症例報告

ラトケ嚢胞に合併した下垂体膿瘍の1例

小野 敦史 所 和彦 鈴木 範行
倉島 志八 山本 勇夫

Pituitary Abscess associated with a Rathke's Cleft Cyst: A Case Report

by

Atsushi Ono, M.D., Kazuhiko Tokoro, M.D., Noriyuki Suzuki, M.D.,
Yukiya Kurashima, M.D., and Isao Yamamoto, M.D.

from

Department of Neurosurgery, Yokohama City University School of Medicine

We present a case of pituitary abscess in a Rathke's cleft cyst. A 14-year-old woman was admitted to our hospital with complaints of headache and visual field defect. Her past history was unremarkable except for Garré's myelitis at age 10. Endocrinological examination revealed panhypopituitarism. Plain skull X-ray films showed normal sella, but CT and MRI showed a cystic lesion with a ring-like enhancement in the intrasellar and suprasellar region. Transsphenoidal surgery confirmed an abscess formation in the pituitary fossa. The postoperative course was uneventful. A histological examination of the abscess wall revealed a ciliated cuboidal to columnar epithelium and inflammatory cell infiltration beneath the epithelium. We discuss the mechanism, MR appearance, and treatment of abscess formation in a Rathke's cleft cyst.

(Received August 2, 1996; accepted September 13, 1996)

Key words: pituitary abscess, Rathke's cleft cyst, Garré's myelitis, transsphenoidal approach
Jpn J Neurosurg (Tokyo) 6: 345-349, 1997

はじめに

下垂体機能低下症状を呈し、CT上トルコ鞍内に low density mass を形成するものとしては、嚢胞性腺腫のほかには頭蓋咽頭腫、嚢胞性奇形腫、ラトケ嚢胞、嚢虫症嚢胞、くも膜嚢胞、表皮嚢胞、上衣嚢胞、トルコ鞍空洞症、トルコ鞍内嚢胞、粘液嚢胞などがある。

今回われわれはラトケ嚢胞に合併した下垂体膿瘍の1例を経験したので、下垂体膿瘍の発生機序および画像所見を中心に文献的考察を加えて報告する。

症例

患者: 14歳, 女性

主訴: 視野障害

既往歴: 10歳時に左下顎骨 Garré 氏骨髓炎。

家族歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 1995年1月, 起床時に嘔気を伴う頭痛が出現した。3月初旬に左眼の耳側視野欠損に気付き、CTにてトルコ鞍部の嚢胞性病変を指摘され、4月3日に当科へ紹介入院した。

入院時現症: 身長143cmと低身長(−2SD以下)であり、恥毛や乳房に乏しく(Tanner 2度)、骨年齢は13歳であった。視野検査では左耳側半盲、右上外側1/4盲を

横浜市立大学医学部脳神経外科〔連絡先: 小野敦史, 〒258 神奈川県足柄上郡松田町松田惣領 866-1 神奈川県立足柄上病院脳神経外科〕

Address reprint requests to: Atsushi Ono, M.D., Department of Neurosurgery, Kanagawa Prefectural Ashigarakami Hospital, 866-1 Matsudasoryo, Matsuda-machi, Ashigarakami-gun, Kanagawa 258, Japan

Fig. 1 Enhanced CT scan showing a cystic mass with ring enhancement in the pituitary fossa

Fig. 2 Sagittal image of gadolinium-enhanced MR showing an intrasellar cystic lesion with suprasellar extension

Fig. 3 Photomicrograph of the cyst wall

The lining consists of ciliated cuboidal to columnar epithelium (H & E stain, $\times 100$).

呈したが、髄膜刺激症状などは認めなかった。

一般検査所見：末梢血では白血球数 $6,400/\text{mm}^3$, CRP 4.3mg/dl と軽度炎症反応を認めた。TSH $0.1\mu\text{U/ml}$ (正常値 $0.5\sim 4.4$), ACTH 10pg/ml ($30\sim 60$), cortisol $1.5\mu\text{g/ml}$ ($10\sim 25$) と低値を示したほか、各種ホルモン負荷試験では、GH, TSH, FSH, LH, cortisol, PRL, ACTH のいずれも低反応で、汎下垂体機能低下の所見を呈した。

神経放射線学的所見：頭部単純写真ではトルコ鞍の前後径 14.7mm , 深さ 9.4mm と拡大はなく、骨破壊、異常石灰化像も認めなかった。単純 CT ではトルコ鞍から鞍上部に進展する嚢胞性の低吸収域があり、周囲はリング状に造影されたが、石灰化像はみられなかった (Fig. 1)。MRI 上病変は T1 強調画像 (T1WI) にて等信号域、T2 強調画像 (T2WI) では高信号域として描出され、リ

ング状造影効果を認めた (Fig. 2)。

入院後経過：頭蓋咽頭腫あるいは嚢胞性腺腫を疑い、5月11日に経蝶形骨洞手術を施行した。

手術所見：蝶形骨洞には異常はなく、やや菲薄化したトルコ鞍底部を開放し硬膜を切開すると赤色の正常下垂体が現れ、さらにこれを切開すると黄白色の液体が流出したが、トルコ鞍内には腫瘍を思わせる部分はなかった。また、採取した液体の塗抹標本では菌は認められず、培養結果も陰性であった。

組織所見：膿瘍壁の表面は、線毛細胞や杯細胞を有する立方および円柱上皮でおおわれていた。内容物は好中球やマクロファージが散在する壊死組織であり、上皮下にはリンパ球を主体とした炎症細胞の浸潤像もみられた (Fig. 3)。以上の所見からラトケ嚢胞に併発した下垂体膿瘍と診断した。

術後経過：視野障害は改善傾向を示した。術後に出現した尿崩症は、desmopressin 点鼻にて良好にコントロールされた。6月1日に退院し、現在は汎下垂体機能低下症に対するホルモン補充療法を施行中である。術後1年を経過したが再発の徴候はない。

考 察

顕微鏡下経蝶形骨洞下垂体手術が導入されるようになった1970年以降、下垂体膿瘍の報告は散見されるが¹⁾²⁾⁴⁾⁵⁾⁹⁾¹⁸⁾²¹⁾²³⁾、ラトケ嚢胞に併発する下垂体膿瘍は稀な病態であり、Table 1 に示すように、本症例を含め現在まで13例の報告があるにすぎない^{3)6)8)12)~14)16)17)}。臨床症状としては、頭痛、発熱以外に尿崩症にて発症する

Table 1 Summary of 13 cases with pituitary abscess in a Rathke's cleft cyst

Authors	Year	Age	Sex	Sella	Clinical symptoms and signs	Culture of pus	Remarks
Obenchain and Becker ¹³⁾	1972	50	F	normal	headache, panhypopituitarism	<i>Staphylococcus epidermidis</i>	methotrexate, T/F, T/S
Perun, et al ¹⁶⁾	1981	42	F	—	recurrent meningitis	—	T/F
Steinberg, et al ¹⁹⁾	1982	47	M	enlarged	panhypopituitarism, meningitis	—	autopsy
Steinberg, et al ¹⁹⁾	1982	41	M	erosion	headache	—	T/F
Nakajima, et al ¹²⁾	1983	60	M	normal	DI, headache, pyrexia	—	paranasal sinusitis, T/S
Ohta, et al ¹⁴⁾	1985	60	F	normal	DI, panhypopituitarism	sterile	T/F
Sugai, et al ²⁰⁾	1987	74	M	—	DI, hypopituitarism	—	sphenoidal sinusitis, autopsy
Harada, et al ⁶⁾	1989	66	F	normal	DI, pyrexia, visual disturbance, panhypopituitarism	sterile	T/F
Bognâr, et al ³⁾	1992	33	F	enlarged	DI, homonymous hemianopsia	<i>Staphylococcus aureus</i> <i>Streptococcus pyogenes</i>	T/S
Bognâr, et al ³⁾	1992	53	F	—	DI	—	T/S
Kimura, et al ⁸⁾	1994	66	F	—	Streptococcal meningitis	sterile	T/S
Sato, et al ¹⁷⁾	1995	67	M	normal	DI, panhypopituitarism, aseptic meningitis	sterile	DM, sphenoidal sinusitis, T/S
Present case	1997	14	F	normal	panhypopituitarism, visual field defect	sterile	Garré's myelitis, T/S

DI : diabetes insipidus

T/F : transfrontal approach

T/S : transsphenoidal approach

DM : diabetes mellitus

例が多く、そのほとんどに下垂体機能低下症を伴う。

ラトケ嚢胞はトルコ鞍内から鞍上部、稀に蝶形骨洞内にかけて発育する非腫瘍性病変であり、女性に多くみられ（女：男＝2：1）、発症年齢は4～73歳（平均38歳）である¹⁰⁾¹¹⁾²²⁾²⁴⁾。また、最大径7mm以下のasymptomaticラトケ嚢胞は剖検下垂体の13～33%¹⁹⁾あるいは2～26%²⁴⁾にみられる。症候性ラトケ嚢胞は最大径3～40mm（平均16mm）であり、被膜の色調は青色、灰色、白色、黄色、ピンク色、赤色、黄褐色、緑色などを呈する²⁴⁾。内容液はゼラチン状、水様あるいは漿液性であり、黄色調のことが多いが、白色、透明、motor oil様、灰色、緑色のこともある²⁴⁾。嚢胞を裏打ちする上皮は92%の症例で立方上皮または円柱立方上皮であり、58%の症例に線毛が、27%の症例に杯細胞がみられる⁵⁾。

ラトケ嚢胞における膿瘍形成の機序としては、これまでの報告ではその感染源、経路ともに不明なものが多く⁶⁾¹⁴⁾¹⁶⁾¹⁹⁾²⁰⁾、起因菌が証明された報告も12例中2例と少ない³⁾¹³⁾。本症例でも起因菌は証明されなかった。

一般に下垂体膿瘍の病因としては、①下垂体腺腫などの腫瘍組織内に膿瘍が形成される場合、②副鼻腔炎など頭蓋底近傍の感染巣から正常下垂体へ炎症が直接波及する場合、③敗血症による菌塞栓が下垂体血管や海綿静脈洞へと転移する場合、④下垂体腺腫の梗塞に引き続く無菌性の壊死などが考えられている¹⁾²⁾⁴⁾⁸⁾¹⁸⁾²¹⁾。本症例は術中所見から蝶形骨洞および鞍底部に異常なく、副鼻腔炎を含む周囲感染巣からの直接波及は否定的であった。

また、全身検索においても異常所見はみられず、膿瘍形成の感染経路は不明であった。一方、Garré氏骨髄炎は25歳以下の女性の下顎骨に好発し、無痛性腫脹と膨隆を特徴とする疾患であり、成因は緩徐な刺激または慢性的な弱毒菌の潜在性感染であるとされている⁷⁾¹⁵⁾。細菌学的に起因菌が証明された例は少ないが、*Str. viridans*, *Veillonella*, *Actinomyces*, *Bacteroides* などが報告されている。本症例は既往歴からGarré氏骨髄炎が嚢胞内膿瘍形成過程に関与していた可能性は否定できない。

下垂体膿瘍は通常のCT上ではトルコ鞍部の嚢胞性低吸収域として認められ、造影CTではリング状に造影される¹⁾⁴⁾⁵⁾²¹⁾²³⁾。下垂体柄が特に強く造影されたとの報告もあるが¹²⁾、下垂体柄、正常下垂体とも描出されない症例もある⁵⁾²³⁾。MRIではT1WIにて低信号域、T2WIにて高信号域として描出され、造影剤による嚢胞壁の造影効果および蝶形骨洞や鞍底の破壊像に対し、相対的に小さな下垂体病変とのdisproportionが特徴的所見であるとされている⁴⁾。

一方、症候性ラトケ嚢胞はCT上で髄液様の低吸収域あるいは高吸収域とのモザイクを示し、造影効果を認めないことが多い。田邊ら²²⁾によればラトケ嚢胞のMR所見は嚢胞内容により4型に分類される。1型(T1WIが低信号、T2WIが高信号)の内容液は髄液状、proteinaceous fluid、ヨーグルト状で、2型(T1およびT2WIが等～高信号)はcreamy mucoid material、壊死様内容液、mucopolysaccharideを含み、3型(T1WIが等～高信号、

T2WI が低信号)は waxy nodule, 慢性出血(geratinous material)を含み, 4 型 (T1 および T2WI が低信号)の内容物は acellular mucoid material, 膿汁様で粘稠とされている。本症例は 1 型にあたるとされる。症候性ラトケ嚢胞の報告例には, CT および MRI 上造影剤によりリング状増強を呈するものが散見され, 嚢胞壁の造影効果の有無のみではラトケ嚢胞と下垂体膿瘍を鑑別することはできない。これらの中には嚢胞内感染を合併して膿瘍化した例や, 嚢腫壁に重層扁平上皮を含み組織学的に頭蓋咽頭腫との類似性を認めた例もあることから, 腫瘍性の性格をもつものも含まれているのではないかとと思われる。下垂体膿瘍は鞍内腫瘍との鑑別が特に困難であり, CT および MRI を用いて画像評価が行われた 26 例中, 術前診断がなされた症例はわずか 6 例にすぎないが, dynamic CT を用いれば下垂体膿瘍と下垂体腺腫の鑑別は容易であるとの報告もある⁷⁾。

下垂体膿瘍に対しては一般的に, 経蝶形骨洞膿瘍開放術が推奨されている。今回は本法のみで良好な結果が得られたが, 膿瘍開放術のみで排膿が不十分の場合は上顎洞開放術を加え, 排膿と洗浄を繰り返すことで良好な結果が得られるとの報告もある⁸⁾¹⁸⁾。

まとめ

1) ラトケ嚢胞に合併した下垂体膿瘍は, 本症例を含め現在まで 13 例の報告しかない稀な疾患である。

2) 本症例は頭痛, 視野障害にて発症し, 経蝶形骨洞手術にて膿瘍を開放し良好な結果を得た。

文 献

- 1) Benzel EC, Shockley W, Giyanani VL, Husbands HS: Primary pituitary abscess. *Surg Neurol* 25: 571-574, 1986.
- 2) Bjerre P, Riishede J, Lindholm J: Pituitary abscess. *Acta Neurochir (Wien)* 68: 187-193, 1983.
- 3) Bognár L, Szeifert GT, Fedorcsák I, Pásztor E: Abscess formation in Rathke's cleft cyst. *Acta Neurochir (Wien)* 117: 70-72, 1992.
- 4) Bossard D, Himed A, Badet C, Lapras V: MRI and CT in a case of pituitary abscess. *J Neuroradiol* 19: 139-144, 1992.
- 5) Fong TC, Johns RD, Long M, Myles ST: CT of pituitary abscess. *AJR* 144: 1141-1142, 1985.

- 6) 原田芳枝, 片山秀喜, 松田順子, 上原久生, 脇坂信一郎, 浅井順子, 大郷勝三, 木下和夫, 松倉 茂: 膿性内容物を伴った Rathke's cleft cyst による中枢性尿崩症および汎下垂体機能低下症の 1 例. *宮崎医会誌* 13: 303-308, 1989.
- 7) 河島正宜, 手島貞一: 慢性下顎骨髄炎の臨床的観察—第 2 編: いわゆる下顎の Garré 氏骨髄炎について. *日口外誌* 24: 316-324, 1978.
- 8) 木村豪雄, 福島武雄, 松田年浩, 朝長正道: 膿瘍を合併したラトケ嚢胞. *脳神経* 46: 392-395, 1994.
- 9) Lindholm J, Rasmussen P, Korsgaard O: Intracellar or pituitary abscess. *J Neurosurg* 38: 616-619, 1973.
- 10) Martines LJ, Osterholm JL, Berry RG, Lee KF, Schatz NJ: Trans-sphenoidal removal of a Rathke's cleft cyst. *Neurosurgery* 4: 63-65, 1979.
- 11) Nagasaka S, Kuromatsu C, Wakisaka S, Kitamura K, Matsushima T: Rathke's cleft cyst. *Surg Neurol* 15: 402-405, 1981.
- 12) 中島利彦, 村川孝次, 岩井知彦, 平田俊文, 坂井 昇, 山田 弘, 下川邦泰: Rathke's cleft cyst に合併した下垂体窩膿瘍の一例. *CT 研究* 5: 477-480, 1983.
- 13) Obenchain TG, Becker DP: Abscess formation in a Rathke's cleft cyst. *J Neurosurg* 36: 359-362, 1972.
- 14) 太田仁八, 難波 晃, 尾形誠宏: Rathke's cleft cyst 内感染によると思われる汎下垂体機能低下症の 1 例. *内科* 55: 386-388, 1985.
- 15) 沖津光久, 平沼康彦, 小沼孝行, 龍田恒康, 永峰浩一郎, 坂本栄一, 山本美朗, 内海順夫, 町野 守, 増田 屯: Garré 骨髄炎と思われる 1 例—その診断に苦慮した症例の検討. *日口診誌* 3: 104-113, 1990.
- 16) Perun GJ, Eiras J, Carcavilla LI: Abscess intrasellaire au sein d'un kyste de la poche de Rathke. *Neurochirurgie* 27: 201-205, 1981.
- 17) 佐藤雅春, 松島 豊, 田口潤智, 松本重人, 巽 千賀夫, 尾崎正義, 花田正人, 早川 徹: ラトケ嚢胞の感染による下垂体膿瘍. *脳外* 23: 991-995, 1995.
- 18) Selosse P, Mahler C, Klaes RL: Pituitary abscess: Case report. *J Neurosurg* 53: 851-852, 1980.
- 19) Steinberg GK, Koenig GH, Golden JB: Symptomatic Rathke's cleft cysts: Report of two cases. *J Neurosurg* 56: 290-295, 1982.
- 20) 菅井 有, 笹生俊一, 高山和夫, 大島俊克, 川田幸夫, 小暮哲夫: Rathke 嚢胞に生じた下垂体膿瘍の 1 例. *日病理会誌* 76: 322, 1987.
- 21) 杉本信吾, 近藤博昭, 山田 弘: 原発性下垂体腫瘍の 1 例. *脳外* 24: 343-346, 1996.
- 22) 田邊純嘉, 上出廷治, 端 和夫: ラトケ嚢胞の MRI 所見—嚢胞内容物と MR 信号強度との関連について. *CT 研究* 17: 27-32, 1995.
- 23) 上出廷治, 大坊雅彦, 大滝雅文, 森本繁文, 田辺純嘉, 端 和夫: 下垂体膿瘍の 2 治験例. *脳外* 14: 1383-1386, 1986.
- 24) Voelker JL, Campbell RL, Muller J: Clinical, radiographic, and pathological features of symptomatic Rathke's cleft cysts. *J Neurosurg* 74: 535-544, 1991.

要 旨

ラトケ嚢胞に合併した下垂体膿瘍の1例

小野 敦史 所 和彦 鈴木 範行

倉島 志八 山本 勇夫

ラトケ嚢胞に合併した下垂体膿瘍の1症例を報告した。症例は14歳の女性、頭痛と両耳側半盲を主訴に来院し、内分泌学的検査では汎下垂体機能低下の所見を呈した。頭部単純撮影ではトルコ鞍は正常であり、頭部CTおよびMRIにてトルコ鞍内から鞍上部にかけてリング状増強効果を伴う嚢胞性病変を認めた。経蝶形骨洞手術により、膿瘍の開放を行った。術後視野障害は改善し、汎下垂体機能低下症には現在ホルモン補充療法を行っている。組織学的に膿瘍壁は線毛細胞や杯細胞を有する立方上皮、円柱上皮からなり、内容物は好中球やマクロファージが散在する壊死組織であった。ラトケ嚢胞に合併した下垂体腫瘍は、本症例を含め現在まで13例の報告しかない稀な疾患であるので、下垂体膿瘍の発生機序および画像所見を中心に文献的考察を加えて報告した。

脳外誌 6: 345-349, 1997