原因不明の成人の喉頭蓋軟骨軟弱症の1例

河合 敏*, 佃 守*, 稲葉 鋭*
池間 陽子*, 榎本 浩幸*, 持松 いづみ*
廣瀬 肇**

An Adult with Chondromalacia of the Epiglottic Cartilage of Unknown Etiology

Satoshi Kawai, M.D.,* Mamoru Tsukuda, M.D.,* Hayashi Inaba, M.D.,*
Yoko Ikema, M.D.,* Hiroyuki Enomoto, M.D.,* Izumi Mochimatsu, M.D.,*
and Hajime Hirose, M.D.**

*Department of Otorhinolaryngology, Yokohama City University, School of Medicine,
Yokohama, and **School of Allied Health Sciences, Kitasato University, Kanagawa

We reported a rare adult case of chondromalacia of the epiglottic cartilage.

The patient was a 66-year-old male complaining of sleep apnea for the previous two years. There was neither a history of head and neck surgery, nor any head injury or coma.

Laryngofiberscopic findings showed a prolapse of the epiglottis during inspiration. Under polysomnography, this case was diagnosed as obstructive sleep apnea syndrome with an apnea index of 22.3. There were no physical findings suggesting elapsing polychondritis.

Considering the patient's age, a staged epiglottectomy was performed in order to avoid misswallowing after the operation. The staged operations to resect the majority of the free portion of the epiglottis were effective and resulted in no misswallowing.

The pathological finding for the resected epiglottic cartilage was chondromalacia of unknown etiology.

Key words : adult laryngomalacia, chondromalacia, sleep apnea syndrome,
epiglottectomy

I. はじめに

今回われわれは、極めてまれな喉頭蓋軟骨の変性に起因した成人の喉頭軟弱症の1例を経験したので報告する。

II. 症 例

症例は66歳男性である。10年来のいびきと息

苦しさ、および2年来の睡眠時無呼吸と[・][・]の違和感（何かがくつつく感じ）の訴えで、1995年6月5日当科を受診した。

既往歴に高血圧があり、1993年より近医で投薬を受けていた。頭部や頸部に外傷や手術の既往はなく、また意識は明瞭であった。

身長156 cm、体重55 kgで、body mass indexは22.6 kg/m²と肥満はなかった。

当科初診時の所見では、視診上、鼻内および上・中咽頭に異常はなかったが、喉頭ファイバースコープ下で喉頭蓋が吸気時に後方に倒れ込み咽頭後壁に接着する所見を認めた(図1)。この所見は仰臥位で増悪し、腹臥位で軽快してい

*横浜市立大学医学部耳鼻咽喉科,**北里大学医療衛生学部

別刷請求: 〒236-0004 横浜市金沢区福浦3-9

横浜市立大学医学部耳鼻咽喉科 河合 敏
投稿受付: 1998年6月23日

吸気時

呼気時

図1 喉頭ファイバースコープ所見 (初診時)
喉頭蓋は吸気時に広い範囲で咽頭後壁に接着している。

図2 喉頭ファイバースコープ所見 (初診時)
左回旋時、喉頭蓋左側が咽頭後壁に早く接触し (矢印)、それ以上の喉頭蓋の倒れ込みを認めない。

た。また左または右への首の回旋で所見は軽快した (図2)。喉頭蓋の変形や萎縮はなかった。

このほか、耳鼻咽喉科領域に異常を認めず、また、耳介の変形、関節痛、外鼻の変形といった再発性多発性軟骨炎を示唆する所見はなかった。

X線透視検査でも、吸気時に喉頭蓋が咽頭後壁に接着し、喉頭蓋谷が吸気により拡張する所見を認めた (図3)。

終夜ポリグラフ検査の結果は、無呼吸指数22.3の比較的高度の閉塞型睡眠時無呼吸症候群であった。

以上から喉頭蓋部分切除術を予定したが、66歳とやや高齢であったため術後の誤嚥の危険性を考慮し段階手術とした。すなわち、1995年11月14日喉頭直達鏡下に剪刀で喉頭蓋可動部の右半切除術を行った (図4)。

切除した喉頭蓋の病理組織学的所見は、軟骨組織の変性と萎縮が目立ち、一部では軟骨細胞

吸気時

呼気時

図3 X線透視検査所見
吸気時に喉頭蓋が咽頭後壁に接着し (矢印)、喉頭蓋谷が拡張している。

図4 初回手術時の切除範囲 (mm)

が完全に消失し、基質は疎な線維組織で置換されていた。炎症細胞の浸潤は乏しく、原因不明の chondromalacia との組織学的診断であった (図5)。

術後、喉頭蓋左側は術前と同様吸気時に咽頭後壁に接着していたが、喉頭蓋右側は切除部の外側端が咽頭後壁に接触するのみになった (図6)。誤嚥はなく、術後5カ月経過時の終夜ポリグラフ検査で無呼吸指数は4.6に改善した。

しかし、息苦しさとのどの違和感是完全には消失せず、患者の追加手術の希望が強かったため、1996年5月21日前回手術で残った喉頭蓋可動部左側の切除術を追加した (図7)。

再手術後、喉頭蓋と咽頭後壁の吸気時の接触は喉頭蓋の両端のみとなり (図8)、息苦しさは軽微となり、のどの違和感は消失した。誤嚥はなかった。

しかし再手術後5カ月経過した頃から、再び吸気時に喉頭蓋が全体的に咽頭後壁に倒れ込む

図5 病理組織学的所見 (H&E, 20倍)
検体中央部には軟骨組織がみられ, 成熟した軟骨細胞の密な部分 (▲), 変性した軟骨細胞と基質 (↑), その周辺の線維化 (○) がみられる。

吸気時

呼気時

図6 喉頭ファイバースコープ所見 (初回手術後)
吸気時の喉頭蓋と咽頭後壁の接触は, 右側では喉頭蓋の外側端のみである (矢印)。

吸気時

呼気時

図8 喉頭ファイバースコープ所見 (再手術後2ヵ月)
吸気時の喉頭蓋と咽頭後壁の接触は, 喉頭蓋の両端のみである (矢印)。

図7 再手術時の切除範囲

所見が認められ(図9), のどの違和感はなかったが息苦しさが増悪したため, 1996年11月28日 CO₂ レーザーを使用し正中部を中心に, 正中舌喉頭蓋ヒダを損傷しないように喉頭蓋部分切除術を追加した (図10)。

吸気時

呼気時

図9 喉頭ファイバースコープ所見 (再手術後5ヵ月)
再び吸気時に喉頭蓋正中部の後方への倒れ込みを認めるが, 喉頭蓋は硬く一部咽頭後壁に接触しない。

3回目の手術の後, 誤嚥はなく吸気時の喉頭蓋と咽頭後壁の接触は再び喉頭蓋の両端に認め

図10 再々手術時の切除範囲

吸気時

呼気時

図11 喉頭ファイバースコーピー所見（再々手術後18ヵ月）

るのみとなった。また自覚症状はすべて消失した。

再々手術より1年半が経過した現在、喉頭蓋右側がやや柔らかくなってきた印象を持つが、ほかに際だった変化は見られず(図11)、自覚症状もなく経過している。

III. 考 察

喉頭軟弱症は基本的には乳児期の病変であるが、成人での報告も若干ある。

喉頭蓋の関与する“成人の喉頭軟弱症”すなわち“後天性喉頭軟弱症”は、頭部外傷や昏睡といった中枢神経系の障害による場合と、頸部の手術や外傷による喉頭蓋支持組織の傷害による場合とが報告されている¹⁻⁴⁾。この機序につき Woo²⁾ は、次のような仮説を立てている。すなわち、①中枢神経系の障害では、咽頭の運動神経のコントロールの欠如で咽頭が低緊張となり、咽頭腔が狭くなったり喉頭蓋が水平に傾く。②頸部の手術や外傷では、舌骨上筋群の切除あるいは舌骨喉頭蓋靱帯の損傷により喉頭蓋の支持組織が傷害される。③これらによって狭小化し

た部位を空気が通過する際、ベルヌーイ現象で吸気の際生じる強い陰圧によって、喉頭蓋が喉頭へ引き込まれる。④喉頭蓋の支持組織の傷害の場合は繰り返す吸気時の陰圧によりさらに支持組織が脆弱となり気道閉塞が増悪する、というものである。

本症例のように、中枢神経系の障害や頸部の外傷などの既往がないものの、喉頭蓋の倒れこみによる後天性喉頭軟弱症の報告は少ない⁵⁻⁷⁾。

喉頭蓋軟骨の変性は、再発性多発性軟骨炎で報告されている⁸⁾が、本症例では耳介の変形、関節痛、外鼻の変形はなく、喉頭蓋の萎縮や変形も認めず、また喉頭蓋軟骨の病理組織学的所見で炎症細胞の浸潤は見られなかったことから、再発性多発性軟骨炎は否定的と考えられた。すなわち本症例は原因不明の喉頭蓋軟骨の変性に、継続する吸気時の陰圧が加わり、徐々に症状が増悪したものと推察した。

喉頭蓋に起因する後天性喉頭軟弱症の治療は、中枢神経系のトラブルによる場合は、意識レベルの改善に伴い自然に治癒することもあるが、基本的には手術である²⁾。手術法は、これまでの報告では CO₂ レーザーを使用し、舌骨上の喉頭蓋すなわち喉頭蓋可動部の、上方 1/2 を切除する手術が主で、いずれも良好な結果を得ていた²⁾。他に舌根と喉頭蓋舌根面の粘膜を直達鏡下に剝離除去し raw surface とした後、両面を縫合したという報告もあった⁶⁾。

さて喉頭蓋を切除した場合、術後の誤嚥が気になるところである。嚥下時はいくつかの気道保護のメカニズムによって誤嚥が防がれているが、喉頭蓋は①食塊を左右の梨状陥凹に分ける、②喉頭の挙上に伴い喉頭入口部を閉鎖する、などの役割を担っている^{9,10)} からである。しかし Woo²⁾ は 5 例 (19~68 歳) に喉頭蓋可動部上方 1/2 切除術を行ったが、術後誤嚥を認めたのは 37 歳の症例 1 例のみで、その症例も誤嚥は一過性であったと述べている。

本症例は 66 歳であり、加齢に伴う嚥下能の低下を考慮し、仮に誤嚥をきたしてもそれに対処できるように喉頭蓋部分切除術は段階的に行った。すなわち、左または右に首を回旋すると、喉頭は比較的自由に回旋方向に変位するのに対

し下咽頭は頸椎との結合が強く変位しにくいいため、回旋方向側の梨状陥凹は狭まり同部の食塊通過量が減ることが知られている¹¹⁾。したがって術後誤嚥をきたしても切除側に首を回旋して嚥下をすれば誤嚥はコントロールできると考え¹²⁾、まず一側だけの喉頭蓋部分切除術を施行した。なお先に右側を切除したことに特に意味はない。また術前に首の回旋で喉頭所見が改善したもの、回旋に伴う下咽頭腔の広さの左右差によるものと思われる。

初回手術で誤嚥をきたさなかったことから、2回目の手術で反対側の追加切除を行い、結局通常の喉頭蓋可動部上方1/2切除術に近い形とした。

再手術後、当初は喉頭蓋と咽頭後壁の接触は喉頭蓋の両端のみとなったが、再び吸気時に喉頭蓋の中央部も咽頭後壁に倒れ込むようになったのは、原因不明の喉頭蓋軟骨の変性に、吸気時の陰圧が加わり続けた結果と思われる。

再々手術では、喉頭蓋が後方に倒れても気道が確保され、また下咽頭で左右に割れた食塊が喉頭に流入しないように、喉頭蓋の側方には操作を加えず中央部のみを追加切除した。この際喉頭蓋が食塊を左右に分ける機能をも損ねないよう、中央部の切除は最小限にとどめるよう努めた。

結局これら一連の手術で術後の誤嚥は認められなかった。

Mickelson ら¹³⁾は、閉塞型睡眠時無呼吸症候群の12例(22～67歳)に対し、舌根正中切除術に、正中部を中心に喉頭蓋可動部のほとんどを切除する喉頭蓋切除術を併用したが、術後遷延する誤嚥はなかったと報告している。また喉頭蓋の関与する喉頭軟弱症の手術で、喉頭蓋を舌根と縫合した成人例⁶⁾、小児例¹⁴⁾ともに術後に誤嚥はなかった。よって喉頭蓋の誤嚥防止における役割はさほど大きくないのかもしれない。

咽喉頭異常感における咽頭への喉頭蓋の接触を検討してみた。喉頭蓋の倒れ込みによる気道狭窄の程度は、息苦しさの程度と相関していたが、咽喉頭異常感の程度とは必ずしも相関していなかった。すなわち、咽喉頭の異常感が強かった初回手術前(図1)は喉頭蓋が咽頭後壁に左右全長にわたり、いわゆる面として接着して

いた。接触面が半減した初回手術後(図6)異常感は軽快はしたものの中程度残った。しかし接触部が面から点あるいは線となった再手術後は、異常感は消失した(図8, 9, 11)。よって喉頭蓋と咽頭の接触に起因するのどの違和感は、接触部位が面としてある程度広いときに初めて出現するものと推察した。喉頭蓋の形態異常に起因する咽喉頭異常感の治療法として喉頭蓋切除術が知られているが¹⁵⁾、本症例はそれを支持するものであった。

なお、閉塞型の睡眠時無呼吸症候群の閉塞部位は、軟口蓋や口蓋扁桃および舌根部といった中咽頭レベルがほとんどであり¹⁶⁾、喉頭蓋が原因となることはまれである。しかし本症例のようなケースもある以上、睡眠時無呼吸症候群症例の精査時、喉頭レベルまでの慎重なチェックが必要であることを改めて感じた。

本症例は根底に原因不明の喉頭蓋軟骨の軟化があり、今後も定期的な経過観察が必要であると考えている。

IV. ま と め

- 1) 極めてまれな、原因不明の喉頭蓋軟骨の変性に伴う成人の喉頭軟弱症を経験した。
- 2) 比較的高度な閉塞型睡眠時無呼吸症候群であった。
- 3) 喉頭蓋可動部の広範な切除術が有効であった。
- 4) 喉頭蓋の咽頭接触に起因する咽喉頭異常感は、接触部がある程度広いときに初めて出現すると推察した。

本報告の要旨は第48回日本気管食道科学会総会(1996年10月, 大阪), 第16回咽喉頭異常感症研究会(1998年7月, 福岡)において口演した。

文 献

- 1) Andersen, D., Alving, J., Lildholdt, T., et al.: Obstructive sleep apnea initiated by a lax epiglottis. *Chest*, 91: 621-623, 1987.
- 2) Woo, P.: Acquired laryngomalacia: Epiglottitis prolapse as a cause of airway obstruction. *Ann. Otol. Rhinol. Laryngol.*, 101: 314-320, 1992.
- 3) Chetty, K.G., Kadifa, F., Berry, R.B., et al.: Acquired laryngomalacia as a cause of

- obstructive sleep apnea. Chest, 106 : 1898-1899, 1994.
- 4) Mima, H., Ishida, H., Yamazaki, K., et al. : Acquired laryngomalacia as a cause of airway obstruction immediately after unilateral mouth floor surgery. Anaesthesia, 51 : 1152-1154, 1996.
- 5) 間口四郎, 千田英二, 熊谷雅彦・他 : “Flaccid Epiglottis”により呼吸障害を呈した1例. 耳鼻, 36 : 1219-1223, 1990.
- 6) Harries, P.G., and Randall, C.J. : Adult floppy epiglottis: A simple surgical remedy. J. Laryngol. Otol., 109 : 871-872, 1995.
- 7) 田中藤信, 塚崎尚紀, 中島成人・他 : Flaccid epiglottis により過換気症候群を呈した1例. 耳鼻, 42 : 354-357, 1996.
- 8) 青木和博 : 再発性多発性軟骨炎. 臨床成人病, 23 : 1760-1763, 1993.
- 9) 廣瀬 肇 : 喉頭. 臨床耳鼻咽喉科学 1, 基礎編 (沢木修二, 設楽哲也, 野村恭也編) pp.307-367, 中外医学社, 東京, 1976.
- 10) Bass, N.H., and Morrell, R.M. : 嚥下の神経機構. 嚥下障害, 第2版 (Groher, M.E. 編, 藤島一郎監訳, 坂居隆, 稲田春生訳), pp.1-21, 医歯薬出版, 東京, 1996.
- 11) 塚本芳久 : 口腔ネラトン法および間欠的口腔食道経管栄養法の実施時における頭位の工夫. 臨床リハ, 4 : 288-289, 1995.
- 12) 河合 敏, 佃 守, 持松いづみ・他 : Head rotation での嚥下訓練が極めて有効であった嚥下困難症例. 日気食会報, 48 : 24-28, 1997.
- 13) Mickelson, S.A., and Rosenthal, L. : Midline glossectomy and epiglottidectomy for obstructive sleep apnea syndrome. Laryngoscope, 107 : 614-619, 1997.
- 14) Solomons, N.B., and Prescott, C.A.J. : Laryngomalacia. A review and the surgical management for severe cases. Int. J. Pediatr. Otorhinolaryngol., 13 : 31-39, 1987.
- 15) 柏戸貞一 : 下咽頭異常感症. 喉頭蓋形態異常, pp.70-72, 金原出版, 東京, 1963.
- 16) 戸川 清, 宮崎総一郎, 山川浩治・他 : 睡眠時呼吸障害の臨床と耳鼻咽喉科医の役割. 耳鼻臨床, 86 : 929-939, 1993.