

## ●症 例

## 気道病変の評価に 3D-CT が有用であった再発性多発軟骨炎の 2 症例

渡辺 舞子<sup>1)2)</sup> 大澤 智代<sup>2)</sup> 難波 大夫<sup>2)</sup> 鳥居 貞和<sup>1)</sup>  
 三治 宏司<sup>1)</sup> 二宮 茂光<sup>1)</sup> 吉野内猛夫<sup>1)</sup>

要旨：再発性多発軟骨炎 (relapsing polychondritis : RP) の気道病変は重要な予後因子の一つであり経時的な評価が必要であるが、気管支鏡検査等の侵襲的検査は気道病変を増悪する可能性がある。我々は RP2 症例に対し非侵襲性検査として 3D-CT を用い、気道病変の評価に有効と考えられたため、文献的考察を含め報告する。症例は 31 歳男性と 78 歳女性。1 例目はステロイド、免疫抑制剤で治療を受けていたが自己中断していた。2 例目はステロイド治療中であった。いずれも肺炎を合併し入院。気道病変の非侵襲性検査として 3D-CT を施行し、共通所見として、気管・両主気管支の扁平化を認めた。RP の気道病変の非侵襲的検査として 3D-CT が有用と考えられた。

キーワード：再発性多発軟骨炎，気道病変，3D-CT

Relapsing polychondritis, Airway disorders, Computed tomography, three dimensional

## 緒 言

再発性多発軟骨炎 (relapsing polychondritis : RP) は、全身の軟骨及びムコ多糖類を多く含む組織を侵し、寛解と再燃を繰り返す原因不明の慢性炎症疾患である。RP の気道病変は重要な予後因子の一つであり、経時的な評価が必要であるが、気管支鏡検査等の侵襲的検査は気道病変を増悪する可能性があるといわれている。我々は、非侵襲性検査として 3D-CT, Virtual bronchoscopy (VB) を用いて、気道病変の評価を行った RP の 2 症例を経験したので、文献的考察を含め報告する。

## 症 例

症例 1: 31 歳, 男性。

主訴：発熱, 呼吸困難。

家族歴・既往歴：特記すべき事なし。

現病歴：1994 年 (21 歳時) より両側耳介, 鼻部の腫脹疼痛を認め、気管・気管支軟骨炎などから RP と診断され、Prednisolone (PSL) 2.5~10mg/日, Methotrexate (MTX) 7.5mg/週の投与を受けていたが、2003 年 9 月頃より内服を自己中断していた。2004 年 4 月 10 日頃より発熱, 呼吸困難が出現し、次第に症状が増悪したため 4 月 22 日当科を受診した。

入院時現症：身長 180cm, 体重 60kg, 体温 39.8℃。血圧 144/66mmHg, 脈拍 103/分・整。呼吸数 24/分。両側耳介に腫脹あり。眼球結膜に異常認めず。鞍鼻あり。心雑音なし。呼吸音は全肺野に喘鳴を聴取。腹部, 関節に異常なし。

画像所見：入院時胸部単純 X 線写真, 胸部 CT では、右中下葉に浸潤影を認めた (Fig. 1)。発症時である 1994 年の断層写真と 2004 年の多断面再構成画像を比較すると、いずれも気管内腔の狭窄を声門より気管分岐部まで認めたが、発症時と 10 年後では横径の変化はなかった (Fig. 2)。胸部 CT での気管・気管支内腔径を膜様部に垂直な径を縦方向, 水平な径を横方向として内径および横断面積を評価した。入院時胸部 CT では、気管入口部：縦 11.1mm×横 11.9mm, 面積 91.9mm<sup>2</sup>, 中央部：縦 8.0mm×横 9.3mm, 面積 61.3mm<sup>2</sup>, 気管分岐部直上：縦 5.8mm×横 9.2mm, 面積 47.8mm<sup>2</sup>であったが、肺炎改善後の 2004 年 6 月 1 日胸部 CT では、気管入口部：縦 10.5mm×横 12.4mm, 面積 104.0mm<sup>2</sup>, 中央部：縦 8.1mm×横 10.0mm, 面積 129.0mm<sup>2</sup>, 気管分岐部直上：縦 5.8mm×横 11.7mm, 面積 53.7mm<sup>2</sup>であり、治療により内腔面積の改善を認めた。また、肺炎改善後に施行した胸部 CT で左右主気管支の中央部の内腔径及び面積を胸部 CT と 3D-CT で比較したところ、胸部 CT では右主気管支中央部は縦 3.3mm×横 20.3mm, 面積 70.1mm<sup>2</sup>, 左主気管支中央部は縦 2.5mm×横 8.8mm, 面積 23.0mm<sup>2</sup>であったのに対し、3D-CT では同部位で右縦 4.9mm×横 10.1mm, 面積 36.9mm<sup>2</sup>, 左縦 3.1mm×横 5.6mm, 面積 13.0mm<sup>2</sup>であった。

<sup>1)</sup>豊川市民病院内科

〒467-8601 愛知県名古屋市長徳区瑞穂町川澄 1 番地

<sup>2)</sup>名古屋市立大学病院膠原病内科

(受付日平成 19 年 8 月 2 日)

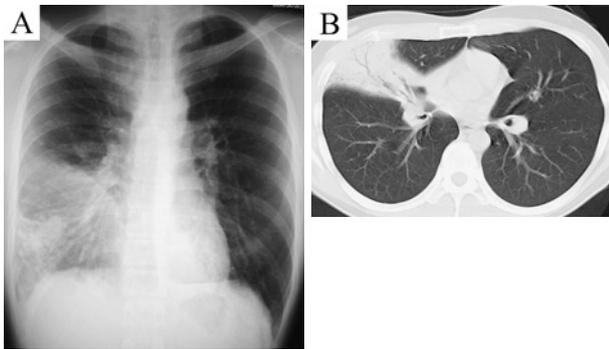


Fig. 1 A. Chest radiograph on admission showing consolidations in the right middle and lower lung fields. B. Computed tomography on admission showing obstructive pneumonia in the right middle lobe.

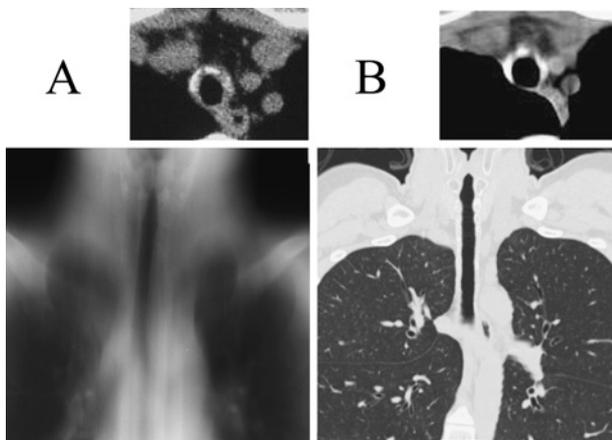


Fig. 2 A. Chest tomogram (1994) showing stenosis of the trachea from vocal cord to carina. B. Multiplanar reconstruction (2004) also showing stenosis of the trachea from vocal cord to carina.

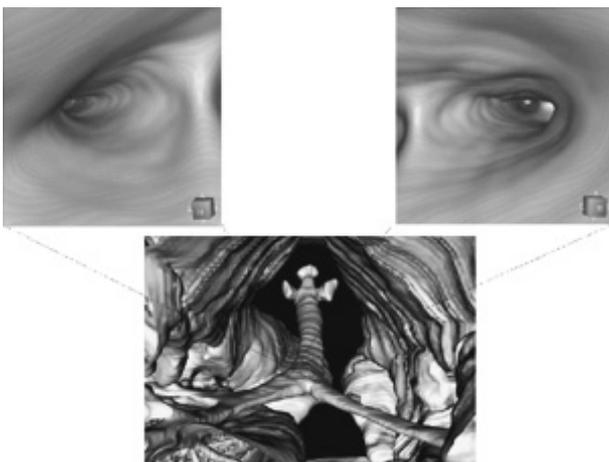


Fig. 3 Virtual bronchoscopy and 3D-CT (2004) showing stenosis of the trachea and bilateral main bronchus.

入院後経過：理学所見および画像所見から RP の増悪とそれに伴う閉塞性肺炎が強く疑われ、Meropenem, Erythromycin を投与した。また気管・気管支狭窄の非侵襲的な評価のため、肺炎が沈静化した後に 3D-CT を施行した。VB および 3D-CT 画像では、気管及び左右主気管支は扁平化し、気管支狭窄を認めた (Fig. 3)。

RP の再燃に対しては PSL 15mg/日を併用し、速やかに喘鳴および耳介の腫脹ともに肺炎は軽快した。肺炎の改善後 MTX 7.5mg/週の併用を再開し、PSL を漸減 10 mg/日とするも再燃なく 5 月 11 日退院となった。

症例 2: 78 歳, 女性。

主訴：意識レベルの低下。

既往歴：64 歳, 脳梗塞, 糖尿病。

現病歴：2006 年 4 月中旬頃より右耳介の発赤, 腫脹, 5 月 11 日より左耳介腫脹が出現し, 当科にて RP の診断により PSL 30mg/日を投与し症状は軽快していた。2006 年 9 月 10 日朝より呼びかけに反応乏しくなったため当院受診し, 胸部単純 X 線にて右中下肺野に肺炎を指摘され入院となった。

入院時現症：身長 137cm, 体重 55kg. 意識 JCSI-2. 体温 37.2°C. 血圧 116/58mmHg. 脈拍 88/分整. 呼吸数 20/分. SpO<sub>2</sub> 87%. 左耳介に軽度の発赤, 腫脹あり. 鞍鼻あり. 眼球結膜に異常認めず. 胸腹部に異常なし。

画像所見：胸部単純 X 線, 胸部 CT では, 右下葉に浸潤影を認めた (Fig. 4)。

入院後経過：肺炎に対し Cefmetazone, Clindamycin を投与した。耳介軟骨炎の明らかな増悪は認めなかったため, PSL12.5mg を継続とした。その後, 気管・気管支狭窄の評価のため 3D-CT を施行した。3D-CT 画像では, 気管及び左右気管支に扁平化を認めたが, あきらかな気管支の閉塞は認めなかった (Fig. 5)。

気管内腔径は, 気管入口部：縦 10.4mm×横 15.5mm, 面積 134.8mm<sup>2</sup>, 中央部：縦 9.5mm×横 15.2mm, 面積 109.3mm<sup>2</sup>, 気管分岐部直上：縦 8.7mm×横 13.2mm, 面積 129.0mm<sup>2</sup>, であった。肺炎改善後に施行した胸部

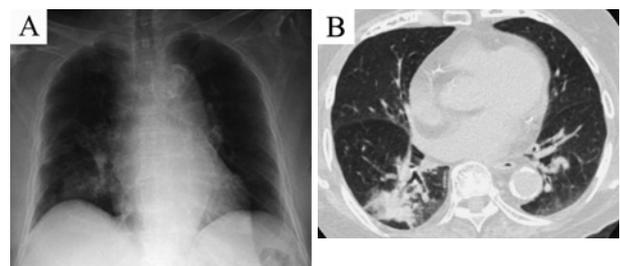


Fig. 4 A. Chest radiograph on admission showing consolidations in the right lower lung field. B. Computed tomography showing consolidations in the right S6.

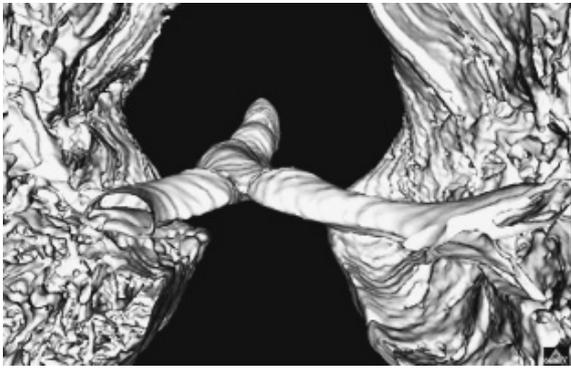


Fig. 5 3D-CT (2006) showing stenosis of the trachea and bilateral main bronchus.

CTで左右主気管支の中央部の内腔径及び面積を胸部CTと3D-CTで比較したところ、胸部CTでは右主気管支中央部は縦7.8mm×横14.2mm、面積106.2mm<sup>2</sup>、左主気管支中央部は縦7.3mm×横23.0mm、面積162.8mm<sup>2</sup>であったのに対し、3D-CTでは同部位で右縦8.3mm×横13.4mm、面積92.2mm<sup>2</sup>、左縦7.2mm×横8.8mm、面積58.4mm<sup>2</sup>であった。抗生剤により炎症反応が改善したため、9月25日退院となった。

## 考 案

RPは、全身の軟骨と共通の器質を有する種々の組織を系統的に侵す疾患で、1923年にJacksh Wartenhorstが初めてPolychondropathiaと報告し<sup>1)</sup>、1960年にPearsonらがRPと命名した<sup>2)</sup>。本症の原因は不明で、自己免疫説、感染症説、代謝異常説等があるが、TypeII collagenに対する抗体が約30%にみられることから、現在ではTypeII collagenに対する自己免疫説が有力である<sup>3)</sup>。診断基準にはMcAdamの診断基準が一般的である<sup>4)</sup>。  
①両側性耳介軟骨炎、②非びらん性炎症性関節炎、③鼻軟骨炎、④結膜炎、⑤気道軟骨炎、⑥聴神経障害の6項目のうち3項目以上で本症と診断する。自験例は2症例ともに病理組織はないが、両耳介軟骨炎、鼻軟骨炎、気道軟骨炎の3項目を満たし、McAdamの診断基準を満たしていた。自験例ではType II collagenに対する抗体は測定していないため、その関与は不明である。本症の初発症状は、発熱、鼻の変形及び疼痛、関節痛、咳嗽などであるが、このうち本邦では気道病変の合併は53%といわれている<sup>5)</sup>。5年生存率は約75%であり、死因の約80%は気道狭窄による呼吸不全、気道感染症である<sup>6)</sup>。近年外科的治療の発達により死亡例は低下しているが、依然としてRPにおける気道病変は重要な生命予後因子の一つである<sup>7)</sup>。

気道病変の評価には、従来気管支鏡検査、胸部CT検査が行われていたが、気管支鏡検査のような侵襲性のあ

る検査は軟骨炎を増悪させる可能性があり、原疾患の活動性が高い場合や感染症の合併時には施行困難である<sup>8)</sup>。また胸部CT検査のみでは末梢気管支の評価は困難である。一方3D-CT検査は非侵襲性であり、亜区域支以上の気管支の立体的構造、末梢気管支の再構築が可能という長所があり<sup>9)</sup>、今回我々は3D-CTを施行した。3D-CTのみでは区域支レベルの観察は困難であったが、気管・主気管支レベルの評価は可能であった。自験例で胸部CTと3D-CTでの左右主気管支中央部の内腔面積を測定したところ、胸部CTでは3D-CTと比べ内腔面積は、症例1では右1.90倍、左1.77倍、症例2では右1.15倍、左2.79倍であった。これは、3D-CTでは気管支の三次元的な評価が可能であり気管支走行に垂直な内腔面を評価できるのに対し、胸部CTでは気管分岐部以降の気管支は走行に対し斜断されるため、気管支内腔が過大評価されることによると考えられる。以上の点からもRPにおける気道病変の評価では、3D-CTが有用であると思われる。

しかし3D-CTの短所としては粘膜面の色調などの変化の評価が困難であることが挙げられる。RPにおける呼吸器障害の発症機序として、気道狭窄に加え病変部位の線毛円柱上皮の消失がさらに喀痰の排泄障害を助長し、感染を誘発することが指摘されており、その結果さらに気道の狭窄を増悪させると考えられている<sup>10)</sup>。今回自験例2例ともに共通した所見として、気管及び両主気管支の扁平化を認めた。しかしながら、肺炎部と非肺炎部において気管支内腔の狭窄に有意な差を認めなかったのは、抗生剤投与により感染のため増悪していた気道狭窄が軽快していた可能性が考えられる。

RPが疑われる症例において、診断のために気道病変の評価として3D-CTが有用である事が考えられる。Karenらは、胸部CTでのRPの胸部気道病変の評価では、吸気時に比べ呼気時の気管支の変形が大きく、呼気時の気管・気管支の評価が重要であり、呼気時の胸部CTでは、吸気時と比較し18例中17例(94%)で気道の軟化やair trappingの機能的異常を認め、うち13例(72%)に気道の軟化を認めたと報告している<sup>10)</sup>。Beharらは、RPの胸部CTにおいて気管狭窄は15例中5例(33%)にみられ、うち3例(20%)は声門下に限局性の狭窄、2例(13%)は気管および主気管支にび慢性に狭窄を認めたと報告している<sup>11)</sup>。胸部CTでRPと鑑別を要する疾患として、気管・気管支アミロイドーシス、気管骨形成症、Wegener肉芽腫症、サルコイドーシス、ヒストプラスマ症、結核、鼻軟化症があるが、気道壁の肥厚が膜様部がないことや臨床所見から鑑別可能としており、RPの診断において胸部CTの有用性が報告されている<sup>11)</sup>。気管狭窄が限局している例があることから、

胸部 CT と比較し 3D-CT は気管径の連続的な評価が可能であり, RP の気道評価に有用であると思われる。

RP においては経時的な気道病変の観察が重要である。他疾患ではあるが, 3D-CT で気管支病変の治療効果判定が可能であったとの報告があり, RP においてもその有用性が期待される<sup>9)</sup>。症例 1 の胸部 CT で入院時と肺炎治療後との気管内径および面積を比較したところ, 縦径の変化はなかったが横径および内腔面積の改善を認めた。今回, 肺炎発症時の 3D-CT は施行していないが, 治療効果判定にも有用であったと思われる。RP の気道病変に 3D-CT を用いた報告は, 検索しえた範囲では 3 例<sup>13)~15)</sup>のみであった。

本例のごとく閉塞性肺炎をきたした症例で, 気管支鏡検査による更なる気道狭窄の悪化を避けたいケースにおいては, 気道病変の非侵襲的評価として 3D-CT は有用であり, 今後積極的に活用していく意義があると考えられる。

## 文 献

- 1) Jacksh-Wartenhorst. Polychondritis. Wien Arch Inn Med 1923; 6: 1203—1207.
- 2) Pearson CM, Kline HM, Newcomer VD. Relapsing polychondritis. Medicine 1976; 55: 193—215.
- 3) Foidart JM, Abe S, Martin GR, et al. Antibodies to type II collagen in relapsing polychondritis. N Engl J Med 1978; 299: 1203—1207.
- 4) McAdam LP, O'Hanlan MA, Bluestone R, et al. Relapsing polychondritis: prospective study of 23 patients and a review of the literature. Medicine (Baltimore) 1976; 55: 193—215.
- 5) 鈴木光子, 内田和仁, 長野正裕, 他. 頑固な肋軟骨部痛を発症し, 高度気管狭窄症状を示した反復性多発性軟骨炎の 1 例. 日胸疾会誌 1983; 21: 665—671.
- 6) Micht CJ Jr, McKenna CH, Luthra HS, et al. Relapsing polychondritis. survival and predictive role of early disease manifestations. Ann Intern Med 1986; 104: 74—78.
- 7) Sarodia BD, Dasgupta A, Mehta AC. Management of airway manifestations of relapsing polychondritis. Chest 1999; 116: 1669—1675.
- 8) Eng J, Sabanathan S. Airway complications in relapsing polychondritis. Ann Thorac Surg 1991; 51: 686—692.
- 9) 森松嘉孝, 藤本公則, 上村知子, 他. 気管支結核症の治療効果判定を, 気管支鏡所見と 3D-CT 画像と比較検討できた 1 例. 気管支学 2001; 23: 556—560.
- 10) Karen SL, Armin E, David ET, et al. Relapsing polychondritis: prevalence of expiratory CT airway abnormalities. Radiology 2006; 240: 565—573.
- 11) Behar JV, Choi YW, Hartman TA, et al. Relapsing polychondritis affecting the lower respiratory tract. Am J Roentgenol 2002; 178: 173—177.
- 12) 飯鉢尚子, 西條亜利子, 和穎房代, 他. 気管狭窄を呈した再発性多発性軟骨炎の 2 症例. 気管支学 1995; 17: 622—628.
- 13) Nicotra JJ, Mahboubi S, Kramer SS. Three-dimensional imaging of the pediatric airway. Int J Pediat Otorhinolaryngol 1997; 41: 299—305.
- 14) 北村英也, 久野伸夫, 衛藤理沙, 他. 気管軟骨炎の評価に 3D-CT が有用であった糖尿病合併再発性多発性軟骨炎の 1 例. 日赤医学 2001; 53: 132.
- 15) 堀之内宏久, 成毛聖夫, 江口圭介, 他. 狭窄病変の評価と治療方針の決定に 3D-CT が有用であった再発性多発性軟骨炎の 1 症例. 気管支学 1996; 18: 311.

**Abstract****The efficacy of three-dimensional computed tomography for evaluating airway tract involvement in patients with relapsing polychondritis**

Maiko Watanabe<sup>1)2)</sup>, Tomoyo Osawa<sup>2)</sup>, Taio Naniwa<sup>2)</sup>, Sadakazu Torii<sup>1)</sup>, Hiroshi Sanji<sup>1)</sup>,  
Shigemitsu Ninomiya<sup>1)</sup> and Takeo Yoshinouchi<sup>1)</sup>

<sup>1)</sup>Department of Internal Medicine, Toyokawa City Hospital

<sup>2)</sup>Department of Rheumatology, Nagoya City University of Medicine

The airway tract involvement is known to be one of the most important prognostic factors in patients with relapsing polychondritis (RP). Sequential evaluations of airway tract involvements are necessary, however, the insertion of flexible bronchoscope into the affected airway tract may exacerbate their airway tract stenosis. Three-dimensional computed tomography (3D-CT) showed stenosis of the trachea and bilateral main bronchi in 2 patients with RP. 3D-CT is an effective non-invasive method for evaluating airway tract involvement in RP.