

琉球大学学術リポジトリ

[原著]興味ある経過を示したBrain stoneの1例

メタデータ	言語: 出版者: 琉球大学保健学部 公開日: 2014-07-18 キーワード (Ja): キーワード (En): 作成者: 高木, 繁幸, 中山, 顕児, 石井, 睦, Takaki, Shigeyuki, Nakayama, Kenji, Ishii, Chikashi メールアドレス: 所属:
URL	http://hdl.handle.net/20.500.12000/0002016449

Abstract

THE SIGNIFICANCE OF THE ABSCENCE OF STAPEDIAL REFLEX AND ITS PRACTICE

Chikako KIYUNA, Yumiko SHIKINA and Yutaka NODA

Department of Otorhinolaryngology, College of Health Sciences, University of the Ryukyus

The measurement of stapedial reflexes using an impedance audiometry is useful for a clinical diagnosis of neuro-otology.

The stapedial reflexes are absent in the lesions of the stapedial arc, for example, middle ear dysfunction, sensorineural hearing loss, retrocochlear lesions, and facial palsy.

We have concluded the significance of the absence of the stapedial reflex from the literatures and investigated the actual cases of our otological clinic.

The stapedial reflexes were absent in the middle ear dysfunctions, for example ossicular discontinuity, otosclerosis, tympano-sclerosis, serous otitis media, Eustachian tube insufficiency, etc.

The measurement of stapedial reflex in sensori-neural hearing loss is useful for an objective test of recruitment phenomenon and also for a differential diagnosis of cochlear disorder from retrocochlear one.

Further it seemed to make a topographic diagnosis of facial palsy and decide its prognosis.

However, we must notice that the diagnosis must not be made only with the findings of impedance audiometry, but with other clinical findings, especially in brain stem disorders.

(Ryukyu Univ. J. Health Sci. Med. 2(4))

興味ある経過を示した“Brain stone”の1例

琉球大学保健学部付属病院脳神経外科

高木繁幸 中山顕児 石井 睦

はじめに

頭蓋内石灰化には生理的石灰化および病的石灰化の2種類があることは周知のとおりであり、病的石灰化は主として、血管性病変、炎症性病変、寄生虫症、外傷の慢性期、脳腫瘍、内分泌障害、代謝障害等の疾患に合併するもので、その診断的意義は大きい⁹⁾。今回、我々は、長期間痙攣を主症状とし、頭蓋内に大きな石灰化腫瘤を持ついわゆる“Brain stone”と思われる症例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

患 者：39才 男性 無職

主 訴：長期間にわたる痙攣発作

家族歴：特記すべき事なし

既往歴：特記すべき事なし

現病歴：13才時、複視を訴えることに始まり、次第に視力低下を来たした。14才時、東京の某大病院脳外科で、脳腫瘍と診断されたが手術を拒否している。帰沖後、14才頃より、痙攣発作が頻発し、痙攣はJacksonian seizureで右顔面、右上肢、右下肢の順に起こりTodd's palsy, 特にRt. hemiparesis motor aphasiaも出現してきた。近医にて抗痙攣剤の投与をうけながら痙攣はコントロールされていたが、最近抗痙攣剤の投与によるコントロールが困難になり来院した。現在まで、著明な頭蓋内圧亢進症状はなく、視力障害の進行性の増悪は認められなかった。

入院時所見：体格中等、栄養良好、意識清明であるが無気力であった。神経学的検査では、視力障害(RV:0.02, LV:0.01)、両側視神経萎縮、軽いfinger tremor slowly speechであ

った。

臨床検査所見：血液検査(WBC:7,000, RBC:566×10⁴, HGB:16.0g, HCT:48.8%, 血沈:1時間5mm, 2時間15mm)・医化学(BUN:15mg/dl, glucose:95mg/dl, creatinine:1.08mg/dl, creatine:0.56mg/dl, Na:148mg/dl, K:4.9meq/dl, Cl:104meq/dl, Ca:4.7meq/dl, GOT:15iu, GPT:18iu, Al-phos:6.3u, LDH:182. 尿検査:正常, 腎機能検査:PSP正常トキソプラズマテスト(1:128), 糞便検査(虫卵(-), 培養検査:連続7回全て(-), 出血時間(Duke法:4分30秒), 凝固時間(L.W法:6分)。

頭部単純レ線および頭部断層撮影所見：左前頭葉部に、境界鮮明でひょうたん形のいわゆるbrain

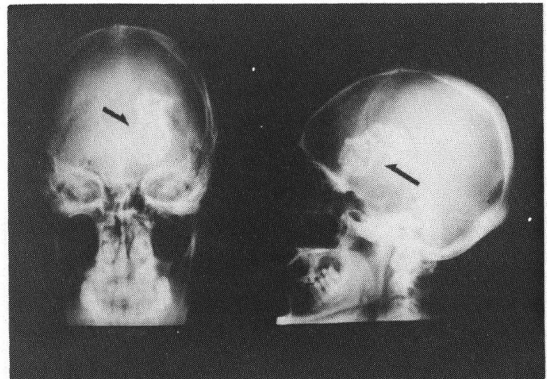


Fig.1. Skull x-p so-called brain stone. (arrow)

stoneといわれる、大きさ(6cm×3.5cm×3.5cm)の石灰化陰影を認めた。断層撮影でこの石灰化像を見ると、この腫瘤は左前頭葉内にあるもので、前頭蓋底とは何らつながりはないと判断した。

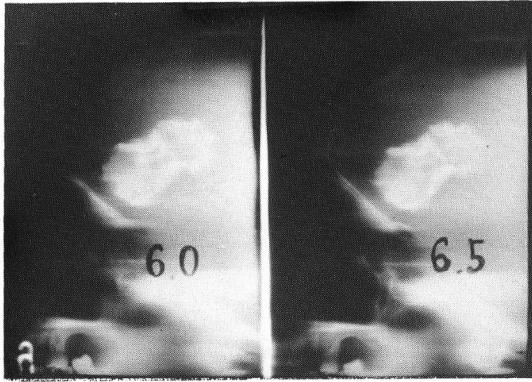


Fig. 2. Tomography shows that brain stone is not in contact with frontal base.

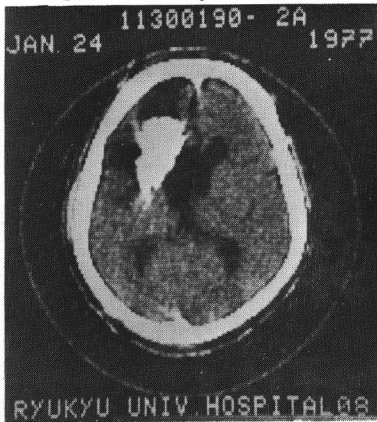


Fig. 3. CT scan shows wide high density of left frontal region and porencephaly and brain atrophy. (pre-operation)

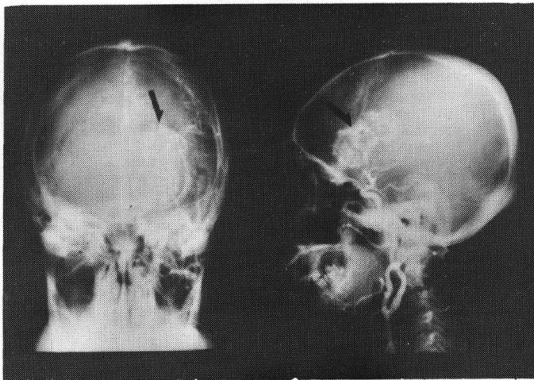


Fig. 4. A left common carotid angiogram shows the normal findings. (arrow is brain stone)

CTスキャン所見：左前頭葉内にEMI No. 110-520の高い吸収係数をもつ high density areaが存在し、周囲に porencephaly および brain atrophy の所見を認めたが、脳室の拡大、偏位および脳室周囲の edema は見られなかった。

EEG所見：左前頭から側頭部にかけて、不規則な徐波の出現が見られた。鋭波、棘波の出現は見られなかった。

髄液所見：腰椎穿刺で初圧 135 mmH₂O-100 mmH₂O (排液; 5 ml) 水様透明、クェッケンステット陽性、比重 1.007 pH: 7.1 細胞数 1/3, 総蛋白量 43 mg/dl, グロブリン反応陰性、糖 43 mg/dl, クロール 117 mg/dl で正常範囲にあった。

肺吸虫皮内反応：肺吸虫皮内反応 (Lot No. 770401 使用) 1回目: 直後 (膨疹 4×5 mm) 15分後 (膨疹 7×4 mm) 2回目: 直後 (膨疹 3×3 mm) 15分後 (膨疹 3×4 mm) で、判定は陰性であった。

CAG所見：大きな腫瘍が存在するにもかかわらず、前・中大脳動脈いずれの走行にも異常が見られず normal CAG と判断した。

手術所見：左前頭側頭開頭術を施行した。開頭時の硬膜の緊張は強くなく、脳圧亢進はほとんどないものと思われた。硬膜切開後の脳所見では brain atrophy が認められた。腫瘍は脳表から触知出来、atrophy の著明な部分より脳を切開しアプローチした。腫瘍は周囲との癒着もなく、血管との関係も全く見られなかった。脳室とは交

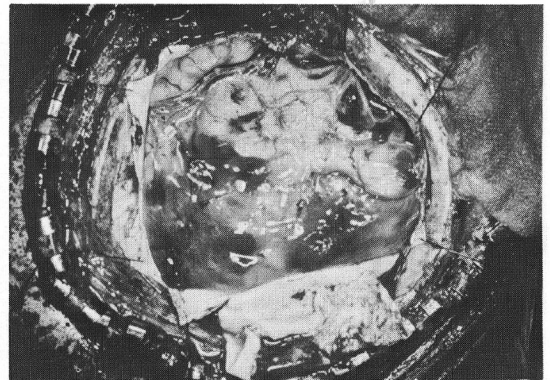


Fig. 5. Operative photograph shows the surface of atrophic brain and porencephaly. (arrow is frontal lobe)

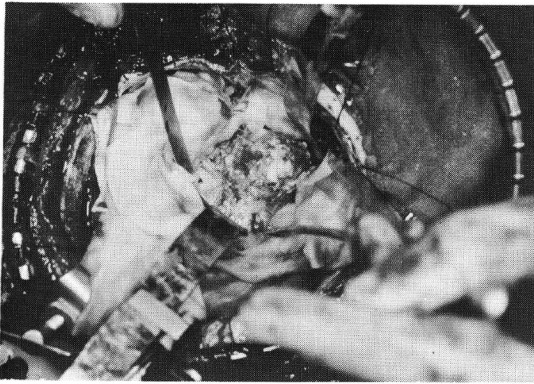


Fig. 6. Operative photograph shows the removal of brain stone.

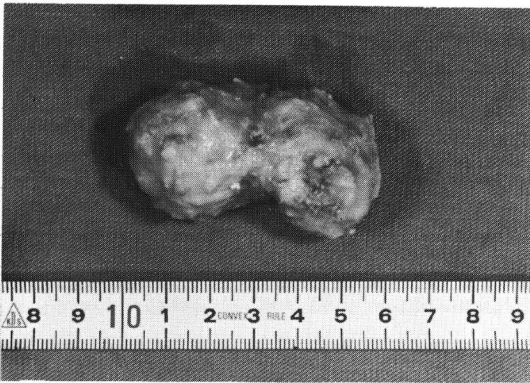


Fig. 7. Extricate brain stone.
(ca. 40 g. 6.0×3.5×3.5 cm)

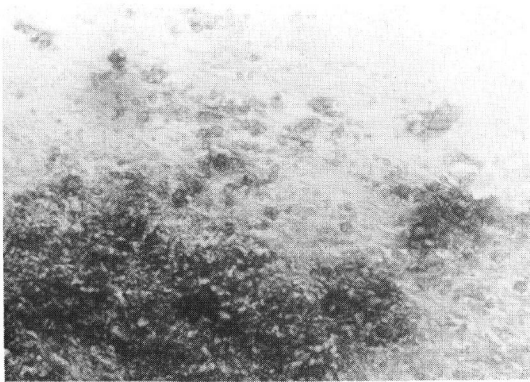


Fig. 8. Histological findings; A capsule is formed with fibrous tissue and necrotic tissue and calcification are existed.
(H-E stain, × 40)

通しており、腫瘍は容易に摘出できた。

摘出腫瘍所見：重さ約40gの腫瘍で術前検査で予想された大きさと一致した。表面は硬く石灰化そのもので、断面は周囲が硬く骨様で、内部は灰白色のチーズ様の内容物で満たされていた。光顕組織像では、周辺にはfibrous tissueよりなるcapsuleがあり、中にnecrotic tissue, calcificationが認められたが炎症性変化は見られず tumorの所見も見られなかった。

術後経過：術直後より39℃台の高熱が2週間続き、項部硬直、頭痛などの髄膜刺激症状がみられたが、髄液所見、その他の検査で髄膜炎を決定づける所見はなかった。腰椎穿刺による採取髄液は、術後10日間程血性で初圧は2週間程200 mm H₂O前後で経過した。術後20日目頃には平熱となり、髄液圧も正常範囲にもどった。術後2週間目のCTスキャンでは以前の腫瘍部にlow density areaが見られる以外は術前と変化はなかった。術後3～4週間目頃より、四肢に軽い tremor が出現し、術後2ヶ月目には右上肢を中心に tremor が増悪し、歩行不能になった。眼球振とう scanning speech などの小脳症状をみるようになり、CTスキャンでは、両側側脳室の拡大、左前頭部の porencephaly の増大、第4脳室の著明な拡大を認めた。

RI cisternogram は extradural space に RI の leak があり、はっきりしないが軽度の ventricular reflux stasis を認めた。

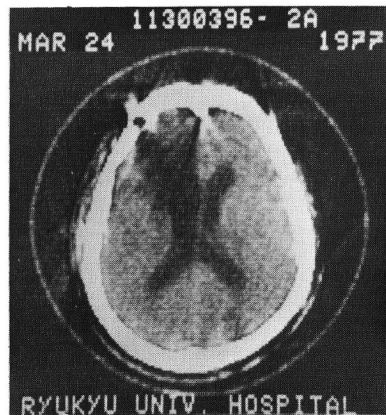


Fig. 9. CT scan, after operation, shows no abnormal low density area.
(14 th post op.)

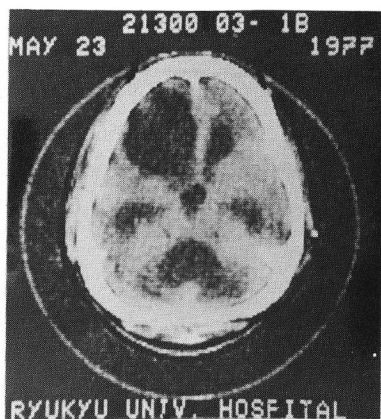


Fig. 10. CT scan shows remarkable all ventricular dilatation. (2nd month post op.)

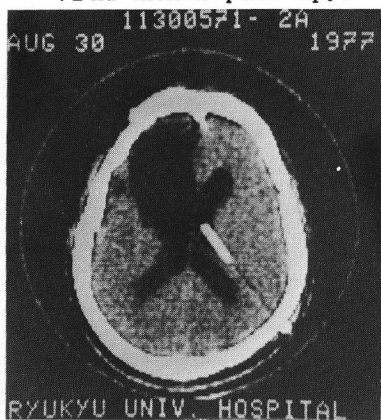


Fig. 11. CT scan shows the reduced lateral ventricle. (after V-A shunt operation.)

術後2ヶ月目にV-Aシャント術を施行した。シャント術後の経過は順調で、術後のCTスキャンでは、左前頭葉部の porencephaly を除き、両側側脳室および第4脳室はほぼ正常の大きさになって来た。臨床症状としての tremor, 小脳症状も軽快し、現在抗痙攣剤を投与しながら外来で follow-up 中である。

考 按

“Brain stone” 或いは “Cerebral calculi” ということばの起りは古く、1913年に Schuller によって命名されているようであるが、この種の最初の報告は、1922年 Miller⁶⁾ によって紹介された。しかし過去には、このことばの定義は確立されておらず、かなりあいまいに使用

されて来たようである。過去の報告は、Miller⁶⁾、O'sullivan⁸⁾ Levin⁵⁾ Buckley²⁾ Grantham³⁾ Tiberin¹⁰⁾ などがあげられるが、竹内⁹⁾によれば“Brain stone”とは、頭部単純レ線像で頭蓋内にある濃い均等な石灰化陰影で、境界は明瞭であり、石灰化として見える陰影が腫瘤そのものの大きさをそのまま示し、不定形の物質として写し出されて来るものであると言っている。しかしその大きさの定義については文献上では見出されない。石灰化の条件として、全身的には、高令化、アチドーシス、石灰代謝障害(副甲状腺機能亢進、ビタミンD中毒、高Ca血症)などがあり、局所的には、局所の炎症、壊死、硝子化により組織の不活性化が炭酸ガス濃度の低下を招き、周囲からの石灰の沈着力が亢進するとされている⁹⁾。そこでこの brain stone の origin としては過去の報告からみて、慢性の外傷性出血、新生物の炎症性変化、あるいは退行性変化、ゆっくり發育するタイプの脳腫瘍、慢性期の脳膿瘍、結節性硬化症、脳血管障害(特に古い脳出血) toxoplasmosis, hypoparathyroidism secondary - hypoparathyroidism, tuberculoma²⁾~¹⁰⁾などがあげられる。このうち外傷性血腫による石灰化の報告が最も多いようである¹⁰⁾。しかし共通して言えることは、我々の症例も同様であるように、確実に origin がこれであるという報告はほとんどなく、推測の域を脱しないようである。これは、そのほとんどが長い経過の end-stage としての石灰化変性であるからと考えられる¹⁰⁾。臨床的には頭蓋内圧亢進症状を示すことが少なく、ほとんどの例が、てんかん発作の症状で経過している。しかも経過は長期的で、数十年というのも決して珍しくなく⁶⁾、明らかに石灰化による症状であるにもかかわらず、頭部単純レ線を撮るまで idiopathic epilepsy と診断されたり、無視されたりして経過している^{2), 3), 4)}。抗痙攣剤でコントロールが困難になったという報告もある³⁾。てんかん発作の形もさまざままで Jacksonian seizure から general seizure そのうえ tonic type および clonic type の両方共あり、意識障害を伴うものが多い¹⁰⁾。痙攣発作と brain stone が直接関係しているかは不明であるが、脳波は brain stone

に一致した部分に徐波化が見られたという報告が多い^{2), 3), 5), 6), 10)}。brain stoneの好発部位としては、決まった場所はないようであるが、文献的にはtemporal lobeに多いようである。好発年齢もさまざまで、8才から60才まであり、やゝ男性に多いようである。治療に関しては、その多くが摘出手術によって、痙攣発作が治癒したり、軽減し、脳波も正常にもどっている¹⁰⁾。しかしTiberinらは摘出手術の際、腫瘤周辺のnecrotic tissue内にも正常神経細胞があるので、慎重に手術をするよう述べている。我々の症例は、前述した石灰化を来す種々の原因疾患のうち、明らかに除外出来る疾患を除いても、外傷、脳膿瘍、結核、寄生虫症などを思わせる既往もなく、原因疾患を決定することは困難であった。ただ我々は、摘出標本、光顕標本を見た限りでは、脳膿瘍ではないかと考えている。Tiberin等の報告では、過去に先入達がbrain abscessの石灰化について議論しているが、脳膿瘍の石灰化は、capsuleの結合組織が、その慢性期において硝子様変性を来し、長い間に石灰化されていくのではないかと述べている。術後経過中に起った、四肢のtremor及び小脳症状は¹¹⁾、手術時に、脳室系、くも膜下腔へ血液の混入による刺激、もしくは脳室炎、くも膜炎などが原因か、あるいはLuschka孔Magendie孔以下の不完全閉塞で、髄液循環障害を惹起し、全脳室系が拡大したものと考えられている。この症例はAdams¹⁾等の言うNPH(normal pressure hydrocephalus)の概念とは少し異なり、従来のNPHの症状が揃っていなかったが、V-Aシャントで著明な症状の改善をみた。

結 語

長い期間の痙攣発作を主症状としたbrain stoneの1症例を経験した。本症例は初発より26年間もの経過を経て摘出術が行なわれ、術後経過中に、興味あるNPH様の症状を呈した。brain stoneの原疾患及び症状、更には術後の興味ある経過について若干の文献的考察を加え報告した。

(本論文の要旨は、日本神経学会第59回九州地方会に於て発表した。)

参考文献

- 1) Adamus, R.D., et al. : Symptomatic occipital hydrocephalus with normal cerebrospinal fluid pressure, A treatable syndrome. *New Eng. J. Med.* 273, 117-126, 1965.
- 2) Buckley, R.C. : Intracerebral calculi. *Arch. Neurol. & Psychiat.* 23, 1203, 1930.
- 3) Grantham, E.G., and Smolik, E.A. : Calcified intracerebral hematoma. *Ann. Surg.* 115, 465, 1942.
- 4) 氷室 博, 鈴木 均, 竹山英二, 神保 実, 喜多村孝一: 頭蓋内osteochondromaの1例, *脳神経外科* 5, 1079-1083, 1977.
- 5) Levin, J.J. : Intracerebral calcification. *Brit. J. Surg.* 14, 215, 1927.
- 6) Miller, E.A. : Calculi within the brain. Report of a case of intracranial calcification with successful operation and recovery. *Surg. Gyne. & Obst.* 34, 786, 1922.
- 7) 森信太郎, 魚住 徹, 他: 巨大な石灰化をきたした松果体部腫瘍の1例. *脳神経外科* 5, 1095-1103, 1977.
- 8) O'Sullivan, J. : Some rare intracranial calcification of the meninges. *Brit. J. Radiol.* 30, 295, 1925.
- 9) 竹内一夫: 頭蓋内石灰化像, P56, P168, 医学書院, 東京, 1973.
- 10) Tiberin, P., Beller, A.J. : Observations on so-called brain stones or cerebral calculi. *Neurology.* 13, 464-476, 1963.
- 11) 若井 晋, 青井信彦, 久保田 勝, 水谷 弘: 正常圧水頭症によりパーキンソン様症を呈した側脳室内Subependymal glomerulate astrocytomaの1例. *脳神経外科* 4, 1199-1203, 1976.

Abstract

A case of so-called brain stone.

Shigeyuki TAKAKI, Kenji NAKAYAMA, Chikashi ISHII

Department of Neurosurgery, College of Health Sciences, University of the Ryukyus

Intracranial changes of pathological calcification are accompanied with vascular and inflammatory changes, parasitism, trauma of chronic stage, brain tumor, endocrinological disorder, and metabolic disturbance as main complication. They are of great diagnostic significance.

A case of 39 years old male with brain stone was reported. He began to complain of diplopia at about 13 years of age. His visual power decreased gradually.

A diagnosis of brain tumor was made on him. A surgical treatment was recommended with refusal. Convulsion began to appear frequently at 14 years of age. Right paresis and disturbance of speech were also induced.

Anticonvulsants have been administered up to this time. Recently, the patient has been admitted to the hospital on account of difficulty in controlling convulsion.

Plain skull films showed calcification of hen's egg size in the left frontal lobe.

A surgical operation succeeded in removing a brain stone weighting 40g. Histological examination revealed the presence of necrotic tissue and calcification, but not inflammatory or tumorous changes.

The origin of the changes observed was unknown, since the course of disease was long and changes in clinical symptoms were little. It was presumed, however, to consist in brain abscess.