披裂部余剰粘膜切除が奏功した成人発症の披裂部型喉頭軟弱症例

兵 頭 政 光・西 窪 加緒里・伊 藤 広 明

A Case of Adult-Onset Arytenoid Type Laryngomalacia Successfully Treated with a Resection of Flaccid Arytenoid Mucosa

Masamitsu Hyodo, Kaori Nishikubo and Hiroaki Ito

Laryngomalacia is one of the most common diseases of laryngeal stenosis in newborns and infants. In contrast, adult-onset laryngomalacia cases are rare and the majority of them are classified as an epiglottic type. We report on a case of 20-year old female with arytenoid type laryngomalacia who presented with an intermittent inspiratory stridor after catching a cold. Her pulmonary function was normal; however, endoscopic examination showed an inward prolapse of the bilateral flaccid arytenoid mucosa during strained inspiration resulting in supraglottic stenosis. She underwent a resection of the flaccid mucosa bilaterally with the use of CO₂ laser. Postoperatively, her inspiratory dyspnea had been successfully relieved for over a year. The rarity of adult-onset laryngomalacia may lead to overlooking the possibility of this disease. Physicians treating dyspneic patients should be aware of laryngomalacia even in adults and thorough endoscopic observation of the larynx should be mandatory.

Key words : laryngomalacia, adult-onset, inspiratory dyspnea, laser surgery

はじめに

喉頭軟弱症 (laryngomalacia) は脆弱な声門上部組織が吸気時に喉頭内に引き込まれることで、気道の狭窄を生じる疾患である。多くは新生児ないし乳児に発症し、この時期の小児の吸気性喘鳴の原因としては最も多いとされている¹⁻³⁾。一方、本症が後天性に発症することはまれであるが⁴⁾、それらでは喉頭蓋に病変を有することが多い。今回、披裂部余剰粘膜が吸気時に喉頭内に陥入することで喘鳴を生じた若年成人の喉頭軟弱症の非常に稀な1例を経験した。本症に対しては、直達鏡下の披裂部余剰粘膜切除術が奏功したので報告する。

症 例 呈 示

症例: 20歳, 女性

主訴: 呼吸困難

現病歴: 生来, 呼吸障害等の自覚はなかった。2010年1月頃より咳が持続するため, 近医内科を受診。咳喘息と診断されて, 投薬等の治療を受けた。その後, 吸気時の呼吸困難感を自覚し, 11月頃には喘鳴も聴取するようになった。症状は咳嗽時や歩行時に強いが, 睡眠時にも息苦しさがある。某病院耳鼻咽喉科へ紹介されたが, 心因性疾患を疑われ心療内科へ紹介され投薬を受けた。しかし, その後も症状の改善が得られず, 他院内科での内視鏡検査で“披裂部の肥大”を指摘されて, 2011年7月に当科紹介受診し

た。

既往歴, 家族歴: 特記事項なし

初診時所見: 深吸気時に喉頭部で喘鳴を聴取したが, 安静時のSpO₂は99%であった。呼吸機能検査では1秒率は85%と正常であった。胸部CTでも気管狭窄や肺野の異常は認めなかった。喉頭内視鏡所見では, 声帯の麻痺や声門下の狭窄などは認めず, 随意的に咳払いをさせたりリラックスさせたりすると吸気時には声門はよく開大した(図1a)。しかし, 緊張すると喉頭前後長が短縮し, 吸気にもなって両側披裂部内側の粘膜が喉頭内に引き込まれ, 声門上部で気道狭窄を呈する所見を認めた(図1b)。これらの所見より, 成人発症型の披裂部型喉頭軟弱症と診断した。なお, あらためて行った問診でも吞酸や胸焼け等の症状はなく, 内視鏡検査でも披裂部後方粘膜の浮腫性腫脹や

図1 初診時喉頭所見

安静吸気時には声門は開大するが(a), 緊張時には喉頭の前後長が短縮し吸気にもなって披裂部粘膜が喉頭内に陥入する(b)。

図2 手術時所見
吸引管(*)で粘膜を吸引すると披裂部粘膜は過剰に伸展する。

図3 披裂部粘膜切除後の所見
両側の披裂部上面の粘膜をCO₂レーザーを用いて切除した。*は気管挿管チューブ。

図4 術後所見
1週間後には切除部に白苔付着を認めるが(a)、1ヵ月後には同部は上皮化しており披裂部粘膜のたるみや吸気時の喉頭内陥入は認めない(b)。cは発声時。

披裂間粘膜の肥厚などの胃食道逆流症を疑わせる所見は認めなかった。

治療経過：2011年9月に全身麻酔下に両側披裂部余剰粘膜切除術を施行した。喉頭直達鏡下に披裂部を展開し披裂部粘膜を吸引管で吸引すると、粘膜には過剰な伸展性があった(図2)。そこで側ずつ、披裂部上面の脆弱な粘膜をCO₂レーザーにて切除した(図3)。この際に術後の瘢痕拘縮による声帯運動障害を避けるために、左右の創面が連続しないように注意した。

術翌日には自覚的にも呼吸困難は軽快した。1週間後には粘膜切除部に白苔付着を認めたが(図4a)、1ヵ月後には粘膜切除部も上皮化し、吸気時の喉頭内への粘膜陥入は認めなくなった(図4b)。声帯の運動障害も認めない(図4b, c)。手術後、約1年を経過した現在も吸気時の喘鳴や呼吸困難はない。

考 察

喉頭軟弱症は、新生児期に気道狭窄をきたす先天性疾患としては広く認知されている。出生後まもなくあるいは数週を経ておこる吸気性喘鳴として気付かれ、多くの例は2歳までに自然寛解する⁵⁾。喘鳴は啼泣時、哺乳時、仰臥位などに強く、重症化すると睡眠時無呼吸、チアノーゼ、哺乳障害、身体発育障害などを呈する。病型分類に関してMcSwineyら⁶⁾は、声門上部構造のどこが陥入するかによって喉頭蓋型(epiglottic type)、披裂喉頭蓋ひだ型(aryepiglottic fold type)、披裂部型(arytenoid type)に分類した。さらに安岡ら^{2,7)}は、これに混合型(combined type)を加えた4型への分類を提唱している。小児においては披裂部型がもっとも多いとされている⁵⁾。

一方、成人発症の喉頭軟弱症、あるいは後天性喉頭軟弱症の報告例^{8,9)}は本邦では散見されるのみである。しかし、乳幼児の呼吸困難において本症の認識は高いが、成人の呼吸困難に対しては耳鼻咽喉科医においても喉頭軟弱症の認識が少なく、本例のように見過ごされている例が少なくない可能性がある。大出ら⁸⁾は2004年までの本邦における後天性喉頭軟弱症6例をまとめているが、病型についてはいずれも喉頭蓋型であった。このように、成人発症の喉頭軟弱症には喉頭蓋型が多く、小児の例と異なり披裂部型の報告は極めて稀である。これは成人では声門が乳幼児に比較して広く、粘膜の喉頭内への陥入の影響が少ないためと思われる。また、本例のような披裂部粘膜の陥入による呼吸障害が、喉頭軟弱症の一病型であるとの認識が十分でないことも考えられる。

後天性喉頭軟弱症は、原因不明のこともあるが、中枢神経障害による喉頭筋の緊張低下や両側反回神経麻痺、声門上狭窄による吸気時陰圧による披裂部余剰粘膜の形成、逆流性食道炎による披裂部粘膜浮腫等が原因となることがある^{8,9)}。また、安岡らは舌根嚢胞や咽頭異物による声門上部の狭窄に伴い、ベルヌーイ定理にて陰圧が生じ声門上部構造が喉頭内に陥入したと考えられる後天性喉頭軟弱症例

を報告している²⁾が、本例ではこれらの要因はなかった。本例では感冒様症状を契機として発症したことより、従前よりあった披裂部粘膜の脆弱性が喉頭粘膜の炎症による浮腫などの影響で増幅され、喘鳴が顕在化したものと推測している。さらに、吸気性呼吸困難のため努力性呼吸となって喉頭腔の前後長が短縮し、気道狭窄がさらに増強したものと考えた。症状としては、運動時の吸気性呼吸困難や、吸気時にのどにはりつく感じなどの訴えが多い。Richterら⁴⁾も後天性喉頭軟弱症では普段の喘鳴は稀だが、運動により症状が誘発されることが多いと報告している。本例でも運動時や緊張時などの努力性呼吸や臥位などにもなって断続的な吸気性呼吸困難を呈していたが、安静時には呼吸困難を自覚することはあまりなかった。このため、安静時のSpO₂や呼気で計測する1秒率などの呼吸機能は正常であり、当初は喉頭軟弱症の診断が困難であったものと考え、診断において詳細な問診はもちろん重要であるが、大出ら⁸⁾は頸部前屈や呼吸負荷などを行うことの必要性を述べている。

本症の治療においては気道管理が重要となる。軽症～中等症の小児例では多くの例が2歳頃までに軽快するとされ⁵⁾、諸家の報告にあるように定期的なフォローでよいと考える。しかし、SpO₂の明らかな低下、著しい閉塞性睡眠時無呼吸、肺性心による除脈・チアノーゼ、哺乳・摂食障害による身体発育障害などがみられるような重症例では外科的治療を考慮すべきである^{5, 10, 11)}。本例ではSpO₂の低下や睡眠時無呼吸などの症状は認めなかったが、日常生活における支障が強かったことから手術適応と判断した。手術法として披裂部型の例では披裂部余剰粘膜のレーザー切除術の有効性が数多く報告されており^{7, 9-11)}、本例でもこの方法により症状の改善を得ることができた。手術のポイントとしては、鉗子で余剰粘膜を牽引しながら切除範囲を決定し余剰粘膜を取り残さないことと、術後の瘢痕拘縮により声帯の開大運動が妨げられないように披裂間部の粘膜は温存することである^{5, 11-13)}。一方、喉頭蓋型では喉頭蓋の部分切除が行われる。喉頭蓋の1/2程度の切除であれば誤嚥等の術後障害もみられないとされている⁸⁾。

本例は若年成人女性であり、呼吸困難の訴えに対して当初は心因性疾患と診断されていた。症状出現時には努力性呼吸がみられるなど心因的な要因の関与も否定はできないが、成人の喉頭軟弱症に対する認識が十分でなかったことは否めない。比較的低侵襲の直達鏡下披裂部余剰粘膜切除より速やかに症状の改善が得られたことから、本症に対する認識と適切な対応の必要性が示唆された。

ま と め

稀な成人発症の披裂部型喉頭軟弱症例を経験し、喉頭直達鏡下の披裂部余剰粘膜切除術により呼吸困難の改善を得ることができた。本例における発症機序や診断上の問題点について考察を加えた。

参 考 文 献

- 1) 守本倫子, 川城信子, 泰地秀信: 呼吸障害をきたす喉頭疾患. 小児耳 26: 24-26, 2005.
- 2) 安岡義人, 豊田 実: 喉頭軟弱症の取り扱い - 重症例の検討 -. 喉頭 21: 93-97, 2009.
- 3) Zoumalan R, Maddalozzo J, Holinger LD: Etiology of stridor in infants. Ann Otol Rhinol Laryngol 116: 329-334, 2007.
- 4) Richter GT, Rutter MJ, deAlarcon A et al: Late-onset laryngomalacia: a variant of disease. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 134: 75-80, 2008.
- 5) 坂倉浩一, 安岡義人: 喉頭軟弱症の病態と根治的治療の必要性. JOHNS 19: 1581-1584, 2003.
- 6) McSwiney PE, Cavanagh NPC, Languth P: Outcome in congenital strider (laryngomalacia). Arch Dis Child 52: 215-218, 1977.
- 7) 安岡義人: 喉頭軟弱症. JOHNS 27, 1951-1955, 2011.
- 8) 大出茂典, 井上庸夫, 徳丸晶子ほか: 後天性喉頭軟弱症例. 耳鼻臨床 97: 43-46, 2004.
- 9) 加藤 央, 木村美和子, 熊谷 譲ほか: 披裂部余剰粘膜により呼吸困難をきたした小児の2症例. 日気食会報 60: 41-46, 2009.
- 10) Roger G, Denoyelle, Triglia JM et al: Severe laryngomalacia: surgical indications and results in 115 patients. Laryngoscope. 105: 1111-1117, 1995.
- 11) 西窪加緒里, 兵頭政光: 外科的治療を要した喉頭軟弱症の2例. 喉頭 22: 25-29, 2010.
- 12) 山形和彦, 野本俊司, 兵頭政光ほか: 手術治療の奏功した喉頭軟化症の1例. 日気食会報 44: 296-300, 1993.
- 13) Senders CW, Navarrete EG: Laser supraglottoplasty for laryngomalacia: are specific anatomical defects more influential than associated anomalies on outcome?-. Int J Pediatr Otorhinolaryngol 57: 235-244, 2001.