

浸潤型副鼻腔真菌症の1剖検例

福島典之 谷光徳晃 立川隆治

上田敏之 夜陣紘治

広島大学医学部耳鼻咽喉科学教室

渡部 浩 石野岳志

中国労災病院耳鼻咽喉科

西田俊博

中国労災病院臨床検査科

郷原良治

土谷総合病院耳鼻咽喉科

A Case of Paranasal Sinus Invasive Aspergillosis

Noriyuki FUKUSHIMA, Noriaki TANIMITSU, Takaharu TATSUKAWA,
Toshiyuki UEDA, Koji YAJIN

Department of Otolaryngology, Hiroshima University

Hiroshi WATANABE, Takeshi ISHINO

Department of Otolaryngology, Chugoku Rosai General Hospital

Toshihiro NISHIDA

Department of Pathol., Chugoku Rosai General Hospital

Ryoji GOBARA

Department of Otolaryngology, Tsuchiya General Hospital

A case of invasive aspergillosis of paranasal sinus was reported. A 56-year-old male visited our hospital with his left side cheek pain. First surgical operation was performed under the diagnosis of post operative maxillary cyst. After 1-year-interval, second operation was done due to recurrent cheek pain and left side orbital pain, and we diagnosed him as Aspergillosis of paranasal sinus by pathological findings. After then, further four time surgical operations were performed due to repeated pain. However, these operations and additional antifungal chemotherapy were not effective, and finally the patient died due to meningitis, fungal encephalitis, and brain hemorrhage. It was conjectured from the result of autopsy that the lesion intruded into the intra-cranial area from left side maxillo-orbital area through along the internal carotid artery and the optic nerve. We emphasize that prompt and extended surgery is needed for invasive aspergillosis of paranasal sinus in accordance with malignant tumor.

はじめに

近年、副鼻腔真菌症は増加の傾向にあり¹⁾²⁾³⁾、また、いわゆる浸潤型副鼻腔真菌症 (invasive type) の報告も散見される⁴⁾⁵⁾⁶⁾⁷⁾。今回、われわれは初診時より3年9ヶ月の経過で死亡に至った浸潤型副鼻腔真菌症の1例を経験したのでその概要と剖検所見について報告する。

症 例

症 例：56歳，男性

主 訴：左頬部痛

既往歴：両側上顎洞根本術（昭和32年）

その他には特記事項なし

現病歴：平成6年4月上旬より左頬部痛が出現し、同年4月21日中国労災病院耳鼻咽喉科を受診した。

経 過：既往歴及びCT (Fig. 1) で左上顎洞に嚢胞様陰影を認めたことにより、左術後性頬部嚢胞と診断し、平成6年5月9日入院、5月10日手術を施行した。手術時所見として、左上顎洞内に粘膿性貯留液を含む嚢胞を認め、これを下鼻道へ開放した。真菌塊等の所見は認めなかった。

初回手術後、左頬部痛は消失していた。時に頬部の違和感が出現したが、そのつどの消炎療法で症状は軽快していた。約1年後の平成7年3月より、再度、左頬部痛が出現し、4月には左眼窩部痛、複視が出現した。CT, MRI (Fig. 2, 3) にて左上顎洞内上方より篩骨洞、眼窩内

へ進展する腫瘍性病変を認めた。この時点での所見として、視力には異常がないものの、左眼の軽度眼球突出と上転障害を認めた。これらの所見から悪性腫瘍を疑い、平成7年6月7日再入院、6月9日左上顎洞試験開洞術を行った。手術所見として左上顎洞眼窩下壁から上顎洞後壁および篩骨洞にかけて肉芽様病変が拡がり、上顎洞後壁、眼窩下壁、内側壁の一部に骨欠損を認めた。迅速病理診断において「真菌を伴う肉芽組織で、悪性所見を認めない。」との結果を得たため、肉芽組織の可及的摘出を行い手術を終了した。手術後、6月9日から6月16日および6月23日から6月29日の期間、amphotericin B (100mg/day) の投与を行い経過観察を行ったが、左頬部痛、眼窩部痛は一時的に軽減したものの、日数の経過とともに再度増悪した。このため、8月1日、経上顎洞的及び眼窩下縁の外切開による経眼窩的アプロー

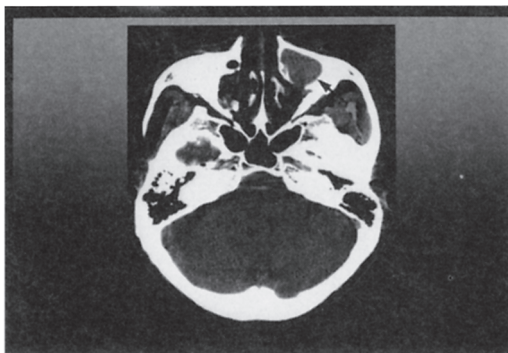


Fig.1 CT showing the cystic lesion (arrow)

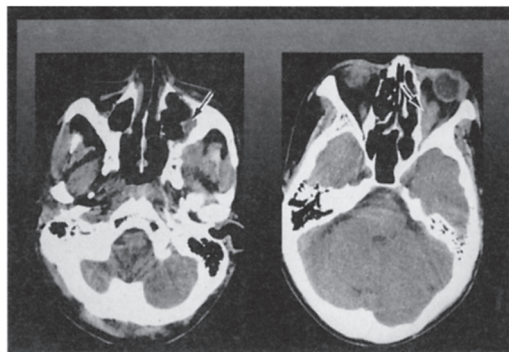


Fig.2 CT showing the lesion like malignant tumor (arrow)



Fig.3 MRI showing the lesion intruding into the orbital area (arrow)

チによる方法で再手術を行った。この手術においても病変は境界不明瞭で眼窩内容との癒着も強く、また、眼窩先端部で髄液漏を認めたため、鋭的切離による可及的摘出にとどまった。しかし、疼痛は劇的に改善し、8月15日退院となった。

同年10月中旬より疼痛の再燃を認め、11月17日再入院し、11月21日、Weberの皮切によるアプローチでの再手術とfluconazoleの大量投与(1000mgより漸減)を行った後12月26日退院した。さらに、平成8年3月1日再入院の上、3月5日、眼窩内容摘出術を施行し、4月9日退院となった。同年7月29日、疼痛のため再度入院し、7月30日、再手術を施行し、8月16日、退院した。いずれの手術においても疼痛に対する効果は認められたものの、永続的なものではなかった。この間、carbamazepinの投与、麻酔科での星状神経節ブロック等を行ったが、顕著な効果は認めなかつ

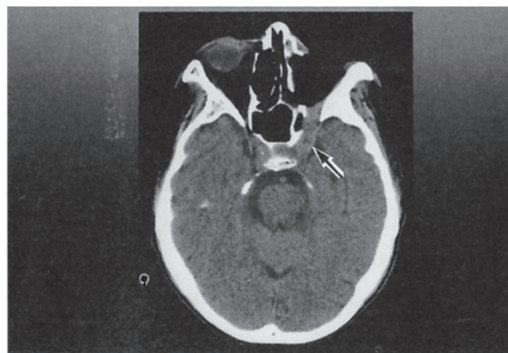


Fig.4 CT showing the lesion intruding into the cranial area (arrow)

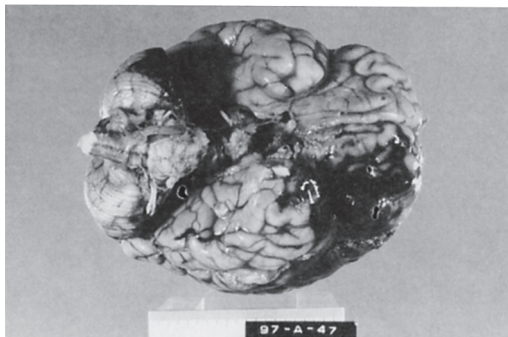


Fig.5 Macroscopic finding of the brain base.

た。平成8年11月25日再入院し、放射線科とも相談の上、48Gyの放射線治療を行った。肉芽組織の縮小は認めなかったものの、疼痛は一時的に軽減し、12月31日退院となった。なお、この時点での病変は明らかに頭蓋内に浸潤を認めていた(Fig. 4)。

その後も疼痛は消失することなく、平成9年4月2日より疼痛増悪のため再入院となり、麻薬による疼痛管理を開始した。しかし、その後、徐々に全身状態の悪化を認め、同年12月には傾眠傾向が出現し、12月27日、化膿性髄膜炎、真菌性脳炎、脳内出血のため死亡した。

剖検所見：脳重量は1410g、左側前頭葉の脳底部、左前頭蓋窩面には膿の付着する化膿性髄膜炎を認め、同部より左シルビウス裂にかけて新鮮なクモ膜下出血を認めた(Fig. 5)。さらに、脳実質では視交叉周囲を中心として、前頭葉の直回と嗅溝の一部、シルビウス裂周囲、大脳脚部の一部にかけて軟化巣を認めた。軟化巣は前交連、レンズ核の基底部分、側脳室に拡がり、一部に嚢胞形成や出血をとまない、右半球の脳実質を右側に高度に圧排していた(Fig. 6)。組織学的には嚢胞壁内に菌糸の集塊を認めた。

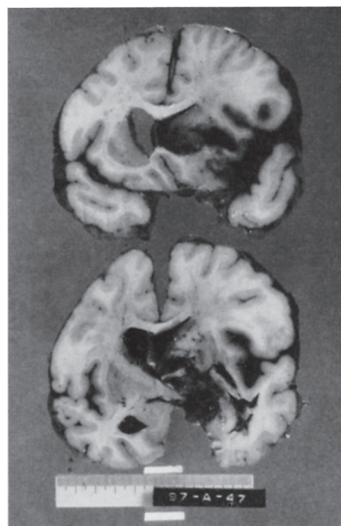


Fig.6 Frontal section of the cerebrum, section in the frontal horn of lateral ventricle (upper part), and the optic chiasma (lower part).

菌糸は45度に分岐し、隔壁を有する糸状菌よりなり、aspergillusの可能性が窺えた (Fig. 7). 頭蓋底部の検索では、左内頸動脈、左視神経周囲を中心とした海綿静脈洞、硬膜、骨組織に膿を伴う壊死および炎症性肉芽組織を認め、これらの壊死病変は左側副鼻腔内や左眼窩内へ連続していた (Fig. 8).

考 察

今回われわれが報告した症例における問題点は、いつの時期に拡大手術を行えば救命でき得たかという点である。副鼻腔真菌症は一般に良性疾患という概念が定着しているが、浸潤型副鼻腔真菌症ではときに死に至る症例も報告されている⁴⁾⁵⁾。今回の場合、われわれも副鼻腔真菌症が良性疾患であるという概念に捕らわれていたこと、視機能がほぼ正常であったことの二つの理由から、眼窩内容摘出術などの拡大手術に積極的に踏み切れず、病巣の郭清が不十分となっ

た。このため、剖検所見でも明らかとなったように、視神経管や内頸動脈に沿って病変が頭蓋内に進展し、眼窩内容摘出術を行った第5回の手術は時期を逸した感が否めない。兵頭ら⁶⁾は開頭による前頭蓋底手術で救命を得た例と眼窩の温存を行ったため救命し得なかった例を報告し、積極的に拡大手術を行うべきと述べている。また、Mauriello ら⁸⁾は浸潤型副鼻腔真菌症を“infectious cancer”と考え、積極的な治療を勧めている。本例の頭蓋底の剖検所見では視神経、内頸動脈を中心に肉芽組織が広がっており、これらの経路が頭蓋底への進展経路と考えられた。この領域では頭蓋底手術も困難であり、病変が副鼻腔や眼窩内に局限している間に拡大手術が必要と考えられる。また、今回の症例では種々の抗真菌剤を使用したがる、いずれもその効果は顕著ではなく、浸潤型副鼻腔真菌症に対する治療の第一選択は手術療法と考えられ、さらに、より早期の拡大手術が患者の救命につながるものと言える。

ま と め

- 1) 浸潤型副鼻腔真菌症の一例の経過概要と剖検所見を報告した。
- 2) 浸潤型副鼻腔真菌症では抗真菌剤も無効なことが多く、早期の拡大手術の必要性について言及した。

文 献

- 1) 前山裕之, 他: 当科における副鼻腔真菌症の検討. 耳鼻臨床 補 51: 138-142, 1991.
- 2) 佐伯忠彦, 他: 副鼻腔真菌症の臨床的検討. 耳鼻臨床 89: 199-207, 1996
- 3) 河合晃充, 他: 副鼻腔真菌症の検討—当科における13症例—. 耳鼻臨床 補 69: 33-41, 1993.
- 4) 石光亮太郎, 他: 上顎洞破壊型アスペルギルス症例. 耳鼻臨床 91: 915-918, 1998.
- 5) 兵頭政光, 他: 眼窩先端に浸潤した後部副鼻腔アスペルギルス症の3例. 耳喉頭頸 69: 603-607, 1997.
- 6) 笠井郁雄, 他: 悪性腫瘍を疑った、骨破壊を伴っ

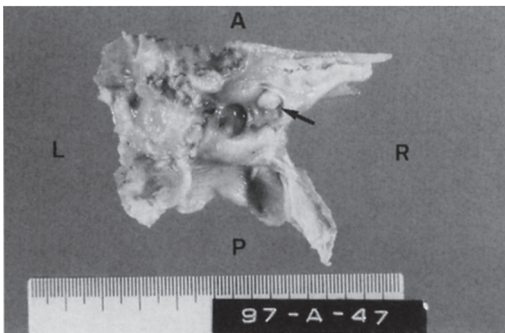


Fig.7 Macroscopic finding of the skull base (arrow : right optic nerve).

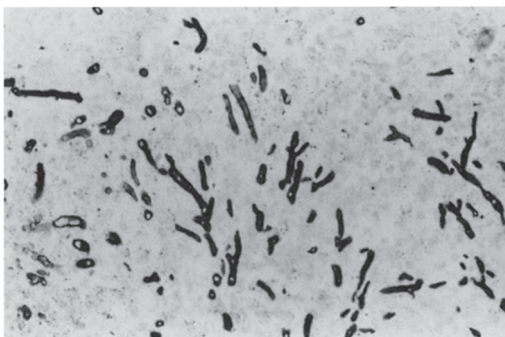


Fig.8 Grocott's stain showing aspergillus (middle power view).

- た上顎洞アスペルギルス症の一例. 日口外誌 41 : 1089-1091, 1995.
- 7) Yumoto E, et al : Sino-orbital aspergillosis associated with total ophtalmoplegia. Laryngoscope 95 : 190-192, 1985.
- 8) Mauriello JA, et al : Invasive rhinosino-orbital aspergillosis with precipitous visual loss. Can J Ophtalmol 30 : 124-130, 1995.

連絡先 : 福島典之

〒734-8551 広島市南区霞 1-2-3

広島大学医学部耳鼻咽喉科学教室

TEL 082-257-5252 FAX 082-257-5254