

# 成人難治性中耳炎の1例

小林一女 洲崎春海  
昭和大学医学部耳鼻咽喉科学教室

## An adult case of refractory otitis media

Hitome KOBAYASHI, Harumi SUZAKI

Department of Otorhinolaryngology, Showa University Scholl of Medicine

An adult case of otitis media, diagnosed as an inflammatory pseudotumor, is reported.

The patient was a 65-year-old female. She had received treatment with a diagnosis of right otitis middle with effusion at a neighborhood hospital since November 2007, but without improvement. She visited our hospital for detailed examination on January 15. She had no ear discharge, ear pain, or dizziness. At the time of the initial examination; the right tympanic membrane was thickened and opaque, and superficial blood vessels showed engorgement. Pulsation was recognized in the posterior portion of the tympanic membrane. Her right hearing level was 56.3 dB, showing mixed hearing loss. CT of the temporal bone revealed the entire area covering the tympanum, mastoid antrum, and mastoid cells to be filled with shadows of soft tissue. There was no imaging evidence of distinct bone destruction.

Tympanostomy was undertaken on January 22. The inside of the tympanum showed remarkable thickening of the membrane, and only a small amount of fluid was recognized. Her hearing level worsened thereafter, then transiently improved with administration of steroids. In February, however, hearing again deteriorated. She was aware of dizziness and being unsteady on her feet in March. MRI of the temporal bone revealed an area of high intensity in part of the mastoid region on a T2-weighted image, which was then visualized on a post-omniscan T1-weighted image. Blood examination revealed no distinct inflammatory findings or immunological abnormalities. Fluid was negative for the bacterial examination, showing class I on cytodiagnosis. On May 14, the patient underwent surgery under general anesthesia. No granulation or cholesteatoma was observed in the mastoid antrum, with only a small amount of fluid being recognized. The tympanum showed remarkable thickening of the membrane as a whole, and was filled with light-gray scar-like tissue and granulation. Histopathological examination of the excised tissue revealed hyperplasia of

fibroblasts, infiltration of inflammatory cells such as lymphocytes, and remarkable plasma cell infiltration. There were no giant cells, necrotizing granulomatous vasculitis, or cholesterol crystals. Based on the clinical course and histopathological examination results described above, this patient's condition was diagnosed as an inflammatory pseudotumor.

はじめに

成人の難治性中耳炎には結核性中耳炎, 好酸球性中耳炎, Wegener 肉芽腫症, コレステリン肉芽腫症などがある。われわれは診断, 治療に難渋した成人の中耳炎症例を経験したので報告する。

症 例

症例は65歳の女性である。2007年11月に何の誘因もなく右難聴, 耳閉塞感を自覚して11月14日に近医を受診した。右滲出性中耳炎と診断され, 耳管通気などの加療を受けていた。しかし症状は改善せず, 2008年1月に聴力検査で83.8dBの混合難聴が認められた為, 精査を勧められ当科を1月15日に受診した。経過中に耳漏, 耳痛, めまいは認められなかった。中耳炎, 喘息, 結核, 糖尿病などの既往はなかった。

初診時右鼓膜は肥厚, 混濁しており, 表面の血管が怒張していた。鼓膜後方に拍動が認められた。

その他, 耳鼻咽喉科的視診に異常は認められなかった。右聴力は56.3dBの混合難聴であった。側頭骨CTで鼓室, 乳突洞, 乳突蜂巢全体に軟部組織陰影が充満していた。明らかな骨破壊像は認められなかった。

以上の所見より鼓室内の貯留液の存在を疑い, 2008年1月22日外来で鼓膜切開を行った。鼓室

Table 1 The course of treatment and hearing level

	treatment	hearing level
2008, Jan. 22	myringotomy antimicrobial drug	56.3 dB
29	betamethasone	72.5
Feb. 5	↓	57.5
12	myringotomy antimicrobial drug cytodiagnosis class I	
19	betamethasone	77.5
26	↓	52.5
Mar. 4		57.5
20	dizziness	
Apr. 15	MRI	88.8
May 14	operation	92.5

内は粘膜肥厚が著明で, ごく少量の貯留液を認めた。29日に聴力が72.5dBと悪化したため, 副腎皮質ステロイド薬を処方した。2月5日に聴力は57.5dBまで回復した。しかし鼓膜所見に変化が無く, 2月12日, 鼓膜換気チューブ留置と貯留液の細胞診を目的に再度鼓膜切開を施行した。鼓室内の粘膜肥厚が著明でチューブを留置することはできなかった。貯留液の細胞診はクラスIであった。その後再び聴力が悪化し, 副腎皮質ステロイド薬を投与したところ聴力は初診時程度まで回復した。3月になり, めまい, ふらつきを自覚し, 再び聴力が悪化した (Table 1)。4月に聴

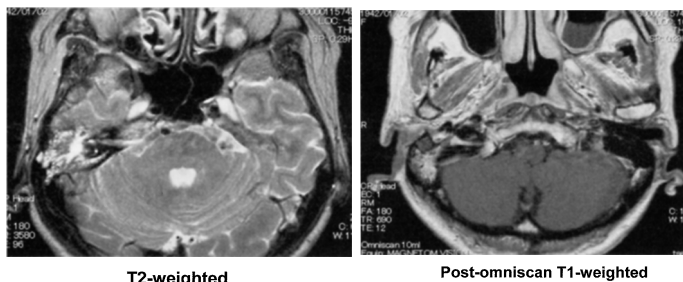


Fig. 1 MRI findings (2008, Apr. 15)

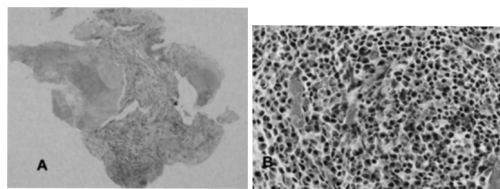


Fig. 2 Histopathological findings  
A : Proliferation of lymphocytes and fibroblasts  
B : Proliferation of plasma cells

器 MRI を施行したところ T2 強調像で乳突部に一部 high intensity の部分を、造影 T1 強調像で造影される部分が認められた (Fig. 1). 乳突蜂巣内の貯留液, 肉芽組織の存在が疑われた. その他明らかな異常は認められなかった. 臨床経過, 局所所見からは確定診断が得られず, 病理組織を採取することを目的に 2008 年 5 月 14 日全身麻酔下に手術を行った.

乳突洞内には肉芽や真珠腫は認められず, 少量の貯留液を認めた. 鼓室は全体に粘膜肥厚が著明で, 灰白色の癥痕様組織と肉芽が充満していた. これらの迅速病理の結果は炎症所見のみであった. 耳小骨や天蓋の骨欠損は認められなかった. 肉芽, 癥痕様組織を可及的に除去し, 鼓室形成術 WO 型として手術を終了した.

経過中の血液検査結果を Table 2 に示した. 明らかな炎症所見, 免疫学的異常は認められなかった. 貯留液の菌検査は陰性であった.

摘出物の病理組織を Fig. 2 に示した. 線維芽細胞の増生, リンパ球の浸潤など炎症細胞浸潤がみられ, 形質細胞の浸潤が著明であった. 巨細胞, 壊死性肉芽性血管炎, コレステリン結晶などは認められなかった. 以上の臨床経過, 病理組織結果より, 炎症性偽腫瘍が最も考えられた.

## 考 察

成人の難治性中耳炎には結核性中耳炎, 好酸球性中耳炎, アレルギー性肉芽腫性血管炎, Wegener 肉芽腫症, コレステリン肉芽腫, 中耳腫瘍, 耐性菌による中耳炎 (MRSA) などがある. これらの診断は最終的に病理組織診で行われる.

Table 2 The results of blood test

2008 April 22	WBC 6200 ( $10^3/\mu\text{l}$ ) RBC 350 ( $10^4/\mu\text{l}$ ) Hb 11.0 (g/dl) CRP <0.2 (mg/dl)
2008 May 15	PR-3ANCA <10 (EU) antinuclear antibody negative serum complement titer 47.1 (CH50/ml) IgG 938 mg/dl C3 124.6 mg/dl C4 31.9 mg/dl RF <7.0 IU/ml

炎症性偽腫瘍は腫瘍性増殖を示す占拠性病変であるが, 病理組織学的に慢性炎症性細胞浸潤がみられ, 新生物としての所見がみられないとされている疾患である. CT, MRI などの画像所見に特異的な所見は認められない. 肺での発生が最も多く, その他肝臓, 後腹膜, 縦隔, 脾臓, 骨盤などで認められている. 頭頸部領域では眼窩内, 喉頭, 副鼻腔, 大唾液腺, 甲状腺, 副咽頭間隙で認められている. 側頭骨, 頭蓋底に発生した偽腫瘍の報告はまれである. 炎症性偽腫瘍には多数の病変が含まれているとされている. 炎症性筋線維芽細胞性腫瘍, 感染・炎症の修復機転における腫瘤形成, 活動性感染による炎症性偽腫瘍, EBV 関連炎症性偽腫瘍様濾胞樹状細胞性腫瘍などの病変が含まれていると報告<sup>1)</sup>されている. その他, 最近では肝, 胆道, 肺においては IgG 4 関連の炎症性偽腫瘍の病態が考えられている<sup>2)</sup>.

本邦における側頭骨に認められた炎症性偽腫瘍の報告は, 2005 年以降 3 例であった. 鼓室内に限局した症例<sup>3)</sup>, 顔面神経麻痺を呈した症例<sup>4)</sup>, 顔面神経麻痺と内耳破壊を認めた症例<sup>5)</sup>が報告されている. いずれの症例も術前に確定診断のついた症例はなく, 手術により病変を摘出し, 病理組織診で診断されている. 手術以外の治療として, 副腎皮質ステロイド薬の投与に効果があると報告<sup>6)</sup>されている. 本症例は病理組織で特異的な所見がなく, 血液検査でも免疫学的な異常を認めず, 臨

床所見と併せ、最終的に炎症性偽腫瘍と診断した。経過中2度の難聴の増悪が副腎皮質ステロイド薬の経口投与で軽快している。胃部不快などがあり、3度目の難聴増悪時、めまい時に副腎皮質ステロイド薬の投与を行わなかった。めまいは保存的に症状が消失したが、術後も難聴は改善しなかった。副腎皮質ステロイド薬の全身投与を行うべきであったと考えている。本疾患は再発例も報告されている。現在術後1年5ヵ月を経過し、鼓膜所見は改善しているが、画像検査で鼓室、乳突腔の含気は不良である。難聴に変化はなく、めまいなどは認められていない。今後も注意深く経過観察をする予定である。

#### 参 考 文 献

- 1) 橋本 洋：炎症性偽腫瘍をどうとらえるか。病理と臨床, 25: 418-420, 2007
- 2) 中沼安二, 全 陽：IgG 4 関連硬化性疾患の病因・病態。病理と臨床, 27: 17-24, 2009
- 3) 賀数康弘, 中川尚志, 柴田修明, 他：鼓室内に限局した炎症性偽腫瘍の症例。耳鼻, 51: 330-335, 2005

- 4) 山村一彦, 森田一郎, 堀内正敏：側頭骨炎症性偽腫瘍の1例。Otol Jpn 16: 312, 2006
- 5) 鎌木亜弥, 杉尾雄一郎, 小林一女, 他：内耳破壊を生じた1症例。Otol Jpn 18: 567, 2008
- 6) Coulson C, George AJ, Biswas A et al: Pseudotumour of the temporal bone: a usual cause of otorrhoea and facial palsy. Eur Arch Otorhinolaryngol 265: 713-715, 2008

連絡先：小林一女  
〒142-8666  
東京都品川区旗の台1-5-8  
昭和大学医学部耳鼻咽喉科学教室  
TEL 03-3784-8563 FAX 03-3784-0981  
E-mail hitomek@med.showa-u.ac.jp