

症例

発熱と頸部痛を繰り返した 左下咽頭梨状窩瘻の 7 歳男児例

大槻俊文¹⁾、上村美季¹⁾、大友江未里¹⁾、渡邊庸平¹⁾、八木一剛²⁾、頓所滉平¹⁾、齋藤大¹⁾、酒井秀行¹⁾、大沼良一¹⁾、久間木悟¹⁾

1) 国立病院機構仙台医療センター 小児科

2) 国立病院機構仙台医療センター 耳鼻咽喉科

抄録

下咽頭梨状窩瘻は胎生期の頸部発生における第 3 もしくは第 4 鰓弓の遺残物とされ、下咽頭の梨状窩から甲状腺付近まで至る盲管構造である。瘻孔内に感染を引き起こすと、頸部腫瘍、膿瘍や急性化膿性甲状腺炎の原因となることがある。症例は 7 歳男児で、発熱と左頸部の痛み、腫脹を繰り返していた。このため頸部造影 CT を施行したところ甲状腺左葉に一部接して不均一に造影される腫瘍影とその頭側に含気を認め、左下咽頭梨状窩瘻が疑われた。しかし甲状腺炎には至っていなかった。治療は Cefotaxime と Clindamycin で行い左前頸部腫脹は軽快した。内服を含め計 15 日間の抗菌薬投与で消炎を行ってから咽頭造影検査を行ったところ、左梨状窩直下に造影剤の残留を認め左下咽頭梨状窩瘻およびその瘻孔部感染による頸部腫瘍と診断した。瘻孔については今後根治目的の手術を行う方針である。本症例のように発熱と頸部腫脹を繰り返す場合には下咽頭梨状窩瘻が存在している可能性を念頭に置き診療にあたる必要がある。

キーワード：頸部腫瘍、下咽頭梨状窩瘻、急性化膿性甲状腺炎、小児

(2022 年 5 月 30 日受稿、2022 年 6 月 24 日受理、連絡先：大槻俊文・仙台医療センター 小児科)

【はじめに】

下咽頭梨状窩瘻は胎生期の頸部発生における第 3 もしくは第 4 鰓弓の遺残物とされ、下咽頭の梨状窩から甲状腺付近まで至る盲管構造である¹⁾。有病率は不明であるが、性差はなく解剖学的に左に発生することが多いとの報告がある^{1) 2) 3)}。瘻孔部に口腔内細菌が感染すると、頸部に感染性腫瘍を形成し、さらに甲状腺に炎症が波及すると急性化膿性甲状腺炎の原因となることがある^{1) 2) 3)}。

今回、月単位で反復する発熱と頸部痛が抗菌薬治療にて改善するという臨床経過、および咽頭造影検査をはじめとする各種検査から診断に至った左下咽頭梨状窩瘻および瘻孔部感染の 1 例を経験したの

で文献的考察を若干加えて報告する。

【症例】

症 例：7 歳 男児

主 訴：発熱 左前頸部腫脹

現病歴：入院の 2 か月前に 40℃ 台の発熱と頸部痛を主訴に近医を受診し、中耳炎疑いで Cefaclor を投与され、速やかに解熱した。1 か月後に 37℃ 台の発熱と腹痛があり近医を受診した。Fosfomycin を処方され腹痛は速やかに改善したが発熱は持続した。発熱 7 日目より左頸部の腫脹が出現したため発症 9 日目に当科紹介となり、菊池病疑いとして経過観察したところ症状は一時改善した。入院前日

から再び38.1℃の発熱、頸部痛、軽度の嘔気、耳介発赤があり当科を再診した。受診時に左前頸部に直径3cm大の球状の腫瘍を触知し、精査加療目的に当科入院となった。

既往歴：6か月、1歳時にインフルエンザ罹患

家族歴：甲状腺疾患や悪性疾患の家族歴はない。

入院時現症：体温37.2℃、体重24kg、左前頸部に直径3cm大の球状で弾性硬、可動性良好の腫瘍を触知した（図1）。同部には圧痛を認めたが熱感や発赤はなかった。口腔内発赤や白苔の付着は認めなかった。頸部および体表のリンパ節腫大を認めなかった。

入院時検査所見：白血球5400/ μ Lと正常であったが、CRP 0.6 mg/dLと炎症反応が軽度上昇していた。甲状腺機能については、FT3 4.16 pg/mL、FT4 1.32 ng/dL、TSH 4.71 μ IU/mLと正常範囲で、サイログロブリン 22.1 ng/mL、カルシトニン 0.67 pg/mL、抗サイログロブリン抗体陰性、抗TPO抗



図1 入院時の左前頸部
直径3 cmほどの腫瘍を触知した

WBC	5.4	10 ³ / μ L
Hb	12.5	g/dL
Hct	39.1	%
Plt	35.3	10 ⁴ / μ L
Neut	2900	/ μ L
Alb	4.0	g/dL
T-Bil	0.44	mg/dL
AST	22	U/L
ALT	12	U/L
r-GTP	11	U/L
CK	55	mU/mL
アミラーゼ	69	U/L
リパーゼ	20	U/L
BUN	8	mg/dL
Cre	0.37	mg/dL

表1 入院時採血検査

Na	137	mEq/L
Cl	103	mEq/L
K	3.9	mEq/L
CRP	0.6	mg/dL
sIL-2R	573.0	U/mL
フェリチン	38.5	ng/mL
TSH	4.71	μ IU/mL
FT3	4.16	pg/mL
FT4	1.32	ng/dL
サイログロブリン	22.1	ng/mL
カルシトニン	0.67	pg/mL
抗サイログロブリン抗体	<10.0	IU/mL
抗TPO抗体	2.4	IU/mL
CEA	0.9	ng/mL

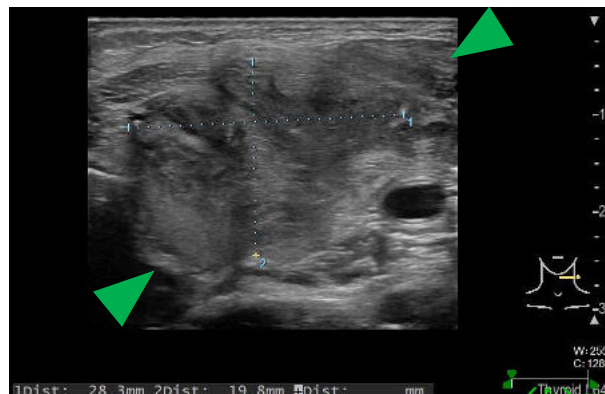


図2 入院時頸部超音波検査

甲状腺左葉に接して長径28.3mmの不整形腫瘍を認める

体2.4 IU/mLと異常所見は認めなかった。その他、可溶性IL-2受容体573.0 U/mL、CEA 0.9 ng/mLと正常であった（表1）。咽頭粘液培養では、 α hemolytic streptococcus、Heamophilus parainfluenzae、Neisseria speciesを検出した。

画像検査：甲状腺超音波検査では、甲状腺の表面は平滑で腫大は認めなかったが、左葉に接して長径28.3 mmの不整形の腫瘍を認めた（図2）。境界は不明瞭で内部は不均一だったが血流を認めた。また、周囲には最大径16 mmの腫大リンパ節を複数認め、炎症性変化が示唆された。頸部造影CT検査では、腫瘍触知部位と一致して左前頸部に直径27 mmの不均一に造影される陰影を認め、一部甲状腺の左葉に浸潤していた（図3）。また、腫瘍よりも頭側にごく少量のAirを認め、管状構造の存在が疑われた（図4）。そのほか熱源となるような病変や悪性腫瘍を疑わせる所見はなかった。

入院後経過：初発時から診断に至るまでの臨床経過を図5に示す。入院時の採血検査では軽度の炎症反応を認め、入院当日からCefotaxime (CTX) 90 mg/kg/dayを開始した。解熱が得られなかったため入院3日目から下咽頭梨状窩瘻に嫌気性菌が感染している可能性を念頭にClindamycin (CLDM) 25 mg/kg/dayを併用開始した。同日当院耳鼻科にて咽頭内視鏡検査を施行するも、観察範囲内に膿汁の貯留など異常所見を認めなかった。また喉頭にも浮腫など気道狭窄の所見も認めなかった。入院5日目には解熱が得られたため、入院6日目に抗菌薬をAmoxycillin/Clavulanic acid (AMPC/CVA) 3.03

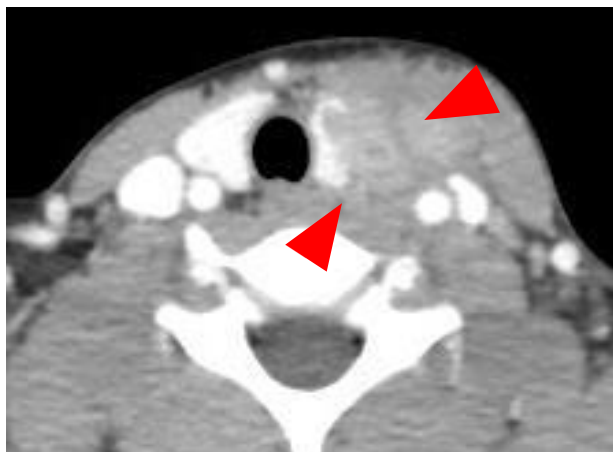


図 3 入院時頸部造影 CT 検査
一部甲状腺左葉に浸潤する長径 27 mm の不均一な腫瘤影 (矢頭)

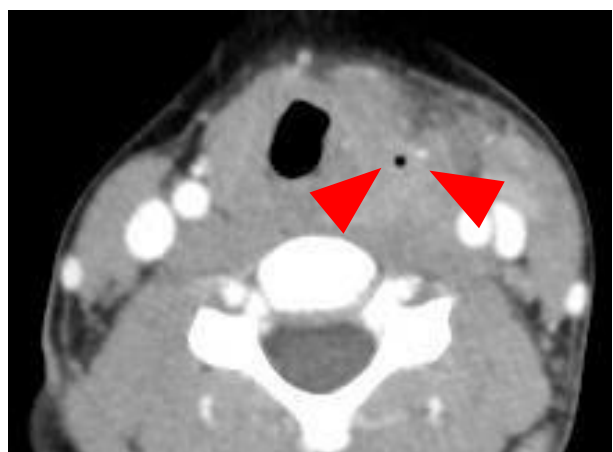


図 4 入院時頸部造影 CT 検査
図 3 の腫瘤影より頭側に含気を認める (矢頭)

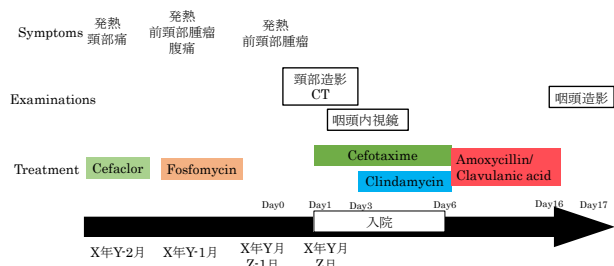


図 5 臨床経過

g/day 内服に変更し退院とした。退院時、左前頸部の腫瘍は直径 2cm 大まで縮小を認めるも性状は変化なく、圧痛は残存していた。

退院後 11 日目に左前頸部の腫瘍は直径 1.5 cm 大まで縮小し、弾性硬で性状は変化なかったが、圧痛は消失していた。同日に当院耳鼻科でバリウムを用いた咽頭造影を行ったところ、左の下咽頭梨状窩の

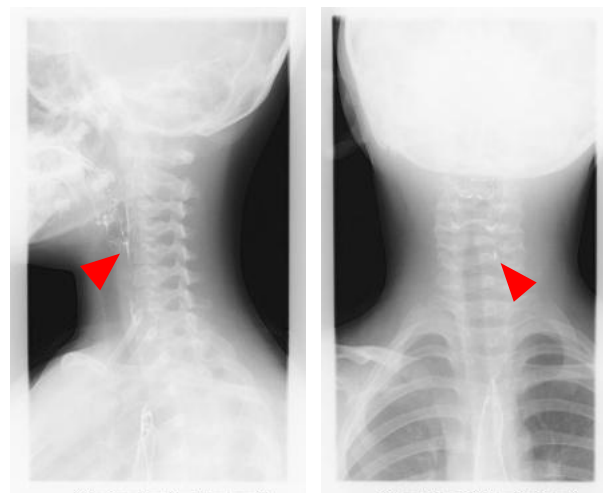


図 6 咽頭造影検査
梨状窩直下に造影剤の残留を認める (矢頭)

直下に造影剤の残存が認められたため、左下咽頭梨状窩瘻の確定診断とした (図 6)。今回の繰り返す発熱と頸部腫脹は左下咽頭梨状窩瘻の瘻孔部感染によるものと考えられた。

今後は瘻孔部摘出を含む根治手術を行う予定である。

【考察】

小児は成人に比べて免疫系が未発達で咽頭腔が狭く周囲の組織も柔らかい。このため深頸部膿瘍ができやすく気道圧迫症状を伴うこともあり重篤になりやすい。深頸部膿瘍の原因として化膿性頸部リンパ節炎、咽頭・扁桃・菌原性感染症、頸嚢胞や瘻孔などが挙げられるが、その中でも発生頻度の低い下咽頭梨状窩瘻への感染による深頸部膿瘍は診断が付きにくい。

下咽頭梨状窩瘻における瘻孔は、胎生期の頸部の発生段階における第 3 もしくは第 4 鰓弓由来の遺残物とされており、下咽頭の梨状窩にある咽頭粘膜が尾側に向かって引き延ばされ瘻孔化した内瘻で甲状腺の近傍まで伸びている¹⁾。また、性差はなく、解剖学的に圧倒的に左側の発症が多い²⁾。口腔内常在菌が瘻孔部に感染し下降性に炎症が波及して膿瘍を形成すると、頸部膿瘍や腫瘍、急性化膿性甲状腺炎の原因になる¹⁻³⁾。症状としては、発熱や前頸部の腫脹、発赤が多く、圧痛や嚥下時痛を伴うこともある²⁾。新生児期に発症した場合、気道圧排による

呼吸困難感、チアノーゼが認められ重篤となることがある⁴⁾。本症例では発熱と前頸部痛、腫脹を認めていたが、嚥下時痛や気道の圧排所見はなかった。また、左側発症である点は下咽頭梨状窩瘻として考えやすい。臨床経過としては、保存的加療後に再発を繰り返すことが多いとされている²⁾。本症例でも発熱と頸部痛、腫脹を認め抗菌薬投与にて軽快するというエピソードを月単位で繰り返しており、下咽頭梨状窩瘻の臨床経過としては典型的であると考えられる。

下咽頭梨状窩瘻の診断には、頸部 CT 検査、咽頭内視鏡検査、咽頭造影検査が用いられている^{2) 5) 6) 7) 8) 9) 10)}。頸部 CT 検査は急性期でも炎症の程度がわかり、甲状腺形態の変化や膿瘍の存在も確認できる。さらに瘻孔径が十分である場合には含気から瘻孔を確認できるという利点がある²⁾。今回の症例では入院時に頸部造影 CT 検査を施行したところ、甲状腺の左葉に一部浸潤している内部不均一な腫瘤を認め、その頭側にわずかな含気を認めた。しかし、梨状窩から甲状腺近傍に連続する瘻管の確認には至らなかった。一方で CT 検査は小児に対して被曝のリスクもあり、撮影のタイミングについては慎重に検討する必要がある。咽頭内視鏡検査は内視鏡下に瘻孔開口部を直接確認できるが、小児に対しては鎮静を考慮する必要があり炎症の急性期では浮腫により観察が困難となる可能性が高い。本症例では児の協力もあり無鎮静で施行することができたが、梨状窩に瘻孔開口部を確認することはできなかった。炎症が落ち着いた後であれば、開口部が確認できた可能性はあると思われた。咽頭造影検査は造影剤を飲用してもらい、造影剤を梨状窩に流入させて撮影する。この際、瘻孔部に造影剤が流入するように、かつ描出されやすいように頸部を動かして撮影する必要があるため、患児の協力が不可欠である。瘻孔部にわずかでも造影剤が流入すれば造影されるため診断に至りやすく、最も有用な検査とされる³⁾。一方で、炎症の急性期では瘻孔や周辺組織の浮腫により瘻孔部に造影剤が流入しづらいため、炎症が落ち着いたからの検査が好ましいとされる^{3) 5)}。小國らによれば、造影剤については瘻孔部への残存を考慮してバリウムではなく血管造影剤を用いたとの報告

や、造影剤をジュースで割って飲みやすくするとといった報告もある⁶⁾。本症例では、消炎後の退院後 11 日目に外来にてバリウムを用いて施行した。その結果、下咽頭の梨状窩の直下に造影剤の残存を認め、下咽頭梨状窩瘻と診断した。検査終了後も患児からは特に不快感の訴えは聞かれなかった。入院中に咽頭造影検査を施行していた場合、浮腫により造影剤の流入が難しく所見を得ることが難しかったと思われる、今回の咽頭造影検査のタイミングは適切であったと考えられた。

下咽頭梨状窩瘻の治療について、感染急性期は抗菌薬投与、経皮的ドレナージが行われる。起因菌としては、下咽頭梨状窩に開口しているという特性からブドウ球菌、連鎖球菌、嫌気性菌といった口腔内常在菌が多いといわれている¹²⁾。本症例での抗菌薬選択については、細菌感染症として第三世代セフェム系抗菌薬 CTX を選択し、その後嫌気性菌カバーとしてリンコマイシン系抗菌薬 CLDM を追加した。CLDM の選択においては、下咽頭梨状窩瘻による急性化膿性甲状腺炎に CTX と CLDM の併用が著効したという星野らの文献を参考にした⁹⁾。退院時は AMPC/CVA に切り替えた。投与期間は CTX 単独が 2 日間、CTX と CLDM の併用が 3 日間、AMPC/CVA に切り替えて 10 日間の合計 15 日間であった。患児は CRP の上昇が軽微で治療効果判定の指標としては不十分であり、発熱と頸部腫瘤の大きさも治療効果判定に加えた。抗菌薬投与 5 日目に解熱し、入院 6 日目には腫瘤が縮小し CRP も陰転化しており検出菌の結果を踏まえても抗菌薬による治療効果はあったと考えられた。一方で、抗菌薬に反応していたため、侵襲的なドレナージは本症例では必要ないと考えた。下咽頭梨状窩瘻の根治には外切開もしくは経口的切除にて外科的に瘻孔部を摘出することが必要である。症例によっては瘻孔部の炎症によって甲状腺が癒着化しており手術の際に瘻孔の摘出に加えて甲状腺半切が必要になったとの報告もある⁸⁾。その他、全身麻酔下で内視鏡的に開口部や導管を化学的に焼灼する入口部焼灼法や導管焼灼法も考案されている¹³⁾が、瘻孔部が完全に塞がらない可能性も指摘されている¹¹⁾。以上を総合的に判断し本症例では根治を目指して瘻孔部摘出術

を行う予定とした。

【結語】

発熱と頸部痛・腫脹を繰り返し左下咽頭梨状窩瘻の診断に至った7歳男児例を経験した。下咽頭梨状窩瘻の診断が遅れると急性化膿性甲状腺炎へと進展することがあるため、繰り返す発熱と前頸部腫脹を主訴に来院する小児では下咽頭梨状窩瘻を鑑別に加え、適切な時期に咽頭造影などの検査を実施し早期診断につなげる必要がある。

本論文の発表に関して開示すべきCOIはありません。

【参考文献】

- 1) S Takai, F Matsuzuka, G Kosaki, et. al. Internal fistula as a route of infection in acute suppurative thyroiditis. *Lancet* 1. 1979;313:751-752
- 2) 鶴久土保利、橋詰直樹、八木実：先天性頸部瘻孔・嚢胞性疾患。小児内科 2018;50: 217-220
- 3) 日本小児外科学会。梨状窩瘻。 http://www.jsps.or.jp/archives/sick_type/rijou-karou：20 Apr 2022
- 4) 佐藤里奈、光澤博昭、黒瀬誠、他：呼吸困難を生じた新生児下咽頭梨状窩瘻の1例。小児耳鼻咽喉科；2019;40(3):283-286
- 5) 浅野健、内木場庸子、蔡靈芝、他：左下咽頭梨状窩瘻からの感染による急性化膿性甲状腺炎の1女児例。 *Journal of Nippon Medical School* 2002;69(6):593-596
- 6) 小國裕和、植松賢司、鈴木秀一、他：頸部リンパ節炎に急性化膿性甲状腺炎を続発した梨状窩瘻の1例。 *小児科臨床* 2017;70(3):309-314
- 7) Chen T, Ge G, Chen J, et. al. Pyriform Sinus Fistula in Children: Preferred Imaging Modality and Risk Factors for Diagnostic Delay. *Front Pediatr.* 2020;8:575812
- 8) 鎌田慎、奥瀬諒、小石山隼、他：上部消化管内視鏡により下咽頭梨状窩瘻を同定した急性化膿性甲状腺炎の1例。 *八戸市立市民病院医誌*；2021;39:1-5
- 9) 星野陽子、白石真大、土山厚志、他：甲状腺腫瘍との鑑別に苦慮した非定型的な化膿性甲状腺炎の1例。 *臨床小児医学* 2012;60(1-6):31-34
- 10) Wang W, Shen H. Thyroid Abscess Associated With Pyriform Sinus Fistula. *Mayo Clinic Proc.* 2021;96(11):2854-2855
- 11) Kim KH, Sung MW, Koh TY, et. al. Pyriform sinus fistula: management with chemocauterization of the internal opening. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 2000;109(5):452-456
- 12) Ahn D, Sohn JH, Kim H, et. al. Clinical and microbiological differences between pyriform sinus fistulae in pediatric and non-pediatric patients. *Auris Nasus Larynx.* 2015;42(1):34-8
- 13) 大塩猛人：新生児期下咽頭梨状窩瘻・甲状腺左葉合併摘出術後の再発症例に対して行った化学的焼灼術。 *日小外会誌* 2022;58(1):73-78