切開排膿後短期間のうちに摘出した下咽頭梨状窩瘻の1例

松 下 直 樹 和 田 匡 史 井 口 広 義
寺 西 裕 一 神 田 裕 樹 山 根 英 雄

要旨：下咽頭梨状窩瘻は頸部外切開による摘出や、最近では瘻孔の化学的焼灼により治療が行われている。いずれの方法においても治療前の消炎が不可欠で、炎症の発症から根治手術までに一定期間を設けなければならない。しかし、下咽頭梨状窩瘻は学童期に好発することから学業などとの兼ね合いも考慮する必要に迫られジレンマを抱えることも多い。われわれは9歳の男児の感染性下咽頭梨状窩瘻に対し切開排膿後2週間で外切開による瘻管摘出術を行った。術中、組織の瘢痕癒着が強く色素による染色法では瘻管の同定ができなかったが、彎曲型咽喉頭直達鏡を用いた咽頭操作を併用し瘻管にゾンデを挿入することで瘻管を同定することができ、瘻管の摘出に成功した。

キーワード：下咽頭梨状窩瘻、頸部外切開、ゾンデ

Summary A case of piriform sinus fistula treated with fistulectomy at a relatively early phase after drainage:

Naoki Matsushita, Tadashi Wada, Hiroyoshi Iguchi, Yuichi Teranishi, Yuki Koda and Hideo Yamane. Osaka City University Graduate School of Medicine, Department of Otolaryngology and Head & Neck Surgery

Piriform sinus fistula is a relatively rare congenital condition that often causes acute suppurative thyroiditis and neck abscess among young people. The radical treatment for this condition includes a fistulectomy using a cervical approach or, recently, chemocauterization of the internal opening of the fistula by direct endoscopy. In general, radical treatment can be performed only at a certain interval after reduction of inflammation. A 9-year-old boy suffering from swelling and tenderness of the anterior neck was referred to our hospital. Two weeks after reduction of inflammation by incising the neck to drain the abscess, we performed a fistulectomy. Identification of the fistula is the most important step in obtaining a successful surgical result. We were not able to confirm the fistula in the operating field by staining. However, insertion of a wire probe into the fistula allowed detection of the fistula and facilitated the fistulectomy. This method is supposed to be very effective to identify a piriform sinus fistula in the inflammatory tissue.

Key words: piriform sinus fistula, fistulectomy, wire probe

[Received Feb. 19, 2013, Accepted May 20, 2013]

はじめに

下咽頭梨状窩瘻は既知の如く下咽頭収縮筋を貫通し甲状腺近傍に続く先天性瘻孔であり、多くは小児期に反復する急性化膿性甲状腺炎や頸部蜂窩織炎と

して発症する。頸部外切開による摘出や、最近では瘻孔の化学的焼灼により治療が行われている。いずれの方法においても治療前の消炎が不可欠で、炎症の発症から根治手術までに一定期間を設けなければならない。しかし、下咽頭梨状窩瘻は炎症発症の好発時期の関係から学業などとの兼ね合いも考慮する必要に迫られジレンマを抱えることも多い。今回

大阪市立大学大学院医学研究科耳鼻咽喉病態学
[平成25年2月19日受付, 平成25年5月20日受理]

図 1 初診時頸部所見
左頸部に発赤圧痛を伴う 4 cm 強の比較的硬い腫瘍を認めた。

図 2 ファイバー所見
左梨状窩に瘻孔を疑う所見を認めた。

図 3 頸部造影 CT
左頸部に 45mm 大の腫瘍性病変を認め、胸鎖乳突筋への浸潤を認めた。

われわれは 9 歳の男児の感染性下咽頭梨状窩瘻に対し切開排膿後 2 週間で外切開による瘻管摘出術を行い良好な結果を得た。感染発症年齢とそれに伴う患者背景にばらつきがあり良性疾患であることから、症例毎によく検討のうえ適切な手術方法を選択する必要があると考えているが、下咽頭梨状窩瘻は有名な疾患ではあるものの比較的まれな疾患であるため、治療方針の決定や手術手技の点で十分な習熟がすすまないことも多いと思われ若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

症例：9 歳男児。

既往歴：なし。

主訴：左頸部腫脹。

現病歴：平成 24 年 7 月初旬に左頸部腫脹を認め近医にて頸部蜂窩織炎として点滴抗生剤加療がされていた。疼痛軽減、腫脹縮小は認めたものの残存があり、画像検査にて腫瘍性病変を疑われ 8 月初旬に当科紹介受診となる。

現症：左頸部に発赤圧痛を伴う 4 cm 強の比較的硬い腫瘍を認めた（図 1）。発熱なし。喉頭ファイバーにて左梨状窩に瘻孔を疑う所見を認めた（図 2）。なお、血液検査結果では炎症反応はごく軽度であり、その他異常所見は認めなかった。

画像所見：頸部造影 CT にて左頸部に 45mm 大の腫瘍性病変を認め、胸鎖乳突筋への浸潤を認めた（図 3）。また MRI にては T1（図 4a）で主に low intensity, T2（図 4b）でやや high intensity な内部不均一な腫瘍性病変として描出された。エコー下に細胞診を施行したが判定不能であった。

下咽頭の局所所見から下咽頭梨状窩瘻を疑い下咽頭食道造影を施行すると、左梨状窩より下方に線状に造影剤の貯留を認めた（図 5）。

治療経過：腫瘍性病変の可能性を完全には否定できず、8 月中旬に全身麻酔下に試験開放術を施行。皮下は膿汁と壊死物質であり、腫瘍の存在は認めなかった。下咽頭梨状窩瘻の確定診断を得て、可及的に排膿と壊死物質の除去を行った。術後は絶食経管栄養とし、留置したベンローズドレーンより洗浄を繰り返した。試験開放翌日から排膿はほとんど認められなくなっていた。

その後の治療として経口的な化学的焼灼術も視野に入れ家族と相談したが、すでに外切開を加えていたこと、学業的な理由もあり短期間でより確実な治療を望まれたことより、試験開放から 2 週間後に外切開による瘻孔摘出術を行うこととした。

手術はまず彎曲型咽喉頭直達鏡を用い下咽頭を展開した。瘻孔は極めて明瞭に観察でき、Fogarty カテーテル 2Fr にて瘻孔内部に 1% 塩化メチルロザニリン液（ピオクタニン）を注入した（図 6）。続いて頸部操作に移行しベンローズ挿入部位をトリミングするように舟状切開を加えた（図 7）。広頸筋は不明瞭であり、胸鎖乳突筋の筋膜レベルで皮弁を

図 4 頸部 MRI

T1 (a) で主に low intensity, T2 (b) でやや high intensity な内部不均一な腫瘍性病変として描出された。

図 5 下咽頭食道造影

左梨状窩より下方に線状に造影剤の貯留を認めた。

図 6 彎曲型咽喉頭直達鏡下の所見

瘻孔は極めて明瞭に観察でき, Fogarty カテーテル 2Fr にて瘻孔内部に 1% 塩化メチルロザニリン液 (ピオクタニン) を注入した。

図 7 頸部切開創

ペンローズ挿入部位をトリミングするように舟状切開を加えた。

図 8 反回神経の同定

甲状腺左葉の後方で反回神経を同定し, 喉頭内に進入するのを確認した。

→反回神経

挙上。瘢痕癒着は非常に強く, 総頸動脈も周囲組織と高度に癒着していたため慎重に剥離を行った。甲状腺左葉を露出し, 前方に牽引し後縁の剥離をす

め反回神経を同定し, 喉頭内に進入するのを確認した (図 8)。下咽頭収縮筋を露出し少しずつ剥離を試みたが, 組織の瘢痕化が強くピオクタニンで染色された部位は同定できなかった。助手により再度彎

図 9 瘻管摘出後

可及的下咽頭側で2重結紮を行い、瘢痕組織とともに瘻管を摘出した。
→結紮部位

曲型咽喉頭直達鏡を挿入し経口腔的に瘻孔を同定しゾンデを挿入した。それにより頸部術野から瘻管をはっきりと同定することができた。可及的下咽頭側で2重結紮を行い、瘢痕組織とともに瘻管を摘出した(図9)。瘻管の甲状腺への進入は明らかではなかったため甲状腺は温存した。

しかし術後喉頭浮腫を認め抜管は危険と判断し、人工呼吸器管理を維持することとした。リンデロン2mgより漸減投与し術後4日目で抜管できた。抜管後声帯を確認すると左反回神経の不全麻痺を認めた。鎮静剤(ミダゾラム)の遷延があったため数日間経過観察を行い、術後8日目で下咽頭食道造影にて造影剤の漏出がないことを確認し経口摂取を開始した。経口摂取開始初日はわずかにむせを認めたが、その後は問題なく経口摂取ができ術後14日目で退院とした。退院時すでに反回神経麻痺は改善傾向にあり、退院後1か月での再診時には完全に改善していた。

考 察

下咽頭梨状窩瘻は頸部外切開による摘出や、最近では瘻孔の化学的焼灼により治療が行われている。しかしいずれの方法においても治療前の消炎が不可欠であり、炎症の発症から根治手術までに比較的期間を設けなければならない。消炎後少なくとも2～3か月程度の待機期間が必要と言及している文献がどちらの方法についても認められる¹⁻³⁾が、炎症発症は学童期に好発するため学業などとの兼ね合いも考慮する必要に迫られジレンマを抱えることも多い。

最近報告が散見される瘻孔の化学的焼灼術については、詳細は他の報告³⁻⁵⁾に譲るが、下咽頭において瘻孔の同定ができれば比較的容易に行え、外切開を必要としないため侵襲も少なく、審美的にも優れ

ていると思われるが、現時点では根治性は確立されていない。本症例においても化学的焼灼術も視野に入れ家族と治療方針の相談をしたが、短期間により確実な治療をと希望されたため、また既に試験開放による頸部切開創があったこともあり、頸部外切開による瘻孔摘出術を選択した。

瘻管の不完全摘出は再発の原因となり、頸部の術野にて瘻管の同定が非常に重要である。しかし瘻管を同定することが困難な症例も多く、これまで頸部外切開による摘出術中に瘻孔の同定にさまざまな工夫がなされ報告がされている。あらかじめ色素(ピオクタニン、インジゴカルミンなど)による染色を行う方法^{1,6-8)}、瘻管にゾンデやカテーテルを挿入する方法⁹⁾や、下咽頭を切開し瘻孔を明視下におく方法¹⁰⁾も報告されている。

術中に直達喉頭鏡下に色素を注入することによる同定法がこれまでの報告では最も多い。瘻管の粘膜が薄く、なおかつ瘻管内部が十分に染色できていれば色素を透見できるとする一方で、炎症による瘢痕や癒着が強い場合は同定できない場合があるとされている。なお、染色のため術前に内服させる方法もあるが、これについては1%塩化メチルロザニリン液(ピオクタニン)は刺激もつよく苦痛を伴う(副作用として、多量経口摂取にて消化器が刺激されて悪心、嘔吐、腹痛をおこすことがあると明記されている)という意見も多く^{9,11)}、直達喉頭鏡下に直接注入するのに比べ瘻管の染色も確実ではない。

今回われわれは色素による同定法を試みたが術野より確認できなかったため、頸部操作中に再度彎曲型咽喉頭直達鏡を挿入し、瘻孔よりゾンデを挿入することで瘻管を同定した。これまでの報告⁹⁾でも言及されているが、瘢痕癒着が強い症例でもゾンデによる同定法は確実性が高いと考える。本症例のような炎症発症後短期間での治療が求められる際にはゾンデによる同定法は考慮に入れておくべきである。先にも述べた如く消炎後少なくとも2～3か月程度の待機期間が必要と言及している文献もあるが、本症例は切開排膿から2週間で外切開による瘻管摘出術を行い良好な結果を得た。また今回は外切開中に咽頭操作を併用しゾンデの挿入を行ったが、外切開を行う前にFogartyカテーテルを瘻管内に挿入しバルーンを膨らませることで留置ができ有用であったとする報告もある¹²⁾。

下咽頭を切開し瘻孔を明視下において操作を行う方法は瘻孔の完全摘出が可能となるが、術後縫合不全等のリスクも生じ経口摂取までに時間がかかる。

今回は喉頭浮腫のため術後4日目の抜管となり、鎮静剤の遷延があったため経口摂取開始が術

後8日目となったが、文献的には頸部外切開による摘出術においても化学的焼灼術においても術後数日、また術翌日に経口摂取を開始している症例もある^{3,4,7,8)}。

また本症例では咽頭操作の際に彎曲型咽喉頭直達鏡を用いたが、瘻孔の同定が極めて容易であった。彎曲型咽喉頭直達鏡は佐藤ら¹³⁾により2004年に開発され、下咽頭の視野を得るのに非常に優れており、現在下咽頭表在癌の内視鏡手術の際に主に使用されている。下咽頭梨状窩瘻の手術の際にはこれまでは通常の直達喉頭鏡が用いられてきたが、咽頭の一部を狭い視野でしか確保することができず操作に熟練を要した。そのため最近では彎曲型咽喉頭直達鏡を用いその良好な視野から有用であったとする報告が散見される⁶⁾。しかし喉頭に比較的大きな外力が加わるため術後の喉頭浮腫に注意することも必要である。本症例においては外切開による摘出を行ったため侵襲が強く、喉頭浮腫の原因が彎曲型咽喉頭直達鏡による操作のためとは一概には断定できないが、抜管時には常にその危険性を念頭におくべきである。尚、術後の一過性の反回神経不全麻痺については、術中反回神経を同定し周囲を剥離したことが原因であり、彎曲型咽喉頭直達鏡との関連性はないと考えている。

以上の如く、下咽頭梨状窩瘻はこれまで様々な方法で治療が行われており、現在においても化学的焼灼術をはじめ治療方法が検討されている。新生児期に発見され治療を行った症例^{14,15)}も報告されており、感染発症時期は新生児から成人まで、またそれに伴い患者背景も多様であり良性疾患であることから、症例毎によく検討のうえ、適切な治療方法を選択する必要がある。

ま と め

・感染性下咽頭梨状窩瘻に対し切開排膿後2週間外切開による瘻管摘出術を行った。

・彎曲型咽喉頭直達鏡による咽頭操作を併用し瘻孔にゾンデを挿入することで、瘢痕癒着が強い症例でも瘻管の同定はより確実に行えた。

・感染発症年齢とそれに伴う患者背景にばらつきがあり、かつ良性疾患であることから、症例毎によく検討のうえ、適切な手術方法を選択する必要がある。

本論文の要旨は、第23回日本頭頸部外科学会（鹿児島市）において発表した。

著者は申告すべき利益相反を有しない。

文 献

- 1) 大竹祐輔, 櫻井真一, 齊藤史明, 他: 7回の頸部膿瘍を繰り返した下咽頭梨状陥凹瘻例. 耳鼻臨床, 補130: 106-111, 2011.
- 2) 杉野圭三, 川口康夫, 矢野将嗣, 他: 下咽頭梨状窩瘻による急性化膿性甲状腺炎の1例. 広島医学, 58: 36-38, 2005.
- 3) 横山有希子, 横島一彦, 中澤裕子, 他: トリクロール酢酸による化学焼灼を施行した梨状陥凹瘻の4例. 耳鼻臨床, 102: 365-371, 2009.
- 4) 大塩猛人, 磯貝 豊, 谷口周平, 他: 下咽頭梨状窩瘻に対する化学的焼灼術による外科的摘出術の回避について. 小児外科, 43: 789-793, 2011.
- 5) 大月直樹, 丹生健一: 下咽頭梨状陥凹瘻に対する経口的化学焼灼術. 耳鼻臨床, 103: 410-411, 2010.
- 6) 岡田信也, 酒井昭博, 大貫順一, 他: 彎曲型咽喉頭直達鏡の応用—下咽頭梨状窩瘻への使用経験. 耳鼻頭頸, 81: 605-608, 2009.
- 7) 中多祐介, 柴山将之, 大脇成広, 他: 下咽頭梨状窩瘻手術症例の検討. 口咽科, 25: 99-103, 2012.
- 8) 成尾一彦, 宮原 裕, 家根旦有, 他: 直達鏡下に染色後摘出した下咽頭梨状窩瘻の1例. 小児耳, 30: 227-231, 2009.
- 9) 境 修平, 安積靖敏, 高橋邦明, 他: 反復性化膿性甲状腺炎を来した下咽頭梨状窩瘻の一症例. 茨城県病医誌, 22: 111-115, 2009.
- 10) 大野耕一, 他: 術中瘻管確認が困難であった下咽頭梨状窩瘻の1症例と本邦報告例の集計. 日小児外会誌, 25: 114-119, 1989.
- 11) 池松里奈, 西嶋文美, 山村幸江, 他: 乳児期より膿瘍を反復した下咽頭梨状窩瘻. 口咽科, 16: 337-382, 2004.
- 12) 土田嘉昭, 本名敏郎, 上井義之, 他: 梨状窩瘻による頸部の反復性炎症. JOHNS, 5: 87-92, 1989.
- 13) 佐藤靖夫, 大森 泰, 田川崇正: 下咽頭表在癌の手術治療—内視鏡的咽喉頭手術 (ELPS) の経験. 日耳鼻, 109: 581-586, 2006.
- 14) 林 宏昭, 中村哲郎, 東 孝, 他: 出生前診断で発見された下咽頭梨状窩瘻の4例. 日本周産期・新生児医学会雑誌, 46: 618, 2010.
- 15) 飯干泰彦, 田附裕子, 関 保二, 他: 内視鏡下の嚢胞内への送気で確定診断し、摘出した新生児梨状窩瘻の1例. 日小外会誌, 43: 948-951, 2007.