

## 先天性喘鳴を契機に診断された正中頸嚢胞の一例

<sup>1</sup>東京女子医科大学東医療センター卒後臨床研修センター<sup>2</sup>東京女子医科大学東医療センター小児科<sup>3</sup>東京女子医科大学東医療センター新生児科<sup>4</sup>東京女子医科大学第2外科

ハセガワマツリ	ホンマ	サトシ	シダ	ヨウコ	ハセガワヒサヤ
長谷川茉莉 <sup>1</sup>	本間	哲 <sup>2</sup>	志田	洋子 <sup>2</sup>	長谷川久弥 <sup>3</sup>
カワシマ	ショウコ	オサム	スギハラ	シゲタカ	
川島	章子 <sup>4</sup>	修 <sup>4</sup>	杉原	茂孝 <sup>2</sup>	

(受理 平成24年8月10日)

## A Case of Median Cervical Cyst in Which the First Clue to Diagnosis Was Congenital Stridor

Matsuri HASEGAWA<sup>1</sup>, Satoshi HOMMA<sup>2</sup>, Yoko SHIDA<sup>2</sup>, Hisaya HASEGAWA<sup>3</sup>,  
Shoko KAWASHIMA<sup>4</sup>, Osamu SEGAWA<sup>4</sup> and Shigetaka SUGIHARA<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Medical Training Center for Graduates, Tokyo Women's Medical University Medical Center East<sup>2</sup>Department of Pediatrics, Tokyo Women's Medical University Medical Center East<sup>3</sup>Division of Neonatal Intensive Care, Tokyo Women's Medical University Medical Center East<sup>4</sup>Department of Surgery II, Tokyo Women's Medical University

We describe a case of successfully treated median cervical cyst (thyroglossal duct cyst) on the base of the tongue in which the first clue to the diagnosis was congenital stridor. A 4-month-old male infant was admitted to our hospital for further investigation of congenital stridor. He was born at 39 weeks gestation with a birth weight of 2,595 g. Stridor was noticed during the first week after birth at another hospital and a wait-and-see approach was taken. On admission, he had a good temper, but inspiratory stridor, retractive breathing, funnel chest and poor weight gain (4.96 kg; BMI 14.1) were observed. Slight lowering of oxygen saturation during the night could also be seen. Laryngofiberscopy identified a median cervical cyst complicated by secondary laryngomalacia. We determined the need for surgical treatment on grounds of desaturation during the night and the possible risk of respiratory failure due to enlargement of the cyst. Fenestration of the cyst and epiglottopexy by oral approach was adopted. After surgery, stridor disappeared, weight gain was good and oxygen saturation also improved. Improvement of the laryngomalacia was observed by the postoperative laryngofiberscopy. We think there is a need for vigorous investigation and treatment in children with growth failure and respiratory problems.

**Key Words:** thyroglossal duct cyst, congenital stridor, laryngofiberscopy, surgical treatment

## 緒 言

先天性喘鳴は、新生児期から認められる吸気性喘鳴の総称であり、その原因となる疾患は多様である。今回、舌根部の正中頸嚢胞にともなう二次性喉頭軟化症が先天性喘鳴の原因であると診断し、外科的治療により症状の著明な改善が得られた症例を経験したので、報告する。

## 症 例

**患者:** 4ヵ月男児  
**主訴:** 吸気性喘鳴、体重増加不良  
**出生歴:** 在胎39週1日、出生時体重2,595g、正常分娩で出生した。  
**家族歴:** 特記事項なし。  
**現病歴:** 生後1週間より喘鳴が認められるようになり、近医で経過観察中であった。保健所の3・4

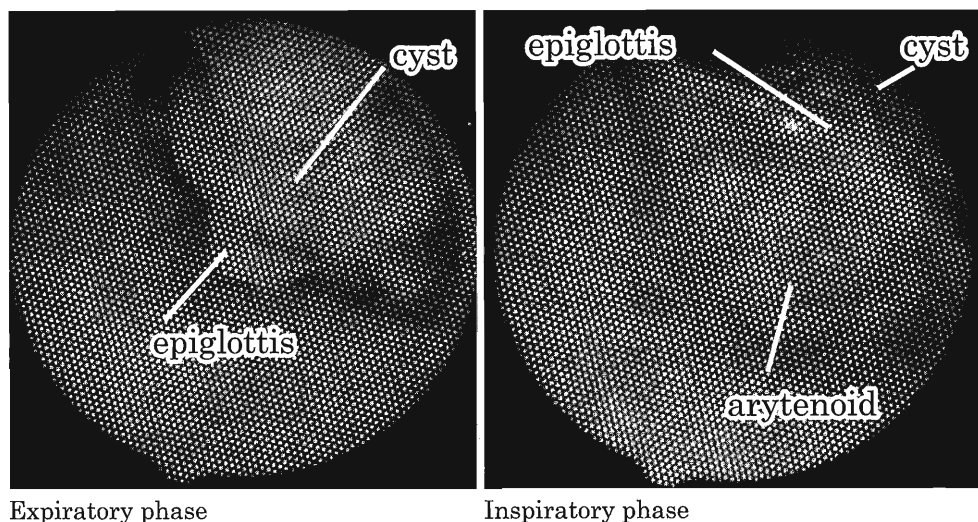


Fig. 1 Laryngofiberscopy

Laryngofiberscopy showing a median cervical cyst with secondary tracheomalacia clarified in the inspiratory phase.

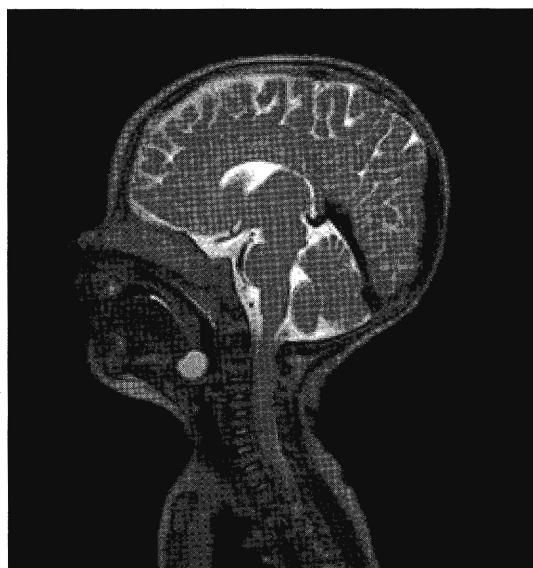


Fig. 2 T2 weighted image of MRI  
MRI showing a cystic mass on the base of the tongue

ヵ月健診で明らかな吸気性喘鳴と体重増加不良を指摘され、先天性喘鳴の精査加療目的に東京女子医科大学東医療センターに紹介入院となった。

**入院時身体所見：**体重 4.96kg (−2.38SD), 身長 59.3cm (−1.68SD), BMI 14.1, 経皮的酸素飽和度 98%, 体温 37.1℃, 心拍数 132bpm, 呼吸数 48 回/分, 意識清明で機嫌も良いが, 吸気性喘鳴, 陥没呼吸, 漏斗胸を認めた。

**検査所見：**血算, 血液生化学, 甲状腺ホルモン検査では, 検査値は正常範囲内であった。SpO<sub>2</sub>トレンドグラムでは酸素飽和度の夜間平均値は 92.8% で

あった。頸部レントゲン像では明らかな気道狭窄所見は認めなかった。心エコー図では心負荷所見は認めなかった。頸部エコー図では甲状腺は正常位置に同定され, 口腔底(舌根部)に内部均一な嚢胞性腫瘤を認めた。喉頭・気管ファイバースコピーでは肉眼的に表面平滑な嚢胞性腫瘤を舌根部正中に認め, 喉頭蓋が腫瘤によって圧排され, 吸気時に声門に向かって引き込まれる所見を認めた(Fig. 1)。気管・気管支軟化症は認められなかった。頸部 MRI では舌根部正中に最大径 12mm の類円形の嚢胞性病変を認め, 壁は薄く均一であり, 内部に造影効果はなかった(Fig. 2)。甲状腺シンチグラフィーでは異所性甲状腺を認めなかった。

**治療および経過：**喉頭・気管ファイバースコピーより二次性喉頭軟化症(Olney III 型)を合併した舌根部正中の嚢胞性病変と診断した。体重増加不良があり, 夜間の酸素飽和度の軽度低下を認め, 嚢胞の増大による呼吸障害の進展も懸念されたことから積極的治療の適応があると考え, 小児内視鏡手術用器具を用いて嚢胞開窓術と喉頭蓋固定術を施行した。嚢胞を穿破したところ, 内部から透明ゼリー状の内容物が吸引された。

術後の経過は良好で, 喘鳴が消失し, 酸素飽和度の夜間平均値は 97.5% に改善した。術前 1 ヶ月間の体重増加は 14.6g/日であったのに対し, 術後 1 ヶ月では 32.4g/日となり, 以後順調な体重増加を認めた。術後 12 日目の喉頭ファイバースコピーでも喉頭軟化症の所見は改善していた。退院の上, 外来で経過

観察となったが、症状の再発は認められていない。

### 考 察

先天性喘鳴の原因疾患は多様である<sup>1)</sup>。喉頭・気管ファイバースコープは喉頭の動きを直接観察できることから、先天性喘鳴の診断に有用である。本症例でも喉頭・気管ファイバースコープにより舌根部正中の嚢胞性病変に合併した二次性喉頭軟化症と迅速に診断できた。

喉頭軟化症は先天性喘鳴の原因として最も頻度が高い疾患である<sup>1)</sup>。喉頭軟化症の形態は喉頭ファイバースコープの所見によって3種類に分類される。すなわち、披裂部が引き込まれる Olney I 型、喉頭蓋がΩ (オメガ) 型に変形する Olney II 型、喉頭蓋が倒れ込む Olney III 型であるが、本症例は Olney III 型であった。

舌根部に発生する嚢胞性疾患には正中頸嚢胞、喉頭蓋嚢胞、異所性甲状腺腫、皮様嚢胞などがある。正中頸嚢胞は甲状舌管の遺残が嚢胞を形成したものであり、甲状舌管嚢胞とも呼ばれる。舌根部から胸骨上端までの正中線上のどの部分にも発生するが、舌根部での発生はまれであり、頸部正中の腫瘤として外表から気付かれることがほとんどである<sup>2)3)</sup>。喉頭蓋嚢胞は喉頭蓋舌面に見られる嚢腫であり、正中頸嚢胞とは明確に区別されるが、起始部の同定が困難な場合もある<sup>4)</sup>。異所性甲状腺腫を鑑別することは、手術適応を考える上で重要であり<sup>5)</sup>、エコー図、甲状腺シンチグラフィにより異所性甲状腺腫を除外診断した。本症例は、術前の MRI 所見、喉頭・気管ファイバースコープによる嚢胞性腫瘤の肉眼的性状と、術時の嚢胞内容の性状から、舌根部に発生した正中頸嚢胞と診断した。

本症例は、夜間の酸素飽和度の低下、体重増加不良があり、呼吸状態が急激に悪化する可能性もあること<sup>6)7)</sup>から手術の適応があると判断した。手術法としては穿刺吸引、開窓術、嚢胞摘出術があり、嚢胞の発生部位、大きさなどを考慮して選択する。本症例では、より侵襲が少ない術式、すなわち嚢胞開窓術と喉頭蓋固定術を小児内視鏡手術用器具を用いて施行した。嚢胞開窓術で喉頭蓋への圧迫を解除した後も、二次的な喉頭蓋の軟化による症状はしばらく残存する可能性が高いと判断したこと、および開窓

部に喉頭蓋を吊り上げて固定することにより、嚢胞の再発を防止することも可能であると判断したことより、喉頭蓋固定術を同時に施行した。術後、症状の著明な改善を認め、喉頭ファイバースコープで、喉頭軟化症所見の改善が確認された。

正中頸嚢胞は術後の再発がまれではない疾患であることが知られているが<sup>8)</sup>、本症例では今までのところ再発を認めていない。今後も注意深く経過を観察する予定である。

### 結 語

先天性喘鳴を契機に診断に至った正中頸嚢胞、喉頭軟化症の症例を報告した。

本症例は喉頭・気管ファイバースコープにより速やかに正確な診断が可能となり、外科的に加療することができた。先天性喘鳴の児の多くは1歳までに自然軽快すると言われているが、呼吸障害や体重増加不良を認める児では積極的な検査と治療を行う必要がある。

開示すべき利益相反はない。

### 文 献

- 1) 長谷川久弥: 小児の治療指針 呼吸器 先天性喘鳴. 小児診療 73: 406-408, 2010
- 2) 鹿野高明, 高橋 豊, 小柴 茂ほか: 目で見える小児科 先天性喘鳴で発症した乳児舌根嚢胞の1例. 小児科 51: 1213-1214, 2010
- 3) 加藤明子, 北村拓朗, 松本理佐ほか: 新生児舌根部嚢胞例. 耳喉・頭頸外科 83: 419-422, 2011
- 4) 森川紋子, 川崎一輝, 遠藤美紀ほか: 目で見える小児呼吸器疾患 先天性喘鳴を呈した喉頭蓋嚢胞の1例. 日小児呼吸器会誌 22: 77-80, 2011
- 5) 鈴木則夫, 西 明, 黒岩 実ほか: 知っているようで知らない, これら疾患の違い 正中頸嚢胞 (甲状舌管嚢胞) と異所性甲状腺. 小児外科 41: 323-326, 2009
- 6) Eom M, Kim YS: Asphyxiating death due to basal lingual cyst (thyroglossal duct cyst) in two-month-old infant is potentially aggravated after central catheterization with forced positional changes. Am J Forensic Med Pathol 29: 251-254, 2008
- 7) Bai W, Ji W, Wang L et al: Diagnosis and treatment of lingual thyroglossal duct cyst in newborns. Pediatr Int 51: 552-554, 2009
- 8) 堀澤 稔, 勝野伸介: 再手術, 再々手術 病態の再発要因と再手術時の工夫 正中頸嚢胞の再発および再手術について. 小児外科 37: 1083-1088, 2005