

## 蝶形骨洞真菌症の2症例

清野由輩 鈴木立俊 橋本晋一郎

横堀学 八尾和雄 岡本牧人

北里大学医学部耳鼻咽喉科学教室

### Aspergillosis of Sphenoid Sinus; Two Cases Report

Yutomo SEINO, Tatsutoshi SUZUKI, Shinitirou HASHIMOTO,

Satoru YOKOBORI, Kazuo YAO, Makito OKAMOTO

Department of Otolaryngology, Kitasato University School of Medicine

We reported 2 cases of sphenoid sinus aspergillosis. Case 1 was 66-year-old woman, sphenoid sinus lesion was revealed by head MR image for her headache. She had no nasal symptom. Endoscopic sphenoideectomy was performed to clean up and wash out fungus ball of Aspergillus.

Case 2 was 57-years-old woman, she took irradiation and chemotherapy for CNS lymphoma 2 years ago and continued steroid medication. She explained left visual disturbance within 2 months. CT showed irregular shadows in the sphenoid sinus. Surgical procedure was immediately performed as same as case 1. Aspergillus was detected by histological examination. She took antifungus medication only for 5days after surgery. Her left visual acuity was recovered from finger count to 0.15.

The post-operative prognosis of both cases were good and nothing suffered a recurrence of aspergillosis.

### はじめに

副鼻腔真菌症の中でも蝶形骨洞単洞に起こるもののはあまり多くないが、時に眼症状を合併することもあり的確な診断加療が必要となる。今回我々は蝶形骨洞に発生した真菌症を2例経験したので報告する。

### 症例

症例1：66歳、女性

主訴：後頭部痛

現病歴：2004年1月より後頭部痛を自覚するようになった。近医にて頭部MRIを施行したところ蝶形骨洞に軟部陰影が認められ、同年2月16日当院を紹介され受診した。

既往歴：高血圧（ARB内服中）

生活歴：飲酒喫煙歴なし

初診時所見：ファイバースコープ下で右鼻内に上鼻洞内側の蝶形骨洞自然口より表面整なポリープ様腫瘍を認めたため生検を施行したが、炎症性ポリープとの診断であった。左蝶形骨洞

自然口は明らかな異常を認めなかった。

**画像所見：**副鼻腔X線CTにて蝶形骨洞内に充満する軟部陰影を認めた。内部に石灰化様の高信号域が見られた。蝶形骨洞隔壁ははっきりしないが、骨破壊や骨肥厚は認めなかった(Fig. 1)。副鼻腔MRIのT1強調画像ではisoからlow intensityの陰影を蝶形骨洞内に認めた(Fig. 2)。T2強調画像では蝶形骨洞内はlow densityだった。

**手術所見：**内視鏡下に経筋骨洞アプローチで蝶形骨洞を開放した。術前にマクロライドを内服していたことで上鼻道ポリープは消退していた。しかし右蝶形骨洞自然口より膿汁の流出があり、開放すると蝶形骨洞内には真菌塊が充満しており、粘膜は薄く菌塊に圧排されていた。

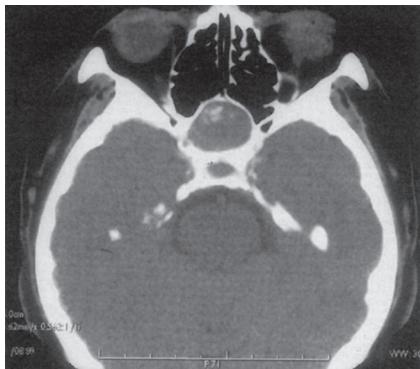


Fig. 1 CT scan of case1. (axial view)

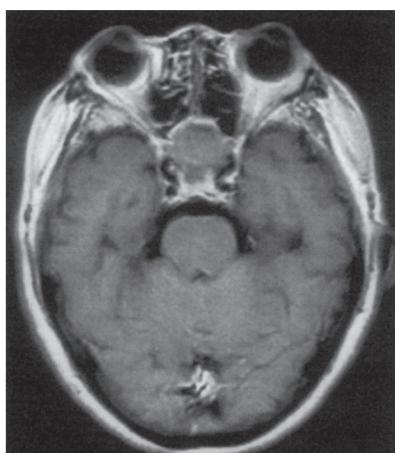


Fig. 2 MR imaging of case1. (T1)

左鼻内からも同様に蝶形骨洞にアプローチし、洞内を可及的に生理食塩水にて洗浄した(Fig. 3)。

**病理組織学的所見：**両側蝶形骨洞内粘膜及び内容物は、粘膜内に好中球主体の多彩で高度に活動的な炎症細胞の浸潤と、異物型多核巨細胞を伴う肉芽組織の形成、及びAspergillusの菌塊を認めた。また蝶形骨洞内容物はAspergillusの増殖した菌糸からなる結節でfungus ballの像だった。悪性所見は認めなかった(Fig. 4)。

**術後経過：**後頭部痛は軽快し、術後翌日に挿入してあったガーゼタンポン1枚を抜去した。3日目に退院となった。抗真菌剤の全身投与や局所洗浄は行わずに、外来にて蝶形骨洞の観察にて経過を観察しているが、半年経過した

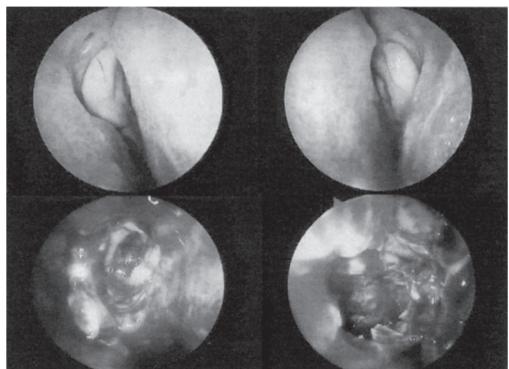


Fig. 3 Surgery findings of case 1.  
Arrow showed sphenoid sinus.

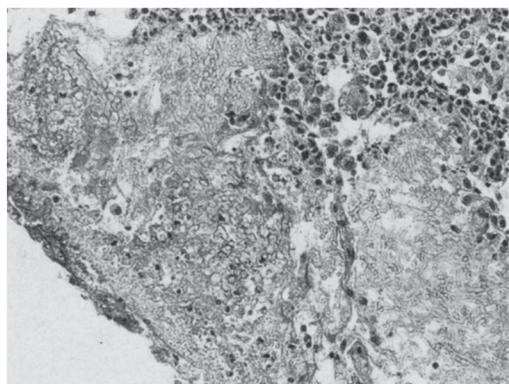


Fig. 4 Histopathological Findings of case1.  
(H&E staining, 200x)

2004年8月現在も再発は認められない。

### 症例2：57歳、女性

主訴：左視野障害、左視力障害

現病歴：2002年から2004年にかけて脳内悪性リンパ腫にて放射線療法とMTX大量療法を行った。2004年4月に飛蚊症が出現した。眼科受診し中心暗点を指摘され、5月21日の造影CT上にて蝶形骨洞にring enhanceを伴った軟部陰影が認められ当科依頼された。

既往歴：子宮頸癌（37歳時手術）

生活歴：飲酒喫煙歴なし

初診時所見：左視力は指数弁30~40cm、視野検査にて左眼中心20°に比較暗点認めた。鼻内所見に異常所見はなかった。

画像所見：左篩骨洞から蝶形骨洞内に軟部陰影が認められた。軟部陰影の濃度は均一で造影後、粘膜のenhanceが見られた。骨破壊は認

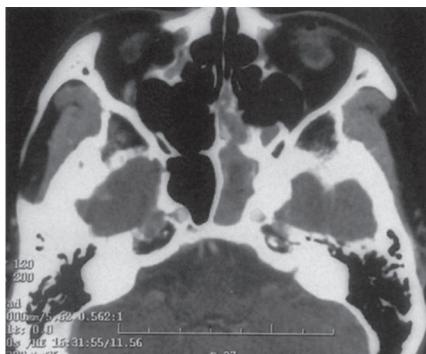


Fig. 5 CT scan of case 2. (axial view, pre-surgery)

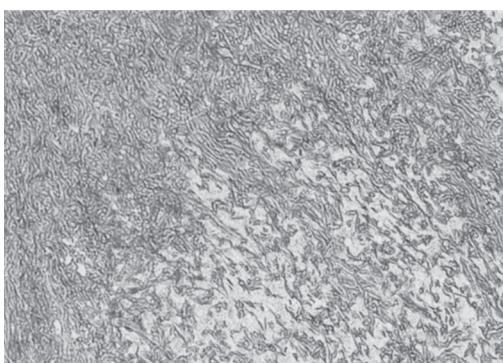


Fig. 6 Histopathological Findings of case 2.  
(H&E staining, 200x)

めなかった（Fig. 5）。

手術所見：症例2は視神経症状が出ていたので即日手術となった。内視鏡下に左鼻内よりアプローチし蝶形骨洞を自然口と経篩骨洞的に開放した。膿汁の流出があり、洞内に粘膜は浮腫状で洞内には乾酪性物質が充満しており一部菌塊を認めた。これを生理食塩水で洗浄し除去した。蝶形骨洞内にはペンローズドレンを留置した。

病理組織学的所見：篩骨洞粘膜は軽度の慢性炎症を示し、蝶形骨洞内容物はY字形の分枝を示すAspergillusの菌塊の所見だった（Fig. 6）。

術後経過：術後フルコナゾール100mgを5日間投与した。また退院の前日まで4日間、生理食塩水にて留置しておいたペンローズドレンから生理食塩水にて洗浄を繰り返した。7日

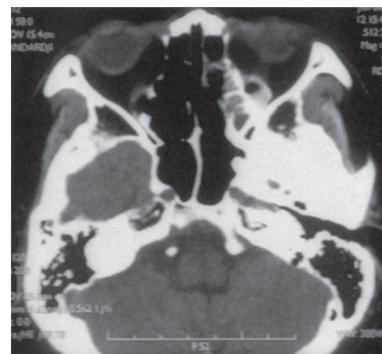


Fig. 7 CT scan of case 2. (axial view, post-surgery)

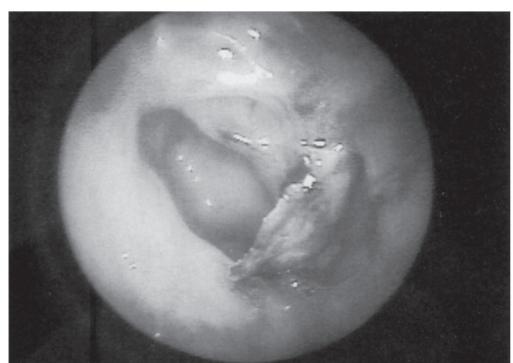


Fig. 8 Endoscopic findings.  
Arrow showed sphenoid sinus.

目の視力検査にて左眼の視野狭窄はほぼ改善し、視力も病前の裸眼視力だった0.15にまで回復した。術後のCT所見で蝶形骨洞内には貯留物がなくなりており(Fig. 7)，また鼻内所見も蝶形骨洞内はきれいに開放されていた(Fig. 8)。

### 考 察

副鼻腔真菌症において蝶形骨洞は罹患部位としては決して多くない。症状は頭痛や眼窩部痛が主で鼻症状がないことが多い<sup>1,2)</sup>。神経症状は遅れて出ることが多く診断にまで時間のかかることもある。

診断は2症例ともに頭部MRIを施行した際に蝶形骨洞に異常陰影がみられ真菌症を疑われている。典型的な所見としてCT上は高信号域と低信号域の混在するモザイク像を呈し、中に著明な石灰化様の高信号域を認めることがある。また骨破壊像や骨肥厚像を認めることがある。MRIでは典型的な所見としてT1強調画像で低～中信号域、T2強調画像で低信号を呈する<sup>3)</sup>。2症例ともにCTでは軟部陰影像の中に高信号域を認めているが、骨の肥厚や破壊は認められていない。MRIでもほぼ典型的な所見を示している。

今回の2症例で蝶形骨洞真菌症を疑ったのは上記の画像診断によるところが大きい。無症状のものも含めて偶然に蝶形骨洞の病変が発見されることもあるが頭痛や眼窩部痛を呈する時には蝶形骨洞の病変も鑑別に入る必要がある。確定診断は2症例とも術後の病理組織学的診断である。培養での真菌検出率はきわめて低く、組織学的診断に頼らざるを得ないのが現状である<sup>4)</sup>。症例1でも真菌培養は陰性だった。Aspergillusの菌体は病理組織学的には容易に診断がつく。

治療は副鼻腔アスペルギルス症ではHoraらの提唱した侵襲型(invasive type)と非侵襲型(non-invasive type)があるが<sup>5)</sup>、本2症例も含め頻度の高い非侵襲型では鼻内内視鏡によ

る開放で十分であり、全身的な抗真菌剤の投与は神経症状を呈する例や基礎疾患有する場合のみ必要という報告がある<sup>6)</sup>。我々も真菌塊の除去が治療の基本であり、内視鏡手術の補助として生食での洞内洗浄も有効と考える。抗真菌薬のネブライザーは今回使用しなかった。また抗真菌剤での局所洗浄は抗真菌剤の作用機序から考えても真菌に接している時間がある程度確保されていないと効果を発揮しないと考えられるため我々は行っていない。症例2は長期間ステロイドを内服していたのでフルコナゾールを術後に投与しているが、2症例ともに現在までのところ再発はみられていない。

通常非浸潤型の副鼻腔病変が原因の視神経障害は何らかの原因で発生した副鼻腔の炎症が視神経に波及して発生する。そして視神経炎で視力、視野障害を呈した場合その障害が改善することはあまりないと言われる<sup>7)</sup>。症例2は内視鏡的手術後に改善がみられた稀なケースと思われる。脳内悪性リンパ腫が再燃し視力視野障害が発生した可能性もあるが、患側を中心に蝶形骨洞に病変があり、手術と同期して視力の改善傾向が見られたことから、副鼻腔の病変が視力障害の原因だった可能性が高い。本症例の様に神経障害も改善されるケースがあり、早急な洞の開放による治療が大切であると思われた。しかしながら神経症状を呈したAspergillus症に対する治療は満足なものがないのが現状であり本症例のように視力が回復したものはほとんどない<sup>8,9)</sup>。

### 参 考 文 献

- 1) 佐伯忠彦、竹田一彦、白馬伸洋：副鼻腔真菌症の臨床的検討。耳鼻臨床 89：199-207, 1996.
- 2) 犬山征夫、小津雷助、堀内正敏：副鼻腔真菌症に関する臨床的観察。耳鼻臨床 69：325-335, 1976.
- 3) 吉田 正、中村光士郎、小林泰輔、富所雄一：蝶形骨真菌症の3例。耳鼻臨床 96：783-789,

- 2003.
- 4) 石田良治, 山田弘之, 酒井真一郎:蝶形骨洞真菌症の3例:日鼻誌 43:14-17, 2004.
- 5) Hora JF and Major NC: Primary aspergillosis of the paranasal sinuses and associated areas. Laryngoscope 75: 768-773, 1965.
- 6) 東松琢郎, 国部 勇:視覚障害を生じた蝶形骨洞アスペルギルス症例. 耳鼻臨床 93: 737-741, 2000.
- 7) 松山 武, 星田 徹:視力障害を示した副鼻腔原発アスペルギルス症. 臨眼 49: 1913-1915, 1995.
- 8) 口 幹典, 宮本浩行:アスペルギルスが原因であった鼻性神経症. 臨眼 52: 382-383, 1998.
- 9) Tsuboi K, Higuti O, Nose T: Intracranial aspergillus granuloma originating in the sphenoid sinus. Case report, Neurologia Medico Chirurgica (Tokyo) 28: 1014-1019, 1998.

### 質疑応答

質問 田村真司(和歌山県立医科大学)

- (1) 症例2の視力障害に対してステロイドなどの治療を行ったのか.
- (2) どういう機序によりアスペルギルス症により視力障害が発症したと考えるか.

応答 清野由輩(北里大)

視力低下に対してステロイドは元々継続で投与されていたので追加投与はしていない.

視力低下の機序は真菌による副鼻腔の炎症が視神経に波及した可能性がある.

質問 小山真史(和歌山県立医科大学)

術後フォローとして有効な指標はあるか?

術前の $\beta$ -D グルカンは上昇していたか?

応答 清野由輩(北里大)

再発に関しては局所の充分な観察と血中 $\beta$ -D グルカンの経過観察を用いて、術後注意していく.

連絡先:清野 由輩  
〒228-8555  
神奈川県相模原市北里 1-15-1  
北里大学医学部耳鼻咽喉科  
TEL 042-778-8111 FAX 042-778-8923  
E-mail yutomo@s3.dion.ne.jp