乳 突 部 囊 胞 の 1 例

安藤 正裕・石田 達也・大山 晴三

A Case of Mastoid Cyst

Masahiro Ando, Tatsuya Ishida and Seizo Ooyama

(Takamatsu Red Cross Hospital)

The case of a 7 year-old boy with a mastoid cyst which manifested an occipital headache is presented. The cyst had extended from the mastoid cavity to the posterior cranial fossa and was compressing the right cerebellar hemisphere. A plain CT scan showed a smoothly margined mass in the temporal bone. We could not determine the details of the mass because it was isodense with the brain parenchyma, but on MR imaging the mass could be clearly differentiated from the cerebellum because of a signal difference. MR imaging showed the characteristic findings of a cholesterol cyst on T_1 and T_2 -weighted images. The hyperintense appearance of this cholesterol granuloma on T_1 and T_2 -weighted images was very useful in differentiating it from other lesions.

Key words : mastoid cyst, cholesterol granuloma, MRI

はじめに

乳突部嚢胞は多くはコレステリン結晶を含む暗褐色液を内容物とする嚢胞であるが、本邦での報告例も少なく発生機序など不明な点が多い。また初発症状としては難聴、耳漏、耳介周囲の腫脹などが多く認められている。今回、繰り返す後頭部痛を主訴に小児科を受診し、乳突部嚢胞との診断に至った一症例を経験したので報告する。

症 例

患者：7歳，男子。

主訴：右後頭部痛。

既往歴，家族歴：特になし。

現病歴：1997年4月9日，起床時に右後頭部痛を認めた。以後も連日のように頭痛を訴えていたが，鎮痛薬を内服しながら登校していた。4月14日，近医耳鼻咽喉科を受診したところ，右外耳炎と診断された。4月18日，近医脳外科を受診し頭部CTを撮影されたが，異常なしとのことであった。4月22日，当院小児科を受診し，諸検査を施行されEEGにて後頭部に優位に徐波が認めら

れた(図1)ため頭部MRIを施行した。その結果，右乳突腔を占拠する病変が認められたため5月13日，当科に紹介された。なお，神経学的検査では異常は認められなかった。

初診時所見：外耳道には腫脹等認められず。両側鼓膜には混濁所見あり。純音聴力検査では著変みられなかったが，ティンパノグラムでは右側：C型，左側：B型の所見が得られた。またシュレー法にて右乳突腔に骨陵を伴う骨欠損像が認められた(図2)。鼻腔においては甲介粘膜が蒼白カタル状を呈していたものの咽喉頭には特記すべき所見はみられなかった。

MRI所見：乳突腔に存在し小脳を圧排する病変が描出されており， T_1 強調像で内部不均一な高信号， T_2 強調像では等信号と高信号を呈していた。同病変は前額断で一部に屈曲部を有しており，二房性を思わせる状態となっていた(図3)。

乳突腔占拠性病変および錐体部骨構造をさらに詳細に検討するために中耳CTを撮影した。

CT所見：両側とも鼓室腔および乳突蜂巣内に全体的

図1 脳波検査

後頭部(9番, 10番)に優位に徐波を認める。

に軟部組織陰影が認められた。また占拠性病変に一致して側頭骨の菲薄化がみられた(図4)。

入院時経過: 7月28日, 全身麻酔下に乳突腔削開術を施行した。

手術所見: 右耳後部に皮膚切開を入れ, 側頭骨を明視下にしたところ, 骨壁の菲薄化により青色に透見される部位(径約10mmの範囲)が存在した。同部を慎重に削除すると茶褐色泥状の液が流出した。内溶液を吸引除去すると, 大部分は嚢胞性の病変であり一部に充実部を有する状態であると確認された。嚢胞壁を骨壁より剥離していくと, MRIで確認されたとおりの小脳外側の硬膜に達した。またこの部で嚢胞は骨壁により二房状になっていたが骨を削除することにより一塊としたうえで, 小脳硬膜に損傷をあたえることなく剥離除去し得た。嚢胞摘出後, 乳突蜂巣内に残存する肉芽を清掃除去し, できうる範囲で平滑な骨削開面とした(図5)。さらに, 乳突洞口にも病的粘膜が存在していたためこれを除去した。こ

図2 シューラー法

右側頭骨に骨稜を伴う骨吸収像を認める。

の条件下で鼓室内粘膜を確認すると, 健常であり, 疎通性は良好と判断されたためこれ以上の削除は行わなかった。また, 小脳部硬膜については, 側頭筋から筋膜および結合組織を採取し, フィブリン糊で接着被覆した。最後に, 乳突部にドレーンを留置し, 耳後部切開創を縫合し右耳の手術を終了した。なお, 左滲出性中耳炎に対しても鼓膜切開を施行した。その結果, 非常に粘稠な貯留液が吸引除去されたため鼓室内チューブ留置術を施行した。

病理組織所見: 嚢胞壁は扁平な上皮細胞に被われた結合組織であった。乳突蜂巣内の肉芽組織内にも上皮細胞が一部に見られたが, 全体としては典型的なコレステリン肉芽腫の像であった(図6)。

術後経過: 8月4日退院とし以後は外来経過観察とした。術後5カ月目に撮影したCTでは, 嚢胞摘出部位には十分な含気所見が認められており, 良好な状態に保たれているものと判断された。

考 察

嚢胞の成因としては, 慢性炎症, 先天奇形, 外傷などの説があり, 二次的に乳突腔がひとつの閉鎖腔になることが誘因と考えられている。過去の報告によると乳突部嚢胞46例中32例に慢性中耳炎, 乳突腔削開術, 鼓室形成術の既往歴があり²⁾, 自然発生的, 術後発生的に中耳腔の空気疎通がいずれかの部位で遮断され, その末梢に嚢胞が形成されるという考えがなされている。過去の乳突

図3 MRI

(左図) T1 強調像, (右図) T2 強調像, (下図) T2 強調像.

小脳と隔絶された辺縁整な異常高信号を認める.

部嚢胞症例の多くにコレステリン肉芽腫が認められることも中耳腔の換気障害が存在していたことを示唆している。しかし、コレステリン肉芽腫による乳突洞口の閉鎖は比較的良好に経験されるが、嚢胞を伴うことはまれである。立木³⁾はコレステリン肉芽腫、黒色乳突炎は耳管の狭窄や、上鼓室周辺の遮断により生じた陰圧腔の状態であり、乳突嚢胞は黒色乳突炎が陽圧に転じ、しかも外に向かって貯留液を排出できないため嚢胞を形成し成長していくと考えている。自験例でも肉芽組織により乳突洞

口が閉鎖されており、その末梢に嚢胞が認められたこと、さらに、嚢胞は硬膜を挟んで小脳を圧迫しており嚢胞壁が緊張していたことより、内部は圧があがっていたものと推察された。これら乳突腔内の状態は立木らの考えに矛盾しないものであった。また、嚢胞は二房性に膨隆しており間に骨陵が残存していた。従ってひとつの嚢胞が時間をかけて巨大になったとは考えにくく、二カ所あるいはそれ以上の小嚢胞が融合してできたと推測された。また、MRIにて小脳は嚢胞によって圧排されていたに

図4 CT

(左図) 右側頭骨に腫瘤部に一致して骨の菲薄が認められる。(右図) 同レベルの左側頭部。

図5 左側の骨欠損部

20 mm×17 mm の小脳部硬膜, 右側の骨欠損部: 開放された乳突洞口。

図6 肉芽組織には針状のコレステリン間隙がみられる。
(H-E 染色 ×50)

も関わらず, 最近まで自覚症状を認めていなかったのは, 嚢胞の成長が緩慢であったことを示唆している。Waltner ら⁴⁾は乳突腔が最初に含気化される段階で, 一部孤立する蜂巢ができあがり, これが次第に嚢胞を形成していくという先天性説を述べているが, 現時点では一定の見解が得られていないこともあり, 嚢胞形成様式や時期については今後も症例を積み重ねて検討を加える必要があるものと考えられる。

乳突部嚢胞の診断は、単純X線検査にて乳突腔に骨欠損を認め、局所が腫脹している症例において穿刺を行いコレステリン結晶が証明されれば確実である。しかし、乳突部膨隆所見を呈する疾患としては髄膜腫⁵⁾⁶⁾、髄膜脳瘤⁷⁾などの報告もあり、CT scan, MRI などを用いて嚢胞性疾患であることを確認することが望ましいと思われる。ちなみに、Nomura ら⁸⁾は単純X線検査にて骨欠損像を認める場合、鑑別診断として、真珠腫、先天性真珠腫、中耳癌、悪性腫瘍の骨転移、組織球増殖症、骨髓炎、多発性骨髓腫、線維性異形成症、真菌症、結核、血管腫などの疾患をあげている。また最近では嚢胞の存在部位だけでなく、質的診断が画像検査で可能となってきた。コレステリン肉芽腫はMRI 所見上、一般的に辺縁部を除き T_1 、 T_2 強調像で高信号を示すと言われているが、自験例のように一部不均一となることもある。真珠腫では T_1 強調像では低信号から等信号、 T_2 強調像で高信号を示すことが多く、従ってそれぞれを鑑別できる。自験例においても T_1 、 T_2 強調像で高信号を示していたことからコレステリン肉芽腫が疑われ、MRI が診断に有用であったと考えられた。CT と MRI との比較においては、CT では腫瘤の増大に伴う骨破壊や乳突蜂巣の發育、含気を確認するには有用であったが、腫瘤が脳実質とはほぼ等吸収域となってしまう、発生母地や質的診断は困難であった。他方、MRI では骨構造の判読には劣るものの、病変が小脳とは隔絶され、乳突部由来であると容易に判断され、また前述のごとくコレステリン肉芽腫ではないかという質的診断にまでも至ることが可能であった。従って、両者の特徴をいかにせよ、診断と治療の両面に有用な情報が得られるため、可能な範囲で両検査を併施すべきものと考えられた。なお、当院受診前に近医脳外科を受診しCT を撮影したが、異常なしと診断されたのは、頭蓋内CT で側頭骨読影に適切な画像処置を行っていなかったという理由もあると思われるが、嚢胞の画像を血管性のものと誤認した可能性もあると推測された。

嚢胞の初発症状を発生部位別に検討すると、乳突洞中心に占拠する病変では多様な症状を呈し、上鼓室付近の病変では伝音系の障害により難聴、耳鳴などをきたすという報告が多い。錐体部病変では顔面神経麻痺が認められることもあるとされている。しかし、本疾患にみられたように巨大になり頭蓋内に進入していても臨床症状が軽度のこともあり^{9)~11)}、日常臨床においては軽微な症

状のために見逃されている例も実際にはあるのではないかと危惧される。

今回、反復性頭痛を主訴に小児科を受診し、諸検査を施行し乳突部病変の存在が確認された。脳波検査は小児科領域では重要な検査とされており、脳の器質的疾患、また画像検査では診断できないてんかんなどの発作性疾患、精神発達状態、性格異常などの精神科的疾患などの機能的疾患に対して用いられている¹²⁾。当科退院後、小児科で再度施行された脳波検査では、過去の報告例¹³⁾と同様に異常波は認められなくなっており、乳突部嚢胞の存在が脳波異常の原因と推察された。

頭痛は客観的評価が難しく、時には心因性のこともあり、小児科での日常診察においても診断に苦慮するようである。まず小児が頭痛を訴える年齢は5歳頃といわれ、小児における頭痛の頻度は、しばしば経験するものから、まれに経験するものまで含めると58.6%といわれている¹⁴⁾。頭痛の発生機序であるが、血管拡張、炎症、牽引、圧迫、伸展、筋収縮などの刺激が関与しているものと考えられており、感受性のある部位としては頭蓋骨外の組織(皮膚、皮下組織など)、頭蓋内静脈洞およびそれに流入する比較的大きい静脈、硬膜とそこに走る動脈、眼、耳、鼻副鼻腔の軟部組織、三叉神経、舌咽神経、迷走神経などの脳神経、第1~3頸神経などが考えられている。痛み部位をテント上、テント下にわけると、一般に頭蓋内テント上に起因する痛みは、三叉神経第1枝を介して伝達され、頭部前方2/3に放散し、テント下では、上部頸髄神経、舌咽神経、迷走神経を介して後頭部に感じられることが多いと考えられている¹⁴⁾。自験例では頭痛の部位は後頭部であり、頭痛の原因としては嚢胞による小脳外側の硬膜、血管の伸展また、乳突腔内粘膜への刺激が関与しているのではないかと推察された。以上より、耳鼻咽喉科領域で頭痛を訴える疾患としては、急性中耳炎、外耳炎、乳様突起炎、副鼻腔炎などが挙げられ、炎症による急性の頭痛が多いと思われるが、慢性反復性の頭痛を訴える症例のうちにも耳鼻咽喉科疾患が存在することを再度銘記しなおすべきであると考えられた。

まとめ

反復性頭痛を主訴とした小児乳突部嚢胞の1例を報告した。嚢胞の診断にはMRI が有用であった。併せて発生機序、診断につき過去の文献を参考に考察した。

謝 辞

御校閲御指導頂きました徳島大学耳鼻咽喉科学教室小池靖夫先生に深謝致します。

参考文献

- 1) 宗田由美, 相川 通, 岡村洋沖, 他: 乳突部嚢胞の2症例と本邦報告例の統計的観察. 耳鼻臨床 補32: 144~150, 1989.
- 2) 太田 康, 船井洋光, 田島文司: 原発性乳突部嚢胞症例. 耳鼻臨床 84: 459~465, 1991.
- 3) 立木 孝: 乳突嚢胞. JOHNS 5: 692~698, 1989.
- 4) Waltner JG and Karatay S: Case reports, cysts of mastoid bone. Arch Otolaryngol 46: 398~404, 1947.
- 5) 井出 稔, 東野哲也, 柊山幹子, 他: 外耳道に進展した髄膜腫症例. 耳喉 59: 325~329, 1987.
- 6) 村島次郎, 前田強而, 宮崎 充: 乳突蜂巣浸潤を示した髄膜腫症例. 耳喉 51: 143~145, 1979.
- 7) 市村恵一, 野村恭也: 髄液漏を伴った側頭骨内髄膜脳瘤. 耳喉 49: 165~176, 1977.
- 8) Nomura Y, Takemoto K and Komatuzaki A: The mastoid cyst; report of a case. Laryngoscope 81: 438~446, 1971.
- 9) 吉岡 巖, 氷見徹夫, 大黒慎二, 他: 症状発現前に診断された乳突部嚢胞例. 耳鼻臨床 88: 445~448, 1995.
- 10) 大森英生, 池田 稔, 山内由紀, 他: 頭蓋内に進展した巨大乳突洞嚢腫の1例. 耳鼻臨床 補78: 89~93, 1995.
- 11) 上田良穂, 吉浜博太, 村上温子, 他: 耳性頭蓋内コレステリン肉芽腫の1例 —頭蓋内に発育した Mastoid Cyst—. 耳喉 51: 965~970, 1979.
- 12) 本間伊佐子: 脳波検査法. 臨床検査の知識と介助(柴田進, 日野原重明, 小酒井望編). 399~414頁, 医学書院, 東京, 1987.
- 13) 加我君孝, 鈴木淳一: 脳波に異常をもたらした Mastoid cyst —巨大な Mastoid cyst の1治験例—. 耳鼻臨床 68: 959~963, 1975.
- 14) 藤田光江: 頭痛の病態生理. 小児の頭痛. 4~19頁, 医歯薬出版, 東京, 1995.

(別刷請求先: 安藤正裕
〒760-0017 高松市番町4丁目1-3
高松赤十字病院耳鼻咽喉科)