喉頭蓋嚢胞と術前診断された血管腫例

服部 玲子・清水 猛史*・Alok Bhandari・間島 雄一

Hemangioma of the Epiglottis

Reiko Hattori, Alok Bhandari and Yuichi Majima

(Mie University School of Medicine)

Takeshi Shimizu

(Shiga University of Medical Science)

We describe a rare case of epiglottic hemangioma in 71-year-old female with dyspnea and abnormal sensation of the larynx. There was no associated history of hemoptysis. The lingual surface of the epiglottis was occupied by a whitish pink mass with a smooth surface. The preoperative diagnosis was an epiglottic cyst. Intraoperative direct laryngoscopy demonstrated that the mass arose from the right edge of the epiglottis. The tumor was resected by YAG laser with a blood loss of 350 ml, mainly originating from the feeding artery of the mass. However, bleeding was well controlled with electrocoagulation. The pathological diagnosis was venous hemangioma

Key words : hemangioma, epiglottis, cyst

はじめに

喉頭の血管腫はまれな疾患であるが、間接喉頭鏡や内視鏡による観察で比較的容易に診断をつけることができる。しかし、本例のごとく腫瘍が血管腫様の外観を呈しない場合は診断が困難である。今回、喉頭蓋嚢胞の術前診断にて手術加療を行ったところ、術中に動脈性出血をきたし、術後喉頭蓋血管腫と判明した1例を経験したので報告する。

症 例

患者：71歳、女性。

主訴：呼吸困難と咽頭部違和感。

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：2002年2月頃、運動時の呼吸困難と咽頭部違和感を自覚した。同年5月頃より嗄声および通過障害が出現したため、近医耳鼻咽喉科を受診し、喉頭蓋の腫瘤性病変を指摘され当科に紹介された。過去に吐血や血痰

の既往はなかった。

初診時所見：咽頭を観察すると、舌根部に腫瘤性病変の一部を認めた。喉頭ファイバースコープ検査では、喉頭上腔は白みを帯びたピンク色の表面平滑で毛細血管の走行がみられる腫瘤性病変で占められ、声門は直視できなかった（図1）。血管腫を示唆する暗赤色から黒紫色の特徴的な外観は呈していなかった。腫瘤の右側より喉頭蓋の一部が確認でき、ここからファイバースコープを喉頭側へ挿入して観察すると、腫瘤は声門に陥入することなく、声帯の可動性は良好で気道は保たれていた。その他耳鼻咽喉科的所見、血液学的所見などで異常は認めなかった。

手術所見：以上の所見より、喉頭蓋嚢胞の診断にて、入院の上2002年6月25日に喉頭直達鏡下腫瘤摘出術を施行した。腫瘤は粘膜のみで喉頭蓋に連続しており、腫瘤の基部は喉頭蓋先端から喉頭蓋舌面左寄りにかけて存在していた。YAGレーザーを用いながら、基部の切除を

図1 局所所見

A: 咽頭所見

舌根部に腫瘍性病変（太矢印）の一部を認めた。

B: 喉頭ファイバースコープ所見

喉頭上腔が白みを帯びたピンク色の表面平滑な腫瘍性病変（太矢印）で占められ、声門は直視できなかった。腫瘍の右側より喉頭蓋の一部（細矢印）が確認できた。

図2 摘出標本

A: 25×23 mm 大で粘膜に覆われた表面平滑で弾性軟な腫瘍であった。

B: 断面は赤褐色充実性だった。

すすめた。この操作中、出血はほとんどみられなかったが、基部の残り1/4の切除時に断端より動脈性出血を認めた。吸引嘴管で出血を吸引しながら吸引嘴管を介して出血部位の電気凝固を行い止血した。出血量は350 mlであった。摘出標本の大きさは25×23 mm 大で、粘膜で覆

われた表面平滑で弾性軟な腫瘍で、断面は赤褐色充実性であった（図2）。

病理組織検査では大小さまざまな血管腔を認めた。その血管構造は1層の内皮細胞とその周囲を輪層する多量の結合組織、まばらな平滑筋成分で構成されていた。病

図3 病理組織標本 (HE 染色, ×200)

大小さまざまな血管腔を認め、その血管構造は1層の内皮細胞とその周囲を輪層する多量の結合組織とまばらな平滑筋成分で構成されていた。病理診断は静脈性血管腫であった。

理診断は静脈性血管腫であった (図3)。

術後経過は良好で、1年が経過した現在まで再発を認めていない。

考 察

われわれが渉猟し得た本邦における成人の喉頭血管腫は1910～2003年の間に83例^{1)～33)}であった。男性43名、女性40名で男女差は認められなかった。好発年齢は20～60歳代が多く、40歳代にピークを認めた (図4)。70歳代以上では症例数は少なく、全体の10%を占めるのみであった。本例は71歳と高齢で発見された比較적まれな症例であった。

主訴は咽喉頭異常感が最も多く28%、次いで嚔声25%、呼吸困難、喘鳴16%の順であった。血痰や咯血など血管腫からの出血が主訴のものは9%と比較的少なく、無症状のものも7%認められた (表1)。喉頭血管腫は、その発生部位により血管腫以外の喉頭疾患にみられる多彩な症状を訴えるものが多く、血管腫特有の出血で発見される場合は決して多くない点を念頭に入れておくべきであろう。本例においても主訴は呼吸困難と咽頭部違和感であり、初診時には血管腫が疑われておらず、その診断には注意を要するものと思われた。

咽頭血管腫の発生部位は披裂部が最も多く、全体の33%を占めた。次いで多いのが喉頭蓋19%であった。この

図4 年齢・性別分布

うち発生部位が明らかに記載されていたものが12例で、喉頭蓋喉頭面に発生したもの7例、舌面に発生したものは本例を含めて5例であり、喉頭蓋舌面に発生したものは全体の約6%と比較的まれであることがわかる。喉頭蓋に次いで多いのが仮声帯17%、披裂喉頭蓋ヒダ11%、声帯11%、声門下5%であった (表2)。

喉頭血管腫の大きさは1～2cmが最も多く51%を占めた。次いで2cm以上が31%、0.5～1cmが10%、0.5cm以下が8%であった。本症例では2cmを超えており、過去の報告例のなかでも大きい方といえよう。

組織学的には海綿状血管腫が最も多く、次いで単純性血管腫が多く認められた。ちなみに本例は静脈性血管腫であった。

本例では腫瘍の摘出時まで喉頭血管腫とは診断されおらず、喉頭蓋嚢胞と考えられ、これを摘出する手術が

表1 喉頭血管腫の主訴

主訴	例 (%)
意識障害	1 (1)
呼吸困難 喘鳴	14 (16)
睡眠時無呼吸	1 (1)
鼾鼻	1 (1)
嚔声	22 (25)
咳嗽	2 (2)
血痰 咯血	8 (9)
咽喉頭異常感	24 (28)
嚔下障害	4 (5)
嚔下痛	2 (2)
咽頭痛	2 (2)
無症状	6 (7)

(重複例あり)

表 2 喉頭血管腫の発生部位

発生部位	例 (%)
披裂部	32 (33)
仮声帯	17 (17)
披裂喉頭蓋ヒダ	11 (11)
喉頭蓋	19 (19)
声門下	5 (5)
声帯	11 (11)
喉頭室	2 (2)
喉頭入口部	2 (2)

(重複例あり)

なされた。この理由として腫瘍が喉頭蓋嚢胞の最も多く発生する喉頭蓋舌面に存在したこと、また血管腫に特有な暗赤色や赤褐色¹⁾ではなかったこと、患者の症状が大きな喉頭蓋嚢胞で生ずるものと矛盾するものではなかったことが挙げられる。また腫瘍の表面に毛細血管の走行が認められたが、喉頭蓋嚢胞の表面には血管がしばしば存在し、嚢胞摘出時には同部位からの出血がみられることもあるため、術中は喉頭蓋嚢胞以外の疾患を考えておらず、摘出後に腫瘍が嚢胞性ではなく充実性であったことから喉頭蓋嚢胞以外の疾患に気づいた状態であった。本例の問題点をレトロスペクティブに考えると、本腫瘍の外観は表面平滑で白みを帯びたピンク色であり、多くの喉頭蓋嚢胞で特有の表面平滑で黄色の外観を呈していなかったことが挙げられる。典型的な喉頭蓋嚢胞の所見を有する場合には不必要であるが、本例のごとく典型的とはいえない場合には喉頭血管腫の可能性も念頭に入れて術前診断を下すべきであると反省させられた症例であった。

このような場合には画像診断が有用である。特に MRI は血管腫を T1 強調画像で等信号または低信号、T2 強調画像で高信号を示すため、造影なしでも血管腫の広がり評価できる²⁾。さらに Gd-DTPA 造影では T1 強調画像で造影効果を認める高信号の腫瘍として描出することができるため、ダイナミック MRI を併用することにより血行動態も評価することができ、診断には最も有用である²⁾³⁾。一方 CT の場合、特に海綿状血管腫は大きな血液貯留腔を持ち、輸入血管は細く血管内の血流が遅いためヨード造影剤は希釈されて造影効果が十分に発揮されない恐れがある³⁴⁾。以上の検査で血管腫の可能性が高いと判断された場合には、特に大きな血管腫症例では流入血

管の状態を確認するために血管造影検査を施行しておきたい。

われわれの施設では、喉頭蓋嚢胞の摘出は全身麻酔下にストルツの自在喉頭直達鏡を用いて行われている³⁵⁾。自在喉頭直達鏡は直達鏡の胴が上下に移動させることができるため、広い視野を得ることができるとともに、十分なワーキングスペースを確保できる。このため大きな喉頭蓋嚢胞であっても嚢胞壁を破ることなく喉頭蓋より完全摘出が可能である。本例では喉頭蓋嚢胞の術前診断であったため、同様の摘出方法がとられ、比較的容易に摘出することができた。術中唯一の出血は流入動脈からの出血であったが、出血を吸引しながら吸引嘴管を介して出血部位に電気凝固を施行し止血することができた。

過去の報告では喉頭血管腫の治療は直達喉頭鏡下になされたものと、外切開下になされたものが同数であった。直達喉頭鏡下の治療は本例のごとく有茎性の腫瘍には手術侵襲が少なく有用である⁴⁾。広基性の腫瘍であっても比較的限局した表在性のものであれば、直達喉頭鏡下に KTP レーザーによる光凝固が近年積極的に施行されている⁵⁾⁶⁾。KTP レーザーは、その波長が水に吸収されにくく、きわめてヘモグロビンに吸収され出血が少ないことから血管腫の治療には有用である⁵⁾。しかし血管腫が組織深部に及ぶ場合や、大型の腫瘍の場合は十分効果を発揮することができないといわれている。外切開下の摘出は視野を十分に確保することができ、止血も確実に施行できるため基部が明らかに同定できないか広基性で大きなものや、深部に進展した血管腫の摘出に適している^{2)7)~9)}。側咽頭切開が用いられる場合が多い⁸⁾。なお、本例のごとく喉頭蓋の場合は必要ないが、声門や声門上下で声門に近い血管腫の摘出または光凝固を施行した場合には術後の反応性浮腫の可能性を予想して気管切開を考慮することも重要である。

まとめ

呼吸困難と咽頭部違和感を主訴に受診した喉頭蓋腫瘍の症例に対し、喉頭蓋嚢胞の診断のもとに直達喉頭鏡下に摘出を施行した。腫瘍の基部は喉頭蓋舌面先端に存在した。組織学的には静脈性血管腫であった。喉頭蓋嚢胞の診断の際、まれではあるが喉頭蓋血管腫の存在も念頭に入れておくべきであろう。

参考文献

- 1) 三村幸弘, 岩田重信, 岩見公晴: 喉頭血管腫の2症例. 耳展 17: 475 ~ 481, 1974.
- 2) 竹村榮毅, 窪田哲昭, 松井和夫, 他: 咽頭側切開で摘出した喉頭血管腫の2症例. 耳鼻臨床 補 109: 86 ~ 90, 2002.
- 3) 山本一宏: Dynamic MRI による咽喉頭血管腫の評価. 耳喉頭頸 73: 522 ~ 526, 2001.
- 4) 早川和喜, 水田啓介, 久世文也, 他: 巨大喉頭血管腫例. 耳鼻臨床 87: 87 ~ 92, 1994.
- 5) 小坂道也, 中田道広, 赤木博文, 他: 目でみる耳鼻咽喉科一下咽頭及び喉頭血管腫に対する KTP レーザー光凝固一. 耳喉頭頸 69: 590 ~ 591, 1997.
- 6) 児嶋久剛, 平野 滋, 庄司和彦: 喉頭血管腫の診断と治療. JOHNS 11: 729 ~ 732, 1995.
- 7) 河田 了, 兵佐和子, 田中 斉, 他: 下咽頭側切開で摘出した喉頭血管腫症例. 耳喉頭頸 73: 607 ~ 610, 2001.
- 8) 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.
- 9) 牛尾宗貴, 沖田 渉, 佐々木徹, 他: 喉頭蓋海綿状血管腫の1症例. 耳喉頭頸 72: 527 ~ 531, 2000.
- 10) 島田哲明, 松井伸一郎, 安岡義人: 他喉頭血管腫の1例. 日耳鼻 106 増: 569 ~ 570, 2003.
- 11) 松田英賢, 谷本俊次, 長谷川賢作: 巨大な喉頭血管腫の1例. 日耳鼻 106 増: 600, 2003.
- 12) 西堀丈純, 水田啓介, 竹内秀行, 他: 巨大な喉頭血管腫の1例. 日耳鼻 105 増: 135, 2002.
- 13) 宮崎浩充, 高崎賢治, 中田孝重: 喉頭血管腫と喉頭帯状疱疹の2症例. 日耳鼻 104 増: 945, 2001.
- 14) 西村友紀子, 湯本英二: 喉頭血管腫の硬化療法. 耳鼻臨床 94: 676 ~ 677, 2001.
- 15) 山本一宏: ポリドカノールによる血管腫硬化療法. 耳鼻臨床 94: 801 ~ 807, 2001.
- 16) 西村友紀子, 湯本英二, 楠元聡太, 他: 咽喉頭血管腫の硬化療法. 耳鼻臨床 補 106: 56 ~ 57, 2001.
- 17) 角 卓郎, 竹生田勝次, 西嶋 渡: 成人に発症した喉頭血管腫の1例. 日耳鼻 105 増: 963, 2002.
- 18) 西川 仁, 朴沢孝治, 香取幸夫: KTP レーザーによる喉頭血管腫の治療. 日耳鼻 104: 901, 2001.
- 19) 藤田修治, 遠藤 剛, 田浦晶子, 他: 喉頭血管腫の1例. 日耳鼻 103: 93, 2000.
- 20) 杉丸忠彦, 箕山 学, 田中信三, 他: 喉頭血管腫に対する喉頭部分切除術. 日耳鼻 102 増: 738, 1999.
- 21) 岡村一成, 大越俊夫, 大原関利章: KTP レーザーにて摘出した喉頭血管腫の1例. 耳鼻臨床 補 103: 99 ~ 100, 1999.
- 22) 藤島禎弘, 黒田浩之, 天津睦郎: 硬化療法が著効した喉頭血管腫の1例. 日気食会報 49: 531 ~ 535, 1998.
- 23) 鈴木敏弘, 河田 了, 村上 泰: 喉頭側切開および咽頭側切開で摘出した喉頭血管腫2症例. 耳喉頭頸 69: 940 ~ 943, 1997.
- 24) 鈴木立俊, 粕山安弘, 馬越智浩, 他: 静脈石を有した喉頭血管腫の1例. 日気食会報 48: 468 ~ 474, 1997.
- 25) 原 順, 日吉正明, 緒方正彦: 硬化療法が有効であった喉頭血管腫の1症例. 耳展 39: 393 ~ 395, 1996.
- 26) 吉田克也: 喉頭血管腫の2症例. 耳鼻臨床 補 88: 42, 1996.
- 27) 白馬伸洋, 竹田一彦, 佐伯忠彦, 他: 喉頭血管腫の1例. 愛媛医学 14: 280 ~ 284, 1994.
- 28) 石田達也, 大津信也, 和田好純, 他: 妊娠中に発症した声門下血管腫の一例. 日気食会報 43: 278 ~ 282, 1992.
- 29) 田坂康之: 喉頭血管腫の一例. 日気食会報 45: 200 ~ 201, 1994.
- 30) 真栄田宗慶: 披裂部血管腫に対するエタノールアミン注入の試み. 日耳鼻 96: 1729, 1993.
- 31) 本川浩一: 喉頭血管腫の1例. 日耳鼻 93: 2057, 1990.
- 32) 神田幸彦: 妊娠中に一過性にみられた喉頭血管腫と思われる症例. 日耳鼻 93: 2057, 1990.
- 33) 伊藤 健, 八木昌人, 村上 泰, 他: 巨大な喉頭血管腫の1症例. 日気食会報 41: 438 ~ 442, 1990.
- 34) 伊藤 亨, 西村一雅, 富樫かおり: 頸部・顔面の海綿状血管腫に対する超電 MRI. 臨放 31: 1497 ~ 1502, 1986.
- 35) 雨皿 亮, 竹内万彦, 林 秀俊, 他: 喉頭蓋囊腫9例の検討. 耳鼻臨床 80: 1543 ~ 1548, 1987.

原稿受付: 平成16年1月22日
原稿採択: 平成16年6月24日
別刷請求先: 服部玲子
〒514-8507 三重県津市江戸橋2-174
三重大学医学部耳鼻咽喉科学教室