

臨床報告

慢性海綿静脈洞血栓症の1例

東京女子医科大学 脳神経センター神経内科学教室 (主任:丸山勝一教授)

キクチ	ミユキ	タケウチ	メグミ	ムギシマ	マリ	カメイ	ヒデカズ
菊地	美由起	竹内	恵	麦島	真理	亀井	英一
ウチヤマ	シンイチロウ	コバヤシ	イツロウ	タケミヤ	トシコ	マルヤマ	ショウイチ
内山	真一郎	小林	逸郎	竹宮	敏子	丸山	勝一

(受付 平成元年2月13日)

A Case of Chronic Cavernous Sinus Thrombosis

Miyuki KIKUCHI, Megumi TAKEUCHI, Mari MUGISHIMA, Hidekazu KAMEI,
Shinichiro UCHIYAMA, Itsuro KOBAYASHI, Toshiko TAKEMIYA
and Shoichi MARUYAMA

Department of Neurology (Director: Prof. Shoichi MARUYAMA), Neurological Institute,
Tokyo Women's Medical College

A 51-year-old man was admitted to our Department of Neurology with complaints of a sudden attack of left gaze diplopia and left upper facial pain in June, 1988. He had two similar attacks since 1984. Neurological examination revealed the left oculomotor, trigeminal (first branch) and abducens nerve palsies. Laboratory data showed increases in red blood cell count, blood viscosity, platelet aggregation, plasma β -thromboglobulin and platelet factor 4. Orbital venography showed a filling defect of the left cavernous sinus. Brain CT showed a high density area with contrast enhancement in the left cavernous sinus. On MRI, the left cavernous sinus was isointensity T_1 weighted image and showed no signal in T_2 weighted image. Sinusitis and a mucocele were also found on brain CT and MRI. Based on his clinical course, neurological symptoms and radiological findings, the diagnosis of chronic recurrence of cavernous sinus thrombosis was made. We discussed the mechanisms of recurrence of cavernous sinus thrombosis.

緒 言

神経内科領域で外眼筋麻痺を呈する疾患は多い¹⁾²⁾。なかでも海綿静脈洞症候群, Tolosa-Hunt 症候群, 眼窩先端症候群などは, 臨床症状, 障害神経, 放射線学的検査などの画像所見, 病変部位が類似していることからしばしば鑑別が困難である。今回我々は4年間にわたり左外眼筋麻痺を反復し, CT, MRIなどの画像所見, 血液粘度, 血小板凝集能など凝血学的所見より副鼻腔疾患に伴った慢性の海綿静脈洞血栓症と診断した1例を経験したので, 症例を呈示するとともに, 病因ならびに症状反復の機序について, 若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者: 51歳, 男性。

主訴: 左方視時の複視。

家族歴: 母が胃癌で死亡。

既往歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 昭和59年10月15日, 出勤途中, 左方視時の複視に気付いた(第1回発症), 近医眼科を受診し, 眼科的に問題は無いといわれ, 放置していた。11月中旬頃より左前頭部から左顔面にかけての鈍痛を伴うようになった。11月29日当科初診。このとき左外転神経麻痺が認められたが, ほぼ2カ月で消失した。昭和62年3月20日起床時, 左眼瞼下垂, 左眼球の外転位に気付いた。顔面等の痛

表1 主要検査所見

	第1回発症時 (S59, 11. 29)	第2回発症時 (S62, 3. 20)	第3回発症時 (S63, 6. 10)
髄液	異常なし	異常なし	異常なし
頭部CT	右蝶形骨洞 mucoccele	右蝶形骨洞 mucoccele	右蝶形骨洞 mucoccele 左海綿静脈洞 拡大・石灰化・増強
頭部MRI	未施行	右蝶形骨洞高信号域 (T ₁ ・T ₂)	右蝶形骨洞高信号域 (T ₁ ・T ₂) 左海綿静脈洞無信号 (T ₂)

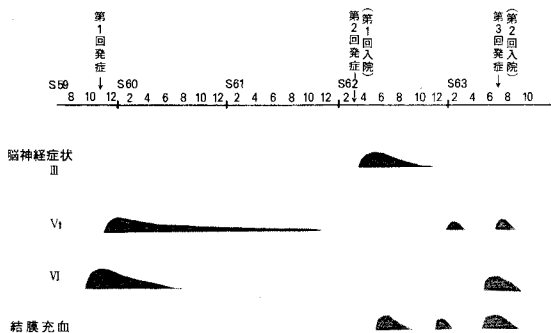


図1 臨床経過

みは無かった。3月30日当科に第1回目の入院(第2回発症), 眼窩静脈撮影では左海綿静脈洞の造影が不良であった。約2週間で症状が軽快した。昭和63年6月10日起床時, 複視に気づき, 左眼の外転制限が出現し, 第2回目の入院(第3回発症)をした。

一般理学的所見: 全経過を通じて左眼球結膜充血を認めた他は異常はなかった。

神経学的所見ならびに経過(図1): 第1回発症時, 左三叉神経第一枝領域の痛みと左外転神経麻痺, 第2回発症時, 左動眼神経麻痺, 左の Horner 徴候, 第3回発症時に左三叉神経第一枝領域の痛みと左外転神経麻痺を認めた。その他の異常は認めなかった。第III・V₁・VI脳神経麻痺が約4年にわたり寛解増悪している。

検査所見: 表1に全経過を通じての主要検査所見をまとめた。全経過を通じて髄液は正常。頭部CTで副鼻腔炎および mucoccele を認めた。第2回入院時, 血算では赤血球数, 血色素の高値を認めた。特殊検査では血液粘度の亢進, ticlopidine

表2 第3回入院時検査所見

一般検査所見

末梢血:

WBC 6440/mm³, RBC 541×10⁴/mm³, Hb 16.5g/dl, Ht 48%, Plt 33.4×10⁴/mm³

血清生化学:

TP 6.7g/dl, Alb 3.9g/dl, T-bil 0.7mg/dl, GOT 10 KU, GPT 9KU, LDH 135mU/ml, ALP 136KAU, LAP 122GU, γ -GTP 27mg/dl, BUN 9.0mg/dl, Cr 0.8mg/dl, UA 4.0mg/dl, Na 140mEq/L, K 3.6 mEq/L, Cl 104mEq/L, T-Chol 237mg/dl, LDL 706 mg/dl, TG 304mg/dl

血沈: 1時間 9mm

特殊検査所見

血液粘度:

	18.75sec ⁻¹	75sec ⁻¹	375sec ⁻¹
全血	6.84	4.80	3.90
血漿			1.27

血小板凝集能:

ADP, AA, PAF は正常

血小板寿命: 6.1日

β -TG 200ng/ml 以上 PF4 247ng/ml

200mg 服用下で血小板凝集能正常, 血小板寿命は短縮, β トロンボグロブリン (β -TG) および血小板第4因子 (PF4) は高値であった(表2)。眼窩静脈撮影(写真1)では左の上眼静脈の P₂ から左海綿静脈洞の造影が不良であった。頭部CT(写真2)では海綿静脈洞に高吸収域が認められ, 造影剤により増強された。頭部MRI(写真3)では左海綿静脈洞は T₁ 強調画像で等信号, T₂ 強調画像では無信号であった。

考 察

本例は, 多年にわたって反復性の左第III, V₁ およびVI脳神経麻痺を呈した一例である。症状から,

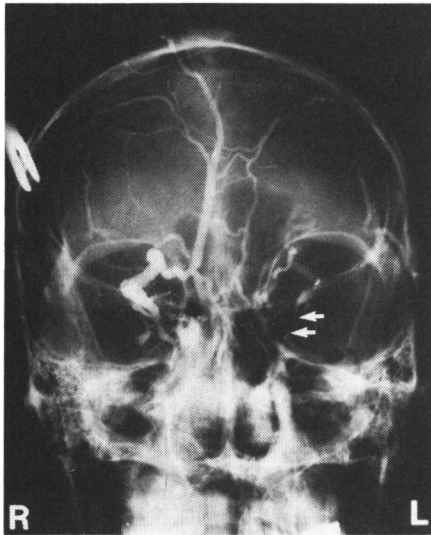


写真1 眼窩静脈撮影

昭和63年6月24日に施行した眼窩静脈撮影である。左上眼静脈のP2から左海綿静脈洞の造影不良が認められる。

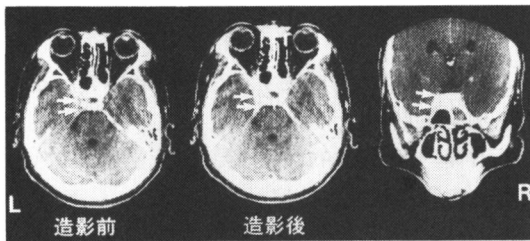


写真2 頭部CT

昭和63年6月25日に施行した頭部CTである。左は造影前、中央は造影後、右は前額断（造影後）である。矢印のように左海綿静脈洞は高吸収域であり造影剤により増強された。

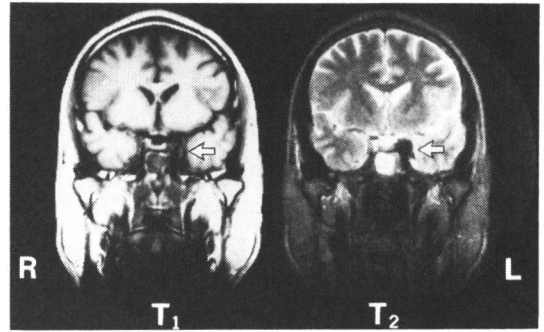


写真3 頭部MRI

昭和63年6月28日に施行したMRI前額断である。左海綿静脈洞(矢印)はT1強調画像で等信号、T2強調画像では無信号であった。

海綿静脈洞症候群, Tolosa-Hunt 症候群, 腫瘍, 多発脳神経炎等の鑑別が必要であった。髄液所見および画像診断により多発脳神経炎は否定的であった。眼窩静脈撮影で左海綿静脈洞の造影欠損を認め、Tolosa-Hunt 症候群との鑑別が必要であった(表3)。この海綿静脈洞の病変は、頭部CTで高吸収域および増強効果陽性であり、MRI T₂強調画像では無信号で、経時的に第1回入院の昭和59年から第2回昭和62年まで一貫して変化していないことから腫瘍は考えにくかった。MRI T₂強調画像で海綿静脈洞が無信号であり、その意義が問題となった。Savinoら³⁾の報告では海綿静脈洞の血栓は初期にはT₁強調画像で無信号、T₂強調画像で低信号を示し、2、3日より1週間は等信号から高信号を示し、1年以上経つと高信号となる。これは初期には血栓がdeoxyhemoglobin

表3 海綿静脈洞血栓症, Tolosa-Hunt 症候群と本例の比較

	海綿静脈洞血栓症	Tolosa-Hunt 症候群	本 例
脳神経麻痺	II III IV V VI	(II) III IV V ₁ VI	III V ₁ VI
交感神経障害	○	(○)	○
障害部位	海綿静脈洞	海綿静脈洞から 上眼窩裂	海綿静脈洞
病 因	隣接組織の炎症 ・感染・外傷	非特異性炎症性 肉芽腫	副鼻腔炎 血栓準備状態
眼 痛	高度	高度	中等度
眼球結膜充血	+	(+)	+
経 過	急性/慢性	急性	急性
再 発	+	+	+

で構成され、経過と共に徐々に methemoglobin に変化するためであり、はじめに T₁強調画像、遅れて T₂強調画像で認められると述べている。また、MRI で無信号を呈するのは流体か骨等の Ca 沈着であるとされている⁴⁾。一方、本例では眼窩静脈撮影において完全閉塞を示していたことから海綿静脈洞内に血流があるとは考えにくく、CT で同部の高吸収域を造影前からみとめていることと併せて、陳旧化した血栓が石灰化したものと考えた。一方、Tolosa-Hunt 症候群では海綿静脈洞以外に病変を認めないとされている⁵⁾が、本例においては CT・MRI 上、慢性副鼻腔炎、mucocele を認め、Tolosa-Hunt 症候群は否定的であった。以上より本症は一部に石灰化を伴った海綿静脈洞血栓症と考えた。また、血小板放出因子の高値や血小板寿命の短縮も血栓の存在を示すと考えた。

海綿静脈洞血栓症は海綿静脈洞周囲の組織の炎症や感染により海綿静脈洞に炎症が波及し、血栓を形成する疾患で、通常は急激に発症する重篤な疾患とされている⁶⁾。しかし、Eagleton⁷⁾は海綿静脈洞血栓症を「急性劇症型」と「慢性代償型」に分類し、慢性例の存在を指摘している。Eagleton によると、慢性代償型は、感染病巣の存在のもと、海綿静脈洞より支流に無菌性血栓を形成し、逆行性に海綿静脈洞に波及し、介在的に起こる感染により症状の発現や増悪をきたすとしている。また、Savino ら³⁾は、多年にわたり症状の反復を呈した一例で、血栓と硬膜の間に fistula が形成され、それによる海綿静脈洞における血栓の形成と再開通が症状の反復をもたらすと推測している。

一方、石川ら⁸⁾は副鼻腔炎における神経障害について報告し、mucocele を伴う例では mucocele 内のうっ血の状態や内圧の変化により神経に対する圧迫の程度が変わり、神経症状が寛解、増悪を繰り返しつつ次第に進行し、mucocele を伴わない例では、骨壁あるいは静脈路を通して炎症が波及するとし、成人では前頭洞炎、篩骨洞炎において多くみられると述べている。本例では CT、MRI 上副鼻腔炎、mucocele が認められ、神経症状の発現に関与していた可能性もあり、それらに伴った血栓形成が考えられた。しかし、白血球増多、血

沈亢進等の炎症所見に乏しく、臨床的にも頭痛と複視があるのみで、意識障害等はなく、従来言われている海綿静脈洞血栓症としては臨床所見に乏しかった。しかし、症状発現期に一致して鼻汁など副鼻腔炎の増悪を思わせる症状が認められた。さらに、血液粘度亢進、血小板凝集能亢進、血小板寿命短縮、 β -TG、PF4 の増加等血栓形成の促進を示唆する所見が認められ、無症状期においても赤血球増多、軽度の血小板凝集能亢進があり、血栓準備状態も示唆された。以上のことから本例は副鼻腔炎、mucocele を基盤として海綿静脈洞に血栓を形成し、副鼻腔炎の感染による血栓形成と再開通が症状の寛解、増悪をきたした Eagleton の慢性代償型の海綿静脈洞血栓症と考えられた。

最近神経内科領域においても耳鼻科疾患に伴う脳神経麻痺の報告が増えており、注目される⁹⁻¹¹⁾。

なお、本例では第2回入院後、消炎剤、抗血小板剤、循環改善剤の投与を行い、1989年1月現在、症状の再発を認めていない。

結 語

1. 多年にわたり反復する左外眼筋麻痺を呈した1例を報告した。
2. 神経放射線学的検査所見、臨床経過より慢性再発性海綿静脈洞血栓症が示唆された。
3. 原因として慢性副鼻腔炎の炎症波及および血栓準備状態の関与を考えた。

御教示頂いた本学神経放射線科小林直紀教授に深謝致します。本論文の要旨は第276回東京女子医科大学学会例会（昭和63年11月10日）において発表した。

文 献

- 1) 平山恵造：「神経症候群」，pp141-152，文光堂，東京（1971）
- 2) 芝崎 浩：複視と全身疾患，神経眼科 1：137-144，1984
- 3) Savino PJ, Grossman RI, Schatz NJ et al: High-field magnetic resonance imaging in the diagnosis of cavernous sinus thrombosis. Arch Neurol 43: 1081-1082, 1986
- 4) 喜多村孝一，加川端夫，赫 彰郎：「中枢神経疾患の MRI」，中外医学社，東京（1987）
- 5) 櫻木良友，山田 弘，坂本 武ほか：Tolosa-Hunt syndrome—症例報告と clinical criteria に関する検討—。臨眼 32：851-855，1978

- 6) 平岩幹男, 田島 剛, 川生泰子ほか: Cavernous sinus thrombosis (海綿静脈洞血栓症) の一男児例. 帝京医誌 6: 329-335, 1983
- 7) **Eagleton W**: Cavernous Sinus Thrombophlebitis and Allied Septic and Traumatic Lesions of the Basal Venous Sinuses. Macmillan Company, New York (1926)
- 8) 石川 進, 桑原 敏, 松本茂男ほか: 副鼻腔粘液嚢腫・副鼻腔炎による神経障害. 臨床神経 25: 1184-1191, 1985
- 9) 竹山 勇: 耳鼻科疾患と眼窩病変. 眼科 Mook 13: 108-118, 1980
- 10) 織茂智之, 土屋邦秋, 黒沢崇四ほか: 頭痛と外転神経麻痺を呈した副鼻腔炎の 2 症例. 神経内科 32: 273-275, 1985
- 11) 巽千賀夫, 飛松省三, 糸山泰人ほか: 再発性の視力障害と片麻痺を呈し多発性硬化症が疑われた副鼻腔 mucocele. 神経内科 24: 393-396, 1986
- 12) 久野宣年, 田中弘道, 高橋和郎ほか: 再発性視力障害を示した篩骨洞嚢胞. 神経内科 26: 186-188, 1987