

●原 著●

## 小児集中治療室患者における気管切開の気道予後

和田宗一郎・金沢貴保・小林 匡・佐藤光則・富田健太朗・川崎達也

キーワード：気管切開，カニューレ抜去，喉頭気管分離，小児集中治療室

## 要 旨

目的：小児集中治療室（pediatric intensive care unit : PICU）患者の気管切開症例の気道予後と気管切開時因子の関連を検討する。

方法：当施設の気管切開症例を基礎疾患の有無、適応の病変部位で群別し、後のカニューレ抜去と喉頭気管分離の発生率を比較した。さらに多変量解析により気道予後と関連する因子を検討した。

結果：対象は85例で、カニューレ抜去が15例（18%）、喉頭気管分離が11例（13%）に行われた。カニューレ抜去率は基礎疾患のない群で有意に高かったが、病変部位で差はなかった。多変量解析では、気管切開時の月齢、気管挿管日数、基礎疾患の有無と後のカニューレ抜去に関連を認めた。喉頭気管分離施行率は基礎疾患の有無、病変部位で差はなく、背景因子の関連もなかった。

結論：PICU入室中の気管切開例のカニューレ抜去率は18%で、月齢、気管挿管日数、基礎疾患の有無と関連した。喉頭気管分離施行率は13%で、背景因子とは関連がなかった。

## I. はじめに

小児集中治療室（pediatric intensive care unit : PICU）で加療中の患者において、気管切開は呼吸器離脱困難や上気道狭窄を適応として数多く行われる手技の1つである。気管切開症例のうち、その適応病態の改善したものは、カニューレ抜去を経て自然気道での生活復帰が可能となる。他方、適応病態の改善が得られない場合はカニューレ留置継続が必要となり、その中には、誤嚥の反復を理由に喉頭気管分離を目的とした再手術を要するものがある。この場合は永久気管瘻作成を伴い、その後の自然気道復帰は原則として行われない。このように気管切開後の気道予後は症例により大きく異なる。

気管切開には計画外カニューレ抜去、気管内出血、

肉芽による閉塞など致死的な経過を取りうる慢性期合併症が存在する。また、小児気管切開は患児の生活や発達<sup>1)</sup>のみならず、養育者の社会生活<sup>2)</sup>へも影響を及ぼす。こうした背景から、多くの患者や家族はカニューレ抜去、自然気道復帰を望み、気管切開の必要性を患者や家族へ提示する際には長期的な気道予後についての説明を求められる。

小児気管切開後の気道予後についての報告は複数存在するが、大部分は小児患者全体を対象とし、さらに報告の時代や地域により大きく結果が異なる<sup>3~12)</sup>。そのため、主に急性期重症患者を診療するPICU患者へ既報を外挿するには限界があり、気道予後について説明を求める患者、家族に具体的な数字を提示することは困難である。そこで我々は、PICU入室患者における気管切開症例の気道予後を調査し、気管切開時の因子との関連を検討する後方視的な観察研究を計画した。

静岡県立こども病院 小児集中治療科  
[受付日：2017年9月11日 採択日：2018年2月13日]

## II. 対象と方法

### 1. 研究デザイン

本研究は PICU 入室患者における小児気管切開症例の気道予後を検討した単施設後向きコホート研究である。本研究は院内倫理委員会で審査され承認を受けた。

### 2. 対象施設、対象期間、対象症例

当院 PICU は 2007 年 10 月に開設され、内因系、外因系を問わず、年間約 500 例の入室がある。入退室をはじめとする診療上の指示を常駐の集中治療医が行う、いわゆる closed ICU である。院内には別に循環器集中治療室と新生児集中治療室が存在するため、開心術後症例や未熟児症例は原則として扱わない。

気管切開の施行は原則として症例ごとに診療チームで有益性を検討し、家族からインフォームドコンセントを取得して行う。緊急症例以外は全例を手術室で行い、全身麻酔下に気管軟骨縦切開法が施行される。

カニューレ抜去の要件やその手順について明文化された基準はない。観察期間内の症例は基礎疾患や身体活動度によらず、多職種によりカニューレ抜去の可否が随時検討される。カニューレ抜去は気管切開適応病態の改善を前提とし、気道開通、人工呼吸離脱、安全な嚥下を要件とする。カニューレの長期留置例では、気管切開チューブ孔の閉鎖訓練やスピーチカニューレを用いた段階的抜去を行う場合がある。また、気管肉芽に対する切除術や喉頭軟化症に対する喉頭形成術など、外科的介入後にカニューレ抜去を検討する症例がある。

喉頭気管分離は、治療抵抗性で反復する誤嚥性肺炎に対して行われる。

対象期間は 2007 年 10 月（当 PICU 開設時）から、2015 年 6 月までの 7 年 9 カ月である。対象症例は PICU 加療中に気管切開が行われた症例とし、気管切開が当施設以外で決定された症例は除外した。気管切開を経ずに喉頭気管分離が行われた症例も除外した。

### 3. データ収集と定義

データ収集は診療録を用いて行った。独立変数として「基礎疾患の有無」「気管切開の適応となった病変部位」を、従属変数として「気道予後」を調査し、その関連を検討した。また、背景因子として、気管切開時

の月齢、性別、気管切開までの気管挿管日数を収集した。

基礎疾患は、進行性または固定性の神経筋疾患、奇形症候群、染色体異常と定義し、いずれかを PICU 入室前より有する症例を「基礎疾患あり」と分類した。病変部位は、アメリカ心臓学会の提唱する Pediatric Advanced Life Support (PALS) の呼吸障害の部位診断<sup>13)</sup>をもとにして「上気道」「下気道・肺実質」「呼吸調節」の 3 群に分類した。本分類では上気道は胸郭外気道、下気道は胸郭内気道と定義される。気道予後は最終観察日の状態によって「気管切開維持」「カニューレ抜去」「喉頭気管分離」の 3 群に分類した。

### 4. 統計

まず、カニューレ抜去と喉頭気管分離について気管切開施行日を起算日とする累積発生曲線を図示した。次に、カニューレ抜去と喉頭気管分離それぞれについて独立変数で群別化し、累積発生率を群間で比較した。また、背景因子を含めた多変量解析により、気道予後と関連する因子の抽出を試みた。カニューレ抜去と喉頭気管分離は競合するイベントであり、一方のイベント発生後には他方のイベントは発生しない。こうした競合イベントの検定のため、群間比較に Gray 検定を、多変量解析に Fine-Gray の比例ハザード回帰を用いた。多変量解析の変数選択は p 値によるステップワイズ法を用い、選択された変数のハザード比を算出した。

連続変数は全て非正規分布であり、中央値と四分位値 (IQR) で表した。連続変数の 2 群間比較は Mann-Whitney U 検定、3 群間比較は Kruskal-Wallis 検定、名義変数の群間比較は Fisher 正確検定を用いた。

統計解析には EZR を使用した。EZR は R および R コマンダーの機能を拡張した統計ソフトウェアであり、自治医科大学附属さいたま医療センターのホームページで無償配布されている<sup>14,15)</sup>。

## III. 結 果

Table 1 に症例の概要と背景因子を示した。対象は 85 例で、月齢の中央値は 8 (2~77) カ月、男児が 61% を占めていた。気管切開までの気管挿管日数の中央値は 12 (4~26) 日だった。

基礎疾患を有する症例は全体の 47% で、基礎疾患のない群と背景因子に差はなかった。適応病態の病変部

Table 1 Patient characteristics

	Total	Underlying conditions			Indication for tracheostomy			
		+	-	p	Upper airway	Lower airway/Lung parenchyma	control of breathing	p
n (%)	85	40 (47)	45 (53)		40 (47)	14 (16)	31 (36)	
Age (months, median) (IQR)	8 (2~77)	7.5 (2~46)	9 (2~86)	0.805	5.5 (1~32)	3.0 (1~11)	33 (5~112)	0.028
Sex (male) (%)	51 (61)	22 (55)	30 (45)	0.373	26 (65)	11 (79)	15 (48)	0.149
Intubation period (days, median) (IQR)	12 (4~26)	10 (4~28)	12 (5~26)	0.44	6 (2~13)	28.5 (9~41)	18 (11~36)	0.006

Table 2 Details of underlying conditions

<b>Neurological disorder</b>	19	<b>Congenital malformation</b>	12
Cerebral palsy	9	Pierre Robin sequence	2
Intractable epilepsy	4	Cornelia de Lange syndrome	2
Chiari malformation	3	CHARGE association	2
Others	3	Craniosynostosis	2
		Others	4
<b>Muscular disease</b>	2	<b>Chromosomal aberration</b>	7
Congenital myopathy	1	Trisomy 21	2
Muscular dystrophy	1	Others	5

Table 3 Details of indication for tracheostomy

Upper airway * (n = 40)	Lower airway/ Lung parenchyma (n = 14)	Control of breathing (n = 31)			
Craniofacial anomalies	11	Tracheobronchomalacia	10	Central apnea	15
Subglottic stenosis	10	Pulmonary hypoplasia	2	Status epilepticus	10
Laryngomalacia	9	Mediastinal tumor	1	Impaired airway protection	6
Vocal cord paralysis	7	Tracheoesophageal fistula	1		
Glossoptosis	5				
Facial trauma	3				
Head and neck tumor	3				
Asphyxia	2				
Undiagnosed	1				

\* There is some overlapping

位は上気道が47%、下気道・肺実質が16%、呼吸調節が36%で、背景因子のうち月齢と気管挿管日数に有意な群間差を認めた。Table 2に基礎疾患、Table 3に気管切開の適応となった診断名の内訳を示した。

Fig. 1にカニューレ抜去と喉頭気管分離について、気管切開術施行日を起点とした累積発生曲線を示した。観察期間の中央値は666(385~1,313)日で、カニューレ抜去は15例(18%)、喉頭気管分離は11例(13%)で行われた。イベントまでの日数の中央値は、カニューレ抜去までが214(72~365)日、喉頭気管分離までが343(279~498)日だった。

Fig. 2にカニューレ抜去についての群別累積発生率を示した。カニューレ抜去は基礎疾患のない群で有意に多かった( $p < 0.01$ )が、適応病態の病変部位とは関連を認めなかった( $p = 0.54$ )。背景因子(気管切開時月齢、性別、気管挿管日数)と各独立変数(基礎疾患の有無、気管切開の適応病変)を投入した多変量解析の結果、気管切開時の月齢、気管挿管日数、基礎疾患の有無の3変数が最終的に選択され、カニューレ抜去と有意な関連を認めた(Table 4)。

Fig. 3に喉頭気管分離についての群別累積発生曲線を示す。喉頭気管分離の施行と気管切開時の基礎疾患の

有無、適応病態の病変部位には関連がなく、背景因子を投入した多変量解析では全ての変数がステップワイズ法により除外された。

観察期間中の全死亡症例は12例で、カニューレ抜去、喉頭気管分離の後に死亡した例がそれぞれ2例ずつ存在したが、これらのイベントは死因と直接に関連はなかった。

#### IV. 考 察

当 PICU で加療中に行われた気管切開症例のカニューレ抜去率は、中央値約2年間の観察期間で18%であった。カニューレ抜去と関連した気管切開時の因子は月齢、気管挿管日数、基礎疾患の有無で、適応疾患の病変部位とは関連がなかった。喉頭気管分離は13%に行われ、気管切開時の因子と関連はなかった。

小児気管切開のカニューレ抜去率は14～75%<sup>3-11)</sup>と報告されており、気管切開の臨床を取り巻く時代や地域による多様性を反映して大きな報告間差がある。本研究の対象は、基礎疾患をもつ症例や先天性の解剖学的異常を有する症例を多く含み、周産期医療をはじめとした小児医療の進歩により、こうした症例を多く扱うこととなった小児診療の現況を表している。18%というカニューレ抜去率はこうした状況を反映するものであり、現時点のPICU診療における気管切開症例

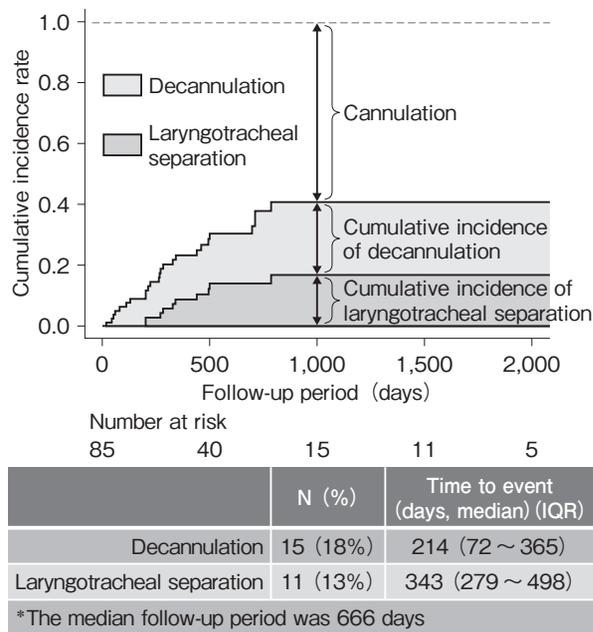


Fig. 1 Cumulative incidence rates of decannulation and laryngotracheal separation

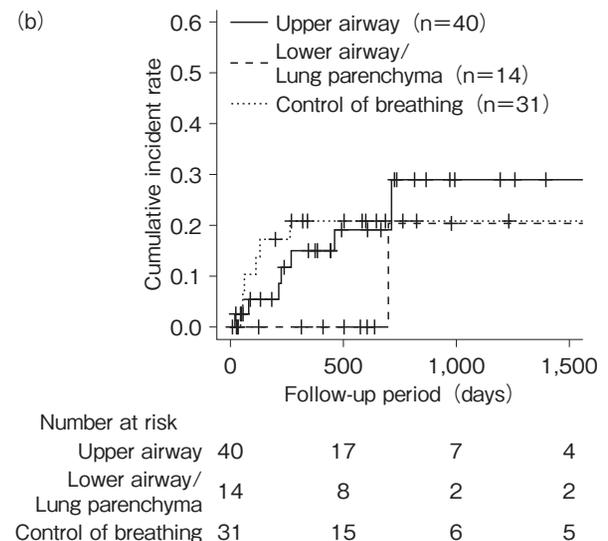
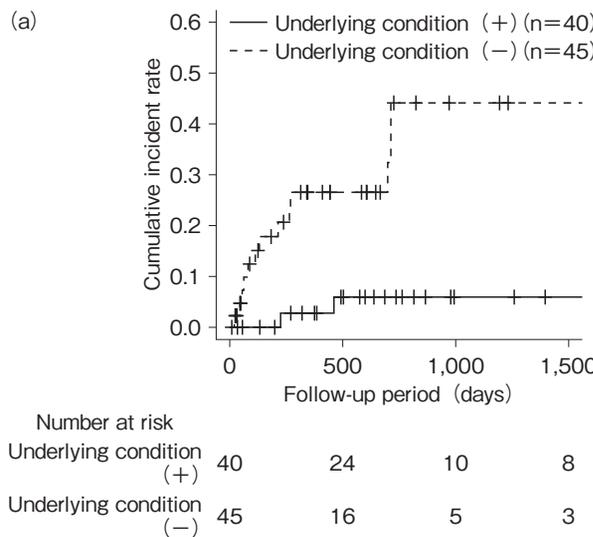
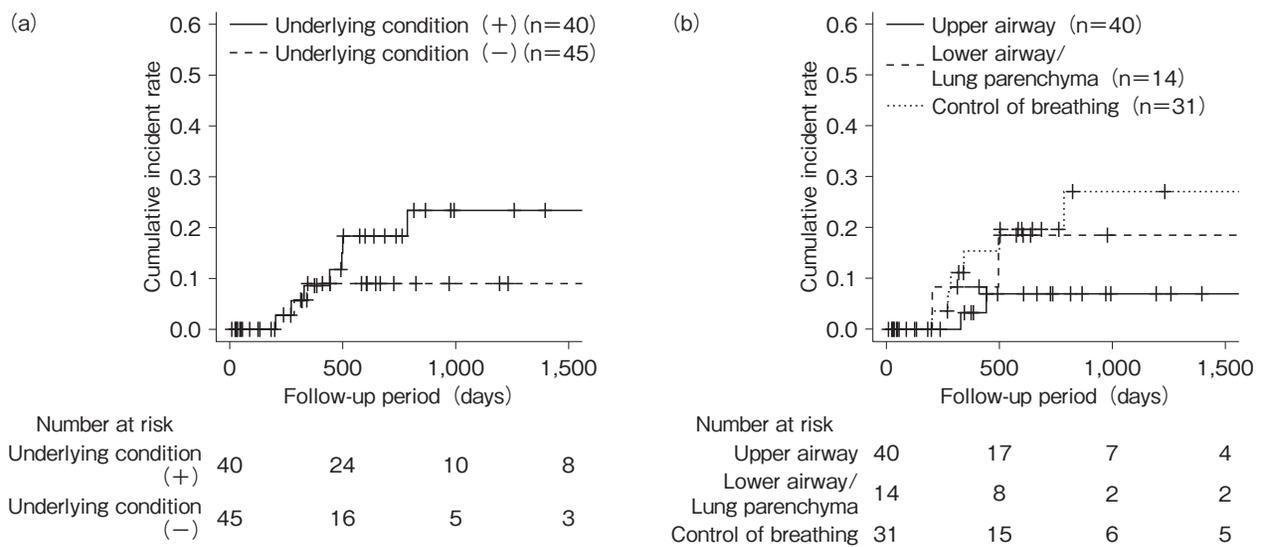


Fig. 2 Cumulative incidence rate of decannulation

- (a) Stratification of patients by presence/absence of underlying conditions.
- (b) Stratification of patients by indication of tracheostomy.

Table 4 Multivariate analysis of factors associated with decannulation

	Hazard ratio (95%CI)	p
Age when tracheostomy was performed (in month)	1.013 (1.006 ~ 1.019)	<0.01
Intubation period	0.948 (0.917 ~ 0.981)	<0.01
Underlying conditions	0.076 (0.015 ~ 0.384)	<0.01



**Fig.3 Cumulative incidence rate of laryngotracheal separation**

(a) Stratification of patients by presence/absence of underlying conditions.

(b) Stratification of patients by indication of tracheostomy.

の気道予後を表す具体的な数字として提供されうるものだと考えている。

カニューレ抜去率は基礎疾患を有する症例で有意に低下していた。本研究では基礎疾患を進行性または固定性の神経筋疾患、奇形症候群、染色体異常と定義した。これは、上気道狭窄や呼吸器離脱困難を合併する頻度が高い全身性疾患を念頭においたものである。これらの疾患は呼吸調節障害に加えて、長期臥床や長期経管栄養に伴う開口障害、小顎、喉頭軟化症の合併、筋緊張亢進による上気道狭窄が気管切開の適応となりうる<sup>16)</sup>。呼吸障害はしばしば進行性または不可逆的で、複数機序が併存することも多く、カニューレ抜去を困難とする原因と考えられる。

また、多変量解析で気管切開時の月齢、気管挿管期間とカニューレ抜去に関連を認めたが、これらの因子についての報告はこれまでにない。小児気管切開患者の気道予後に関与する因子は単一ではないことを裏付けるものである。一方、交絡の可能性も否定できない。例えば、カニューレ抜去に至った症例には、腫瘍や顔面外傷による上気道病変、外傷性脳損傷や脳炎・脳症に伴う呼吸調節障害などが見られる。これらは発症月齢が比較的高い疾患であり、こうした疾患の存在が月齢とカニューレ抜去を交絡した可能性がある。また、医療的介入によりカニューレ抜去の可能性が高いと予測された疾患では、医療者の判断や家族の受容がより短期間で行われ、気管挿管期間が短かった可能性がある。

る。このように予後と関連する因子の間には特定の病態や疾患、また未知の交絡因子が存在する可能性があるが、これらを評価するためには、正確でかつ詳細に診断された症例の蓄積が必要となる。

一方で、気管切開の適応となった病変部位はその後の気道予後と関連を認めなかった。これまで頭蓋顔面形成<sup>5)</sup>や頭頸部外傷<sup>6)</sup>など特定の疾患群でカニューレ抜去率が高かったとする報告があるが、病変部位による分類でその予後を論じた論文はない。我々の用いたPALS<sup>13)</sup>をもとにした分類は簡便、認識の共有が容易、特別な検査が不要といった利点がある。他方、同一群内に急性疾患から慢性疾患、先天性疾患などさまざまな疾患を含み、それぞれの疾患がもつ気道予後を相殺しあった可能性がある。気管切開後の予後予測には大まかな部位診断のみならず、詳細な診断が重要であることを示したといえる。

本研究では喉頭気管分離への移行を気道予後に含め、13%の気管切開症例に施行されていることを示した。喉頭気管分離は誤嚥予防に有効である一方、発声機能の消失や気管腕頭動脈瘻の危険性増大を伴う。さらに喉頭気管分離術後は永久気管瘻の作成を伴い、自然気道復帰は原則として行われないため、カニューレ抜去とは競合する気道予後として統計解析を行った。喉頭気管分離は発声機能の消失が避けられないことから、神経学的予後不良の患者に行われることが多いが、気管切開時の基礎疾患の有無との関連は認められなかつ

た。頭部外傷や心肺停止では、気管切開施行後に神経学的予後不良が判明する場合がある。気管切開時には、その後の嚥下機能や誤嚥発症の予測が困難であることを示した結果であると考えられる。

なお、気管切開時に一次的喉頭気管分離を行った症例が対象期間内に15例存在した。本研究は単純気管切開後の気道予後調査を目的としているため、一次的喉頭気管分離症例は対象から除外したが、気管切開後の誤嚥反復が予測される場合、集中治療室入室以前の嚥下機能や基礎疾患を勘案して検討すべき選択肢である。

研究限界として、第一に後方視的観察研究で単施設研究である点が挙げられる。第二に基礎疾患の定義は本研究独自のもので、結果の一般化に限界がある。本研究では呼吸機能に直接の影響が少ないと考えられる神経筋疾患以外の単一臓器障害や腫瘍などの後天性疾患、低出生体重児は基礎疾患から除いて検討した。しかし、先天性心疾患児や未熟児における呼吸機能は正常児と異なる可能性があり、基礎疾患の定義により結果に影響を受ける可能性がある。また、気管切開の適応病態を病変部位で分類する方法も本論文独自の手法である。適応病態が複数機序による場合や、気管切開時には判明し得なかった病態の存在のために、分類が困難な症例が存在する可能性がある。あわせて、診断や分類に医療者の主観的判断が介在しうることは否定できない。第三に症例数と観察期間の小ささが挙げられる。また、ステップワイズ法を用いて変数選択を行っているものの、精度の高い多変量解析を行うには十分な症例数とは言い難く、結果の解釈には注意を要する。各疾患の症例数の少なさは上述した交絡因子を除去できない要因でもある。不十分な観察期間は、喉頭軟化症や声門下狭窄などのある程度の成長後に外科介入が可能となり、自然気道に復帰する疾患のカニューレ抜去率を過小評価している可能性がある。よりの確に気道予後を推定するには、詳細な診断を得た各疾患の十分な症例数の蓄積と長期の観察期間が必要となり、大規模で多施設の前向き研究が望まれる。本研究はその前段階としての情報を提供するものであると考えている。

本研究はPICUで決定された小児気管切開後の気道予後について検討を行った。これまでの報告は小児気管切開全体を対象にした研究が多くPICUでの臨床応用には限界があった。重篤な急性期の診療の中で気管

切開を提示する際には、患者、家族、さらには医療チームに少なからず心理的な動揺や不安が生じる。本研究結果がこうした困難に対応するために提供される1つの情報源となることを望んでいる。

## V. 結 論

中央値約2年間の観察期間で、PICU患者における気管切開症例のカニューレ抜去率は18%であった。カニューレ抜去と関連した気管切開時の因子は月齢、気管挿管日数、基礎疾患の有無であった。喉頭気管分離は13%に行われ、気管切開時の各因子との関連はなかった。

本稿の要旨は、第48回小児呼吸器学会学術集会（2015年10月、倉敷）において発表した。

本稿の全ての著者には規定されたCOIはない。

## 参考文献

- 1) DeMauro SB, D'Agostino JA, Bann C, et al: Developmental outcomes of very preterm infants with tracheostomies. *J Pediatr*. 2014; 164: 1303-10.
- 2) Flynn AP, Carter B, Bray L, et al: Parents' experiences and views of caring for a child with a tracheostomy: A literature review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2013; 77: 1630-4.
- 3) 守本倫子: 小児の気管切開 適応と留意点. *日本耳鼻咽喉科学会会報*. 2012; 115: 939-43.
- 4) Mahadevan M, Barber C, Salkeld L, et al: Pediatric tracheotomy: 17 year review. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2007; 71: 1829-35.
- 5) Carron JD, Derkay CS, Strope GL, et al: Pediatric tracheotomies: changing indications and outcomes. *Laryngoscope*. 2000; 110: 1099-104.
- 6) Funamura JL, Durbin-Johnson B, Tollefson TT, et al: Pediatric tracheotomy: indications and decannulation outcomes. *Laryngoscope*. 2014; 124: 1952-8.
- 7) Zenk J, Fyrmpas G, Zimmermann T, et al: Tracheostomy in young patients: indications and long-term outcome. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2009; 266: 705-11.
- 8) Özmen S, Özmen ÖA, Ünal ÖF: Pediatric tracheotomies: a 37-year experience in 282 children. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2009; 73: 959-61.
- 9) de Trey L, Niedermann E, Ghelfi D, et al: Pediatric tracheotomy: a 30-year experience. *J Pediatr Surg*. 2013; 48: 1470-5.
- 10) Douglas CM, Poole-Cowley J, Morrissey S, et al: Paediatric tracheostomy: An 11 year experience at a Scottish paediatric tertiary referral centre. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2015; 79: 1673-6.

- 11) Schweiger C, Manica D, Becker CF, et al : Tracheostomy in children : a ten-year experience from a tertiary center in southern Brazil. *Braz J Otorhinolaryngol.* 2017 ; 83 : 627-32.
- 12) Tsuboi N, Ide K, Nishimura N, et al : Pediatric tracheostomy : Survival and long-term outcomes. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2016 ; 89 : 81-5.
- 13) American Heart Association : PALS プロバイダーマニュアル AHA ガイドライン 2010 準拠. 東京, シナジー, 2011.
- 14) Kanda Y : Investigation of the freely-available easy-to-use software "EZR" for medical statistics. *Bone Marrow Transplant.* 2013 ; 48 : 452-8.
- 15) 自治医科大学附属さいたま医療センター血液科 : "無料統計ソフト EZR (Easy R)". 自治医科大学附属さいたま医療センター.  
<http://www.jichi.ac.jp/saitama-sct/SaitamaHP.files/statmed.html> (参照 2017-7-30)
- 16) 徳永 修, 宮野前健 : 重症心身障害児 (者) に見られる呼吸障害. *日本小児呼吸器学会雑誌.* 2014 ; 25 : 4-9.

### Airway outcomes following tracheostomy in pediatric intensive care unit patients

Soichiro WADA, Takamori KANAZAWA, Masashi KOBAYASHI, Mitsunori SATO,  
Kentaro TOMITA, Tatsuya KAWASAKI

Department of Pediatric Critical Care, Shizuoka Children's Hospital

Corresponding author : Soichiro WADA  
Department of Pediatric Critical Care, Shizuoka Children's  
Hospital  
860 Urushiyama, Aoi-ku, Shizuoka, 420-8660, Japan

Key words : tracheostomy, decannulation, laryngotracheal separation, pediatric intensive care unit

#### Abstract

**Objective** : The aim of the present study was to evaluate the outcome of patients who underwent tracheostomy during pediatric intensive care unit (PICU) stay, and to explore the factors associated with the outcome.

**Method** : We conducted a retrospective cohort study that enrolled patients who underwent tracheostomy at our department between October 2007 and July 2015. The patients were categorized according to the presence or absence of underlying conditions and the indications for tracheostomy. The cumulative incidence rates of decannulation and the laryngotracheal separation procedure were calculated, and differences between the groups were compared. A multivariate analysis was performed to elucidate the factors that potentially influenced the outcome.

**Result** : A total of 85 patients were included. The median follow-up period was 666 days (interquartile range: 385-1313). Fifteen (18%) patients were decannulated and 11 (13%) underwent laryngotracheal separation. The decannulation rate was significantly lower in patients with underlying conditions, but was not associated with the indications for tracheostomy. Multivariate analysis revealed that the age when tracheostomy was performed, duration of intubation, and the presence of underlying conditions were independently associated with decannulation. The incidence of laryngotracheal separation was not associated with any of the evaluated factors.

**Conclusion** : During the 2-year follow-up period, 18% of the patients who received tracheostomy during their PICU stay were decannulated. The age, duration of intubation, and the presence of an underlying condition were associated with decannulation. Laryngotracheal separation was performed in 13% of the patients, but no related factors were found out.

Received September 11, 2017

Accepted February 13, 2018