咽喉頭異常感を主訴とした脳幹腫瘍例

松村 優子・田部 哲也・唐帆 健浩
大前由紀雄*・北原 哲

A Case of Brainstem Tumor with the Onset of Abnormal Sensations in the Throat

Yuko Matsumura, Tetsuya Tanabe, Takehiro Karaho and Satoshi Kitahara
(National Defense Medical College)

Yukio Omae
(Tokyo Metropolitan Geriatric Hospital)

A 23-year-old man complained of abnormal sensations in his throat and dysphagia for 4 months. He had a variety of other complaints such as general fatigue, anorexia, nausea, and vomiting. He was diagnosed with dysautonomia, but the complaints persisted. He consulted our clinic on Dec. 2, 1996. Videofluoroscopic findings showed aspiration, retention of barium in valleculae and pyriform sinuses, and an incomplete opening of the upper esophageal sphincter (UES). Manometric findings revealed abnormal relaxation of the UES, low pharyngeal pressures during pharyngeal contraction, and simultaneous contractions of the pharynx, which suggested a swallowing disorder. MRI revealed the existence of a brainstem tumor. Videofluoroscopy and manometry were useful for objectively assessing the abnormal sensations in his throat and dysphagia.

Key words : brainstem tumor, dysphagia, dysautonomia, videofluoroscopy, manometry

はじめに

咽喉頭異常感を訴える患者が、ほかにも自律神経失調症状を思わせる多彩な訴えを有するとき、器質的疾患を除外した上で、自律神経失調による不定愁訴としての咽喉頭異常感症と診断されることがある。

自律神経失調症とは、さまざまな身体的自律神経失調性愁訴を有し、諸種検査で除外診断が行われた上で、器質的疾患の見い出されない機能的疾患群と定義されている¹⁾。原因となる障害部位は多岐にわたるため、各臓器別に機能検査を行い、結果を総合して診断しなければならない²⁾。

今回、咽喉頭異常感をはじめとした多彩な症状から、

当初自律神経失調症および咽喉頭異常感症として対処されていた脳幹部腫瘍の1症例を経験したので報告する。

症 例

症例：23歳，男性。

主訴：咽喉頭異常感，嚥下困難感。

現病歴：1996年8月頃より主訴が出現し、近医で胃炎の診断にて投薬を受けるも症状不変であった。9月頃より、手指、足先のしびれ感も出現したため、某病院神経内科を受診し、自律神経失調症の診断で経過観察されていた。その後も症状が続くため、11月22日当院内科を受診し、血液検査、神経学的所見等に異常を認めず、咽喉

表 1 初診時の自覚症状

- 身体が非常にだるくて 1 日中寝てばかりいる.
- 食物を飲んだり食べたりすると, のどにつまる感じで嘔吐してしまう.
- 吐き気がして気持ちが悪く, 嘔吐することが多い.
- 食欲が全くない.
- 1 日に, ティッシュを 1 箱から 2 箱も使うほど, 頻繁に痰がからんできれない.
- 声がかれてでないので, 話すことがつらい.
- 手足の先が冷たくて, 血行が悪い.
- 手足の先がしびれていて字が書けない.
- 立ちくらみがひどく, 歩いていても, 倒れてしまう.
- 後頭部の付け根が痛む.
- いらいらして怒りっぽい.

頭領域の精査のため 12 月 2 日当科を紹介受診した.

現症および検査所見: 初診時には多彩な自覚症状を訴えていた(表 1). 咽喉頭領域に明らかな器質的異常を認めなかったが, 咽頭反射の消失と, 両側梨状陥凹の著明な唾液貯留を認めた. 精査のため, 咽頭食道造影検査を

施行した.

咽頭食道透視画像の正面二重造影像(図 1 a)では, 喉頭蓋谷と両側梨状陥凹に造影剤の残存貯留を認め, 咽頭クリアランス能の著明な低下を示した. 側面充盈像(図 1 b)では, 食道入口部開大不良と下降期型誤嚥を認めた. また, 食道蠕動運動の低下を認めた. しかし器質的異常は認めず, これらの所見から機能的嚥下障害を考え, 嚥下圧検査も施行した.

舌根, 喉頭蓋谷, 下咽頭, 食道入口部の各部位の嚥下圧を同時に測定し, 嚥下圧波形を 50 mm/秒で記録した³⁾. 図 2 に, 本症例, および比較のために同検査を施行した対照群の健常成人ボランティア 8 例のうち 1 例の嚥下圧波形(1 回嚥下量は 140% 硫酸バリウム 5 ml)を示した. 各 3 回ずつ嚥下圧を測定し, その嚥下圧波形から食道入口部弛緩開始時を基準として, 各部位の最大嚥下圧波ピーク出現時を測定し, 分散分析にて対照例 8 例と本症例を比較検討した(図 3). 各部位の最大嚥下圧波のピークが対照例では順次出現しているのに対して, 本症例ではほぼ同時に出現しており, 嚥下時の咽頭収縮圧の

図 1 咽頭食道透視画像

- 正面二重造影像. 咽頭クリアランス能の著明な低下を認めた.
- 側面充盈像. 食道入口部開大不良と下降期型誤嚥を認めた.

図2 嚥下圧波形

図3 食道入口部弛緩開始時を基準としたときの最大嚥下圧波ピーク出現時

伝搬異常が示唆された⁴⁾。

図4に各部位の最大嚥下圧値、図5に食道入口部の弛緩時間と弛緩圧値の結果をグラフで示した。最大嚥下圧値は、すべての部位で本症例が対照例より低く、咽頭収縮力⁴⁾の低下が示唆された。また、本症例の食道入口部の弛緩時間は対照例より有意に短く、弛緩圧は対照例より有意に高値であり、食道入口部弛緩不全が考えられた。

経過：以上の検査結果より、咽頭期における機能的嚥下障害を呈する疾患の存在を疑い中枢性疾患の検索として、頭部CT検査を施行したが明らかな異常所見を認めなかった。MRI検査を予定して内科と併診で経過観察

していたところ、10日後に歩行困難が出現した。このとき、四肢筋力、緊張共に正常で、筋萎縮、小脳失調症状等も認めず、異常所見として左方注視眼振が認められた。

その2週間後、さらに左右注視方向性眼振、舌右方偏位、右下腿振動覚低下、両側腱反射亢進、ロンベルグ陽性、構音障害、膀胱直腸障害が出現し、下位脳神経障害、脳幹および後索障害が強く疑われた。

12月27日に施行した頭部MRI検査で、延髄から頸髄接合部にかけて、T1強調画像で低信号、T2強調画像で高信号を示し、ガドリニウムで周囲を強くエンハンスされる内部不均一で辺縁不整な髄内性腫瘍を認めた(図6)。脳幹部腫瘍の診断で、1997年1月16日当院脳神経外科にて開頭腫瘍切除術による後頭蓋窩減圧術を行った。病理組織診断は未分化型星状細胞腫であった。術後、ニトロソウレア系薬剤、インターフェロン-βおよび放射線併用療法が施行されたが著効なく、同年11月呼吸不全にて死亡した。

考 察

自律神経機能の検査法は、①愁訴による方法、②理学的的方法、③薬理学的的方法、④生化学的方法、⑤電気生理学的的方法などがあり⁵⁾、このうち愁訴による方法では、阿部ら¹⁾がコーネルメディカルインデックスから自律神経失調症状に関係が深いとして選んだ43項目が、問診に

図4 最大嚥下圧値

図5 食道入口部弛緩時間と弛緩圧値

用いられることがある。本症例の自覚症状(表1)の11項目のうち8項目がこれにあてはまった。このように自律神経失調症状を思わせる症状が多彩で、かつ自覚症状を認めた初期の段階での諸検査で、器質的疾患を示唆する所見を認めなかったことより、自律神経失調症状による不定愁訴として対処され、咽喉頭異常感・嚥下困難感に対しても、いわゆる咽喉頭異常感症として対処された可能性は否定できない。

当科では咽喉頭異常感を主訴とする患者に対し、問診や耳鼻咽喉科領域の視診を行った上で、検査に同意を得たものについては咽頭食道造影検査を施行し、さらなる検索が必要と考えた場合は、嚥下圧検査を施行している。本症例は耳鼻咽喉頭領域に器質的異常を認めなかったが、

咽喉頭視診所見にて、嘔吐反射の消失や、梨状窩への唾液貯留などの所見を認め、さらに咽頭食道造影検査および嚥下圧検査から、嚥下時咽頭収縮波の伝搬異常、咽頭収縮力の低下、食道入口部弛緩不全所見などを認めたため機能的嚥下障害を呈する疾患の存在を疑い得た。このことから、咽喉頭異常感を訴える患者に対する器質的および機能的異常を検索する上で、咽頭食道造影検査は有用であると考えた。また、嚥下圧の測定値を対照例と比較することで、嚥下障害について詳細かつ客観的な検討が可能であり、臨床診断に有益な情報を得ることができると考えた。

画像診断において、骨によるアーチファクトの影響を受けるCTよりも、骨の影響を受けず矢状断像が得られるMRIの方が、側頭骨、後頭骨、蝶形骨に囲まれた後頭蓋窩病変の診断に優れる⁶⁾⁷⁾。本症例もCTでは明らかでないが、MRIでは腫瘍陰影が鮮明に描出されており、後頭蓋窩領域である脳幹部の画像診断には、診察当初よりMRI検査を予定すべきと反省させられた。

進ら⁸⁾は、咽喉頭知覚からの入力、孤束核内のニューロンに収束された後、延髄網様体内にあるニューロンに伝えられ、入力が一定の閾値に達すると、嚥下のパターン形成器が活性化され、パターン出力のプログラムに従い、疑核内のニューロンが順次駆動され、反射的に一連の咽喉頭共同運動(咽頭期嚥下)が惹起されるとしている。森⁹⁾は、嚥下時咽頭収縮圧の伝搬異常は、この嚥下中枢

図6 頭部 MRI 画像

a. T1 ガドリニウム強調画像. b. T2 強調画像. 延髄から頸髄接合部にかけて, T1 強調画像で低信号, T2 強調画像で高信号を示し, 周囲をガドリニウムで強くエンハンスされる, 内部不均一で辺縁不整な $2.7 \times 2.5 \times 4.3$ cm の髄内性腫瘍を認めた.

におけるパターン出力のプログラムが障害された結果生じた嚥下関与筋の活動時期の異常によるとしている. 本症例は, 咽喉頭異常感や嘔気を訴え, 咽頭刺激による嘔気も自覚したが嘔吐反射は認めず, また咽頭期における嚥下障害を認めたことから, 咽喉頭知覚の求心路機能は残存していたが, 中枢から出力に至るまでの経路が腫瘍により主に障害され, パターン出力のプログラム障害が生じ, 嚥下時咽頭収縮圧の伝搬異常や咽頭収縮圧の低下を呈したと考えた. この時点での障害部位は, 嘔吐中枢の存在する延髄網様体外背側部¹⁰⁾, 食道蠕動運動の遠心性線維がおこる迷走神経背側運動核¹¹⁾, 嚥下中枢が存在する延髄網様体背側部¹²⁾, 嚥下運動核である疑核などが想定され, 腫瘍を延髄中心側に認めた MRI 画像所見と一致した.

延髄網様体は, 自律神経調節の最高位中枢である視床下部¹¹⁾と連絡してさまざまな自律機能を調節するほかに, 脳神経運動核の運動ニューロンとの間に線維連絡を持ち, 姿勢を保持する反射と関係があるとされている¹³⁾. Masdeu ら¹⁴⁾は, 食欲不振を呈した延髄神経膠腫症例の報告で, 食事摂取の調節における延髄の重要性を示唆している. 本症例が当初訴えた多彩な自律神経失調症状は, 自律神経系の調節に重要な役割を果たすこの延髄網様体の障害により生じたものと推測された.

さらに, 腫瘍の増大や周囲組織の浮腫により周辺の脳神経核や後索まで障害が及び, 構音障害, 舌偏位, 眼振, 深部知覚異常, 協調運動障害による歩行困難が出現したと考えた.

まとめ

1. 咽喉頭異常感を主訴とした脳幹部腫瘍の1症例を経験した.

2. 神経学的異常所見が顕著となる前に, 咽頭食道造影検査から機能的嚥下障害所見を認め, 中枢性疾患の存在を疑い得た.

3. 咽喉頭異常感を訴える症例に対する検査として, 咽頭食道造影検査の有用性を再認識すると共に, 嚥下圧検査は嚥下機能を客観的に評価し, 臨床診断に有益な情報を得ることができると考えた.

本稿を終えるにあたり, 御協力を賜りました防衛医科大学校脳神経外科学講座千ヶ崎裕夫前教授, 島克司教授, 石原正一郎先生に深謝致します.

本論文の要旨は, 第59回耳鼻咽喉科臨床学会(1997年6月京都), 第72回日耳鼻埼玉県地方部会(1999年6月浦和)において口演した.

参考文献

- 1) 阿部達夫, 筒井末春: 不定愁訴患者の扱い方. 治療 46 : 1253~1261, 1964.
- 2) 片山宗一, 浮田和照, 長澤雅和: 自律神経失調症の診断基準・病理分類・重症度. 内科 75 : 1409~1413, 1995.
- 3) 大前由紀雄: 4点同時嚥下圧検査による嚥下動態の評価. 耳鼻臨床 86 : 573~583, 1993.
- 4) McConnel FMS : Analysis of pressure generation and bolus transit during pharyngeal swallowing. Laryngoscope 98 : 71~78, 1988.
- 5) 中野弘一: 自律神経機能検査法. 耳鼻咽喉科・頭頸部外科 MOOK (野村恭也編). 129~138頁, 金原出版, 東京, 1988.
- 6) 根本 裕: 後頭蓋窩腫瘍. 中枢神経疾患のMR診断(井上佑一編). 104~122頁, 金原出版, 東京, 1990.
- 7) 高橋睦正: 中枢神経の画像診断. 中枢神経疾患の画像診断(高橋睦正編). 1~25頁, 南江堂, 東京, 1989.
- 8) 進 武幹, 高木誠治: 嚥下の中枢制御機構. 日気食会報 49 : 395~404, 1998.
- 9) 森 敏裕: 嚥下第二期における嚥下圧動態の研究. 日耳鼻 95 : 1022~1034, 1992.
- 10) Herbert L, Borison and Wang SC : Physiology and pharmacology of vomiting. Pharmacol Rev 5 : 193~230, 1953.
- 11) 荒木淑郎: 感覚と自律系. 自律神経疾患 基礎と臨床(宇尾野公義編). 47~51頁, 金原出版, 東京, 1992.
- 12) Doty RW, Richmond WH and Storey AT : Effect of medullary lesions on coordination of deglutition. Exp Neurol 17 : 91~106, 1967.
- 13) 伊藤 隆: 中枢神経系. 解剖学講義(発行者 鈴木正二). 647~770頁, 南山堂, 東京, 1986.
- 14) Masdeu JC and Ross ER : Medullary satiety. Neurology 38 : 1643~1645, 1988.

(原稿受付: 平成12年 2月28日
原稿採択: 平成12年 4月12日
別刷請求先: 松村優子
〒359-8513 所沢市並木3-2
防衛医科大学校耳鼻咽喉科学講座)