鼻内内視鏡手術を行った先天性鼻涙管嚢胞例

渡邊 浩基¹⁾, 伊藤 卓¹⁾, 山田 雅人¹⁾,
小出 暢章¹⁾, 渡部 大樹²⁾, 今村 公俊³⁾,
東 裕哉³⁾, 堤 剛⁴⁾

¹⁾総合病院土浦協同病院耳鼻咽喉科

²⁾総合病院土浦協同病院眼科

³⁾総合病院土浦協同病院新生児科

⁴⁾東京医科歯科大学医学部耳鼻咽喉科

先天性鼻涙管嚢胞は先天性に鼻涙管が閉塞し、主に下鼻道に嚢胞を形成する疾患で、嚢胞の大きさによっては呼吸障害をきたしうる。今回我々は内視鏡下に造袋術を行った先天性鼻涙管嚢胞例を経験したので報告する。

症例は男児で、出生後からの呼吸障害にて日齢2より経鼻持続陽圧送気を行った。鼻内所見では左下鼻道を占拠し内側に下鼻甲介を圧排する腫瘤性病変を認めた。CT, MRIでは左涙嚢、鼻涙管から下鼻道にかけて連続する軟部影が見られ、特徴的な形態から先天性鼻涙管嚢胞と診断した。その後、経過観察中に酸素飽和度の急激な低下を繰り返し、人工呼吸器管理となった。呼吸障害の原因として、喉頭軟化症や喉頭麻痺がないことから中枢性の嚥下障害による誤嚥等を疑ったが、鼻涙管嚢胞による鼻閉も増悪因子と考えて、日齢66で鼻内内視鏡下にマイクロデブリッターを用いた造袋術を行った。全身麻酔下に細径内視鏡にて左鼻腔内を観察し、涙点から中村式涙管洗浄用二段針で希釈ヨード液を注入して涙嚢と嚢胞の交通を確認した。嚢胞はマイクロデブリッターを用いて十分に切除した。次に右鼻腔内も観察し、右下鼻道には病変を認めないことを確認して、手術を終了した。止血用のパッキングは必要なかった。特に術後合併症は認められず嚢胞は完全に開放されたが、呼吸障害は十分に改善されなかった。本症例では呼吸障害の主因は核上性麻痺による嚥下障害と思われたが、鼻涙管嚢胞に対する内視鏡とマイクロデブリッターを使用した造袋術は安全で効果的な治療法だと考えられた。

キーワード：鼻涙管嚢胞，鼻内内視鏡，マイクロデブリッター，造袋術，涙嚢ヘルニア

Endoscopic Marsupialization for a Congenital Nasolacrimal Duct Cyst

Hiroki Watanabe¹⁾, Taku Ito¹⁾, Masato Yamada¹⁾, Nobuaki Koide¹⁾,
Hiroki Watanabe²⁾, Masatoshi Imamura³⁾, Yuya Higashi³⁾, Takeshi Tsutsumi⁴⁾

¹⁾Department of Otolaryngology, Tsuchiura Kyodo General Hospital

²⁾Department of Ophthalmology, Tsuchiura Kyodo General Hospital

³⁾Department of Neonatology, Tsuchiura Kyodo General Hospital

⁴⁾Department of Otolaryngology, Graduate School, Tokyo Medical and Dental University

A congenital nasolacrimal duct cyst (CNDC) is generally formed due to nasolacrimal duct obstruction during fetal development. Nasolacrimal duct obstruction leads to cystic enlargement of the duct resulting in the formation of an intranasal mass on the inferior meatus. Depending on the site and size, CNDC causes varying degrees of respiratory impairment. We report a male neonate with CNDC. The CNDC was surgically resected using an intranasal endoscopic approach. He presented with respiratory impairment just after birth and was treated with continuous positive airway pressure. An intranasal mass was located on the left inferior meatus. Computed tomography and magnetic resonance imaging showed an enlarged lacrimal sac and a nasolacrimal duct with the mass on the inferior meatus. Because his respiratory impairment became progressively more severe, an intranasal endoscopic marsupialization was performed with a microdebrider to improve his obstructed nasal respiration. Under general anesthesia, direct visualization of the left nasal cavity was performed using a straight telescope with an outside diameter of 2.7mm.

Endoscopic observation and iodine injection excluded the presence of right nasolacrimal duct cysts. Before marsupialization, the patency of the nasolacrimal duct was confirmed by iodine injection into the lacrimal punctum. The procedure with the microdebrider was carefully performed to prevent injury to the surrounding tissue. Nasal packing to prevent bleeding was not necessary. Although his respiratory state was not fully restored postoperatively, his obstructed nasal respiration was relieved, and no instances of recurrence or complications were noted. Nasal endoscopic marsupialization with a microdebrider represents a safe and effective method for the treatment of CNDC.

Key words: nasolacrimal duct cyst, nasal endoscopy, microdebrider, marsupialization, dacryocystocele

---

(2016年5月5日受稿, 2016年7月19日受理)

はじめに

先天性鼻涙管嚢胞は先天性に鼻涙管が閉塞することにより、主に下鼻道に嚢胞を形成する疾患である¹⁻⁴⁾。嚢胞の大きさによっては鼻閉を引き起こし、特に新生児期では呼吸障害をきたしうる^{2,3,5-7)}。これまでに海外においては内視鏡を用いた造袋術の報告があり効果的とされている^{1-4,7)}。今回我々は、鼻内内視鏡下にマイクロデブリダーを用いて造袋術を行い、合併症なく良好な経過をたどった先天性鼻涙管嚢胞例を経験したため、文献的考察を含め報告する。

症 例

症例：日齢8，男児（在胎38週4日）。

主訴：呼吸障害。

家族歴：なし。

妊娠分娩歴：母親は34歳で2経妊2経産で自然妊娠。在胎26週に羊水過多を認め、羊水検査では明らかな異常は認めなかった。在胎38週4日に頭位経陰分娩にて出生となった。出生時体重3342g。

現病歴：出生後から啼泣、自発呼吸に乏しくApgar score 1分4点，5分5点で軽度仮死の状態であった。蘇

生処置にてApgar score 7分30秒8点まで改善したが、努力性呼吸は残存し呼吸性アシドーシス（静脈血pH7.24, pCO₂ 70Torr, HCO₃⁻ 29mEq/l）が続いたため、日齢1で挿管し人工呼吸器管理となった。日齢2で一度抜管したが、多量の分泌物が口腔内に貯留し、再び静脈血pH7.24, pCO₂ 71Torr, HCO₃⁻ 30mEq/lと呼吸状態が悪化したため、日齢4で経鼻持続陽圧送気（nCPAP）を開始した。

鼻咽喉頭所見：表面平滑で弾性軟の嚢胞性病変が左鼻内下鼻道を占拠していた（図1A）。腫瘍は下鼻甲介を鼻中隔側上方に圧排して、左鼻内は閉塞していた。右鼻内、咽喉頭にその他の占拠性病変は見られず、喉頭軟化症や喉頭麻痺は認められなかった。流涙や眼脂、内眼角腫脹などの所見は認めなかった。

画像所見：呼吸障害の原因検索目的で行われたCTでは左下鼻道を占拠する軟部組織陰影が描出され、下鼻甲介を上内側へ圧排・偏位させていた（図2B, D）。左涙嚢は軽度拡張し、鼻涙管は周囲の骨も含めて拡張していた（図2C）。MRIではT2強調画像にて涙嚢、鼻涙管から下鼻道にかけて連続する高信号の病変が確認された（図2E, F）。CT, MRIで脳内に明らかな異常所見を認めなかった。

図1 鼻内内視鏡所見。嚢胞は下鼻甲介(IT)を鼻中隔(NS)側に圧排し下鼻道を占拠していた(図A)。マイクロデブリッター(※)で嚢胞壁を切除した(図B)。

図2 画像所見。単純CTでは均一な腫瘤が鼻涙管開口部付近に存在(B)し、下鼻甲介を内側上方へ圧排している(D)。3DCTにて患側(C)で腫瘤に一致して骨性鼻涙管が健側(A)に比べて拡大している。MRI T2強調画像冠状断で高信号病変が涙嚢から鼻涙管、鼻内へと連続する(E, F)。

臨床経過：鼻内所見、および特徴的な画像所見から左鼻涙管嚢胞と診断し、出生間もないことと片側性であること、nCPAPにて酸素飽和度90%台後半、静脈血pH7.36、 pCO_2 63Torr、 HCO_3^- 35mEq/lとある程度落ち着いていたことから経過観察とした。しかしその後、日齢28から29にかけて酸素飽和度の急激な低下(30-60%程度)を繰り返し、用手的な人工換気と酸素投与にて回復

はするものの、頻度が多いため再び挿管し人工呼吸器管理となった。呼吸障害の原因として、喉頭軟化症や喉頭麻痺がないことから中枢性の嚥下障害による誤嚥等による影響を考えたが、増悪因子として鼻涙管嚢胞による鼻閉が関係している可能性を考慮して日齢66で手術治療を行った。

手術：全身麻酔をかけた後、5000倍希釈アドレナリン

入りガーゼを両鼻内に挿入した。ガーゼを抜去した後、直径2.7mmの0°細径内視鏡（カールストルツ・エンドスコピー・ジャパン株式会社）を用いて左鼻内を観察した。嚢胞性病変は左下鼻道を占拠するように位置しており、アドレナリン入りガーゼ挿入時に一部破れた嚢胞壁から膿汁が流出していた。嚢胞性病変と涙嚢との交通を確認するため、涙点から中村式涙管洗浄用二段針を挿入し、希釈ヨード液を注入した。希釈ヨード液は抵抗なく破れた嚢胞壁から流出し、鼻涙管嚢胞と確定診断した。次に、嚢胞壁の切除を行うため、2mmのローテータブルタービネートブレード（#1882040HR, 日本メドトロニック株式会社）を装着したマイクロデブリッターを鼻内に挿入した。回転数は3000rpmに設定し、周囲構造物を損傷しないよう留意し嚢胞壁を十分に切除した（図1B）。最後に再び涙点から希釈ヨード液を注入して、嚢胞壁の切除が十分であることを確認した。出血は少量であったため止血用のパッキングは必要としなかった。最後に、右鼻内も観察して右下鼻道に嚢胞性病変が存在しないこと、希釈ヨード液の注入で鼻涙管閉塞がないことを確認した。

病理所見：嚢胞壁は通常の鼻腔粘膜と同様の多列線毛上皮で覆われていた。間質にはリンパ球浸潤を認めた（図3）。

術後経過：術中の嚢胞内容物からの細菌培養では、メチシリン耐性黄色ブドウ球菌（Methicillin-resistant *Staphylococcus aureus*, MRSA）が検出された。術後、左鼻腔の換気は良好となり、鼻呼吸は可能となった。しかし

その後も呼吸障害は完全には改善せず、術後3週間で再度挿管管理となった。呼吸障害の原因については核上性麻痺による嚥下障害、誤嚥と考えられ、気管切開が施行された。なお、術後8か月で嚢胞の再発は認めていない。

考 察

涙腺で分泌された涙液は上下の涙点を通して、涙小管、涙嚢、鼻涙管を経て下鼻道に開口する。この涙道は胎児期に内側鼻突起と上顎突起の間の外胚葉表面より発生し、最終的に鼻涙管遠位端が開通し下鼻道に通ずる^{7,8)}。先天性鼻涙管嚢胞は一般的には涙嚢開口部にあるRosenmüller弁の機能的閉塞と鼻涙管遠位端にあるHasner弁の開通不全によって生じる^{1,7,9)}。この成因は涙嚢ヘルニアと同様である。基本的には鼻涙管が拡張するとその解剖学的特性から、涙嚢も同様に拡張するため、鼻涙管嚢胞と涙嚢ヘルニアは同義で呼称される場合がある。この2疾患の定義は文献によって異なり曖昧である^{1~13)}が、本論文では嚢胞が涙嚢の前方に突出するものを涙嚢ヘルニア、嚢胞が下鼻道に突出するものを鼻涙管嚢胞として論じる。先天性鼻涙管嚢胞は必ずしも涙嚢ヘルニアを伴うわけではなく、本症例のように単独で発症し呼吸障害を引き起したとの報告もある^{3,7)}。

海外においては先天性涙嚢ヘルニアは約0.02%の新生児に見られ¹⁰⁾、先天性鼻涙管嚢胞の発症頻度は約0.2%程度と報告されている¹¹⁾。しかし、本疾患が鼻閉による呼吸障害を引き起こしたとの報告はごくわずかしかなかったため、多くのものは無症状で過ごすか、自然治癒しているものと思われる。実際、先天性鼻涙管閉塞はほとんどの例で生後1年以内に自然治癒するとされている^{8,11,12)}。

元来、新生児は鼻呼吸が中心のため、鼻腔内の閉塞の程度によっては呼吸障害や哺乳障害をきたすことがある。本疾患でも、巨大な嚢胞による鼻閉によって生後の重篤な呼吸障害が発症することがある^{2,3,5~7)}。多くは両側性のものであるが、中には片側性でも呼吸障害を発症することが報告されている⁶⁾。その他の症状としては涙嚢炎をきたすことが多く、重症化し蜂窩織炎となることもある。治療は、プロービング、涙道ステント、涙道洗浄、嚢胞穿刺、内視鏡による嚢胞造袋術、あるいはnCPAPなど様々な方法が報告されている^{1~7,9,11~13)}。まずは侵襲度の低い保存的治療を行うことが多いが、呼吸障害や涙嚢炎などの感染を認める場合には早期の外科的手術、特に嚢胞造袋術が必要とされる^{6,9)}。感染を伴わず呼吸障害のみ認める場合にはnCPAPが有効との報告⁹⁾もあり、今回我々はnCPAPにて経過を観察するも、徐々に呼吸状態が

図3 病理学的所見。(HE染色) 嚢胞壁は鼻腔側で通常の鼻腔粘膜と同様の多列線毛上皮で覆われており、間質にはリンパ球浸潤（矢頭）を認めた。

悪化していたため、全身麻酔下にマイクロデブリッターを用いた鼻内内視鏡下の造袋術を行った。治療法の選択に際しては、患児が挿管管理を必要とする重度の呼吸障害を呈し改善を認めない点と本疾患が呼吸障害の一因である可能性を考慮し、早期の外科的手術の方針とした。また、過去の文献にて複数例報告されており安全で効果的と報告されている本手術法を選択した^{3, 4)}。今回の手術法の利点としては、全身麻酔下で行うことによって術中に膿を含む多量の貯留物の誤嚥を避けられることや患児の体動による鼻内周囲の損傷を防げること、さらにはマイクロデブリッターを使用することで周囲をなるべく損傷することなく嚢胞壁を十分に除去できることがあげられる^{3, 4, 12)}。また、我々耳鼻咽喉科医にとって、鼻内内視鏡下副鼻腔手術と同様の手技で行うことができ、術者に特別な手術技術は必要としない。手術は細径の内視鏡を使うことによって、新生児の小さな鼻内であったとしても良好な視野を取ることができ、操作もしやすい⁴⁾。

本疾患は両側性にも発症しうる疾患であるため、術中に両側ともに下鼻道をしっかり観察し鼻涙管が閉塞していないことを確認することが推奨されている^{4, 7)}。また、嚢胞壁を十分に切除していれば術後の涙道ステント留置は行わなくても再発しないとされている^{3, 4)}。本症例も片側性の発症で、対側の鼻涙管も希釈ヨード液の注水で涙道の閉塞を認めなかったことを確認した。涙道ステントは留置しなかった。ただし、再閉塞などの術後合併症は数週以内に起きるとされているが、遅発性に発症した報告もあるため、1年以上の経過観察が推奨されている^{5, 7)}。本症例では術後8か月において、再発を認めていないが継続的な経過観察を行っていく必要があると考えている。

結 語

1. 新生児に認められた先天性鼻涙管嚢胞例を経験した。
2. 内視鏡とマイクロデブリッターを使用した造袋術は安全で効果的な治療法であった。

参考文献

- 1) Wang JC, Cunningham MJ : Congenital dacryocystocele: Is there a familial predisposition? Int J Pediatr Otorhinolaryngol 2011 ; 75 : 430-432.
- 2) Jin HR, Shin SO : Endoscopic marsupialization of bilateral lacrimal sac mucoceles with nasolacrimal duct cysts. Auris Nasus Larynx 1999 ; 26 : 441-445.
- 3) Dogan E, Yuksel NG, Ecevit MC, et al : Microdebrider assisted endoscopic marsupialization of congenital intranasal nasolacrimal duct cysts. Int J Pediatr Otorhinolaryngol 2012 ; 76 : 488-491.
- 4) Friedman NR, Luck M, Scapa VI : Excision of congenital nasolacrimal duct cyst with powered instrumentation. Laryngoscope 2011 ; 121 : 135-136.
- 5) Mansour AM, Cheng KP, Mumma JV, et al : Congenital dacryoceles. A collaborative review. Ophthalmology 1991 ; 98 : 1744-1751.
- 6) Paysse EA, Coats DK, Bernstein JM, et al : Management and complications of congenital dacryoceles with concurrent intranasal mucocele. J AAPOS 2000 ; 4 : 46-53.
- 7) Shashy RG, Durairaj VD, Holmes JM, et al : Congenital dacryocystocele associated with intranasal cysts: Diagnosis and management. Laryngoscope 2003 ; 113 : 37-40.
- 8) Cassady JV : Developmental anatomy of nasolacrimal duct. AMA Arch Ophthalmol 1952 ; 47 : 141-158.
- 9) Kuboi T, Okazaki K, Kusaka T, et al : Congenital dacryocystoceles controlled by nCPAP via nasal mask in a neonate. Pediatr Int 2015 ; 57 : 475-477.
- 10) Li SL, Luo GY, Tian XX, et al : Prenatal diagnosis and perinatal outcome of congenital dacryocystocele: A large case series. Prenat Diagn 2015 ; 35 : 103-107.
- 11) MacEwen CJ, Young JD : Epiphora during the first year of life. Eye 1991 ; 5 : 596-600.
- 12) 廣瀬美央 : 【涙道領域—最近の話題】 先天鼻涙管閉塞. あたらしい眼科 2013 ; 30 : 903-907.
- 13) 鈴木佑佳, 松本 直, 和田弘太, 他 : 先天性涙嚢ヘルニアに対して18ゲージ針を用いた造袋術を行い治療した1例. 臨眼 2014 ; 68 : 1483-1486.