投稿論文
Case Report

〈脳神経外科速報　vol.33 no.6 e20233306a, 2023〉

緊張型脳実質内気脳症の１例

大倉良太[1)]，吉田至誠[1)]，高橋陽彦[1)]，小倉良介[1)]，柿田明美[2)]，大石 誠[1)]，藤井幸彦[1)]
1）新潟大学脳研究所脳神経外科学分野　〒951-8585 新潟市中央区旭町通 1-757
2）新潟大学脳研究所病理学分野

Key Slide

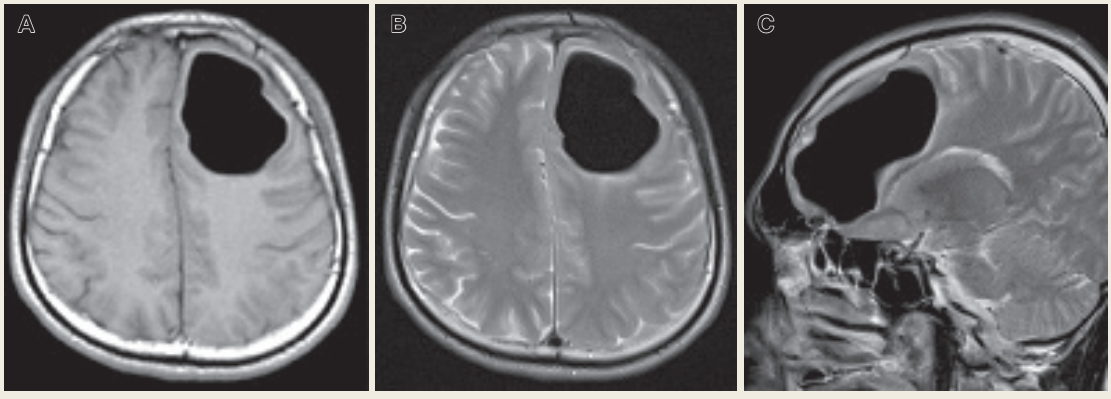

Fig. 1
A-C：A huge cystic mass lesion in the left frontal lobule with low signals on T1-WI, T2-WI.

© MEDICUS SHUPPAN,Publishers Co., Ltd.All Rights Reserved.

A case of intracerebral tension pneumocephalus

Ryota OKURA [1)], Shisei YOSHIDA [1)], Haruhiko TAKAHASHI [1)], Ryosuke OGURA [1)], Akiyoshi KAKITA [2)], Makoto OISHI [1)], Yukihiko FUJII [1)]

1) Department of Neurosurgery, Brain Research Institute, Niigata University
2) Department of Pathology, Brain Research Institute, Niigata University

Clinically, intraparenchymal pneumocephalus without subdural air invasion and cerebrospinal fluid (CSF) leakage is rare. We report a case of intraparenchymal tension pneumocephalus with a small intracranial nodule lesion.

A 33-year-old man with no history of trauma and neurosurgery suffered from progressive headache and motor aphasia. Computed tomography and magnetic resonance imaging radiologic examinations revealed a huge cystic mass lesion suspecting an air component in the left frontal lobe and small nodule comprising enhancing tissue and ossification in the bottom of the cyst. The roof of the ethmoid sinus was thin. We diagnosed an intraparenchymal tension pneumocephalus using the specific one-way channel relating to the nodule lesion. We performed nodule extraction and dural repairment via left frontal craniotomy and observed no clear defect but only small holes on the roof bone of the ethmoid sinus. The pathological diagnosis obtained mucocele and reactive ossification. Two years postoperatively, tension pneumocephalus never recurred.

Generally, pneumocephalus occurs as an air inflow via clear defects of a skull-base bone and meninges in exchange of CSF leakage. Presently, the intracranial small nodule lesion involving mucosal tissue and ossification may indicate previous inflammation and bony repairment and make a one-way channel only through small holes on the skull to the brain parenchyma with tight adhesion according to a pressure balance between the sinus cavity and intracranial space. Pathological mechanisms and surgical procedures for intraparenchymal tension pneumocephalus should be discussed in patients.

Key Words : **Intraparenchymal pneumocephalus, Paranasal sinus, CSF leakage, Spontaneous development**

(Received January 17, 2023; Accepted March 1, 2023)
Correspondence to Ryota OKURA, M.D.,
Department of Neurosurgery, Brain Research Institute, Niigata University, 1-757 Asahimachidori, Chuo-ku, Niigata-shi, Niigata, 951-8585, Japan
E-mail: ryota.okura99 [at] gmail.com

© MEDICUS SHUPPAN,Publishers Co., Ltd.All Rights Reserved.

I. はじめに

頭蓋内に空気を混入する気脳症は頭部外傷や開頭手術後において経験されるものが多く，これらの場合には空気が貯留する部位はくも膜下腔や硬膜下腔となり，脳実質内のみに空気が混入することは稀である[1, 2]．今回我々は，外傷などの既往なく進行性の頭痛と失語症状の増悪を見た脳実質内気脳症に対して手術治療を行った経験を得たので，術中所見や病理学的所見を踏まえ，その発生機序に関する考察を加えて報告する．

II. 症　例

症　例：33 歳男性．

既往歴：アトピー性皮膚炎，アレルギー性鼻炎．

現病歴：若いころに水様性鼻汁が多量に続き 1 日中鼻をかんでいたことが何度かあったが，特に医療機関の受診はなかった．X 年 9 月から時々頭痛を感じはじめ，10 月に入り頭痛は終日となり，言葉が思うように出ないことも自覚し近医受診．頭部 MRI で左前頭葉実質内の腫瘤性病変を指摘され，当院へと紹介を受けた．

身体所見:持続性の頭痛あり．言語理解は良好であるが，言葉の表出に困難あり．脳神経症状と四肢の運動障害などの神経学的異常所見はなし．嗅覚は問題なく，耳鼻咽喉科での鼻内観察において明らかな髄液鼻漏を認めなかった．

画像所見：頭部 MRI で左前頭葉実質内を占拠する嚢胞様の腫瘤性病変を認め，周囲の脳実質への圧迫所見も明らかであった．腫瘤内部は T1 強調像，T2 強調像でいずれも低信号を呈しており（**Fig. 1A-C**），腫瘤下端には前頭蓋底部に隣接するように造影効果を示す小結節が存在し（**Fig. 1D**），CT では同結節に骨化所見も認められた（**Fig. 1E-G**）．頭部単純 Xp 所見とも合わせ（**Fig. 1H**），腫瘤内部は空気成分であると判断された．なお，前篩骨洞上壁は菲薄化してはいるものの大きな欠損までは見当たらなかった（**Fig. 1E-G**）．

手術治療：小結節病変が脳内への空気混入と関連している可能性と病歴から髄液鼻漏を繰り返していた可能性も考慮し外科的治療を行った．左前頭開頭で前頭蓋底部の硬膜外を剥離し結節性病変へと到達した．この結節は篩骨洞上壁に相当する前頭蓋底骨板にも堅固に癒着していた．また周囲の硬膜は極度に菲薄化し，結節は硬膜欠損部から硬膜内に埋没していたため，まずはこの硬膜片を切開除去し，結節本体を完全露出した（**Fig. 2A**）．この結節部ではくも膜と軟膜は欠損しており，そのまま連続して脳実質にも埋没していた．これを脳から剥離してゆくと実質内の腫瘤性

© MEDICUS SHUPPAN,Publishers Co., Ltd.All Rights Reserved.

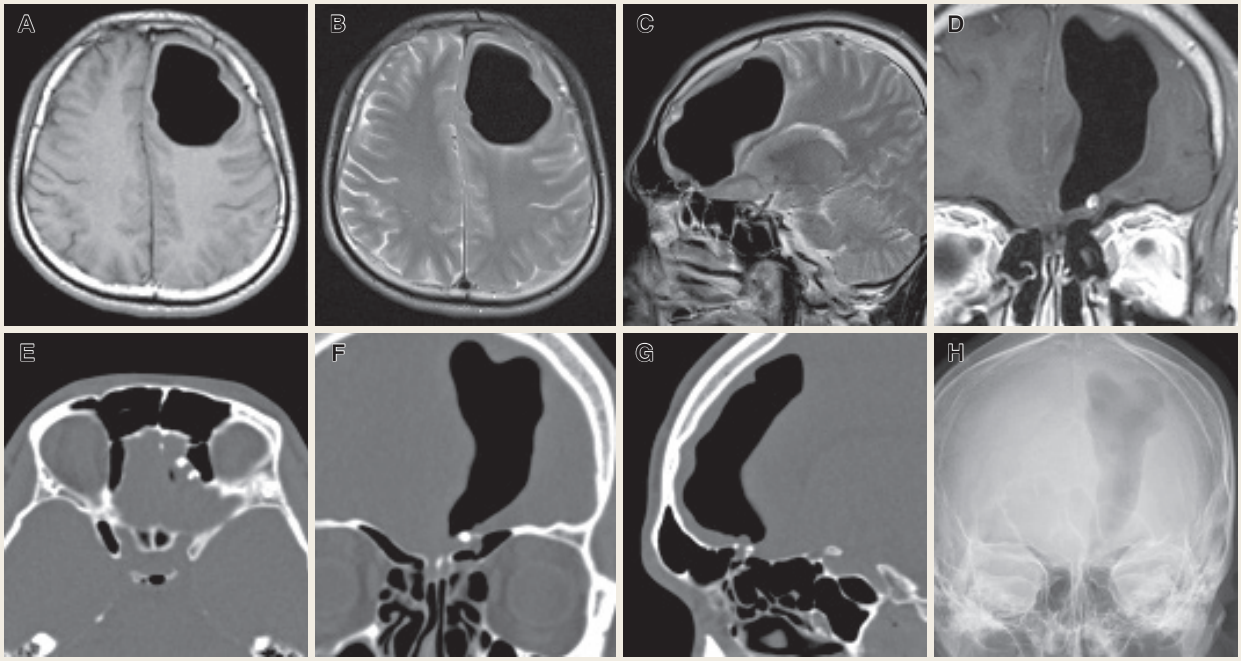

Fig. 1

A-C：A huge cystic mass lesion in the left frontal lobule with low signals on T1-WI, T2-WI.
D：T1-Gd showed the nodule with contrast effect in the anterior skull base.
E-G：Plain CT showed a thinning anterior skull base with contiguous nodule and pneumocephalus.
H：Skull X-ray showed significant left frontal pneumocephalus.

病変内部が大きく開放し，この部は脳実質内に空気が貯留した腔であり，その壁に被膜などは存在しなかった．さらに軟性組織を膜様に剥いて摘出すると骨化塊を認めた（**Fig. 2B**）．小結節全体を頭蓋底骨面から剥離し完全摘除すると，剥離後の骨面には大きな骨欠損はなく，瘻孔となり得る複数の小孔のみ認めた（**Fig. 2C**）．硬膜欠損部の再建には開頭部の自家骨膜を縫合して完全閉鎖し（**Fig. 2D**），さらに硬膜補強材〔Adherus Dural Sealant（日本ストライカー）〕を噴霧，髄液漏れのないことを確認した．前頭蓋底骨面にも有茎側頭筋膜弁を敷き込み小孔存在部を完全被覆した．

病理所見：結節の軟性部表面には線毛を有した重層扁平上皮および基底膜を認め神経組織や硬膜組織は認めなかった．また，骨化組織表面にも同様の上皮組織が付着していた．以上から副鼻腔粘膜由来の組織と診断した（**Fig. 2E-G**）．

術後経過：術後は髄液漏や新たな神経脱落症状なく，頭痛も速やかに消失し，術後 6 カ月の画像検査でも左前頭葉内含め頭蓋内に空気貯留は認めなかった（**Fig. 3**）．術後 2 年を経過して髄液鼻漏は認めていない．

© MEDICUS SHUPPAN,Publishers Co., Ltd.All Rights Reserved.

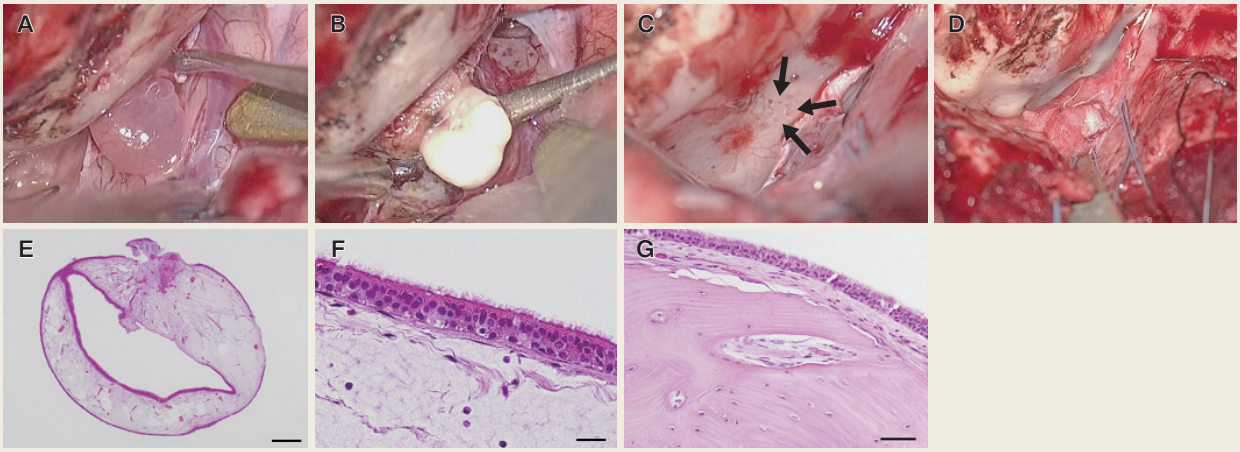

Fig. 2

A：Intradural nodule was attached on the anterior skull base.
B：Intradural calcified tissue was removed.
C：Several small holes（black arrow）were found on the anterior skull base.
D：The dural defect was patched with temporal fascia.
E：Low-magnification view of the cyst covered by epithelium and underlying loose connective tissue.
F：Higher-magnification view of the cyst wall showing multi-linear hair epithelium lined by the basement membrane.
E, F：Hematoxylin and eosin stain. Bar ＝ 500 μm in E, and 20 μm in F.
G：The surface of reactive ossification showed mucosal tissue.（magnification × 200; Bar ＝ 50 μm）.

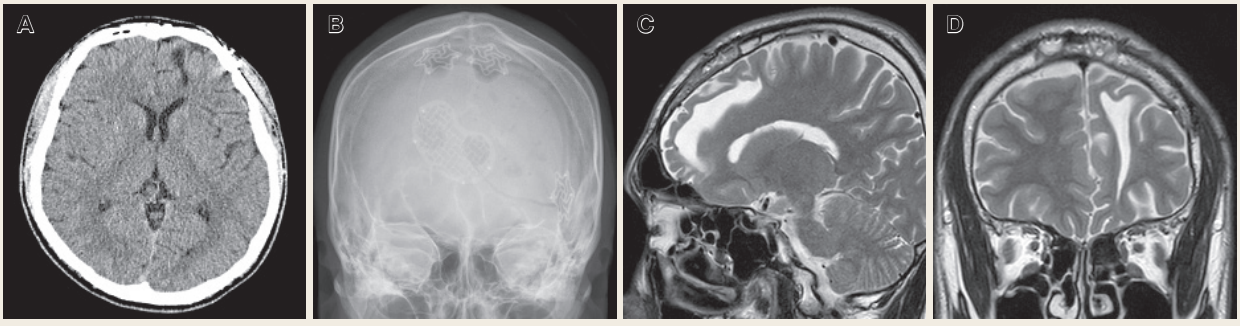

Fig. 3

A：Plain CT, B：Skull X-ray, C：MRI T2-WI Sagittal, D：MRI T2-WI coronal.
No reccurence of pneumocephalus 6 months after surgery.

III. 考　察

頭蓋底部の外傷や手術と関連のない特発性の気脳症は一般的に稀とされるが[1)]，腫瘍性病変の浸潤，感染に伴った炎症病変，先天性の骨形成異常，脳・髄膜瘤，副鼻腔骨腫や粘液嚢胞といった副鼻腔病変に関連するものが報告されている[3-5)]．そのような気脳症を来す原理としては，頭蓋底部の骨欠損部と髄膜破綻により髄液の漏出と引き換えに頭蓋内へ空気を引き込むもの（inverted pop bottle mechanism）

© MEDICUS SHUPPAN,Publishers Co., Ltd.All Rights Reserved.

が多く，主症状は髄液鼻漏と低脊髄液圧症状による頭痛となり[3, 4]，時に神経巣症状やけいれんを呈することも知られる[1-4]．一方，瘻孔部が通常は閉じた状態で，副鼻腔内圧が頭蓋内圧より高くなった際にのみ空気の流入が一方的に起こる one-way valve のような機序（ball valve mechanism）も知られ，この場合は髄液鼻漏が目立たず頭蓋内へ空気が混入し続けることとなり，頭蓋内圧亢進症状や局所の脳圧迫症状を呈する場合がある[3, 4]．本症例の病歴からは過去に髄液鼻漏をくり返していた可能性があるが，今回治療に至った経緯では髄液鼻漏を認めずに脳内に大きな空気貯留を認め，頭痛と失語症様の神経症状を呈するに至っており，かつて前者の機序があったところから後者の機序へと移行し，咳嗽や鼻をかんだりすることで一方的に空気が流入し，緊張型の脳実質内気脳症に至った可能性がある[6]．脳実質内にのみに空気が混入していたことはその機序を考える上で考慮すべき特徴であり，通常は頭蓋内外の交通による気脳症は硬膜下腔やくも膜下腔に空気の混入を認めることとなるが，骨欠損部での炎症所見などが硬膜とくも膜を含めた髄膜と脳実質に強固な癒着を生じ，そこに陽圧がかかった際に空気が入り込む瘻孔が形成されていると，脆弱な脳実質組織内へと空気の迷入を来すことはあり得る[3]．外傷後でも受傷直後より治癒過程が進んだ後に遅発性に脳実質内気脳症を生じた例が存在することが報告されている[2, 7]．

本症例では，前頭蓋底と強固に癒合し硬膜およびくも膜，軟膜と脳組織にも連続した小結節病変が上述のようなバルブとしての役割を担ったことが想定されるが，術中所見と病理所見からは解釈が難しいところもある．類似の病態を来し得る鑑別疾患として副鼻腔骨腫，脳瘤，粘液嚢胞などがあり[5, 8, 9]，それぞれ前頭蓋底部の骨破壊や脳組織との癒合を来し得る病態ではあるが，本症例ではまず術中所見で大きな頭蓋骨欠損が見当たらず，CT でも篩骨洞上壁の骨板は菲薄化しているものの，実際に結節を摘除した後でも複数の小孔が見られただけで比較的堅牢な骨板が介在していた．病理学的に小結節病変は粘膜組織に裏打ちされた骨化病変が認められ，脳組織の介在は認めなかった．小結節の骨化病変を包む粘膜組織の像からは，粘液嚢胞も鑑別には挙がるが，術前の鼻内観察上の正常所見からも副鼻腔発生の粘液嚢胞の頭蓋内進展[9]とは考えられなかった．髄液鼻漏をくり返した可能性を含めても，やはりかつては慢性炎症を来した骨欠損部が存在し，同部の炎症のくり返しや修復過程としての化骨形成などにより粘膜組織が迷入結節のようになってしまい，この結節と骨小孔を介して頭蓋内外に陽圧時に空気の流入を生じるバルブが形成されたというのが本症例の機序であろうと考える．

気脳症の診断を得た場合，一般的には髄膜脳炎に至る感染症を危惧し，外科的な

© MEDICUS SHUPPAN,Publishers Co., Ltd.All Rights Reserved.

修復術が行われるべきであるが，本症例の場合では緊張性気脳症の解除と再発防止も重要な要点となる[3, 4, 10]．本症例では小結節の除去と空気貯留部の十分な開窓，周辺の脆弱な硬膜も広く切除し，強固な硬膜形成を行った．念のために骨表面に有茎側頭筋膜弁を敷き込む処置をして補強をしたが，骨欠損部が大きい場合には自家骨などを用いた骨形成も必要となろう．

IV. 結　語

頭蓋底の外傷や手術と関連なく，自然発生した緊張型脳実質内気脳症の稀な1例を経験した．大きな頭蓋骨欠損がなくても副鼻腔病変などとの関連の中でこのような病態を生じ得る可能性もあることを理解しておく必要がある．

文献

1) Schirmer CM, et al: Pneumocephalus: case illustrations and review. Neurocrit Care 13: 152-8, 2010
2) 寺尾 亨，ほか：頭部外傷後に出現した脳内気脳症の1例．脳外誌 10：173-8，2001
3) Abbati SG, Torino RR: Spontaneous intraparenchymal otogenic pneumocephalus: A case report and review of literature. Surg Neurol Int 3: 32, 2012
4) Kamide T, et al: Intraparenchymal pneumocephalus caused by ethmoid sinus osteoma. J Clin Neurosci 16: 1487-9, 2009
5) 中川僚太，ほか：副鼻腔骨腫に伴った硬膜内粘液嚢胞の1例．Neurological Surgery 脳神経外科 48：691-7, 2020
6) Mirone G, et al: Spontaneous intraparenchymal tension pneumocephalus triggered by compulsive forceful nose blowing. Emerg Med J 26: 837-8, 2009
7) 鈴木謙介，ほか：脳実質内緊張性気脳症の2例．医療 49：677-80，1995
8) Onal B, et al: Frontal sinus osteoma associated with pneumocephalus. Diagn Interv Radiol 12: 174-6, 2006
9) 古賀博明，ほか：頭蓋内粘液嚢腫を伴った副鼻腔骨腫の1例．脳外誌 4：554-7，1995
10) Licci M, et al: Frontoethmoidal Osteoma with Secondary Intradural Mucocele Extension Causing Frontal Lobe Syndrome and Pneumocephalus: Case Report and Review of Literature. World Neurosurg 115: 301-8, 2018

© MEDICUS SHUPPAN,Publishers Co., Ltd.All Rights Reserved.