3D-CT にてとらえた小児先天性真珠腫例

吉田 友英・山本 昌彦・野村 俊之
井関 琢哉・殿内 一弘

A Case with the Congenital Cholesteatoma
in Children Revealed by 3D-CT

Tomoe Yoshida, Masahiko Yamamoto, Toshiyuki Nomura,
Takuya Iseki and Kazuhiro Tonouchi

(Toho University School of Medicine, Sakura Hospital)

A case of congenital cholesteatoma identified on multi-slice computed tomography and 3D-CT is reported. The patient was 1-year 9-month-old female infant, who did not demonstrate any otological syndrome. When she brought to an ENT physician for nasal obstruction, a white round mass could be seen through the right tympanic membrane and she was referred to our out-patient clinic. There was no history of otitis media.

Computed tomography was performed with an Aquilion by TOSHIBA. Then 3D-CT was reconstructed using the volume rendering method. The linkage of the ossicles was clearly differentiated on the healthy side by 3D. Images of the pathological side confirmed a coin lesion on the ossicular chain of the incus-stapes. Surgery was performed under the general anesthesia. Removed cholesteatomas were about 3 mm in diameter, and appeared similar to a pearl. The stapes had been dislocated by the cholesteatoma mass. In this case, it was possible to recognize the location of the cholesteatoma preoperatively by 3D-CT, it was considered that 3D-CT is a useful technique for determines the cholesteatoma location preoperatively. This is thought to be the first report in which the site of congenital cholesteatoma was confirmed preoperatively using 3D-CT imaging.

Key words : congenital cholesteatoma, children, helical CT, 3D-CT, multi-slice computed tomography

はじめに

小児中耳真珠腫は、比較的進行が早いために早期の手術が必要になる。しかし先天性真珠腫は、症状が出現したときにはかなりの広範囲にわたって進行していることが多く、摘出には難渋する。そのため、早期の発見が重要となる。

このたび、無症候時期に先天性真珠腫をマルチスライスCTによる3次元再構築（以下3D-CTと略す）によって撮影することができたので、発生母地を3D-CTと手術所見を含めて検討し報告する。

症 例

症例：1歳9ヵ月、女児。

経過：平成12年10月、鼻閉、鼻漏にて近医耳鼻咽喉科を受診した。この際、右鼓膜から透見される白色塊を指摘され当科紹介となった。

既往歴：中耳炎の既往はなく、ほかも特記すべきことなし。

家族歴：特記すべきことなし。

鼓膜所見：右鼓膜後上部の裏面に白色塊が透見された（図1）。耳小骨、特にツチ骨の偏位は認めない。

図1 鼓膜所見

右鼓膜後上部裏面に白色塊が透見される。

図2 CT所見

右鼓室腔に塊状の陰影を示した。

CT所見: 鼓膜所見から中耳真珠腫が疑われたため, CTにて確認するとともに3D-CTを試みた。CT装置は, 東芝製 Aquilion を用いた。撮影条件は, 管電圧 120 kV, 電流 150 mA, スライス厚 0.5 mm, 時間 0.75 秒, ヘリカルピッチ 2.5, 寝台移動速度 1 回転あたり 1.25 mm, 補間再構成間隔 (リコンピッチ) 0.1 mm で行った。軸位断の CT 像では, 図 2 に示すように, 右鼓室腔に塊状の陰影を示した。3D-CT をボリュームレンダリング法を用いて再構築した (マルチヘリカル FC81 耳骨用再構成関数

画像処理システム ALATOVIEW を使用)。図 3 右は健側であり, ツチ-キヌタ-アブミ骨の連鎖がきれいに描出されていることがわかる。図 3 左は患側右耳であるが, 耳小骨連鎖のキヌタ-アブミ関節にのるようにみえる真珠腫塊のいびつな円形陰影を確認した。

聴覚所見: ABR 検査では 30 dB で反応がみられ, 左右差なく正常聴力と考えられた。

受診後経過と手術所見: 先天性真珠腫の診断にて手術加療を予定したが, ムンプス潜伏期であることと喘息様

図3 3D-CT 所見

右耳では, キヌタ-アブミ関節にのるようにみえる真珠腫塊のいびつな円形陰影がみられた (矢印)。

図4 摘出した真珠腫

図5 術後3D-CT所見(右耳)

キヌター-アブミ関節にやや変形がみられるが、円形陰影はみられていない。

気管支炎のため、2回手術は延期となった。この間、鼓膜から透見できる白色塊は徐々に増大して、術前には鼓膜に接した所見を呈した。CT撮影から3ヵ月後に全身麻酔下に手術を施行した。耳内法にて外耳道後壁皮膚を切開剥離し、鼓室内に入り鼓膜を前方に翻転したところ、直下に白色の真珠腫塊を認めた。真珠腫を下方に押すと塊ははずれ、これを取り出すとききれいな球形であった。鼓室内を確認すると、キヌター-アブミ関節が圧迫を受けてアブミ骨は鼓室後壁より倒されていたが、キヌター-アブミ関節の離断はみられなかった。鼓室内に真珠腫の残存がないことを確認して鼓膜を元に戻し手術を終了とした。

摘出物所見：図4に摘出した真珠腫を示した。大きさは直径約3mmであった。

術後経過：手術後定期的に経過を観察しているが、鼓膜所見には異常はみられていない。術後遺残について家族に不安があり、確認のため再度CTを撮影した。CT所見を図5に示す。右耳キヌター-アブミ関節には術前にみられた球状の陰影はみられないが、関節部にやや変形がみられていた。

考 察

側頭骨ターゲットCTは中耳疾患の乳突蜂巣の發育状態、特に真珠腫の存在部位、骨破壊の程度、その他耳小骨奇形、離断などの耳小骨連鎖異常、さらには伝音難聴の診断および治療法選択のために必須の検査法である。

1980年代後半にヘリカルスキャンが新しいCT撮影法として開発された。このヘリカルスキャンについては、多くの報告がある^{1)~3)}。さらに、ヘリカルCTの登場により、耳小骨の描出についてMPR法(multiplanar reconstruction)、ボリュームレンダリング法による3次元像作成などの研究が進められている^{4)~10)}。

その後、1998年にはマルチスライスCTが登場し、0.5mm厚で同時に4枚のスライスが撮像でき、より高速により高解像度の画像データを得ることが可能になった。マルチスライスCTの利点、問題点として小川ら¹¹⁾は以下のごとく述べている。利点としては、1)空間分解能が高いために側頭骨領域の微細構造がより詳細に評価できること、2)多断面再構築画像の分解能が向上したこと、3)3D画像では手術時のイメージにより近い画像イメージを得ることができ、より詳細な手術シミュレーションとしての応用が期待できることを挙げている。問題点としては、1)画像データが膨大であるためにデータの保管に容量の大きい記録媒体を必要とすること、2)薄いスライス厚、スライス間隔の画像を作成しフィルムにすると多くの枚数のフィルムが必要になること、3)多断面再構築画像、3D画像作成には技師との密な連携が必要であり、画像作成までに時間を要すること、4)より多くの被爆が懸念されることを挙げている。技術の進歩により解決できる問題もあるが、技師との連携は今後も必要不可欠なことである。しかし、再構築の症例を重ねていくと熟練により画像作成までの時間は非常に短縮される。

3D-CTの再構築の際には、さまざまな角度で回転させ

表 1 先天性真珠腫の存在部位

	PSQ	PIQ	ASQ	AIQ	全体	その他	合計
大谷ら ¹³⁾ (1997)	4	0	8	1	0	0	13
小林ら ¹⁴⁾ (1998)	11	0	4	0	0	0	15
相原ら ¹⁵⁾ (2000)		8		2	6	0	16
小島ら ¹⁶⁾ (2000)	19	0	3	0	6	20	48

P: posterior, A: anterior, S: superior, I: inferior, Q: quadrant

ながらすべての方向からの耳小骨連鎖を確認することができる。このため今回、鼓膜所見より先天性真珠腫を疑った本症例にマルチスライスCTの撮影を行うこととした。呈示した3D-CT画像はそのように再構築して作り上げたうちの1枚であるが、これまでの側頭骨CTでの情報よりさらに詳しく真珠腫の存在部位を確認することができ、耳小骨連鎖のキヌタ-アブミ関節にのるように真珠腫塊の立体円形陰影を確認できた。摘出された真珠腫は、図4のように球形であるが、3D-CT画像では球形を示さずいびつな形を示している。これは、真珠腫塊内部構造の密度分布によるものと思われ、球周辺の密度が低い部分が画像として描出されないことによると考えた。真珠腫は軟部組織に密度が似ており、CT値の設定が画像を作る大きな鍵となる。また、このCT画像は、中耳腔のやや後下方から上方へ見上げている方向からの撮影で、この角度からが最も各耳小骨連鎖がわかりやすい撮影位置と考えている。今回の3D-CT画像に示される小真珠腫塊をとらえたマルチスライスCT所見は、私たちが検索した限りではみられていない。

さらに、マルチスライスによる3D-CTを撮影することにより先天性真珠腫の存在部位を術前に明らかにすることができた。先天性真珠腫の発生部位については、これまでたくさんの推察がなされている。先天性真珠腫の存在部位については、米国・カナダはASQ（鼓膜前上部）に多く、台湾・イタリア・日本はPSQ（鼓膜後上部）に多いといわれている¹²⁾。日本でも存在部位については表1に示すごとく種々の報告がある。大谷ら¹³⁾は、先天性真珠腫13耳中、PSQ4耳、ASQ8耳、AIQ1耳と報告している。小林ら¹⁴⁾は、小真珠腫15耳中、PSQが11耳、ASQが4耳、相原ら¹⁵⁾は鼓室型の真珠腫16例中、前方2例、後方8例、鼓室全体6例としている。小島ら¹⁶⁾は、先天性真珠腫48耳中、PSQ19耳、ASQ3耳、鼓膜全体の膨隆6耳、正常鼓膜8耳とあわせてその他20耳と報告している。

耳小骨の発生については、現在のところ Anson ら¹⁷⁾、Hanson ら¹⁸⁾の説が一般的である。それによると、耳小骨は、ツチ骨頭とキヌタ骨体部は第1鰓弓から、ツチ骨柄とキヌタ骨長脚は第2鰓弓より形成され、それとは別に第2鰓弓から形成されるアブミ骨上部構造に近づいていくといわれている。

真珠腫の発生機序についても、外耳道・中耳の発生過程での第1鰓弓・第2鰓弓の接合部の間葉組織に上皮細胞が迷入するという Aimi¹⁹⁾の説と第1鰓弓由来のキヌタ骨と第2鰓弓由来のアブミ骨の接合部付近に外胚葉由来の細胞が遺残しこれが徐々に発育して真珠腫になると考えた Paparella ら²⁰⁾の説がある。このため、発生部位は、その発生機序と考えあわせて鼓室峡部、特にキヌタ-アブミ関節部に高頻度でみられている。同様に耳小骨病変もキヌタ-アブミ関節部を中心とするものの報告が多くみられる。しかし、発生部位を特定できた報告は多くない。発生部位を特定することができるのは、真珠腫がごく初期の段階で発見され、球形のパール状や嚢胞状を呈し、有形性がごく限られた部位から発生している場合である。本症例では、術前より3D-CTによりキヌタ-アブミ関節接合部に発生部位を特定することができ、さらに手術により確認することができた。

結 論

無症候時の先天性真珠腫をマルチスライスCTで撮影し、3D-CTを再構築した。CT装置の進歩とコンピュータの高速化によって、高分解と画像構築が非常に鮮明な立体画像としてみることが容易になった。真珠腫は、鼓膜より白色塊として透見された。3D-CTでは、キヌタ-アブミ関節の上に存在していた。術前より画像にて本症例の真珠腫の発生部位は、キヌタ-アブミ関節接合部付近と特定することができた。今回の3D-CTによる先天性真珠腫の発生部位を確認した報告は初めてと思われる。

稿を終えるにあたり、本症例をご紹介いただいた千葉県 鏡由里子先生、CT 撮影および 3D-CT 再構築にご協力をいただいた東邦大学佐倉病院放射線科野口雅裕助教授、柳平博文助手、村上省吾助手、中央放射線部小林康雄技師、並木博和技師をはじめとする技師の方々ならびにご高聞いただいた東邦大学第一耳鼻咽喉科小田 恂教授に深謝いたします。

本論文の要旨は第 63 回耳鼻咽喉科臨床学会(平成 13 年 6 月、沖縄)にて口演した。

参考文献

- Hermans R, Marchal G, Feenstra L, et al. : Spiral CT of the temporal bone; value of image reconstruction at submillimetric table increments. *Neuroradiology* 37 : 150 ~ 154, 1995.
- Himi T, Kataura A, Sakata M, et al. : Three-dimensional imaging of the temporal bone using helical CT in cochlear implant patients. *Adv Otorhinolaryngol* 52 : 96 ~ 99, 1997.
- Caldemeyer KS, Sandrasegaran K, Shinaver CN, et al. : Temporal bone; comparison of isotropic helical CT and conventional direct axial and coronal CT. *AJR Am J Roentgenol* 172 : 1675 ~ 1682, 1999.
- 利府俊裕 : シンポジウム「進化する高速螺旋 CT」2. 機器発表「マルチスライス CT の現状」*Aquilion. Innervision* 14 : 40 ~ 42, 1999.
- 井田義宏 : シンポジウム「進化する高速螺旋 CT」3. 臨床経験「マルチスライス CT の臨床経験」*Aquilion. Innervision* 14 : 48 ~ 52, 1999.
- 近藤聡英, 熊本正博, 直居 豊, 他 : 中耳疾患の 3D-CT—正常解剖と真珠腫性中耳炎の診断への応用—. *コニカ X-レイ写真研究* 241 : 156 ~ 162, 1997.
- 龔 洪翰, 平石久美子, 上杉康夫, 他 : ヘリカル CT による耳小骨の 3 次元立体表示法—耳小骨疾患に対する有用性—. *日本医放会誌* 56 : 320 ~ 322, 1996.
- 米川博之, 宮下宗治, 滝沢昌彦, 他 : 三次元画像の応用内耳・側頭骨. *臨放* 41 : 1250 ~ 1258, 1996.
- 松枝秀雄, 山下公一 : 耳小骨の 3 次元 CT 画像—高速ラセン CT による撮影—. *日耳鼻* 98 : 245 ~ 253, 1995.
- 上杉康夫, 榎林 勇, 辰巳智章, 他 : 側頭骨のヘリカル CT. *画像診断* 16 : 1330 ~ 1333, 1996.
- 小川 洋, 大谷 巖, 大石剛資, 他 : 側頭骨領域におけるマルチスライス CT の有用性について. *Otol Jpn* 11 : 121 ~ 126, 2001.
- 末武光子, 小林俊光, 佐々木直子, 他 : 先天性真珠腫の局在部位, 形状と耳小骨の関係—自験 40 耳と文献的考察—. *日耳鼻* 99 : 1200 ~ 1207, 1996.
- 大谷 巖, 小川 洋, 唯木 享, 他 : 鼓室型先天性真珠腫における closed 型と open 型の臨床的特徴. *耳展* 40 : 146 ~ 155, 1997.
- 小林俊光, 末武光子, 佐々木直子 : 先天性真珠腫をめぐる諸問題 1. 成因と発生部位について. *耳鼻臨床* 91 : 541 ~ 543, 1998.
- 相原康孝, 横島一彦, 馬場俊吉, 他 : 先天性真珠腫症例の検討. *Otol Jpn* 10 : 181 ~ 185, 2000.
- 小島博巳, 宮崎日出海, 志和成紀, 他 : 当科における先天性真珠腫 48 例の臨床的検討. *Otol Jpn* 10 : 243, 2000.
- Anson BJ, Hanson JR and Richany SF : Early embryology of the auditory ossicles and associated structure in relation to certain anomalies observed clinically. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 69 : 427 ~ 447, 1960.
- Hanson JR, Anson BJ and Strickland EM : Branchial sources of the auditory ossicles in man. Part II: Observation of embryonic stages from 7 mm to 28 mm. *Arch Otolaryngol* 76 : 200 ~ 215, 1962.
- Aimi K : Role of the tympanic ring in the pathogenesis of congenital cholesteatoma. *Laryngoscope* 93 : 1140 ~ 1146, 1983.
- Paparella MM and Rybak L : Congenital cholesteatoma. *Otolaryngol Clin North Am* 11 : 113 ~ 120, 1978.

原稿受付 : 平成14年 1 月15日

原稿採択 : 平成14年 2 月27日

別刷請求先 : 吉田友英

〒285-8741 佐倉市下志津564-1

東邦大学医学部付属佐倉病院耳鼻咽喉科