12歳で症状が出現した喉頭軟化症と思われる 1 例

平野 康文, 中田 孝重
隈上 秀伯

A Case of Laryngomalacia Appearing at 12 Years of Age

Yasufumi Hirano, M.D., Takasige Nakata, M.D.,
and Hidehaku Kumagami, M.D.

Department of Otorhinolaryngology, School of Medicine, Nagasaki University, Nagasaki

Laryngomalacia is usually a benign condition which occurs soon after birth, and is resolved by 2 years of age. A 12-year-old female, with a history of nasal allergy, had complained of inspiratory stridor and cough. Laryngoscopy revealed a flaccidity of all the supraglottic structures. The arytenoids and aryepiglottic folds were fluttering during inspiration. The stridor was improved after resecting the excess tissue with a CO₂ laser. A barking cough appeared about 10 days after the operation and placebos were effected to it. We suggest that she had a tendency to inspiratory laryngeal collapse and that her symptoms might have been triggered by allergic and/or psychological factors.

Key words : laryngomalacia, 12 years old, microlaryngosurgery

I. はじめに

喉頭軟化症は吸気性喘鳴が通常生後数週間以内に出現し、その大多数は2歳頃までに消失する。今回われわれは12歳で症状が出現した喉頭軟化症と思われる1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

II. 症 例

症例：12歳，女兒

主訴：吸気性喘鳴および咳嗽

家族歴：母にアレルギー性鼻炎

既往歴：9カ月の早産，生下時体重3,140 g。これまで喘鳴や気管支喘息はない。アレルギー性鼻炎あり。

現病歴：昭和63年6月，体育の授業にてマット運動中，同級生に背部を押された直後，胸内苦悶感，吸気性喘鳴および咳嗽が出現した。約1時間で症状は軽快したが1週間後頃より徐々に喘鳴および咳嗽が出現，増強し長崎大学耳鼻科受診。

初診時所見：吸気時に喉頭部を中心に「ゴロゴロ」という低音性喘鳴と胸骨上窩の陥凹あり。呼吸困難やチアノーゼは認めず。喉頭ファイバースコープでは喉頭蓋はややΩ型，両披裂部および披裂喉頭蓋ヒダは浮腫状となっており（図1a），吸気時に振動し気管側へ引き込まれるようになり気道を狭窄し（図1b），これが喘鳴の原因となっていると思われた。なお咳嗽時には喘鳴が増強した。

抗生剤，消炎剤，抗アレルギー剤および副腎皮質ステロイド剤の投薬治療を行ったが，症状の改善を認めず入院とした。

身体的所見：身長146 cm，体重30 kg と軽度

長崎大学医学部耳鼻咽喉科

別刷請求：〒852 長崎県長崎市坂本町7-1

長崎大学医学部耳鼻咽喉科 平野康文

投稿受付：1991年9月30日

図1 初診時喉頭ファイバースコープ所見

a : 披裂部および披裂喉頭蓋ヒダは弛緩し浮腫状である。

b : 吸気時所見 振動し気管側へ引き込まれるようになり気道を狭窄している。

るいそう。胸・腹部・四肢には著変を認めず、月経や乳房の発育、腋毛などの第2次性徴も認めなかった。なお症状は睡眠中は消失した。

検査所見：頸部、胸部X線および心電図は著変なし。呼吸機能：VC 2,140 ml, %VC 89.2%, FEV1.0% 97.5%, 検尿：正

血液所見：WBC 6,100/mm³ (Ba. 1 Eo. 7 Stab. 5 Seg. 49 Ly. 30 Mo. 8%) RBC 500×10⁴/mm³, Hg 14.4 g/dl, Hct 43.4%, Plt 28.1×10⁴/mm³, 電解質、肝・腎機能は正常。血沈1時間値3 mm, CRP (－), ASLO 333単位 (正<166), ASK 640単位 (正<1,280), 血清梅毒反応 (－) 免疫グロブリン：IgA 126 mg/dl, IgG 1,166, IgM 366, IgE 113 U/ml。RAST score：ハウスダスト (H1) 2, ダニ D.P (D1) 3, カンジダ (M5) 0, ブタクサ (W1) 0, スギ (T17) 3

手術所見：8月9日マイクロラリノサージャリーを行った。輪状甲状靱帯より16G アンギオカット針を刺入し, high frequency jet ventilation (以下 HFJV) を用いた全身麻酔下に浮腫状組織をカップ状鉗子で掴み、剪刀にて切除後、炭酸ガスレーザーにて照射した。病理組織 (図2) は非特異的な炎症所見で喉頭炎の診断であった。

術後経過：術後症状は消失し8月17日のファイバースコープでは術部に薄い白苔の付着を認めるのみ (図3) で退院とした。しかし、8月20日頃より犬吠様咳嗽が出現し徐々に増強したため9月1日再入院となった。咽喉頭の異常感

図2 病理組織 (×100)

上皮はやや肥厚し、リンパ球を主体とした軽度の炎症細胞浸潤が見られる。

図3 術後7日目所見

術部に薄い白苔の付着を認める。

などの症状の訴えは特にみられなかった。

入院時現症：咳嗽は犬吠様、乾性で1分間に1度程、4～5回連続するが睡眠中は消失した。喘鳴や呼吸困難は認めず。ファイバースコープでは術部には軽度の発赤を認めるのみ (図4) で、咳嗽時、喉頭蓋および披裂喉頭蓋ヒダの両縁が相接するほどまで円筒状となるのが観察された (図5)。

検査所見：ASLO 166単位, ASK 2,560単位, その他検血, 生化学検査では異常所見を認めず。

図4 再入院時所見
術部には軽度の発赤を認めるが、白苔は消失している。

図5 再入院時咳嗽時所見
喉頭蓋(矢印)および披裂喉頭蓋ヒダの両縁は相接するほど円筒状となっている。

経過：仮性クレープに準じた治療として、吸入ネブライザー、強力な抗生剤、消炎剤、鎮咳剤、抗アレルギー剤、副腎皮質ステロイド剤、マイナートランキライザーおよび気管支拡張剤投与を行ったが効果はみられなかった。

9月27日夜、声門下腔のファイバースコープ目的にてドロペリドール2 mlを静注したところ、数分後にいわゆる鉤物化(周囲に全く無関心)の状態となり、咳嗽は消失し、約30分後に入眠。翌日も咳嗽はほとんど軽減したままであり、心因性要因があるのではないかと疑われた。

ドロペリドールおよびマイナートランキライザーをプラシーボに変更し投薬を続けたところ咳嗽は徐々に軽減し、10月2日より登校も可能となり、10月21日退院。以後3年間外来にて経過観察を続けたが、症状の再発は認めず術部にも特に異常所見は認められない。

III. 考 察

喉頭軟化症は喉頭蓋、披裂喉頭蓋ヒダなど、喉頭入口部を形成する軟骨組織が軟弱、弛緩性のために、吸気時に気管側へ引き込まれることによる吸気性呼吸困難とされている。通常は吸気性喘鳴が生後数週間以内に出現し、その大多数が2歳頃までには消失、軽快する¹⁻⁴⁾。それ以降まで症状が年余にわたり続いたという報告もある^{2,4,5)}が、いずれも生後間もなく症状が出現しており、本例は12歳まで喘鳴歴が全くなく初めて出現したというのが大いに異なるところである。乳児期以後喉頭軟化症の症状が出現したとする報告は、われわれが調べ得た範囲では見られていない。

喉頭軟化症は、①喉頭蓋型、②披裂喉頭蓋ヒダ型、および③両者の混合型に分類される。喉頭軟化症について Jackson ら⁶⁾は吸気時の声門上成分の内方への虚脱と、Keleman⁷⁾は特異的な病理形態的なメカニズムではなく声門上組織の弛緩性を反映する言葉であるとし、Belmont ら⁸⁾は喉頭の軟骨の未熟性に病因を帰す考えには疑問があり、喉頭を取りまく筋肉の緊張低下が原因ではないかと述べている。2回目入院時咳嗽時喉頭蓋および披裂喉頭蓋ヒダの両縁が相接するほどまで円筒状となる所見はビデオを再検討したところ初診時より存在していたものであり、喉頭の framework の軟弱、弛緩性に起因するものかと思われた。

これら形態的所見からはこの症例は喉頭軟化症の披裂喉頭蓋ヒダ型に該当すると思われる。また学級内で身長は2番目に低く、体重は最も軽く、全体的に繊弱な印象であるが、喉頭の軟弱、弛緩性に関連するものか不明である。吸気性喘鳴は最初に背部を押された直後より出現しており、機械的な刺激により上気道の狭窄状態となったのではないかと疑わせる。

Mc Swiney ら⁹⁾は喉頭軟化症の喘鳴は睡眠や上気道感染で増悪すること、症状が生下時でなく生後数週間に初めて出現するのにも上気道感染が関与しているのかもしれないと述べている。ASLO, ASK, IgM 値の軽度上昇は、発症当時の溶連菌感染を疑わせるが、問診でははっきりしなかった。

Smith ら⁹⁾は、乳児期喉頭軟化症と診断されその後症状が消失した患者の思春期における呼吸機能検査を行い、吸気時の flow の低下が認められたと報告しているが、本例は術後の検査では正常であった。また思春期における喉頭の発育は吸気時喉頭虚脱の傾向を来すのに十分可能性があると述べている。本例は吸気時喉頭虚脱の傾向を有していたものが、何らかの原因が引き金となり吸気性喘鳴が出現したものかと思われた。

術後吸気性喘鳴は消失し、術部にも以後器質的病変は認められず、この点では手術は有効であったと思われた。術部の違和感などが犬吠様咳嗽の原因となったかもしれないが、自覚的には特に訴えもなく不明であった。犬吠様咳嗽の他の原因として、HFJV の影響等による声門下の病変などを疑った。しかし、睡眠中は症状が全く消失し、咳嗽が高度のわりにはチアノーゼ、呼吸困難もなく、血液検査、画像診断上とも著変を認めなかった。仮性クループに準じた治療も無効で、原因・病態が不明であった。

そこで、声門下腔の病変の有無をファイバースコープで確認すべくドロペリドール静注を行った。ドロペリドールは、鎮静作用、 α -受容体遮断作用を有し、自律神経系の安定化を伴った神経遮断状態をもたらす作用があり、本例に有効であったかもしれない。しかし、作用持続時間は通常 6～12 時間程度であり、以後プラシーボが有効であったこと、数日後実際に声門下腔を観察したが、特に器質的な異常所見は認めなかったことより、心因性の要因が関与したものではないかと疑われた。

小児の長期間続く咳嗽の原因として、①気管支喘息、②副鼻腔炎、③心因性咳嗽、④ cough variant asthma、⑤声門下狭窄などがあげられる⁹⁾。

気道過敏性検査では陰性であり、気管支喘息や cough variant asthma は考えにくかった。しかし、アレルギー因子を有しており何らかのアレルギーの関与があるかもしれない。副鼻腔炎や声門下狭窄は認めなかった。

山登¹⁰⁾によれば、心因性咳嗽とは、

- 1) 反復性、連続性に長期間続く乾性咳嗽
- 2) 季節性はなく、睡眠中は消失する

3) 諸検査において全く異常を認めない：呼吸機能検査、胸写上異常なく、気道過敏性を有しない。アレルギー因子や炎症所見を有しない。

4) 症状の発症に心理的要素が関与している。

5) 抗生剤、鎮咳剤、抗ヒスタミン剤などは無効で、プラシーボや抗精神薬が有効なことがある。

6) 上気道炎などの先行感染を認めることが多いが来院する時点では、症状に対応する医学的所見の認められないことが普通

などを示すものとしている。

また好発年齢は学童期後半、特に思春期にかけてであり、女兒に多く見られる。

本例は、アレルギー因子と局所の炎症所見を有してはいるが、睡眠中は消失しプラシーボが有効であり、心因性の要因が関与しているのではないかと思われた。

家庭内環境については、両親は 6 年前に離婚しており、現在母と祖父、新しい父および 6 歳の異父妹の 5 人暮らしであるが父にも慣れているということであった。また学業は中等度以上で、運動クラブにも属し友人も多く、学校生活においても特に症状の発症に関与すると思われる心理的要素ははっきりしなかった。長崎大学小児科精神衛生外来でも、生活上特に支障を及ぼすほど問題となる点は認めず、心理テスト等は行わずこのまま経過観察を行う方が良いとのコメントであり、これまで心理テストは行っていない。

中村ら¹¹⁾は、心理的因子の関与として、①情動的できごとの関与、②ストレスの存在、③性格的因子の関与、④心理生理的条件づけをあげ、さらに④では、①不安緊張などの解消のために行った咳払いや咳嗽が習慣化したもの、②咳嗽の原因となるような呼吸器系の器質的疾患があり、それが習慣化してしまったもの、③器質的な原因で咳嗽があり、器質的疾患が軽快したのち、何らかのきっかけで咳嗽の経験が、咳嗽を引き起こし、咳嗽が条件づけされてしまったもの（先行疾患による咳嗽の経験が何らかのきっかけで条件づけされたもの）をあげている。

本例は元来、喉頭入口部を形成する軟骨組織が軟弱、弛緩性であったものが、何らかのき

かけで吸気性喘鳴および犬吠様咳嗽が出現したものと思われたが、その発症の原因の1つとして、上記の④の⑥や③など心理的因子の関与が疑われた。

IV. ま と め

1) アレルギー因子のある12歳の女兒で、初めて吸気性喘鳴が出現した、喉頭軟化症の披裂喉頭蓋ヒダ型と思われる症例を報告した。

2) 浮腫状の披裂部および披裂喉頭蓋ヒダの切除および同部への炭酸ガスレーザー照射術を行い、術後喘鳴は消失した。

3) 術後10日目頃より犬吠様咳嗽が徐々に出現したがプラシーボが有効であり、心因性要因の関与が疑われた。

4) 吸気時喉頭虚脱の傾向を有していたものが、何らかの原因が引き金となり症状が出現したものかと思われた。

文 献

- 1) Lane, R.W., Weider, D.J., Steinem, C., et al.: Laryngomalacia: a review and case report of surgical treatment with resolution of pectus excavatum. Arch. Otolaryngol., 110: 546-551, 1984.
- 2) Apley, J.: The infant with stridor: A follow-up survey of 80 cases. Arch. Dis. Child., 28: 423-435, 1953.
- 3) Holinger, P.H., and Johnson, K.C.: The infant with respiratory stridor. Pediatr. Clin. North Am., 2: 403-411, 1955.
- 4) Mc Swiney, P.F., Cavanash, N.P., and Lantsuth, P.: Outcome in Congenital Stridor (Laryngomalacia). Arch. Dis. Child., 52: 215-218, 1977.
- 5) Smith, G.J., and Cooper, D.M.: Laryngomalacia and inspiratory obstruction in later childhood. Arch. Dis. Child., 56: 345-349, 1981.
- 6) Jackson, C., and Jackson, C.: Diseases and Injuries of the Larynx, pp. 63-68, Macmillan, New York, 1942.
- 7) Keleman, G.: Congenital laryngeal stridor. Arch. Otolaryngol., 58: 245-268, 1953.
- 8) Belmont, J.R., and Grundfast, K.: Congenital laryngeal stridor (laryngomalacia). Etiologic factors and associated disorders. Ann. Otol. Rhinol. Laryngol., 93: 430-437, 1984.
- 9) Holinger, L.D.: Chronic cough in infants and children. Laryngoscope, 96: 316-322, 1986.
- 10) 山登淳伍: 心因性咳嗽. 小児科, 28: 343-349, 1987.
- 11) 中村延江, 山口道也, 桂 戴作: 神経性咳嗽についての調査. 心身医学, 20: 436-443, 1980.