原 著

難治性髄液鼻漏に対する鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術例

南 和彦, 菅澤 正

埼玉医科大学国際医療センター頭頸部腫瘍科・耳鼻咽喉科

鼻副鼻腔と髄液腔の隔壁が何らかの原因で欠損し、脳脊髄液が鼻腔に漏出する状態が髄液鼻漏である。髄液鼻漏は外傷性と非外傷性に大別され、外傷性は頭部外傷や手術に伴う副損傷である。外傷性髄液鼻漏の最も多い原因は交通外傷をはじめとする頭部外傷である。髄液鼻漏は気脳症や髄膜炎などの合併症を生じる危険性があり、また髄液鼻漏が長期に及んだ場合には髄膜脳瘤の原因となる可能性があるため、できるだけ早期の閉鎖が求められる。保存的治療で髄液鼻漏の閉鎖が困難と判断した場合には外科的治療による早期の瘻孔閉鎖術が必要とされる。手術アプローチは開頭によるもの以外にも近年は鼻内内視鏡下に行われるようになってきており、閉鎖成功率の向上が謳われている。鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術は瘻孔部を同定することができれば開頭手術に比べてはるかに低侵襲で、再手術であってもまず検討すべき選択肢ではないかと考えられる。

今回われわれは、過去複数回の開頭髄液鼻漏閉鎖術にて閉鎖しえなかった交通外傷による外傷性髄液鼻漏に対して受傷後15年経過してから鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術を施行して良好な経過が得られた症例を経験したので報告する。

キーワード：髄液鼻漏, 鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術, 開頭手術, 外傷

A Case of Transnasal Endoscopic Repair for Traumatic Cerebrospinal Fluid Rhinorrhea after Multiple Cranial Surgeries

Kazuhiko Minami, Masashi Sugawara

Head and Neck Surgery, Saitama Medical University International Medical Center, Saitama, Japan

Cerebrospinal fluid (CSF) rhinorrhea involves the drainage of CSF into the nasal cavity due to a breach between the intracranial subarachnoid space and the sinonasal mucosa. It is caused by either trauma, high intracranial pressure, tumors, erosive diseases, or congenital skull defects. The majority of the cases derive from accidental head trauma or iatrogenic injury. Although most of the traumatic CSF rhinorrhea ceases after conservative management, persistent CSF rhinorrhea requires surgical intervention because of an elevated risk of either meningitis or an encephalomeningocele.

Transnasal endoscopic repair is increasingly employed to treat patients with persistent CSF rhinorrhea. Although the endoscopic technique requires accurate localization of the breach intraoperatively, endoscopic repair of CSF rhinorrhea is advantageous because it is minimally invasive and provides superior visualization. The fistula site and size, optimal surgical approach, and graft placement should be accurately determined prior to the surgery.

Here, we present a case involving transnasal endoscopic repair to successfully treat a CSF rhinorrhea that

had persisted for 15 years after a road traffic injury that had required multiple craniotomies. We suggest that the transnasal endoscopic procedure is advantageous even after repeated surgeries and that it should be considered as the preferred treatment for CSF rhinorrhea.

Key words: cerebrospinal fluid rhinorrhea, transnasal endoscopic repair, cranial surgery, trauma

(2017年12月4日受稿, 2018年1月19日受理)

はじめに

鼻副鼻腔と髄液腔の隔壁が何らかの原因で欠損し、脳脊髄液が鼻腔に漏出する状態が髄液鼻漏である。髄液鼻漏は気脳症や髄膜炎などの合併症を生じる危険性があり、また髄液鼻漏が長期に及んだ場合には髄膜脳瘤の原因となる可能性があるため、できるだけ早期の閉鎖が求められる。

髄液鼻漏は外傷性と非外傷性に大別され、外傷性は頭部外傷や手術に伴う副損傷、非外傷性は腫瘍の頭蓋底浸潤、先天性、特発性に細分される¹⁾。いずれの場合であっても、保存的治療で髄液鼻漏の閉鎖が困難と判断した場合には外科的治療による早期の瘻孔閉鎖術が必要とされる²⁾。手術アプローチは開頭によるもの以外にも近年は鼻内内視鏡下に行われるようになってきており、閉鎖成功率の向上が謳われている³⁻⁶⁾。今回われわれは、過去複数回の開頭髄液鼻漏閉鎖術にて閉鎖しえなかった外傷性髄液鼻漏に対して鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術を施行して良好な経過が得られた症例を経験したので若干の文献的考察を加えて報告する。

症例提示

患者：47歳 男性

主訴：水様性鼻漏

現病歴：32歳時に交通外傷のために髄液鼻漏を認めるようになり、これまで3回の開頭髄液鼻漏閉鎖術を複数の病院で施行されたが、髄液鼻漏が持続する状態であった。髄膜炎を発症したことは一度もなかったが、低髄圧症のために頭痛と倦怠感が遷延しており、鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術の適応判断のために当科を紹介受診した。

既往歴：気管支喘息 双極性障害

初診時所見：左に軽度偏位した鼻中隔彎曲を認めたが、両側鼻腔構造に明らかな破壊はなく、安静時に髄液鼻漏は認めなかった。息こらえにて左嗅裂部前方から水様性鼻漏を認め、テストテープで糖強陽性であった(図1)。息こらえ前に同部の粘液をテストテープに付着させても糖

図1 術前鼻内所見。両側鼻腔構造に明らかな破壊はなく、安静時に髄液鼻漏は認めなかった。息こらえにて左嗅裂部前方から水様性鼻漏を認め(矢印)、テストテープで糖強陽性であった。NS：nasal septum 鼻中隔。MT：middle turbinate 中鼻甲介。

陰性であった。

画像所見：単純CT検査(骨条件)では、左篩板の後方にわずかな骨欠損または非薄化が疑われる部位を認めるが(図2a 矢印)、その他の部位に明らかな骨欠損は指摘できない。明らかな気脳症は認めない。左前頭洞内には軟部陰影を認め(図2b 矢印)、過去の髄液鼻漏閉鎖術による術後性変化と考えられる。左前頭洞内に嚢胞の形成を認める(図2c, d 矢印)が、頭蓋内との明らかな交通は確認できない。

治療経過：左篩板前方からの髄液鼻漏が疑われ、脳神経外科医待機の下で鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術を行う方針とした。対側嗅糸は外傷時および過去の前頭開頭手術時に切断されており、嗅覚脱失はどうしても避けたいという患者希望が極めて強く(初診時のアリナミンテストは潜時5秒、持続時間65秒であった。)、嗅糸は可能な限り温存する方針とした。

手術所見：全身麻酔下に前頭蓋底部を広範に明視下に置いて手術操作を容易にするために前後篩骨洞を単洞化した上でEMLP(endoscopic modified Lothrop procedure)を施行した。この時、過去の報告にあるように右鼻中隔

図2 左篩板の後方にわずかな骨欠損または菲薄化が疑われる部位を認めるが (a 矢印), その他の部位に明らかな骨欠損は指摘できない。左前頭洞内には軟部陰影を認め (b 矢印), 過去の髄液鼻漏閉鎖術による術後性変化と考えられる。左前頭洞内に軟部組織陰影を認める (c 矢印) が, 頭蓋内との明らかな交通は確認できない。同部は単純MRI (T2強調) で高信号であり (d 矢印), 液体貯留が疑われる。

粘膜を用いて蝶形骨洞自然口部を上端, 後鼻孔上縁を下端とする有茎の鼻中隔粘膜弁を下方は中鼻甲介下端, 前方は皮膚粘膜移行部よりも1cm程度後方までの大きさで作成した⁷⁾。前頭洞後壁から前頭蓋底前方および嗅裂部前方の粘膜を骨から後方に向けて剥離を進めた。適宜バルサルバ法で髄液鼻漏を確認したところ, 術前CTで髄液瘻孔を疑った左篩板のわずかな骨欠損部よりも前方の左第一嗅糸と第二嗅糸の間で髄液鼻漏を認め, 同部が瘻孔部であると判断した (図3a)。左第二嗅糸から後方の嗅糸は温存し, 髄液鼻漏を認めていた周囲の骨を広範に削開して硬膜を露出し, 瘻孔を明視下に置いた (図3b)。瘻孔を確認した上で右大腿部より仰臥位にて大腿筋膜を採取した。瘻孔は2mm程度と小さく, バイポーラで同部を焼灼固定した上で大腿筋膜を硬膜上で篩板との間に後方以外は敷き込んだ (図3c)。後方は術後癒着組織のために敷き込めなかったが, フィブリン糊を用いて大腿筋膜全体を固定し, 右鼻中隔粘膜弁で被覆してフィブリン糊で固定した上で左中鼻甲介基部と鼻中隔粘膜弁を4-0PDS[®]で1針縫合固定した (図3d)。バルサルバ法にて

髄液鼻漏がないことを確認し, 頭蓋底部を下から支えるようにアクアセル Ag[®]で鼻内パッキングを行い, 手術終了とした。手術時間は125分, 出血量は200mlであった。

術後経過: 術前からの方針で脳神経外科医の判断にて術後1週間はスパイナルドレナージを留置し, ベッド上安静とした。術後髄液鼻漏は閉鎖し, 排便時などの髄液鼻漏の自覚は消失した。徐々に活動レベルを上げ, 髄液鼻漏がないことを確認して術後16日目に退院となった。

頭重感と倦怠感に残存するものの軽快し, 術後6ヶ月経過した現在まで髄液鼻漏の再燃なく (図4), 自覚的には嗅覚障害の増悪もなく良好に経過している。

考 察

髄液鼻漏は外傷性と非外傷性に大別され, 外傷性は頭部外傷や手術に伴う副損傷, 非外傷性は腫瘍の頭蓋底浸潤, 先天性, 特発性に細分される¹⁾。外傷性的原因として最も多い原因は交通外傷をはじめとする頭部外傷による髄液鼻漏で, 頭部外傷の1~3%に髄液鼻漏を認めると言われている²⁾。外傷性の中には医原性のものも含まれ

図3 EMLP (endoscopic modified Lothrop procedure) を施行し、前頭蓋底前方および嗅裂部前方の粘膜を骨から後方に向けて剥離を進め、バルサルバ法で髄液鼻漏を確認したところ、第一嗅糸と第二嗅糸の間で髄液鼻漏を認めた(図3a 矢印)。第二嗅糸(図3b 矢頭)から後方の嗅糸は温存し、瘻孔部(図3b 線矢印)周囲の骨を広範に削開して硬膜(図3b 矢印)を露出した。瘻孔部に大腿筋膜(図3c 星印)を硬膜上で篩板との間に後方以外は敷き込み、フィブリン糊で固定し、鼻中隔粘膜弁(図3d 点線)で被覆してフィブリン糊で固定した上で左中鼻甲基部と1針縫合固定(図3d 矢印)した。NS: nasal septum 鼻中隔。MT: middle turbinate 中鼻甲。FS: frontal sinus 前頭洞。

図4 a 術後6ヶ月鼻内所見。EMLP (endoscopic modified Lothrop procedure) 後で鼻中隔粘膜弁を採取した影響で鼻中隔穿孔を形成している。鼻中隔粘膜弁は生着し(矢印)、息こらえをしても明らかな髄液鼻漏は認めない。MT: middle turbinate 中鼻甲。FS: frontal sinus 前頭洞。b 術後6ヶ月CT所見(単純)。篩骨篩板は削開されて(矢印)筋膜と鼻中隔粘膜弁で被覆されている。脳気腫や髄膜炎を示唆する所見を認めない。大きな鼻中隔穿孔を認める。

ており、われわれ耳鼻咽喉科医も内視鏡下鼻内副鼻腔手術(endoscopic sinus surgery: ESS)に伴う副損傷として留意し、発症時の対応法については熟知する必要がある。

髄液鼻漏の臨床症状は水様性鼻漏と反復性髄膜炎であ

る。髄液鼻漏が疑われた場合、髄液鼻漏の確定診断と部位診断をする(表1)²⁾。まず、鼻内内視鏡検査でおおまかな部位診断と髄液漏出量の把握をする。次にCTおよびMRIで部位診断、骨折や骨欠損、頭蓋内容損傷や脳気

表1 髄液鼻漏の診断法

検査	診断的意義
鼻内内視鏡検査	髄液漏の有無, 髄液瘻孔の部位診断
画像検査 (CT, MRI)	髄液瘻孔の部位診断, 頭蓋内気腫の有無評価
脳槽シンチグラフィー	鼻性髄液漏の有無評価
鼻漏の検査テストテープ	強陽性で髄液漏を疑う 偽陽性の可能性
糖濃度	30mg/ml以上で髄液漏を疑う 偽陽性の可能性
β -2トランスフェリン濃度	髄液漏の特異性が高い 一般的には検査困難

文献2より一部改編して引用

腫の有無を判断する。本症例では、瘻孔部は術前CTで疑っていた左篩板後方の骨欠損が疑われた部位よりも前方であった。術中に確認できなかったが、硬膜の瘻孔部とは別に骨欠損部も認めていた可能性はあり、骨欠損部と瘻孔部にずれが生じていたのかもしれない。画像検査で明らかな脳気腫もなく、髄液鼻漏が明らかでない場合は、鼻漏中の β -2トランスフェリンの有無やグルコース濃度を検査するとされている^{8,9)}。ただし、鼻汁中には通常糖が少量含まれるため、テストテープによる糖含有の判定は偽陽性の可能性があり参考程度にとどめるべきである。鼻漏中糖濃度が30mg/ml以上であった場合は髄液鼻漏を疑うが、この場合もやはり偽陽性の可能性があることに留意する必要がある²⁾。一方で β -2トランスフェリンは通常の鼻汁中には含まれず、その存在は特異度が高く髄液と診断できる。しかし、よほど大量の髄液鼻漏を認めていない限り髄液鼻漏を検体として用いるほど収集することは現実的には極めて困難であり、臨床現場では繰り返す水様性鼻漏（多くは片側性）、反復する髄膜炎、バルサルバ法による髄液鼻漏、鼻漏のテストテープによる糖強陽性などから総合的に判断する。アイソトープ（111In-DTPA）脊髄注入数時間後の鼻副鼻腔シンチグラフィーや蛍光色素髄液注入による鼻内内視鏡検査も有効であるが、検査に侵襲を伴うため、他の方法で髄液鼻漏の有無や部位が確認できない場合に実施する⁸⁾。

外傷性髄液鼻漏は急性期であれば70%以上の症例はベッド上安静（セミファロー位）、髄液持続ドレナージ等の保存的治療により閉鎖する¹⁰⁾。しかし、硬膜は再生しないため、外科的に修復しない限り線維性結合組織あるいは鼻粘膜の再生で閉鎖するのみで閉鎖後も髄膜炎合併のリスクがある²⁾。保存的に閉鎖した外傷性髄液鼻漏の長期経過観察では30%から40%に遅発性髄膜炎の発症があり、早期の整復術が望まれる¹⁰⁾。

髄液鼻漏の診断に至った場合、保存的に閉鎖し得ると判断した一部の外傷性髄液鼻漏の急性期以外は外科的

閉鎖術の適応となる。術前に瘻孔部位を明確にしておくことが望ましいが、術前に瘻孔を同定できない場合には、術前検査から推定される瘻孔部周囲を確認する。この場合、開頭手術よりも鼻内内視鏡下に髄液瘻孔部を検索するほうが有利であると考えられる。髄液鼻漏の好発部位は篩板、篩骨洞天蓋、蝶形骨洞と報告されており⁸⁾、術前に瘻孔部が推定できない場合は、試験的に鼻内内視鏡下にこれらの部位を中心に頭蓋底損傷部を検索する必要がある。髄液瘻孔部が前頭洞上方および外側以外の副鼻腔である場合、鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術の適応である。前頭洞外測や上方など鼻内内視鏡下に操作が困難な部位に瘻孔を認めた場合、頭部冠状切開により帽状腱膜皮弁（galea flap）を硬膜に縫合するか、瘻孔が小さい場合はキリアン手術と鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術を併用する。鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術は開頭手術に比べてはるかに低侵襲で、瘻孔閉鎖率は90%以上とされており³⁻⁶⁾、嗅覚障害も回避し得るため¹¹⁾、まず検討すべき選択肢ではないかと考えられる。瘻孔を閉鎖する際には脂肪、筋膜、軟骨、鼻粘膜弁などを用いて多重閉鎖術（multi layer sealing）を瘻孔の大きさに応じてoverlay法またはunderlay法にて行う¹⁾。5～15mm程度の小さな瘻孔ではフロ栓式閉鎖術（bath-plug closure）も有効である¹²⁾。

本症例は過去3回の開頭髄液鼻漏閉鎖術にて閉鎖しえなかった外傷性髄液鼻漏であるが、髄液瘻孔が複数あり、全てが完全閉鎖していなかった可能性がある。過去の報告でも外傷性髄液鼻漏の35.9%は多発性と報告されており⁸⁾、髄液鼻漏閉鎖術を施行する際には手術終了前に他の瘻孔がないか十分確認する必要があると言える。また、本症例では患者本人が嗅覚脱失を強く拒否しており、過去の開頭手術時に今回閉鎖した髄液瘻孔部まで十分操作が及んでいなかった可能性も考えられる。今回は第一嗅糸を切離したものの、それ以上後方には操作は及ばずに髄液瘻孔部が同定でき、幸いにも自覚的には嗅力の低下を認めなかった。術式としては過去の開頭頭蓋底手術で

は瘻孔が同定できておらずに髄液鼻漏が遷延している状態であることから、内視鏡下に拡大明視下に瘻孔を検索する目的も兼ねて鼻内内視鏡手術を選択した。過去の報告では一度の鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術で閉鎖し得なかった髄液鼻漏に対して二度目では成績が向上しており^{4, 8, 13)}、さらに我々が渉猟し得た範囲では開頭頭蓋底手術後の既往が鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術の成績不良因子であるとした報告もなかったことから、再手術であっても十分に操作は可能で治療成績にも影響がないと判断した。頭蓋底へのアプローチとして、過去の複数回の開頭手術後の影響で左前頭洞頭の構造は一部が破壊されており同部に嚢胞を形成していること、帽状腱膜皮弁がどのように敷きこまれているか不明であり、髄液瘻孔が篩板のどこにあるか不明であったためにできるだけ広い視野を確保するために嗅裂部のみの操作ではなく最初からEMLPを採用した。結果的には第一嗅糸と第二嗅糸の間に小さな髄液漏孔を認めており、拡大前頭洞手術なしに嗅裂部の操作のみで髄液鼻漏は閉鎖し得た可能性があるが、4度目の手術であり確実な閉鎖をするためEMLPを施行した。再度の開頭髄液鼻漏閉鎖術であれば嗅覚脱失は免れず、開頭手術と比較して鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術は低侵襲であり、嗅力も温存し得たと考えられる。開頭頭蓋底手術の既往があると瘻孔周囲に瘢痕組織が存在し、脂肪や筋膜などの遊離移植片が生着しにくい可能性が示唆されているが¹⁴⁾、鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術の閉鎖率に影響を及ぼすという報告はなく、本症例も幸いにして閉鎖し得た。閉鎖法については、本症例は瘻孔が大きければ硬膜縫合や軟骨等を用いた硬性再建を要した可能性があったが、瘻孔が小さく大腿筋膜と鼻中隔粘膜弁によるunderlay-overlay法を採用した。フロ栓式閉鎖術も検討したが、瘻孔が非常に小さく瘻孔部を明視下に置くために周辺骨を削除して硬膜が露出していたために脂肪組織が安定しないと考えられ、大腿筋膜と鼻中隔粘膜弁による多重閉鎖術を選択した。また、対側の鼻中隔粘膜弁を使用することで皮弁の屈曲を極力少なくして血流をできるだけ維持するようにした。有茎鼻中隔粘膜弁を使用することで術後感染や髄液漏閉鎖率が向上すると報告されており、本症例のように難治性鼻性髄液漏に対する手術時には有効な再建材料と考えられる¹⁵⁾。また、過去の術中所見については複数の病院で行われており不明であるが、髄液瘻孔部が前頭洞上方および外側以外の副鼻腔であれば鼻内内視鏡下に当初より閉鎖し得たかもしれない。

髄液鼻漏を認めた場合、現在では多くの施設で脳神経外科による開頭髄液鼻漏閉鎖術が行われているが、患者

への侵襲を考慮すると鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術は極めて有効であると考えられる。鼻内内視鏡手術に慣れている耳鼻咽喉科医による鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術は鼻副鼻腔機能の温存など多くの利点があると考えられ、脳神経外科医との連携が必須ではあるが積極的に適応を検討することが望まれる。

ま と め

過去複数回の開頭髄液鼻漏閉鎖術にて閉鎖しえなかった外傷性髄液鼻漏に対して鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術を施行して良好な経過が得られた症例を経験した。鼻内内視鏡下髄液鼻漏閉鎖術は開頭手術に比べて低侵襲で、鼻性髄液漏に対してまず検討すべき選択肢ではないかと考えられる。

本論文の要旨は第56回日本鼻科学会総会（甲府市2017年9月30日）にて発表した。

参考文献

- 1) 鴻 信義：手術に当たって 鼻性髄液漏閉鎖術のコツ. JOHNS 2015 ; 31 : 215-218.
- 2) 松脇由典, 大村和弘, 森 良介, 他：鼻性髄液漏の診断と治療. 耳展 2010 ; 53 : 300-310.
- 3) Zweig JL, Carrau RL, Celin SE, et al : Endoscopic repair of cerebrospinal fluid leaks to the sinonasal tract: predictors of success. Otolaryngol Head Neck Surg 2000 ; 123 : 195-201.
- 4) Hegazy HM, Carrau RL, Snyderman CH, et al : Transnasal endoscopic repair of cerebrospinal fluid rhinorrhea: A meta-analysis. Laryngoscope 2000 ; 110 : 1166-1172.
- 5) Senior BA, Jafri K, Benninger M : Safety and efficacy of endoscopic repair of CSF leaks and encephaloceles: A survey of the members of the American Rhinologic Society. Am J Rhinol 2001 ; 15 : 21-25.
- 6) Castelnovo P, Mauri S, Locatelli D, et al : Endoscopic repair of cerebrospinal fluid rhinorrhea: Learning from our failures. Am J Rhinol 2001 ; 15 : 333-342.
- 7) 伊藤壽一, 中川隆之：内視鏡下鼻副鼻腔・頭蓋底手術 CT読影と基本手技. 医学書院, 東京 ; 2014 : p. 165-169.
- 8) Locatelli D, Rampa F, Acchiardi I, et al : Endoscopic endonasal approaches for repair of cerebrospinal fluid leaks: Nine-year experience. Neurosurgery 2006 ;

- 58 : 246–256.
- 9) Martin TJ, Loehrl TA : Endoscopic CSF leak repair. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg* 2007 ; 15 : 35–39.
- 10) Scholsem M, Scholtes F, Collignon F, et al : Surgical management of anterior cranial base fractures with cerebrospinal fluid fistulae: A single-institution experience. *Neurosurgery* 2008 ; 62 : 463–469.
- 11) 杉本 晃, 佐藤英光, 西田直哉, 他 : 内視鏡下に閉鎖術を行った髄液鼻漏の二例. *日鼻誌* 2002 ; 41 : 143–148.
- 12) Wormald PJ, McDonogh M : The bath-plug closure of anterior skull base cerebrospinal fluid leaks. *Am J Rhinol* 2003 ; 17 : 299–305.
- 13) Briggs RJ, Wormald PJ : Endoscopic transnasal intradural repair of anterior skull base cerebrospinal fluid fistulae. *J Clin Neurosci* 2004 ; 11 : 597–599.
- 14) 石田春彦, 鳥山満由, 木村真美, 他 : 髄液鼻漏に対する内視鏡下鼻内の閉鎖術の経験. *日鼻誌* 2002 ; 41 : 325–328.
- 15) Kassam AB, Prevedello DM, Carrau RL, et al : Endoscopic endonasal skull base surgery: Analysis of complications in the authors' initial 800 patients. *J Neurosurg* 2011 ; 114 : 1544–1568.