

自然発症した小児眼窩血腫の1例 (図6, 表1)

高橋 寛二*・宇山 昌延* (*関西医科大学眼科学教室
 泉 春暁**・岡田 寿夫*** (**関西医科大学中央検査部病理部
 ***大阪市住吉市民病院眼科)

A Case of Spontaneous Orbital Hematoma in a Child

Kanji Takahashi*, Masanobu Uyama*, Hisao Okada*
 and Haruaki Izumi**

*Department of Ophthalmology, Kansai Medical University

**Department of Pathology, Kansai Medical University

要 約

11歳女兒に急激に発生した非外傷性の眼窩血腫により、著しい眼球突出とうっ血乳頭を来した1例を報告した。血腫の原因は組織検索から潜在性の眼窩血管腫からの自然出血と考えられた。臨床診断にはX線CT, NMR-CT, 超音波検査が有用で、X線CT, NMR-CTで腫瘤の位置を、NMR-CTと超音波検査で腫瘍が囊腫であることが示され、球後穿刺により血腫と判明した。2回の球後穿刺を行なったが無効であったため、Krönlein法を用いて血腫の摘出を行ない、術後、眼球突出、うっ血乳頭は改善し、経過は良好であった。原因不明の片眼性眼球突出の稀な原因の1つとして、潜在性の眼窩血管腫からの出血による血腫形成がありうることを示された。(日眼 92:182—187, 1988)

キーワード：眼窩血腫, NMR-CT, 超音波検査, 眼窩血管腫

Abstract

We observed a case of spontaneous orbital hematoma in a 11-years-old girl. She had manifested sudden onset of right exophthalmus one month previously without a past history of ocular trauma. The fundus of her right eye showed marked choked disc. This case was correctly diagnosed as orbital hematoma preoperatively based on three diagnostic modalities. X-ray computed tomography was very helpful to detect the location of the mass, retrobulbarly, magnetic resonance scanning revealed high signal intensity and T1 shortening at spin echo images (1000/80), and very valuable in suggesting the mass to be a bloody, cystic mass, while the ultrasonic findings were also very valuable in demonstrating this lesion as a cystic one. Krönlein-Berke lateral orbitotomy revealed a reddish-brown well-encapsulated bloody mass in the muscle cone retrobulbarly. Histopathologically, the mass consisted of coagulated blood with a fibrous capsule and many blood vessels compressed on the one side. This hematoma apparently resulted from hemorrhage of an inconspicuous orbital hemangioma. Although an uncommon cause of unilateral exophthalmus in childhood, hematoma resulting from an inconspicuous orbital hemangioma should be considered. (Acta Soc Ophthalmol Jpn 92:182—187, 1988)

Key words: orbital hematoma, magnetic resonance imaging, ultrasonography, orbital hemangioma

別刷請求先：570 大阪府守口市文園町1 関西医科大学眼科学教室 高橋 寛二 (昭和62年8月27日受付)

Reprint requests to: Kanji Takahashi, M.D. Dept. of Ophthalmol., Kansai Medical Univ.

1 Fumizono-cho, Moriguchi 570, Japan

(Accepted August 27, 1987)

I 緒 言

眼窩血腫は外傷によるものが多く^{1)~4)}、自然発症するものは稀である^{5)~15)}。小児に自然発症した眼窩血腫で、眼球、視神経への強い圧迫症状を呈し、眼球突出と著明な樽血乳頭を生じ、Krönlein 法による摘出手術を行なった結果、眼窩内血管腫からの出血と思われた症例を経験したので報告する。

II 症 例

症例：11歳の女児。

初診：昭和61年 8月19日。

主訴：右眼の眼球突出。

現病歴：約 1 カ月前に何ら誘因と思われるものなく、右眼の鈍痛、結膜下出血、眼瞼皮下出血を来したがすぐに軽快した。その 2 週間後、水泳ののち右眼の眼球突出を来した。近医より、眼窩腫瘍の疑いで本院へ紹介された。

家族歴、既往歴：特記すべきことなし。外傷、血液疾患などの病歴はなかった。

初診時所見：右眼視力 0.6 (0.7×+4.5D) で遠視がみられ、左眼は 1.5 (n.c.) で、眼圧は右 12mmHg、左 15mmHg であった。以下異常のみられた右眼について述べる。右眼には前方にむかう眼球突出がみられ (図 1)、ヘルテル眼球突出計では右眼 16mm、左眼 11mm を示した。上方への軽度の眼球運動制限がみられた。触診により眼窩内には腫瘍は触知されなかった。前眼部、中間透光体には異常をみなかった。眼底には乳頭、黄斑部を含んで下方では赤道部に及ぶ隆起が認められ、視神経乳頭は強い浮腫状腫脹を示し、境界不鮮明で充血がみられ、周囲の網膜には綿花様白斑、表在性出血があり、著しいうっ血乳頭の状態であった。網膜動脈は蛇行、静脈は拡張蛇行しており、黄斑部には脈絡膜皺襞が見られた (図 2)。蛍光眼底造影により、網膜静脈の還流障害と後期に乳頭の過蛍光がみられた。視野では右眼にマリ奥特盲点の拡大がみられた。

検査所見：X 線単純撮影では頭蓋、眼窩、視神経管には異常所見はみられなかった。X 線 CT では球後の筋肉錐内に、均質な等吸収域をしめす、眼球とほぼ同大の腫瘍がみられ、眼球を前方に向かって圧排していた。視神経とは境界鮮明に分離されており、視神経を内方へ向かって圧排していた (図 3)。また、この腫瘍は造影剤で enhance されなかった。

核磁気共鳴 CT (NMR-CT)、スピンエコー像

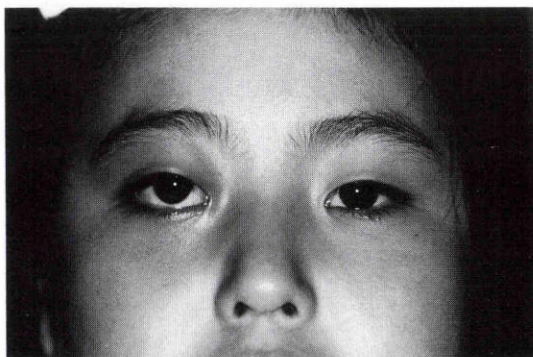


図 1 初診時、右眼の前方に向かう眼球突出がみられた。

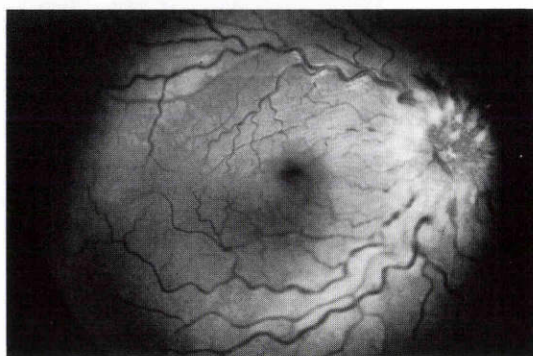


図 2 初診時の右眼眼底：著明な樽血乳頭と眼底の隆起、脈絡膜皺襞形成がみられた。

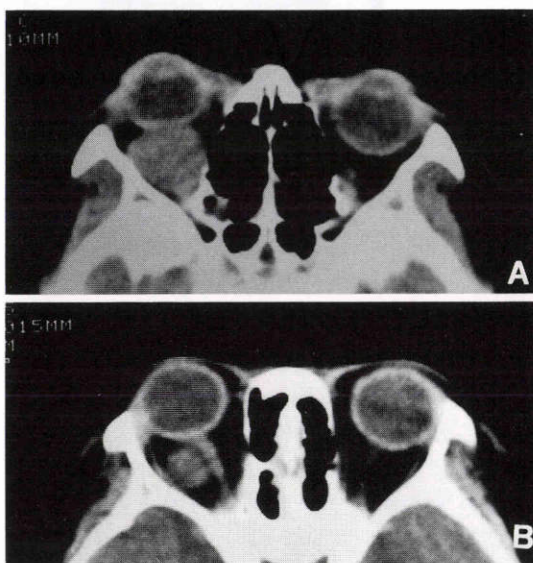


図 3 X 線-CT スキャン：A：右眼、球後筋肉錐内に均質な等吸収域の腫瘍がみられた。B：腫瘍は視神経とは境界鮮明に分離されていた。

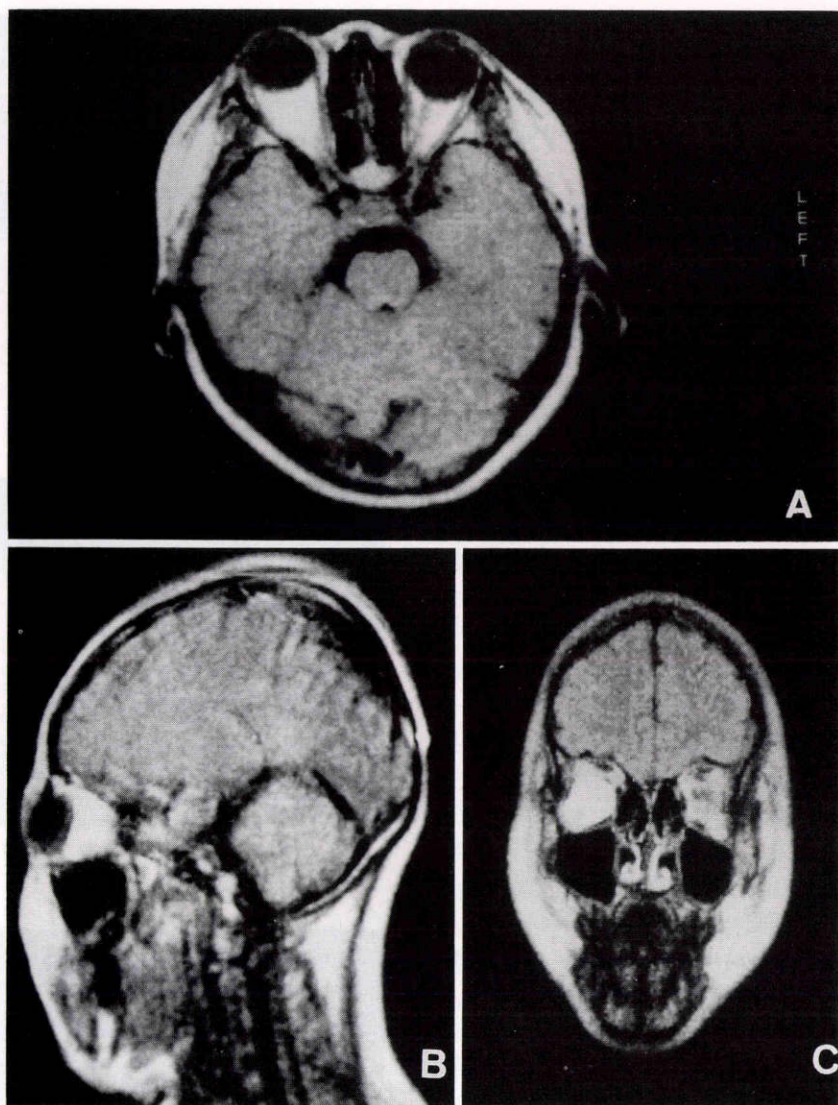


図4 NMR-CT (spin echo 像, TR=1000, TE=80, A: 水平断, B: 射矢状断, C: 冠状断): 腫瘍内部の T1値は著明に短縮し, 高信号領域として描出された (A, B, C). 腫瘍は筋円錐内で外下方に存在し, 視神経を内上方に向かい圧排していた (C).

(1,000/80)では冠状断, 斜矢状断により腫瘍は球後の筋円錐内で外下方に位置し, 視神経を内上方へ圧迫していることがわかった. 腫瘍は上記撮影条件で著しい高信号を示し, 腫瘍内部の T1値は著明に短縮していた. この T1値から球後の腫瘍は, 脂肪あるいは陳旧性の血液などの液性成分であることが示唆された (図4). 超音波検査では, Bモードにおいて筋円錐内に, 眼球後壁を圧迫する, 境界鮮明で内部が無エコーの囊腫性病変がみられ, Aモードでも囊腫の後壁が良好に

検出された (図5-A). 囊腫の最大径は眼軸長よりも少し大きいことがわかった.

脳外科で行なった右頸動脈造影では異常血管像はみられなかった. また血液検査では全身的に異常なく, 止血, 凝固能にも異常はみられなかった.

臨床経過: 初診時の臨床症状から, 眼窩内の急性炎症が疑われたので, まずステロイド剤, 抗生物質の投与を行なった. しかし, これらの薬物療法に反応せず, 眼球突出と強いうっ血乳頭が持続した. その間に行な

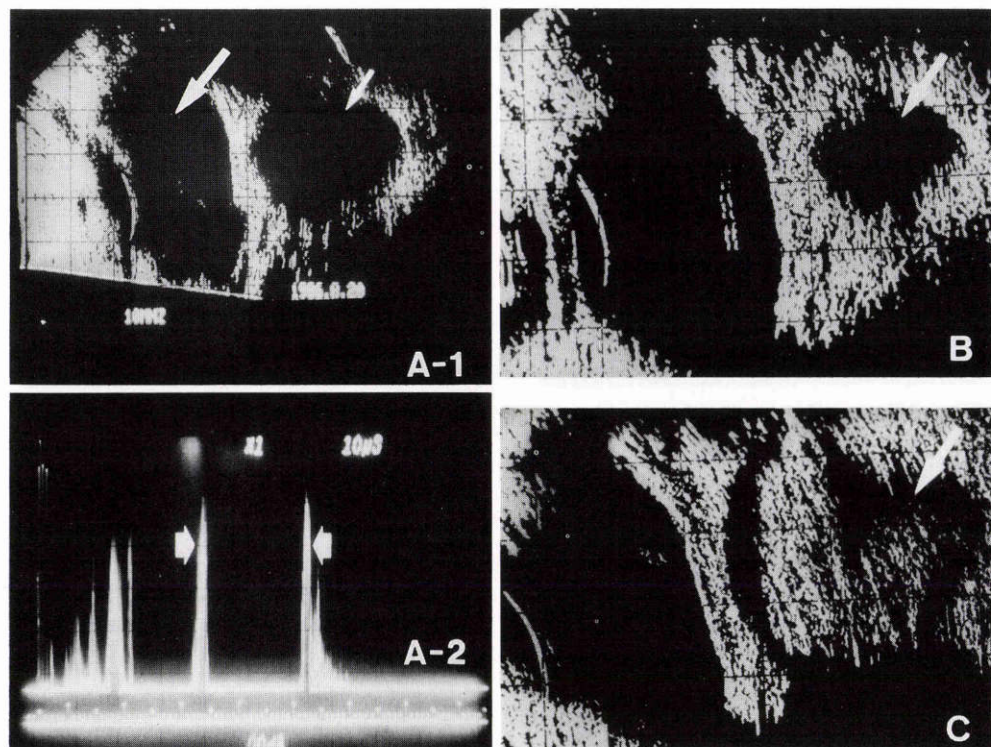


図5 超音波像。A-1：球後に眼球とほぼ同大の囊腫性病変が見られた(小さい矢印)。囊腫の内部は無エコーを示した。大きい矢印は眼球で、腫瘤により後方から圧迫されている。A-2：Aモードでは腫瘤内部は無エコーを示した(矢印で囲んだ部分)。B：第1回球後穿刺直後の超音波像：腫瘤の直径は著明に縮小していた。C：第2回球後穿刺後の超音波像：腫瘤は再び増大し、比較的反射の強い不均一な内部エコーが生じ、新鮮な出血が生じたことを示している。

われた上記の画像診断の結果から球後の腫瘤は囊腫性病変と考えられたため、8月27日、右眼の球後穿刺を行なった。この際、濃厚な赤褐色の古い血液約1.5mlが吸引され、臨床的に球後部の眼窩血腫と診断した。

穿刺後、一時的に眼球突出は軽減し、眼球突出計でも右14mm、左12mmとなり、眼底後極部の隆起はほとんど見られなくなった。穿刺直後の超音波検査により、腫瘤の大きさは著明に縮小していた(図5-B)。しかし穿刺後3日目から再び眼球突出が増強し、囊腫内部に新鮮な出血塊によると思われる不均一な内部エコーが生じていた(図5-C)。9月11日、再度球後穿刺を行ない、1mlの新鮮な血液を吸引し、穿刺後、圧迫包帯や止血剤の投与をおこなったが眼球突出はほとんど軽減しなかった。その後も眼球突出が増強し、うっ血乳頭が持続、視野の中心部に比較暗点が出現、右眼視力は0.7(n.c.)となったため、発症約2ヵ月後の10月1日、

Krönlein-Berke法により手術を行なった。

手術所見：眼窩外側壁を開いて眼窩内に入り、球後でテノン囊を開くと、筋円錐の内に眼球大、暗赤色、緊満性の表面平滑な腫瘤を認めた。術中、被膜の一部が破れ暗赤色の凝血した血液が一部流出したが、クライオプローブを用いて血腫を全摘出した。摘出された血腫は、大きさは2.5×2×2cmで、暗赤色、表面やや凹凸不正で線維性の被膜を有しており、断面を入れると被膜に包まれた内容は暗赤褐色の凝血塊であった。

腫瘤の病理組織学的検査：腫瘤は大部分血塊であったが、被膜の一部に一層の内皮細胞が大小不同の管腔を作り、その管腔内に多数の赤血球がみられた。この所見から病理組織学的に眼窩血管腫と診断した。この血管腫を形成する血管から破綻性出血をおこし、囊腫内部に凝血塊が形成されていた(図6)。この他に囊腫壁には異物巨細胞、色素顆粒細胞などがみられた。

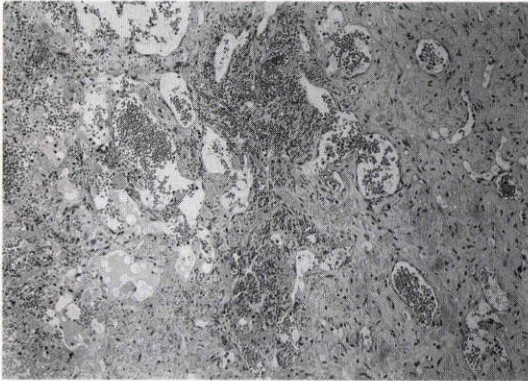


図6 病理組織所見：血腫壁の一部に血管腫の所見がみられた。(原倍率25倍, H-E染色)

手術後の経過は順調で、眼球突出、鬱血乳頭ともに消失、視力は遠視が消失し、1.5 (n.c.) に回復、視野も正常に回復した、その後も視神経萎縮の発生をみていない、また術後1年間、眼球突出、腫瘍の再発はない。

III 考 按

Henderson³⁾によると眼窩血腫 Orbital hematoma とは、眼窩出血が長期間吸収されずに限局化し、被膜を持った囊腫として残存するものを指し、この意味で血性囊腫 blood cyst, hematic cyst, hematocele とほぼ同義語として用いている。眼窩出血は通常1~2週間で吸収され、このような血腫を形成することは稀で、片眼性の眼球突出の原因としての頻度は低いものである。Henderson³⁾は眼窩腫瘍764例中6例であり、全例が外傷に続発するものであったと述べている。このように眼窩血腫は通常は外傷による眼窩出血のあとにみられることが多く、他の原因としては出血傾向を持つ症例(血小板減少症、血友病、白血病、壊血病など)や、眼窩内異物の長期滞留、リンパ管腫、他の腫瘍内への出血、健康人に自然発症するものなどがあるが、頻度は外傷例よりもさらに稀であると思われる(表

1)。本症例の眼窩血腫の原因は眼窩血管腫からの自然出血が考えられた。

血管腫は眼窩腫瘍のうちでは頻度が高く、特に小児、若年者に多く見られるが、球後の血管腫の破裂により血腫を形成した報告は稀で、1962年 Mortada⁵⁾の2例(3歳男児、15歳男児、ともに外傷歴なし)、1978年 Sevel⁶⁾の1例(3歳小児、外傷歴あり)の報告が見られるが、我々が調べた限りでは本邦では小児例の報告は見られず、中西ら⁷⁾、上野ら⁸⁾による成人例の報告をみるのみである。

本例の場合、大量の出血塊が血管腫を圧迫していたため詳細な組織の検査が難しい状態であったが、血腫壁の一部に大小不同の血管腔がみられたことから、眼球突出を起こさない程度の小さな潜在性の血管腫がもともと存在しており、それが破れて自然出血を起こし、血性囊腫を形成したと考えられた⁵⁾¹⁶⁾。そのため、急激に眼球突出が発生し、また球後穿刺後に再び増大したのは、血管腫から血腫内に血液が供給されていたためと考えられた。

本症例の初診時における臨床的特徴は、外傷の既往のない健康な小児に、比較的急性に発生した、片眼性の前方に向かう眼球突出で、眼底の隆起と著明なうっ血乳頭をきたしたことである。小児の急性眼球突出として、眼窩フレグモーネ、眼窩先端症候群や、眼窩腫瘍として視神経膠腫、髄膜腫、神経線維腫、リンパ管腫、横紋筋肉腫、神経芽細胞腫、など球後に発生する小児の眼窩腫瘍との鑑別診断が問題となった。Henderson³⁾は眼窩血腫の臨床的特徴として、突然おこる有痛性の片眼性眼球突出で、急速に進行し、球結膜浮腫や眼球運動障害、視力低下などを起こす場合が多いとのべている。また外傷(打撲)後の皮下出血消失後に、一定期間を置いて遅れて発症することがありうるとしている。病理組織学的には硬い線維性の被膜を持ち、内容は古い血液と無定形物質の混合したものであり、被膜には一部白血球の浸潤やコレステロール

表1 眼窩血腫の原因

1. 外傷性	鈍的外傷、球後注射、手術後、分娩時外傷など。
2. 非外傷性 (外傷あっても良い)	出血傾向を示す血液疾患(血小板減少症、白血病、血友病、壊血病など) 血管奇形(動静脈奇形、動脈瘤、静脈瘤) 血管腫 リンパ管腫 類皮囊腫 高血圧、動脈硬化
3. 真の原因不明(特発性)?	

結晶、ヘモジデリン沈着物、異物巨細胞、色素顆粒細胞、泡沫細胞などがみられると述べている。

本例の術前診断には X 線 CT, NMR-CT, 超音波検査, 球後穿刺が役立った。これらの画像診断のうち, X 線 CT は球後の腫瘤の存在を示し, かつその局在をよく表わしていたが, 単純撮影のみでは他の眼窩腫瘍との鑑別は難しかった。しかし造影剤で enhance されなかったことは血腫の可能性を示唆している¹⁷⁾。NMR-CT では腫瘤の局在を三次元的に容易に捉えられ, 視神経, 外眼筋との位置関係をよく表わしていた。また質的診断においてもスピンエコー像 (1,000/80) が高信号を示し, 腫瘤内部の T1 値の著しい短縮という特徴的所見を示した。脳内血腫やクモ膜下出血の際に発症ごく早期には NMR-CT では描出されにくい, 発症 1 週間後以降の亜急性期になると高信号を示すことが指摘されている¹⁸⁾。これは Bradley ら¹⁹⁾によると, 貯留された血液が, 低酸素状態に保たれることにより生成されるメトヘモグロビンが T1 値を短縮させる効果をもつためとされている。本症例の NMR-CT 所見の検討から, 眼窩血腫においてもほぼ同様の所見を示すことがわかった。また, 超音波検査は最も簡易で, 反復して行なうことができ, 血腫の大きさや内部の性状 (凝血塊の状態) を最もよく反映し, 質的診断においては最も優れていた。すなわち腫瘤の局在診断には X 線 CT, NMR-CT が, また質的診断には超音波検査, NMR-CT が特に有用で, これら 3 種の画像診断を併用することにより術前診断を正確に行なうことができた。

本症例の治療には, 血腫が再度の球後穿刺後も吸収されずに増大し, 高度のうっ血乳頭が長期持続したこと, また腫瘤が眼窩外下方に位置することが術前明らかであったことから, Krönlein 法により血腫を全摘出することができ, 術後経過は良好であった。血腫の存在場所, 大きさによっては本症例のように眼球, 視神経の圧迫症状や眼球運動障害を示すことがあるとされているので, このような場合には速やかに観血的な血腫の除去が必要であると考えられた。

本稿の要旨は第 12 回日本小児眼科学会 [1987 年 4 月, 東京] において高橋が報告した。

文 献

- 1) Roberts W: Hematoma of the orbit. Report

of two cases. Am J Ophthalmol 40: 215—219, 1955.

- 2) Duke-Elder S, MacFaul PA: The Ocular Adnexa. Part II, 1017—1028, in Duke-Elder S, System of Ophthalmology, vol 13, London, 1974.
- 3) Henderson JW: Orbital Tumors (2nd ed), 107—111, WB Saunders Co, Philadelphia, 1980.
- 4) Mund M: Subperiosteal hematic cyst of the orbit. Ophthalmology 88: 992—996, 1981.
- 5) Mortada A: Unilateral proptosis of unexplained origin. Report of nine cases. Br J Ophthalmol 46: 369—373, 1962.
- 6) Sevel D, Rosales A: Orbital blood cyst. Br J Ophthalmol 62: 571—574, 1978.
- 7) 中西祥次, 船田雅之, 清水正紀: 眼窩出血をきたした眼窩血管腫の 1 例. 眼臨 79: 244—245, 1985.
- 8) 上野 真, 原野秀之, 生子 明: 自然破裂を起こした眼窩血管腫と思われる 1 例(抄). 眼臨 77: 153, 1983.
- 9) Whitwell J: Spontaneous hematoma of the orbit. Br J Ophthalmol 40: 250—251, 1956.
- 10) Law FW: Spontaneous orbital hemorrhage. Br J Ophthalmol 55: 556—558, 1971.
- 11) Krohel GB, Wright JE: Orbital hemorrhage. Am J Ophthalmol 88: 254—258, 1979.
- 12) Wolter JR, Fralick FB, Tanton JH: Late results of orbital hemorrhage simulating orbital neoplasm. Am J Ophthalmol 62: 528—532, 1966.
- 13) Mortada A: Origin of orbital blood cysts. Br J Ophthalmol 53: 398—402, 1969.
- 14) Skalka HW: Congenital hematic cyst of the orbit. Ann Ophthalmol 11: 1103—1106, 1979.
- 15) Shapiro A, Tso MOM, Putterman AM, Goldberg MF: A clinicopathologic study of the hematic cysts of the orbit. Am J Ophthalmol 102: 237—241, 1986.
- 16) 植村恭夫: 小児における眼窩疾患の諸問題. 湖崎克 編, 眼科 Mook 13, 小児眼科, 東京, 金原出版, 99—107, 1980.
- 17) 三島 弘他: Computerized Tomography (C.T.) によって確認された眼窩血腫の 1 例. 臨眼 31: 437—442, 1977.
- 18) 田坂 晴他編: 放射線医学体系. 特別巻 2 (MRI), 150, 中山書店, 東京, 1987.
- 19) Bradley WG, Schmidt PG: Effect of methemoglobin formation on the MR appearance of subarachnoidal hemorrhage. Radiology 156: 99—103, 1985.