A CASE OF LARYNGEAL LEIOMYOMA (VASCULAR LEIOMYOMA)

KAZUHIKO MATSUMOTO, M. D., EISHI YAMAMOTO, M. D.,
TATSUJIRO USHIJIMA, M. D. and SOTARO FUNASAKA, M. D.

Department of Otolaryngology, Branch Hospital, University of Tokyo, Tokyo
(Director: S. Funasaka, M. D.)

Tumors of smooth muscle cell origin of the upper respiratory tract are extremely rare, especially of the larynx, and less than twenty cases have been reported in literature. Survey of literature also revealed that there was no case of laryngeal leiomyoma reported in Japan.

A 47-year-old, otherwise healthy man visited our clinic with complaint of slight laryngeal discomfort. Indirect laryngoscopr showed a semiglobular tumor-like swelling of the right false cord. Direct laryngoscopy was performed under general anesthesia and the tumor, lying in the submucotic region of the false cord, was enucleated totally. It was a firm, smooth and round tumor with a diameter of 8mm. Microscopic examination revealed that the tumor was a vascular leiomyoma most likely arising from the smooth muscle of the submucous small blood vessels of the right false cord. No cellular atypia or mitosis was observed. The patient is well without recurrence eleven months after operation.

A84—0731—60201

喉頭血管平滑筋腫 (vascular leiomyoma) の一症例

東京大学医学部附属病院分院耳鼻咽喉科

松 本 和 彦, 山 本 英 史, 牛 嶋 達 次 郎,
船 坂 宗 太 郎

は じ め に

平滑筋腫 (leiomyoma) は 子宮筋腫に代表される平滑筋由来の良性腫瘍である。平滑筋は子宮のほか消化管, 皮膚, 血管壁などにも存在することから, 胃, 皮膚などのほかにも腎, 肺, 後腹膜, 大血管, 鼻腔, 口腔などにも発生したという報告もあるが, 喉頭に発生したという報告はきわめて少ない。

われわれは今回, 右仮声帯に発生した血管平滑筋腫 (vascular leiomyoma) の一症例を経験したので 2 ~ 3 の文献的考察をくわえてここに報告する。

症 例

47歳, 男性,

主訴: 軽度の喉頭異常感,

現病歴: 昭和54年11月健康診断のため某病院に入院, 人間ドックに入った。その際, かぜ気味で軽度の喉頭異常感があったため, 耳鼻咽喉科を受診したところ, 著者の1人によって偶然に右仮声帯の腫脹を発見され, 精査のため当科外来を受診した。

局所所見: 初診時, 右仮声帯は半月形に腫脹し, 表面平滑で毛細血管の拡張と中等度の発赤を認めた。しかし声帯やその他の部位に異常は認められなかった。

図 1 症例の直達鏡所見
右仮声帯が腫脹している

図 2 摘出標本の肉眼所見
線維性被膜に包まれている

既往歴，家族歴：著変なし

全身所見および血液検査，その他諸検査：異常を認めず。

手術所見：昭和54年12月19日，全身麻酔下に喉頭直達鏡検査を行なったところ，右仮声帯は第1図のように腫脹しており，鉗子でさわったところ，この部の粘膜下に腫瘤を認めた。この腫瘤はほぼ球形で弾性硬であり，周囲との癒着はなく，粘膜下によく動いた。そこで手術用顕微鏡下に仮声帯粘膜に切開をくわえ鉗と鉗子を用いて摘出を試みたところ粘膜を保存したまま比較的容易に摘出した，手術により摘出した腫瘤は，直径約8mmのほぼ球形，やや灰白色の実質性腫瘤であった（第2図）。

組織学的所見：不規則な形をした多数の血管腔と，その壁を構成するように平滑筋細胞が配列し，また周囲の間質内には紡錘型の核と，好酸性に染まる線維性の胞体からなる平滑筋細胞の増生がみられており vascular leiomyoma であった（第3図）。

図 3 摘出標本の組織学的所見
血管成分の豊富な血管平滑筋腫で筋線維束間には軽度に浮腫がみられる

考 察

喉頭に発生する良性腫瘍としては，成書によれば，乳頭腫がほとんどで，それ以外はまれではあるものの，腺腫，線維腫，リンパ管腫，軟骨腫，脂肪腫，神経線維腫，神経鞘腫，および嚢胞などがあげられているが，仮声帯に限局して発生するものとしては，良性腫瘍では血管腫，脂肪腫ぐらいであり，その他のものはきわめてまれである。したがって，平滑筋腫が仮声帯に発生することは本邦の成書にはほとんど記載されていない。

平滑筋組織は子宮筋層，消化管壁，気管，気管支，泌尿生殖器系の導管，血管およびリンパ管壁，ある種の腺，皮膚など全身くまなく分布しており，なかでも最も豊富な組織が子宮筋層である。したがって平滑筋由来の良性腫瘍の代表はなんといっても子宮筋腫であることは論をまたない。しかし，そのほか消化管壁にも平滑筋組織が多いことから，胃をはじめとする消化管にも多くみられており，腎，尿管などにもみられているが，消化管壁をのぞけばいずれもまれな部類に属し，このなかでは皮膚および皮下組織に発生するものが多い。さらに，毛細血管壁の平滑筋からも発生することから，まれではあるが鼻腔，口腔，気管，気管支などにも出来ることが知られている。たとえば，Farman¹⁾ が1949年から1973年の間に7,687例の smooth muscle tumor を集めているが，このうち95%は子宮筋腫であり，残る310例のうちでは皮膚が230例と圧倒的に多く，次いで胃などの消化管が64例，泌尿器系6例であり，食道は7例，口腔が5例などの順になっている。

耳鼻咽喉科領域に関しては，城所ら²⁾によると，比較的多いのは食道，舌および鼻腔であるという。また，小

高ら⁹⁾によれば、文献上鼻腔に認められた症例は国内外合わせて12例であり、喉頭を含めてそれより下の気道は30例、口腔は23例であったという。気道に関する発生頻度についていえば、Gilbert ら⁴⁾の546例の気管腫瘍の文献的考察では平滑筋腫はわずか2例(0.78%)であり、Lange⁵⁾は自験例1例を含めて6例を集めている。またCaldarola ら⁶⁾のMayo Clinicにおける63例の気管および気管支の良性腫瘍のうち平滑筋腫は1例(1.5%)のみであったという。

喉頭に発生する平滑筋腫についてみると、この頻度はさらに低くなる。すなわち、Karma ら⁷⁾の文献では今迄13例の報告があるというものの、この中には気管のものも含まれており純粋に喉頭のものばかりではない。また、先のFarmanの報告では平滑筋腫7,687例のうち、喉頭のそれはわずか1例のみであり、その頻度は0.01%である。また子宮筋腫を除いた残りの310例と比べてもたかだか0.3%にすぎない、これは統計上の母集団が異なるので単純な比較はできないが、喉頭の平滑筋腫がまれな頻度であることを示唆するものである。事実Armed Forces Institute of Pathologyに登録されている気道の平滑筋腫は6例であり、そのうち喉頭のそれはわずか1例であるという⁸⁾。

また、最近の外国の報告をみるとWolfowitz ら⁹⁾のlaryngeal vestibuleに発生した症例、Karma ら⁷⁾のsubglottisに発生した症例などが散見される程度であり、このように喉頭における平滑筋腫はきわめてまれな疾患であるといえる。

一方、本邦の文献をみると、喉頭に発生した例は、先の城所らの集計では7例、小高らでは気管(支)を含めて30例あるというが、それらは全て外国の症例であり、われわれが現在まで渉猟した範囲では、本邦での喉頭平滑筋腫症例の報告には未だ遭遇していない(第1表)。

平滑筋腫を病理組織学的にみると、子宮や消化管の平滑筋から出るleiomyomaのほかに、耳鼻咽喉科領域にみられるものには皮膚および皮下(粘膜下)組織の筋腫であって、これらは大別して皮膚、皮下の平滑筋、すなわち立毛筋(arrectores pilorum muscle)などから成るsuperficial leiomyomaと血管壁の平滑筋由来のvascular leiomyomaとにわけられる¹⁰⁾。superficial leiomyomaは純粋に平滑筋からなるものであり、発生部位は主として皮膚である。一方、vascular leiomyomaは血管壁の平滑筋由来であるので、血管腔を囲んで筋芽細胞ないし線維が層状に増殖している像が特徴である。われわれの

表1 耳鼻咽喉科領域における平滑筋腫
(国内外の報告症例)

部 位	城所ら(1956)	小高ら(1973)
鼻・副鼻腔	8	12
舌	3	—
口 腔	1	23
咽 頭	3	—
喉頭・気管(支)	12	30
食 道	1	—
合 計	28	65

症例はこの分類に属するものである。そして、小血管壁の平滑筋から発生すると考えられており、全身どこでも発生しうが、本邦では鼻腔³⁾¹¹⁾、鼻前庭¹²⁾、咽頭後隙¹³⁾などの報告がみられている。

さて、vascular leiomyomaの発生の因については症例そのものがすくなく詳しく論じた論文が少ないが、Fu ら¹⁴⁾は血管のmediaから発生するのであろうと述べ、Duhig ら¹⁵⁾は61例のcutaneous vascular leiomyomaの検討から発生についての仮説として局所のmechanical factor、組織のestrogen levelおよびmalformationをあげている。

最後に、leiomyosarcomaとの鑑別がときに問題にされる場合もある⁷⁾⁹⁾。その組織学的検討は省略するが、leiomyomaの場合やはり一応念頭におくべきであると考ええる。しかし、われわれの症例のようにvascular typeのものは良性の平滑筋腫で、悪性化ということはほとんどないようである。

ま と め

1. 47歳、男性、ほとんど無症状の仮声帯に発生した血管平滑筋腫(vascular leiomyoma)の一症例を報告した。
2. 治療はLaryngomicrosurgery下に被膜ごと全摘出した。
3. 喉頭のvascular leiomyomaは文献によれば外国においてはせいぜい10数例程度の報告例があるのみであり、本邦についてわれわれの渉猟した範囲ではみあたらず本邦初例と考えられる。

参 考 文 献

- 1) Farman A G: Benign smooth muscle tumors. SA Med Journal 49: 1333-1340, 1975.
- 2) 城所信五郎 他: 稀有な咽頭喉頭部の平滑筋腫の一治験例 日耳鼻 60: 1196-1199, 1957.
- 3) 小高修司 他: 鼻腔に発生せる Leiomyoma 症例. 耳喉 45: 423-429, 1973.
- 4) Gilbert J G: Plimary tracheal tumors in the infant and adult. Arch Otolaryngol 58: 1-9, 1953.
- 5) Lange V G: Seltene gutartige tumoren der trachea. Zeitschrift für Laryngol Rhinol, Otol & ihre Grenzgebiete 45: 873-841, 1966.
- 6) Caldarola V T et al: Benign tumors and tumor-like conditions of the trachea and bronchi. Ann Otorhinolaryngol 73: 1042-1061, 1964.
- 7) Karma P K et al: Clinical records of laryngeal leiomyoma. J Laryngol Otol. 92: 411-415, 1978.
- 8) Ash J E et al: Atlas of tumor pathology, sect. 4, fasc. 12 & 13. Armed Forces Institute of Pathology, Washington.
- 9) Wolfowitz B L et al: Smooth-muscle tumors of the upper respiratory tract. SA Med Journal 47: 1189-1191, 1973.
- 10) Stout A P: Solitary cutaneous and subcutaneous leiomyoma. Am J of Cancer 29: 435-469, 1937.
- 11) 高橋晴雄 他: 鼻腔内に発生した血管平滑筋腫症例 耳喉 52: 133-136, 1980.
- 12) 神林潤一 他: 鼻前庭部正中に発生した平滑筋腫の1例 (Vascular Leiomyoma) 耳喉 50: 313-316, 1978.
- 13) 高橋晴雄 他: 咽頭後隙に発生した平滑筋腫の1例 耳鼻臨 71: 1403-1408, 1978.
- 14) Fu Y S et al: Nonepithelial tumors of the nasal cavity, paranasal sinuses, and nasopharynx: a clinico-pathologic study in smooth muscle tumors (leiomyoma, leiomyosarcoma). Cancer 35: 1300-1308, 1975.
- 15) Duhig J T et al: Vascular leiomyoma, a study of sixty-one cases. AMA Arch of Pathol 68: 424-430, 1959.

稿を終るにあたり、組織学的検索に御基力をいただいた中央検査部病理検査室 遠藤久子先生に謝意を表します。

本稿の要旨は第32回日本気管食道科学会総会(於千葉)において発表した。

(原稿受付 昭和 56. 1. 7日)

別刷請求先 〒112 文京区目白台 3-28-6

東京大学医学部附属病院分院 松本 和彦