先天性鼻咽腔閉鎖不全症の鼻副鼻腔疾患

石川 保之・森 一功*
川野 通夫*・本庄 巖*

Nasal Diseases in Patients with Congenital Velopharyngeal Insufficiency

Yasuyuki Ishikawa
(Nagahama Red Cross Hospital)

Kazunori Mori, Michio Kawano and Iwao Honjo
(Kyoto University)

Several investigators have reported a high incidence of middle ear diseases in patients with congenital velopharyngeal insufficiency (CVPI). However, little is known about nasal diseases in these patients. In the present study, we examined the incidence of intranasal deformities and nasal sinusitis. Nasal airway resistance was determined by the active-anterior method. A history of allergic disease and eosinophils in nasal secretions were sought for in the patients with nasal sinusitis. The incidence of chronic middle ear diseases was also correlated with that of nasal sinusitis.

1) A high incidence (55.9%) of nasal sinusitis was noted in patients with CVPI under 15 years of age.

2) The incidence of intranasal deformities, such as deviation of the nasal septum and hypertrophy of the inferior turbinate, was low in patients under 15 years of age.

3) Few patients had abnormally high nasal airway resistance.

4) Allergy was thought to contribute little to the development of nasal sinusitis in these patients.

5) Chronic middle ear diseases in these patients showed a close correlation with the presence of nasal sinusitis.

Key words: congenital velopharyngeal insufficiency, sinusitis, intranasal deformity, nasal airway resistance, middle ear disease

はじめに

口蓋裂を伴わず先天的に開鼻声と口蓋裂言語同様の構音障害を示す例は先天性鼻咽腔閉鎖不全症 (congenital velopharyngeal insufficiency,

以下, CVPI と略す) と総称される. CVPI では中耳疾患の罹患率が高いとするもの (42.0%¹⁾, 32.3%²⁾, 20.0%³⁾), 低いとするもの (5.6%⁴⁾) があるが, CVPI の鼻副鼻腔疾患については我

長浜赤十字病院耳鼻咽喉科

* 京都大学医学部耳鼻咽喉科学教室

我が調査し得た範囲では, 星野ら⁵⁾の報告のみである. そこで, 今回, CVPI における鼻副鼻腔疾患, 特に副鼻腔炎の頻度や特徴を調べ, 副鼻腔炎と中耳疾患との関連についても検討した.

対象と方法

CVPI 36例(年齢2~19歳)(図1). CVPI の診断は, 視診上, 口蓋裂, 粘膜下口蓋裂の所見がなく, かつ鼻咽腔閉鎖不全を示す症例で, うち, 軟口蓋の長さが短い, 咽頭腔が深いなど解剖学的異常例と, 咽頭側壁, 軟口蓋の運動不良例とが含まれる. これら症例の鼻咽腔閉鎖機能の判定は音声の聴覚的判定, ニューモタコグラフィ, 鼻咽腔ファイバースコープ, レ線造影ビデオ検査により行った. コントロール群として, 検診を行った正常人1743名(年齢3~19歳)と当科受診の副鼻腔炎例81名(年齢3~13歳)を用いた.

<検討項目と方法>

1) 副鼻腔炎と鼻腔形態

①副鼻腔炎: CVPI 小児例34名(年齢2~13歳)に対して前鼻鏡検査, 必要により鼻レ線撮影を行い副鼻腔炎の有無を調べた. 一方, 正常コントロール小児1625名(年齢6~14歳)に対して前鼻鏡検査を行い副鼻腔炎の有無を調べた.

②鼻中隔彎曲と下甲介肥大: 同じく CVPI 小児例34名(年齢2~13歳), 正常コントロール小児1625名(年齢6~14歳)について前鼻鏡検

査を行い, 鼻中隔彎曲と下甲介肥大の有無を調べた.

2) 鼻腔通気度検査

CVPI 例22名(年齢4~19歳)と正常コントロール558名(年齢3~19歳)について, リオン鼻腔通気度計 SR-10 により, 坐位, 室温での鼻腔通気度検査を行った. 測定は active-anterior 法(マスク法)により, 吸気で圧差が100パスカルの時の総合鼻腔抵抗値を記録した. 年齢別に正常人の平均値 $\pm 2SD$ を算出し正常範囲とした.

3) 副鼻腔炎におけるアレルギーの関与と臨床病型

①アレルギーの関与: CVPI 小児副鼻腔炎例13名(年齢2~11歳)と正常コントロール小児副鼻腔炎例81名(年齢3~13歳)について, 喘息, アレルギー性鼻炎, アレルギー性結膜炎, アトピー性皮膚炎, 薬物と食物アレルギーの既往歴の有無を調べた.

CVPI 小児副鼻腔炎例7名(年齢4~7歳)と正常コントロール小児副鼻腔炎例81名(年齢3~13歳)につき鼻汁中好酸球を塗沫染色(Eosinostein (Hansel)-TORII-, 1分間法)で調べ, 表1の基準により4段階で評価した.

②臨床病型: CVPI 小児副鼻腔炎例19名(年齢2~12歳)と正常コントロール小児副鼻腔炎例81名(年齢3~13歳)について副鼻腔炎の臨床病型を調べた. 臨床病型は前鼻鏡所見, 鼻レ線でビマンカタル型, 限局感染型, 浮腫茸状型に分類した(名越の分類⁶⁾).

4) 副鼻腔炎と中耳疾患

CVPI 全例36名について副鼻腔炎の有無と中

図1 CVPI 例の年齢分布

表1 鼻汁中好酸球の判定

鼻汁中の好酸球の程度	判定基準
(++)	多数認められ集塊を形成している
(+)	(++) と (+) の中間
(+)	散見される程度
(-)	認められない

耳疾患（滲出性中耳炎と慢性中耳炎）との関係を調べた。

結 果

1) ①CVPI 小児例では正常コントロール小児に比して副鼻腔炎の罹患率が有意に高いことがわかった ($P<0.01$) (図2)。

②鼻中隔弯曲と下甲介肥大の頻度は両群間で有意差を認めなかった (図3, 4)。

2) CVPI 例の鼻腔抵抗値では22例中5例 (約22.7%) が異常高値を示した (図5)。副鼻腔炎のない CVPI 例では11例中1例 (約9.1%)

が異常高値であった。

3) ①CVPI 小児副鼻腔炎例では正常コントロール小児副鼻腔炎例よりアレルギー疾患の既往歴が有意に少なかった ($P<0.02$) (表2)。

鼻汁中好酸球 (++) 異常の頻度は両群間で有意差を認めなかった (表3)。

②CVPI 小児副鼻腔炎例では正常コントロール小児副鼻腔炎例より局限感染型が有意に多かった ($P<0.02$) (表4)。

4) CVPI 全例で中耳疾患は、滲出性中耳炎9例 (25.0%)、慢性中耳炎4例 (約11.1%)、両者を持つもの1例 (約2.8%) であった。また、

図2 副鼻腔炎の有無

図3 鼻中隔弯曲の有無

図4 下甲介肥大の有無

図5 active-anterior 法による鼻腔抵抗値

表2 アレルギー疾患既往の有無 ($P<0.02$)

アレルギー疾患既往の有無	CVPI 小児副鼻腔炎例	正常 小児副鼻腔炎例
有り	1	38
無し	12	41

表3 鼻汁中好酸球

鼻汁中好酸球	CVPI 小児副鼻腔炎例	正常 小児副鼻腔炎例
(+)(++)	1	30
(-)(+)	6	51

副鼻腔炎をもつ例は有意に高率に中耳疾患ともなっていた ($P<0.05$) (表5)。

考 察

CVPI の鼻副鼻腔疾患に関する報告では, 星野ら⁵⁾ が咽頭弁形成術を行った CVPI 例の10.9%に副鼻腔炎を報告しているのみである。今回の調査では CVPI 小児例の半数以上(約55.9%), に副鼻腔炎を認め, この値は口蓋裂例の副鼻腔炎の頻度とほぼ等しい⁷⁾⁸⁾。今回, CVPI 小児例では鼻中隔彎曲や下甲介肥大などの鼻腔形態異常の頻度は正常人と差がなく, 鼻腔抵抗値も正常のものが多かったが, 先の我々の調査⁷⁾ では, 口蓋裂例では鼻腔形態異常を高率に伴い, 鼻腔抵抗異常高値例も多いことが確認されている。鼻腔の通気性と鼻腔粘液線毛機能とは密接な関係があり⁹⁾, 口蓋裂例では鼻腔の形態異常と鼻内気流異常とが鼻腔粘液線毛機能障害を招き, 副鼻腔炎を来す可能性があるが¹⁰⁾ 鼻腔形態異常の少ない CVPI の副鼻腔炎多発の原因は口蓋裂のそれとは異なるものと推測された。

今回, CVPI での高率な副鼻腔炎合併の原因解明の一助として, CVPI の副鼻腔炎を, アレルギーの関与と臨床病型の2点で検討した。その

結果, CVPI の副鼻腔炎では正常人の副鼻腔炎に比してアレルギー疾患の既往歴の頻度が有意に少なく, また, 鼻汁中好酸球(++)以上の例は CVPI 副鼻腔炎例では約14.3%と低率であり, アレルギーの関与は少ないことがわかった。また, 副鼻腔炎の臨床病型では, CVPI では局限感染型が有意に多いことがわかった。名越¹¹⁾, 梅沢¹²⁾ は局限感染型は局所的素因が強く関与していると述べており, 今後は, 局所的要因の検討が必要であろう。

さて, 副鼻腔炎と中耳疾患との関連についての報告¹³⁾¹⁴⁾ は多く, 今回の CVPI の観察でも副鼻腔炎をもつ例の中耳炎の合併率は高率(約57.9%)であった。中耳疾患は主に滲出性中耳炎であったが, 滲出性中耳炎例では上咽頭の菌検出率が高く¹⁵⁾, 上咽頭と中耳滲出液中の菌の一致率が高いこと¹⁶⁾¹⁷⁾ 等が知られており, 今回の観察結果でも, CVPI に伴う中耳炎が鼻副鼻腔の細菌感染波及による可能性が考えられた。

ま と め

先天性鼻咽腔閉鎖不全症(CVPI)の鼻副鼻腔疾患の頻度や成因について検討し, さらに中耳慢性炎症疾患との関連についても調べた。

1) CVPI 小児例では副鼻腔炎罹患の頻度は55.9%と高率であった。

2) CVPI 小児例の鼻腔形態異常は少なく, 鼻腔抵抗の異常高値例も少なかった。

3) CVPI の副鼻腔炎の発症にアレルギーなどの体質的要因の関与は少なく, むしろ局所的要因が大きいと考えられた。

4) CVPI における中耳慢性炎症疾患多発は鼻副鼻腔炎の波及が一因である可能性が考えられた。

表4 副鼻腔炎の臨床病型 ($P<0.001$)

臨床病型	CVPI 小児副鼻腔炎例	正常 小児副鼻腔炎例
ビマンカタル型	8 (42.1%)	67 (82.8%)
局限感染型	11 (57.9%)	13 (16.0%)
浮腫茸状型	0 (0%)	1 (1.2%)

表5 副鼻腔炎と中耳疾患(滲出性中耳炎, 慢性中耳炎) ($P<0.05$)

副鼻腔炎の有無	中耳疾患の有無	
	有 り	無 し
有 り	11	8
無 し	3	14

参考文献

- 1) Caldarelli DD : Incidence and type of otopathology associated with congenital palatopharyngeal incompetence. *Laryngoscope* 88 : 1970~1984, 1978.
- 2) Durr DG and Shapiro RS : Otologic manifestations in congenital velopharyngeal insufficiency.

- AJDC 143 : 75~77, 1989.
- 3) 矢部利江, 阿部雅子, 澤島政行 : 口蓋裂及び先天性鼻咽腔閉鎖不全症患者における滲出性中耳炎—臨床的観察—. 日耳鼻 92 : 1012~1020, 1989.
- 4) 田坂康之 : 口蓋裂例の中耳疾患と耳管の病態. 耳鼻臨床 82 : 1155~1167, 1989.
- 5) 星野鉄雄, 納 一功, 木村 照 : 先天性鼻咽腔閉鎖不全症における副鼻腔炎. 音声言語 29 : 87~88, 1988.
- 6) 名越好古, 金子善一, 梅沢重一, 他 : 慢性副鼻腔炎の自然変動に対する発言. 耳展 9 補 4 : 402~407, 1966.
- 7) 石川保之 : 口蓋裂例の鼻副鼻腔疾患. 耳鼻臨床 82 : 995~1015, 1989.
- 8) Ishikawa Y, Kawano M, Honjo I, et al : The cause of nasal sinusitis in patients with cleft palate. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 115 : 442~446, 1989.
- 9) Doyle WJ : Relationship between nasal patency and clearance. Rhinology 25 : 167~179, 1987.
- 10) 石川保之, 川野通夫 : 口蓋裂例の鼻副鼻腔疾患—文献的考察—. 耳鼻臨床 83 : 1093~1098, 1990.
- 11) 名越好古 : 小児副鼻腔炎の変遷と対策. 耳喉 50 : 539~544, 1980.
- 12) 梅沢美和子 : 小児期副鼻腔炎の予後に関する研究. 耳展 17 補 1 : 5~23, 1974.
- 13) Grotte JJ and Kuijpers W : Middle ear effusion and sinusitis. J Laryngol 94 : 177~183, 1980.
- 14) 古和田勲 : 小児副鼻腔炎と中耳炎. 耳喉 52 : 559~566, 1980.
- 15) Sundberg L, Cederberg A, Eden T, et al : Bacteriology in secretory otitis media. Acta Otolaryngol Suppl 384 : 18~25, 1981.
- 16) Kamme C and Nilsson N : Secretory Otitis media ; microbiology of the middle ear and the nasopharynx. Scand J Infect Dis 16 : 291~296, 1984.
- 17) Mills RP, Uttley AHC and McIntyre MF : A bacteriological study of the middle ear and upper respiratory tract in children with chronic secretory otitis media. Clin Otolaryngol 10 : 335~341, 1985.

原稿受付 : 平成 2 年 3 月 13 日
原稿採扱 : 平成 2 年 4 月 12 日
別刷請求先 : 石川保之
〒526 長浜市宮前町14-7
長浜赤十字病院耳鼻咽喉科