巨大な喉頭血管腫の1症例

伊藤 健*, 八木 昌人**, 村上 泰**
水野 正浩**, 野村 恭也**, 新美 成二***
廣瀬 肇***

Large Hemangioma of the Larynx —Report of a Case—

Ken Ito, M.D.,* Masato Yagi, M.D.,** Yasushi Murakami, M.D.,**
Masahiro Mizuno, M.D.,** Yasuya Nomura, M.D.,** Seiji Niimi, M.D.,***
and Hajime Hirose, M.D.***

*JR Tokyo General Hospital, Tokyo, **Department of Otolaryngology,
and ***Research Institute of Phoniatics and Logopedics,
University of Tokyo, Tokyo

A case of large laryngeal hemangioma which almost occluded the laryngeal inlet is reported. A 39-year-old male visited our clinic with complaints of snoring and apnea while sleeping. Neither dyspnea nor hoarseness was noted on physical examination. The tumor had a wide pedicle attached to the left arytenoid and the left aryepiglottic fold, and was removed by lateral pharyngotomy. The excised tumor was balloon-shaped and had a diameter of 3 cm. Histological examination revealed that the tumor was cavernous hemangioma.

Key words : hemangioma, larynx, lateral pharyngotomy

I. はじめに

喉頭血管腫は比較的稀な疾患であり、これまでの本邦報告例は50数例にすぎない。われわれは巨大な喉頭血管腫の一症例を経験し、若干の知見を得たので、文献的考察を加え報告する。

症 例：39歳男性

主 訴：鼾声，睡眠時無呼吸

現病歴：昭和58年頃より上記主訴を家人により指摘されていた。昭和63年10月より軽度の呼吸困難感出現。10月21日近医受診したところ、

喉頭の巨大な腫瘤を指摘され、同日東大病院耳鼻咽喉科を紹介受診した。

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

現 症：間接喉頭鏡・側視鏡にて、喉頭蓋喉頭面より咽頭後壁までをほぼ充満する青紫色の腫瘤を認め(図1)，ファイバースコープにて腫瘤茎は左披裂喉頭蓋ヒダより披裂部にかけて存在することが確認された。声帯は両側とも可動性良好であり，呼吸困難・喘鳴はなく，軽度のmuffled voiceが観察されるのみであった。その他の耳鼻咽喉科的所見には異常を認めなかった。

呼吸機能検査：Flow-volume curveは正常パターンであった。

食道造影：喉頭蓋喉頭面より咽頭後壁までを充満する球形の腫瘤を認めた(図2)。透視にて腫瘤が嚥下運動に伴い披裂部を中心として振り

*JR 東京総合病院耳鼻咽喉科，**東京大学医学部耳鼻咽喉科，***東京大学音声言語医学研究施設
別刷請求：〒965 福島県会津若松市山鹿町3-27
竹田綜合病院耳鼻咽喉科 伊藤 健
投稿受付：1990年3月31日

図1 術前喉頭所見
上方が咽頭後壁, 下方が喉頭蓋。

図2 食道造影写真(側面像)
太矢印: 腫瘍, 細矢印: 舌骨。

子様に動く様子が観察されたが嚥下障害や誤嚥は認めなかった。吸気時にも腫瘍の声門への嵌頓はなく、気道は常に確保されていた。

X線CT: 境界明瞭な腫瘍で、ほぼ一様な吸収値を示し、一部に不規則な造影効果が認められた。軟骨破壊・圧排等にはなかった(図3)。

治療および経過: 嚢胞・血管腫などを疑い、11月25日、気管切開後全身麻酔下に、左咽頭側

図3 X線CT写真(造影)

図4 術中所見
太矢印: 左披裂部に茎を持つ腫瘍, 細矢印(大): 対側(右)の披裂部, 細矢印(小): 喉頭蓋。

切開による腫瘍摘出術を施行した。

左胸鎖乳突筋前縁に沿って皮切を置き、甲状咽頭筋を切離し下咽頭側壁を切開すると、圧縮性を持つ巨大な腫瘍が現れ、左披裂喉頭蓋ヒダより披裂部にかけて帯状の茎を有していた(図4)。茎部の粘膜に切開を入れると、腫瘍に入り込む数本の血管を認めたため、それらを丁寧に結紮しつつ腫瘍を摘出した。

摘出した腫瘍は術中の操作により縮小したもの、大きさは $3.5 \times 2.5 \times 3$ cm 胡桃大で、表面は粘膜にて覆われており、断面は褐色・充実性であった(図5)。病理組織学的検査(HE染色)では、腫瘍は角化傾向を有する扁平上皮に覆われており、海綿状に拡張した血管腔が認められ、海綿状血管腫と診断された(図6)。

術後1週間で気切孔を閉鎖した。術後約40日

図5 摘出標本

図6 病理組織学的所見

図7 術後喉頭所見

図8 性別・年齢分布

全54例 (うち, 性別・年齢不明のもの3例)

性別・年齢が判明しているもの: 51例 (1ヵ月~77歳, 平均38.8歳), 男 24例 (3ヵ月~77歳, 平均34.8歳), 女 27例 (1ヵ月~75歳, 平均42.3歳)。

の喉頭所見を図7に示す。左披裂部に軽度の発赤・腫脹を認めるものの, 呼吸困難・声帯運動制限はなく, 鼾声・muffled voice も改善した。術後約1年を経過した現在まで再発を認めていない。

II. 考 察

われわれが検索しえた範囲において, 本邦における喉頭血管腫の報告例は, 1910年の中田¹⁾の報告以来, 本症例を加えて54例にすぎない¹⁻¹⁵⁾。以下, これらの本邦報告例について考察を加える。

性別・年齢分布を図8に示す。本症はすべての年齢層に見られ, 20~60歳にかけてなだらかなピークが存在する。明らかな性差は認めないが, わずかに女性に多く, 発症年齢が高い傾向がある。10歳未満の6例のうち4例 (男2例, 女2例) は1歳未満であり, すべて声門下血管腫であった。国外においても乳児の声門下血管腫の報告は多く, Shikhani ら¹⁶⁾が英語文献における323例および自験例10例を報告している。

発生部位ごとの症例数を図9に示す。披裂部, 仮声帯, 喉頭蓋, 声帯, 声門下の順に多くなっている。喉頭蓋谷は解剖学上, 中咽頭に入れるべきものであるが, 近傍のため含めている。

腫瘍の大きさは文献により記載の方法がまちまちであり, 相互の比較が困難であるため, 表

図9 発生部位 (重複あり)

表1 腫瘍の大きさの分類

大： 直径 2 cm 以上	11例
鶏卵大	
胡桃大 など	
中： 直径 1 ～ 2 cm	19例
拇指頭大	
示指頭大	
小指頭大 など	
小： 直径 5 mm ～ 1 cm	9例
空豆大	
豌豆大	
大豆大 など	
極小：直径 5 mm 以下	4例
小豆大	
米粒大 など	
(大きさ不明	11例)

1のごとく大・中・小・極小の4つに大まかに分類した。本症例は摘出標本における直径が約3 cmであり、本邦報告例中では最大級といえる。

主訴として最も多かったのは嗄声であり、呼吸困難、咽喉頭異常感がそれに次いでいる(表2)。発生部位と主訴との関連を表3に示す。声

表2 喉頭血管腫の主訴 (重複あり)

嗄声	25例
呼吸困難 (喘鳴・意識障害)	19例
咽喉頭異常感	10例
血痰・咽頭出血	7例
嚥下障害	4例
嚥下痛	4例
鼾声・睡眠時無呼吸	3例
咳嗽	3例

表3 発生部位と主訴

	嗄声	呼吸困難	咽喉頭異常感
披裂部(16)	6	4	2
仮声帯(14)	4	4	2
喉頭蓋(10)	5	2	5
声 帯(8)	8	3	1
声門下(8)	2	7	0
披裂喉頭蓋ヒダ(7)	2	3	1
喉頭蓋谷(4)	1	0	1
喉頭室(2)	1	1	0
後連合(2)	1	2	1
前連合(1)	0	0	1

(括弧内は症例数)

帯に発生したものは8例全例が嗄声を呈し、声門下に発生したものは8例中7例が呼吸困難を呈している。また、喉頭蓋に発生した10例中5例が咽喉頭異常感を呈しているのが注目される。腫瘍の大きさと主訴との関係(表4)においては、嗄声・呼吸困難と大きさの関連は認めないが、嚥下障害・嚥下痛は大きな腫瘍に認められやすい傾向がある。

腫瘍の大きさと発生部位との関連を表5に示す。披裂部・披裂喉頭蓋ヒダ・仮声帯に発生したものに大きな腫瘍が多く、声帯・声門下には小さい腫瘍が多い。これは前者が明らかな症状

表4 腫瘍の大きさと主訴

	嗄声	呼吸困難	咽喉頭異常感	血痰	嚥下障害	嚥下痛
大 (11)	4	5	1	0	3	2
中 (19)	11	7	6	3	1	1
小 (9)	6	4	0	2	0	0
極小 (4)	2	2	2	0	0	0

(括弧内は症例数)

表5 腫瘍の大きさと発生部位

	大	中	小	極小
披裂部(16)	8	3	2	0
仮声帯(14)	6	4	1	0
喉頭蓋(10)	1	6	0	0
声 帯(8)	0	4	2	2
声門下(8)	0	3	3	1
披裂喉頭蓋ヒダ(7)	6	1	0	0
喉頭蓋谷(4)	2	0	0	0
喉頭室(2)	1	0	1	0
後連合(2)	1	0	1	0
前連合(1)	0	0	0	1

(括弧内は症例数)

表6 喉頭血管腫の治療

放射線治療	7例
間接鏡下摘出	7例
直達鏡下摘出	15例
喉頭截開	13例
咽頭切開(舌骨下・上・側切開)	11例
凍結手術	3例
レーザー手術	3例
喉頭部分切除・気管切除	2例

を示さず、気づかぬうちに大きくなりやすいのに対して、後者は早期に嚔声や呼吸困難などの症状を現すため、小さいうちに発見されやすいと考えると納得できる。

病理組織学的には、明らかな記載のある41例中、海綿状血管腫20例、単純性血管腫17例、肥大性血管腫2例、血管芽細胞腫1例、血管平滑筋腫1例であり、前二者が大半を占めている。

治療法としては表6のように様々なものがある。本症例では、腫瘍が巨大で経口挿管が困難であり、術後の喉頭浮腫による呼吸困難も予想されたため、あらかじめ気管切開を施した上で咽頭側切開にて腫瘍を摘出し、良好な結果を得ることができた。発生部位・腫瘍の大きさに応じた適切な手術法の選択が必要であろう。

III. ま と め

鼾声・睡眠時無呼吸を主訴とし、披裂喉頭蓋ヒダから披裂部にかけて帯状の茎を持つ、巨大な海綿状血管腫の一症例を経験したのでここに報告し、文献的考察を加えた。

本論文の要旨は日本耳鼻咽喉科学会東京都地方会第70回学術講演会において発表した。

文 献

文献的に報告のある喉頭血管腫の検討にあたっては、本邦症例54例すべてについて原著に基づいた検討を加えたが、文献数が多数となるため以下には文献8にて検索可能なものを除いた16文献を記載する。

- 1) 中田多吉：喉頭仮声帯に発生せし海綿状血管腫の1例に就て。日耳鼻, 16: 237-242, 1910.
- 2) Sakakura, Y., et al.: A case of subglottic hemangioma. Auris・Nasus・Larynx (Tokyo), 7: 81-88, 1980.
- 3) 平本 啓・他：乳児喉頭下血管腫の1例。香川中病医誌, 2: 116-119, 1983.
- 4) 村川康子・他：喉頭血管腫の1例。日耳鼻, 86: 341-342, 1983.
- 5) 野村 和・他：咽頭・喉頭・気管血管腫と思われる1例。日気食会報, 34: 174, 1983.
- 6) 広川剛夫・他：凍結手術・CO₂レーザーによる咽頭喉頭血管腫の治療例。日気食会報, 34: 174, 1983.
- 7) 桥谷治彦・他：喉頭に血管腫の認められた blue rubber bleb nevus syndrome の1例。日耳鼻, 87: 1046, 1984.
- 8) 西本 力・他：意識障害を来した巨大な喉頭血管腫。耳鼻臨床, 77: 1617-1622, 1984.
- 9) 宮原 裕・他：喉頭血管腫の1症例。耳展, 29: 63-66, 1986.
- 10) 大村隆代・他：喉頭蓋血管腫症例。耳展, 29: 193-196, 1986.
- 11) 山下裕司・他：喉頭血管腫の1症例。日耳鼻, 89: 1272, 1986.
- 12) 柴崎 誠・他：新生児にみられた声門下血管腫の治療経験。日耳鼻, 89: 1340, 1986.
- 13) 秋永美紀子・他：静脈石を伴った喉頭蓋谷血管腫の1症例。日耳鼻, 90: 135, 1987.
- 14) 三沢敬典：喉頭血管腫の2症例。日耳鼻, 90: 793, 1987.
- 15) 村上説子・他：手術により治癒した幼児の声門下血管腫の1例。日耳鼻, 90: 1421, 1987.
- 16) Shikhani, A.H., et al.: Infantile subglottic hemangiomas: An update. Ann. Otol. Rhinol. Laryngol., 95: 336-347, 1986.