症例報告

急激な視力障害で発症した Onodi cell mucocele の 1 例

三 矢 幸 一 中 洲 庸 子 堀 口 聡 士
大 曲 貴 夫^{*1} 具 芳 明^{*1} 柏 木 広 哉^{*2}

Acute Optic Neuropathy due to Onodi Cell Mucocele : A Case Report

by

Koichi Mitsuya, M.D., Yoko Nakasu, M.D., Satoshi Horiguchi, M.D.,
Norio Ohmagari, M.D.^{*1}, Yoshiaki Gu, M.D.^{*1}, and Hiroya Kashiwagi, M.D.^{*2}

from

Divisions of Neurosurgery, ^{*1}Infectious Diseases, and ^{*2}Ophthalmology, Shizuoka Cancer Center

We report a rare case of Onodi cell mucocele. The patient was a 37-year-old man who developed acute impairment of his left visual acuity without pain or abnormal findings in the ocular fundus. Bone window CT scan and MR images demonstrated a mass lesion surrounding and over the left optic canal. An emergency craniotomy revealed an Onodi cell mucocele, and its excision resulted in good visual recovery for the patient.

Onodi cells are the most posterior air cells of the ethmoid sinus. They are anatomically situated over the optic canal. Onodi cell mucocele must be included in the differential diagnosis of unilateral retrobulbar optic neuropathy. Careful examination of CT scans and MR images, and prompt surgical intervention are recommended.

(Received March 13, 2006 ; accepted June 9, 2006)

Key words : mucocele, Onodi cell, optic neuropathy

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 15 : 715-719, 2006

はじめに

篩骨洞最後方部の variation である Onodi cell 内の粘液嚢胞は、その解剖学的位置関係から、稀に圧迫性視神経症の原因となりうる。今回われわれは、急激な視力障害で発症した Onodi cell の粘液嚢胞の 1 例を経験したので報告し、この病態について考察する。

症 例

患 者：37 歳，男性

17 歳時に両側上顎洞炎の手術を受けた。4 日前より、左視力低下と左眼深部の鈍痛を自覚し、眼科受診。その

後も、左視力障害が指数弁まで急速に悪化した。前医脳神経外科を受診し、MRI にて左視神経管内の腫瘤を指摘され、当科紹介となった。

腫瘤は辺縁明瞭で、T1 強調画像で低信号、T2 強調画像で高信号、淡い造影効果があった (Fig. 1)。CT は軸位のみ実施し、左視神経管の拡張所見と考え、周囲の副鼻腔には炎症所見がなかった (Fig. 2)。血液検査上は白血球正常、炎症所見なし。当科紹介受診時、左眼の視力は光覚弁まで悪化し、右眼は 0.1 (矯正 1.2) であった。眼圧は両眼とも正常で、眼球運動、眼底に異常を認めなかった。

前医より prednisolone 30 mg/日を内服、当院入院後 betamethasone 8 mg を 8 時間毎 3 回、glycerin 10% 200

静岡県立がんセンター脳神経外科／〒411-8777 静岡県駿東郡長泉町下長窪 1007 [連絡先：三矢幸一]

Address reprint requests to : Koichi Mitsuya, M.D., Division of Neurosurgery, Shizuoka Cancer Center, 1007 Shimonagakubo, Nagai-zumi-cho, Sunto-gun, Shizuoka 411-8777, Japan

^{*1}同感染症科 ^{*2}同眼科

Fig. 1 Axial T1- (A) and T2- (B) weighted MRI showing a mass lesion in the left optic canal. Coronal Gd-enhanced MRI shows a lesion over the left optic nerve (arrow head) (C) .

Fig. 2 Bone window CT shows the expanded left optic canal with soft tissue (arrow) .

ml を 12 時間毎 2 回投与したが、急速な視力低下は改善しなかった。このため入院翌日（発症から 5 日目）に緊急開頭術を施行した。視神経管内の腫瘍性病変を最も疑い、左の pterional approach で硬膜内から左視神経管を開放、病変摘出を計画した。術中、視神経管を開放すると、黄色粘液が流出し、注射器で吸引し、培養に提出した。視神経管内で左視神経鞘は病変により圧迫され、色調は蒼白となっていた。内容物の検鏡ではグラム陽性球菌の像が少数認められたが、細菌培養は陰性であった。嚢胞

壁を全摘出し、内腔を観察したところ、蝶形骨洞との直接的な交通はなく、内側に骨性の隔壁を認めた。Toblamycin 2 mg を塗布した筋肉片を嚢胞摘出腔に充填し、フィブリン糊でシールし、閉頭した。術後、vancomycin 1 g を 6 時間毎、ceftriaxone sodium 2 g を 12 時間毎に併用し、1 週間全身投与した。これに toblamycin 10 mg の髄腔内投与を術後 4 日間併用し、髄膜炎症状なく経過した。病理組織診断では、嚢胞壁の表層部は扁平・立方上皮で構成され、一部に線毛あり。内面は線維性組織、多

Fig. 3 A: The cyst wall covered with ciliated (arrow) and single-layered epithelium.
B: Macrophages, giant cells, neutrophils and lymphoid cells in the cyst wall.
HE. $\times 400$ (A), $\times 200$ (B)

Table 1 Literature review Onodi cell of mucocyst

Authors (Year)	Age	Sex	Symptoms	Surgical procedure	Outcome
Aibara (1997)	38	M	Repeated VD, ROP	ESS	Good
Ogata (1998)	73	M	Repeated VD	ESS	Good
Lim (1999)	32	F	VD, ROP	Orbitozygomatic craniotomy	Good
Klink (2000)	41	M	VD, ROP	ESS	Recurrence after 3 month, Repeated surgery, Good
Kitagawa (2003)	73	M	VD, ROP	ESS	Good
Kantarci (2004)	22	M	VD, ROP	NR	Good
Yoshida (2005)	53	F	VD, ROP	Pterional craniotomy	Good
Present case (2006)	37	M	VD	Pterional craniotomy	Good

VD; visual disturbance, ROP; retro-orbital pain, ESS; endoscopic sinus surgery, NR; not reported

数の泡沫状マクロファージの集族，異物型巨細胞，好中球，リンパ球を認め，mucocyst と診断した (Fig. 3)。術後1週間で左視力障害は改善し，術後9日目で退院。術後，4カ月経過したが，画像上病変の再発は認めない。左眼視野に異常なく，視力は右 0.1 (1.2)，左 0.1 (1.2) と病前レベルに回復し維持している。

考 察

Onodi cell は，Adolf Onodi によって 1904 年に初めて報告された副鼻腔の蜂巣で，成人の 8~14% に認められる篩骨洞最後方部の特殊形態に対する名称であり，sphenomethmoid cell と同義である¹²⁾¹⁴⁾。Onodi cell は，篩骨洞後部が蝶形骨洞に乗りかかるように，頭蓋底に沿って外側および後上方へ発育したもので，視神経や内頸動脈に近接していることが多いという特徴を持つ。したがって，同部の病変は，圧迫性の視神経障害をきたしやすい解剖学的位置にある。

耳鼻科領域では，広範な副鼻腔炎が，視神経障害，眼

球運動障害を呈する症例は少なくない。しかし，Onodi cell に限局した mucocyst による急性の視神経障害の症例は，われわれの渉猟した中では，7 例のみであった^{1)7)~11)15)}。中でも，今回の症例の病変は $5 \times 10 \times 20$ mm で最小であった。いずれの症例も急速な視神経管内神経障害をきたしていた。

一方，前床突起内に限局した mucocyst による視神経障害とする報告が少数例ある^{2)~6)10)13)}。これらには，Onodi cell または蝶形骨洞から派生し，前床突起内に及んだ mucocyst も含まれているものと考えられる。

Onodi cell の mucocyst の報告は 1997 年以降にみられることから，これ以前では Onodi cell の解剖学的特徴と病的意義について認識が薄かった可能性がある。前床突起内の mucocyst の報告例はこれらよりも古く，orbital apex まで病変が伸展し，病変が大きく，CT 画像上診断が容易なものが多かった。CT や MRI の coronal 像がまだ普及していなかったころは，今回の症例のように小さく扁平なタイプの Onodi cell に限局した病変であれば，axial 画像では視神経管への圧迫が認識されにくいため，

ほとんど病変のないものと診断されたとしても不思議ではない¹⁾。

Onodi cell の mucocoele が、急激な視神経障害をきたす原因は、その解剖学的な特徴に起因する。Onodi cell の自然口は上鼻道へ開口するため、蝶節陥凹で直接鼻腔へ開口する蝶形骨洞よりも狭小かつ複雑で長い経路が必要なので、閉鎖状態になりやすいと考えられる¹⁾。このため、今回の症例のように、小さな mucocoele であっても、いったん閉鎖状態に陥ると視神経の圧迫が突然生じ、視力障害の急激な発症と進行をきたすものと考えられる。

Dunya らの報告⁴⁾によると、Onodi cell からの球後視神経症は、視力障害発症から 7～10 日以内に外科的治療を施行しないと、術後の視力回復が悪いとされる。これらの病変は緊急の診断・治療を施行する必要がある。

手術のアプローチ法を決定するにあたり、われわれは周囲に炎症所見がないことから、まず腫瘍性病変を想定した。そこで、病変部位が正中より外側方で、視神経管の上壁にあたるため、硬膜内開頭術が適当と判断した。しかし、今回の手術を顧みると、当初から感染性疾患を想定していれば、術後の髄膜炎を避けるため、硬膜内手術よりも硬膜外手術を選択したほうが適切であったと思われる。過去の報告では、7 例中 4 例が内視鏡下手術、1 例が硬膜内手術、1 例が硬膜外手術、1 例が不詳であった (Table 1)。比較的大きめの mucocoele の場合は、内視鏡下手術も考慮してよいが、今回のような視神経管の上壁を形成する Onodi cell の小さく扁平な mucocoele の場合は、経鼻的内視鏡下手術では視神経への障害が危惧されるため開頭術を要すると考える。

Onodi cell は耳鼻科領域では比較的知られているものの、脳神経外科や眼科の領域ではまだなじみが少ない。診断には、CT や MRI の axial および coronal 像の詳細な検討が有用である¹¹⁾。われわれ脳神経外科医は、球後視神経症の鑑別診断として、Onodi cell の mucocoele による圧迫性視神経症を日常診療上念頭に置き、遅滞のない診断と外科的減圧術が行われるよう、解剖学的特徴を認識しておく必要がある。

謝辞

今回の貴重な症例をご紹介いただいた前田脳神経外科 前田隆寛先生に感謝致します。

文 献

- 1) 相原隆一, 川北誠二, 湯元英二, 柳原尚明: Onodi 蜂巣炎による鼻性視神経炎例. 日耳鼻 **100**: 663-670, 1997.
- 2) Chou PI, Chang YS, Feldon SE, Chen JT: Optic canal mucocoele from anterior clinoid pneumatization. *Br J Ophthalmol* **83**: 1306-1307, 1999.
- 3) Chung DS, Park YS, Lee JH, Kang JK: Mucocoele of the anterior clinoid process: Case report. *Neurosurgery* **45**: 376-378, 1999.
- 4) Dunya IM, Frangieh GT, Heilman CB, Miranda MR, Rand LI, Hedges TR: Anterior clinoid mucocoele masquerading as retrobulbar neuritis. *Ophthalmol Plast Reconstr Surg* **12**: 171-173, 1996.
- 5) Garaventa G, Arcuri T, Schiavoni S, Fonzari M: Anterior clinoid mucocoele: A trans-nasal endoscopic approach. *Minim Invasive Neurosurg* **40**: 144-147, 1997.
- 6) Johnson LN, Hepler RS, Yee RD, Batzdorf U: Sphenoid sinus mucocoele (anterior clinoid variant) mimicking diabetic ophthalmoplegia and retrobulbar neuritis. *Am J Ophthalmol* **102**: 111-115, 1986.
- 7) Kantarci M, Karasen RM, Alper F, Onbas O, Okur A, Karaman A: Remarkable anatomic variations in paranasal sinus region and their clinical importance. *Eur J Radiol* **50**: 296-302, 2004.
- 8) Kitagawa K, Hayasaka S, Shimizu K, Nagaki Y: Optic neuropathy produced by a compressed mucocoele in an Onodi cell. *Am J Ophthalmol* **135**: 253-254, 2003.
- 9) Klink T, Pahnke J, Hoppe F, Lieb W: Acute visual loss by an Onodi cell. *Br J Ophthalmol* **84**: 801-802, 2000.
- 10) Lim CC, Dillon WP, McDermott MW: Mucocoele involving the anterior clinoid process: MR and CT findings. *AJNR Am J Neuroradiol* **20**: 287-290, 1999.
- 11) Ogata Y, Okinaka Y, Takahashi M: Isolated mucocoele in an Onodi cell. *ORL J Otorhinolaryngol Relat Spec* **60**: 349-352, 1998.
- 12) Onodi A: Die Sehstoerungen und Erblindung nasalen Ursprunges, bedingt durch Erkrankungen der hinteren Nebenhohlen. *Z Augenheilkd* **12**: 23-46, 1904.
- 13) Schwaighofer BW, Sobel DE, Klein MV, Zyroff J, Hesselink JR: Mucocoele of the anterior clinoid process: CT and MR findings. *J Comput Assist Tomogr* **13**: 501-503, 1989.
- 14) Stammberger HR, Kennedy DW: Paranasal sinuses: Anatomic terminology and nomenclature. *Ann Otol Rhinol Laryngol (Suppl)* **167**: 7-16, 1995.
- 15) Yoshida K, Wataya T, Yamagata S: Mucocoele in an Onodi cell responsible for acute optic neuropathy. *Br J Neurosurg* **19**: 55-56, 2005.

要 旨

急激な視力障害で発症した Onodi cell mucocoele の 1 例

三矢 幸一 中洲 庸子 堀口 聡士
大曲 貢夫 具 芳明 柏木 広哉

症例は、37 歳男性。左眼視力低下で発症。疼痛なし。眼底異常なし。4 日間で左眼光覚弁まで悪化した。Bone window CT と MRI で、左視神経管の拡大を伴う腫瘤性病変を、視神経の上方に認めた。発症 5 日目に緊急開頭術を行い、病理組織と発生部位から、Onodi cell の mucocoele と診断した。術後、視力障害は改善した。

Onodi cell は篩骨洞最後方部の特殊形態で、視神経を取り囲むように位置している。Onodi cell の粘液嚢胞は、小さいものでも視力回復のために緊急の減圧術が必要であり、球後性視神経症の鑑別疾患として念頭に置く必要がある。CT, MRI で視神経管周囲の注意深い観察が重要である。

脳外誌 15 : 715-719, 2006

会 員 の 皆 様 へ

●入会・転居・休会のご案内●

1. 入会ご案内

入会ご希望の方は申込み書一式を電話、FAX あるいは葉書にて事務局までご請求ください。

入会金 5,000 円

年会費 15,000 円(専門医, 新専門医)

10,000 円(非専門医, 協会員, 外国人会員)

2. 脳神経外科ジャーナル送付についてのお断り

機関誌“脳神経外科ジャーナル”を年間 12 冊発行し、入会された時点から送付させていただきます。ただし、入会時以前に発行されたその年度分の機関誌については送付されません。ご了承ください。

3. 会費の納入期について

当該年度の会費は総会の開かれた年の年末までに納入するようご協力ください。

4. 会費長期末納の方へ

分割支払もお受けしたいと思いますので、事務局へご相談ください。

5. 転居・転任される方へ

転居・転任される方は速やかに学会事務局までご一報ください。

6. 国外留学される方へ

国外留学される方は、留学予定期間・留守中連絡方法および送付先などを渡航前に学会事務局までご一報ください。留学期間中、休会という形をとられますと、その期間の“脳神経外科ジャーナル”をお受け取りになれません。機関誌をご希望の方は、会費をあらかじめ前納いただくか、各年度毎に納入してください。

日本脳神経外科コンgres事務局

〒113-8421 東京都文京区本郷 2-1-1 順天堂大学医学部脳神経外科内

TEL 03-3813-1039 FAX 03-5684-3096

http : //wwwsoc.nii.ac.jp/jcns/index.html E-mail : jcns@med.juntendo.ac.jp