

CASE REPORT

安全な周術期管理を行えた 脊髄小脳変性症を合併した肺癌の1手術例

米井彰洋¹・森山裕一¹

A Surgical Case of Lung Cancer Complicated with Spinocerebellar Degeneration with Safe Perioperative Management

Akihiro Yonei¹; Hirokazu Moriyama¹

¹Department of Respiratory Surgery, Miyazaki Zenjinkai Hospital, Japan.

ABSTRACT — **Background.** Patients with spinocerebellar degeneration (SCD) may have stenosis of the glottis due to ablation of the vocal cords. Therefore, there is a risk that airway stenosis may appear and worsen after general anesthesia, and caution is required. **Case.** The patient was a 68-year-old male who developed SCD five years before his first visit. A nodule shadow was noted in the upper left lung field on preoperative chest X-ray for the left ingrown nail of our hospital orthopedic surgery. Bronchoscopy was performed, but no definitive diagnosis was made. However, because chest CT findings suggested lung adenocarcinoma, we planned a radical operation with an intraoperative diagnosis. Because a diagnosis of adenocarcinoma was obtained by a rapid needle biopsy during the operation, thoracoscopic left upper division segmentectomy was performed. Since vocal cord dysfunction in SCD cases carries a risk of sudden death after surgery, the preoperative evaluation of the disease type is important. In this case, we confirmed there to be no vocal cord movement disorder by bronchoscopy before and after surgery. **Conclusion.** In SCD patients, a careful perioperative airway evaluation during the perioperative period and measures for cannot ventilate and cannot intubate (CVCI) cases are considered crucial for safe perioperative management.

(JJLC. 2020;60:120-124)

KEY WORDS — Spinocerebellar degeneration, Primary lung cancer, General anesthesia, Separate lung ventilation

Corresponding author: Hirokazu Moriyama.

Received November 21, 2019; accepted January 22, 2020.

要旨 — **背景.** 脊髄小脳変性症 (spinocerebellar degeneration: SCD) 患者は、声帯の外転障害のため声門部が狭窄していることがある。そのため、全身麻酔後に気道狭窄症状が出現・増悪する危険性があり、注意が必要である。**症例.** 症例は68歳男性、当科初診5年前にSCDを発症した。当院整形外科の左母趾陥入爪に対する術前胸部単純X線写真で左上肺野に結節影が指摘され、当科紹介となり、気管支内視鏡検査を行ったが確定診断を得ることができなかった。しかし、胸部CT上は肺腺癌を強く疑うものであったため、術中診断を用いた根治術を計画した。術中迅速針生検で腺癌の診断を得たため、胸腔

鏡下左上大区切除術を施行した。SCD症例における声帯運動障害は術後の突然死のリスクとなるため、病型を把握した術前評価は重要であり、本症例も術前、および術後に気管支内視鏡にて声帯運動障害がないことを確認した。**結論.** SCD症例においても周術期における入念な気道評価を行い、CVCI (cannot ventilate and cannot intubate) 対策を講じれば、安全な周術期管理を行うことができると考えられた。

索引用語 — 脊髄小脳変性症, 原発性肺癌, 全身麻酔, 分離肺換気

¹宮崎善仁会病院呼吸器外科。
論文責任者: 森山裕一。

受付日: 2019年11月21日, 採択日: 2020年1月22日。

はじめに

脊髄小脳変性症 (spinocerebellar degeneration : SCD) は運動失調を主症状とする神経変性疾患の総称であり、本邦の有病率は10万人あたり18.6人と比較的頻度の高い神経疾患である。¹しかし、肺癌を合併した手術例の報告は非常に稀である。今回我々はSCDを合併した肺癌手術症例を経験した。

症 例

症例：68歳，男性。

主訴：胸部異常陰影。

既往歴：43歳時に胃癌に対し幽門側胃切除術，63歳時にSCDを発症，67歳時に左大腿骨頸部骨折に対し人工骨頭置換術（脊椎麻酔）を施行。

喫煙歴：非喫煙者。

現病歴：63歳時にSCDを発症し，当院関連施設で加療を受けていた。当科紹介2ヶ月前に左母趾陥入爪を発症し，治療目的に当院整形外科入院となった。局所麻酔下で手術を行われたが，その術前胸部単純X線で左上肺野に結節影を指摘され，当科紹介となった。

入院時現症：身長165cm，体重43.6kg，体温36.4℃，血圧152/83mmHg，心拍数63回/分，SpO₂(room)97%，心音整，心雑音聴取せず。呼吸音清，呼吸副雑音聴取せず。表在リンパ節触知せず。

入院時検査所見：腫瘍マーカー（CEA，SCC，SLX，シフラ，ProGRP）はいずれも正常範囲内であった。

胸部X線所見：左上肺野に比較的境界明瞭な15mm大の結節性陰影を認めた（Figure 1）。

胸部CT所見：左上葉に18mm大の結節を認めたが，有意なサイズのリンパ節腫大は認められなかった（Figure 2）。

PET CT所見：結節にSUV_{max} 9.3の集積を認め，悪性パターンであった。リンパ節転移，遠隔転移を疑わせる所見は認められなかった（Figure 3）。

気管支内視鏡検査：直視下に内腔の異常所見を認めなかった。B¹+2aより経気管支生検を施行したが，確定診断には至らなかった。なお，声帯運動障害については声帯固定，声帯外転麻痺ともに認められなかった（Figure 4）。

術式選択：胸腔鏡下に肺部分切除を行い，術中病理にて悪性所見が得られれば，術後の肺機能を考慮して左上大区切除を行う方針とした。

手術所見：術前精査の気管支内視鏡で声帯運動障害がないことは確認されていたが，改めて気管内挿管前にも声帯の動きを確認し，開大障害がないことを確認した。左側臥位，分離肺換気，良好な麻酔環境下で手術を行うことができた。計画通り，胸腔鏡下肺部分切除を行い，

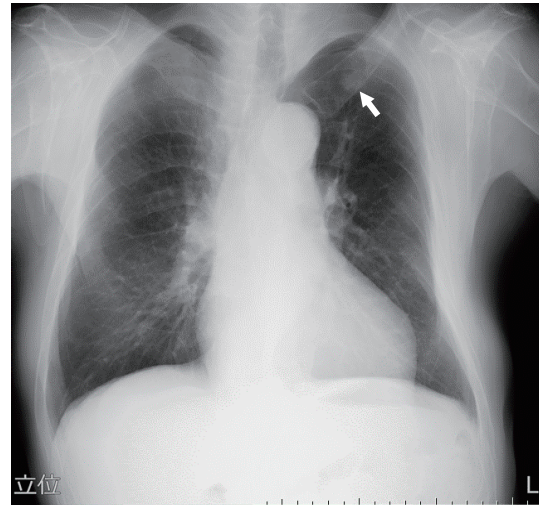


Figure 1. A chest radiograph shows a 15-mm mass shadow in the left upper lung field.

術中病理にて腺癌であることを確認し，左上大区切除を行った。抜管に際しては，緊急の輪状甲状靭帯切開セット，緊急の気管切開セットを準備し，CVCI (cannot ventilate and cannot intubate) の備えとした。抜管後はラリンジアルマスクに入れ替え，改めて声帯運動障害がないことを確認し，さらに左右亜区域支まで観察し，気管内吸痰を行った。呼吸抑制を考慮し，術中術後はフェンタニルを使用しなかった。

術後経過：術後肺痿を認め，術後5日目に胸腔ドレーン抜去となった。理学療法士による積極的な呼吸リハビリテーションを行った。術後7日目に左残存肺に術後肺炎を認め，6日間のタゾバクタム・ピペラシリンの投与を行い，肺炎は速やかに改善した。術後14日目に自宅退院となった。

考 察

SCDは，小脳を中心とし脳幹，脊髄あるいは大脳をおかす神経変性疾患であり，運動失調のほか，パーキンソンニズム，錐体路障害，末梢神経障害，認知症など様々な症候を呈する疾患群である。SCDのなかで遺伝する疾患の遺伝様式には常染色体優性遺伝，常染色体劣性遺伝，X連鎖性遺伝，ミトコンドリア遺伝が知られており，おのおのにおいて多くの病型が存在する。孤発性SCDは多系統萎縮症 (multiple system atrophy : MSA) と皮質性小脳萎縮症が主たるもので，ともに成年期以降に発症する。日本におけるSCDの有病率は人口10万人あたり18.6人と推定されており，そのうち約2/3が孤発性，1/3が家族性SCDである。¹SCDでは中枢性睡眠時無呼吸症候群，閉塞型睡眠時無呼吸症候群，声帯開大障害（声帯外転麻痺）などによる種々のタイプの呼吸障害を呈し

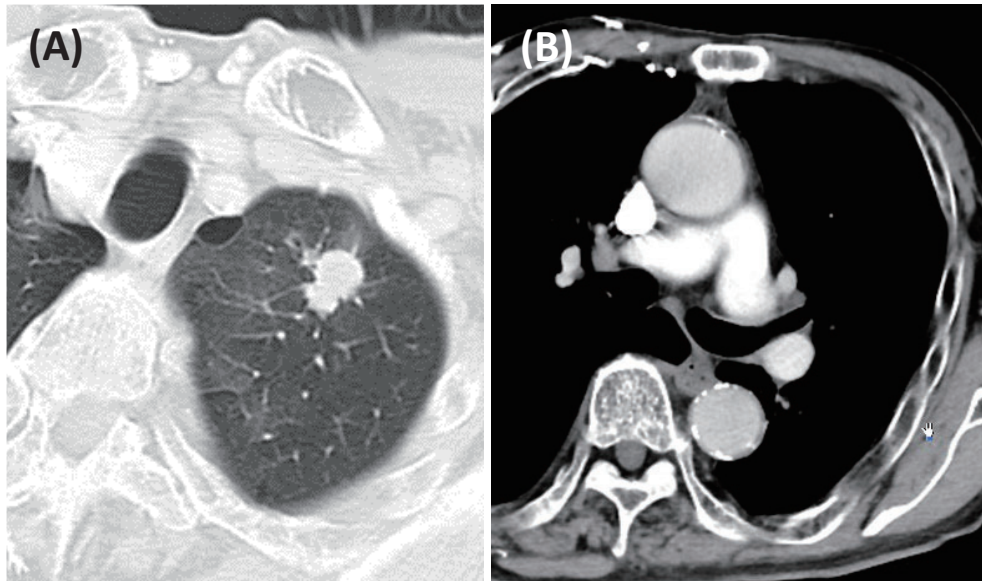


Figure 2. (A) A chest computed tomographic image showing a nodule in the left upper lobe (diameter: 18 mm). (B) No significant size lymphadenopathy was found.

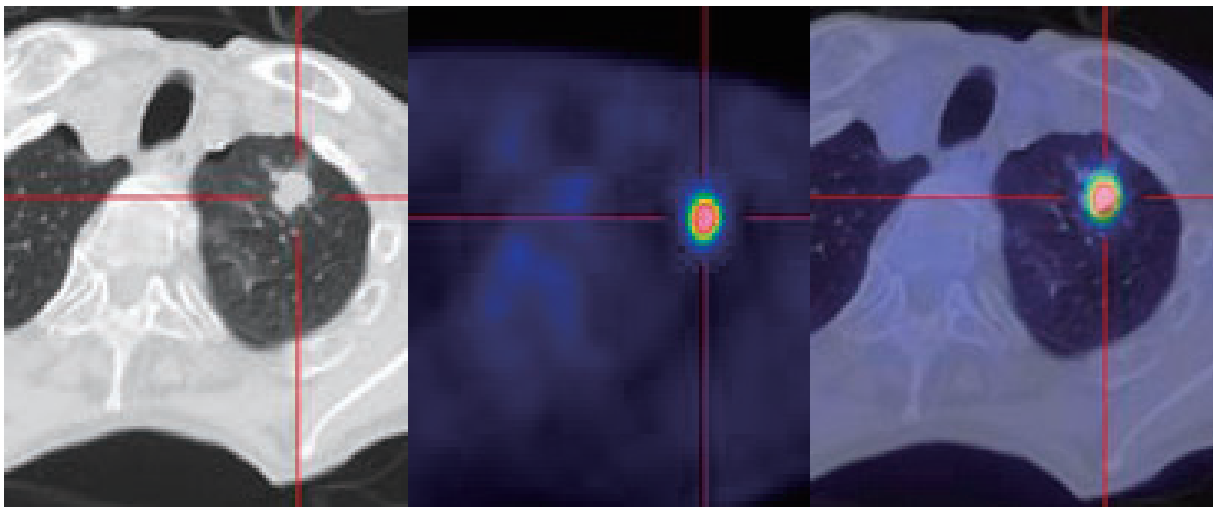


Figure 3. PET shows a mass with FDG accumulation ($SUV_{max}=9.3$) in the left upper lobe, as Figure 2 indicates.

うる。¹

睡眠時無呼吸の原因は、中枢性の肺胞低換気と上気道閉塞に分類される。中枢性肺胞低換気は、呼吸中枢や延髄・胸髄の前角細胞の障害によると考えられている。² 上気道閉塞は疑核により神経支配を受ける筋群の障害によるとされる。頻度は上気道閉塞が原因であることの方が多く、特に声帯運動障害が問題となるが、声帯より上の部位でも閉塞が起こりうる。舌根沈下や軟口蓋での狭窄のほか、披裂部や喉頭蓋レベルでは軟部組織の脆弱性による喉頭入口部での引き込みによって閉塞が生じうる。¹

声帯運動障害は、声帯固定と声帯外転麻痺に分類され

る。声帯固定は内喉頭筋群の核上性障害による筋緊張亢進によって生じる。また嚥下機能に関わる筋群も同様に障害されるため、同時に嚥下障害をきたしやすい。³ 声帯固定はファイバースコープで声帯の正中位固定として観察され、完全な正中位固定では気道狭窄となるが、声帯萎縮により気道スペースが保たれる場合もある。声帯外転麻痺は、唯一の声帯外転筋である後輪状披裂筋が疑核の神経細胞脱落による選択的な神経原性筋萎縮・麻痺により生じる。声帯の内転は可能だが、外転のみが制限され、発声は可能だが吸気の障害が生じ、特に睡眠時やベンゾジアゼピンによる鎮静時に悪化するとの報告がある。⁴ 術前のファイバースコープ観察で声帯外転麻痺や

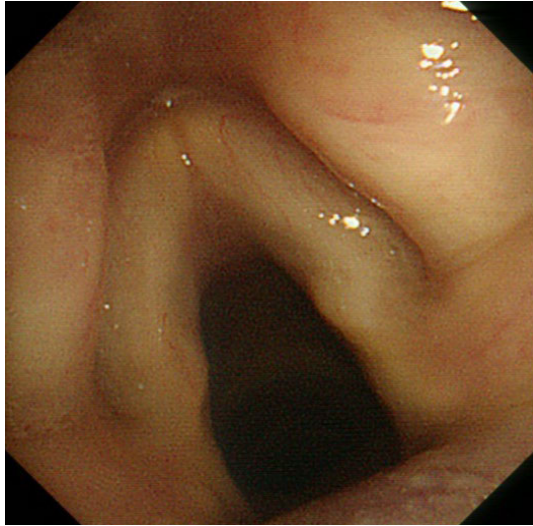


Figure 4. Regarding vocal cord movement disorder, neither vocal cord fixation nor vocal fold abduction paralysis was observed.

奇異性運動があれば、周術期の上気道狭窄のリスクが高いと考えられる。状況に応じて細径の気管チューブを準備する必要がある。⁵

同様に上気道が閉塞する病態として、喉頭痙攣がある。喉頭痙攣は、声帯を異物が刺激し上喉頭神経の刺激により起こるとされる。⁶ 上気道閉塞が発生した場合に両者の臨床的な鑑別は困難と考えられるが、喉頭痙攣では筋弛緩薬の投与で声門が開放する。⁵ 我々の症例においては術前の声帯運動障害はみられなかったため、通常の 35 Fr ダブルルーメンチューブを用いた。

SCD 患者に合併する睡眠時無呼吸は全身麻酔後に惹起・増悪されることが予想され、特に声帯運動障害は術後の突然死のリスクとなりうる。そのリスク因子としては術後に麻酔薬や筋弛緩薬が残存すること、オピオイドを使用することなどが挙げられる。⁷ 特に抜管直後は、麻酔薬やオピオイド、筋弛緩薬が最も残存していると考えられるため、ファイバースコープによる声帯運動障害を含めた上気道閉塞のリスク評価を行うべきである。我々の症例においては、まず、術前に診断目的の気管支内視鏡時に沈静下の声帯運動障害の有無を評価し、磯崎の Stage 分類⁴では覚醒時、睡眠時とも正常な声帯運動を示す Stage 0 と判断した。手術に際しては麻酔導入前に橈骨動脈ラインを確保し、麻酔導入中のモニタリングとした。さらに呼吸抑制を考慮し、術中、術後はフェンタニルを使用しなかった。また抜管に際しては、小西ら⁸が全身麻酔後に両側声帯外転麻痺が出現し、抜管困難となり、気管切開を行った MSA 症例を報告していたため、抜管直後の CVCI に備え、輪状甲状靭帯切開セット、緊急気

管切開セットをスタンバイした状態で抜管し、直ちにラリンジアルマスクに入れ替え、再度声帯の動きを観察し、開大障害がないことを確認した。また同時に患側、健側の気管支内視鏡による吸痰も行った。

SCD 患者の全身麻酔症例は稀で、医学中央雑誌で“脊髓小脳変性症”or“多系統萎縮症”or“Shy-Drager 症候群”and“全身麻酔”で検索したところ、46 報告、51 症例みられ、うち分離肺換気症例は 3 例報告されていた。笠島らは MSA を伴った直腸癌術後転移性肺腫瘍に対する肺部分切除症例を報告しているが、全身麻酔下肺切除による気道分泌物の増加と喀出障害、開胸に伴う呼吸筋の筋力低下、中枢性呼吸障害による睡眠呼吸障害など多岐にわたる原因により、術後急性呼吸不全に陥り、20 日間にわたる人工呼吸器管理の必要が生じたと報告している。⁹ 一方で、重松らはシャイ・ドレーガー症候群の肺腺癌に対する右肺部分切除症例¹⁰を、Nishiyama らは遺伝性 SCD の左気胸に対する胸腔鏡下左肺部分切除症例¹¹を報告しており、いずれも安全な周術期管理が行えていた。

SCD に対する全身麻酔に関して症例報告例はあるが、麻酔管理に定まったものはない。SCD の球麻痺による喉頭筋群の機能低下から周術期に誤嚥をきたす可能性があることが報告されている。¹² このため、調節性に優れ、制吐作用、抗痙攣作用があり、脳代謝減少効果が期待できるといわれているプロポフォールを麻酔管理に用いた症例が多い。また、SCD では肥大型心筋症などの心筋障害の合併があることから循環動態の急激な変動には注意が必要である。¹³ このため我々は麻酔導入前に橈骨動脈ラインを挿入し、リアルタイムに血行動態をモニタリングするとともに、循環動態を安定させ、調節性に優れるレミフェンタニルとプロポフォールを麻酔維持に用いた。レミフェンタニルは半減期が短く、長時間使用しても蓄積がないことから、術当日の人工呼吸器離脱に有利である。

当施設には常備がなかったため用いることができなかったが、田中らは筋弛緩モニターを用い、その程度の判定に眼輪筋や顔面筋などあまり障害を受けない部位でモニタリングをすべきと報告している。¹⁴

本症例では術前に自律神経症状を認めず、術後も循環動態の急激な変動や昇圧薬に対する異常反応も認めなかった。しかし、潜在化した自律神経系の調節異常も報告されているため、十分な注意が必要である。¹⁵

最後に、SCD には非常に多くの病型が存在しており、その予後、自然経過も様々である。前述の通り、SCD の 2/3 は孤発性 SCD で、1/3 が家族性 SCD である。孤発性 SCD の 2/3 は MSA であり、他の SCD やパーキンソン病よりも進行が速く、特に早期から排尿障害や声帯運動障害が顕在化した症例の進行が速いことが知られている。発症から介助歩行・車椅子移動・寝たきり状態・死

亡に至る期間の中央値は、それぞれ3年・5年・8年・9年と報告されている。家族性SCDの90%は常染色体優性遺伝であり、MSAと比較すると進行は緩徐で発症時点から車椅子が必要になるまでの期間の中央値は24年で、車椅子が必要になった年齢の中央値は77歳とされている。¹ おおのの病型の予後を把握し、指摘された肺癌の病期診断とその予後のバランスで手術適応を決定することが重要であり、また可能であれば、縮小手術を選択することも重要かもしれない。

術前の声帯運動障害の程度を評価し、適切なチューブサイズを選択し、かつCVCIの対策、および急激な循環動態の変化に対応できる準備を万全に講じていれば、SCD症例でも安全な周術期管理が可能と考える。

結語

SCD患者の肺癌手術症例を経験した。入念な周術期管理を行えば、安全な周術管理が可能と考える。

本論文内容に関連する著者の利益相反：なし

本論文の要旨は第60回日本肺癌学会学術集会にて発表した。

REFERENCES

1. 水澤英洋, 佐々木秀直, 池田佳生, 石川欽也, 伊藤瑞規, 小野寺理, 他. 脊髄小脳変性症・多系統萎縮症診療ガイドライン(2018年版). 日本神経学会・厚生労働省; 2018. https://www.neurology-jp.org/guidelinem/sd_mst/sd_mst_2018.pdf.
2. 瀬嶋尊之, 石井甲介, 小川朋子, 田中秀隆, 市村恵一. オリーブ橋小脳萎縮症に合併した睡眠時無呼吸症候群の1例. 日気食会報. 2000;51:257-261.
3. 上羽瑠美, 内藤理恵, 渡辺由季, 渡辺剛士, 内藤 玲, 山嵜達也. 両側声帯麻痺をきたした多系統萎縮症症例の検討 声帯麻痺と嚥下機能との関連, MSA-CとMSA-Pに分類した検討. 嚥下医学. 2012;1:169-177.
4. 磯崎英治. 多系統萎縮症の治療計画 声帯外転麻痺の早期診断, ステージ分類及び治療. 神経治療. 1996;13:249-255.
5. 酒井一介, 澄川耕二. 脊髄小脳変性症患者の気管喉頭分離術の麻酔経験. 日臨麻会誌. 2008;28:470-473.
6. John VD Jr, John D, Marc AF. 眼科, 耳鼻咽喉科の麻酔. Miller RD, 編集. ミラー麻酔科学. 第6版(日本語版). 東京:メディカル・サイエンス・インターナショナル; 2007:1965.
7. 山東みな実, 河村三千香, 大島博人, 太田宗一郎, 飯田宏樹. 抜管後に声帯観察を行うことで安全に気道管理を行えた脊髄小脳変性症の2例. 日臨麻会誌. 2017;37:176-180.
8. 小西華子, 溝田敏幸, 福田和彦. 多系統萎縮症患者における全身麻酔後両側声帯外転麻痺の1症例. 麻酔. 2015;64:651-654.
9. 笠島裕明, 岩崎輝夫, 藤井 眞, 森本芳和, 弓場健義, 山崎芳郎. 多系統萎縮症を伴い術後呼吸管理に苦慮した直腸癌術後転移性肺腫瘍の1例. 日臨外会誌. 2012;73:2782-2786.
10. 重松研二, 生野慎二郎, 濱田孝光, 比嘉和夫. シャイ・ドレーガー症候群患者の麻酔経験. 麻酔. 2005;54:788-790.
11. Nishiyama K, Sakaguchi Y, Sato T, Kodaka M, Nishimura Y, Komori M. Improvement of postoperative atelectasis in response to biphasic cuirass ventilation in a patient who was receiving noninvasive positive pressure ventilation at home. 日集中医誌. 2012;19:247-248.
12. 磯崎英治, 宮本和人, 小山内竜一, 林田哲郎, 田邊 等. 両側声帯麻痺を合併した多系統萎縮症(MSA)23例における臨床的検討. 臨神経. 1991;31:249-254.
13. 岡田修一, 金子達夫, 志賀達哉, 江連雅彦, 佐藤泰史, 長谷川豊, 他. 脊髄小脳変性症に合併した大動脈弁輪拡張症の1例. 循環制御. 2009;30:38-40.
14. 田中 悟, 岩崎 寛, 並木昭義. 脊髄小脳変性症の麻酔経験—とくに筋弛緩測定部位の問題点—. 麻酔. 1994;43:250-252.
15. 須貝勝平, 須貝順子, 青木裕司, 松島有里. 覚醒時房室ブロックを起こした脊髄小脳変性症の麻酔経験. 麻酔. 1990;39:1397-1401.