咽喉頭異常感を主訴とした Plummer-Vinson 症候群の一例

松岡 明裕・樋口 彰宏*・古川 浩三

Plummer-Vinson Syndrome with Throat Paresthesia; A Case Report

Akihiro Matsuoka and Kozo Furukawa

(Kitasato University School of Medicine)

Akihiro Higuchi

(Yokohama Red Cross Hospital)

We reported a case of Plummer-Vinson syndrome, in a 60-year-old male who suffered from paresthesia in the throat for 4 months, and hemorrhoidal bleeding for several years.

The esophagogram revealed a web-like formation on the anterior and posterior wall of the cervical esophagus. However, we cannot find a membranous structure through endoscopic investigation, which corresponds to the esophageal web observed in esophagogram. Anemia was markedly improved by administration of iron and the subjective symptoms were ameliorated to a great extent. However after 6 months treatment, hemorrhoidal bleeding still continued and iron therapy was discontinued. Nine months later, he again complained of paresthesia of the throat. Although not anemic, serum ferritin was decreased, he was again given iron medication.

Plummer-Vinson syndrome might be a precancerous lesion of postcricoid carcinoma. Therefore, careful observation of this patient is still necessary.

Key words: Plummer-Vinson syndrome, web, ferritin

緒 言

Plummer-Vinson 症候群は鉄欠乏性貧血、舌炎、嚥下障害を特徴とし、しばしば食道透視で Web を認める疾患で中年女性に多いとされている。本邦では小野¹⁾、豊田²⁾らの報告以来100例弱の報告が散見されるがその殆どが女性である。我々は咽喉頭異常感を主訴に来院し、経過中高度の Web を呈した男性の Plummer-Vinson 症候群の1例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

症 例

症 例：60歳男性

主 訴：咽喉頭異常感（嚥下時のひっかかる感じ）

現病歴：平成元年3月下旬頃より嚥下時の異和感が出現した。某院外科を受診し食道透視を施行され、特に異常はないといわれた。症状の改善が認められないため同年4月21日に当院耳鼻科を受診した。既往歴として当院外科で痔核にて外来経過観察中で、出血をしばしばみてい

北里大学医学部耳鼻咽喉科学教室（主任：設楽哲也教授）

* 横浜赤十字病院耳鼻咽喉科

た。

初診時耳鼻咽喉科の所見：軽度の口角炎と披裂部の発赤を認める以外に著変はなかった（図1）。

器質的病変の除外のために同年4月24日に食道透視を施行した。図2左は頸部食道における正面充盈像である。第5，第6頸椎椎体間の高

図1 口角炎を示す

図2左 頸部食道正面充盈像（平成元年4/24）
第5，第6頸椎椎体間に2つの高度のwebを認める。

右 頸部食道側面充盈像
正面充盈像と同じ所見を示す。

さで2ヶ所のWebを認めた。図2右の立位充盈側面像でも2箇所のWebがみられた。この食道病変の確認のため同年4月26日に硬性食道鏡検査を施行した。検査所見上食道粘膜は全体に表面粗糙で萎縮していたが，Webに相当する膜様の構造物はみとめられず，その他腫瘍性病変も認められなかった。

検査所見：（表1）赤血球数は正常範囲の450万/mm³であったが，ヘモグロビンは7.1 g/dl，ヘマトクリットは25.0%と低値を示した。平均赤血球容積(MCV)は55.6 μ³，平均赤血球色素量(MCH)は15.5 pgとなり，小球性低色素性貧血であった。また血清鉄は41 μg/dl，不飽和鉄結合能は451 μg/dlで以上の所見より鉄欠乏性貧血が考えられた。

またその他胃透視，胃液検査，便潜血反応，甲状腺機能に特に問題はなかった。

以上より Plummer-Vinson 症候群と診断し，鉄剤の内服治療（乾燥硫酸鉄 2錠分2），複合ビタミン剤（6 cup 分3）の投与をおこなった。内服開始後約1カ月の6月上旬には嚥下時の異和感はかなり軽快した。鉄剤の内服を2カ月行なったのちの同年6月29日再度食道透視をおこなった。（図3）充盈正面像で前回の透視時に認められたWebはなく，側面像でもWebの前後径がかなり縮小していた。この時の血液検査では赤血球数522万/mm³，ヘモグロビン13.7 g/dl，ヘマトクリット45.2%と改善を示した。その後鉄剤の内服のみを続けていたが初診時から6カ月経過した平成元年9月14日より鉄剤内服を自己判断にて中止した。また痔核に対

表1 初診時検査所見を示す

赤血球数	4.5×10 ⁶ /mm ³
ヘモグロビン	7.1 g/dl
ヘマトクリット	25.0 %
MCV(平均赤血球容積)	55.6 μ(88-99)
MCH(平均赤血球色素量)	15.5 pg(29-35)
血清鉄	41.0 μg/dl(80-200)
UIBC(不飽和鉄結合能)	415 μg/dl(180-300)

図3 左 頸部食道正面充溢像 (平成元年6/29)
右 頸部食道側面充溢像
小さい Web を認めるのみとなる。

図4 左 頸部食道正面充溢像 (平成元年11/16)
右 頸部食道側面充溢像
再び Web の大きさが増大してきている。

する外来通院も中止した。

同年11月16日再度嚥下時の異和感が出現したため再度当科を受診した。食道透視を施行したところ(図4)正面充溢像にて第5, 6頸椎椎体間に再度2ヶ所の Web をみとめた。側面充溢像でも同様の所見であった。このため再度鉄剤, ビタミン剤の投与を行い現在経過を観察中である。

考 察

1. 咽喉頭異常感と Plummer-Vinson 症候群

咽喉頭異常感を訴えて耳鼻科を来院する患者は多い。これらの患者を診察する際には、局所的、全身的、精神神経的な3つの要素を考慮して検査を行っても原因がわからず咽喉頭異常感症と診断される症例が多いようである。咽喉頭異常感をきたす疾患としては、頸椎の異常、慢性咽喉頭炎、過長茎状突起症などのほか、少数ながら咽喉頭食道の悪性腫瘍などとともに Plummer-Vinson 症候群があげられる。Plummer-Vinson 症候群の名称は1912年に Plummer がヒステリー症に貧血と嚥下障害が認められることを発表し1922年に Vinson³⁾ が69例を集計し報告したことに始まる。以来鉄欠乏性貧血、舌炎、嚥下障害を3主徴としてしばしば頸部食道に Web を認める疾患単位として本邦では1941年に小野¹⁾、豊田²⁾ の報告に始まり、100例弱の報告が散見される。当院の1985年～1989年までの5年間で咽喉頭異常感を主訴とした患者に対して食道透視を施行したものは250例であり、この内本症候群と診断されたものは3例(1%)であった。少ないながら咽喉頭異常感を主訴にした患者にたいして留意すべきものの一つであると考えらる。

2. 男女差

本症候群は女性に多いとされている。文献的には福元⁴⁾ は本邦の報告例は46例で性別の明かな35例は全員女性であったとして貴重な男性の症例を報告している。丘村⁵⁾ の16例の報告もすべて女性である。Ahlbom⁶⁾ は本疾患が女性に

多いことの理由として女性は慢性的失血などの鉄需要の増大の機会が多いことを挙げている。しかし鉄欠乏性貧血の患者の全員が本症候群を発症するわけではないので鉄欠乏以外にも要因があると考えるのが自然であろう。例えば Rennie⁷⁾ は鉄欠乏貧血の患者の頬粘膜上皮の厚さを測定し鉄欠乏貧血で上皮の菲薄化が認められたとしている。粘膜上皮の厚さに男女差があれば粘膜の薄い女性の方が機械的な刺激により障害をうけ易いため発症しやすいと考えられる。今後組織学的に検討の余地があろう。なお本症候群の男性の報告としては文献的に渉猟し得た限りでは本邦では4例目である。

3. Web の意義

本症例は内視鏡検査にて頸部食道前壁には粘膜の萎縮はあるが Web に相当する膜様物は認められなかった。食道鏡施行前の立位充盈像(図2)より頸部食道の狭窄を予想したがその所見は認められず、わずかに粘膜の萎縮像が存在しただけであった。丘村⁵⁾は X-P 透視で観察される Web 像が内視鏡検査では検出出来ないのは Web が恒常的な器質的变化でなくバリウム嚥下時の食道粘膜の伸展障害の結果描出されるためであると報告しており、このことは本症例の病態の説明となると思われる。

Plummer-Vinson 症候群にみられる食道 Web は食道透視にて頸部食道の前壁より突出する模様像とされており、本症例のように後壁からも突出しているものを Web と呼んでよいかどうかは問題がある。多田⁸⁾らは食道 Web の診断基準を1) 輪状軟骨直下数センチの頸部食道に存在すること。2) 同部前壁に鋭い切れ込み像が認められる。3) cricoid impression がある場合にはその下方に存在する。4) 切れ込みは食道前壁に対してほぼ垂直で嚥下の推移に対して形は不変である。5) 同一の切れ込み像を2コマ以上に認める(48コマ/sec)、としている。この症例では1), 2), 3)は満たしているがその他の条件には外れている。この基準からすると Web とは呼べない。しかし、須

崎⁹⁾の食道 Web の重症度分類からすると第5度は全周性 Web 形成で高度の狭窄を示すものとしており、本症例はこれにあてはまる。Web が丘村がいうように粘膜の伸展障害であるとするならば、障害の程度が高度になるならば全周性になっても良いと考える。

後壁の盛り上がりでひとつ鑑別しておかねばならないのが Cricopharyngeal bar (Cricopharyngeal sphincter) である。Brunner¹⁰⁾によればこれは嚥下時下咽頭の嚥下圧を高め輪状咽頭筋の括約機構に拮抗して Bolus を食道に送り込むためにできる輪状咽頭筋の“spastic contraction”であるとしている。Web は下咽頭と頸部食道のバリウム充盈度が等量のもとでは形状、位置、大きさが一定である¹¹⁾のにたいして Cricopharyngeal bar はこの相に前後して“spastic contraction”であるため一瞬しか描出されないので Web と鑑別できる。本症例では下咽頭と頸部食道のバリウム充盈度が等量の時期においては粘膜突出の形は不変であったため Web であると考えられる。また Shamma'a¹²⁾らは自験例58例中複数の Web をもつ8例中6例に癌の発生をみたしており、本症例のごとく2つの Web のあるものは悪性腫瘍の発生を今後とも注意深く見守っていく必要があると考える。

4. 鉄剤の投与時期

この症例では約6カ月間鉄剤の投与が行われている。文献的には鉄欠乏性貧血の場合1~2カ月間の鉄剤投与が最低必要であるとされている¹³⁾。連日鉄に換算して200mgの内服により投与前に Hb は7.1 g/dl であったものが、14.4

表2 ヘモグロビン、血清鉄、血清フェリチンの推移を示す。

	4/21	6/29	11/16
ヘモグロビン (g/dl)	7.1	14.4	14.1
血清鉄(μg/dl)	41	142	145
血清フェリチン(μg/dl)	15	13	13

g/dlへ改善し、血清鉄は投与前 41 μ g であったものが 142 μ g へと改善している。一方フェリチンは 15 ng/ml であったものが 13 ng/ml と変化がほとんど認められない。(表2)この時点で投与が中止され、その後約2カ月で症状が再発している。6カ月の投与で鉄欠乏性貧血は一応改善したと考える。しかし再発した時点での血液検査では Hb 14.1 g/dl, 血清鉄 145 μ g と正常値を示しているが血清フェリチンは 13 ng/dl と変わらない。フェリチンは貯蔵鉄の指標で血清鉄に先だって減少することよりまた鉄剤投与期間としては一応1~2カ月をめぐとして、自覚症状、食道 Web の状態、とともに Hb, 血清鉄, 血清フェリチンも指標とする必要があると考える。また本症例では鉄欠乏貧血を引き起こしている原因である痔核の治療が中断されており、このため鉄剤の投与にもかかわらず Web は再発したものと考えられる。

結 語

咽喉頭異常感を主訴に来院した60歳男性の Plummer-Vinson 症候群を経験したので報告し、若干の考察を加えた。

1. 咽喉頭異常感を主訴として食道透視をした患者の1%にプランマービンソン症候群が認められた。

2. 内視鏡検査で Web の部分には膜状構造は認められなかった。

3. 鉄剤投与期間は自覚症状、Web の状態、とともに Hb, 血清鉄, 血清フェリチンも指標とする必要がある。

御校閤を賜った設楽哲也教授に深謝いたします。

本症例の要旨は第70回日本耳鼻咽喉科学会神奈川県地方部会(1989年12月16日)にて発表した。

参考文献

- 1) 小野 譲: 貧血患者にみたる食道狭窄に就いて. 日耳鼻 47: 1134~1141, 1941.
- 2) 豊田文一: 貧血患者にみられたる嚥下困難症に就いて (Plummer-Vinson 氏症候群). 耳鼻臨床 36: 514~516, 1941.
- 3) Vinson PP: Hysterical Dysphagia. Minn Med 5: 107~108, 1922.
- 4) 福元俊孝, 西 満正, 加治佐隆, 他: Plummer-Vinson Syndrome の男性の一例について. 消化器外科 8: 227~232, 1985.
- 5) 丘村 熙, 堤昭一郎, 末光清貞: Plummer-Vinson 症候群における食道 Web における臨床的意義. 日耳鼻 87: 557~566, 1984.
- 6) Ahlbom HE: Simple Achlorhydric anemia, Plummer-Vinson Syndrome, and carcinoma of the mouth, pharynx and oesophagus in woman. Br Med J 15: 331~333, 1936.
- 7) Rennie JS: Quantitative analysis of human buccal epithelium in iron deficiency anemia. J Oral Pathol 11: 39~46, 1982.
- 8) 多田信平: 食道 Web の 35 mmX 線シネによる解析. 日気食 30: 221~227, 1979.
- 9) 須崎一雄: Plummer-Vinson 症候群を先行併存した下咽頭, 頸部食道癌. 臨床放射線 28: 1453~1459, 1983.
- 10) Brunner H: X-ray examination of the cricopharyngeal sphincter. J Laryng & Otolag 66: 276~282, 1952.
- 11) 須崎一雄: 食道 Web 28例の報告とX線学的分類の試み. 日本放射線学会誌 39: 345~353, 1979.
- 12) Shamma'a MH and Benedict EB: Esophageal webs. N Engl J Med 21: 378~384, 1958.
- 13) 松田 登: Plummer-Vinson 症候群. 歯科ジャーナル. 15: 8; 537~539, 1982.

(別刷請求先: 松岡明裕
〒228 相模原市北里1-15-1
北里大学医学部耳鼻咽喉科学教室)