとした。しかし、換気量あるいは気流の低下が 50% に満たなくても 3% 以上の酸素飽和度の低下が覚醒反応を伴うものは低呼吸と判定した。脳波判定は、Rechtschaffen & Kales 国際分類⁶⁾に準拠した。

解析結果は次のようなものであった。全睡眠時間は 503 分であった。全体的に呼吸は浅く、睡眠中の体動や覚醒とノイズのため、睡眠段階は十分に検討できなかったが、全体として睡眠段階は浅く、しばしば変動する傾向にあった。総無呼吸回数は 29 回で、すべて閉塞型であった (Fig. 1)。総低呼吸回数は 294 回であった。呼吸障害指数は 38 回/時で、閉塞型優位な呼吸障害であった。酸素飽和度 (Oxygen Saturation; 以下略 SpO₂) は平均 74%, 最低 40%, SpO₂ が 90% 以下になる割合時間は 79% にも及び、著明な低酸素血症を認めた。

入院後経過: PSG により著明な夜間低酸素血症を伴

う小児 OHS と診断した。減量療法と並行してまず CPAP を試みたが、呼気中の CPAP 圧が本人の呼気圧と衝突し、compliance 不良となったため BiPAP を導入した。BiPAP の設定は患者の compliance を考慮してできるだけ低い圧設定となり、IPAP 8 cmH₂O, EPAP 4 cmH₂O とした。これ以上の高い圧設定ではやはり compliance 不良であった。

次に BiPAP 前後のパスルオキシメータ所見の変化を示す (Table 3)。SpO₂ は、平均値・最低値・90% 以下の時間の割合とも BiPAP 施行後は著明な改善を認めた。BiPAP 導入後は、夜間の呼吸異常、いびき、日中の傾眠傾向といった自覚症状も著明に改善し、日中の活動性も増加した。しかし、BiPAP 導入後の体重変化は認めなかった。

また、BiPAP 施行後の心エコーでは、右心系の拡大は軽減し、三尖弁逆流波形による推定収縮期肺動脈圧は約 30 mmHg と改善を認めた。

考 察

今回、我々は BiPAP 導入により著明な低酸素血症の改善を認めた小児 OHS 症例を経験した。OHS は SAS の重症型と位置づけることができない⁴⁾、成人症例では OHS による日中の過剰傾眠は患者の QOL (quality of life) に直接的に影響し、交通事故や就労効率の低下をもたらす社会的に重要な意味を持つ⁷⁾。さらに、生命予後の観点からも OHS は SAS と一線を画する疾患と考えられ、厚生省特定疾患「呼吸不全」調査研究班では SAS とは別にして OHS に対して診断基準・重症度分類を提唱している⁸⁾。

本邦における OHS の実態調査によると、肺高血圧を有する割合は、SAS 群では 4% であるのに対して、OHS 群では 34% にも及び。また、右心不全は、SAS 群では 7% であるのに対し、OHS 群では 32% に達した。なお、高血圧症の発生率は、SAS 群では 43% であるのに対し、OHS 群では 63% であった⁸⁾。以上のように、OHS 患者では、高血圧や虚血性心疾患以外にも右心系合併症を高率に有していた。

小児での OHS は成人例ほど報告されておらず、診断基準もいまだ提唱されていない。本症例では、成人の診断基準を参考にして、OHS と診断した。小児睡眠呼吸障害の原因の多くは、扁桃肥大やアデノイド腫大によるものであるが、小児肥満患者の増加に伴い肥満が原因の睡眠呼吸障害症例も報告されている⁹⁾。本症例は、食生活に問題のある単純性肥満症例であって、減量治療を試みてきたが、なかなか改善が進まないのが現状であった。そこで、当初 CPAP を試みたが、compliance 不良のため、BiPAP を試みたところ良好な結果を得た。また、

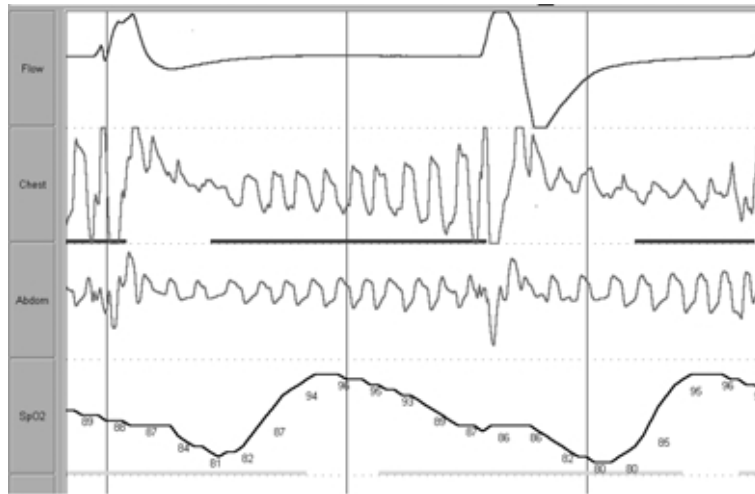


Fig. 1 PSG finding (30 min)

The tracings show obstructive apnea with paradoxical movement of the chest and abdomen, and desaturation.

Table 3 Pulse oximeter data before and after BiPAP

	Before BiPAP	After BiPAP
Mean SpO ₂	74%	93%
Lowest SpO ₂	40%	66%
%Time in SpO ₂ < 90%	79%	10%

夜間低酸素血症の改善のみならず，心エコーによる右心負荷所見の改善も認めた。

睡眠呼吸障害に対するBiPAPは，CPAPによって患者が受ける不快感，そのための治療脱落例に対し有効ではないかと導入された¹⁰⁾。小児に対しても有効であるとの報告も見られる¹¹⁾。本症例では当初CPAPを試みたが，呼気のCPAP圧と本人の呼気圧が衝突するためcompliance不良となり，CPAPを中止せざるを得なかった。その後にBiPAPを導入し，低い圧設定であるなら患者complianceも良好で，継続可能であった。本症例のようなCPAP compliance不良例ではBiPAP導入の適応と考える。しかし，我々が検索した範囲では，本邦では小児肥満低換気症候群にBiPAPを導入した報告は認めず，本症例は小児におけるBiPAPの有効性を示唆する報告と考える。今後，同様な症例に対し，減量療法に取り組むと共に，積極的にCPAPもしくはBiPAPを導入すべきであると考え。

今回の症例では，PSGは成人と同様に標準的方法で行ったが，解析は成人と異なり，無呼吸の定義を5秒以上とした。小児の無呼吸の定義は確定したものはなく，今回のように5秒以上とする報告や，2呼吸での無呼吸を有意と取る報告や，1呼吸でも無呼吸と取るものなど

様々である¹²⁾。今後は小児についても成人と同様に定義を確定する必要性が求められるが，年齢により呼吸状態が変化する小児の場合は無呼吸の定義付けが困難であることも指摘されており，今後の検討課題と考える。また，小児の睡眠脳波判定についても成人とは異なる点が指摘されており，特に低年齢層では年齢の変化を考慮する必要がある。本症例ではR&K国際分類⁶⁾に準拠して解析を試みたが，ノイズが多く，睡眠構築を確定することができなかった。

以上，BiPAPによる著明な低酸素血症の改善を認めた小児肥満低換気症候群の1症例を報告した。尚，この論文の要旨は第57回日本呼吸器学会近畿地方会（2001年7月，大阪）で発表したものである。

文 献

- 1) Guilleminault C: The sleep apnea syndrome. *Ann Rev Med* 1976; 27: 468-484.
- 2) Marcus CL: Sleep-disordered breathing in children. *Am J Respir Crit Care Med* 2001; 164: 16-30.
- 3) Gialason T: Snoring, apneic episodes, and nocturnal hypoxemia among children 6 months to 6 years old. An epidemiologic study of lower limit of prevalence. *Chest* 1995; 107: 963-966.
- 4) Rochester DF, Enson Y: Current concepts in the pathogenesis of the obesity hypoventilation syndrome. Mechanical and circulatory factors. *Am J Med* 1974; 57: 402-420.
- 5) 木村 弘，栗山喬之：SASと肺高血圧症。本間日臣編。睡眠時無呼吸症候群。克誠堂出版，東京，1995；39-47.

- 6) Rechtschaffen A, Kales A: A manual of standardized terminology, techniques and scoring systems for sleep stages of human subjects. National Institute of Health 1968; Pub 1: 204-210.
- 7) 大田保世, 川上義和, 滝島 任, 他: 日本人の睡眠呼吸障害. 日胸疾会誌 31(増刊), 東京, 1993; 12-18.
- 8) 木村 弘, 堀江美正, 浜岡朋子, 他: 呼吸不全6疾患の全国疫学調査 わが国における肥満低換気症候群の検討. 厚生省特定疾患呼吸不全調査研究班平成9年度研究報告書 1998; 80-84.
- 9) 松澤邦明, 赤澤英樹, 新家 興, 他: 減量のみで著明に改善した小児閉塞型睡眠時無呼吸症候群の一症例. 日本胸部臨床 掲載予定.
- 10) Sanders MH, Kern N: Obstructive sleep apnea treated by independently adjusted inspiratory and expiratory positive airway pressures via nasal mask. Physiologic and clinical implications. Chest 1990; 98: 317-324.
- 11) Waters KA, Everett FM, Bruderer JW, et al: Obstructive sleep apnea: the use of nasal CPAP in 80 children. Am J Respir Crit Care Med 1995; 152: 780-785.
- 12) American Thoracic Society: Standards and indications for cardiopulmonary sleep studies in children. Am J Respir Crit Care Med 1996; 153: 866-878.

Abstract

A Case of Child Obesity Hypoventilation Syndrome (OHS) Improved by Bi-level Positive Airway Pressure (BiPAP)

Kuniaki Matsuzawa, Kou Niinomi, Katsuhiko Tsukaguchi, Hideo Okamura, Mouka Tamura and Hiroshi Kimura.

Department of Internal Medicine, Nishinara National Hospital, 2-789 Shichijou, Nara city, Nara 630-8053, Japan

A 5-year-old boy was admitted to our hospital because of severe obesity and disordered breathing with snoring during sleep. Child OHS was diagnosed using polysomnography (PSG). Although he was treated initially with nasal CPAP, it was not acceptable to him. BiPAP produced marked reduction of the respiratory disorders during sleep, as confirmed by PSG. Few reports of BiPAP for child OHS have appeared in Japan. We concluded that child OHS could be successfully treated with BiPAP when nasal CPAP was not acceptable.