症例報告

小脳浸潤を示し脳膿瘍を合併したために診断が困難であった 中耳癌の1例

山口 智 沖 修 一 三 上 貴 司 川 本 行 彦
佐 藤 齊 伊 藤 陽 子 桑 本 健太郎

A Case of Middle Ear Cancer invading Cerebellum associated with Abscess : Differential Diagnosis between Brain Tumor and Abscess

by

Satoshi Yamaguchi, M.D., Shuichi Oki, M.D., Takashi Mikami, M.D., Yukihiro Kawamoto, M.D.,
Hitoshi Sato, M.D., Yoko Ito, M.D., and Kentarou Kuwamoto, M.D.

from

Department of Neurosurgery, Hiroshima City Asa Hospital

It is difficult to distinguish between brain tumor and brain abscess on the radiographic findings. When both occur at the same time, accurate diagnosis is very difficult. We report a case of middle ear cancer invading cerebellum with brain abscess.

A 50-year-old man noticed discharge from his left ear in July 1995 but he did not consult a doctor. In January 1996, severe headache and nausea occurred in addition to the ear discharge. A cerebellar abscess was diagnosed at another hospital, and he was referred to us. He had a history of radical mastoidectomy due to left chronic otitis media in his childhood. Initial MRI showed multiple cysts in the left cerebellar hemisphere and a mass lesion in the left cerebellar hemisphere and in the left petrous bone. We considered the cystic lesions to be brain abscess and the mass lesion to be granulation tissue derived from chronic otitis media and mastoiditis. Then stereotactic aspiration of the brain abscess was performed twice. *Bacteroides* and *Staphylococcus* were isolated from pus aspirated from the cysts. Despite the administration of antibiotics the mass lesion enlarged and showed development to the left cerebellar hemisphere. Because of the tonsillar herniation due to the cerebellar mass, subtotal resection of the mass was performed. The histopathological diagnosis of the surgical specimen was squamous cell carcinoma. The systemic exploration failed to reveal primary lesion. We considered that the patient already had had carcinoma within the otitis media on admission and both of the lesions had invaded the cerebellum.

(Received April 9, 1997; accepted June 13, 1997)

Key words : brain abscess, squamous cell carcinoma, MRI

Jpn J Neurosurg (Tokyo) 6 : 706-710, 1997

はじめに

副鼻腔や中耳、乳突洞の感染症は脳膿瘍の原因として最も多く、特に中耳炎では直接的に感染が頭蓋内へ波及し、側頭葉や小脳に脳膿瘍を形成する¹²⁾¹⁶⁾。また、脳

膿瘍はCT、MRIで環状増強を呈し、類似の所見を示す膠芽腫や転移性脳腫瘍との鑑別がしばしば困難となり、診断が困難であったとする報告もある⁹⁾¹³⁾¹⁹⁾²³⁾。今回われわれも、耳性脳膿瘍と中耳癌の小脳への直接浸潤を合併したために、腫瘍の診断に苦慮した症例を経験し

広島市立安佐市民病院脳神経外科／〒731-02 広島市安佐北区可部南 2-1-1〔連絡先：山口 智〕

Address reprint requests to: Satoshi Yamaguchi, M.D., Department of Neurosurgery, Hiroshima City Asa Hospital, 2-1-1 Kabeminami, Asa Kita-ku, Hiroshima-shi, Hiroshima 731-02, Japan

Fig. 1 Photographs of MRI on admission showing cystic lesion in the left cerebellar hemisphere (arrows) and a mass lesion in the left cerebellopontine angle (arrowheads) and in the petrous bone (white arrows)

The cystic lesion was surrounded by low intensity rim on T2-weighted image. The margin of the cyst and mass lesion was enhanced on Gd-DTPA enhanced T1-weighted image.

A: T1-weighted image B: T2-weighted image C: Gd-DTPA enhanced T1-weighted image

たので報告する。

症 例

患 者：50 歳，男性

主 訴：頭痛，嘔気，嘔吐

現病歴：1995 年 7 月ごろより左耳から耳漏が認められていたが，放置していた。12 月より頭痛が加わり，1996 年 1 月には嘔気，嘔吐も伴ってきた。近医脳神経外科病院を受診し，小脳膿瘍と診断され，1 月 16 日に精査，加療のため広島市立安佐市民病院脳神経外科に紹介され入院した。

既往歴：学童期に 2 度にわたり左慢性中耳炎の手術を受けた（詳細不明）。

入院時所見：意識レベルは Japan Coma Scale で I-1 と軽度の意識障害を認めたが，頭痛と嘔気を強く訴えていた。左外耳道からは慢性中耳炎による悪臭を伴った膿汁の流出を認めた。神経学的には左上下肢に小脳性運動失調を認め，左聴力はほぼ消失している様子であったが，患者の気分不良が強く，聴力検査は行われなかった。

入院時血液検査所見：白血球数は $14,900/\mu\text{l}$ と増加していたが，CRP は 0.7mg/dl であり，ほとんど亢進していなかった。

神経放射線学的所見：入院時 CT では左錐体骨部の広範な骨欠損を認め，造影効果のある腫瘍性病変が骨欠損

部から左小脳橋角部，左小脳半球に連続性に認められた。1996 年 1 月 19 日に行われた MRI では，左小脳半球に T1 強調画像（T1WI）で低信号，T2 強調画像（T2WI）で高信号に描出される部位があり，嚢胞性病変と考えられた。左錐体骨から小脳橋角部にかけて T1WI，T2WI で低信号，Gd-DTPA により不均一に増強される部位があり，この部位は実質性病変と考えた。嚢胞周囲には T2WI で低信号帯（low intensity rim）を囲んで高信号領域が広がっており，著明な浮腫を呈していた（Fig. 1）。

治療経過：上記所見より本症例は慢性中耳炎から錐体骨炎を呈し，さらに炎症が小脳へ直接進展することによって小脳実質内に膿瘍を形成したものと思われた。また，MRI での実質性の部分は硬膜外膿瘍と炎症後の肉芽組織と考えた。脳膿瘍と診断したため，第三世代セフェムを中心とした抗生剤の多剤投与を行いながら 2 度の定位脳手術により膿汁の穿刺吸引を行った。膿汁からは *Bacteroides* 属をはじめとした起炎菌が培養され，MRI での嚢胞性病変は脳膿瘍であることが確かめられた。また，錐体骨部の実質性病変に対しても摘出術を行った。しかし，これらの治療にもかかわらず膿瘍は消失せず，実質性の部分はむしろ増大傾向を示した（Fig. 2）。1996 年 5 月には脳膿瘍が原因と思われる敗血症性ショックや播種性血管内凝固症候群（DIC）を呈し，抗生剤や免疫グロブリン製剤，メシル酸ガベキサートにより治療を行ったが，患者の全身状態は悪化傾向にあった。さらに，

A/B/C
D

Fig. 2 Serial MRI photographs (Gd-DTPA enhanced T1-weighted images)

- A: Intracerebellar cyst was shrunk by stereotactic aspiration of the abscess (March 18, 1996).
B, C: The mass lesion in the left cerebellopontine angle and left cerebellar hemisphere showed gradual enlargement (B: April 22, 1996. C: June 3, 1996).
D: The mass effect had become remarkable by the enlarged mass lesion (July 31, 1996).

Fig. 3 The photomicrograph of the surgical specimen demonstrating squamous cell carcinoma accompanied by multiple cancer pearls (H & E stain, medium magnification)

病変の脳幹部への圧排効果による呼吸障害や意識レベルの低下を認めたため、8月11日に後頭下開頭による小脳内腫瘍摘出術を行った。術前に感染性肉芽組織と考え

ていた腫瘍は白色調で乏血性の固い組織で、病理組織学的診断は扁平上皮癌であった(Fig. 3)。扁平上皮癌の原発巣として肺、食道、副鼻腔、皮膚などを考え、胸腹部のCT撮影やシンチグラフィによる全身精査を行ったが、明らかな原発巣は認められなかった。このように、全身精査によっても原発巣が明らかでなく遠隔転移の可能性が低いと考えられたこと、画像上で脳病変は左錐体骨より連続性に存在することから、本症例は慢性中耳炎に中耳癌を併発し、両病変が小脳に直接進展したものと考えられた。上記の治療にもかかわらず術後の意識状態の改善は乏しく、患者は肺炎、DICなどを併発し、9月16日に死亡した。なお、剖検は得られなかった。

考 察

① 脳膿瘍と脳内病変の合併について

脳膿瘍と他の脳内病変との合併は稀で、われわれが渉猟したかぎりでは8報告、9症例であった^{3)4)6)~8)15)20)21)}。内訳は脳血管障害に合併したものが5例、脳腫瘍に合併したものが4例であった。発生機序は脳血管障害に合併

した例、脳腫瘍に伴う例のいずれも病変部の血液脳関門の破壊された部位に他の感染部位から起炎菌が血行性に転移し、膿瘍を形成することが考えられている。その背景として意識障害、長期臥床状態での肺炎やカテーテル留置による菌血症、ステロイド、化学療法による免疫不全状態が感染を誘発することがあげられている^{4)6)~8)15)20)}。

一方、今回のわれわれの症例における発生機序を考えてみると、全身検索にもかかわらず、扁平上皮癌の原発巣を見出せなかった。このため、慢性中耳炎に併発した中耳癌が錐体骨の破壊を伴いながら小脳へ直接浸潤し、中耳炎からの感染が波及することによって脳膿瘍を形成したものと考えた。過去の報告例とわれわれの症例では感染の経路に違いがあるが、共通しているのは先行した疾患の存在により合併した疾患の診断が困難となったことであり、常に鑑別疾患を念頭において診断を進めていくことが重要であると思われた。

2 画像所見について

脳膿瘍は一般に造影 CT および造影 MRI で環状増強を示すことが知られているが、環状増強を示す疾患として代表的なものに転移性脳腫瘍、膠芽腫があげられる。脳膿瘍は MRI 上、膿瘍の周囲被膜がガドリニウム増強 MRI T1 強調画像 (Gd-T1WI) で高信号、つまり環状増強され、T2WI で低信号帯 (low intensity rim) を呈するとされている。また、鑑別点として膠芽腫では環状増強される壁が厚く、不整形で花輪状を呈するのに対し、脳膿瘍では壁が均一で薄いこと、low intensity rim は膿瘍の縮小に伴い消退することなどがあげられている²⁾¹⁰⁾¹⁸⁾²⁴⁾。過去の報告を採ってみても、脳腫瘍として治療したが、手術所見で脳膿瘍が判明した症例⁹⁾¹³⁾、逆に脳膿瘍として治療したが、剖検により転移性脳腫瘍であることが判明した症例¹⁹⁾があるなど、脳膿瘍と転移性脳腫瘍、膠芽腫との鑑別は困難なことがある。診断に苦慮したわれわれの症例でも上記のような嚢胞被膜を示すと思われる MRI 所見を認め、実際の手術所見でも嚢胞内容は膿であり、嚢胞部分は脳膿瘍であると思われた。しかし、中耳炎による肉芽組織と考えていた実質性の部分は病理組織学的には扁平上皮癌であることが判明した。

中耳癌の MRI 所見に関する報告は乏しく、われわれが調べたかぎりでは特徴的なものはなかった。同じ頭頸部に発生する副鼻腔の扁平上皮癌の MRI 所見に関する報告でも、腫瘍実質部分は T1WI, T2WI とも低～中間的信号強度を示し、肉芽組織も T2WI で低～中間的信

号強度を呈するため、悪性腫瘍との鑑別は困難であるとしている¹¹⁾²²⁾。今回の症例では実質性部分が増大傾向を示したため直達手術を行い、腫瘍の存在が明らかとなったが、画像所見のみから扁平上皮癌の存在を知るのは困難であったと思われる。

3 中耳癌について

今回の症例で原発巣は左慢性中耳炎の部位に発生した扁平上皮癌(中耳癌)であると考えられた。中耳癌は耳疾患のうちで 0.01%、頭頸部癌の 0.5~1.0% を占める稀な疾患で、症状は耳痛、耳漏、耳閉感、難聴、易出血性など慢性中耳炎の症状と類似している。しかも、中耳癌、外耳道癌の 40~80% に慢性中耳炎の合併がみられるとされ¹⁷⁾、慢性中耳炎、真珠腫性中耳炎を合併している場合、診断はきわめて困難であるという⁵⁾¹⁴⁾。

ところで、今回の症例のように慢性中耳炎に扁平上皮癌を発生、脳膿瘍を伴った例を過去の文献で調べてみると 2 例の報告があった¹⁾²³⁾。しかし、いずれの報告も脳膿瘍の診断の前に中耳扁平上皮癌の診断が確定していた症例であった。今回の症例のように脳膿瘍の診断、治療が先行した場合には中耳癌の診断は困難となるが、慢性中耳炎を有する耳性脳膿瘍で、治療に抵抗性に増大傾向を示すものでは中耳癌を鑑別診断として考慮すべきであると思われた。

文 献

- 1) 阿部 隆, 相上輝昭, 堀 晃, 村井和夫, 立木 孝: 中耳癌と脳膿瘍を併発した慢性中耳炎. 臨床耳科 14: 448-449, 1987.
- 2) Adachi J, Uki J, Kazumoto K, Takeda F: Diagnosis of brainstem abscess in the cerebritis stage by magnetic resonance imaging: Case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 35: 467-470, 1995.
- 3) Brinquin L: Brain abscess caused by *Salmonella enteritidis* associated with brain tumor (letter). *Presse Med* 24: 1135, 1995.
- 4) Chen ST, Tang LM, Ro LS: Brain abscess as a complication of stroke. *Stroke* 26: 696-698, 1995.
- 5) 星野知之, 本間芳人, 菅沼美佳: 慢性中耳炎に併発した中耳癌症例—耳漏細胞診と画像診断. *JOHNS* 8: 143-148, 1992.
- 6) Ichikawa M, Shimizu Y, Sato M, Imataka K, Masuda A, Hara Y, Kitano H, Suzuki F: Abscess within a glioblastoma multiforme: Case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 32: 829-833, 1992.
- 7) 一見和良, 石栗 仁, 木田義久, 木野本武久: 脳梗塞巣に生じた脳膿瘍の 1 例. 脳外 17: 381-385, 1989.
- 8) 飯田淳一, 竹村 潔: 小脳出血に続発した脳膿瘍の 1 例. 脳外誌 3: 65-68, 1994.
- 9) Imai H, Ono N, Zama A, Tamura M: Diagnosis and treatment of brainstem abscess using magnetic reso-

- nance imaging and microsurgical aspiration: Case report. *Neurol Med Chir (Tokyo)* 35: 160-164, 1995.
- 10) 入江裕之, 蓮尾金博, 安森弘太郎, 水島 明, 黒岩俊郎, 白水康司, 増田康治, 福井仁士: 脳膿瘍の MRI. 日本医放会誌 51: 115-120, 1991.
 - 11) 石井 清, 松本 恒: 副鼻腔疾患の MRI. 画像診断 12: 285-292, 1992.
 - 12) 上條 篤, 野沢 出, 久松建一, 荻野 純, 中澤真理, 水越昭仁, 村上嘉彦: 耳性小脳膿瘍の 1 症例と最近の耳性頭蓋内合併症について. 耳鼻臨床 79(補): 28-36, 1995.
 - 13) 金井一男, 菊池郁夫, 三原謙郎, 清田正司, 山川勇造, 浅見尚規: 悪性腫瘍と鑑別困難であった脳膿瘍の 1 例. 宮崎医会誌 15: 62-65, 1991.
 - 14) 加藤明夫, 吉村 理, 末永 通, 小崎秀夫, 本間賢一, 深沢雄一郎: 中耳真珠腫を合併した外耳道癌の一症例. 札幌病誌 51: 245-249, 1991.
 - 15) 栗原秀行, 三井恒太, 河野徳雄: 脳内出血に続発した脳膿瘍の 1 例. 脳外 17: 1037-1040, 1989.
 - 16) Loftus CM, Osenbach RK, Jose B: Diagnosis and Management of Brain Abscess. in Wilkins PH, Rengachary SS (eds): *Neurosurgery. 2nd ed.*, New York, McGraw-Hill, 1996, pp. 3285-3298.
 - 17) 宮脇浩紀, 大屋耕子, 安藤理加, 井口哲彦, 平川勝洋, 鈴木 衛, 夜陣紘治, 原田康夫: 外耳道・中耳癌 11 例. 耳鼻臨床 72(補): 75-81, 1994.
 - 18) 望月邦三, 井上佑一, 八幡訓史, 福田照男, 根本 裕, 小田淳郎, 多田卓仁, 清水 宏, 赤土みゆき, 小野山靖人, 安井敏裕, 夫 由彦: 脳膿瘍の MRI. 臨放 36: 1645-1649, 1991.
 - 19) 永井成樹, 高野 誠, 岩渕啓一: 脳膿瘍との鑑別が困難であった脳腫瘍の一例. 北里医学 22: 682-685, 1992.
 - 20) Neguerado A, Cabanyes JV, Vivancos J, Navarro E, Lopez F, Isasia T, Martinez MC, Romero J, Lopez-Brea M: Abscess caused by *Salmonella enteritidis* within a glioblastoma multiforme. *J Infect* 15: 61-63, 1987.
 - 21) Rodriguez RE, Valero V, Watanakunakorn C: Salmonella focal intracranial infections: Review of the world literature (1884-1984) and report of an unusual case. *Rev Infect Dis* 8: 31-41, 1986.
 - 22) Som PM, Dillon WP, Sze G, Lidov M, Biller HF, Lawson W: Benign and malignant sinonasal lesions with intracranial extension: Differentiation with MR imaging. *Radiology* 172: 763-766, 1989.
 - 23) 竹下幹彦, 久保長生, 高倉公朋: 外耳道腫瘍の頭蓋内伸展も疑われた脳膿瘍の一例. *Clin Neurosci* 12: 1292-1293, 1994.
 - 24) 和田 学, 梶川 博, 藤井省吾, 児玉隆治, 児玉 治, 山村邦夫: 脳膿瘍の MRI. 広島医学 46: 975-980, 1993.

要 旨

小脳浸潤を示し脳膿瘍を合併したために診断が困難であった中耳癌の 1 例

山口 智 沖 修一 三上 貴司 川本 行彦
佐藤 斉 伊藤 陽子 桑本健太郎

患者は 50 歳の男性で、既往に左慢性中耳炎があり、耳漏、頭痛、悪心で発症した。MRI では左小脳半球に嚢胞性病変、小脳橋角部および錐体骨に実質性の病変が描出され、病歴と MRI 所見より慢性中耳炎による感染性肉芽組織が小脳へ浸潤し、膿瘍形成したと考えた。定位的排膿術で起炎菌が分離されたが、抗生剤投与にもかかわらず腫瘍は徐々に増大した。小脳内の腫瘍を摘出したが、病理組織診断は扁平上皮癌であった。原発巣は発見し得ず、慢性中耳炎の部位に発生した中耳癌が膿瘍を伴って小脳へ浸潤したものと思われた。脳膿瘍が他の脳病変に合併した報告もあり、脳膿瘍でも非定型的な経過を辿る場合には積極的な組織診断を行うべきであると考えられた。

脳外誌 6: 706-710, 1997