

— 臨床 —

聴神経腫瘍術後に脳幹・小脳出血を合併し摂食嚥下障害を認めた1症例

笹 杏奈, 辻 光順, 渡邊賢礼, 那小屋公太, 伊藤加代子, 真柄 仁, 辻村恭憲, 井上 誠

新潟大学大学院医歯学総合研究科 摂食環境制御学講座 摂食嚥下リハビリテーション学分野 (主任: 井上 誠 教授)

Case report of dysphagia following resection of acoustic neuroma with postoperative hemorrhage of brain stem and cerebellum

Anna Sasa, Kojun Tsuji, Masahiro Watanabe, Kouta Nagoya, Kayoko Ito, Jin Magara, Takanori Tsujimura, Makoto Inoue

Division of Dysphagia Rehabilitation, Niigata University Graduate School of Medical and Dental Sciences, (Chief; Prof. Makoto Inoue)

平成 30 年 4 月 5 日受付 平成 30 年 5 月 2 日受理

キーワード: 聴神経腫瘍, 摂食嚥下障害, 間接訓練, 直接訓練, 姿勢調整

Key words: acoustic neuroma, dysphagia, direct therapy, indirect therapy, position adjustment

Abstract

We report a case of a 56-years old woman with dysphagia following resection of acoustic neuroma. She underwent an operation for tumor in February, 2017. After the surgery, hemorrhage of left cerebella and a low density area in the pons and medulla were detected, which was surgically treated with evacuation of hematoma and decompressive craniectomy. First physical examination performed on the 11th day after the surgery revealed cerebellar and vestibular symptoms including posture holding difficulty and ataxic dysarthria and bulbar palsy including facial palsy, impairment of tongue and palatal movements. A score of repetitive saliva swallowing test was 2 and that of modified water swallowing test was 3a. Videoendoscopic examination revealed 1) pharyngeal residues and laryngeal penetration of secretion at rest, 2) fixation of left arytenoid cartilage and vocal cord with incomplete glottal closure, and 3) weak whiteout and regurgitation of bolus into the nasopharynx during swallowing as well as silent aspiration. Because the patient suffered from severe dysphagia, oral care and indirect therapy were started. On the 19th day, direct therapy was started because the durability was improved. Videofluoroscopic examination performed on the 35th day, revealed no improvement of function so that we continued indirect and direct therapies. Before hospital transfer, final examination was performed on the 55th day and no dynamic changes in the bulbar palsy were noted. However, the patient acquired safe methods to take some foods in the dysphagia rehabilitation including indirect and direct therapies and position adjustment.

抄録

聴神経腫瘍術後に嚥下障害を認めた一例を報告する。症例は56歳女性。2017年2月に小脳・脳幹を圧迫する聴神経鞘腫に対する摘出術施行, 術後左小脳出血及び延髄から橋にかけて低吸収域を認めたため, 脳内血腫除去および減圧開頭術が施行された。術後11日目に嚥下機能評価目的に当科初診となった。小脳前庭症状としての姿勢保持困難と失調性構音障害, 球麻痺症状としての顔面神経麻痺, 舌運動減弱, 開鼻声を伴う右カーテン徴候を認めた。反復唾液嚥下テストは2回, 改訂水飲みテストおよびとろみ付液体3ccでのテストでは3a点(嚥下後湿性音あり)であった。嚥下内視鏡検査時, 安静時より咽頭内分泌物貯留, 左側披裂・声帯は傍正中位固定で声門閉鎖不良, ホワイトアウトは減弱しており, とろみ付液体摂取時の食道流入不良, 鼻咽腔逆流を認めた。さらに, 残留物は不顕性誤嚥をしていた。重度摂食嚥下障害の診断にて, 口腔ケア・間接訓練から介入を開始した。耐久性が改善した術後19日目以降は間接訓練の負荷を増やし, 少量のとろみ付液体を用いた直接訓練も開始した。術後35日目に実施した嚥下造影検査

では、依然として嚥下後の咽頭残留量が多く食事開始にはいたらなかった。転院を前に術後55日目に実施した最終評価では、幻暈などの前庭症状は改善していたものの球麻痺症状に大きな変化は認められなかった。最終的に食事開始までは至らなかったものの、訓練の効果による咽頭残留の軽減と姿勢調整を行うことで安全な経口摂取方法の提案ができた。

【緒 言】

聴神経鞘腫は聴神経に発生する良性腫瘍のひとつであるが、腫瘍の大きさが3 cmを超え、脳幹・小脳を圧迫している場合には手術適応となる¹⁾。今回我々は、聴神経腫瘍術後に脳幹・小脳出血を合併して嚥下障害を生じた症例を経験したのでここに報告する。

【症 例】

患者：56歳，女性

既往歴：突発性難聴（26歳）

現病歴：2016年11月，仕事でミスが出たことをきっかけに神経クリニックを受診し，MRIにて左聴神経腫瘍を指摘された。同月，当院脳神経外科を受診し，左聴神経鞘腫と診断された。腫瘍が小脳・脳幹を圧排する増大傾向を認めたため，2017年2月に全身麻酔下にて腫瘍摘出術が施行された。術後，麻酔からの覚醒不良があり，頭部CTにて左小脳出血，延髄から橋までの低吸収域を認めたため，減圧開頭術，脳内血腫除去術，脳室ドレナージが施行されて挿管管理となった。術後4日目，自発呼吸を確認後に抜管されたが，夜間喀痰困難による呼吸苦がありミニトラック挿入，術後6日目から経鼻経管栄養が開始された。術後8日目にミニトラック抜去，術後11日目には呼吸状態の安定と意識レベルの改善を認めたため，嚥下機能評価目的にて摂食嚥下機能回復部に紹介受診となった。

経過：初診時，覚醒度はJCS I-1，呼吸はルームエアにてSpO₂97%と安定していた。口腔内は舌苔の付着多量と衛生状態不良であった。自発性に乏しく，咳嗽・ハッフィングともに減弱，声量は低下し時折有声音が聴取されるのみであった。最長発声持続時間11.4秒，構音は連続音にてリズム不整，不正確さを認め，発話明瞭度2（ときどきわからない話がある程度²⁾）であった。脳神経症状として口角引き左側不良，舌尖抵抗力減弱，開口制限あり（2横指弱），/a/発声時の軟口蓋挙上左側低下で右カーテン徴候あり，開鼻声が認められたが，blowing時の鼻漏出はなかった（図1A，B）。また，軟口蓋感覚不良で咽頭絞扼反射は認められなかった。RSST（30秒間の随意嚥下回数）2回，MWST（改訂水飲みテスト）は3a点（嚥下後のむせなし，湿性音あり）であった。

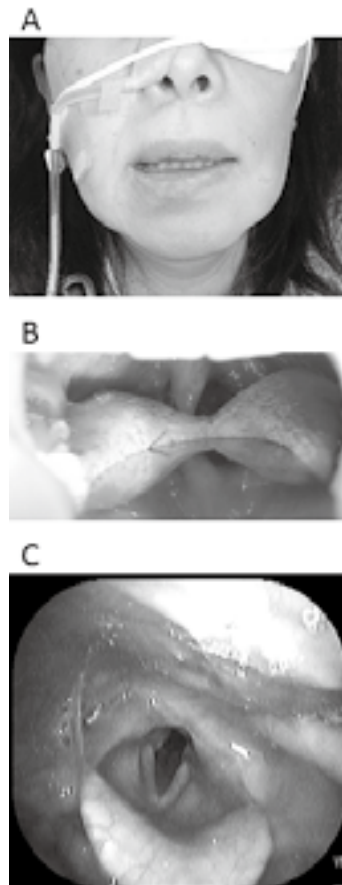


図1．初診時顔貌，口腔内写真，嚥下内視鏡所見。

顔面は左側顔面麻痺による口角の左右非対称（A），口腔内は/a/発声時のカーテン徴候を認める（B）。開口制限により口腔内の観察は十分に行えなかった。嚥下内視鏡検査では，安静時に梨状窩から食道入口部にかけて白色粘稠痰が認められる（C）。

術後13日目，嚥下内視鏡検査を実施した。眩暈のため，姿勢はベッド上でリクライニング60度として行った。経鼻胃管チューブは左咽頭から食道入口部を通過していた。安静時，梨状窩に泡沫状唾液と白色粘稠痰の貯留あり，吸気とともに披裂間切痕に貯留した分泌物が喉頭内へ侵入する様子が認められた（図1C）。咳嗽力は減弱しており，咳嗽や嚥下による咽頭内分泌物の除去は不可であった。また，左側披裂・声帯は傍正中位で固定しており，声門閉鎖は不完全だった。1%とろみ（ネオハイトロミールⅢ，株式会社フードケア）付液体1cc，2cc摂取時，いずれも咽頭通過は不良で，摂取量増加に伴い嚥下後喉頭侵入を認めた。ゼリー（エンゲリード，株式会社大塚製薬）ティースプーン（1杯3cc）1/4

杯摂取時、複数回嚥下後も左側梨状窩に残留が認められ、下顎突き出し嚥下による食道流入はわずかであった。いずれの試行でも嚥下時の明らかなホワイトアウトは認められず、鼻咽腔逆流が観察された。また、試行を繰り返すうちに分泌物や残渣物の喉頭侵入と不顕性誤嚥が認められた。

以上より、定型的な球麻痺症状に失調症状を伴う口腔準備期から嚥下咽頭期にいたる嚥下障害と診断した。主な問題点として、(1) 小脳出血に伴う姿勢保持困難、(2) 口腔内衛生状態不良、(3) 球麻痺症状としての舌運動巧緻性低下、(4) 左側顔面神経麻痺、(5) 左側軟口蓋挙上不良、(6) 嚥下運動誘発困難、(7) 咽頭収縮低下があげられた。しかし、聴神経腫瘍術後の顔面神経麻痺や術後脳幹・小脳出血の影響を考慮した場合、年齢も若く、呼吸機能が改善して咳嗽力が回復すれば嚥下機能の回復も十分に期待できると思われたため、当面は全身および呼吸状態の回復を待つこととした。介入当初は小脳症状を認めていたため、病室へ往診して、リクライニング30度にて(1) 口腔内衛生状態の改善のための口腔ケア、(2) 間接訓練として舌運動の巧緻性改善を目的とした舌運動と唾液嚥下訓練、(3) 意識下での口腔器官の協調運動学習を目的とした氷なめ訓練を開始することとした。

術後19日目、耐久性の改善を認めたため、訓練内容の変更を見越して再度機能評価を実施した。1%とろみ付液体1ccを4口摂取したところ。1口につき3回程度の複数回嚥下で誤嚥徴候なし、2ccでは5回程度の嚥下を要し、摂取後にむせが認められた。以降、間接訓練としてハミングからの息こらえ(5回)、blowing訓練(10秒を目標に5回実施)を開始した。左顔面神経麻痺が継続していたため、blowing時には、徒手的に左口角を閉鎖して訓練を実施した。また、極少量のとろみ付液体であれば直接訓練可能と判断し、翌日より1%とろみ付液体を用いた直接訓練も開始した。

術後22日目、含嗽時に左側を向いて行くとむせなくできたという経験から、直接訓練時の姿勢をリクライニング60度、体幹右側傾に変更した(図2)。経過は良好で、本人の自覚に加えて嚥下惹起までの潜時は減少した。

術後26日目、さらに耐久性が改善して移動可能となったため診療室での訓練を開始した。初診時には計測不能であった舌圧(JMS舌圧測定器、株式会社ジェイ・エム・エス)および口唇閉鎖力(りっぶるくん、株式会社松風)を測定した。前者は口蓋に対する舌の最大押し付け圧、後者はボタンプルに対する口唇閉鎖力を測るものであり、舌圧前方部12.5 kPa、後方部10.9 kPa、直径3 cmのボタンを用いた口唇閉鎖力は右9.1 N、中央4.2 N、左3.7 Nであった。

術後33日目、2度目の舌圧ならびに口唇閉鎖力を測



図2. 姿勢調整。

右側傾頸部左回旋の姿勢をとることで食物の食道流入が可能となった。

定、舌前方部13.8 kPa、後方部15.1 kPa、口唇閉鎖力は右8.1 N、中央5.3 N、左4.6 Nであった。間接訓練として、ハミングからの息こらえ、blowing訓練に加えて、舌根後退抵抗訓練、舌・口唇閉鎖抵抗訓練、綿球押しつぶし嚥下を追加した。

術後35日目、訓練効果および食事摂取の可否を評価するために嚥下造影検査(VF)を実施した。姿勢はリクライニング60度、頸部中間位にて、1%とろみ付液体1cc摂取時に喉頭蓋谷や梨状窩への嚥下後残留、極少量の喉頭侵入を認め、食道流入は明らかではなかった。頸部左回旋位にしたところ、ゼリーティースプーン1杯までであれば残留なく嚥下可能であった。さらに、左側口唇からの食塊漏出を抑制し、かつ右側口腔内から同側の咽頭部への食塊移送を容易にするために、体幹右側傾・頸部左回旋位を試みた。これにより口唇漏出は明らかに減少したものの、ゼリー摂取量を増加すると喉頭蓋谷・梨状窩の残留量が増加して効果的な食道流入が得られなかった。

すべての試行で誤嚥は認めなかったものの、咽頭残留は回避できず、耐久性もまだ低いことから、食事開始は時期尚早と判断して、間接訓練の継続ならびに1%とろみ付液体2cc、ゼリーティースプーン1/2杯を用いた直接訓練を行い、嚥下法の獲得と耐久性向上を目指すこととした。嚥下時に左側梨状窩への食塊流入による咽頭残留を軽減するために、体幹右側傾・頸部左回旋位とした。

術後39日目、3度目の舌圧ならびに口唇閉鎖力を測定、舌前方部14.8 kPa、後方部17.5 kPa、口唇閉鎖力は右7.9 N、中央5.1 N、左5.5 Nであった。

術後50日目、口腔内に食塊を取り込んだ後から嚥下反射惹起までの動作は拙劣であり、声門閉鎖もタイミングのズレを認めていたことから、嚥下のタイミングをつかむことを目的として息こらえ嚥下を使った直接訓練を導入することとなった。

術後53日目、VFを実施した。いずれの試行においても咽頭クリアランスに大きな変化はなく、転院まで直接訓練を継続することとした。

術後55日目、転院前の最終評価を実施した。覚醒度はJCS0、言語指示理解は良好であった。口腔内の衛生状態は改善、最長呼吸持続時間は18.9秒、咳嗽・ハッフィング減弱、氣息性嘔声、開鼻声あり、最長発声持続時間13.2秒、連続音にて構音操作不良あり、発話明瞭度2と、呼吸および構音機能に大きな改善は認められなかった。開口量20 mm、口角引き左側不良は若干残存していたものの口唇閉鎖力は右10.9 N、中央12.9 N、左6.4 Nと改善傾向を認めた。舌運動の巧緻性低下は残存、舌圧は前方部12.1 kPa、後方部14.1 kPaと変化なし、軟口蓋挙上は左側不良、右カーテン徴候あり、blowing時の左側呼吸気鼻漏出を認め、軟口蓋感覚には問題を認めなかった。RSST4回、MWST3a点であった。初診時に比べて顔面神経麻痺は若干改善したものの、その他の球麻痺症状に大きな変化は認められなかった。

術後56日目、回復期リハビリ病院へ転院となり、現状の問題点と訓練内容を記載した紹介状を渡して当科介入終了となった。

【考 察】

聴神経腫瘍は、通常の治療方法として、腫瘍が3 cm以下であれば経過観察あるいは定位放射線治療（ガンマナイフ）が行われる。しかし、3 cm以上の大きな腫瘍では隣接する脳幹・小脳を圧迫していることが多く手術適応となる¹⁾。本症例は3 cm以上の腫瘍があり、脳幹・小脳の圧迫を認めて手術適応（後頭蓋窩経由での術式）となった。一方、術後の合併症は22%で起こり、脳神経麻痺や姿勢調節障害（7.9-9.3%）、脳脊髄液漏（6.9-10.0%）、術後感染症（3.4-4.3%）などが多いとされる³⁾。さらに、腫瘍摘出後の後遺症として、摂食嚥下障害が認められるという報告がある（後頭蓋窩経由10.4%、迷路経由3.1%⁴⁾）が、筆者らが調べた限りにおいて、摂食嚥下障害の病態を詳細に記載しているものは見受けられない。また、術後脳血管障害を発症し重度嚥下障害を発症した報告がある⁵⁾。本症例では、介入当初は術後合併症としての顔面神経麻痺が軽度であったのに対して、小脳

出血による症状から体幹保持の耐久性低下を認め、脳幹出血による球麻痺症状から嚥下障害を認めたと考えられる。そのため、耐久性に合わせた介入内容の検討を行えたことで比較的早期に直接訓練へ移行できたと考ええる。

姿勢調整は、安全な摂食のために、食物形態と並んで重要な条件であり、基本的に身体内でも働く重力を利用して、運動障害により引き起こされている口腔内の食塊の移送困難を軽減し、気管よりも背側にある食道への飲食物の流入の安全性を向上させる手法であるとされている⁶⁾。本症例はVFにて誤嚥なく摂取可能であったが、咽頭残留が著明であった。食塊の通過側に左右差を認めており、麻痺側への残留の多さと食塊通過不良があった。体幹右側傾、頸部左回旋位という姿勢調整を行うことで重力により健側を通過させ麻痺側への食塊流入を避けることで食道流入量の増加と咽頭残留量の減少、咽頭残留物の誤嚥リスクの軽減を図れたと考えられる。また、失調症状にて口唇や舌の協調運動障害が出現しており、食塊の送り込み動作が拙劣であった。これに対し、訓練時に摂取ごとの声かけを行い、動作のタイミングを教示することで、協調運動障害を補完する随意運動パターンを獲得したのかも知れない。

本症例では、左側食道入口部開大不良および鼻咽腔閉鎖機能不良、嚥下動態の協調運動障害による咽頭残留が著明であり、かつ、食事に対する耐久性への十分な向上が得られなかったことにより食事摂取までは至らなかった。しかし、安全に経口摂取できる姿勢を検討し、般化させることで、経口摂取方法を確立し、次の病期へつなげていくことができたと考ええる。

【謝 辞】

本論文を作成するにあたり、新潟大学医歯学総合病院脳神経外科の先生方から丁寧かつ熱心なご指導を賜りました。ここに感謝の意を表します。

【参考文献】

- 1) 吉田亜由, 畑裕子, 竹内成夫, 山崎葉子, 奥野妙子: 保存的経過観察を行っている聴神経腫瘍症例の聴力変化と腫瘍径の変化についての検討. *Audiology Japan*, 60: 225-233, 2017.
- 2) 日本顎口腔機能学会: 新よくわかる顎口腔機能. 医歯薬出版, 東京, 2017.
- 3) Sughrue M, Yang I, Aranda D, Rutkowski M, Fang S, Cheung S and Parsa A: Beyond audiofacial morbidity after vestibular schwannoma surgery. *J Neurosurg*, 114: 367-

- 374, 2011.
- 4) Cole T, Veeravagu A, Zhang M, Azad T, Swinney C, Li GH, Ratliff JK, Giannotta SL: Retrosigmoid Versus Translabyrinthine Approach for Acoustic Neuroma Resection: An Assessment of Complications and Payments in a Longitudinal Administrative Database. *Cureus*, 7: e369, 2015.
- 5) 西将則: 頭蓋底脳腫瘍による重度嚥下障害に対するリハビリテーション. *J Clin Rehabil*, 23: 919-923, 2014.
- 6) 清水充子: 2章 摂食嚥下障害への介入 1. 摂食嚥下リハビリテーション 才藤栄一, 植田耕一郎 (監修), 221-266, 医歯薬出版, 東京, 2016.