眼窩粘液嚢腫

西山 直志・河村 悌夫*・河本 圭司*・奥山 輝実*・岡 信行*・安田 敬済*
山内 康雄*・高原 衍彦*・三木 一仁*・松村 浩*

Orbital Mucocele

Report of Three Cases

Tadashi NISHIYAMA, Yasuo KAWAMURA*, Keiji KAWAMOTO*, Terumi OKUYAMA*,
Nobuyuki OKA*, Takasumi YASUDA*, Yasuo YAMANOUCHI*,
Nobuhiko TAKAHARA*, Kazuhito MIKI* and Hiroshi MATSUMURA*

*Department of Neurosurgery, Shingu City Hospital, Shingu, Wakayama; *Department of Neurosurgery, Kansai Medical University, Moriguchi, Osaka*

Abstract

Three patients with unusual orbital mucoceles all presented with proptosis and ptosis. None had a history of trauma or sinus infection. In each case, computerized tomography (CT) demonstrated a well-defined, homogeneously isodense mass in the superior orbit, which displaced the globe inferiorly. There was no apparent continuity between the orbital mass and the sinuses. In Case 2 the administration of contrast medium showed enhancement of the rim of the lesion. Magnetic resonance imaging (MRI) in Case 3 clearly revealed the location and soft tissue characteristics of the lesion, and the isointense nature of the mass. Orbitotomies by the transcranial supraorbital approach, which is considered to be the procedure of choice for superior orbital lesions, disclosed cysts containing mucinous fluid; all three were excised. In Case 1, the cyst was separated from the frontal sinus by the ossified wall. In Cases 2 and 3, the cyst communicated with the anterior ethmoid sinus through a small orifice in the medial orbital wall. Histological study of the cyst walls demonstrated columnar or cylindrical ciliated epithelium, which is compatible with mucocele. The mechanisms of mucocele formation and the role of CT and MRI in differentiating this lesion from other intraorbital lesions are discussed.

Key words: orbital mucocele, paranasal sinus, computerized tomography, magnetic resonance imaging, supraorbital approach

I はじめに

副鼻腔に発生した粘液嚢腫が眼窩内へ及び、種々の眼症状を呈することはまれでない。しかし、副鼻腔炎や外傷などの既往がなく、しかも放射線学的に副鼻腔との明らかな連続性のない眼窩腫瘍として発症することはまれであり、その診断も困難である。我々は、このような眼窩腫瘍とし

て発症し、手術により粘液嚢腫と診断しえた興味ある3例を経験したので、臨床所見について述べるとともに、その病態への若干の考察と手術方法の工夫について報告する。

II 症 例

<症例1> 53才、男性

主訴：右上眼瞼腫脹、眼球突出、眼瞼下垂

新宮市立市民病院脳神経外科 *関西医科大学脳神経外科

Address reprint requests to: T. Nishiyama, M.D., Department of Neurosurgery, Asada General Hospital, 219 Tsumori-cho, Marugame, Kagawa 763.

受稿 1986年8月9日 受理 1987年3月25日

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1984年3月頃より右上眼瞼腫脹、眼球突出、眼瞼下垂、流涙をきたすようになり、放射線学的検査にて眼窩腫瘍を指摘され、10月17日、当科に紹介され、入院した。

入院時所見：軽度の右眼球突出、眼瞼下垂、右上眼瞼部腫脹および眼球下方転位を認めた。血液・生化学検査に異常はなかった。

放射線学的所見：Water's view では右眼窩上縁は消失し、前頭部に辺縁が明確な骨硬化を伴った円形骨透亮像を認めた。前頭・篩骨洞陰影はみられなかった(Fig. 1)。CT scan では右眼窩上部より前頭洞部に周囲が骨に囲まれた円形の均一な isodensity mass を認め(Fig. 2A)、前額断再構成 CT では眼窩上部を占拠する腫瘤と上壁欠損を認めた(Fig. 2B)。

手術所見：右前頭開頭術を行い、硬膜外より眼窩上壁に達すると、上壁は欠損し、同部より厚い被膜を有する囊腫が膨隆していた。囊腫穿刺により褐色粘稠液を得た。囊腫は前頭洞と骨組織で隔絶されており、洞内病変は認められなかった。眼窩上縁部を囊腫とともにいったん摘出したのち、囊腫を完全に除去した。眼窩上縁・上壁の欠損部に腸骨板状骨を移植し、摘出骨にて前額部を再建し、手術を終了した。

組織学的所見：囊腫内壁は線毛を有する円柱上皮で覆わ

Fig. 1 Case 1. Water's view demonstrates a round, radiolucent area with a dense, sharply delineated margin (arrowheads) in the right supraorbital region.

Fig. 2 Case 1. A: Plain axial computerized tomography (CT) scan shows a homogeneously isodense mass with an ossified wall in the right supraorbital region. B: Reconstructed coronal CT scan shows an orbital mass (arrowheads) and destruction of the right orbital roof.

Fig. 3 Case 1. Photomicrograph of the mucocyst capsule shows columnar or cylindrical epithelium with cilia on the inner surface. The outside of the epithelium is composed of thick connective tissue. HE stain, $\times 100$.

れ、外層は結合組織性の肥厚した組織から成り、粘液囊腫と診断した(Fig. 3)。

術後、眼症状は消失し、現在、再発なく良好な経過を示している。

<症例2> 59才、女性

主訴：右眼球突出、眼瞼下垂、頭痛

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1985年2月初め頃、上気道炎に罹患し、以後軽度の前頭部痛が持続していた。2月13日より右眼球突出、眼瞼下垂をきたしたため、2月25日、精査のため当科に入院した。

入院時所見：右眼球突出、眼球下方転位、眼瞼下垂ならびに結膜浮腫を認めたが、眼球運動障害はなく、ほかに神経学的異常を認めなかった。血液・生化学検査に異常はなかった。

放射線学的所見：頭部単純写では異常を認めなかった

Fig. 4 Case 2. Coronal CT scan with contrast medium demonstrates an isodense mass (arrowheads) with rim enhancement in the right superior orbit. Hyperostosis of the orbital roof and a wide low-density area at the base of the frontal lobe are seen. The mass appears to be separated from the ethmoid sinus.

が、造影前額断 CT では右眼窩上部に rim enhancement を伴う均一な isodensity mass がみられ、上壁の骨肥厚を認めた。腫瘍と篩骨洞との明らかな連続性は認められなかった。また、前頭葉底部に広汎な low density area を認めた (Fig. 4)。

手術所見：右前頭開頭術を行い、硬膜内より前頭葉底部を観察すると、硬膜は肥厚し、脳実質は軟らかく、黄色調を呈していた。眼窩上縁と肥厚した上壁を骨形成的に骨切りをして眼窩を開放すると、眼窩上縁より眼窩尖部に及ぶ比較的厚い被膜を有する嚢腫を認めた。被膜を切開すると、粘稠な褐色の内容液が流出した。眼窩内側では紙様板部に小孔がみられ、同部より嚢腫と前篩骨洞との交通が認められたが、洞内は粘膜肥厚のみで、ほかに病変を認めなかった。嚢腫を全摘出するとともに篩骨洞内を搔爬し、鼻腔との交通路を設け、手術を終えた。

組織学的所見：嚢腫内壁は線毛上皮から成り、粘液嚢腫と診断した。前頭葉底部の脳生検標本は gliosis を示し、炎症所見、腫瘍組織は認められなかった。

術後、眼症状は徐々に改善し、現在、外来にて経過観察している。

<症例 3> 42才、女性

主訴：右眼球突出、複視、眼瞼下垂

既往歴・家族歴：特記すべきことなし。

現病歴：1985年7月頃より右上眼瞼腫脹をきたすようになり、9月中頃より右眼球突出、複視、眼瞼下垂が出現した。このため本院眼科を受診し、CTにて眼窩腫瘍を指摘された。眼科入院後、needle biopsyを受けたところ、膿汁の流出が認められ、12月16日、手術目的のため当科へ転科した。

入院時所見：右上眼瞼は著明に腫脹し、眼球突出、眼瞼下垂がみられたが、明らかな眼球運動制限、視力低下は認められなかった。血液・生化学検査上、軽度の炎症所見以外には異常を認めなかった。

放射線学的所見：前額断 CT では右眼窩上部に均一な relatively high density area を認め、眼球は下方に圧排され、眼窩上壁の欠損を認めた。篩骨洞に異常所見はなく、腫瘍は眼窩上外側部に大きく、洞との明らかな連続性はみられなかった (Fig. 5A)。MRI (Sanyo Electric Co., Prototype SNR-50SC; 0.5 tesla, TR 600 msec, TE 34 msec) では眼窩上部に iso-intensity mass として認められた (Fig. 5B)。

手術所見：右前頭開頭術を行うと、眼窩上壁は肥厚し、一部に骨欠損を認めた。眼窩上縁・上壁を除去し、眼窩を広汎に開放すると、眼窩尖部に及ぶ厚い被膜を有する嚢腫を認めた。眼窩内側では紙様板部の 5 mm 大の小孔を通じ、嚢腫と前篩骨洞との交通が認められたが、洞内は軽度の粘膜肥厚以外に異常所見を認めなかった。嚢腫を可及的

Fig. 5 Case 3. A: Plain coronal CT scan shows a homogeneous, relatively high-density mass (arrowheads) in the right superior orbit. It has displaced the globe inferiorly and has eroded the orbital roof. The mass appears to be separated from the ethmoid sinus. B: Coronal magnetic resonance imaging shows a well-defined, isointense mass (asterisk) in the right superior orbit.

に摘出し、篩骨洞を鼻腔へ開放し、手術を終えた。

組織学的所見：粘液囊腫と確診された。

術後、眼症状は著明に改善され、現在、再発なく経過している。

III 考 察

副鼻腔の粘液囊腫は比較的一般的な良性の疾患であるが、それらの約2/3は前頭洞より、他1/3は篩骨洞より発生し、蝶形骨洞のものは比較まれと言われる^{2,7,10,13,18,22}。Sissonら¹⁹⁾、神宮ら⁹⁾によると、粘液囊腫はその成因により一次性囊腫と二次性囊腫に大別される。一次性囊腫とは副鼻腔上皮の goblet cell より発生した貯留囊腫であり、二次性囊腫は副鼻腔の鼻腔への排泄口が閉塞されるため、粘液貯留をきたすものとされている。その発生原因には副鼻腔炎、副鼻腔手術、外傷、鼻内ポリプ、鼻中隔彎曲症、鼻アレルギー、osteomaなどが挙げられる^{3,5,11,15,22)}が、特に症例の半数以上(50~96%)に副鼻腔炎の既往が存在し、副鼻腔手術後に発生することも多い^{5,15)}。このように、粘液囊腫の症例では既往に副鼻腔疾患を持つものが非常に多い。

眼窩粘液囊腫は、主として前頭洞、篩骨洞より発生する^{5,21,22)}。副鼻腔に発生した粘液囊腫は徐々に増大し、眼窩内側壁である菲薄な紙様板を容易に穿破し、眼窩内へ伸展し、眼球突出、複視、眼瞼下垂、眼球変位、眼球運動障害、視力障害、流涙など、種々の眼症状を呈する。これら眼症状のうちでも前頭洞や前篩骨洞から発生した粘液囊腫の場合には眼球突出や眼球変位を呈することが多く、視力障害や眼球運動障害は少ないとされる^{10,22)}。一方、後部篩骨洞や蝶形骨洞から発生したものでは初発症状が視力障害や眼筋麻痺である場合が多く、急速に視力低下をきたし、失明に至る例も多いと言われる^{2,6,18,22)}。また、superior orbital fissure syndrome, orbital apex syndrome, cavernous sinus syndromeと言われる症状や下垂体腫瘍様の症状を呈するもののなかには、この部位より発生した粘液囊腫に起因するものが少なくないとされる¹⁴⁾。我々の報告した3症例は、ともに前頭・篩骨洞部より発生したものと考えられ、眼球突出、眼瞼下垂が初発症状であり、視力障害、眼球運動障害は認められなかった。

副鼻腔に異常を認めず、しかも副鼻腔との明らかな連続性のない眼窩粘液囊腫は非常にまれである^{1,5,22)}が、その発生機序には以下のことが考えられる。すなわち、①排泄口を持たない異所性に存在する洞粘膜(aberrant sinus)から発生する、②副鼻腔に発生した囊腫が紙様板を穿破し、その小孔より眼窩内へ進入し増大するが、一方副鼻腔内の囊腫は鼻腔への再交通により自然治癒するなどである。

Diazら³⁾は頭蓋内外に伸展した粘液囊腫2症例を報告し、そのうち1例は眼窩内から pterygoid fossa に及ぶものであったが、副鼻腔に異常を認めず、手術所見からも発生源を見出しえなかったことより、aberrant sinus の存在を想定している。一方、朝長ら¹⁴⁾は副鼻腔との明らかな交通のない眼窩内粘液囊腫の1例を報告し、手術所見で囊腫の下内方に交通があり、これが完全に閉塞していたことより、篩骨洞に発生した囊腫が眼窩内に侵入・増大し、のちに洞との連絡が絶たれたのであろうと推測している。我々の<症例1>では粘液囊腫は前頭洞とは骨壁で隔絶され、洞との交通が存在しないことより、前述した①の機序が考えられる。一方、<症例2,3>は手術所見で紙様板の小孔より粘液囊腫と前篩骨洞との交通が確認されたことから、②の機序により発生したものと推測される。

粘液囊腫の放射線学的診断には、Water氏法や断層撮影法による洞陰影、副鼻腔壁の菲薄化や欠損の有無、さらに囊腫内造影法などが重視されている。しかし、従来よりの放射線学的検討だけでは他の腫瘍病変との鑑別が困難な症例も多く、また早期診断という点でも問題が多い。一方、CT scanは拡張性病変の輪郭と囊腫内容の性状の診断のみならず、眼窩・頭蓋内への伸展の有無、さらに骨破壊の程度をよく把握しうる。CT上、粘液囊腫は囊腫内容液の性状によりやや異なるが、一般には均一で、脳実質とはほぼisodenseなmassとして描出される^{7,12,16,22)}。眼窩内では眼球、視神経、外眼筋への影響を観察することにより、腫瘍の性状を把握しうる。すなわち、粘液囊腫では眼窩内軟部組織を圧排するが、悪性腫瘍ではむしろ浸潤していることが多い。また、粘液囊腫が紙様板を破壊し、眼窩内側に伸展しても、囊腫と内直筋との間にある薄い脂肪層が描出されると言われる⁷⁾。さらに、造影剤静注による造影効果により、癌性病変のようにenhanceされる実質性病変との鑑別が可能である。粘液囊腫では造影効果がみられないことも多いが、炎症性のmucopyocleではrim enhancementが認められることがある^{7,17,22)}。我々の症例では副鼻腔と明らかな連続性を持たず、眼窩内に孤立した腫瘍性病変であったが、CT上、均一な限局性isodensity massとして描出され、また<症例2>ではrim enhancementが認められ、鑑別診断上、CT scanが有用であった。MRIによる粘液囊腫の所見に関しては報告例が少ないが、他の眼窩内腫瘍との鑑別診断にきわめて有用とされる。Wilbergerら²²⁾はpterygoid recessから眼窩に発生した粘液囊腫を報告し、MRIで髄液と同様のintensityを示す内容液を有する腫瘤として認められたと述べている。我々の<症例3>においてもMRIによりSE法(600/34)でiso-intensity、一部hypo-intensityなmassとして描出され、腫瘤の性状とseptum

Fig. 6 Schematic illustration of the transcranial supraorbital approach. *left*: Frontolateral view of the right orbit. A frontal bone flap has already been removed. Cutting off of the orbital roof and zygoma is accomplished with a bone saw. *right*: Right frontal craniotomy with wide resection of the right orbital roof, seen from the vertex. The orbital space can be fully visualized in all directions. D: dura, O: orbit, N: nose, Z: zygoma, B: orbital roof.

および眼窩内脂肪が明瞭なため、解剖学的位置関係が鮮明に描出された。

粘液嚢腫の手術的療法は嚢腫を摘出する場合と排泄孔を作製する場合とに分けられるが、副鼻腔に主病巣がある症例には鼻科的 approach による排泄孔作製のみで目的を達しうることが多い。しかし、我々の症例のように眼窩内に主病変が存在し、副鼻腔との交通が明らかでない場合には、眼窩開放術により嚢腫を全摘出し、発生源とみられる副鼻腔は鼻腔へ開放することが重要と考えられる。

眼窩内腫瘍性病変に対する外科的 approach は、その局在により種々の方法がとられる。腫瘍が眼窩上部、特に眼球赤道線より後方に位置するものに対しては transcranial approach が用いられるが、それには Dandy⁴⁾の frontal approach や戸塚ら²⁰⁾の fronto-zygomatic approach, あるいは Jane ら⁸⁾の supraorbital approach がある。Jane ら⁸⁾の方法では前頭開頭術により骨弁とともに眼窩上縁および上壁を *en bloc* に除去するが、手技的に困難な症例もあり、また硬膜損傷を生ずる可能性も否定しえない。我々の方法は、いったん開頭術を行い、前頭蓋底を硬膜外、眼窩内は骨膜下に剝離し、直視下に眼窩上縁・上壁骨を一塊として骨形成的に切除している (Fig. 6)。この方法は、眼窩縁から眼窩尖部に及ぶような腫瘍摘出に際し、脳圧排の程度を減じ、硬膜・眼窩内組織を損傷する危険が少なく、さらに術野が大きい点で優れており、有用な方法と考えられる。

IV 結 語

放射線学的に副鼻腔との連続性を持たず、眼窩内に限局した粘液嚢腫 3 症例を報告し、それらの発生機序につき考察を加えるとともに、CT scan, MRI の有用性ならびに手術方法の工夫について述べた。

本論文の要旨は、第11回日本脳神経外科学会近畿地方会(1986年5月、大阪)において発表した。

文 献

- 1) 朝長正道, 岳野主明: 眼窩内粘液嚢腫の1例. 脳神経外科 6: 191-194, 1978
- 2) Avery G, Tang RA, Close LG: Ophthalmic manifestations of mucocoeles. *Ann Ophthalmol* 15: 734-737, 1983
- 3) Boniuk MM, Friedman AH: Orbital mucopyoceles. Two cases and a review. *Survey of Ophthalmology* 25: 253-262, 1980
- 4) Dandy WE: Results following transcranial operative attack on orbital tumors. *Arch Ophthalmol (Chicago)* 25: 191-216, 1941
- 5) Diaz F, Latchow R, Duvall AJ III, Quick CA, Erickson DL: Mucocoeles with intracranial and extracranial extensions: Report of two cases. *J Neurosurg* 48: 284-288, 1978
- 6) 深道義尚, 永井充子, 松本順子: 副鼻腔粘液嚢腫のモコツェーの12例について. 日眼会誌 75: 979-987, 1971
- 7) Hesselink JR, Weber AL, New PFJ, Davis KR, Roberson GH, Taveras JM: Evaluation of mucocoeles of the paranasal sinuses with computed tomography. *Radiology* 133: 397-400, 1979
- 8) Jane JA, Park TS, Pobereskin LH, Winn HR, Butler AB: The supraorbital approach: Technical note. *Neurosurgery* 11: 537-542, 1982
- 9) 神宮賢一, 片山 仁, 高橋睦正, 藤井恭一, 森満 保: 神経放射線学的検査により確認できた後篩骨洞及び蝶形骨洞の粘液嚢腫の一例. 臨放線 17: 483-489, 1972
- 10) 小泉 智, 上條 明, 山本香列, 平林 源, 谷内山仁: 眼球突出を主訴とした術後性前頭篩骨部位嚢腫の3症例. 耳鼻咽喉 50: 71-76, 1978
- 11) Linthicum FH, Rand CW, Reeves DL: Mucocoele of the sphenoid sinus. Report of a case with autopsy findings. *J Neurosurg* 3: 444-453, 1946
- 12) 中川善雄, 小竹源也, 鈴木憲三, 矢野一郎, 照林宏文, 平川公義: 頭蓋内に進展した篩骨洞蝶形骨洞粘液嚢腫の2例. 脳神経外科 8: 289-293, 1980
- 13) 南立昌幸, 森満 保: 眼症状を伴った蝶形骨洞・後篩骨蜂巣 mucocoele の2症例. 耳鼻と臨 17: 282-288, 1971
- 14) 小野陽二, 小野豪一, 千ヶ崎裕夫, 石井昌三: 蝶形骨洞および後部篩骨洞粘液嚢腫(mucocoele)12症例についての検討. 脳神経外科 3: 681-689, 1975
- 15) Pool JL, Potanos JN, Krueger EG: Osteomas and mucocoeles of the frontal paranasal sinuses. *J Neurosurg* 19: 130-135, 1962
- 16) 斎藤洋三, 竹田英子, 長谷川誠, 渡辺建介, 平塚秀雄: 篩

- 骨洞および蝶形骨洞嚢胞の診断とコンピューター断層撮影.
耳鼻咽喉 50: 543-547, 1978
- 17) 澤田浩次, 北村勝俊, 森田孝二: 大脳鎌内に進展した巨大前頭洞 pyocoele の 1 例. 脳神経外科 9: 1321-1325, 1981
 - 18) 庄司博子, 新井寧子, 上村卓也: 巨大な篩骨洞粘液嚢腫の一例. 耳鼻と臨 24: 681-686, 1978
 - 19) Sisson GA, Goldstein JC: Tumors of the nose, paranasal sinus and nasopharynx, in Paparella MM, Shumrick DA (eds): *Otolaryngology*, vol 3. Philadelphia, WB Saunders, 1973, p 153
 - 20) 戸塚 清, 桑原武夫, 三宅浩之: 眼窩腫瘍摘出のための新しい手術法 (frontozygomatic approach) について. 眼臨医報 65: 123-126, 1971
 - 21) von Leden H: Orbital mucocoeles. *Canad J Ophthalmol* 1: 36-43, 1966
 - 22) Wilberger JE Jr, Abila A, Kennerdel J, Maroon JC: Mucocoele of the pterygoid recess treated by laser surgery. Case report. *J Neurosurg* 63: 970-972, 1985
- [別刷請求先: 〒763 香川県丸亀市津森町219, 麻田総合病院脳神経外科, 西山直志]