成人の特発性髄液耳漏例

千葉 敏彦・豊嶋 勝・桜井 時雄・望月 衛*

Adult-Onset Spontaneous CSF Otorrhea ; A Case Report

Toshihiko Chiba, Masaru Toshima, Tokio Sakurai and Mamoru Mochizuki

(Iwaki Kyouritu Hospital)

A 67-year-old man was hospitalized for septic meningitis following acute otitis media in the right ear. Four months after onset of meningitis he consulted our clinic complaining of fluid in the middle ear. Computed tomographic scan showed a large bony defect in the posterior fossa plate of the right temporal bone. Magnetic resonance imaging demonstrated that there was continuity of cerebrospinal fluid (CSF) through the area of bone erosion into the mastoid air cells. An intact canal wall mastoidectomy was performed to repair the bony and dural defect with obliteration of adipose tissue into the mastoid cavity. CSF otorrhea has not recurred for 1 year after surgery.

This is the fourth case of adult-onset spontaneous CSF otorrhea in Japan.

The causes of CSF otorrhea related to dural defect and bone erosion are discussed.

Key words : spontaneous CSF otorrhea, bone erosion, dural defect

はじめに

髄液耳漏は頭部外傷、腫瘍、感染症、手術による副損傷などで起こるが、稀に特発性に起こり得る。特発性髄液耳漏のほとんどは幼少児期に発症し、内耳奇形が原因となることが多いが、持続性の滲出性中耳炎や急性中耳炎後の髄膜炎の形で発症する内耳正常の成人の特発性髄液耳漏は極めて稀で、本邦での報告は3例に過ぎない。今回我々は急性中耳炎罹患後に細菌性髄膜炎を併発し、その4ヵ月後に漿液性耳漏を主訴として来院した成人の特発性髄液耳漏の1例を経験したので報告する。

症 例

症例：67歳、男性。

主訴：右耳閉感、右聴力低下。

既往歴：頭部外傷の既往なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：平成5年4月9日、右耳痛が出現したため近

医の耳鼻科を受診し、急性中耳炎の診断を受けた。4月11日より激しい頭痛と39~40°Cの発熱が出現し、化膿性髄膜炎の診断にて某院内科で50日間の入院加療を受けた。退院後も右耳閉感、右聴力低下が改善せず、右側臥位で水が流れる感じがするため、8月18日当科を受診した。

現症・検査所見：初診時鼓膜所見では右鼓膜緊張部に針穴程度の小穿孔と、少量の漿液性耳漏を認めた。聴力検査では両側の高音漸傾型の感音難聴を認めたが、気骨導差は認めなかった(図1)。瘻孔症状はなく、平衡機能検査は正常であった。中耳CTでは、後半規管後方に骨欠損を認め、同部から乳突洞口にかけて軟部陰影を認めるが、鼓室内の含気は良好で、内耳・内耳道には異常を認めなかった(図2)。MRIでは、後頭蓋窩から乳突洞にかけてT1強調像(図3)で低~中信号、T2強調像(図4)で高信号に描出される陰影を認めた。以上より耳性髄液漏を疑い、平成5年10月26日手術を施行した。

図1 初診時オーディオグラム

図2 水平断X線CT像

後半規管の後方の後頭蓋窩に骨欠損を認める(矢印)。同部位から乳突洞口にかけて軟部陰影を認めるが、上鼓室および乳突蜂巣の含気は良好である。

手術所見：耳後切開で入り、乳突削開術を施行後、S状静脈洞上に Bill's island を作製した。ここより前方に徐々に削開を進めると後半規管後方に肉芽が透見され、この肉芽を剝離除去すると硬膜欠損を認め、同部より髄液の流出を確認した。乳突洞口を耳珠軟骨、軟骨膜で閉鎖、硬膜欠損部は側頭筋膜で被覆し、腹部より採取した脂肪組織にて乳突腔を充填し、手術を終了した。硬膜欠損部周囲肉芽組織の病理組織像は陳旧性の炎症性肉芽組

図3 MRI, T1 強調画像

後頭蓋窩に頭蓋内から乳突洞に連なる低～中信号領域を認める(矢印)。I：内耳道、V：前庭。

図4 MRI, T2 強調画像

T1 強調画像で低信号を呈した頭蓋内から乳突洞へ連なる領域は高信号を呈している(矢印)。

織であった(図5)。

術後経過：術後の経過は良好で、平成5年11月18日退院となった。術後4カ月目のMRI, T1 強調像では硬膜欠損部は筋膜により被覆され、充填した脂肪組織(高信号領域)と明確に区別出来る(図6)。術後1年経過した現在も、聴力低下、耳閉感もなく経過良好である。

考 察

耳性髄液漏は中耳や乳突洞の外傷、腫瘍、感染症、手術などによって起こることが多いが、稀に特発性にも起

図5 硬膜欠損部肉芽組織の病理組織像 (H-E 染色, ×40)
線維性結合組織内に壊死性物質と変性骨の断片を認める。

図6 術後4カ月のMRI, T1強調画像
硬膜欠損部は筋膜により被覆され(矢印), 乳突腔を充填した脂肪組織と明瞭に区別出来る。

こり得る。

特発性髄液耳漏は2つに大別される¹⁾²⁾。1つは通常幼少児期に高度な前庭、蝸牛障害や反復性髄膜炎で発症する型で、特発性髄液耳漏の大部分を占め、先天性内耳奇形が原因となり、髄液耳漏の経路は蝸牛水管や内耳道がほとんど³⁾である。もう一方は40～70歳の成人期に、滲出性中耳炎やチューブ挿入後の持続性の水様性耳漏を伴う伝音難聴で発症する極めて稀な型であり、時に髄膜炎を前駆病変とする。成人型の髄液耳漏の経路は中頭蓋窩の鼓室天盖からの経路が多い¹⁾⁴⁾が、稀に後頭蓋窩か

ら Trautmann 三角, あるいはS状静脈洞前後の乳突蜂巢を介しての経路がある³⁾。

本邦における特発性髄液耳漏の報告では、内藤ら⁵⁾が彼らの報告例も含め30例としているが、そのなかでも成人型特発性髄液耳漏は3例⁵⁾⁶⁾(10%)と少ない。我々の経験した特発性髄液耳漏は急性中耳炎罹患後数日で細菌性髄膜炎を発症し、その後に耳閉感と漿液性耳漏を訴え、側頭骨CTで後頭蓋窩に骨欠損を認めたケースであった。

成人型特発性髄液耳漏は、側頭骨の骨欠損に加えて、脳ヘルニア・髄膜瘤・髄膜脳瘤の破裂や、何らかの原因で生じた硬膜欠損のため起こるとされる⁴⁾。硬膜欠損の原因として Furguson らは¹⁾、脳圧亢進、局所の炎症、先天性硬膜菲薄に加齢変化が加わったための3つを挙げている。一方側頭骨の骨欠損の原因としては、先天性⁷⁾のほか、arachnoid granulation (AG) の関与⁴⁾が報告されている。AG (pacchionian body⁸⁾⁹⁾)とは、くも膜組織が硬膜欠損部を介して静脈洞や頭蓋内骨壁へ陥入(ヘルニア)した状態をさすが、Gacek⁴⁾は加齢と断続する髄液圧のため進行性に増大したAGが、近接する乳突蜂巢骨壁を吸収し、その結果髄液漏が生じると推測している。彼は188の側頭骨のうち、16(8.5%)の計24のAG (0.07～80.65 mm³)を見だし、AGの大きさが中等度以上(2.50～80.65 mm³)の例で骨破壊例が多く、滲出性中耳炎や髄膜炎を発症している頻度が高かった。

自験例では10 mm³以上の硬膜欠損を認め、欠損部を中心に肉芽組織がひろがっていたこと、病理組織学的に肉芽組織のなかに変性骨が認められたことから、AGによって後頭蓋窩の骨破壊が生じ、化膿性髄膜炎後に炎症性肉芽組織におきかわったものと推測される。

診断は詳細な現病歴、耳漏の生化学検査、CTやMRIなどの画像診断による。成人で持続性あるいは反復性の滲出性中耳炎の既往、もしくは急性中耳炎後に細菌性髄膜炎に罹患した既往があれば、くも膜下腔と乳突蜂巢の交通を疑うべきである。髄液耳漏の確定診断は耳漏の糖、蛋白の定量検査や、髄腔内にfluorescein sodiumを注入し髄液腔との交通を調べる検査による。画像診断により瘻孔の存在と位置を決定するが、高分解能側頭骨CTが最も有用¹⁰⁾¹¹⁾である。3 mm³以上のAGが骨欠損に関与する⁴⁾ため、1.5 mmスライスの水平断、冠状断CTが必要¹⁰⁾である。後頭蓋窩に存在するAGは通常S状静脈洞の前内側と骨迷路の外側に認められることが多く、なかでも蝸牛水管の部分に多く認められる。

鼓室, 乳突洞の天蓋の骨性連続が途絶え, 乳突蜂巣内に軟部組織陰影を認める場合は中頭蓋窩のAGの存在を強く疑う, メトリザマイドCTは開放された欠損の場合は有用であるが, 乳突洞の粘膜性骨膜下に瘻孔があり, 徐々にCSFが漏出してくるような場合には造影されにくい. MRIは無侵襲で髄液漏の診断に有用ではあるが, 髄液漏は断続的なため瘻孔部位は判りづらく¹⁰⁾, 現時点では高分解能CTが髄液漏の診断の第一選択と考えられる¹⁰⁾¹¹⁾. 画像診断で瘻孔部位の診断がつかない場合は手術前に髄液内にfluoresceinを注入して瘻孔部を確認する方法がとられる.

治療法は手術的に中頭蓋窩または後頭蓋窩の硬膜欠損部を修復するわけであるが, 欠損の数, 大きさ, 位置によって方法が異なる⁴⁾. 鼓室, 乳突洞天蓋部に多発性に1 cm以上の欠損を認める場合は, 中頭蓋窩法による開頭術の適応となる. 天蓋部に単発の1 cm以下の欠損を認める場合は, 外耳道後壁保存乳突洞削開術の適応となり, 硬膜欠損部は筋膜で覆いそれをシリコン板で補強する. 後頭蓋窩に硬膜欠損を認める場合は外耳道後壁保存乳突洞削開術を施行し, sinodural angleから頸静脈球, S状静脈洞, 骨迷路までを十分に明視下におき, 欠損部の処理後に乳突腔は脂肪片で充填すればよい. 術前診断で欠損部位が判明しない場合はまず乳突洞削開術を施行し, それによっても欠損部を同定できない場合は, 中頭蓋窩開頭術を施行する. 自験例は後頭蓋窩に骨欠損を認めたため外耳道後壁保存乳突洞削開術を施行し, 硬膜欠損部を側頭筋膜で被覆し, フィブリン糊で固定した後, 腹部より採取した脂肪組織を充填した. 術後1年経過した今も髄液耳漏の再発を認めず, 経過は良好である.

まとめ

67歳の男性で, 急性中耳炎後に細菌性髄膜炎を併発し, その後漿液性の耳漏を認めた特発性髄液耳漏症例を経験し, 手術的治療にて改善を認めたので報告した.

本論文の要旨は第75回宮城県地方部会で発表した.

参考文献

- 1) Furguson BJ, Wilkins RH, Hudson W, et al : Spontaneous CSF otorrhea from tegman and posterior fossa defect. *Laryngoscope* **96** : 635~644, 1986.
- 2) Wetmore SJ, Herman P and Fisch U : Spontaneous cerebrospinal fluid otorrhea. *Am J Otol* **8** : 96~102, 1987.
- 3) Montgomery WW : Management of dural defect of the temporal bone. *Surgery of the Ear and Temporal Bone* (ed by Nadol JB and Schuknecht HF). pp 345~354, Raven Press, New York, 1993.
- 4) Gacek RR : Arachnoid granulation cerebrospinal fluid otorrhea. *Ann Otol Rhinol Laryngol* **99** : 854~862, 1990.
- 5) 内藤健晴, 岩田重信, 三輪正人, 他 : 内耳正常な特発性髄液耳漏の1例. *日耳鼻* **95** : 1815~1821, 1992.
- 6) 山本悦生, 広野喜信, 井村真理 : 特発性髄液耳漏の2症例. *耳鼻臨床* **82** : 779~784, 1989.
- 7) Ahren C and Thulin CA : Lethal intracranial complications following inflation in the external auditory canal in treatment of serous otitis media and due to defects in the petrous bone. *Acta Otolaryngol (Stockh)* **60** : 407~421, 1965.
- 8) Schuknecht HF and Montandon P : Pathology of the ear in pneumococcal meningitis. *Arch Klin Exp Ohren Nasen Kehlkopfheilkd* **195** : 207~225, 1970.
- 9) Schuknecht HF and Gulya AJ : Pneumatization Anatomy of the Temporal Bone with Surgical Implications. pp 125~126, Lea & Febiger, Philadelphia, 1986.
- 10) Gacek RR : Evaluation and management of temporal bone arachnoid granulations. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* **118** : 327~332, 1992.
- 11) Nicklaus P, Dutcher PO, Kido DK, et al : New imaging techniques in diagnosis of cerebrospinal fluid fistula. *Laryngoscope* **98** : 1065~1068, 1988.

(原稿受付: 平成6年11月8日
原稿採択: 平成6年12月28日
別刷請求先: 千葉敏彦
〒980 仙台市青葉区星陵町1-1
東北大学医学部耳鼻咽喉科学教室)