

## 症例報告

# MRIにて動眼神経圧迫を確認し得た下垂体炎に伴う 下垂体卒中の56歳男性例

五十嵐晴紀<sup>1)\*</sup> 国分 則人<sup>1)</sup> 船越 慶<sup>1)</sup>  
櫻井慎太郎<sup>2)</sup> 平田 幸一<sup>1)</sup>

**要旨：**症例は56歳男性である。突然の頭痛、発熱、瞳孔異常を伴わない右動眼神経麻痺、意識障害で発症した。頭部MRIでT<sub>1</sub>高信号を伴う下垂体の腫大より下垂体卒中と診断した。下垂体前葉ホルモンの著明な低下と中枢性尿崩症を呈したため高用量ステロイドを開始し、2日後に意識障害と頭痛は改善した。第30病日のMRIで腫瘍の明らかな縮小と動眼神経圧迫の改善を認めた。ステロイドへの迅速な反応と下垂体病変の消失から、下垂体卒中の原因は下垂体炎と推察した。頭部thin slice MRIで海面静脈洞入口部における動眼神経圧迫を認め、動眼神経麻痺の病態として栄養血管の血流障害を考えた。

(臨床神経 2018;58:668-672)

**Key words：**下垂体卒中, 下垂体炎, 動眼神経, 海面静脈洞

## はじめに

下垂体卒中は、下垂体の出血や出血性梗塞による下垂体破壊により、突然あるいは急性発症の発熱、頭痛、嘔気・嘔吐、視覚障害、意識障害や様々な内分泌障害を引き起こす症候群である<sup>1)</sup>。最も頻度の高い症状は頭痛で90~97%<sup>2)</sup>、外眼筋麻痺は35~78%<sup>3)</sup>と報告されている。基礎疾患として最も頻度が高いものは下垂体腺腫で、30~64%に及ぶが<sup>4)</sup>、妊婦や産褥期女性などをはじめ、腫瘍以外の病態にも起こることが知られている。一方で、下垂体腺腫における下垂体内の出血は、下垂体卒中の症状を示さない患者にも高頻度に認められる事から<sup>5)</sup>、下垂体卒中は、出血や出血性梗塞を示唆する画像所見と、上述のような臨床症状が伴存在するときに診断される。外眼筋麻痺の中では動眼神経障害の頻度が高く、海綿静脈洞内における増大した占拠性病変による圧迫あるいは腫瘍による浸潤が原因と考えられている<sup>3)</sup>。下垂体炎による下垂体卒中の報告は稀である。われわれは、海綿静脈洞入口部における動眼神経圧迫をMRIで描出できた、下垂体炎による下垂体卒中の1例を報告する。

## 症 例

症例：56歳、男性  
主訴：意識障害

既往歴：高血圧。

家族歴：父 脳梗塞、特発性心筋症。

現病歴：2016年4月某日に突然の右眼の羞明と頭痛を自覚(第1病日)、第3病日に発熱に引き続く意識障害が出現し緊急入院となった。

身体所見：入院時の現症は、脈拍数112/分、血圧114/70 mmHg、体温38.3°C、意識レベルはJCSI-3で傾眠傾向を示し、質問に対する返答は不能であった。瞳孔は2/2(左/右)mmで左右同大、眼位は右眼が外転位をとり、右眼の眼瞼下垂と上下転、内転障害を示し、内眼筋の障害を伴わない動眼神経麻痺と考えられた。そのほかの脳神経および運動・感覚系に明らかな異常は認めなかった。

検査所見：頭部MRIで、特に右側への進展がめだつ腫大した下垂体と、下垂体内のT<sub>1</sub>高信号を認め、下垂体卒中と診断した(Fig. 1A~E)。正常下垂体にみられる下垂体後葉のT<sub>1</sub>高信号は消失していた(Fig. 1E)。

下垂体前葉ホルモンの著明な低下(コルチゾール0.9 μg/dl(正常値3.8~18.4)、LH 0.54 mIU/ml(正常値0.79~5.72)、TSH 0.04 μIU/ml(正常値0.38~3.64))、甲状腺ホルモンの低下(FT3 1.33 pg/ml(正常値2.3~4.3))を認めた。抗下垂体抗体および抗副腎皮質抗体は陰性であった。

入院後経過：第6病日より尿量4,500 ml/日と多尿、かつ血漿浸透圧306 mOsm/kgと高値を呈した。血清ADH値は1.1 pg/ml(正常値3.8以下)と正常範囲であったが、相対的に低値であ

\*Corresponding author: 獨協医科大学内科学(神経)〔〒321-0293 栃木県下都賀郡壬生町北小林880〕

<sup>1)</sup> 獨協医科大学内科学(神経)

<sup>2)</sup> 獨協医科大学内科学(内分泌・代謝)

(Received June 3, 2018; Accepted August 31, 2018; Published online in J-STAGE on October 27, 2018)

doi: 10.5692/clinicalneuroil.cn-001192

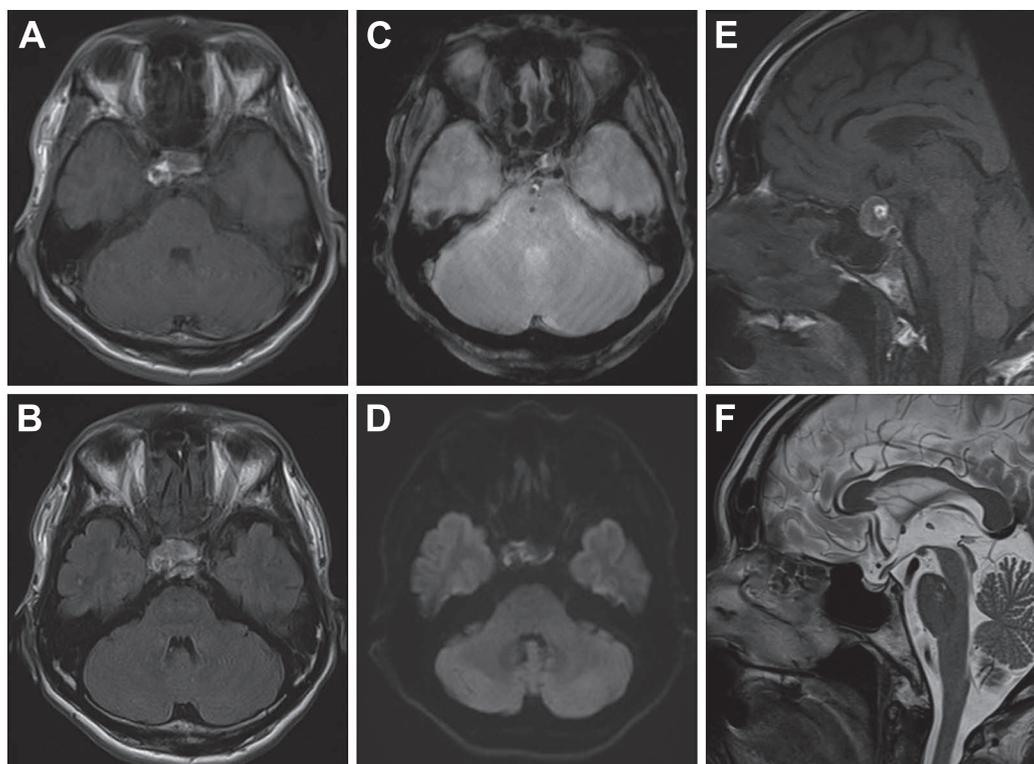


Fig. 1 MR findings at diagnosis and 7 months after symptom onset.

Axial image MRI at pituitary level (A, T<sub>1</sub>WI; B, FLAIR image; C, T<sub>2</sub>\*WI; D, DWI) and T<sub>1</sub>WI sagittal image (E) at diagnosis. The pituitary was enlarged with heterogeneous T<sub>1</sub> high-signal-intensity area, which was consistent with hemorrhage. Seven months after onset, pituitary was decreased in volume without resection (T<sub>2</sub>WI, F).

り、中枢性尿崩症と診断した。同日よりヒドロコルチゾン 300 mg/日を開始したところ、第8病日には意識障害と頭痛は速やかに改善したが、動眼神経麻痺は遷延していた。第12病日には意識清明となり頭痛は消失、投薬は開始から10日間で休止した。第46病日には羞明、複視も消失し第48病日退院となった。尿崩症はデスマプレシン 60 µg/日より開始し、発症2年後現在加療を継続している。

第12病日中脳レベルのMR cisternography (TR 1,300.0 ms, TE 120.0 ms, FA 120°)を示す (Fig. 2A, B)。中脳吻側から後床突起を結ぶ線に平行に thin slice にて撮像した。右側に強い下垂体の腫大が、海綿静脈洞に入口する部位で動眼神経を圧迫する像が観察された (Fig. 2A)。第30病日のMRIでは、腫瘍の明らかな縮小を認め、動眼神経圧迫も消失した (Fig. 2C, D)。MRI 上下垂体腫大は徐々に縮小し、7ヶ月後に正常化した (Fig. 1F)。

ステロイドへの速やかな反応と下垂体病変の消失、臨床経過及び、尿崩症を伴う症候からは、本例における下垂体卒中の原因は汎下垂体炎と推察された。

## 考 察

本例は、急性の頭痛、発熱、眼筋麻痺、意識障害で発症し、脳MRIで下垂体腫大に加え、出血を示唆する所見を認めたこ

とから下垂体卒中と診断した。副腎皮質ステロイドへの良好な反応とその後の下垂体病変の正常化から下垂体腺腫は否定され、本例の下垂体卒中の基礎疾患は汎下垂体炎と考えた。下垂体炎は、「自己免疫性視床下部下垂体炎の診断と治療の手引き」<sup>6)</sup>に基づき、頭痛や視野障害、乳汁分泌、疲労感、無月経、尿崩症に特有の症候といった主症候、下垂体ホルモンの基礎値、画像検査及び、下垂体生検による病理所見から診断される<sup>6)</sup>。本例では生検を行っていないが、それ以外の診断基準の項目は満たし、リンパ球性汎下垂体炎の疑いと診断した。

下垂体卒中による下垂体卒中の原因として最も多いのは下垂体腺腫で、30~64%とされている<sup>4)</sup>。それに対して下垂体炎に伴う下垂体卒中は稀である。過去の報告をTable 1に示す<sup>7)~17)</sup>。下垂体卒中そのものの臨床症状に、基礎疾患による明らかな特徴は報告されていない。しかし、下垂体腺腫では直接的な下垂体後葉系障害は起こしにくく、一方下垂体炎そのものの症状として中枢性尿崩症は起こり得ることから、中枢性尿崩症は原因が下垂体炎であることを支持する所見と考えられる<sup>7)</sup>。下垂体卒中全体では、尿崩症の発症は5%未満であるとされているのに対し<sup>4)</sup>、Table 1に示した過去の症例では12例中6例に尿崩症がみられ、この考えを支持した。さらに、MRIのT<sub>1</sub>強調画像における下垂体後葉の高信号は下垂体後葉に蓄えられるバソプレシン量を反映していると考え

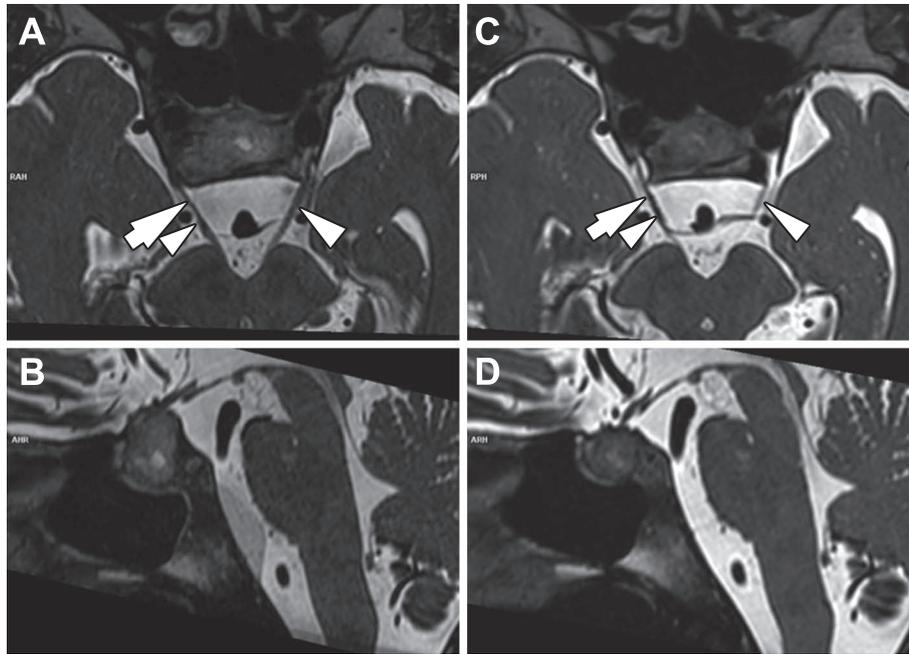


Fig. 2 MR cisternography at the pituitary level.

MR cisternography on day 12 showed the enlarged pituitary being dominant on right side compressed the oculomotor nerve (arrowheads) at inlet zone of cavernous sinus (arrows) (axial (A) and sagittal view (B)). However, MRI on day 30 showed apparent regression of tumor and the nerve compression disappeared (arrow) (axial (C) and sagittal view (D)).

Table 1 Clinical characteristics in patients with pituitary apoplexy due to hypophysitis.

First author, year	Age	Sex	Clinical symptoms	Complication	hemorrhage		Diagnosis	Treatment	Outcome
					P	S			
Sasaki, 1990	61	F	headache, nephelopsia, diplopia, dipsia, galactorrhea, diabetes insipidus	painless thyroiditis	-	-	lymphocytic hypophysitis?	steroid	favorable
Dan, 2002	31	F	headache, visual field loss	auto immune thyroiditis	-	+	lymphocytic hypophysitis	operation	favorable
Lee, 2003	26	F	headache, nephelopsia	pregnancy	-	+	lymphocytic hypophysitis	operation, steroid	favorable
Minakshi, 2005	42	M	low vision, loss of consciousness, diabetes insipidus	none	-	-	lymphocytic hypophysitis	operation, steroid	poor
Tonda, 2011	22	F	headache, visual field loss, diabetes insipidus	pregnancy	-	-	lymphocytic hypophysitis?	steroid	favorable
Gutenberg, 2012	20	F	headache, diabetes insipidus	migraine	-	-	necrotizing infundibulo-hypophysitis	operation, steroid	favorable
Tanaka, 2013	72	M	headache, visual field loss	polymyalgia rheumatica	-	+	lymphocytic hypophysitis	operation, steroid	favorable
Husain, 2014	36	F	headache, diplopia, blepharoptosis, irregular menstruation, galactorrhea	none	-	-	Idiopathic granulomatous hypophysitis	operation	favorable
Sellayah, 2015	73	F	headache, diabetes insipidus	ulcerative colitis, hypertension	-	-	lymphocytic hypophysitis	operation, steroid	favorable
Davies, 2016	30	F	headache, visual field loss	pregnancy	-	-	lymphocytic hypophysitis	steroid	favorable
Yuen, 2018	71	M	headache, diplopia	none	-	-	IgG4 related hypophysitis	operation, steroid	favorable
	24	F	headache, diplopia, visual blurring, diabetes insipidus	multiple sclerosis, migraine	-	-	IgG4 related hypophysitis	operation, steroid	favorable
Our patient, 2018	56	M	headache, consciousness loss, 3rd nerve palsy, diabetes insipidus	none	-	+	lymphocytic hypophysitis suspected	steroid	favorable

F: female; M: Male, P: pathologically proven, S: supported on imaging study.

られている<sup>18)</sup>。このため下垂体腺腫においては下垂体後葉の高信号が保たれる事が多い。下垂体後葉のT<sub>1</sub>高信号域の消失も、原因が下垂体腺腫以外であることを支持する所見である可能性が示唆された。また、下垂体炎は副腎皮質ステロイドに対する反応が良好であることから、組織診断が行われなかった症例も散見される<sup>7)11)16)</sup>。本例においてもステロイド治療によって、画像診断上も速やかな下垂体病変の退縮が認められた。こうした経過は両者を鑑別する上で重要であると考えられる。

動眼神経は中脳吻側から脳槽内を走行し、前床突起と小脳テントを結ぶ硬膜 anterior petroclinoid fold 内側の、動眼神経三角の後床突起外側で海綿静脈洞上壁の硬膜を通して海綿静脈洞に入口する。本例では、動眼神経の海綿静脈洞入口部における、下方からの圧迫がみられ (Fig. 2A, 矢印)、同部での動眼神経圧迫が起きたものと考えられた。

下垂体卒中における動眼神経麻痺の発生の機序は、海綿静脈洞内での下垂体腫瘍による圧迫や浸潤によると考えられている<sup>4)</sup>。本例では、MRIにて圧迫部位が動眼神経三角の海綿静脈洞入口部であることが示された。同様の報告がKobayashiらによってなされており、著者らは眼筋麻痺の病態生理として、この圧迫部における動眼神経の栄養血管の血流障害の可能性を示唆している<sup>19)</sup>。この海綿静脈洞入口部では、動眼神経は副交感神経成分を分枝していない。動眼神経の副交感神経成分は上眼窩裂を通過した後眼窩内で分枝する動眼神経下枝内を走行し、毛様体神経節を経て内眼筋を支配する。従って、下垂体病変による動眼神経の浸潤や破壊では、理論上内眼筋も障害されると考えられる。本例でみられた内眼筋障害を伴わない、比較的速やかに改善傾向を示す動眼神経麻痺の原因は、症候学的にも血流障害機序によることを支持するものと考えられた。また、動眼神経走行に合わせた thin slice のMRIは、本例の動眼神経圧迫の病態考察に有用であった。

※著者全員に本論文に関連し、開示すべきCOI状態にある企業、組織、団体はいずれも有りません。

## 文 献

- 1) Reid RL, Quigley ME, Yen SSC, et al. Pituitary apoplexy: a review. *Arch Neurol* 1985;42:712-719.
- 2) Boellis A, Napoli AD, Romano A, et al. Pituitary apoplexy an update on clinical and imaging features. *Insights Imaging* 2014; 5:753-762.
- 3) Glezer A, Bronstein MD. Pituitary apoplexy pathophysiology, diagnosis and management. *Arch Endocrinol Metab* 2015;59: 259-264.
- 4) Briet C, Salenave S, Bonneville J, et al. Pituitary apoplexy. *Endocrine Rev* 2015;36:622-645.
- 5) Semple PL, Jane JA, Lopes MBS, et al. Pituitary apoplexy: correlation between magnetic resonance imaging and histopathological results. *J Neurosurg* 2008;108:909-915.
- 6) 大磯ユタカ. 自己免疫性視床下部下垂体炎の診断と治療の手引き (平成21年度改訂). 厚生労働科学研究費補助金難治性疾患克服研究事業, 間脳下垂体機能障害に関する調査研究班. 平成21年度総括・分担研究報告書. 2010. P. 162-165.
- 7) 佐々木悠, 大西 修, 前原史明ら. 下垂体卒中を契機に、下垂体前葉機能低下症, 中枢性尿崩症に加え、一過性甲状腺中毒症 (painless thyroiditis) を呈した症例とその病態について. *日内分泌会誌* 1990;66:9-21.
- 8) Dan NG, Feiner RID, Houang MTW, et al. Pituitary apoplexy in association with lymphocytic hypophysitis. *J Clin Neurosci* 2002;9:577-580.
- 9) Lee MS, Pless M. Apoplectic lymphocytic hypophysitis. Case report. *J Neurosurg* 2003;98:183-185.
- 10) Minakshi B, Alok S, Hillol K. Lymphocytic hypophysitis presenting as pituitary apoplexy in a male. *Neurology India* 2005; 53:363-364.
- 11) Tonda C, Rizvi AA. Headache, pituitary lesion and panhypopituitarism in a pregnant woman: tumor, apoplexy or hypophysitis? *Am J Med Sci* 2011;342:247-249.
- 12) Gutenberg A, Caturegli P, Metz I, et al. Necrotizing infundibulohypophysitis: an entity too rare to be true? *Pituitary* 2012;15: 202-208.
- 13) Tanaka Y, Hirao T, Tsutsumi K, et al. A case of apoplectic lymphocytic hypophysitis complicated by polymyalgia rheumatic. *Rheumatol Int* 2013;33:215-218.
- 14) Husain Q, Zouzas A, Kanumuri V, et al. Idiopathic granulomatous hypophysitis presenting as pituitary apoplexy. *J Clin Neurosci* 2014;21:510-512.
- 15) Sellayah R, Gonzales M, Furlanos S, et al. Lymphocytic hypophysitis in the elderly. *J Clin Neurosci* 2015;22:1842-1843.
- 16) Davies EC, Jakobiec FA, Stagner DAM, et al. An atypical case of lymphocytic panhypophysitis in a pregnant woman. *J Neuro-ophthalmol* 2016;36:313-316.
- 17) Yuen KCJ, Moloney KJ, Mercado JU, et al. A case series of atypical features of patients with biopsy-proven isolated IgG4-related hypophysitis and normal serum IgG4 levels. *Pituitary* 2018;21:238-246.
- 18) 有馬 寛. 下垂体後葉. *日内分泌会誌* 2012;101:924-928.
- 19) Kobayashi H, Kawabori M, Terasaka S, et al. A possible mechanism of isolated oculomotor nerve palsy by apoplexy of pituitary adenoma without cavernous sinus invasion a report of two cases. *Acta Neurochir* 2011;153:2453-2456.

## Abstract

**Oculomotor nerve compression on MRI in a 56-year-old man  
with pituitary apoplexy due to panhypophysitis**

Haruki Igarashi, M.D.<sup>1)</sup>, Norito Kokubun, M.D., Ph.D.<sup>1)</sup>, Kei Funakoshi, M.D., Ph.D.<sup>1)</sup>,  
Shintaro Sakurai, M.D.<sup>2)</sup> and Koichi Hirata, M.D., Ph.D.<sup>1)</sup>

<sup>1)</sup>Department of Neurology, Dokkyo Medical University

<sup>2)</sup>Department of Endocrinology and Metabolism, Dokkyo Medical University

A 56-year-old man noted sudden onset of headache, fever, right pupil-spared oculomotor nerve palsy and consciousness disturbance. Swelling of pituitary with T<sub>1</sub> high intensity on brain MRI suggested the diagnosis of pituitary apoplexy. Considering significant decrease of pituitary anterior lobe hormone and central diabetes insipidus, high dose of hydrocortisone was administered. Eight days after onset, consciousness level and headache improved. On day 30, brain MRI revealed the reduction of mass size, and on day 46, photophobia and double vision disappeared. Following the rapid response to steroid and disappearance of pituitary lesion, pituitary apoplexy was probably caused by panhypophysitis. Thin-slice brain MRI confirmed the compression of oculomotor nerve at inlet zone of cavernous sinus, suggesting the mechanism of oculomotor palsy was perfusion impairment of feeding artery.

(Rinsho Shinkeigaku (Clin Neurol) 2018;58:668-672)

**Key words:** cavernous sinus, oculomotor nerve palsy, panhypophysitis, pituitary apoplexy

---