

●症 例

治療反応性に乏しい喘鳴と慢性咳嗽の原因が食道アカラシアであった1例

平井 邦朗^{a,b} 小田 成人^a 五藤 哲^c 村上 雅彦^c 相良 博典^b

要旨：症例は17歳，男性．喘鳴と慢性咳嗽を主訴に近医を受診し喘息と診断された．約1年間吸入ステロイド薬/吸入長時間作用性 β_2 刺激薬配合剤による治療が行われたが，反応性に乏しいため山梨赤十字病院に紹介受診した．胸部X線撮影とスパイロメトリーから器質的な気道狭窄が疑われ，精査の結果食道アカラシアと診断，外科的手術療法により喘鳴と咳嗽は消失した．食道アカラシアは呼吸器症状を引き起こしうる疾患であり，治療反応性に乏しい患者を診療した際には食道アカラシアを鑑別疾患として考える必要がある．

キーワード：食道アカラシア，気管支喘息，慢性咳嗽，喘鳴，呼吸機能検査

Esophageal achalasia, Bronchial asthma, Chronic cough, Wheeze, Lung function test

緒 言

食道アカラシアは消化器症状以外に呼吸器症状を呈しうる疾患¹⁾であるが，その有病率の低さや呼吸器疾患ではないことから喘鳴や咳嗽の鑑別疾患に挙がりにくい²⁾．食道アカラシアは喘息や逆流性食道炎と診断されうるだけでなく³⁾，誤嚥性肺炎や慢性咳嗽の原因にもなりうる^{4)~6)}．さらに，食道アカラシアの診断の遅れは患者のQOLを著しく低下させ，時に致命的な状態になる^{7)~9)}．今回我々は，治療反応性の乏しい呼吸器症状を認めた場合，食道アカラシアを喘息診療におけるピットフォールとして認識しておく必要性と，胸部X線撮影やスパイロメトリーが本疾患を疑う契機となることを経験したので報告する．

症 例

患者：17歳，男性．
主訴：慢性咳嗽，喘鳴．
既往歴：小児喘息，通年性アレルギー性鼻炎．
家族歴：特記事項なし．
喫煙歴：なし．

現病歴：10歳で喘息と診断され治療を受けていたが，症状の消失により通院を自己中断していた．12歳から嚥下時の違和感を自覚し麺類を好んで摂取していた．食後の胸焼けも自覚していたため上部消化管内視鏡検査を受けたが異常所見は指摘されなかった．16歳時に再度，咳嗽と喘鳴を認めたため喘息の診断でサルメテロールキシナホ酸塩/フルチカゾンプロピオン酸エステル配合吸入薬 (salmeterol xinafoate/fluticasone propionate) の中用量と，モンテルカスト (montelukast) 10 mg/日による治療が開始された．約1年間の治療を継続したが症状の改善に乏しいため当院を紹介受診した．

入院時現症：身長170 cm，体重43 kg，body mass index (BMI) 14.8 kg/m²，血圧102/54 mmHg，脈拍103回/min，体温35.8℃，動脈血酸素飽和度 (SpO₂) 97% (室内気)，意識清明．眼球結膜，眼瞼結膜に貧血や黄疸なし．胸部聴診所見で強制呼気時に両肺野でwheezeを聴取．心雑音は聴取しない．腹部は平坦，軟．皮膚に異常所見なし．四肢に浮腫を認めない．神経学的異常所見なし．

入院時検査所見：特異的IgE (MAST33 アレルゲン) はダニ，ハウスダスト，スギ，ヒノキに陽性．血清IgEは高値を認めた．その他の検査結果で有意な異常所見は認めなかった (表1)．

初診時スパイロメトリー：FEV₁/FVC×100が51.5%と低値であった (表2)．フローボリューム曲線では呼気中期にプラトー形成を認めた (図1a)．

入院時画像所見：胸部X線写真で上縦隔の拡大を認めた (図2a)．胸部単純CTでは食道内に大量の残渣と食道拡張による圧排性の気管偏位および狭窄を認めた (図3a)．食道造影X線撮影では食道の拡張と，造影剤の

連絡先：小田 成人
〒401-0301 山梨県南都留郡富士河口湖町船津 6663-1
^a山梨赤十字病院内科呼吸器内科
^b昭和大学医学部内科学講座呼吸器アレルギー内科学部門
^c同 消化器・一般外科
(E-mail: akihikoshw@gmail.com)
(Received 6 Feb 2016/Accepted 20 Jun 2016)

表1 入院時血液検査所見

血算		生化学		血清	
WBC	4,190/ μ l	TP	7.4 g/dl	CRP	0.07 mg/dl
Neut	32.3%	ALB	4.7 g/dl	IgE	515 IU/ml
Lym	55.1%	T-Bil	0.85 mg/dl	MAST33	
Mon	7.6%	AST	15 IU/L	ハウスダスト	class 6
Eos	2.9%	ALT	8 IU/L	スギ	class 5
Bas	2.1%	LDH	172 IU/L	コナヒョウヒダニ	class 4
RBC	498×10^3 / μ l	BUN	7.8 mg/dl	ヒノキ	class 3
Hb	14.4 g/dl	Cr	0.67 mg/dl	その他の特異的 IgE	class 0
Ht	43.2%	UA	5.4 mg/dl		
Plt	26.3×10^3 / μ l	Na	142 mEq/L		
		K	3.5 mEq/L		
		Cl	105 mEq/L		
		Glu	88 mg/dl		

表2 初診時と手術後のスパイロメトリー

	初診時	手術後
VC (L)	3.95	4.41
%VC (%)	95.8	100.9
FVC (L)	3.63	4.34
FEV ₁ (L)	1.87	3.83
%FEV ₁ (%)	54.3	95.1
FEV ₁ /FVC×100 (%)	51.5	88.2
PEF (L/s)	2.89	7.97
V ₅₀ (L/s)	1.65	3.99
V ₂₅ (L/s)	0.89	2.45

FEV₁/FVC×100やPEFの低下を認めており、閉塞性換気障害を示唆する値である。術後スパイロメトリー：正常範囲内の実測値まで改善を認めた。

食道内停留と食道胃接合部の平滑な狭小像を認めた。

臨床経過：食道造影検査により食道アカラシアと確定診断した。患者の希望も考慮し、腹腔鏡下に Heller & Dor 手術を行った。術後、呼吸困難感の訴えや喘鳴、咳嗽は速やかに消失し、胸部X線写真では上縦隔の拡大が消失し（図2b）、胸部単純CTで食道の拡張所見と気管の圧排所見の改善を認めた（図3b）。フローボリューム曲線では呼気時のプラトーはなくなり FEV₁/FVC×100 は正常化した（表2, 図1b）。さらには体重増加不良や食欲不振などの消化器症状も著明に改善した。

考 察

本症例は5年前から消化器症状を認めていたが、上部消化管内視鏡検査で異常を認めなかったため消化器疾患は否定的と考えられていた。前医で胸部X線写真上の異常は指摘されていなかったが、上縦隔の拡大は軽度であったため、縦隔病変として指摘しがたい画像所見で

あった。小児喘息の既往やMAST33と総IgE値の結果に加え、呼吸機能検査でもFEV₁/FVC×100が51.5%と著明な低値を認めていたことや呼気時の喘鳴所見から気管支喘息単独の病態と診断されやすい経過であった。聴診所見で、呼気時のみ喘鳴を聴取した理由は、本症例では上気道が圧排されていなかったため吸気時喘鳴を認めなかったと考える。一方で上気道の狭窄を認めた食道アカラシアの症例報告では吸気性喘鳴を認めており¹⁾、食道アカラシア患者では身体所見に多様性があることに留意が必要である。

我々は術後に気道可逆性試験と呼気一酸化窒素濃度測定を行った。気道可逆性は認めなかったが呼気一酸化窒素は48ppbと高値であった。以上から、術前の呼吸器症状の原因として、拡張した食道が気管を圧排していたことに加え、食道アカラシアによる逆流性食道炎や気管の圧排により気管支喘息が増悪していた可能性がある。このように食道アカラシアは呼吸器のさまざまな病態と密に関わりうる疾患である。

本症例以外にも、食道アカラシアを喘息や逆流性食道炎と診断され治療で改善を認めなかった症例報告¹⁰⁾など、国内外で呼吸器症状を有する食道アカラシアの症例報告が散見される。また、拡張した食道が気道を閉塞することにより致死的な呼吸不全をきたす場合があるため早期の診断がきわめて重要である^{6)~8)}。

しかし、我が国の喘息や慢性咳嗽のガイドラインには鑑別疾患としての食道アカラシアの記載はなく¹¹⁾¹²⁾、治療反応性に乏しい喘息症状や慢性咳嗽を呈する患者を診療した際に、同疾患を鑑別に挙げることは難しい。また、本症例のように上部消化管内視鏡検査のみでは食道アカラシアと診断できない症例もあり、診断の遅れの原因となる。

本症例における食道アカラシアの診断には、呼吸機能

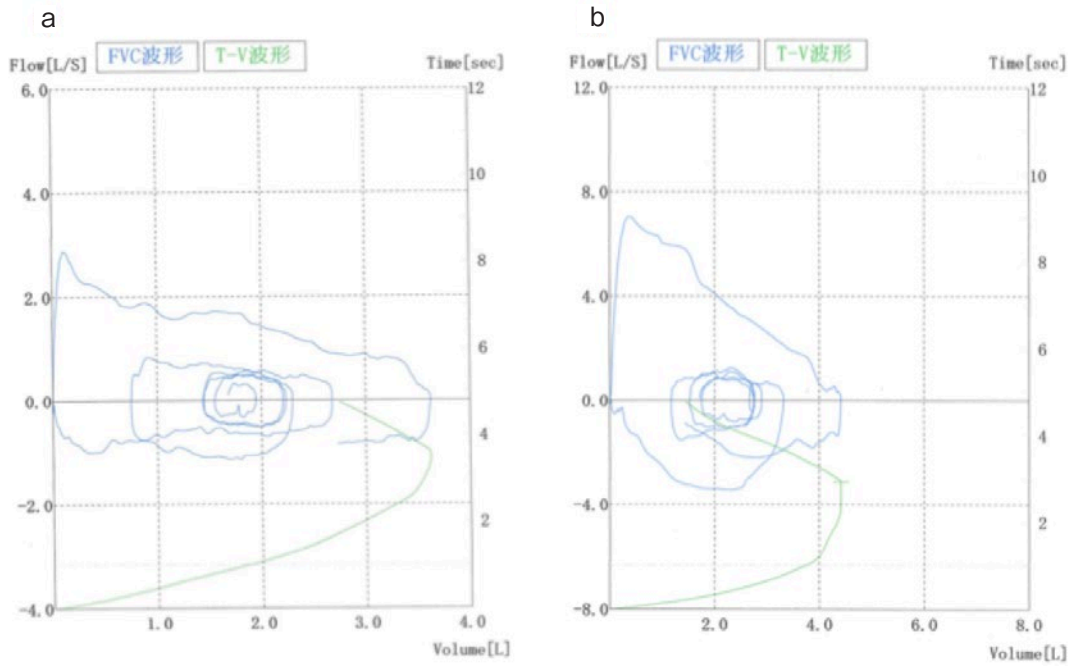


図1 フローボリューム曲線。(a) 初診時. 呼気中期にプラトー形成を認め、波形から胸腔内病変による気道狭窄が鑑別に挙がる。(b) 術後. 呼気におけるプラトーは消失しており、正常な波形になっている。

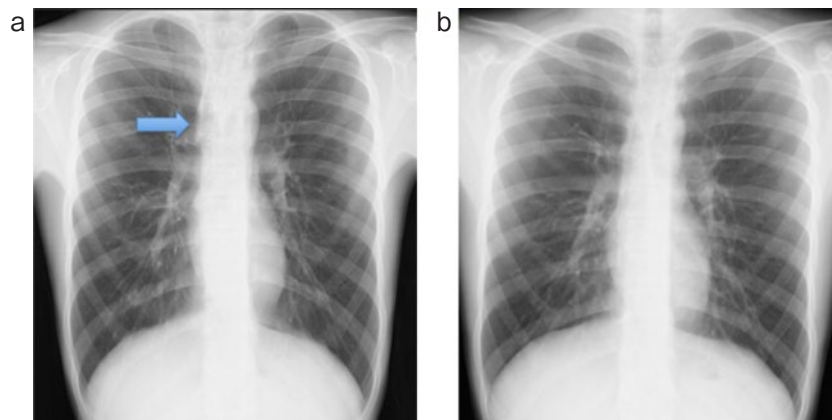


図2 胸部X線写真。(a) 初診時. 上縦隔の拡大を認める。(2) 術後. 術前に認められていた上縦隔の陰影は消失している。

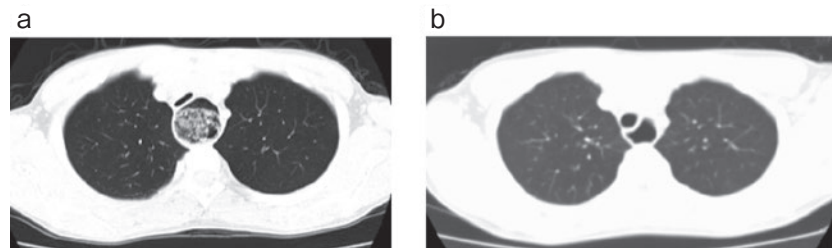


図3 胸部単純CT。(a) 初診時. 食道内に大量の残渣と食道拡張による圧排性の気管偏位および狭窄を認める。(b) 術後. 食道内の残渣や食道拡張が消失し、気管の圧排所見が改善している。

検査と胸部画像検査が有用であった。一般に上気道閉塞ではフローボリューム曲線でプラトーを形成する。特に初期～中期にかけてのプラトー形成のパターンを示すものとしては胸腔内可変性狭窄疾患が代表的である。本症例においても上記と同様のフローボリューム曲線の所見を示し、胸部X線撮影上、上縦隔の拡大所見を認めたことから胸腔内疾患を疑い、胸部CTを実施した。

縦隔内病変が気道を圧排する場合、病変は気道周囲に存在するため胸部X線撮影のみでは病変を特定できないことがある。治療反応性に乏しい喘息と診断される症例のなかには、本症例のように胸腔内疾患が潜在している可能性があり、胸部CTによる積極的な原因検索を行うことが望ましい。実際、呼吸器症状を呈する食道アカラシアは胸部CTにより異常所見が明らかとなることから、胸部CTによる評価が有用である可能性が報告されている¹³⁾。

一方、胸部CTは被曝や費用の観点から、呼吸器症状と消化器症状が併存するすべての患者に対して行うことは現実的ではない。今回我々は、比較的侵襲性の低いスパイロメトリーや胸部X線撮影などの検査結果を正確に判断することで、胸腔内疾患の存在を強く疑うことが可能であった。すなわち、これらの検査結果の正確な解釈が食道アカラシアを中心とした胸腔内疾患の潜在を疑う契機となることが示唆される。また、消化器症状と呼吸器症状を併存する症例や治療反応性の乏しい呼吸器症状を呈する症例を診療する際は、胸部X線撮影での縦隔拡大や特徴的なフローボリューム曲線に着目することにより胸部CTを実施することの妥当性を高められると考える。

本論文の要旨は、第215回日本呼吸器学会関東地方会(2015年7月、東京)において発表した。

著者のCOI (conflicts of interest) 開示：本論文発表内容に関して特に申告なし。

引用文献

- 1) Al-Abdoulislam T, et al. An 11-year-old male patient with refractory asthma and heartburn. *Can Respir J* 2011; 18: 81-3.
- 2) 日本食道学会. 食道アカラシア取扱い規約第4版. 2012; 3.
- 3) Kwon HY, et al. A case of chronic cough caused by achalasia misconceived as gastroesophageal reflux disease. *Allergy Asthma Immunol Res* 2014; 6: 573-6.
- 4) 平田正弘, 他. 食道アカラシアによって繰り返された誤嚥性肺炎の1例. *日呼吸会誌* 2002; 40: 149-53.
- 5) Mehdi NF, et al. Achalasia: unusual cause of chronic cough in children. *Cough* 2008; 4: 6.
- 6) Al-Habbal Y, et al. Cough from megaesophagus. *Aust Fam Physician* 2011; 40: 299-300.
- 7) Miyamoto S, et al. Acute airway obstruction in a patient with achalasia. *Intern Med* 2011; 50: 2333-6.
- 8) Giustra PE, et al. Acute stridor in achalasia of the esophagus (cardiospasm). *Am J Gastroenterol* 1973; 60: 160-4.
- 9) 村松朋子, 他. 気道閉塞と心臓圧排を来した食道アカラシアの1例. *日救急医会誌* 2011; 49: 44-8.
- 10) Aydın Ö, et al. Oesophageal achalasia misdiagnosed as uncontrolled asthma. *Tuberk Toraks* 2013; 61: 147-51.
- 11) 日本アレルギー学会喘息ガイドライン専門部会. 喘息予防・管理ガイドライン2015. 2015; 3-16.
- 12) 日本呼吸器学会 咳嗽に関するガイドライン第2版作成委員会. 咳嗽に関するガイドライン第2版. 2012; 7-11.
- 13) Doshi AH, et al. Cervical tracheal compression in a patient with achalasia: an uncommon event. *AJNR Am J Neuroradiol* 2009; 30: 813-4.

Abstract**A case in which the cause of asthma symptoms with poor treatment response was identified as esophageal achalasia**Kuniaki Hirai^{a,b}, Naruhito Oda^a, Tetsu Goto^c, Masahiko Murakami^c and Hironori Sagara^b^aDivision of Respiratory Medicine, Department of Medicine, Yamanashi Red Cross Hospital^bDivision of Respiratory Medicine and Allergology, Department of Medicine, Showa University School of Medicine^cDepartment of Gastroenterological and General Surgery, Showa University School of Medicine

A 17-year-old boy who suffered from wheeze and chronic cough visited a clinic and was diagnosed as having bronchial asthma. He was treated with a combination preparation of inhaled corticosteroid and long-acting β_2 agonist for a year. However, there was no response to these treatments, and he was then referred to the Yamanashi Red Cross Hospital. Organic airway narrowing was suspected from the results of a chest X-ray and spirometry. He was diagnosed as esophageal achalasia. After surgical operation, the wheeze and chronic cough associated with airway obstruction were completely improved. Esophageal achalasia can cause respiratory signs. Therefore, we should remember this disorder when we examine a patient with respiratory symptoms refractory to the medications.