

症例報告

齲歯が原因で生じた感染性海綿静脈洞血栓症と Lemierre 症候群の合併例

西田 明弘¹⁾ 緒方 利安¹⁾ 工藤 仁隆¹⁾
 藤原 康介¹⁾ 深江 治郎¹⁾ 坪井 義夫^{1)*}

要旨：症例は 54 歳女性。入院 1 年前に齲歯の治療中断歴があり、今回頭痛と発熱、眼窩部の腫脹疼痛を主訴に当科入院。両眼瞼浮腫と眼球運動障害以外に神経学的異常をみとめなかった。血液検査では炎症反応、凝固線溶系マーカーが上昇し、MRI 拡散強調画像で右上眼静脈から海綿静脈洞に高信号がみられ、造影 CT で同部位に造影不良域をみとめたことから、感染性海綿静脈洞血栓症と診断した。血液培養の結果から齲歯による敗血症を原因とする海綿静脈洞血栓症 (cavernous sinus thrombosis; CST) と診断した。抗菌薬と抗凝固療法で治療を開始し、症状は軽快、画像上海綿静脈洞内の血栓も縮小した。本症例は MRI と造影 CT の画像所見から CST を早期診断しえた貴重な症例である。

(臨床神経 2015;55:483-489)

Key words：海綿静脈洞血栓症, Lemierre 症候群, 齲歯

はじめに

海綿静脈洞血栓症 (cavernous sinus thrombosis; CST) は、さまざまな原因で海綿静脈洞内に血栓が形成され、神経症候を呈する疾患である。その原因は感染性而非感染性に大別されるが、海綿静脈洞はその解剖学的性質上、脳や顔面、口腔からの血管が集中する部位であり、副鼻腔炎や静脈洞炎、齲歯にともなう感染性の血栓症が原因としてはもっとも多い。とくに蝶形骨洞炎・篩骨洞炎などの感染症が原因としてはもっとも多いとされる¹⁾。近年では画像検査の進歩や、抗菌薬の普及により、早期診断、治療が可能となったが、依然致死率の高い疾患でもある¹⁾²⁾。今回われわれは未治療の齲歯が原因で感染性海綿静脈洞血栓症を呈した症例を経験した。特異な画像所見が診断に有用で、すみやかな治療により良好な経過をたどった貴重な症例と考えられここに報告する。

症 例

患者：54 歳 女性

既往歴：高血圧。無症候性 HTLV-1 キャリアー。第 1 子流産。

家族歴：娘 2 人が全身性エリテマトーデス。

生活歴：飲酒：ビール 1 日 2 缶程度、喫煙なし。

現病歴：2012 年から齲歯に対して歯科通院中であったが、2013 年 5 月頃から歯科への通院を一時中断していた。2013 年

11 月初旬から両側の下歯の痛みを自覚していたが、未治療で経過をみていた。2013 年 11 月中旬に頭痛をともなう 38~39°C の発熱が出現し、市販の解熱鎮痛剤を服用するも症状の改善はなかった。入院 4 日前の明け方から右眼窩部に鈍痛をともなう腫脹が出現した。その後も右眼窩部の疼痛と腫脹は悪化、入院 2 日前には左眼窩部の腫脹も出現したため当科に精査加療目的に入院した。

現症：身長 153.5 cm、体重 55 kg、脈拍 56/分・不整、血圧 149/76 mmHg。一般身体所見では、眼脂と両側でとくに右に強く眼瞼浮腫・眼球充血がみられた (Fig. 1)。右眼の自発開眼は不可であった。聴診上、眼窩部に血管雑音はみられなかった。両側耳下腺に圧痛をともなわない可動性良好な弾性軟な腫脹が触知されたが、明らかなリンパ節腫脹はみられなかった。口腔内や扁桃に明らかな異常は指摘できなかった。心音、呼吸音に異常はみとめなかった。腹部は平坦・軟で正常腸蠕動音を聴取し、両側下腿に浮腫はなく、全身皮膚には紅斑などの異常はみられなかった。

神経学的所見で、意識は清明。項部硬直や Kernig 徴候は陰性で、眼球運動制限は右眼 (上転：-2 下転：-3; 内転：-3 外転：-2)、左眼 (上転：-1 下転 0; 内転：0 外転：-2) と両側にみられた。その他の脳神経に異常はなく、四肢に運動・感覚系の異常をみとめなかった。四肢腱反射はやや活発で、Babinski 徴候は陰性。協調運動障害もみとめなかった。

検査所見において、血算は白血球が $1.4 \times 10^4/\mu\text{l}$ (好中球

*Corresponding author: 福岡大学医学部神経内科学教室 [〒 814-0180 福岡市城南区七隈 7-45-1]

¹⁾ 福岡大学医学部神経内科学教室

(Received October 20, 2014; Accepted March 17, 2015; Published online in J-STAGE on June 4, 2015)

doi: 10.5692/clinicalneurology-000676

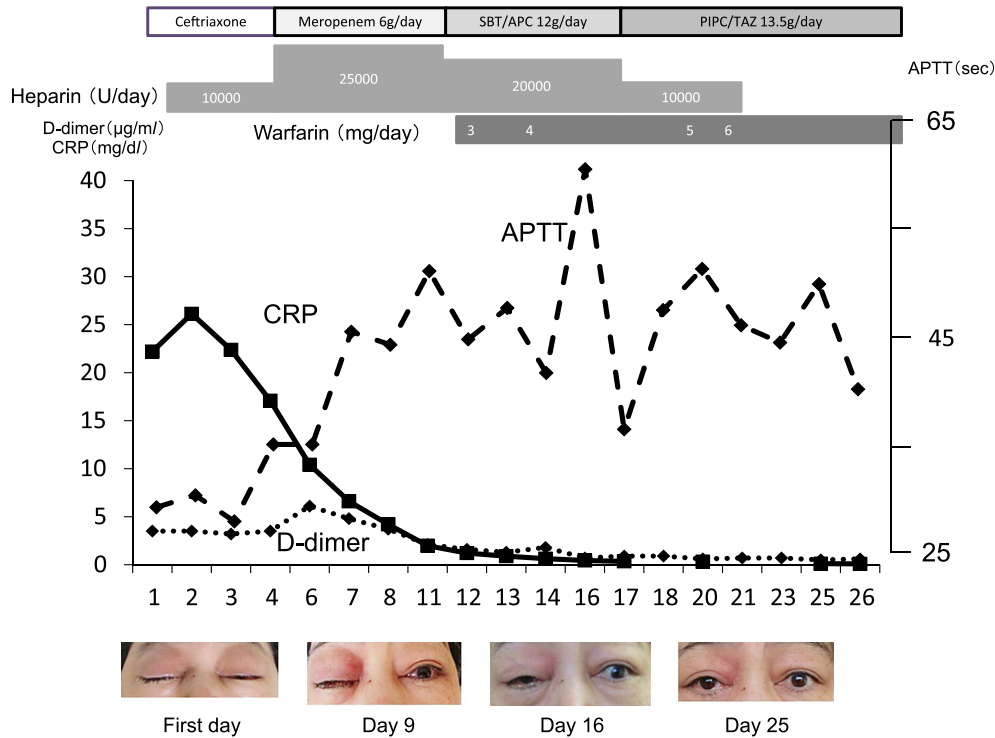


Fig. 1 Clinical course in a 54-year-old woman diagnosed with cavernous sinus thrombosis.

Antibiotic (topmost panels) and anticoagulant (middle panel) treatment were administered over a 26-day period. The serum CRP (solid line) and D-dimer (dashed line) concentrations peaked early during the clinical course and then declined, and the APTT (dotted line) gradually increased. The blepharoptosis (bottom panel) decreased and resolved after 26 days of treatment. SBT/APC; Sulbactam/Ampicillin, PIPC/TAZ; Piperacillin/Tazobactam, APTT; activated partial thromboplastin time, CRP; C-reactive protein.

88.2%) と上昇し、赤血球数 $356 \times 10^4/\mu\text{l}$ 、ヘモグロビン値 10.8 g/dl 、ヘマトクリット 31% と軽度貧血の所見がみられた。血小板数は $23.7 \times 10^4/\mu\text{l}$ と正常だった。生化学所見では C reactive protein (CRP) が 22.2 mg/dl と著明に上昇し、Na 133 mmol/l 、K 2.7 mmol/l 、Cl 92 mmol/l と電解質の異常、および alkaline phosphatase (ALP) $1,080 \text{ U/l}$ 、 γ glutamyl transpeptidase (γ GTP) 631 U/l と胆道系酵素の上昇をみとめたが、肝酵素の上昇はなく、腎機能も正常であった。空腹時血糖 121 mg/dl 、HbA1C: 5.5% と糖尿病の所見はなかった。凝固マーカーでは fibrinogen degradation products $13 \mu\text{g/ml}$ ($\leq 5 \mu\text{g/ml}$)、D-dimer $3.5 \mu\text{g/ml}$ ($\leq 1.0 \mu\text{g/ml}$) と線溶系の上昇がみられた。免疫血清学的検査ではプロカルシトニンが 0.70 ng/ml ($\leq 0.05 \text{ ng/ml}$) と上昇していたが、 β D グルカンは陰性で抗 HIV 抗体もみとめなかった。リウマチ因子 6 IU/ml ($\leq 15 \text{ IU/ml}$)、抗核抗体 7.5 (≤ 40)、抗 double stranded DNA 定量 2.7 IU/ml ($\leq 12 \text{ IU/ml}$)、PR3-ANCA < 1.0 (U/ml)、MPO-ANCA < 1.0 (U/ml) と膠原病や血管炎を示唆する所見はなく、抗カルジオリピン β 抗体も陰性だった。腫瘍マーカーはいずれも陰性。HTLV-1 抗体は既知の通り陽性だった。

経 過

入院時に施行した頭部 MRI 拡散強調像では左右の上眼静脈が紐状に高信号を呈して、同部位は ADC 値が低下していた。とくに右の上眼静脈が著明に拡大しており、静脈内血栓と考えられた (Fig. 2)。両側眼窩内には上眼静脈の血流を妨げる腫瘍性変化はみられず、さらに拡散強調像では上眼静脈から両側の海綿静脈洞にかけて高信号域連続性にみとめられており、海綿静脈洞内の血栓が示唆された。頭部の造影 CT では左右の上眼静脈と両側海綿静脈洞に増強効果が欠損した領域をみとめ、海綿静脈洞内の血栓の存在を示唆した (Fig. 3)。明らかな副鼻腔炎の所見はなかった。臨床症状も眼球突出はみとめるが拍動、血管雑音は聴取されず、内頸動脈-海綿静脈洞瘻を示唆する造影剤の漏出はなかった。以上の所見から感染性 CST が診断としてもっとも考えられた。入院第 2 病日に施行した入院時の歯科の診察では、右下 2 番部および左下 7 番部に排膿している所見があり、化膿性根尖性歯周炎であった。入院時に施行した血液培養検査で、口腔内常在菌である *Streptococcus constellatus* が陽性としてみとめられた。原因としては膠原病や経口避妊薬の服用はなく、流産歴があるも抗リン脂質抗体症候群は陰性で、全身性エリテマトーデス

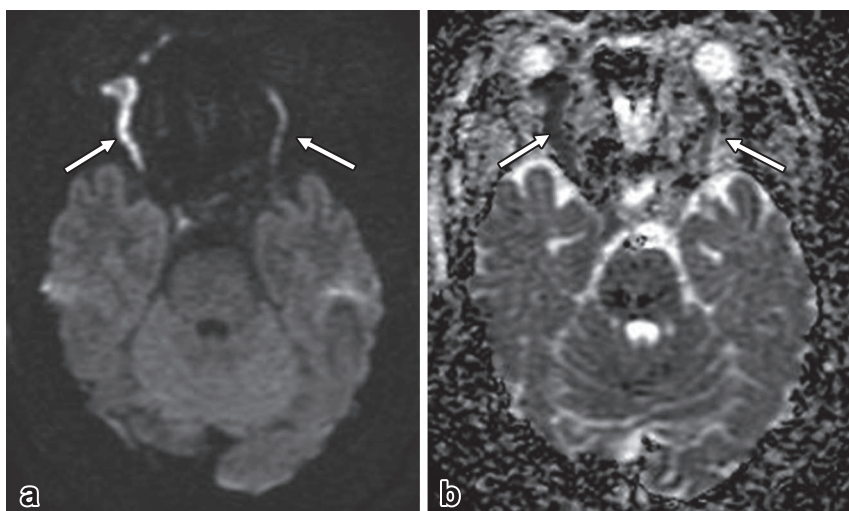


Fig. 2 MRI findings on presentation.

(a) Diffusion-weighted MRI. (b) Apparent diffusion coefficient. The bilateral superior ophthalmic veins showed increased enhancement (arrows).

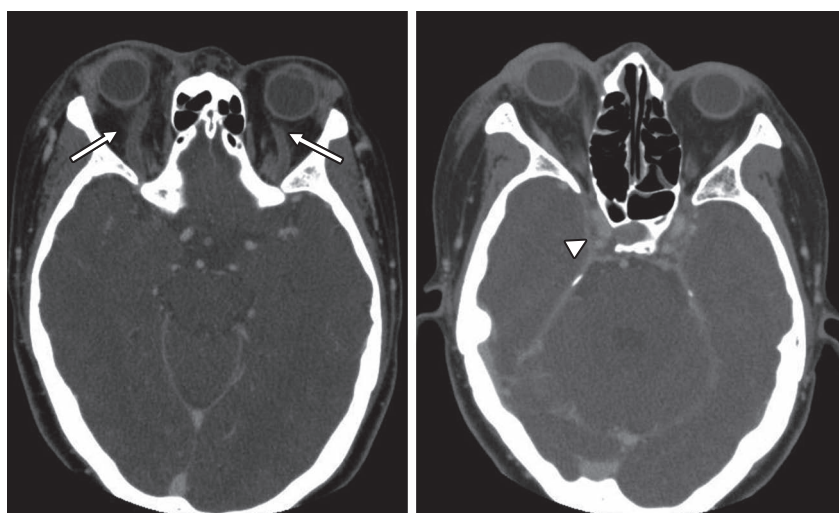


Fig. 3 Contrast-enhanced CT findings on presentation.

The bilateral superior ophthalmic veins were enlarged (arrows), and a right cavernous sinus thrombosis was evident (arrowhead).

の家族歴が濃厚であるも患者自身はそれを示唆する理学的所見や抗体の異常はなかった。もともと齲歯の治療中断歴があり、今回の発熱、眼瞼腫脹、眼痛の症状が出現する以前に未治療部位の歯の疼痛があったことも合わせて、化膿性根尖性歯周炎から敗血症にいたり、*Streptococcus constellatus* が海綿静脈洞に大量に流入したことで海綿静脈洞内に血栓が形成されたことで CST を発症したと考えられた。

抗菌薬は入院当初よりセフトリアキソンを投与していたが、血液培養の感受性結果を確認の後、メロペネム 6 g/日に変更した (Fig. 1)。抗凝固療法としてヘパリンを開始し、活

性型トロンボプラスチン時間で 40 秒から 50 秒を目標にしながら持続静注をおこなった。第 10 病日に施行した胸部 CT では、複数の孤発性の異常陰影をみとめた。クリプトコッカス・ネオフォルマンズ抗原、ムコールはいずれも陰性で、ツベルクリン反応は弱～中等度陽性で結核感染を示唆する所見もみられなかった。入院時の造影 CT にて左内頸静脈にも造影不良域をみとめ、同部位の静脈血栓に合併が考えられ、肺病変は同部位もしくは海綿静脈洞内血栓の一部が、血行性に肺に到達し、肺塞栓症をきたした可能性が考えられた。動脈血液ガスは PH 7.506, PCO2 38.8 mmHg, PO2 65.1 mmHg, HCO3-

Table 1 Reported cases of patients with both Lemierre syndrome and cavernous sinus thrombosis.

| Author | Year | Age | Sex | Initial symptoms | Past history and underlying diseases | Thrombosis of internal jugular vein | Pulmonary disease | Treatment | Outcome |
|--------------|------|-----|-----|---|--|-------------------------------------|--|--|-------------|
| Jones TH | 1990 | 26 | M | pharyngitis, fever | pharyngitis, meningitis | none | septic emboli | antibiotics and anticoagulant | improvement |
| Bentham JR | 2004 | 15 | M | left sided weakness, headache, right submandibular neck pain, fever | meningitis, carotid artery stenosis and stroke | present | N/A | drainage, antibiotics and antiplatelet therapy | improvement |
| Touitou D | 2006 | 15 | M | fever, headache, confusion, right abducens nerve palsy | none | none | metastatic abscesses | antibiotics and anticoagulant | improvement |
| Westhout F | 2007 | 16 | M | right facial swelling, trismus, right tonsillar enlargement and neck tenderness | history of meningitis, common cold, peri-tonsillar abscess | present | septic emboli | drainage, antibiotics and anticoagulant | improvement |
| Brown LM | 2007 | 24 | M | sore throat, fever, headache, odynophagia, left submandibular swelling | left peritonsillar abscess | none | lung abscess | drainage, antibiotics and anticoagulant | improvement |
| Yamaguchi M | 2010 | 51 | F | fever, sore throat, blepharoptosis, occipital pain | history of appendicitis | none | septic emboli | antibiotics | improvement |
| Lim SC | 2010 | 32 | M | fever, dyspnea, tenderness over the left side of the lateral neck | none | present | Multiple abscesses | drainage, antibiotics and anticoagulant | improvement |
| Vincent QB | 2010 | 5 | F | purulent otorrhea, meningeal syndrome, convulsions, alteration in consciousness, apnea, right cerebellar syndrome | meningo-encephalitis | present | lung dissemination | antibiotics and anticoagulant | improvement |
| Bababegy SR | 2011 | 3 | M | fever, tonsillar enlargement, bilateral purulent green discharge from ear, facial edema, estropia | none | present | N/A | antibiotics | improvement |
| Kahn JB | 2011 | 45 | M | sore throat, myalgias, nausea, trismus, nuchal rigidity | history of drug abuse | present | irregular and cavitary bilateral pulmonary nodules | drainage, antibiotics and anticoagulant | died |
| Shibuya K | 2012 | 33 | M | right exophthalmos, diplopia and left neck pain | none | present | lung abscess | antibiotics and anticoagulant | improvement |
| Miller B | 2012 | 35 | M | binocular diplopia, right proptosis and dyspnea | common cold | present | N/A | antibiotics and anticoagulant | improvement |
| Kraus CL | 2012 | 19 | F | malaise, fever, headache, nausea, prosis, diplopia | mononucleosis | present | N/A | antibiotics and anticoagulant | improvement |
| Staufer C | 2013 | 18 | M | vision loss and right hemiparesis | traumatic osteomyelitis | present | septic emboli | antibiotics and anticoagulant | improvement |
| Gutzeit A | 2013 | 22 | F | swallowing difficulties, throat pain, inflammation of the tonsils on the left side | none | present | septic emboli | antibiotics and anticoagulant | improvement |
| Golan E | 2014 | 41 | M | pharyngitis, right facial pain, swelling, trismus, shortness of breath, fever | pharyngitis | present | N/A | drainage, antibiotics and anticoagulant | improvement |
| Present case | 2014 | 58 | F | bilateral periorbital swelling and abnormal eye movement | periodontal disease | present | microabscess | antibiotics and anticoagulant | improvement |

N/A, not available; M, male; F, female.

30.5 mmol/l, BE 7.1 mmol/l, と代謝性アルカローシスの所見であり明らかな肺塞栓症を示唆する所見はみとめられなかったが画像所見と症状から本症例は Lemierre 症候群の合併と診断した。

炎症所見は徐々に改善傾向で第8病日には左眼の自発開眼も可能になり、眼瞼腫脹の改善と共に眼球運動制限も改善してきた。第11病日にメロペネムを中止し、細菌の感受性がより狭域のスルバクタム・アンピシリンに変更した。その後も眼瞼腫脹と眼球運動制限などの神経所見は徐々に改善した。歯科では口腔内ブラッシングと外皮用殺菌消毒剤で洗浄し口腔内衛生管理をおこないながら経過を観察し、最終的に第21病日に抜歯をおこない、第25病日には右眼の自発開眼が可能まで回復した。拡散強調像で指摘された紐状の高信号は症状の改善とともに消退していった。海綿静脈洞内の血栓もみとめられなくなった。また胸部CT上の異常陰影も治療経過とともに消失した。

炎症の改善とともに電解質や胆道系の酵素も正常化した。抗生剤は内服薬に変更し、敗血症の再燃、海綿静脈洞の血栓の再形成の所見がないことを確認して第40病日に退院、その後外来で抗生剤を中止したが症状の再発をみとめていない。

考 察

CSTの症状はその頻度や重症度において多岐にわたる。静脈洞炎や副鼻腔炎、あるいは本症例のように齶菌からの波及による炎症では、頭痛や発熱が早期から出現し、その後生じる眼静脈の灌流障害にともない眼球突出、結膜浮腫、眼瞼周囲の浮腫にともなう膨張、ひいては外眼筋の圧迫で外眼筋麻痺をおこしやすい¹⁾²⁾。感染の波及による直接浸潤で髄膜炎、脳炎や脳血管障害、下垂体壊死を合併したばあには重篤化あるいは致死性となる。致死率はおよそ30%で、50%以上が脳神経麻痺などの後遺症を残す予後不良の疾患と報告されている¹⁾。しかし近年の画像的診断の進歩により、症状出現後、比較的早期に治療を開始することが可能となった。

歯肉の drainage vein である歯槽静脈は、翼突筋静脈叢に流入し、翼突筋静脈叢は卵円孔を介して海綿静脈洞との連絡があるため、顔面の皮膚や筋肉の感染あるいは歯や歯肉の感染が海綿静脈洞に波及し感染性血栓を呈する機序が考えられている³⁾⁴⁾。本症例でも齶菌により口腔内常在菌の *Streptococcus constellatus* が歯槽静脈か翼突筋静脈叢を経て海綿静脈洞へいった結果、CSTをひきおこしたと考えられた。

一方で副鼻腔炎、上気道感染、口腔内常在菌・ウイルス感染症から血栓を形成し、内頸静脈血栓形成、肺塞栓症をおこす一連の病態は Lemierre 症候群と呼ばれる。菌血症を原因として肺膿瘍や脳膿瘍を合併することもあり、確定診断が遅れがちになることから死亡率は高いとされる⁵⁾⁶⁾。血液培養で原因菌が発見され診断されることが多く、早期の鑑別診断が重要になる。本症例は内頸静脈血栓、肺病変がみられ Lemierre 症候群と CST の合併例と考えられた。われわれがしらべた範囲では Lemierre 症候群と CST の合併例は少なく、しらべえ

たかぎりであれわれの症例以外に16例の報告がみられた (Table 1)^{7)~22)}。その原因は齶菌以外には急性扁桃炎、滲出性咽頭炎、扁桃周囲膿瘍、髄膜炎などで、原因菌としては *Fusobacterium necrophorum* がもっとも多かった。齶菌など感染が原因の CST 症例では Lemierre 症候群の合併も考えて、内頸静脈の精査や肺の化膿性血栓症の合併に注意を払い精査することが必要であると考えられた⁷⁾²³⁾。

脳静脈洞血栓症のMRI所見は、71.4%の症例で脳静脈洞頭部もしくは脳静脈が拡散強調画像で高信号、みかけの拡散係数(ADC値)は著明に低下する²⁴⁾。拡散強調画像で高信号を呈する理由は、血管内の水の動きが制限されていることを示唆し、比較的新しい血栓症であるためと考えられている。これまでの報告では実際に拡散強調画像で高信号、ADCで低信号を示した CST 症例はみいだせなかった。おそらく、他の脳静脈洞にくらべ上眼静脈あるいは海綿静脈洞は体積が小さく拡散強調画像のスライス厚の問題で描出しにくい可能性があり、撮像法の検討が必要と思われる。脳静脈洞血栓症の検討⁶⁾では静脈血栓塞栓部位の拡散強調画像の信号が高いほど、再開通率が低いことが報告されているが、本症例では、抗凝固療法によって血栓が消退していくにつれ、拡散強調画像における上眼静脈の高信号が消失した。本症例は来院時理学所見と血液検査所見に加え、MRI 拡散強調画像でその存在をうたがいが、造影CTにおいて早期に確定診断がえられた点で貴重であり、この有用性を指摘した最初の報告である。

本症例の治療において、CSTの原因が特定できない段階から血液培養後に抗生剤、抗凝固薬を開始し、血液培養陽性の結果が出てから薬剤感受性試験を考慮してメロペネムを選択した。一般に抗菌薬は血液培養の結果が出るまで第3世代セフェムやメトロニダゾールから開始することが奨励されており、メチシリン耐性の菌も考慮し、バンコマイシンの併用も考慮すべきである¹⁾²⁾。血栓中の菌に抗菌剤が効きにくいこともあり、その使用期間は臨床症状が完全に消失後も長期に継続することが望ましい^{1)~3)25)}。本症例では、拡散強調画像で左右の上眼静脈の高信号がほぼ消失するまで約3ヵ月間抗菌薬を継続後中止したが、これまで再発なく経過している。抗凝固療法については早期のヘパリンとワルファリンの併用で脳神経障害や、半身麻痺の後遺症を軽減し、予後を改善させるという報告がある¹⁾³⁾²⁶⁾。抗凝固療法にて症状の改善がないばあは外科的ドレナージ術が考慮されることもある²⁷⁾。本症例ではワルファリンをもちい、出血性合併症なく良好な経過がえられているが、CSTの再発予防目的の抗凝固療法の期間継続に関する治療指針は存在せず、今後更なる症例の蓄積が必要であると考えられた。

※本論文に関連し、開示すべきCOI状態にある企業、組織、団体はいずれもありません。

文 献

- 1) Desa V, Green R. Cavernous sinus thrombosis: current therapy. J Oral Maxillofac Surg 2012;70:2085-2091.

- 2) Ebright JR, Pace MT, Niazi AF. Septic thrombosis of the cavernous sinuses. *Arch Intern Med* 2001;161:2671-2676.
- 3) Berdai AM, Shimi A, Khatouf M. Cavernous sinus thrombophlebitis complicating sinusitis. *Am J Case Rep* 2013;14:99-102.
- 4) Komatsu H, Matsumoto F, Kasai M, et al. Cavernous sinus thrombosis caused by contralateral sphenoid sinusitis: a case report. *Head Face Med* 2013;9:9.
- 5) Aggarwal SK, Nath A, Singh R, et al. Lemierre's Syndrome presenting with neurological and pulmonary symptoms: Case report and review of the literature. *Ann Indian Acad Neurol* 2013;16:259-263.
- 6) Saposnik G, Barinagarrementeria F, Brown RD, Jr, et al. Diagnosis and management of cerebral venous thrombosis: a statement for healthcare professionals from the American Heart Association/American Stroke Association. *Stroke* 2011;42:1158-1192.
- 7) Miller B, Khalifa Y, Feldon SE, et al. Lemierre syndrome causing bilateral cavernous sinus thrombosis. *J Neuroophthalmol* 2012; 32:341-344.
- 8) 澁谷航平, 五十嵐修一, 佐藤朋江ら. 化膿性海綿静脈洞血栓症. 細菌性髄膜炎をきたした Lemierre 症候群の 33 歳男性例. *臨床神経* 2012;52:782-785.
- 9) Stauffer C, Josiah AF, Fortes M, et al. Lemierre syndrome secondary to community-acquired methicillin-resistant *Staphylococcus aureus* infection associated with cavernous sinus thrombosis. *J Emerg Med* 2013;44:177-182.
- 10) Westhout F, Hasso A, Jalili M, et al. Lemierre syndrome complicated by cavernous sinus thrombosis, the development of subdural empyemas, and internal carotid artery narrowing without cerebral infarction. *Case Report. J Neurosurg* 2007;106: 53-56.
- 11) Jones TH, Bergvall V, Bradshaw JP. Carotid artery stenoses and thrombosis secondary to cavernous sinus thromboses in *Fusobacterium necrophorum* meningitis. *Postgrad Med J* 1990; 66:747-750.
- 12) Bentham JR, Pollard AJ, Milford CA, et al. Cerebral infarct and meningitis secondary to Lemierre's syndrome. *Pediatr Neurol* 2004;30:281-283.
- 13) Touitou D, Deltour S, Bonneville F, et al. Hemiplegia in Lemierre syndrome: a neuroimaging strategy. *Eur J Neurol* 2006;13:424-426.
- 14) Brown LM, Wallwork B. Lemierre's—the sinister sore throat. *J Laryngol Otol* 2007;121:692-694.
- 15) Yamaguchi M, Nishizawa H, Yasumoto T, et al. Lemierre syndrome with blepharoptosis. *Intern Med* 2010;49:753-757.
- 16) Lim SC, Lee SS, Yoon TM, et al. Lemierre syndrome caused by acute isolated sphenoid sinusitis and its intracranial complications. *Auris Nasus Larynx* 2010;37:106-109.
- 17) Vincent QB, Labedan I, Madhi F. Lemierre syndrome with meningo-encephalitis, severe cerebral artery stenosis, and focal neurological symptoms. *J Pediatr* 2010;157:345-345. e342.
- 18) Bababegy SR, Almarzouki H, Buffenn AN. Isolated abducens nerve palsy secondary to Lemierre syndrome. *J AAPOS* 2011; 15:587-589.
- 19) Kahn JB, Baharestani S, Beck HC, et al. Orbital dissemination of Lemierre syndrome from gram-positive septic emboli. *Ophthalm Plast Reconstr Surg* 2011;27:e67-68.
- 20) Kraus CL, Culican SM. Challenging presentations of cavernous sinus thrombophlebitis. *J Ophthalmic Inflamm Infect* 2012;2: 133-136.
- 21) Gutzeit A, Roos JE, Portocarrero-Fäh B, et al. Differential diagnosis of Lemierre's syndrome in a patient with acute paresis of the abducens and oculomotor nerves. *Korean J Ophthalmol* 2013;27:219-223.
- 22) Golan E, Wong K, Alahmadi H, et al. Endoscopic sphenoid sinus drainage in Lemierre syndrome. *J Clin Neurosci* 2014;21:346-348.
- 23) Morelli N, Rota E, Sacchini D, et al. Lemierre syndrome: more than “the forgotten disease”. *Neurology* 2013;81:1179-1180.
- 24) Favrole P, Guichard JP, Crassard I, et al. Diffusion-weighted imaging of intravascular clots in cerebral venous thrombosis. *Stroke* 2004;35:99-103.
- 25) Imholz B, Becker M, Lombardi T, et al. Septic thrombosis of the cavernous sinus secondary to a *Streptococcus milleri* oral infection. *Dentomaxillofac Radiol* 2012;41:525-528.
- 26) Kraus CL, Culican SM. Challenging presentations of cavernous sinus thrombophlebitis. *J Ophthalmic Inflamm Infect* 2012;2: 133-136.
- 27) Ito E, Saito K, Nagatani T, et al. Cavernous sinus thrombophlebitis caused by *Porphyromonas gingivalis* with abscess formation extending to the orbital cavity. *Case report. Neurol Med Chir* 2009;49:370-373.

Abstract**A case with both infectious cavernous sinus thrombosis and Lemierre syndrome due to intraoral resident flora**

Akihiro Nishida, M.D.¹⁾, Toshiyasu Ogata, M.D.¹⁾, Masataka Kudo, M.D.¹⁾,
Kousuke Fukuhara, M.D.¹⁾, Jiro Fukae, M.D.¹⁾ and Yoshio Tsuboi, M.D.¹⁾

¹⁾Department of Neurology, Faculty of Medicine, Fukuoka University

The present report describes a 54-year-old woman with cavernous sinus thrombosis (CST) presenting with fever, and marked periorbital swelling. There is a history of untreated periodontal disease. On initial examination, periorbital pain associated with bilateral blepharoptosis, chemosis, and disturbed eye movement was present. The laboratory evaluation showed significant elevations in inflammatory and fibrinolytic markers. Diffusion-weighted MRI revealed high signal intensities in the bilateral superior ophthalmic veins (SOV). Contrast-enhanced computed tomography (CT) of the cranium showed an enlarged right SOV and a non-enhancing lesion within the right SOV and bilateral cavernous sinus, indicating cavernous sinus thrombosis with diffuse SOV thrombosis. Blood culture performed on admission showed bacterial infection by intraoral resident flora; therefore, the CST was attributed to untreated periodontal disease. Contrast-enhanced CT of the case also revealed the presence of thrombosis in the jugular vein associated with micropulmonary embolus, indicating co-occurrence of Lemierre's syndrome. Antibiotic and anticoagulant treatment were initiated, and the tooth decay was treated; all clinical symptoms and signs subsequently improved. Additional neuroimaging showed that the thrombus was absent from both SOV and the cavernous sinus. Infectious CST is life threatening; therefore, laboratory and imaging examination should be performed quickly, and antibiotic and anticoagulant therapy administered immediately.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2015;55:483-489)

Key words: cavernous sinus thrombosis, Lemierre's syndrome, decayed teeth
