呼吸障害で発症した下咽頭・喉頭良性腫瘍

鈴木 弥生¹⁾・戸島 均²⁾・市村 恵³⁾

Epiglottic Pleomorphic Adenoma and Hypopharyngeal Lipoma Causing Airway Obstruction

Yayoi Suzuki

(University of Tokyo)

Hitoshi Tojima

(Hitachi General Hospital)

Keiichi Ichimura

(Jichi Medical School)

Only a few cases of benign tumors in the larynx and hypopharynx have been reported in the literature. Benign tumors in this area can take prolonged courses and may cause serious consequences. This report discusses a case of pleomorphic adenoma of the larynx and a case of large hypopharyngeal lipoma both of which resulted in sudden airway obstruction.

Case 1 was a 47-year-old male who complained of a sore throat while swallowing. A yellow, large smooth tumor in the epiglottis expanding from glottic surface to laryngeal surface was revealed using fiberscopy. Immunohistochemistry of the biopsy specimen suggested the tumor was a pleomorphic adenoma, and subsequently a tracheostomy was performed to relieve the airway obstruction. The tumor was completely excised via a horizontal laryngectomy.

Case 2 was a 58-year-old female who experienced suffocation while eating. Fiberscopy showed a yellow, large smooth tumor expanding from hypopharynx to aryepiglottic fold. Biopsy and an emergency tracheostomy was performed. The tumor was removed completely via a lateral pharyngotomy approach. The 5.5×4.3×2.7 cm tumor was pathologically diagnosed as lipoma, and was contained within the thyropharyngeal muscle, intramuscular type.

Key words : pleomorphic adenoma, lipoma, benign tumor, larynx, hypopharynx

はじめに

下咽頭・喉頭領域の良性腫瘍の報告は比較的少ない。多形腺腫は耳下腺に発生することが多いが他の部位では少なく、喉頭蓋に生じたものは本邦で6例報告されているのみである。また脂肪腫は良性腫瘍のなかでは頻度の高い腫瘍であるが、下咽頭に発生した報告は15例程度である。今回、われわれは呼吸障害を呈した喉頭・下咽頭

良性腫瘍、すなわち喉頭蓋に生じた多形腺腫の1例および下咽頭の巨大脂肪腫の1例を経験したので文献的考察とともに報告する。

症 例

症例1 : 47歳, 男性。

主訴 : 嚥下困難・嚥下時の息苦しさ・嚥下痛。

1) 東京大学耳鼻咽喉科学教室

2) 日立製作所日立総合病院耳鼻咽喉科

3) 自治医科大学耳鼻咽喉科学教室

図1 症例1の初診時所見

(左) 喉頭ファイバースコープ所見：喉頭蓋舌面から喉頭面にまたがる表面平滑，黄色球形の腫瘍。

(右) MRI T2強調冠状断像：高輝度の陰影が喉頭蓋の両面に進展しており，内部は不均一である。

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

生活歴：飲酒 日本酒1～2合/日，喫煙 タバコ20本/日。

現病歴：1年程前より飲み込みにくいなどの症状を自覚。最近，食餌嚥下後に一瞬，息苦しさを感ずることがあった。初診の4日前，嚥下痛が出現し，近医耳鼻咽喉科において喉頭蓋の腫瘍を指摘され，精査加療のため当院を紹介受診した。

初診時現症：話声は含み声，全身所見では特に異常を認めない。一般血液検査，心電図，胸部X線像に異常を認めない。

局所所見(図1)：喉頭ファイバースコープでは，喉頭蓋舌面から喉頭面へ貫通する表面平滑，黄色球形の腫瘍を認めた。CTでは，喉頭蓋中央～左半分から左喉頭蓋谷に進展する腫瘍を認める。頸部リンパ節腫脹なし。MRIでは，T1強調画像で比較的低輝度，T2強調画像で高輝度の腫瘍を認め，矢状断画像では喉頭蓋の両面に進展していた。

経過：嚥下時呼吸困難の恐れがあるため気管切開を行い，喉頭直達鏡下に生検を施行した。喉頭蓋の左側に腫

瘍が存在しており，充実性であった。病理組織学的検査では多形腺腫ないしカルチノイド腫瘍が疑われた。

平成10年9月に腫瘍摘出術を施行した。頸部を外切開，経舌骨的にアプローチし，喉頭上水平部分切除を行った。腫瘍は最大径4cm，喉頭蓋を舌面から喉頭面に貫通し，被膜に包まれていた(図2)。

術後は経口摂取に問題なく気管切開孔を閉じて退院し，経過順調である。

病理組織学的診断(図3)：好酸性の胞体を持ち，一部 intracytoplasmic lumen に容れる。粘液腫様の間質を持つ部分と扁平上皮への分化を示す部分が混在し，多形腺腫と診断された。免疫染色ではNSE(+), S-100(+), サイトケラチン(+), chromogranin A(±), Fontana-Masson(-), Grimelius(-), CEA(-), EMA(-)であった。

症例2：58歳，女性。

主訴：嚅声，嚥下困難，嚥下時の呼吸困難。

既往歴：高血圧，高コレステロール血症で加療中。

家族歴：特記すべきことなし。

生活歴：飲酒，喫煙ともになし。

現病歴：1年前より声が出しづらい，飲み込みにくい

図2 摘出標本(左:喉頭蓋喉頭面, 右:喉頭蓋舌面)
腫瘍は最大径4 cm, 喉頭蓋舌面から喉頭面に及び, 被膜に包まれていた。

などの症状が出現した。初診の4日前, 食事中一過性に呼吸ができない状態に陥ったため, 精査加療を希望し当院受診した。

初診時現症: 話声は含み声。全身所見上特に異常を認めない。一般血液検査, 心電図, 胸部X線像に異常を認めない。

局所所見: 喉頭ファイバーにて観察すると声門上部に黄色球形の腫瘍が認められ, これが喉頭入口部をほぼ閉塞していた(図4)。画像上は, 咽頭造影では下咽頭前壁から咽頭腔に充満して存在する腫瘍, 造影CT軸位断で

図3 病理組織所見(HE染色, ×10)

好酸性の胞体を持ち, 一部 intracytoplasmic lumen に容れる。粘液腫様の間質を持つ部分(*印), 扁平上皮への分化を示す部分(矢印)が混在し多形腺腫に特徴的である。

図4 症例2の初診時喉頭ファイバースコープ所見
喉頭腔の黄色球形の腫瘍が喉頭入口部をほぼ閉塞する。

は, 下咽頭の右側披裂部から対側披裂部まで広がる低密度領域, MRI では, T1 強調, T2 強調ともに高信号を呈する境界明瞭な領域を認めた(図5)。

経過: 気道確保のため気管切開を行い, 硬性喉頭鏡下に生検を施行した。腫瘍は弾性軟, 黄色の表面平滑の腫瘍で, 被膜を有していた。大きかったため茎が披裂部～後壁のどこにあるかは確認できなかった。病理組織学的検査では核の異型性は認められず, 脂肪腫と診断された。

平成10年10月全身麻酔下に腫瘍摘出術を施行した。胸鎖乳突筋前縁に沿って右頸部切開しアプローチしたところ, 甲状咽頭筋筋層内に被膜に包まれた黄色の腫瘍を認めた(図6)。腫瘍は対側披裂部まで広がり, 喉頭を圧排していた。反回神経を輪状甲状間膜貫通部まで確認保存した後, 腫瘍の被膜に沿って剥離を進めたところ, 周囲との癒着はほとんど認められなかった。被膜は披裂軟骨に接していたが, 剥離可能であった。生検を行った1カ所は粘膜との癒着が強かったため一部の咽頭粘膜を合併切除した。粘膜切除部を縫合閉鎖し, 創を2層に縫合し手術を終了した。

術後は患側の声帯は固定するも経口摂取に問題なく, 気切孔を閉鎖し退院となった。

病理診断: $5.5 \times 4.3 \times 2.7$ cm の腫瘍。被膜に包まれ, 断面は脂肪調を呈する。組織学的には, 薄い血管線維組織で画された成熟した脂肪組織であった。

図5 症例2の画像所見

(左) 造影CT軸位断像. 右下咽頭の披裂部から後壁を経て対側まで広がる低密度領域. 喉頭は圧排されている.

(右) MRI T2強調矢状断像. 下咽頭に充満する高信号の境界明瞭な領域.

図6 術中所見および病理組織標本(HE染色, ×20)

(左) 右頸部を切開してアプローチした. 甲状咽頭筋筋層内に被膜に包まれた黄色の腫瘍を認めた. 大きさ $5.5 \times 4.3 \times 2.7$ cm, 周囲との癒着はなかった.

(右) 薄い血管線維組織で画された成熟した脂肪組織.

考 察

症例1は47歳男性の喉頭蓋に発生した多形腺腫、症例2は58歳女性の下咽頭に発生した巨大脂肪腫であった。いずれも受診直前に嚥下時の気道閉塞症状を示しており、治療には外切開法による腫瘍摘出術を必要とした。

多形腺腫は耳鼻咽喉科領域では耳下腺などの大唾液腺に多く発生する。従来の報告の集計では92.5%が大唾液腺由来であり¹⁾、なかでも耳下腺が46~75%を占める²⁾。喉頭多形腺腫の報告は少なく、太田ら³⁾の調査では、今までに本邦で10例(うち喉頭蓋6例)の喉頭多形腺腫が報告されているのみである。海外の症例も少なく、声門下に生じたものが散見される程度である⁴⁾⁵⁾。症例1では、腫瘍が喉頭蓋を貫通し、舌面および喉頭面の両面への発育を示した点が特徴的であった。しかし組織標本では軟骨への浸潤像は認められなかった。解剖学的には喉頭蓋軟骨は多孔性であることが知られており⁶⁾、この孔を経由して進展したものと考えられた。斎田ら⁷⁾も喉頭蓋喉頭面~喉頭蓋谷へと進展した症例を報告している。

脂肪腫は、四肢、軀幹の皮下に多い限局性腫瘤で、軟部組織腫瘍では最も頻度が高い。骨格筋に關係する脂肪腫は、intramuscular type および intermuscular type に分けられ⁸⁾、さらに intramuscular type は infiltrating type (横紋筋組織内に浸潤増殖するもの)、non-infiltrating type (結合組織の被膜に覆われ浸潤のないもの)に分類できる⁹⁾。症例2は甲状咽頭筋内に被膜に包まれた腫瘍が発生しており、intramuscular non-infiltrating type に属すると考えられた。脂肪腫は下咽頭領域に発生することはまれである。本邦では現在までに約15症例の下咽頭脂肪腫が報告されているのみであり、海外での報告例も

少ない。しかし、下咽頭から進展した脂肪腫が喉頭脂肪腫として報告されることも多く、また本症例のように喉頭蓋型と下咽頭型の区別は厳密には不可能であるため¹⁰⁾、実際の下咽頭脂肪腫の症例数はこれより多い可能性もある。過去の文献を渉猟したところ、披裂部~下咽頭部の脂肪腫について詳細な記載のあった症例は23例存在した。このうち5症例で呼吸障害を呈していた(表1)^{11)~16)}。

喉頭・下咽頭良性腫瘍の診断にはMRIなどの画像検査も有効だが³⁾、確定診断には直達喉頭鏡下に生検を行い、できるだけ大きな検体を採取することが必須である。多形腺腫はその多形性のため検体が小さいと組織診断が難しく、また多形腺腫内癌腫が存在することもある¹⁷⁾¹⁸⁾。脂肪腫については、脂肪肉腫との鑑別が困難な例が報告されている。

本疾患の治療にあたっては、下咽頭の解剖学的位置および良性腫瘍が長期間にわたり増大しうることを考慮し、呼吸障害の発生に十分な注意を払う必要がある。無症状に経過し、突然重篤な症状で発見されることがある¹⁴⁾。Mansson ら¹⁹⁾は治療開始前に窒息のため死亡した2例を報告している。本症例においても一時的な窒息状態に陥っており、術前の気道狭窄の正確な評価と気道確保の重要性を再認識させられた。

喉頭・下咽頭領域の良性腫瘍は頻度が少ないため、手術方法は必ずしも確立されたものではない。喉頭多形腺腫に関しては、今までの本邦の症例では喉頭微細手術ないし外切開により腫瘍を摘出したとする報告が多い。最近ではレーザーの使用も推奨されている。再発ないし悪性転化は核出手術症例および手術中に被膜が破れ、細胞播種が起こった症例に多いといわれており、初回手術で

表1 過去に発表された披裂部~下咽頭領域の脂肪腫症例。呼吸障害を呈したものの。

	報告者	発表年	年齢	性別	主 訴	発生部位	型	大きさ	治療法	組織診断	備 考
1	滝野ら ¹¹⁾	1960	36	女	咽頭異物感, 嚥下困難, 呼吸困難	下咽頭後壁 右側	有茎性	7.5 g	口内	脂肪腫症	
2	進ら ¹²⁾ 松田ら ^{13)*}	1976 1990	43	男	喉頭異物感, 嚥下痛, 軽度呼吸困難	左披裂部	広基性	21 g 5×3×0.5 cm	口内3回 (laser) 外切開1回	脂肪腫	同一症例再発
3	岡部ら ¹⁴⁾	1989	?	?	呼吸困難	?	?	?	口内	脂肪腫	
4	橘ら ¹⁵⁾	1994	69	女	嚥下障害, 労作時呼吸困難	後壁	粘膜下	3×2.5×2 cm	口内7回 外切開2回	脂肪腫	再発
5	菅ら ^{16)*}	1994	64	男	呼吸困難	右披裂喉頭蓋ヒダ	広基性	6×7.5×5 cm	口内	紡錘形細胞脂肪腫	頸部脂肪腫 摘出後再発例

* 印の症例は喉頭脂肪腫として発表されているもの。

の完全摘出が必要である。症例 1 では、経舌骨的に声門上喉頭水平部分切除術を行うことで十分な視野が得られ、腫瘍を周囲組織をつけて完全摘出することができた。

脂肪腫の治療法としては、口内法(喉頭直達鏡下に絞断器を用いたものが多い)、および外切開法を行ったものの双方が報告されている。腫瘍が大きい場合には外切開により十分な視野をとることが必要である²⁰⁾。脂肪腫も完全摘出すれば再発はまれとされている²¹⁾が、完全摘出できなかった例で再発を繰り返したもの¹³⁾¹⁵⁾など今回渉猟した23例では再発例が5例報告されていた。特に症例 2 のような intramuscular type は位置的に完全摘出が難しいため再発率が高く²²⁾、なかでも non-infiltrating type は再発率が高く長期間経過後の再発があるといわれており¹⁵⁾、今回のように外切開法による完全摘出を行うべきであると考えられた。

症例 1 の今後の経過観察においては、多形腺腫の再発率の高さを考慮に入れる必要がある。再発率が高い原因としては、多形腺腫では主腫瘍の被膜外に娘結節が存在することがあり、また被膜を破って進展する例が多い²³⁾といわれており、本症例のように被膜内ではあるが喉頭蓋の両面への発育を示すような症例では今後注意を要する。悪性転化例も報告されており⁷⁾²⁴⁾²⁵⁾、長期間の経過観察が必要と考えられる。症例 2 の脂肪腫に関しても、再発を繰り返すうちに脂肪肉腫に変化した症例⁹⁾²⁶⁾²⁷⁾も報告されており、長期にわたって経過を観察していく必要がある。

結 論

1. 呼吸障害を呈した喉頭および下咽頭の良性腫瘍を経験したので報告した。

2. 症例 1 は47歳男性、喉頭蓋舌面～喉頭面に及ぶ表面平滑、黄色球形の腫瘍があり、声門上喉頭水平部分切除により完全摘出がなされた。病理診断は多形腺腫であった。

3. 症例 2 は58歳女性、嚥下時の呼吸障害にて発症した。甲状咽頭筋内に発生した腫瘍が喉頭上部をはば閉塞していたが、外切開(側切開法)により完全に摘出できた。病理学的には脂肪腫であり、intramuscular type (non-infiltrating type) であった。

4. 喉頭・下咽頭の良性腫瘍は、長期間無症状に発育し突然重篤な症状を呈することがある。診断・治療方針決定・呼吸障害防止のためには生検および術前の気管切

開が有効と考えられた。

稿を終えるにあたり、御指導、御校閲を賜りました東京大学医学部耳鼻咽喉科学教室・鈴木光也先生、病理学上の御教示を頂いた日立総合病院病理科・鴨志田敏郎先生、御助力を賜りました筑波大学医学部耳鼻咽喉科学教室・辻茂希先生に深く感謝いたします。

参考文献

- 1) 大久保泰, 三橋重信, 平野 実: 喉頭蓋に発生した多形腺腫の一症例. 耳鼻 27: 680~684, 1981.
- 2) Cotelingam JD, Barnes L and Nixon V: Pleomorphic adenoma of the epiglottis. Arch Otolaryngol 103: 245~247, 1977.
- 3) 太田 康, 仙波哲雄, 伊藤 健, 他: 喉頭蓋多形腺腫例. 耳鼻臨床 88: 1067~1071, 1995.
- 4) Jokinen K, Seppala A and Palva A: Laryngeal pleomorphic adenoma. J Laryngol Otol 88: 1131~1134, 1974.
- 5) Argat M, Born I, Maier H, et al: Pleomorphic adenoma of the larynx. Eur Arch Otorhinolaryngol 251: 304~306, 1994.
- 6) 解剖 一喉頭軟骨一. 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). 312~327頁, 中外医学社, 東京, 1976.
- 7) 斎田春人, 鈴木吾登武, 飯田祐起子, 他: 喉頭の悪性多形腺腫の1症例. 耳展 33: 249~254, 1990.
- 8) Deschler D, Lee K and Tami T: Laryngeal infiltrating intramuscular lipoma. Otolaryngol Head Neck Surg 108: 374~377, 1993.
- 9) Eisele D and Landis G: Retropharyngeal infiltrating lipoma - a case report. Head Neck Surg 10: 416~421, 1988.
- 10) Harper A: Lipomata of the upper air and food passages. J Laryngol Otol 73: 419~422, 1959.
- 11) 滝野賢一, 日野原正: 下咽頭良性腫瘍 Lipomatose の1治療例. 耳展 3: 362~364, 1960.
- 12) 進 武幹, 野副 功, 大沢弘明, 他: 長期にわたり再発をくり返した下咽頭腫瘍の一症例. 耳鼻 22: 202~209, 1976.
- 13) 松田知愛, 森川郁郎, 進 武幹: 再発を繰り返した喉頭脂肪腫の1例. 耳鼻 36: 1022~1026, 1990.
- 14) 岡部かよ子, 桐山眞樹, 勝見容子, 他: 呼吸障害を来した下咽頭脂肪腫症例. 日耳鼻 92: 965, 1989.
- 15) 橋 敏郎, 徳永雅一, 江崎史朗, 他: 再発を繰り返した巨大後咽頭脂肪腫の一症例. 耳展 37: 531~534, 1994.
- 16) 菅 喜郎, 梅野祐芳, 野田哲哉: 喉頭に発生した脂肪腫の1例. 耳鼻 40: 765~768, 1994.
- 17) 松井克明, 橋本公夫, 岡本公夫, 他: 喉頭に発生したまれな悪性多形腺腫 (malignant pleomorphic adenoma) の1

- 例について. 耳鼻 28 : 454~457, 1982.
- 18) 加藤 拓, 高橋久雄, 井田喜博, 他 : 唾液腺病変の穿刺吸引細胞診. 臨床病理 42 : 648~655, 1994.
- 19) Mansson I, Wilske J and Kindblom L : Lipoma of the hypopharynx. J Laryngol Otol 92 : 1037~1043, 1978.
- 20) 山川純至, 折田洋造, 林 琢巳, 他 : 咽喉頭異常感を主訴とした咽頭良性腫瘍の1症例. 耳鼻臨床 補31 : 77~80, 1989.
- 21) Wenig BM and Heffner DK : Liposarcomas of the larynx and hypopharynx ; a clinicopathologic study of eight new cases and a review of the literature. Laryngoscope 105 : 747~756, 1995.
- 22) Chen K and Weinberg R : Intramuscular lipoma of the larynx. Am J Otolaryngol 5 : 71~72, 1984.
- 23) 安田範夫 : 耳下腺多形腺腫の治療 —多発性再発腫瘍の切除手術—. JOHNS 13 : 79~85, 1997.
- 24) Sabri J and Hajjar M : Malignant mixed tumor of the vocal cord. Arch Otolaryngol 85 : 832~834, 1967.
- 25) Milford C, Mugliston T, O'Flynn P, et al : Carcinoma arising in a pleomorphic adenoma of the epiglottis. J Laryngol Otol 103 : 324~327, 1989.
- 26) Kapur T : Recurrent lipomata of the larynx and the pharynx with late malignant change. J Laryngol Otol 82 : 761~768, 1968.
- 27) 末広倫夫, 斎藤龍介, 藤田 彰, 他 : 副咽頭間隙 atypical lipoma の1例. 耳喉 59 : 41~48, 1987.

(原稿受付 : 平成12年9月27日
原稿採択 : 平成12年12月20日
別刷請求先 : 鈴木弥生
〒113-8655 東京都文京区本郷7-3-1
東京大学医学部耳鼻咽喉科学教室)