

前頭洞炎の頭蓋内・頭蓋骨外進展：Pott's puffy tumorと硬膜下膿瘍を発症した2症例の報告

メタデータ	言語: ja 出版者: 浜松医科大学小児科学雑誌編集部 公開日: 2024-03-15 キーワード (Ja): キーワード (En): 作成者: 漆畑, 伶, 平出, 拓哉, 大石, 知也, 山田, 智史, 林, 泰壽, 加納, 康太郎, 石垣, 英俊, 黒住, 和彦, 宮入, 烈, 福田, 冬季子 メールアドレス: 所属:
URL	http://hdl.handle.net/10271/0002000090

症例報告

前頭洞炎の頭蓋内・頭蓋骨外進展：Pott's puffy tumorと
硬膜下膿瘍を発症した2症例の報告

Intracranial and extracranial extension of frontal sinusitis: Two cases of
Pott's puffy tumor with subdural empyema

浜松医科大学小児科¹⁾, 浜松医科大学脳神経外科²⁾, 浜松医科大学耳鼻咽喉科・頭頸部外科³⁾,
浜松医科大学浜松成育医療学講座⁴⁾

漆畑 伶¹⁾, 平出 拓也¹⁾, 大石 知也²⁾, 山田 智史³⁾, 林 泰壽¹⁾, 加納康太郎³⁾,
石垣 英俊¹⁾, 黒住 和彦²⁾, 宮入 烈¹⁾, 福田冬季子¹⁾⁴⁾

Department of Pediatrics, Hamamatsu University School of Medicine¹⁾

Department of Neurosurgery, Hamamatsu University School of Medicine²⁾

Department of Otorhinolaryngology/Head & Neck Surgery, Hamamatsu University School of Medicine³⁾

Department of Hamamatsu Child Health and Development, Hamamatsu University School of Medicine⁴⁾

Rei URUSHIBATA¹⁾, Takuya HIRAIDE¹⁾, Tomoya OISHI²⁾, Satoshi YAMADA³⁾,

Taiju HAYASHI¹⁾, Kotaro KANO³⁾, Hidetoshi ISHIGAKI¹⁾, Kazuhiko KUROZUMI²⁾,

Isao MIYAIRI¹⁾, Tokiko FUKUDA¹⁾⁴⁾

概要

Pott's puffy tumor (PPT) は骨膜下膿瘍を伴う前頭骨の骨髄炎であり、副鼻腔炎の合併症の1つである。PPTは10歳台に好発し、頭蓋内病変を合併することも多い。症例はいずれも10歳、発語減少や不穏、意識障害などの症状を契機にPPTと診断された、硬膜下膿瘍合併の副鼻腔炎である。PPTは前頭洞炎からの進展が最多とされ、症例1, 2いずれも前頭洞から板間静脈を介した進展と判断された。起炎菌は嫌気性菌や日和見菌のことがあり、複数菌種が関与することもある。治療は内科的・外科的治療を併用することが多く、治療経過や予後の観点から適切な選択が重要である。ここに報告する症例では各々、*Fusobacterium* sp.と*Pseudomonas alcaligenes*が検出され、複数菌種を想定した抗菌薬加療を行い、2症例とも外科的治療を要した。副鼻腔炎の頭蓋内合併症は速やかに診断し、細菌学的検索、適切な抗菌薬の選択、適切な時期の外科的治療が重要である。

キーワード: Pott's puffy tumor, 前頭洞炎, 前頭骨骨髄炎, 硬膜下膿瘍, 前頭骨骨膜下膿瘍

〈緒言〉

小児科領域において急性副鼻腔炎は common disease であり、日常診療で遭遇する機会も多い。また、小児の急性副鼻腔炎は眼窩内合併症や頭蓋内合併症、前頭骨膜下膿瘍などをきたすことがある。頭蓋内合併症は前頭洞の急性炎症からの波及が多く、10歳台に多いとされる¹⁾⁴⁾。

Pott's puffy tumor (PPT) は骨膜下膿瘍を伴う前頭骨の骨髄炎であり、小児の PPT において最も多い原因は急性または慢性の副鼻腔炎である⁵⁾。PPT では頭蓋内合併症の頻度が高く、43%~85%と報告がある。頭蓋内合併症で最も多いものは硬膜外膿瘍とされ、次いで硬膜下膿瘍、脳膿瘍、上矢状洞血栓症などである⁵⁾⁸⁾。今回、精神・神経症状を契機に PPT と診断された、硬膜下膿瘍合併の副鼻腔炎 2 症例について臨床像と治療経過を報告する。

〈症例〉

症例 1 10歳, 男児

主訴 発語減少

2023年11月29日 受付, 2024年1月4日 受理

Corresponding Author: 漆畑 伶

〒431-3192 静岡県浜松市中央区半田山 1-20-1

TEL & FAX: 053 435 2312・053 435 2311

E-mail: reiurushi@hama-med.ac.jp

家族歴 特記事項なし
既往歴 熱性けいれん, 発達障害疑い
現病歴

X-13日 38°C 台の発熱, 咳嗽, 眼窩痛, 頭痛を
発症した。

X-11日 発熱が続き近医で上気道炎と診断され
た。クラリスロマイシン内服を開始し解熱傾向とな
った。

X-6日 再び39°C 台に発熱した。

X-5日 誘因なく左前額部に皮下腫瘍が出現した。

X-4日 クラリスロマイシン内服を終了した。

X-1日 頷いて返事するが発語がなくなり, 右上
肢の不全麻痺を発症した。意識障害と頭部 CT で左
前頭部硬膜下の液体貯留がみられた。

X日 当院へ転院した。

身体所見 体温 38.0°C, 心拍数 118 回/分, 血圧
110/81 mmHg, 呼吸数 22 回/分 (整), 経皮酸素飽
和度に異常なし。左前頭部に約 4 cm, 弾性軟の皮下
腫瘍を認めた (図 1)。腫瘍周囲の皮膚に外傷や発
赤, 熱感はなかった。胸腹部に特記すべき異常所見
なし。

神経学的所見: JCS I-3。従命可能だが名前や場所は
言えなかった。復唱や書字も不能であった。処置の
予告などですぐに泣いてしまう様子が目立った。運
動麻痺なし。脳神経異常所見なし。



図1 左前頭部腫瘍 (症例1, X+3日)

左前頭部皮下に約 4 cm の腫瘍を認める (赤矢頭)。発赤, 熱
感, 圧痛はない。穿刺後であり表面に痂皮が付着している。

検査所見 血液検査結果, 髄液検査結果, Multiplex-
Nested PCR 検査, 細菌培養同定検査の結果を表 1,
2 に示す。WBC 24870/ μ L, CRP 11.23 mg/dL と炎症
反応の上昇, 髄液細胞数 47/ μ L と増多を認めた。
抗菌薬点滴静注開始前の皮下腫瘍穿刺液は膿汁で
あり, グラム陰性桿菌が検出され, のちに
Fusobacterium sp. と判明した。覚醒時脳波検査では
左前頭部に 2-3 Hz の高振幅徐波が連続し, 同部位
に棘徐波が散見された。転院前日の頭部 CT, 転院
時の頭部 MRI を図 2 に示す。転院前日の頭部 CT
(図 2A-C) では左前頭部に皮下腫瘍を, 左前頭部
頭蓋内脳実質外, 左上顎洞, 篩骨洞, 前頭洞にも液
体貯留がみられた。転院時の頭部 MRI では左前頭
葉, 側頭葉の硬膜下に辺縁の造影増強効果を伴う液

表1 入院時血液検査, 髄液検査, Multiplex-
Nested PCR検査の結果 (症例1)

血算	生化学				髄液検査	
WBC 24870/ μ L	Na	138mEq/L	LDH	213IU/L	細胞数	47/ μ L
RBC 409x 10 ⁴ / μ L	K	4.0mEq/L	AST	23IU/L	蛋白	132mg/dL
Hb 10.8g/dL	Cl	98mEq/L	ALT	28IU/L	糖	78mg/dL
Plt 59.1x 10 ⁴ / μ L	Ca	9.3mg/dL	T.Bil	0.49mg/dL		
Hct 33.1%	P	4.1mg/dL	CK	443IU/L	Multiplex-Nested PCR	
凝固	TP	8.2g/dL	CRP	11.23mg/dL	鼻腔	RS virus
PT 15.4秒	Alb	3.2g/dL	IgG	1559mg/dL	髄液	すべて陰性
APTT 36.6秒	BUN	7.8mg/dL	IgA	432mg/dL		
FDP-DD 4.4 μ g/dL	Cre	0.38mg/dL	IgM	406mg/dL		

PCR: Polymerase Chain Reaction, RS virus: Respiratory
Syncytial virus.

表 2 細菌培養同定検査結果 (症例 1)

検体 (採取日)	検出菌
血液 (X日)	陰性
髄液 (X日)	陰性
鼻腔 (X日)	<i>Staphylococcus epidermidis</i> 少数 <i>Staphylococcus warneri</i> 少数
皮下膿瘍穿刺液 (X日)	<i>Fusobacterium sp.</i> 2+
鼻腔吸引液 (X+3日)	<i>Staphylococcus lugdunensis</i> 少数
皮下膿瘍切開内容 (X+5日)	陰性
硬膜下膿瘍ドレナージ液 (X+12日)	陰性

Fusobacterium sp. の抗菌薬感受性は発育不良のため判定不能

体貯留がみられた (図 2D-F)。膿瘍周囲の脳は腫
脹しており, 一部皮質から皮質下白質にかけて
T2WI/FLAIR 高信号を示した (図 2G)。拡散強調画
像では頭蓋骨にも拡散制限がみられた (図 2H)。

経過 (図 3) 副鼻腔炎, 前頭骨骨膜下膿瘍を伴う
前頭骨骨髄炎 (PPT), 硬膜下膿瘍と診断した。皮下
膿瘍穿刺液からグラム陰性桿菌が検出され, メロペ
ネム (MEPM) 120 mg/kg/day 点滴静注を開始した。
てんかん発作のリスクが高いと判断しレベチラセ
タム (LEV) 投与も開始した。発語の障害は速やか
に改善し, 解熱したが, X+4 日に嘔吐が出現し,
頭蓋内圧亢進症状と考え D-mannitol 点滴静注を開
始した。皮下膿瘍は改善乏しく, X+5 日に切開排
膿をおこなった。X+7 日, 頭部 MRI で硬膜下膿瘍
は増大傾向であり, メトロニダゾール (MNZ) 25
mg/kg/day を追加し, メチシリン耐性黄色ブドウ球
菌の関与を考慮しバンコマイシン (VCM) も追加し
た。VCM は血中濃度モニタリングでトラフ値 15~
20 μ g/mL となるように維持した。

X+12 日の頭部 MRI (図 3) で膿瘍の改善が乏しく,
内科的治療抵抗性と判断し穿頭ドレナージ術を行
った。術後は経口摂取が増加し, 頭痛などの自覚症
状も消失した。*Fusobacterium sp.* の抗菌薬感受性が
判定不能であり, 複数菌種関与の可能性と中枢神経
移行性を考慮し, 抗菌薬は de-escalation せずに, 定
期的に画像評価を行いながら MEPM+VCM 投与を
継続した。X+30 日頃から全身に抗菌薬の副反応と

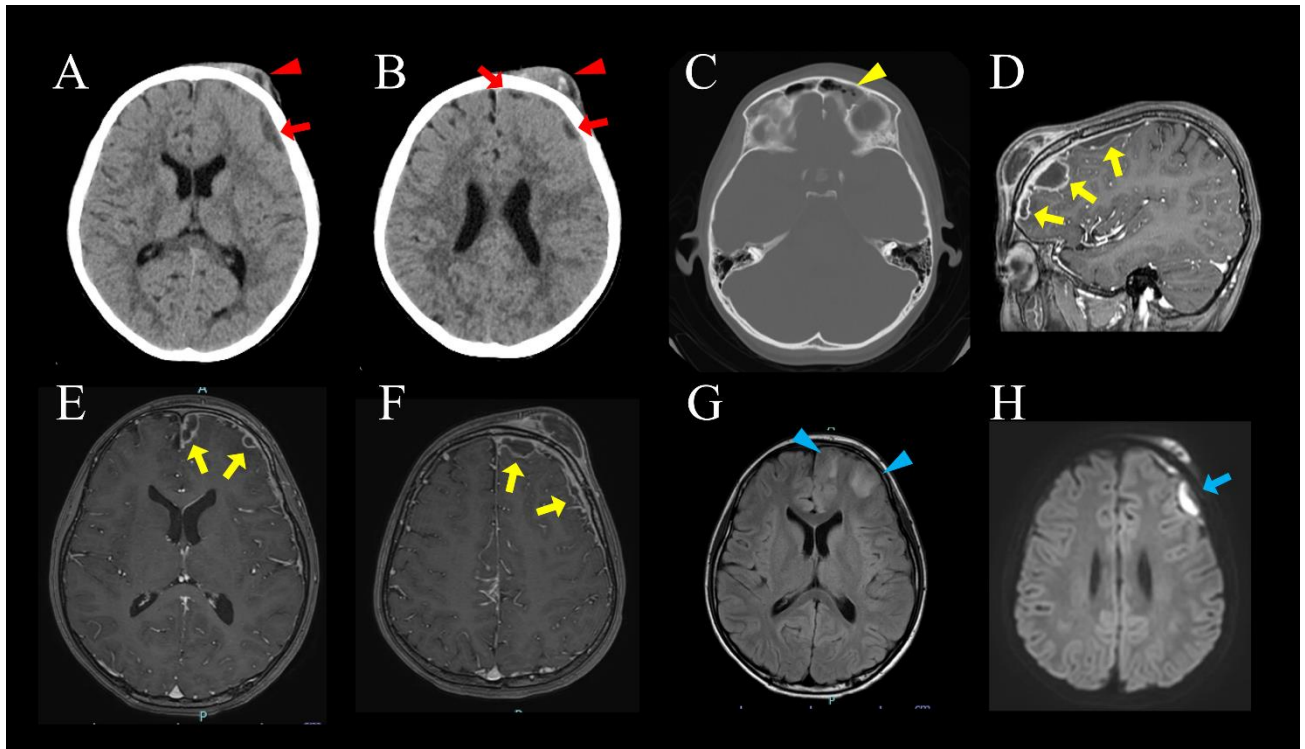


図2 頭部CT, 頭部MRI (症例1)

A-C: 頭部単純CT (X-1日). 左前頭部皮下に腫瘍があり (赤矢頭), 内部は不均一である. 左前頭部頭蓋内, 脳実質外に液体貯留を認め (赤矢印), 内部は脳脊髄液よりも高吸収を示す. 液体貯留に接する大脳の脳溝は不鮮明である. 頭蓋骨に骨折はなく副鼻腔の骨連続性は保たれる. 左上顎洞, 篩骨洞, 前頭洞 (黄矢頭) に液体貯留がみられる. D-F: 頭部MRI 造影T1強調像 (X日): 左前頭葉, 側頭葉の硬膜下に辺縁の造影増強効果を伴う液体貯留があり (黄矢印) 周囲の硬膜は肥厚と造影増強効果を示す. G: 頭部MRI FLAIR (X日): 硬膜下液体貯留の周囲の大脳は腫脹し一部皮質から皮質下白質にかけてT2強調像/FLAIRで高信号 (青矢頭) を示す. H: 頭部MRI 拡散強調像 (X日): 頭蓋骨も拡散制限 (青矢印) を示す.

考えられる搔痒感を伴う丘疹が出現し, 徐々に増悪した. 副腎皮質ステロイド外用と抗ヒスタミン薬内服で症状は軽減し, 抗菌薬は減量・中止せずに継続した. X+41日, 好中球減少と好酸球増多のためVCM投与終了とした. MEPM単剤治療で膿瘍腔は経時的に縮小した. MEPM投与はドレナージ術後8週間の投与ののち, X+68日に終了とした. MEPM中止後の頭部MRIで増悪がないことを確認し退院となった. 臨床的にてんかん発作はみられず, 退院前の脳波検査では覚醒時の徐波やてんかん性発射はみられず, LEV内服中止したが, 中止翌日にてんかん重積となったためLEV内服再開とした.

症例2 10歳, 女児

主訴 発熱, 不穏

家族歴 特記事項なし

既往歴 特記事項なし

現病歴

X-10日 発熱した.

X-8日 不穏となり前医に入院し, 頭痛と左顔面の浮腫が認められた. 発熱は続いており, 血液検査ではWBC 3000/ μ L, CRP 23 mg/dL, 血小板 5.1万

/ μ Lであった.

X-7日 頭部MRIで左上顎洞, 左篩骨洞, 左前頭洞に液体貯留を指摘され, 急性副鼻腔炎による播種性血管内凝固症候群と診断されMEPM 150 mg/kg/day, セフトキシム (CTX) 150 mg/kg/dayで治療開始された. 髄液検査では細胞数 41 / μ Lと上昇していた.

X-6日 複視と左方の見えにくさを訴え, ヒドロコルチゾン投与が開始された. また左上顎洞炎に対して内視鏡下副鼻腔手術 (Endoscopic Sinus Surgery: ESS) が行われた.

X-3日 入院時の頭部MRI (図4) で硬膜下膿瘍を指摘され, 入院時の血液培養から *Pseudomonas alcaligenes* が検出された. 抗菌薬感受性を参考に抗菌薬はスルバクタム/アンピシリン (SBT/ABPC) 300 mg/kg/dayに変更された.

X-2日 頷いて返答するが発語が困難になった.

X-1日 左上下肢の不全麻痺を発症した.

X日 頭部MRIで硬膜下膿瘍が増大し, 37~38°Cの発熱が続くため当院転院となった.

身体所見 体温 37.4°C, 心拍数 85 回/分, 呼吸数

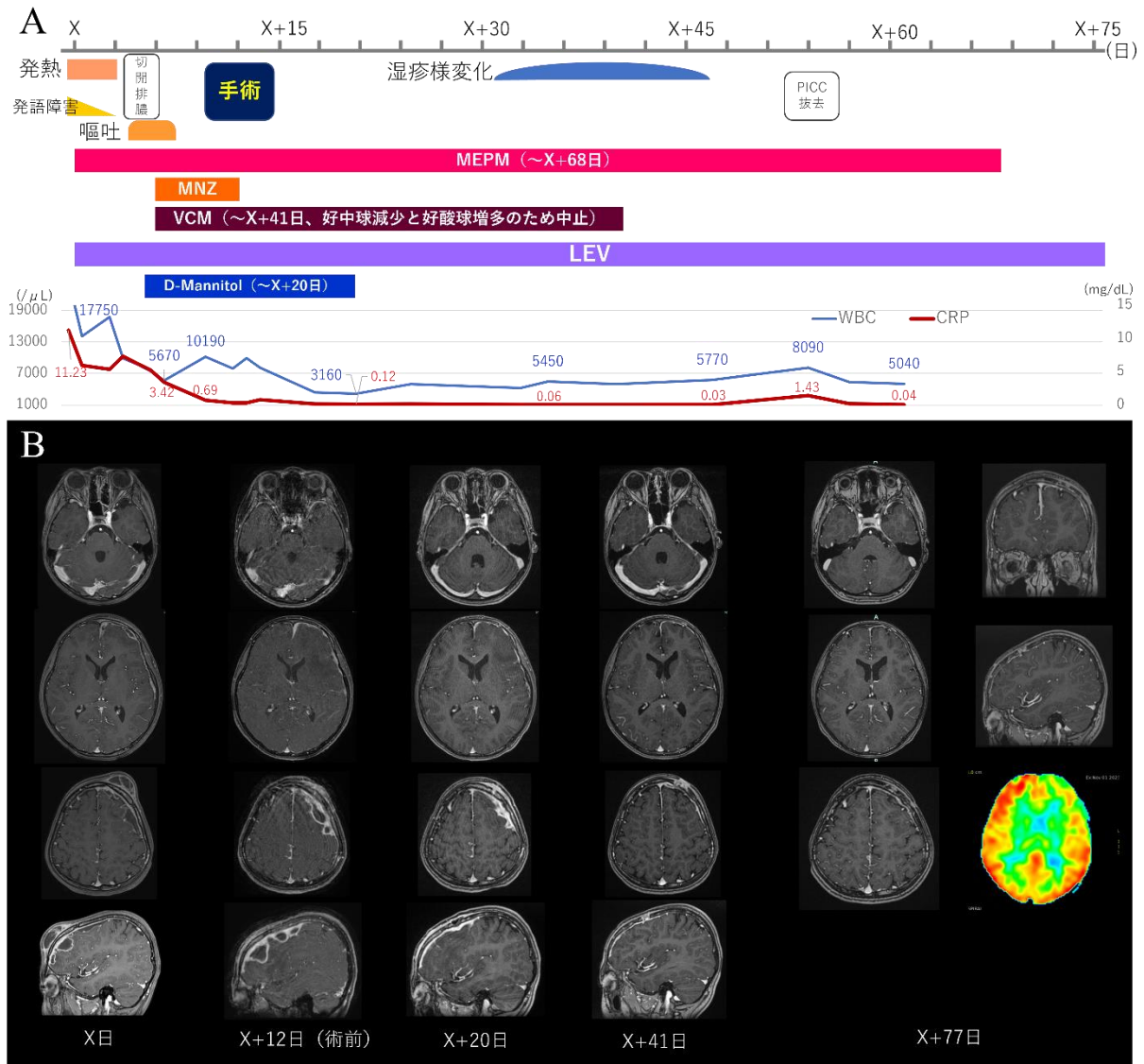


図3 症例1の経過表とMRIの推移

A: 経過表. X+5日に骨膜下膿瘍切開排膿, X+12日に画像所見の改善が乏しく穿頭ドレナージ術を行った. B: MRIの推移. 穿頭ドレナージ術後, 硬膜下膿瘍は消失し硬膜の肥厚は残存するものの縮小傾向となり, 抗菌薬終了後も拡大はない. 治療終了時, 左前頭葉と左側頭様先端部は軽度の萎縮があり対側に比べ血流低下がみられる.

22回/分(不整), 血圧 121/89 mmHg. 呼吸数の漸増・漸減と一過性の呼吸休止を繰り返し, 呼吸休止時に経皮酸素飽和度が一過性に低下した. 左前頭側頭部に疼痛を訴える. 皮下腫瘍は触知しなかった. 胸腹部に特記すべき異常所見なし.

神経学的所見: JCS II-10. 覚醒時は発語が少なく, 痛みを訴えながら泣いたりうなったりする様子が多くみられた. 左口角の動きが対側よりわずかに弱かった. 右上肢の自発運動は左上肢より少ないものの抗重力運動は可能であった.

検査所見 血液検査, 髄液検査, Multiplex-Nested

PCR検査, 細菌培養同定検査の結果を表3, 4に示す. WBC 14370/ μ L, CRP 0.75 mg/dLと炎症反応の上昇, 髄液細胞数 199/ μ Lと髄液細胞数増多, 髄液糖 35 mg/dLと髄液糖低下を認めた. 前医入院時の血液培養, 上顎洞ドレナージ液培養から *Pseudomonas alcaligenes* が同定された. 覚醒時脳波検査では左前頭部に 2-3Hzの高振幅徐波が混入した. 前医初回頭部MRI(X-7日, 図4)で左上顎洞, 篩骨洞, 前頭洞に液体貯留, 頭蓋内脳実質外に液体貯留がみられる. 拡散強調像では頭蓋内の液体貯留に加え, 前頭骨や前頭部皮下にも拡散制限がみ

表3 入院時血液検査, 髄液検査, Multiplex-Nested PCR 検査の結果 (症例2)

血算		生化学				髄液検査	
WBC	14370/ μ L	Na	139mEq/L	LDH	235IU/L	細胞数	199/ μ L
RBC	399x10 ⁴ / μ L	K	3.3mEq/L	AST	24IU/L	蛋白	83mg/dL
Hb	11.1g/dL	Cl	106mEq/L	ALT	33IU/L	糖	35mg/dL
Plt	33.0x10 ⁴ / μ L	Ca	8.9mg/dL	T.Bil	0.69mg/dL		
Hct	32.0%	P	2.9mg/dL	CK	18IU/L	Multiplex-Nested PCR	
凝固		TP	6.3g/dL	CRP	0.75mg/dL	髄液	すべて陰性
PT	13.5秒	Alb	3.6g/dL	IgG	1948mg/dL		
APTT	29.9秒	BUN	7.0mg/dL	IgA	201mg/dL		
FDP-DD	2.6 μ g/dL	Cre	0.38mg/dL	IgM	115mg/dL		

PCR: Polymerase Chain Reaction.

表4 細菌培養同定検査結果 (症例2)

検体 (採取日)	検出菌
血液 (X-8日)	<i>Pseudomonas alcaligenes</i> 1+
上顎洞ドレナージ液 (X-6日)	<i>Pseudomonas alcaligenes</i> 少数 <i>Staphylococcus epidermidis</i> 少数 <i>Staphylococcus hominis</i> 少数
血液 (X日)	陰性
鼻腔 (X+1日)	陰性
血液 (X+4日, 再発熱時)	<i>Candida albicans</i> 1+
PICC先端 (X+4日)	<i>Candida albicans</i> 少数
硬膜下膿瘍ドレナージ液 (X+5日)	陰性

PICC: Peripherally Inserted Central Venous Catheter.

られた. 頭部 CT では頭蓋骨に骨折はなく, 副鼻腔の骨連続性は保たれていた. 転院時の頭部造影 MRI では左大脳半球周囲に, 周囲の造影増強効果を伴う広範な液体貯留が認められた. 液体貯留は X-7 日より増大し, 正中線は右側に偏倚し, 左側脳室は軽度狭小化していた. 拡散強調像における前頭骨や前頭部皮下の拡散制限は残存していた.

経過 (図5) 副鼻腔炎, 前頭骨骨膜下膿瘍を伴う前頭骨骨髓炎 (PPT), 硬膜下膿瘍と診断した. 前医の血液培養と上顎洞ドレナージ液から *Pseudomonas alcaligenes* が同定されていたものの, 未検出の複数菌種感染と中枢神経移行性を考慮し, MEPM 120 mg/kg/day, VCM 投与を開始した. VCM は血中濃度モニタリングでトラフ値 15~20 μ g/mL となるように維持した. てんかん発作のリスクが高いと判断し LEV 投与を開始, 膿瘍拡大による頭蓋内圧亢進に対し D-mannitol 投与を開始した. X+1 日に解熱し, 呼吸不整や傾眠傾向などの症状も改善したが, 頭痛は続いた. 頭痛に対して定期セレコキシブ内服を開始した. 末梢静脈挿入型中心静脈カテーテル (Peripherally Inserted Central venous Catheter: PICC) を留置して治療していたが, X+4 日に一過性の発熱を認め, 血液培養を再度提出した.

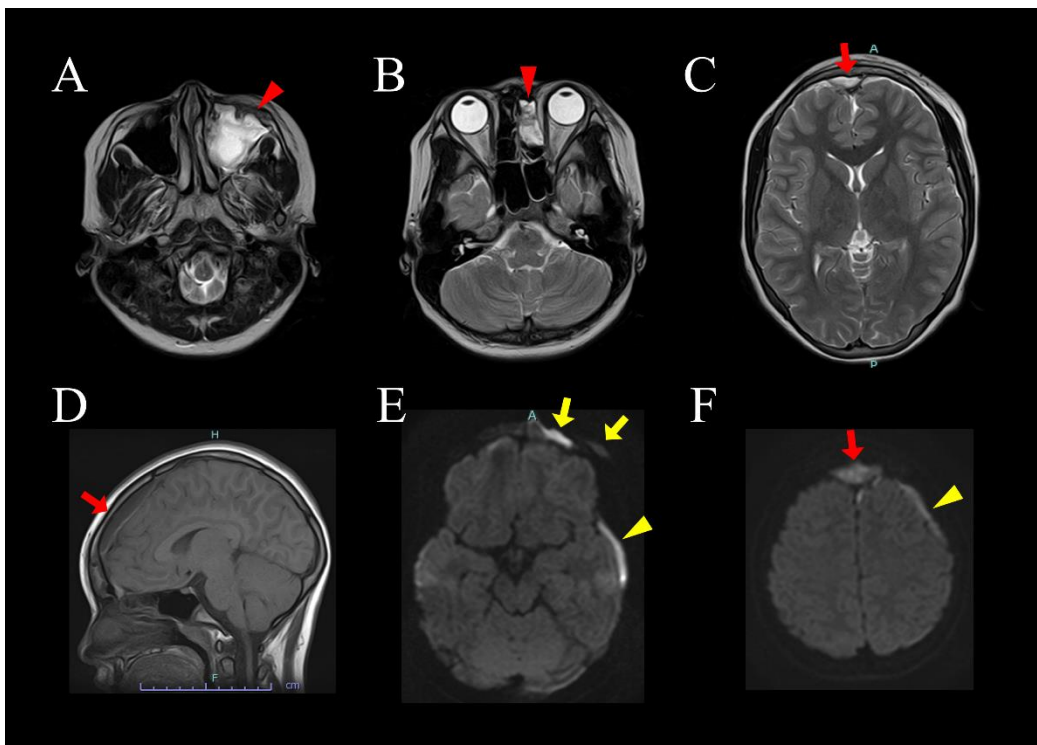


図4 頭部単純MRI (症例2)

A-C: T2強調像 (X-7日). 左上顎洞と篩骨洞 (赤矢頭) に液体貯留がみられる. 前頭部頭蓋内, 脳実質外にも液体貯留がみられる (赤矢印). D: T1強調像矢状断 (X-7日). E-F: 拡散強調像 (X-7日): 頭蓋内の液体貯留に加え, 前頭骨や前頭部皮下も拡散制限 (黄矢印) を示す.

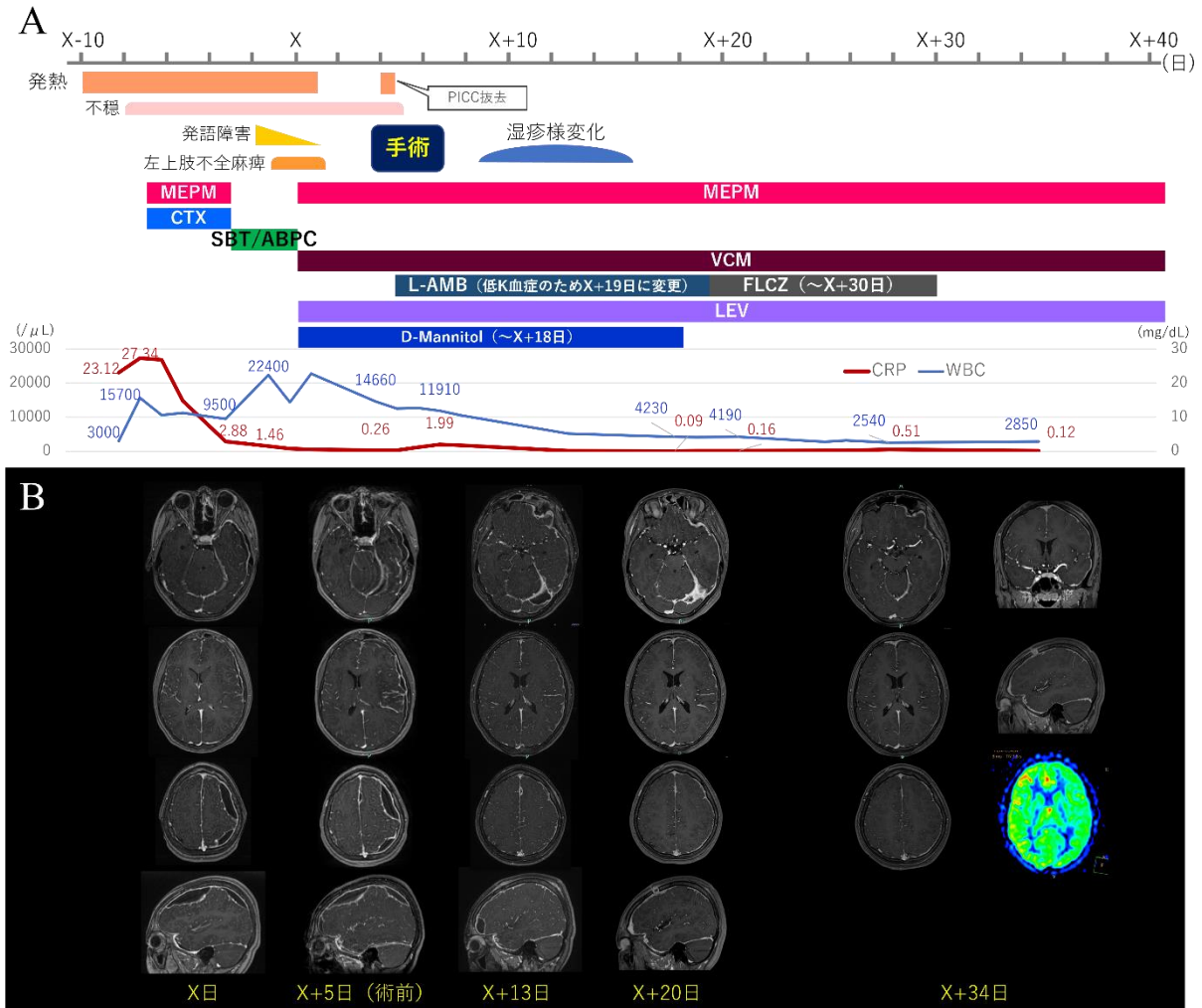


図5 症例2の経過表とMRIの推移

A: 経過表. X+5日に頭痛の改善が乏しく、膿瘍腔拡大を認め穿頭ドレナージ術を行った. B: MRIの推移. 穿頭ドレナージ術後、前頭部、テント部の膿瘍は一過性に拡大を認めたものの内科的治療で消失した. 左大脳半球の血流は右側よりも広範囲で軽度低下している.

X+5日に硬膜下膿瘍の拡大を認め、頭痛も続いていたため硬膜下膿瘍に対し穿頭ドレナージ術、前頭洞炎に対しESSを行った. X+6日になり、X+4日に採取した血液培養と抜去したPICC先端培養から *Candida albicans* が同定されアムホテリシン B (L-AMB) 3 mg/kg/day を追加した. X+8日頃から全身に掻痒感を伴う丘疹が出現し、副腎皮質ステロイド外用と抗ヒスタミン薬内服、セレコキシブ内服中止で軽快がみられたため、抗菌薬は変更しなかった. X+13日の頭部MRIではドレナージ後の膿瘍は縮小していたが、小脳テントや前頭極周囲の膿瘍は拡大した. X+19日、低カリウム血症を認め、L-AMBの副作用と判断し、フルコナゾール (FLCZ) 2.5 mg/kg/day へ変更した. X+20日の頭部MRIでは膿瘍腔の縮小傾向であった. FLCZはX+30日に中止

しMEPMとVCMによる内科的治療を継続した. VCMの副作用と考えられる好中球減少がみられたが投与継続は可能であり、経時的に膿瘍腔は縮小した. 臨床的なてんかん発作はみられず、X+57日の脳波検査では覚醒時の徐波は認めなかったが、画像検査で脳萎縮や血流低下があり、てんかん発症リスクは高いと判断し、LEV内服を継続した.

〈考案〉

Pott's puffy tumor は骨膜下膿瘍を伴う前頭骨の骨髓炎として Percivall Pott によって 1760 年にはじめて報告された. PPT の原因として頭部外傷、副鼻腔炎、薬物使用、菌原性疾患、乳突蜂巣炎などが報告されている¹⁰⁻¹³). Rohde らによる報告では、小児の PPT の原因は急性または慢性の副鼻腔炎が 83.4%と

表5 Pott's puffy tumorの症状

	小児 (n=151) N (% total)	成人 (n=170) N (% total)	全体 N (% total)	P	症例1	症例2
前頭部腫脹	108 (71.5)	131 (77.0)	239 (74.4)	0.305	+	-
前頭部痛	110 (72.8)	79 (46.4)	184 (57.3)	0.001	-	+
発熱	45 (29.8)	30 (17.6)	75 (23.4)	0.012	+	+
眼窩周囲浮腫	83 (54.9)	31 (18.2)	114 (35.5)	<0.001	-	+
膿性または非膿性鼻汁	35 (23.2)	27 (15.9)	62 (19.3)	0.119	+	+
鼻閉	41 (27.1)	16 (9.4)	57 (17.7)	<0.001	不明	不明
顔面の痛み・圧迫感	22 (14.6)	22 (12.9)	44 (13.7)	0.746	-	+
精神状態の変化*	26 (17.2)	10 (5.9)	36 (11.2)	0.001	+	+
視力変化	15 (9.9)	13 (7.6)	28 (8.7)	0.554	-	+
嘔気・嘔吐	23 (15.2)	3 (1.7)	26 (8.1)	<0.001	+	-

*けいれん発作、髄膜刺激徴候、局所神経徴候を含む

文献5)より一部改変

最多であった⁵⁾。

小児科領域において急性副鼻腔炎は common disease であり、日常診療で遭遇する機会も多い。小児急性副鼻腔炎の合併症には眼窩内合併症、頭蓋内合併症、PPT などが知られており、頭蓋内合併症は前頭洞の急性炎症からの波及が多く、10歳台に多いとされる。PPT を合併した患者では頭蓋内合併症も有する頻度が高く、43%~85%とされる^{1)~4)}。頭蓋内合併症で最も多いのは硬膜外膿瘍とされ、次いで硬膜下膿瘍、脳膿瘍、上矢状洞血栓症などが合併するとされる^{5)~8)}。したがって PPT と診断した場合は頭蓋内合併症の検索が必要と考えられる。副鼻腔炎の合併症である前頭骨骨膜下膿瘍と頭蓋内膿瘍の発症機序は、前頭洞からの直接進展と感染性血栓を介した血行性の進展が考えられている⁵⁾¹⁴⁾¹⁵⁾。前頭蓋周囲は静脈叢が豊富であり、前頭洞内の板間静脈は眼窩周囲や頭蓋骨の骨膜に連絡している。板間静脈は壁が薄く、弁が存在しないため、前頭洞で発生した感染性血栓が板間静脈内を移動し膿瘍を形成する。今回報告した2症例では、いずれも前頭洞炎を認め、CT では副鼻腔の骨連続性は保たれおり、前頭洞と骨膜下膿瘍ならびに硬膜下膿瘍の位置関係から、血行性の進展が考えられる。

副鼻腔炎の頭蓋内合併症が10歳台の小児に好発する原因として、前頭洞の発達が関与することが指摘されている。前頭洞は2歳頃に形成され始め、6歳頃にはX線写真で確認できるようになり、思春期まで副鼻腔の成長は続く¹⁶⁾。10歳台前半では成人サイズになり、板間静脈の血管分布が増加する。このため板間静脈を介した骨髄炎、頭蓋内合併症を起こしやすくなるとされる¹⁷⁾¹⁸⁾。また、10歳台は赤色骨髄が多いことも骨髄炎を起こしやすい要因といわれている¹⁹⁾。今回の2症例はいずれも前頭洞炎の好発年齢とされる10歳であった。

Rohde らの報告⁵⁾では、PPT の臨床症状の中で多

いものは前頭部腫脹、前頭部痛、発熱、眼窩周囲浮腫、膿性または非膿性鼻漏であった。けいれん発作や髄膜刺激徴候、局所神経徴候を含む精神状態の変化や視力変化を示したのは比較的少数であった。臨床症状は小児と成人の間で差が認められ、小児では成人よりも前頭部痛、発熱、眼窩周囲浮腫、鼻閉、精神状態の変化、嘔気・嘔吐が多いと報告されている。非特異的な症状も多いなかで、眼窩周囲浮腫や精神状態の変化は、頻度は少ないものの PPT を疑う契機となる可能性がある。Rhode らの報告と今回の症例で確認された症状との比較を表5に示す。症例1,2とも小児のPPTで多いとされる症状を示し、典型的なPPTと考えられる。2症例とも意識障害、発語の障害、感情の不安定、不全麻痺などの精神・神経症状を呈していた点が特徴的であった。

症例1では皮下膿瘍穿刺液から *Fusobacterium* sp. が、症例2では血液培養と上顎洞ドレナージ液から *Pseudomonas alcaligenes* が同定され起炎菌と判断した。PPT における感染症は一般的に多細菌性とされ、前頭洞の酸素濃度が比較的低いため、嫌気性微生物が優勢であるとされる⁸⁾。さらに鼻汁中には複数菌が存在し起炎微生物の決定は困難である一方、上顎洞は本来無菌で一菌種のみを検出されることが多く、起炎微生物と判断するとされる²⁰⁾。これらの理由から症例1では症状、画像所見の増悪のため、症例2では上顎洞から複数菌が検出されたため、いずれの症例とも VCM を追加した。Rohde らの報告⁵⁾では、PPT の起炎菌の検出頻度は *Streptococcus* (35.5%)、*Staphylococcus* (21.2%)、*Fusobacterium* (5.3%)、*Pseudomonas* (3.4%)、*Prevotella* (2.2%) とされ、培養陰性は14.6%であったと報告されている。これらを考慮し、治療開始時は中枢神経移行性も踏まえた経験的な広域スペクトルの抗菌薬の使用も検討する必要があると考えられる。

Fusobacterium 属はグラム陰性桿菌偏性嫌気性桿

菌であり、口腔内・大腸などの消化管や女性生殖器に常在している²¹⁾²²⁾。また上気道感染に引き続く内頸静脈血栓および菌血症、敗血症性肺塞栓がひきおこされるレミエール症候群の原因としても知られており、PPTの起炎菌としても報告されている⁵⁾。*Pseudomonas alcaligenes*はグラム陰性好気性桿菌で、土壌および水中に一般的に生息している。ヒトに対するまれな日和見性病原体として報告がある²³⁾²⁴⁾。このような日和見微生物とPPTとの関係について以下のような機序が提唱されている。前頭洞、周囲の軟部組織の持続的な細菌増殖は微小血管の血栓や静脈うっ滞を引き起こす。これにより骨内の圧上昇、骨梁の広範な壊死を特徴とする炎症反応が起こり、無血管、虚血の環境が形成される。好気的環境から嫌気的環境へ変化することで日和見微生物の増殖が起こり、膿瘍が形成されるという⁵⁾²⁵⁾。症例2についても、このような機序により日和見微生物である*Pseudomonas alcaligenes*が膿瘍形成した可能性があると考えられた。

多くのPPT症例では内科的治療では十分な改善が得られず、外科的治療が必要となることが報告されている⁷⁾⁸⁾。Rohdeらの報告⁵⁾では、副鼻腔炎に対する外科的治療ではESSと外ドレナージ併用が37.7%、外ドレナージ単独が31.8%、ESS単独が27.7%であり、近年はESS単独または併用の割合が増加していた。病勢進行ないし再発は外ドレナージ単独(14.7%)、ESSと外ドレナージ併用(13.2%)、ESS単独(4.5%)よりも内科的治療単独(33%)で有意に多かったとされる。また、頭蓋内病変を有する54例(41.2%)では、開頭または穿頭ドレナージが必要であったと報告されている。副鼻腔炎について、症例1では内科的治療により改善が得られたため外科的治療は行わなかった。症例2では上顎洞炎、前頭洞炎に対しESSを行い、副鼻腔炎の増悪や再燃なく経過した。硬膜下膿瘍について、症例1、2いずれも内科的治療に抵抗性であり穿頭ドレナージを行い、術後には臨床症状が速やかに軽快し、画像所見も改善傾向となった。いずれの症例も手術に伴う有害事象は認めなかった。PPTやPPTに頭蓋内病変を合併した場合には、内科的治療に加え外科的治療の追加を検討する必要があると考えられた。

〈結論〉

精神・神経学的症状を契機にPPTと診断された2症例の経過を報告した。PPTの原因は前頭洞炎からの進展が最多とされ、板間静脈を介した波及や直接伸展が示唆されている。治療は内科的治療と外科的治療の組み合わせが重要であり、頭蓋内合併症は予後に関係するため適切な治療選択が必要である。副鼻腔炎の頭蓋内合併症は速やかに診断し、細菌学的

検索、適切な抗菌薬治療の選択、適切な時期の外科的治療が重要である。

〈引用文献〉

- 1) Hytonen M, Atula T, Pitkaranta A. Complications of acute sinusitis in children. *Acta Otolaryngol Suppl.* 2000; 543: 154–157.
- 2) Lang EE, Curran AJ, Patil N, et al. Intracranial complications of acute frontal sinusitis. *Clin Otolaryngol Allied Sci.* 2001; 26: 452–457.
- 3) Ali A, Kurien M, Mathews SS, et al. Complications of acute infective rhinosinusitis: experience from a developing country. *Singapore Med J.* 2005; 46: 540–544.
- 4) Quraishi H, Zevallos JP. Subdural empyema as a complication of sinusitis in the pediatric population. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2006; 70: 1581–1586.
- 5) Rohde RL, North LM, Murray M, et al. Pott's puffy tumor: A comprehensive review of the literature. *Am J Otolaryngol.* 2022; 43: 103529.
- 6) Ketenci I, Unlu Y, Tucer B, et al. The Pott's puffy tumor: a dangerous sign for intracranial complications. *Eur Arch Otorhinolaryngol.* 2011; 268: 1755–1763.
- 7) Koltsidopoulos P, Papageorgiou E, Skoulakis C. Pott's puffy tumor in children: A review of the literature. *Laryngoscope.* 2020; 130: 225–231.
- 8) Akiyama K, Karaki M, Mori N. Evaluation of adult Pott's puffy tumor: our five cases and 27 literature cases. *Laryngoscope.* 2012; 122: 2382–2388.
- 9) Forgie SE, Marrie TJ. Pott's puffy tumor. *Am J Med.* 2008; 121: 1041–1042.
- 10) Nallani R, Wichova H, McArroy JL, et al. Incidence of Odontogenic Disease in Patients with Pott's Puffy Tumor. *J Oral Maxillofac Surg.* 2021; 79: 389–397.
- 11) Suwan PT, Mogal S, Chaudhary S. Pott's Puffy Tumor: An Uncommon Clinical Entity. *Case Rep Pediatr.* 2012; 2012: 386104.
- 12) Raja V, Low C, Sastry A, et al. Pott's puffy tumor following an insect bite. *J Postgrad Med.* 2007; 53: 114–116.
- 13) Khan MA. Pott's puffy tumor: a rare complication of mastoiditis. *Pediatr Neurosurg.* 2006; 42: 125–128.
- 14) Sandoval JI, De Jesus O. Pott Puffy Tumor, In: *StatPearls [Internet]. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing, 2023.*
- 15) Palabiyik FB, Yazici Z, Cetin B, et al. Pott Puffy Tumor in Children: A Rare Emergency Clinical Entity. *J Craniofac Surg.* 2016; 27: e313–e316.
- 16) Moore K, Ross A. Frontal Sinus Development and Juvenile Age Estimation. *Anat Rec (Hoboken).* 2017; 300: 1609–1617.
- 17) Horáková Z, Smilek P, Gál B, et al. Pott's puffy tumour in adult. *Otolaryngology Case Reports.*

- 2019; 11: 100106.
- 18) Parida PK, Surianarayanan G, Ganeshan S, et al. Pott's puffy tumor in pediatric age group: a retrospective study. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2012; 76: 1274–1277.
- 19) Remmler D, Boles R. Intracranial complications of frontal sinusitis. *Laryngoscope.* 1980; 90: 1814–1824.
- 20) 急性鼻副鼻腔炎診療ガイドライン作成委員会. 急性鼻副鼻腔炎診療ガイドライン 2010年版. 日鼻科会誌, 2010; 49.
- 21) Brook I. Fusobacterial infections in children. *J Infect.* 1994; 28: 155–165
- 22) Sheth SP, Ilkanich P, Congeni B. Complicated Fusobacterium Sinusitis: A Case Report. *Pediatr Infect Dis J.* 2018; 37: e246–e248.
- 23) Suzuki M, Suzuki S, Matsui M, et al. Genome Sequence of a Strain of the Human Pathogenic Bacterium *Pseudomonas alcaligenes* That Caused Bloodstream Infection. *Genome Announc.* 2013; 1: e00919-13.
- 24) Flores-Carrero A, Paniz-Mondolfi A, Araque M. Nosocomial Bloodstream Infection Caused by *Pseudomonas alcaligenes* in a Preterm Neonate from Mérida, Venezuela. *J Clin Neonatol.* 2016; 5: 131–133.
- 25) Joo MJ, Schapira KE. Pott's Puffy Tumor: A Potentially Deadly Complication of Sinusitis. *Cureus.* 2019; 11: e6351.

Case Report

Intracranial and extracranial extension of frontal sinusitis: Two cases of Pott's puffy tumor with subdural empyema

Department of Pediatrics, Hamamatsu University School of Medicine¹⁾

Department of Neurosurgery, Hamamatsu University School of Medicine²⁾

Department of Otorhinolaryngology/Head & Neck Surgery, Hamamatsu University School of Medicine³⁾

Department of Hamamatsu Child Health and Development, Hamamatsu University School of Medicine⁴⁾

Rei URUSHIBATA¹⁾, Takuya HIRAIDE¹⁾, Tomoya OISHI²⁾, Satoshi YAMADA³⁾,
Taiju HAYASHI¹⁾, Kotaro KANO³⁾, Hidetoshi ISHIGAKI¹⁾, Kazuhiko KUROZUMI²⁾,
Isao MIYAIRI¹⁾, Tokiko FUKUDA¹⁾⁴⁾

Pott's puffy tumor (PPT) is an osteomyelitis of the frontal bone with subperiosteal abscess and is a complication of frontal sinusitis. PPT often presents in the 10-year age group and is often complicated by intracranial lesions. We report here two cases diagnosed with PPT who presented at the age of 10 years with diminished speech, agitation and impaired consciousness, in which frontal sinusitis was thought to have caused frontal osteomyelitis and subdural abscess via the diploic vein. *Fusobacterium* sp., anaerobic bacteria were detected in one case and *Pseudomonas alcaligenes*, opportunistic bacteria in the other. When treating PTT and its intracranial complications, antimicrobials should be selected on the basis that multiple organisms may cause the disease, even if only one organism is detected in cultures. Endoscopic sinus surgery for sinusitis and/or perforator drainage for intracranial abscesses should be performed at the appropriate time.