嚥下障害をきたした深在性下咽頭血管腫例

平海 晴一・田渕 圭作・北尻真一郎

Deep Cavernous Hemangioma of the Hypopharynx with Dysphagia ;
A Case Report

Harukazu Hiraumi, Keisaku Tabuchi and Shin-ichiro Kitajiri

(Toyooka Hospital)

Hemangiomas of the hypopharynx are rare. In most reported cases, hemangiomas were situated just beneath the mucosa and easily diagnosed on inspection because of its specific color.

We report a unique case of a large cavernous hemangioma of the hypopharynx situated deeply, making diagnosis on inspection impossible. The hemangioma was accompanied with severe inflammation. At first, a retropharyngeal abscess was suspected. The final diagnosis was made with exploratory biopsy. The hemangioma was treated successfully with surgical resection.

Key words : cavernous hemangioma, hypopharynx, surgical resection

はじめに

血管腫は頭頸部領域では顔面皮膚や舌・口腔でしばしば認められる疾患であるが、下咽頭に生じることはまれである。また、現在までに報告されている下咽頭血管腫はほとんどが粘膜直下に位置しており、間接喉頭鏡や軟性ファイバーなどによる視診で容易に診断されている。

今回我々は、表面粘膜が正常であったため視診による診断が不可能であり、また発症が比較的急激で、強い炎症反応を伴っていたため咽後膿瘍との鑑別が困難で、生検によって診断し得たという特異な臨床像を示した下咽頭血管腫を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：62歳，男性。

主訴：嚥下障害。

既往歴：結核。

家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：平成10年8月3日より咽頭痛および嚥下障害を自覚し、同月5日近医を受診した。強い炎症反応と、

CTにて下咽頭の腫瘤を認め、当院に紹介、緊急入院となった。

入院時、甲状軟骨の前方への突出を認め、経口摂取は全く不可能であったが、呼吸困難はなかった。血液検査ではC反応性蛋白：24、白血球：10700と炎症反応の上昇を認めたが、他に異常検査値は認めなかった。CTでは下咽頭後方正中に、舌骨から輪状軟骨の高さに至る、造影効果の乏しい低吸収域を認めた(図1)。軟性ファイバーでは下咽頭後壁正中に腫脹を認めたが、表面の粘膜は肉眼上正常であった(図2)。声帯の固定はなかった。喉頭高圧側面X線では下咽頭の腫瘤が喉頭を前方へ圧排している像を認めたが、上下方向への進展は比較的制限されていた(図3)。胸部X線では陳旧性結核の像があり、明らかな肺炎所見は診断できなかった。

炎症所見と下咽頭後壁の腫脹より咽後膿瘍を疑ったが、喉頭高圧側面X線所見より腫瘍性病変の可能性も否定できなかったため、口腔内よりの排膿を試みず、緊急気管切開の上、外切開による観察を行った。下咽頭収縮筋を露出したところ、咽後間隙に病変はなく、腫瘤は下咽頭収縮筋の内側に存在していた。下咽頭収縮筋を切断する

図 1 造影 CT

下咽頭後方に造影効果の乏しい腫瘍を認める。

図 2 下咽頭喉頭軟性ファイバー

下咽頭後壁に正常粘膜で覆われた腫脹を認める(*).
下方に喉頭蓋を認める。

と、暗赤色で被膜を有する充実性腫瘍を認めたため一部を生検した。出血は少量で、被膜の縫合により容易に止血した。組織所見は洞状に拡張した血管組織内に血液の貯留像を認め、海綿状血管腫と診断された(図4)。

その後も経口摂取が不可能な状態が続いたため中心静脈栄養を行い、抗生剤の投与を行ったところ炎症反応は消失し、炎症は血管腫の感染または嚥下障害に伴う誤嚥性肺炎によるものと診断した。

平成10年8月14日、全身麻酔下に外切開による腫瘍摘出術を行った。前頸部に胸鎖乳突筋前縁に沿ってU字型切開を行い、胸骨舌骨筋を切断して喉頭の可動性を確保し、下咽頭収縮筋を甲状軟骨外側にて両側で切断し、腫瘍を明視下においた。腫瘍は暗赤色で被膜に覆われていた(図5)。上喉頭神経を保存し、両側より被膜に沿って鈍的に剥離を行い、腫瘍を摘出した(図6)。術中明らかな導入・導出血管は認めなかった。広範な下咽頭粘膜欠損が生じた場合は遊離前腕皮弁による再建を予定していたため、上甲状腺動静脈を甲状腺部まで露出し切断した。

図 3 喉頭高圧側面X線

下咽頭の腫瘍が喉頭を前方へ圧排している像を認めるが、上下方向への進展は比較的制限されている。

図4 病理所見(HE 染色, ×400)

洞状に拡張した血管組織内に血液の貯留像を認める。

図5 術中所見

左が頭側で右が尾側。被膜に覆われた腫瘍を認める。

が、腫瘍は下咽頭収縮筋と咽頭挙筋の間隙に存在し、深在性であったため粘膜の欠損は生じなかった。出血はごく少量であった。

術後経過は良好で、嚥下障害は消失し、気管切開孔を閉鎖して退院となった。

考 察

下咽頭に生じる腫瘍は大部分が悪性腫瘍であり、良性腫瘍はまれである。その中で血管腫の報告は、木田ら¹⁾によると本邦では30例であり、その後も我々の渉猟し得た範囲内では3例が報告されているのみである^{2)~4)}。皮膚や皮下の血管腫が乳幼児期に発症するのに対して、成

図6 摘出標本

人になってからの発症が多いが、これは生来存在した血管腫が外的刺激等によって徐々に増大し症状が現れるためと考えられる⁴⁾。一般に臨床症状は乏しく、腫瘍が増大して咽頭異常感や嚥下障害が生じて初めて診断されることが多い。血管腫は成長が緩徐であり、症状は徐々に生じる例が多いが、本例では数日間で完全に嚥下が不可能となり、咽頭痛も訴えるなど比較的急激な発症経過をたどった。標本内には肉眼的にも組織学的にも痕跡は明らかではなかったものの、血管腫内で感染や出血が生じ、腫瘍の急激な増大が生じた可能性が考えられる。

診断に関しては、間接喉頭鏡や軟性ファイバーなどによる視診が重要で、通常は粘膜下の暗赤色の腫瘍として認められる¹⁾。画像診断ではMRIが最も有用とされ、T1強調画像で等信号、T2強調画像で高信号に描出される。また、ガドリニウムによって強い造影効果を示す⁵⁾。CTでは筋肉と同程度の低吸収域に描出され、造影効果は症例によって様々である⁵⁾。血管造影では栄養血管が同定できる例もあるが小さいものでは不可能なことが多い⁶⁾。下咽頭食道透視が重要とする報告もある⁷⁾。いずれにしても、疾患の診断に際しては視診が最も重要であり、MRIと併せて診断を行い、その他の画像診断は進展範囲や治療方針の決定に利用する例が多い。杉丸ら²⁾は表面粘膜が典型的な暗赤色を示さなかった下咽頭血管腫を報告しているが、その例では外切開による腫瘍摘出時の迅速組織診で初めて血管腫との診断を得たとしている。本例の血管腫も表面粘膜は正常であったため、視診による診断は不可能であった。また、炎症反応が高度で、血管腫の部位も後壁正中であり、咽後膿瘍の可能性も否定

できなかったことから, 外切開による生検を行った。また, 生検によって診断がついたこと, および症状が強く早期の治療が必要と考えたことから, 本例では MRI は行わなかった。また, 嚥下障害のため下咽頭食道透視は不可能であったが, 喉頭高圧側面 X 線による側面方向の情報は診断に際して有用であった。

血管腫の治療は, 本例のような手術療法以外に, レーザーによる光凝固や塞栓術, 凍結療法, アルコール局注療法などがある。下咽頭や喉頭に生じた血管腫に対しては, 従来の報告では大半の症例で手術療法が選択されているが, 最近では, 特に浅在性のものに対してレーザーによる光凝固が有効であったとする報告が多くなっている^{8)~10)}。本例では腫瘍が深在性であったこと, 巨大であったこと, 早急に嚥下困難を解消する必要があったことから手術療法を選択した。

血管腫の手術の問題点としては, 出血と周辺組織の変形がある¹¹⁾。出血は時に多量となることがあり, 術前の塞栓術¹²⁾や縫縮¹¹⁾を勧める例もあるが, 肝以外の海綿状血管腫では大出血の可能性は低いとされている³⁾。本例では生検の際の出血が少量であったこともあり, 塞栓術等を行わなかった。周辺組織の変形に関しては下咽頭血管腫の場合は喉頭機能の障害および粘膜欠損が問題となる。本例は後壁型であったため喉頭機能に全く障害は生じなかった。粘膜欠損は, 血管腫の茎の小さいものでは縫縮できるが, 大きいものでは皮弁が必要となる。本例では広範な粘膜欠損に備えて遊離前腕皮弁の準備もしていたが, 深在性であったため全く粘膜欠損をきたすことなく摘出できた。

ま と め

下咽頭に生じたまれな血管腫の 1 例を経験した。血管腫は深在性で, 視診による診断は困難であり, 生検によって診断が確定した。血管腫は巨大で嚥下障害をきたしていたため外科的摘出を行った。血管腫は下咽頭収縮筋と咽頭挙筋の間隙に位置しており, 被膜に沿って, 下咽頭粘膜欠損をきたすことなく鈍的に摘出できた。摘出には前頸部の U 字型の切開による両側からの操作と胸舌骨筋の切断による喉頭の可動性の確保が有用であった。

なお, 本論文の要旨は第 61 回耳鼻咽喉科臨床学会(平成 11 年 6 月, 別府市)において口演した。

参考文献

- 1) 木田亮紀, 橋本真一, 飯田英信, 他: 下咽頭血管腫の 4 症例. 耳鼻臨床 補 78 : 158~164, 1995.
- 2) 杉丸忠彦, 田辺正博, 岩永迪孝, 他: 呼吸困難をきたした下咽頭血管腫症例. 日気食会報 46 : 21~25, 1995.
- 3) 堂坂善弘, 酒井 昇, 佐藤信清, 他: 喉頭・下咽頭に発生した巨大な海綿状血管腫の 2 症例. 日気食会報 46 : 318~322, 1995.
- 4) 中西 豊, 竹内英二, 北野博也, 他: 下咽頭血管腫例. 耳鼻臨床 89 : 345~350, 1996.
- 5) 天野康雄, 玉井 仁, 片山信仁, 他: 下咽頭血管腫の一例—MRI 所見を中心として—. 臨放 35 : 1427~1430, 1990.
- 6) 友田幸一, 岩井 大, 中川浩伸, 他: 口腔・咽頭・唾液腺血管腫の診断と治療. JOHNS 11 : 724~728, 1995.
- 7) 竹内洋介, 大谷地直樹, 三浦 巧, 他: 下咽頭に限局した血管腫の 2 例. 耳喉頭頸 62 : 855~859, 1990.
- 8) Parkin JL and Dixon JA : Argon laser treatment of head and neck vascular lesions. Otolaryngol Head Neck Surg 93 : 211~216, 1985.
- 9) Yellin SA, Labruna A and Anand VK : Nd : YAG laser treatment for laryngeal and hypopharyngeal hemangiomas ; a new technique. Ann Otol Rhinol Laryngol 105 : 510~515, 1996.
- 10) 庄司和彦: 口腔・咽頭血管腫に対する光凝固療法とは. 耳鼻咽喉科・頭頸部外科クリニカルトレンド Part 2 (野村恭也, 本庄 巖, 平出文久編). 178~179 頁, 中山書店, 東京, 1998.
- 11) Bardach J and Panje W : Surgical management of the large cavernous hemangioma. Otolaryngol Head Neck Surg 89 : 792~796, 1981.
- 12) Schrudde J and Petrovici V : Surgical treatment of giant hemangiomas of the facial region after arterial embolization. Plast Reconstr Surg 68 : 878~889, 1981.

(原稿受付: 平成 11 年 8 月 4 日
原稿採択: 平成 11 年 8 月 18 日
別刷請求先: 平海晴一
〒668-8501 豊岡市立野町 6-35
公立豊岡病院耳鼻咽喉科)