咽喉頭異常感を主訴とした下咽頭梨状窩瘻の1例

藤井 みゆき*, 大内 利昭*
田中 一仁**, 原 正道***

A Case of Piriform Sinus Fistula with Foreign Body Sensation in the Neck

Miyuki Fujii, M.D.,* Toshiaki O-Uchi, M.D.,*
Kazuhito Tanaka, M.D.,** and Masamichi Hara, M.D.***

*Department of Otolaryngology, National Yokohama Hospital, Yokohama,

**Department of Otolaryngology, School of Medicine, Keio University, Tokyo, and

***Department of Pathology, National Yokohama Hospital, Yokohama

Piriform sinus fistulae usually manifest as acute suppurative thyroiditis or abscess of the neck. In this paper, we reported a case of piriform sinus fistula with a chief complaint of foreign body sensation in the neck. The patient, 25-year-old female, was seen to our clinic on October 20th, 1987 complaining of foreign body sensation in the neck deviated to the left side with about two months duration. She had neither a history of acute suppurative thyroiditis or abscess of the neck. The indirect laryngoscopy revealed no abnormality of piriform sinus of both sides, but the hypopharyngo-esophagography demonstrated the abnormal shadow arising from the left piriform sinus. She was diagnosed as the piriform sinus fistula. The resection of the fistular canal was performed successfully under general anesthesia on July 26th, 1988. Histological examinations revealed that the lumen of the fistular canal was lined by the normal squamous cell epithelia. Inflammatory cell infiltration of moderate degree was observed in the subepithelial layer at the proximal portion of the canal. However, the canal was obliterated with the inflammatory granulation tissue at the distal end. These findings indicated the existence of the masked infection of the fistular canal that could be the cause of foreign body sensation in the neck. There have been no reports on piriform sinus fistula with a chief complaint of foreign body sensation in the neck.

Key words : 下咽頭梨状窩瘻, 咽喉頭異常感, masked infection

I. はじめに

下咽頭梨状窩瘻 (piriform sinus fistula) は、小児ならびに若年者に好発する、再発性の急性

化膿性甲状腺炎、頸部膿瘍の原因疾患として近年注目されている¹⁻²⁰⁾が、最近われわれは、左側に偏した咽喉頭異常感を主訴として来院し、急性化膿性甲状腺炎や頸部膿瘍等の既往歴のなかった本疾患の1例を経験したので報告する。

II. 症 例

症 例: K.T., 25歳, 女性, 主婦
主 訴: 左側に偏した咽喉頭異常感
現病歴: 1987年9月頃より左側に偏した咽喉

*国立横浜病院耳鼻咽喉科(現慶応義塾大学医学部耳鼻咽喉科), **慶応義塾大学医学部耳鼻咽喉科,

***国立横浜病院病理

別刷請求: 〒160 東京都新宿区信濃町35 慶応義塾大学医学部耳鼻咽喉科 藤井みゆき

投稿受付: 1989年1月26日

頭異常感(左胸鎖乳突筋前縁付近の狭窄感)が出現してきたため、同年10月20日当科を受診した。

既往歴：急性化膿性甲状腺炎や頸部膿瘍等の既往はなく、またその他の特記すべき既往歴もなかった。

家族歴：特記すべきことなし。

現 症：ごく軽度のびまん性甲状腺腫を認めたが、間接喉頭鏡で両側梨状窩に異常は認められず、その他の耳鼻咽喉科学的局所所見および全身理学的所見にも異常は認められなかった。患者は左胸鎖乳突筋前縁付近に狭窄感があると明確に指摘していたが、視・触診上は、同部に異常は認められなかった。

検査所見：一般血液検査、血清生化学的検査および尿検査等で特に異常は認められなかった。また甲状腺機能は T3 1.17 (ng/ml), T4 8.99 (μ g/dl), TSH 2.29 (μ U/ml) と正常範囲内にあり、 123 I 24時間摂取率も 39.1% と正常であった。 123 I による甲状腺シンチグラムにおいても、陰影欠損その他の異常所見は認められなかった。

X線所見：喉頭単純X線で異常は認められなかったが、バリウムを用いた下咽頭食道造影を施行したところ、図1に示すごとく左梨状窩から前下方に向かう異常陰影が認められた。

経 過：下咽頭食道造影像より、左下咽頭梨状窩瘻と診断し、1988年7月26日全身麻酔下に瘻管摘出術を行った。手術に際してはまず硬性食道鏡下に左梨状窩の瘻孔の確認を行い、ラリングマイクロ用の吸引管をゾンデとして瘻孔に挿入してこれを口角に固定した後に、左胸鎖乳突筋前縁に沿った頸部縦切開により瘻管の摘出を行った。ラリングマイクロ用の吸引管が挿入された瘻管の発見およびその走行確認は容易であり、瘻管の末梢側・先端部は、甲状腺左葉の背側中心部付近に達していたが甲状腺との境界は明瞭であった。瘻管は中枢端・左梨状窩開口部で切断を行い、切断端は3層縫合を行った。症例は術後2週間目に皮膚縫合部の感染を起こし手術創の切開排膿を行ったが、その後の経過は良好で8月29日退院した。術後の下咽頭食道造影では瘻管陰影は消失しており、瘻管が完全に摘出されたことを確認した。また退院時には主訴となった左側に偏した咽喉頭異常感も消失

図1 術前下咽頭食道造影像(左：正面像、右：側面像)

左梨状窩より前下方に向かう瘻管陰影を認める。

し、1989年1月20日現在まで症状の再発はみられていない。

III. 病理組織学的所見

摘出標本は長さ約2.5 cmで、瘻管の末梢側・先端部にやや厚みのある紡錘状を呈していた。長軸方向に沿って3 mm 間隔で連続した標本作製し、光学顕微鏡下の観察を行ったところ、瘻管の末梢側・先端部は炎症性肉芽組織であり、リンパ球を主体とする中等度の炎症性細胞浸潤が認められたが、明らかな管腔は確認できなかった(図2)。咽頭側の大部分においては、内面が重層扁平上皮で被われた管腔が認められ、上皮下にはリンパ球を主体とする中等度の炎症性細胞浸潤が認められた。図3にその弱拡大像を、図4にその強拡大像を示した。

IV. 考 察

これまでに報告された下咽頭梨状窩瘻は、そのほとんどが反復性の急性化膿性甲状腺炎や頸部膿瘍で発症したとされている¹⁻²⁰⁾。急性化膿性甲状腺炎や頸部膿瘍以外で発見された本症は

図2 摘出瘻管の末梢側・先端部の病理組織像
炎症性肉芽組織であり、リンパ球を主体とする炎症
性細胞浸潤を認める (H.E.染色, $\times 100$)。

図3 摘出瘻管の咽頭側の病理組織像 (弱拡大)
内面が重層扁平上皮で被われた管腔を認める (H.E.
染色, $\times 40$)。

図4 摘出瘻管の咽頭側の病理組織像(強拡大)
管腔上皮である重層扁平上皮の粘膜下層に、リンパ球を主体とする中等度の炎症性細胞浸潤を認める(H.E.染色, $\times 100$)。

Miller ら⁹⁾が急性の上気道閉塞で発見された新生児例を報告しているのみであり、われわれが過去に経験した3例も全例頸部膿瘍で発症していた。今回われわれは左側に偏した咽喉頭異常感を主訴とした本症の1例を報告したが、われわれがこれまでに渉猟し得た限りでは、本症例のごとく咽喉頭異常感で発見された本症の文献報告例は1例もなかった。

本症例の主訴となった左側に偏した咽喉頭異常感の発生機序につき考察すると、摘出瘻管の末梢部・先端部ではリンパ球浸潤を伴う炎症性肉芽組織が認められたこと、また瘻管の咽頭側でも管腔上皮である重層扁平上皮の粘膜下層にリンパ球を主体とする中等度の炎症性細胞浸潤が認められたことから、masked infection の存

在が主訴の原因になったと考えられた。術後、主訴となった咽喉頭異常感が完全に消失したのもそのためと考えられた。本症の患側は大部分が左側であるとされている^{13,15,16)}。咽喉頭異常感は日常臨床で高頻度に訴えられる症状であるが、その訴えの部位はほとんどが前頸部正中であり、しかも患者自身が明確に異常感のある部位を指摘することは稀であると考えられる。これに対し、本症例の異常感は明らかに左側に偏しており、患者自身が左胸鎖乳突筋前縁付近の狭窄感を明確に指摘していた。したがって、本症例のごとく特徴のある左側に偏した咽喉頭異常感のある場合には、間接喉頭鏡で異常所見が認められなくても本症の存在をも考慮し、必ず下咽頭食道造影を施行すべきであると考えられた。

また瘻管摘出の際に瘻管の走行を確認する方法としては、これまでに Fogarty カテーテルの留置法^{12,13,16)}や、瘻孔内への色素注入法^{1,11)}等が報告されている。われわれも過去に経験した症例でこれらの方法を試みたが、Fogarty カテーテルは弾性があるため硬性食道鏡下に瘻孔内へゾンデとして挿入する際技術を要し、かつ術中に瘻孔より抜けてしまう等の欠点があり、また色素注入法は瘻管が色素により十分に染色されない場合や、注入した色素が術中に梨状窩に充填してしまう等の欠点があり、これらの方法は不確実であると考えられた。これに対し、硬性食道鏡下にラリングマイクロ用の吸引管を瘻孔に挿入してゾンデとして使用する方法は、挿入手技も簡単であり、金属吸引管は硬度があるため、術中にこの吸引管が挿入された瘻管の発見およびその走行確認は容易であり、また瘻孔より抜けることもなく、最も簡便かつ確実な方法であると考えられた。

V. ま と め

左側に偏した咽喉頭異常感を主訴とした下咽頭梨状窩瘻の1例(25歳、女性)を報告し、文献的考察を加えた。

(1) 急性化膿性甲状腺炎や頸部膿瘍の既往歴がなかったにもかかわらず、摘出瘻管の病理組織学的検索では瘻管の masked infection の存在を示唆する所見が得られ、これが主訴の原因

となったと考えられた。

(2) 左側に偏した咽喉頭異常感のある場合には本症の存在をも考慮し、必ず下咽頭食道造影を施行すべきであると考えられた。

(3) 手術に際しての瘻管の走行確認方法としては、ラリングマイクロ用の吸引管をゾンデとして使用する方法が最も簡便かつ確実であると考えられた。

(4) 咽喉頭異常感を主訴とした下咽頭梨状窩瘻の文献報告例は本症例が初例である。

本論文の要旨は、第66回日本耳鼻咽喉科学会神奈川県地方部会〔1988年12月、於横浜〕において口演した。

御校閲いただいた慶応義塾大学医学部耳鼻咽喉科学教室神崎 仁教授に深甚なる謝意を表します。

文 献

- 1) 梅田良三, 渡辺幸夫, 大城功也・他: 先天性側頸瘻の1例. 耳鼻臨床, 64: 1341-1344, 1971.
- 2) Abe, K., Taguchi, T., Okuno, A., et al.: Recurrent acute suppurative thyroiditis. Am. J. Dis. Child., 132: 990-991, 1978.
- 3) Liston, S.L., and Siegel, L.G.: Branchial cysts, sinuses, and fistulas. Ear, Nose, and Throat J., 58: 504-509, 1979.
- 4) Takai, S., Miyauchi, A., Matsuzuka, F., et al.: Internal fistula as a route of infection in acute suppurative thyroiditis. Lancet, 1: 751-752, 1979.
- 5) 宮内 昭, 松塚文夫, 高井新一郎・他: 急性化膿性甲状腺炎の感染経路一下咽頭梨状窩瘻について. 日外会誌, 80: 948-954, 1979.
- 6) Miyauchi, A., Matsuzuka, F., Takai, S., et al.: Piriform sinus fistula. Arch. Surg., 116: 66-69, 1981.
- 7) 柴田岳三, 秦 温信, 佐々木文章・他: 第4鰓嚢遺残による急性化膿性甲状腺炎. 外科診療, 23: 893-896, 1981.
- 8) Burge, D., and Middleton, A.: Persistent pharyngeal pouch derivatives in the neonate. J. Pediat. Surg., 18: 230-234, 1983.
- 9) Miller, D., Hill, L., Sun, C., et al.: The diagnosis and management of pyriform sinus fistulae in infants and young children. J. Pediat. Surg., 18: 377-381, 1983.
- 10) English, J.S.C., and Al-Hussani, A.: Recurrent suppurative thyroiditis due to pyriform fossa-thyroid fistula. J. Laryng. Otol., 97: 557-559, 1983.
- 11) 神谷勝久, 松岡秀樹, 数田紀久子・他: 咽頭梨状窩瘻による化膿性甲状腺炎の1例. 耳鼻臨床, 76: 2923-2927, 1983.
- 12) Hirata, A., Saito, S., Tsuchida, Y., et al.: Surgical management of piriform sinus fistula. Am. Surg., 50: 454-457, 1984.
- 13) 土田嘉昭, 牧野駿一, 斎藤純夫・他: 先天性梨状窩瘻—その診断ならびに治療. 医学のあゆみ, 131: 551-554, 1984.
- 14) Tovi, F., Gatot, A., Bar-Ziv, J., et al.: Recurrent suppurative thyroiditis due to fourth branchial pouch sinus. Int. J. Pediat. Otorhinolaryngol., 9: 89-96, 1985.
- 15) 古川 匠, 加納美樹子, 瀧口哲也・他: 咽頭梨状窩内瘻炎症による化膿性甲状腺炎. 耳喉, 58: 297-301, 1986.
- 16) Makino, S., Tsuchida, Y., Yoshioka, H., et al.: The endoscopic and surgical management of pyriform sinus fistulae in infants and children. J. Pediat. Surg., 21: 398-401, 1986.
- 17) Schlamp, D., Kruse, K., und Naujoks, J.H.: Kongenitale piriformothyreoidale Fistel als Ursache einer rezidivierenden eitrigen Thyreoiditis. Monatsschr Kinderheilkd, 134: 475-477, 1986.
- 18) 鈴木一元, 星野知之, 伊藤久子・他: 下咽頭梨状窩瘻の3症例. 耳喉, 59: 113-118, 1987.
- 19) 有重秀三, 柿 音高, 野田益弘: 急性化膿性甲状腺炎の1例. 耳鼻臨床, 補27: 143-146, 1988.
- 20) 牧山 清, 木田亮紀, 青柳充雄・他: 下咽頭梨状窩瘻—急性頸部膿瘍の感染経路として—. 日気食会報, 39: 267-270, 1988.