

症例報告

開口障害で発症した蝶形骨洞炎の小児例

池川 環¹⁾, 矢内 貴憲²⁾, 小林 慈典³⁾, 鍋木 陽一²⁾¹⁾ 藤沢市民病院 こども診療センター²⁾ 国立病院機構横浜医療センター 小児科³⁾ 南流山こどもクリニック

要旨: 蝶形骨洞炎は、全副鼻腔炎の約3%であり¹⁾、頻度の少ない疾患である。今回、開口障害を契機に蝶形骨洞炎と診断した一例を経験した。11歳男児、発熱と開口障害で来院し、白血球数 6600/ μ L, CRP 3.71 mg/dLと炎症反応を認めた。造影CTで蝶形骨洞炎を認めたが、開口障害の原因は特定できなかった。頭部MRIの脂肪抑制T2強調画像で右内側・外側翼突筋に高信号を認めたことから、右蝶形骨洞炎と右内側・外側翼突筋への炎症波及により一連の症状をきたしたと判断した。セフォタキシムとクリンダマイシンを開始したが、開口障害の改善が乏しいため、途中でセファゾリンとセフォゾプランに変更した。計25日間の加療で、新規の合併症の出現なく、後遺症を残すことなく治癒した。本症例のように開口障害を主訴とした蝶形骨洞炎の報告例は、国内外の小児例において2例目であった。蝶形骨洞炎が開口障害を来するというを念頭に置き、蝶形骨洞炎の存在が明らかで周囲組織への炎症の波及が疑わしい場合は頭部MRIによる画像精査を行う必要がある。

Key words: 開口障害 (Trismus), 蝶形骨洞炎 (Sphenoidal sinusitis), 翼突筋 (pterygoid muscle)

はじめに

蝶形骨は頭蓋底を構成しており、その内部にある蝶形骨洞は副鼻腔の最深部に位置する。蝶形骨洞炎は、全副鼻腔炎のうち約3%の頻度で発症する¹⁾。蝶形骨洞炎の主訴の約70%は頭痛であり²⁾、膿性鼻汁や湿性咳嗽など副鼻腔炎の典型的な症状を呈さないこともあり、診断に難渋しやすい。蝶形骨洞は上壁にトルコ鞍があり、側壁に海綿静脈洞が接している。トルコ鞍上に下垂体、視神経管が位置し、海綿静脈洞の中に内頸動脈、動眼神経、滑車神経、三叉神経第1枝・第2枝、外転神経が走行している³⁻⁶⁾。この解剖学的特徴により、周囲に炎症が波及すると、脳神経障害、髄膜炎、海綿静脈洞炎、硬膜外膿瘍などの重症感染症を合併する危険性が高く⁷⁻⁹⁾、早期に診断と治療を行う必要がある。今回、開口障害を契機に蝶形骨洞炎と診断した一例を経験したので報告する。

症 例

11歳男児。

[既往歴] 気管支喘息。

[現病歴] 初診3日前に右耳介後部から下顎にかけて疼痛が出現、他院でアモキシシリン (AMPC)、イブプロフェン、去痰薬を処方された。同日夜から発熱37.8℃を認め、第4病日の朝から開口障害が出現した。歯科を受診して齲歯を認めず、症状の改善がないために当院救急外来を紹介受診した。経過中に頭痛はなかった。診察時は体温37.1℃、全身状態は良好、開口障害を認めた。血液検査で白血球数 9500/ μ L, CRP 2.99 mg/dLであり、頭部造影CTに左上顎洞と右蝶形骨洞の軟部組織陰影を認めたほか、異常はなかった (図1)。翌日の再診時に実施した頭部MRIに異常信号を認め、右蝶形骨洞炎の右内側・外側翼突筋への炎症波及により一連の症状をきたしたものと判断した。さらなる炎症波及により脳神経障害をきたす恐れがあり、速やかな経静脈的抗菌薬加療が必要と判断し

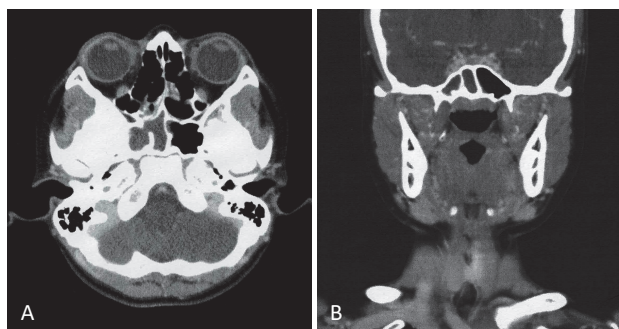


図1 頭部造影CT

A: 水平断. 右蝶形骨洞内に液体貯留がある.
B: 冠状断. 蝶形骨洞周囲の軟部組織の造影不良域を認めない.

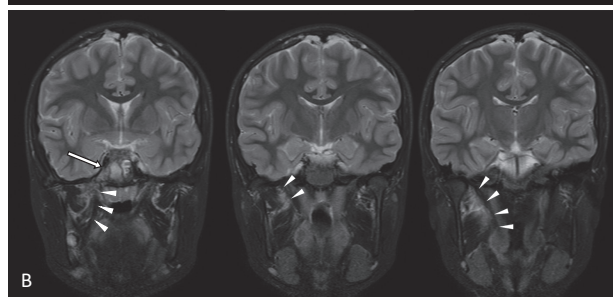
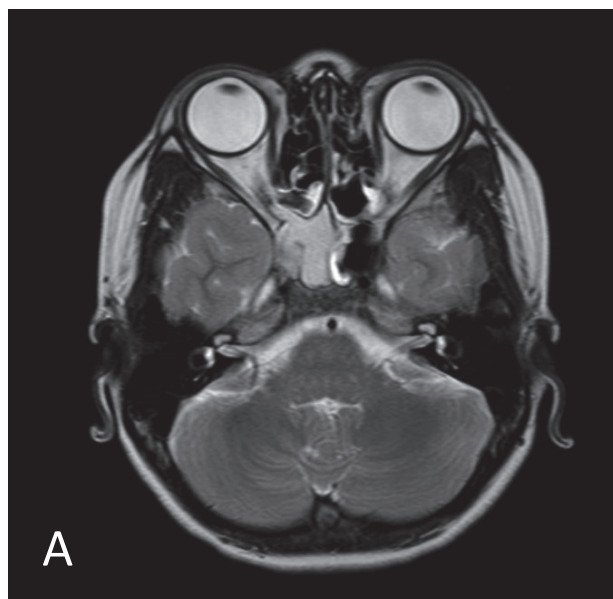


図2 頭部MRI (入院時)

A: T2強調画像軸位断. 蝶形骨洞内に高信号を示す軟部組織陰影を認める.
B: 脂肪抑制T2強調画像冠状断. 蝶形骨洞(矢印)に接している右内側・外側翼突筋が高信号を示している(矢頭).

表1 入院時検査所見

WBC	6600 / μ L	TP	7.6 g/dL
Neu	62.0 %	Alb	4.0 g/dL
Lym	27.0 %	AST	20 U/L
RBC	468 $\times 10^4$ / μ L	ALT	9 U/L
Ht	40.9 %	LDH	192 U/L
Hb	14.2 g/dL	CK	81 U/L
Plt	26.8 $\times 10^4$ / μ L	BUN	9.9 mg/dL
PT-INR	1.07	Cr	0.54 mg/dL
APTT	29.2 sec.	Na	140 mEq/L
Fibrinogen	420 mg/dL	K	4.0 mEq/L
FDP	2.4 μ g/mL	Cl	102 mEq/L
D-dimer	1.0 μ g/mL	CRP	3.71 mg/dL
ESR 60 min	35.0 mm	Glucose	82 mg/dL
ESR 120 min	47.0 mm	β -D-glucan	10 pg/mL

て入院した.

[入院時現症] 体温37.7℃, 脈拍87回/分, 呼吸数22回/分, SpO₂ 98%. 開口障害(最大開口量2 cm)を認めた. 咽頭発赤や扁桃腫大はなく, 頸部リンパ節腫脹も認めなかった. 胸腹部, 皮膚にも異常所見を認めなかった. 神経学的診察では眼球運動は正常, 複視を認めなかった. 聴覚, 顔面知覚, 顔面運動や舌運動に異常を認めなかった. 四肢の運動や感覚麻痺, 協調運動の異常を認めなかった. 項部硬直を認めなかった. 眼科診察で視野異常や眼球運動障害を認めなかった.

[入院時検査所見] 血液検査所見を示す(表1). 白血球数6600/ μ L, CRP 3.71 mg/dL, 赤血球沈降速度(血沈)35.0 mm/1時間であり, 他の生化学項目に異常所見はなかった. 頭部単純MRIでT2強調画像に左上顎洞と右蝶形骨洞の軟部組織陰影を認め, 脂肪抑制T2強調画像で右内側・外側翼突筋に高信号を認めた(図2). 上咽頭培養からメチシリン感受性黄色ブドウ球菌(*methicillin-susceptible Staphylococcus aureus*; MSSA)を検出し, 血液

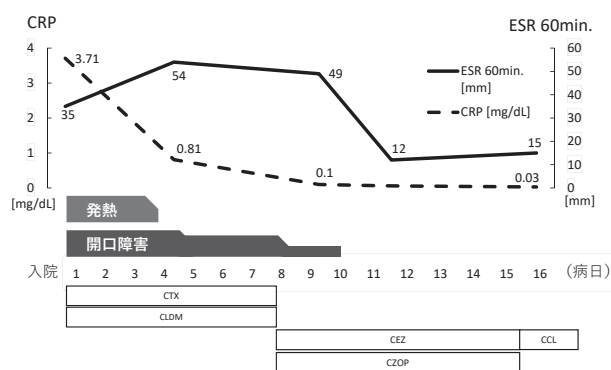


図3 入院後経過

ESR 60 min.: 血沈60分値, CTX: Cefotaxime, CLDM: Clindamycin, CEZ: Cefazolin, CZOP: Cefozopran, CCL: Cefaclor

培養は陰性だった.

[入院後経過] 入院後の経過を示す(図3). 入院時から副鼻腔炎の起炎菌(黄色ブドウ球菌, 肺炎球菌, 嫌気性菌など)を標的に¹⁾, セフォタキシム110 mg/kg/日, クリンダマイシン40 mg/kg/日を経静脈的投与し, 去痰薬の内

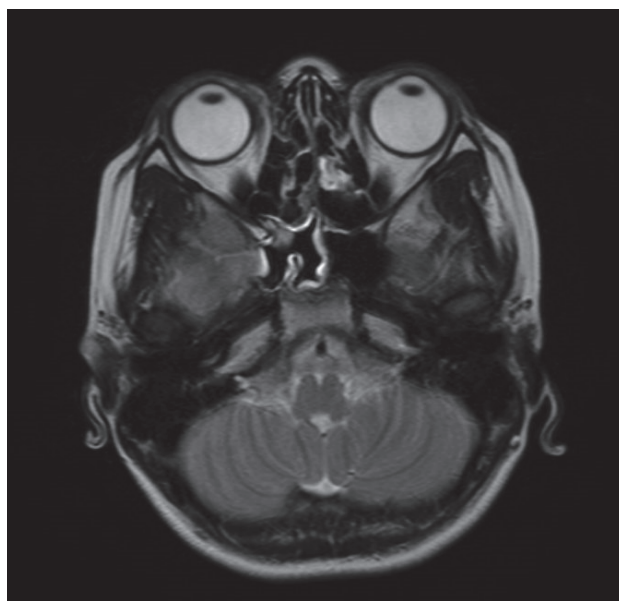


図4 頭部MRI (退院後)

T2強調画像軸位断. 退院51日後. 右蝶形骨洞にわずかな粘膜肥厚を認める.

服を併用した. 耳鼻咽喉科の診察で神経症状がないことや画像所見に骨破壊像を認めないことから, ドレナージの適応はないと判断された. 入院時から認めていた発熱は3日目に解熱し, 右耳介後部から下顎にかけての疼痛は軽快したが, 開口障害は残存した. 入院4日目の血液検査で白血球数やCRP値の低下を認めたが, 血沈亢進は遷延した. 以上の臨床経過から初期の抗菌薬の治療効果は不十分であると判断し, 引き続き広域スペクトラムの治療を継続するため, 入院8日目にセファゾリン100 mg/kg/日とセフォゾプラン110 mg/kg/日に変更した. 以後は速やかに開口障害が改善し, 入院9日目に開口時痛と開口障害は消失し, 入院12日目の血液検査で血沈の改善を認めた. 入院13日目の頭部単純MRIで蝶形骨洞の粘膜肥厚に変化はなかったが, 右内側・外側翼突筋のT2延長所見の改善を認めた. 入院16日目にセファクロル40 mg/kg/日の内服へ変更して同日退院した. 退院7日目に血沈の正常化を確認し, 退院10日目にセファクロルの内服を終了した. 退院51日目の頭部単純MRIで蝶形骨洞の粘膜肥厚は消退傾向にあり, 右内側・外側翼突筋の炎症所見の消失を確認した(図4).

本症例について, 患者とその家族に対してインフォームドコンセントを行い, 症例報告としての診療情報の利用について同意を得ている.

考 察

蝶形骨洞炎の症状は頭痛が最多で約70%, 複視や視野

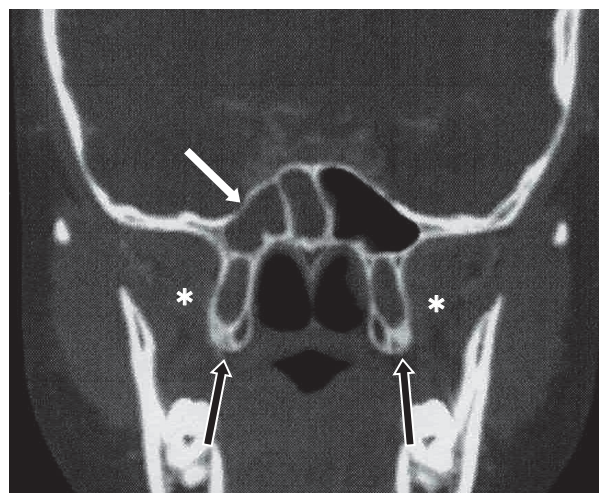


図5 本症例の蝶形骨洞と翼状突起の位置関係

CT画像冠状断. 蝶形骨(白矢印)の直下に翼状突起(黒矢印)が位置している. 翼状突起に内側・外側翼突筋(アスタリスク)が起始している. 翼状突起の中心部(舟状窩)の軟部組織は口蓋帆張筋である.

障害などの眼症状が約15%という報告があり²⁾, 他の副鼻腔炎と比較して鼻症状に乏しい³⁾. 鼻症状に乏しい理由として, 組織学的に蝶形骨洞は偽重層線毛円形上皮に覆われており, 他の副鼻腔炎と比較して粘液分泌細胞が少ないためである⁴⁾. 本症例は発熱と開口障害のみであり, 鼻汁や頭痛を認めなかった. 開口障害を主訴とした報告例は国内の成人3例⁹⁻¹¹⁾, 小児1例¹²⁾のみであり非常に稀といえる.

蝶形骨洞は出生時には存在せず, 1歳以降に形成される. 幼児期の空洞形成は緩徐であり学童期より急速に発達し, 14歳までに成人と同じ大きさにまで発達する^{13, 14)}. さらに蝶形骨洞の空洞形成が進むことで蝶形骨壁が菲薄化し, 炎症が周囲組織に波及しやすくなる. 蝶形骨洞の形態は個体差が大きい¹⁴⁾. 池田利昭らが蝶形骨洞の発育・進展について報告しており, 蝶形骨洞は小翼, 大翼, 翼状突起, 鞍背に進展する場合があります. 翼状突起への進展は24~53%に認める¹⁵⁾. 本症例が開口障害を来した理由として, 蝶形骨洞下端が内側・外側翼突筋の起始部となる翼状突起に接していたためと考えられた(図5).

頭部MRIは蝶形骨洞炎の診断に有用であった. その非特異的な症状のために蝶形骨洞炎の診断までに5~29日を要したとの報告がある^{7, 16)}. 本症例でも当初, 頭部造影CTで蝶形骨洞から周囲の軟部組織への炎症波及を評価できず開口障害から蝶形骨洞炎を想起することは困難であったが, 頭部MRIの脂肪抑制T2強調画像で右内側・外側翼突筋に高信号を認めたことから, 蝶形骨洞から周囲組織への炎症の直接波及が明らかとなり診断に至った. なお血行性の炎症波及の可能性については, 血液培養陰性である点から否定的であった.

治療では起炎菌の同定が重要となる. 蝶形骨洞炎の起

炎菌は黄色ブドウ球菌が約30%と最多で、次いで肺炎球菌などの *Streptococcus* 属が多く検出される¹⁾。本症例では上咽頭培養に MSSA を検出していたが、先行する抗菌薬投与後の検体である点や蝶形骨洞からのドレナージ検体を得られていない点から起炎菌と断定できなかった。一般に蝶形骨洞炎に対する抗菌薬選択はグラム陽性球菌に感受性が高く、かつグラム陰性菌もカバーするものを選択し、その治療期間は3～4週間が推奨されている¹⁶⁾。本症例は抗菌薬の経静脈投与のみで良好な治療経過を得られたが、治療開始後24時間経過しても症状改善が乏しい場合や脳神経障害が疑われる場合に、早急な外科的ドレナージを勧める意見もある³⁾。本症例において、セフトキシムとクリンダマイシンによる抗菌薬治療を開始し治療効果が不十分と判断した時点で、内視鏡下鼻副鼻腔手術などの外科的ドレナージを行ってれば、排液を促すだけでなく、得られた検体培養から起因菌を同定し早期に感受性のある抗菌薬に変更することができ、より短期間の経過で治癒および退院に至った可能性はある。ただし、硬膜外膿瘍や脳神経障害などの頭蓋内合併症を認めていない症例に対して積極的に外科的ドレナージを行うべきか、麻酔や手術の合併症を考慮した上で慎重に検討すべきである。

本症例では、蝶形骨洞炎が開口障害をきたすことが示された。臨床症状から蝶形骨洞炎を想起することが難しい場合もあり、頭部MRIによる蝶形骨洞炎とその周囲組織への炎症波及の評価が重要である。

文 献

- Deniel Lew, Frederick S, Southwick, William W. Montgomery, Alfred L. Member, Ann S. Baker: Sphenoid sinusitis a review of 30 cases. *The New England Journal of Medicine*, **309**: 1149–1154, 1983.
- 奥田 匠, 花牟礼豊, 笠野藤彦, 鹿島直子: 蝶形骨洞を主病変とする症例の臨床的検討. *日耳鼻会報*, **108**: 835–841, 2005.
- HKK Tan, YK Ong: Acute isolated sphenoid sinusitis. *Annals Academy of Medicine Singapore*, **33**: 656–659, 2004.
- Gian Luigi Marseglia, Fabio Pagella, Amelia Licari, et al: Acute isolated sphenoid sinusitis in children. *International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology*, **70**: 2027–2031, 2006.
- 福嶋宗久, 宮口 衛, 神原留美, 佐々木崇博: 硬膜外膿瘍を形成した急性蝶形骨洞炎の1症例. *小児耳鼻*, **29**: 205–209, 2008.
- 白井杏湖, 大塚康司, 小川恭生, 他: 意識障害を来した蝶形骨洞炎による硬膜外膿瘍例. *耳鼻展望*, **58**: 99–105, 2015.
- 畠山邦也, 大和俊太, 川島陽介: 激しい頭痛を訴え、蝶形骨洞炎と診断された3例. *小児臨*, **62**: 2387–2391, 2009.
- 渡部 達, 増田怜史, 金城健一, 白井真美, 遠藤彰: 蝶形骨洞炎を伴う methicillin susceptible *Staphylococcus aureus* 敗血症の14歳男児例. *小児臨*, **68**: 2047–2053, 2015.
- 太田有美, 小川賀子, 嶽村貞治, 二宮宏智: 髄液漏と外転神経麻痺をきたした蝶形骨洞炎の1例. *耳鼻・頭頸外科*, **80**: 377–381, 2008.
- 河原 康, 堀田文雄, 田畑安都佐, 白水敬昌, 宮地斉: 蝶形骨洞炎が原因と考えられた開口障害の1例. *日口腔科会誌*, **49**: 122–126, 2000.
- Seigo Urushidani, Akira Kuriyama: Trismus in Sphenoid Sinusitis. *The American Journal of Medicine*, **129**: 23–24, 2016.
- 直井勇人, 橘 智靖, 牧野琢丸, 小松原靖聡, 三森天人: 開口障害を伴った小児蝶形骨洞炎例. *耳鼻・頭頸外科*, **89**: 465–469, 2017.
- Gerald Wolf, Wolfgang Anderhuber, Frederick Kuhn: Development of the paranasal sinuses in children: implications for paranasal sinus surgery. *The Annals of Otolaryngology, Rhinology, and Laryngology*, **102**: 705–711, 1993.
- Anthony J. Scuderi, H. Ric Harnsberger, Richard S. Boyer: Pneumatization of the Paranasal Sinuses: Normal Features of Importance to the Accurate Interpretation of CT Scans and MR Images. *American journal of roentgenology*, **160**: 1101–1104, 1993.
- 池田利昭, 飯沼壽孝: 蝶形骨洞の発育と洞中隔について. *日鼻科会誌*, **38**(2): 206–211, 1999.
- Y. Haimi-Cohen, J. Amir, A. Zeharia, Y. Danziger, N. Ziv, M. Mimouni: Isolated sphenoidal sinusitis in children. *European Journal of Pediatrics*. **158**: 298–301, 1999.

Abstract

SPHENOIDAL SINUSITIS PRESENTING WITH TRISMUS IN A CHILD

Tamaki IKEGAWA¹⁾, Takanori YANAI²⁾, Yoshinori KOBAYASHI³⁾, Yoichi KABURAGI²⁾

¹⁾ *Children's Medical Center, Fujisawa City Hospital*

²⁾ *Department of Pediatrics, National health organization Yokohama Medical Center*

³⁾ *Minami Nagareyama Children's Clinic*

Sphenoidal sinusitis accounts for less than 3% of all sinusitis cases. We report on an 11-year-old boy diagnosed with sphenoidal sinusitis. He visited our hospital with fever and trismus. Blood tests showed increased inflammation: WBC, 6,600/ μ L; CRP, 3.71 mg/dL. Although we could not identify any abnormal findings from contrast-enhanced CT, MRI revealed sphenoidal sinusitis as the cause of trismus. Inflammation of the sphenoidal sinus was suggested to have spread to the medial and lateral pterygoid muscles via the pterygoid processes of the sphenoid. We started treatment with cefotaxime and clindamycin, then changed to cefazolin and cefozopran due to poor response of trismus. Sphenoidal sinusitis was cured after 25 days of antibiotic treatment without any complications or sequelae. This case represents the second pediatric case of sphenoidal sinusitis reported in the world. It is necessary to keep in mind that sphenoidal sinusitis can cause trismus. If sphenoidal sinusitis is suspected to have caused inflammation in surrounding tissues, MRI is warranted.