

## 症例報告

### *Streptococcus anginosus* 蝶形骨洞炎を契機に 敗血症と多彩な頭頸部合併症を呈した 14 歳女児

京都第二赤十字病院 小児科

渡辺 和徳    福原 正太    藤田 尚江  
生嶋 諒    小西 亮    齋藤多恵子  
富井 敏宏    東道 公人    小林 奈歩  
森岡 茂己    藤井 法子    加納 原  
長村 敏生

**要旨：**症例は生来健康な 14 歳女児。発熱，頭痛，後頸部痛，嘔吐を主訴に当科入院となった。頭部 CT 上蝶形骨洞炎を認め，血液検査所見などから敗血症と考えられたため抗菌薬投与を開始したが，後頸部痛が遷延するため施行した頭部 MRI の結果，可逆性脳梁膨大部に高信号域を伴う軽症脳炎・脳症（MERS）や頭蓋底斜台部・第 1-2 頸椎背部に硬膜外膿瘍を認めた。血液培養検査で *Streptococcus anginosus* (*S. anginosus*) が検出され，副鼻腔 CT では蝶形骨洞炎の増悪を認めた。抗菌薬を MEPM へ変更して副鼻腔膿瘍ドレナージ術を施行したところ，炎症反応は陰性化し，頭部 MRI 上 MERS，頭蓋底・頸椎背部の硬膜外膿瘍は改善したが，新たに右側横静脈洞から S 状静脈洞に血栓を認め，抗血栓療法を開始した。脳静脈洞血栓症の増悪なく，ワルファリン内服の上で退院となった。蝶形骨洞炎は多彩な頭頸部合併症を併発しやすく，*S. anginosus* が起炎菌となった場合は重篤化する可能性があるため注意が必要である。

**Key words：**蝶形骨洞炎，*Streptococcus anginosus*，敗血症，硬膜外膿瘍，脳静脈洞血栓症

#### はじめに

小児期に発症する蝶形骨洞炎は稀であるが，蝶形骨洞は副鼻腔の最深部で頭蓋底や海綿静脈洞と隣接しているため，炎症が波及した場合に敗血症や頭蓋内膿瘍などの重篤な合併症を呈することがある。*Streptococcus anginosus* (*S. anginosus*) 蝶形骨洞炎を契機に *S. anginosus* 敗血症，可逆性脳梁膨大部に高信号域を伴う軽症脳炎・脳症 (Clinically mild encephalitis/encephalopathy with a reversible splenial lesion; MERS)，頭蓋底・頸椎背部の硬膜外膿瘍及び脳静脈洞血栓症という多彩な合併症を呈した 1 例を経験したので報告する。

#### 症 例

症例：14 歳，女児

主訴：発熱，後頸部痛，嘔吐

**現病歴：**入院 2 日前の夕方から 37.4 度の微熱，顔面紅潮を認めた。入院 1 日前の昼頃に頭痛と 38.4 度の発熱を認めて前医を受診し，インフルエンザ迅速検査を施行されたが陰性であった。帰宅後に後頸部痛が出現し，入院当日の夜に 3 回嘔吐を繰り返したため当科救急外来を受診した。診察時に項部硬直を認め，髄膜炎を疑われて入院となった。

**出生歴：**在胎 34 週 5 日，出生体重 1,965 g，緊急帝王切開で出生した。

**既往歴：**8 歳時に膀胱炎で入院歴あり。

**家族歴：**特記事項なし。

**入院時現症：**体温 37.5 度，脈拍 100 回/分，血圧 102/58 mmHg，SpO<sub>2</sub> 98% (室内気)，呼吸数 20 回/分であった。身長 152 cm (-0.79 SD)，体重 35.7 kg (-1.78 SD)。GCS E4V5M6 で，活気不良であった。眼瞼結膜の充血はなし。咽頭粘膜の

軽度発赤あり。頸部リンパ節腫脹はなし。聴診上呼吸音は清、心音整、心雑音なし。腹部は平坦軟、肝脾腫なし。四肢の末梢冷感はなし。皮疹なし。項部硬直あり。明らかな神経学的異常所見は認めなかった。

入院時検査所見（表）：血液一般検査は白血球が24,500/ $\mu$ Lと上昇し左方移動を認め、血小板は132,000/ $\mu$ Lと軽度低下を認めた。凝固検査ではフィブリノゲン、Dダイマーが上昇していた。

生化学検査では T-bil の軽度上昇と肝酵素、LDH の上昇を認め、CRP、プロカルシトニン（PCT）の著明な上昇を認めた。入院当日の髄液検査では明らかな異常を認めなかったが、頭部 CT では両側蝶形骨洞炎と左篩骨洞炎を疑う軟部陰影を認めた。インフルエンザ迅速検査は陰性であったが、咽頭より採取した A 群  $\beta$  溶血性連鎖球菌迅速検査は陽性であった。尿検査や髄液検査では明らかな異常は認めなかった（表）。白血球分類、IgG、

表 入院時検査所見

〈血算〉		〈生化学〉		〈尿検査〉	
WBC	24,500/ $\mu$ L	AST	473 U/L	比重	1.015
Neut	95%	ALT	437 U/L	蛋白	(+ -)
Lymp	2.2%	LDH	703 U/L	糖	(-)
RBC	537 $\times$ 104/ $\mu$ L	CPK	116 U/L	RBC	5-9/HPF
Hb	13.0 g/dL	TP	6.9 g/dL	WBC	1-4/HPF
Ht	36.2%	Alb	3.8 g/dL	〈髄液検査〉	
Plt	13.2 $\times$ 104/ $\mu$ L	T-Bil	1.2 mg/dL	細胞数	2/ $\mu$ L
〈凝固能〉		BUN	13.0 mg/dL	単核球数	2/ $\mu$ L
PT	6.0 sec	Cre	0.59 mg/dL	蛋白	16 mg/dL
PT-INR	1.02	Na	135 mmol/L	糖	77 mg/dL
APTT	32.2 sec	K	3.8 mmol/L	〈血液培養〉	
Fibrinogen	657 mg/dL	Cl	99 mmol/L	<i>Streptococcus anginosus</i> 陽性	
D-dimer	2.9 $\mu$ g/mL	Ca	8.5 mg/dL		
		Glu	129 mg/dL		
		CRP	13.46 mg/dL		
		PCT	63.6 mg/dL		

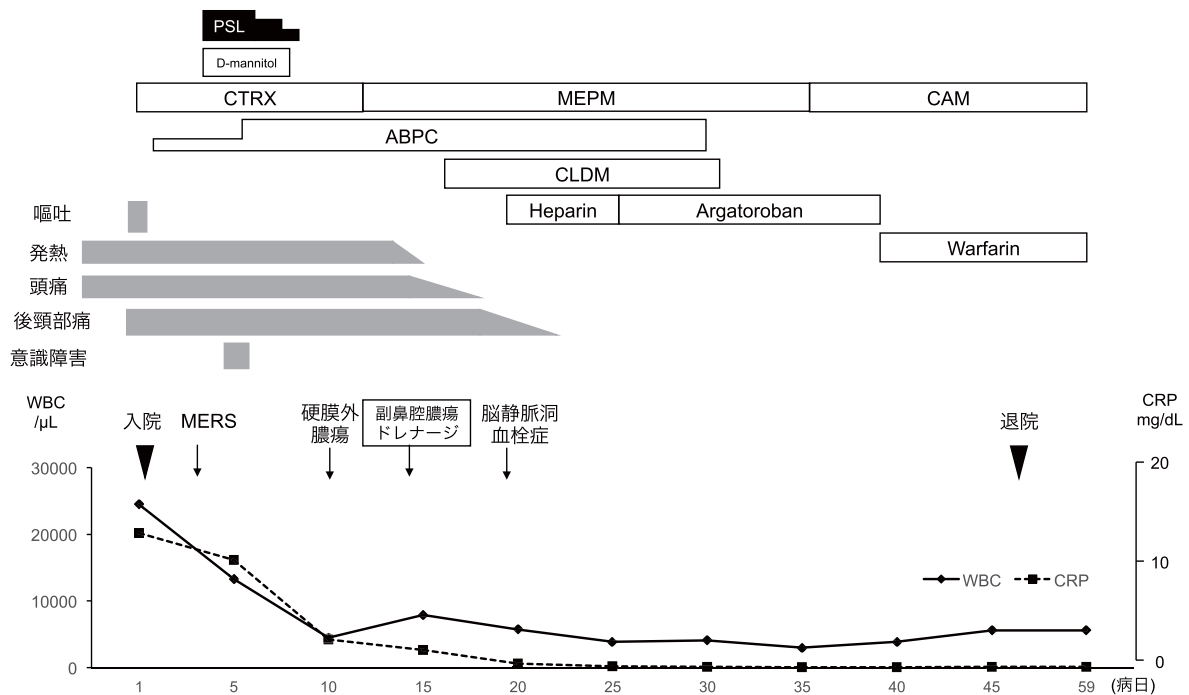


図1 入院後経過

IgA, IgM や IgG サブクラス分画は異常なく明らかな免疫能低下は認められなかった。

入院後経過 (図1) : Sequential organ failure score (SOFA) スコア2点であり敗血症が疑われた。重症感染症として CTRX 4 g/日の静脈注射を開始した。

入院2日目、血液培養検査でグラム陽性球菌陽性が判明し、ABPC 6 g/日の追加投与を開始した。入院3日目の夜中に自室内を歩き回り、自身の名前が言えないなどの行動異常を認めた。脳炎・脳症の鑑別のために頭部MRIを撮像した結果、脳梁膨大部に局限した高信号域を認めてMERS 1型と診断し、PSL 1.5 mg/kg/日の静脈注射、D-mannitol 90 g/日の点滴静注を開始した (図2)。入院5日目に血液培養から *S. anginosus*

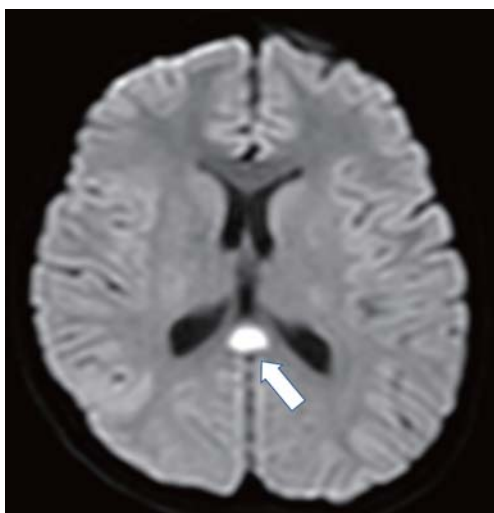


図2 頭部単純MRI  
脳梁膨大部にDWI高信号域を認めた(矢印)。入院3日目に撮像。

が検出され、*S. anginosus* 敗血症としてABPCを12 g/日に増量した。血液検査上肝酵素は正常化していた。

その後も後頸部痛が持続するため入院9日目に頸部MRIを撮像したところ、蝶形骨洞背側から斜台部に硬膜外膿瘍を認め、入院10日目の頭部造影MRIでC1-2背側に硬膜外膿瘍を認めた (図3A, 3B)。頭蓋底の斜台付近から右錐体部にかけて炎症の波及と思われる造影効果の増強が右側優位に認められ、さらに頸部背側に造影効果が波及している可能性が考えられた (図3C)。脳梁膨大部の高信号域は消失していたが、新たに右蝶形骨洞の粘膜肥厚や液体貯留の増悪を認めた。また入院11日目の時点で腹部造影CTを撮像したところ、偽胆石がみられたため、CTRXを中止しMEPM 4.5 g/日に変更した。

入院12日目の副鼻腔CTでは、両側蝶形骨洞炎の増悪と左蝶形骨洞後壁の骨菲薄化を認め (図4)、当院の耳鼻咽喉科に対診した。入院13日目に当院耳鼻咽喉科で副鼻腔膿瘍ドレナージを施行後は、炎症反応の改善を認め発熱や後頸部痛は改善した。入院16日目、手術時に採取した膿からも *S. anginosus* が検出されたことが判明、後頸部痛が持続していたため、*S. anginosus* に感受性が高くABPCの効果を相補的に高めるとされるCLDM 1.35 g/日の追加投与を開始した。

入院18日目の頭部MRIでは頭蓋底斜台部・頸椎背部の硬膜外膿瘍は改善していたが、新たに右横静脈洞～右S状静脈洞にかけて血栓形成を認めた (図5)。脳静脈洞血栓症として抗血栓薬

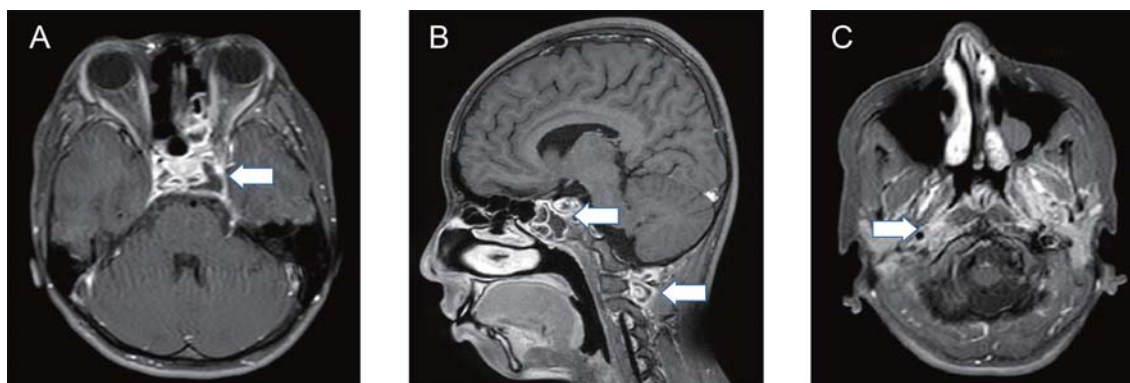


図3 頭部造影MRI  
(A) T1WIで頭蓋底膿瘍を認めた(矢印)。入院10日目に撮像。(B) T1WIで頭蓋底斜台部に膿瘍を認め、C1-2背側に硬膜外膿瘍を認めた(矢印)。入院10日目に撮像。(C) T1WIで頭蓋底の斜台部から右錐体部にかけて造影効果の増強を認めた(矢印)。入院10日目に撮像。



図4 副鼻腔 CT

両側蝶形骨洞と左篩骨洞に軟部陰影あり。左蝶形骨洞後壁の骨菲薄化を認めた(矢印)。入院12日目に撮像。



図5 頭部単純 MRV

MRVで右横静脈洞～S状静脈洞に血栓を認めた(矢印)。入院18日目に撮像。

であるヘパリンを8,000単位/日で点滴静注を開始し、APTTが前値の約1.5倍となるように8,000-12,000単位/日で投与量を調整した。入院25日にAST 91 U/L, ALT 131 U/Lと肝酵素の再上昇を認め、ヘパリンによる薬剤性肝障害の可能性を考えて代替薬として選択的トロンビン阻害薬であるアルガトロバン60 mg/日に変更した。後頭部痛は徐々に改善を認め、入院26日目には後頭部痛の訴えはほぼ消失した。アルガトロバン投与後、血液検査で肝酵素は再び正常化し、入院

29日目にABPCを中止し、入院33日目にCLDMを中止した。入院35日目にMEPMを中止し、CAMの内服を400 mg/日で開始した。入院39日目の頭部MRIで血栓の再開通は認められなかったが、閉塞部位の拡大がないことを確認し抗血栓薬をワルファリン1 mg/日内服に変更した。全身状態良好のため入院46日目に退院となった。

退院後もCAMの内服を1か月間継続した。また、ワルファリンはPT-INRが2.0から3.0程度になるように1-3.5 mg/dayで用量を調整した。退院後4か月が経過した時点で、蝶形骨洞炎の再燃や脳静脈洞血栓症の明らかな増悪はなく、以後の経過フォローについてはご家族が近医を希望したため転医となった。ワルファリンの内服は約1年間継続する予定である。

## 考 察

*S. anginosus* を起炎菌として蝶形骨洞炎を発症し、敗血症から多彩な頭頸部合併症を認めた症例を報告した。本症例において敗血症や硬膜外膿瘍などの重篤な合併症をきたした背景として、①蝶形骨洞の頭蓋内における解剖学的位置関係と②*S. anginosus* の膿瘍を形成しやすく病原性が高いという特徴が起因している可能性が考えられた。また、本症例では精査を行った範囲で明らかな免疫学的異常は認められなかった。

小児において蝶形骨洞炎は稀であるが、解剖学的に周囲に様々な臓器や血管、脳神経が隣接しており、重症化する可能性がある疾患である。

蝶形骨洞は蝶形骨体の内部に形成された副鼻腔の最深部に位置する空洞である。蝶形骨洞の上壁にはトルコ鞍があり、鞍内に下垂体が存在している。一方、側壁には海綿静脈洞、後壁には脳底動脈が隣接している。さらに、内頸動脈と外転神経が海綿静脈洞内部を貫くように走行しており、動眼神経、滑車神経、三叉神経が海綿静脈洞の外側を走行している。従って蝶形骨洞の周囲に炎症が波及することで頭頸部膿瘍、細菌性髄膜炎、海綿静脈洞血栓症や海綿静脈洞周囲を走行する脳神経麻痺などを引き起こすとされている<sup>1,2)</sup>。また、視神経障害による視力低下や下垂体機能不全を認めることもある。本症例では、頭頸部合併症とし

てMERS, 頭蓋底膿瘍, 頸椎硬膜外膿瘍, 脳静脈洞血栓症を認めたが, 明らかな視神経障害, 脳神経麻痺や下垂体機能不全は認められなかった. 蝶形骨洞炎は初期症状が頭痛や眼痛, 複視などの眼症状であることが多く, 鼻症状が出にくいいため鑑別疾患に挙がりにくく, 重篤な合併症が発症してから原因が蝶形骨洞にあることが指摘されることがある<sup>2)</sup>. 蝶形骨洞炎では激しい頭痛を伴うことも多く, 熱源不明かつ頭痛が遷延する場合は画像検査を行うことを検討した方が良いと考えられる.

蝶形骨洞炎を発症する原因としては, 感染, 深部潜水, 気圧性外傷などによる副鼻腔の機能的閉塞や異物, 鼻中隔の偏位, 鼻甲介過形成, 眼窩骨折, 先天奇形, 悪性新生物などによる副鼻腔の解剖学的閉塞が挙げられる<sup>1,2)</sup>. また, アレルギー性鼻炎, 長期のステロイド剤使用, 糖尿病, 免疫不全状態なども要因になり得る<sup>1,2)</sup>. 本症例では鼻中隔の偏位を指摘されており, 副鼻腔の解剖学的閉塞をきたしやすい素因の一つとしてもともと存在していたと考えられる. また, 蝶形骨洞炎の慢性化に伴い, 蝶形骨洞後壁における骨の菲薄化をきたした可能性があると考えられた. 蝶形骨洞後壁は海綿静脈洞と隣接しており, 骨菲薄化が周囲組織への炎症波及や血行性感染の誘因になったと考えられた. 今回, 頭蓋底の斜台付近から右錐体部にかけて炎症の波及がみられ, さらにC1-2背側に炎症が直接波及した可能性が考えられた.

*S. anginosus* は, グラム陽性球菌であり *Streptococcus constellatus*, *Streptococcus intermedius* とともに *Streptococcus milleri* group に属している. 口腔, 咽頭, 消化管, 生殖器などの粘膜に存在する常在菌であるが, 全身の様々な臓器の膿瘍形成性の感染症の起炎菌になり得る<sup>3,4)</sup>. *Streptococcus milleri* group は, コラゲナーゼやヒアルロニダーゼなどの組織破壊酵素を産生し, 免疫応答に伴い多量のサイトカインが誘導され急激に炎症が拡大する可能性が指摘されている<sup>5,6)</sup>. また, 莖膜を有する菌株では好中球の貪食, 殺菌能が低下することが示唆されている<sup>5)</sup>. つまり, *S. milleri* group の粘膜面での感染が何らかの機転により成立すると, 組織の障害や免疫系からの逃避により膿瘍を形成しやすい可能性が考えられる. 嫌気性菌との

混合感染を認めた場合は, 相乗的に炎症を増悪させやすいという報告もある<sup>7)</sup>. *S. anginosus* が起炎菌となるのは急性・慢性副鼻腔炎, 扁桃炎, 扁桃周囲膿瘍, 深頸部膿瘍などの耳鼻咽喉科領域の感染症が多いと言われているが, 18歳未満の小児では虫垂炎の起炎菌にもなりやすいことが報告されている<sup>3,4)</sup>. 急性蝶形骨洞炎の15例の報告では, 起炎菌が *Streptococcus pneumoniae* を除く *Streptococcus* 属が41%, *Staphylococcus aureus* が29%, *Streptococcus pneumoniae* が17%の頻度で検出されている<sup>8)</sup>. 急性蝶形骨洞炎における *S. anginosus* の検出頻度は不明だが, 急性副鼻腔炎に起因する頭蓋内合併症を発症した18歳未満の小児患者50例について検討された報告では, 起炎菌は *S. anginosus* が28%と最も頻度が高かった<sup>9)</sup>. *S. anginosus* を起炎菌とした群では硬膜外膿瘍が36%, 脳静脈洞血栓症が7%の頻度でみられ重篤な頭蓋内合併症を呈する頻度が高かったとされている<sup>9)</sup>. 頭蓋内膿瘍は脳神経外科的な治療介入が必要となる場合が多く, 神経学的後遺症を残す可能性が高いと言われている<sup>9)</sup>.

抗菌薬の薬剤感受性は比較的良好であるが, ペニシリン系, リンコマシン系, マクロライド系には耐性の場合もあり, 抗菌薬の中ではMEPMを推奨している報告もある<sup>10)</sup>. 本症例でも使用した抗菌薬に対する薬剤感受性結果はいずれも良好であったが, MEPMに抗生剤を変更してさらに副鼻腔膿瘍ドレナージを行ったことで良好な転帰が得られた. 今回入院時のA群溶血性連鎖球菌迅速検査が陽性であり, *Streptococcus pyogenes* を咽頭に保菌していた可能性もあるが, *S. anginosus* による交差反応により陽性反応を認めた可能性も考えられた<sup>11)</sup>.

18歳未満の小児において *S. anginosus* 敗血症は報告例が少ないが, 我々が検索した限りでは16歳女児で上腸間膜静脈における血栓性静脈炎に *S. anginosus* 敗血症を合併したという報告があった<sup>12)</sup>. 成人では *S. anginosus* 化膿性肝膿瘍に敗血症を合併した症例などが散見される<sup>13)</sup>. また, *S. anginosus* による頭蓋内感染症を認めた小児107例のうち13%の頻度で *S. anginosus* による菌血症の合併が見られたという報告がある<sup>14)</sup>. 敗血症の診断目的にSOFAスコアが用いられる



が<sup>15)</sup>、本症例では初診時に血液検査上炎症反応上昇、プロカルシトニン著明高値を認め、血小板数 $132,000/\mu\text{l}$ と低下、総ビリルビン $1.2\text{ mg/dl}$ と上昇あり SOFA スコア 2 点であったことから敗血症と診断した。入院時にみられた肝機能障害については敗血症に伴う臓器障害の一つと考えられ、広域抗生剤投与開始後速やかに肝機能は改善した。小児においても敗血症の初期診療については、敗血症バンドルの使用が推奨されており<sup>16)</sup>、敗血症が疑われた場合に等張晶質液の急速負荷、抗生剤投与前の血液培養検査の施行、感染症治療としての広域経験的抗生剤の投与を 1 時間以内に達成することで有意に死亡率が低下したという報告がある<sup>16)</sup>。本症例でも敗血症バンドルを意識し迅速な初期対応を行なうことで致死的な経過は防ぐことができた。

*S. anginosus* 感染症に MERS を合併した過去の報告は我々が調べた限りではなく、本症例は *S. anginosus* 蝶形骨洞炎に MERS を合併した初めての症例と考えられる。MERS の多くはウイルス感染に伴って発症するが、約 3% の頻度で細菌感染に MERS を合併することがあると言われている<sup>17)</sup>。本邦では黄色ブドウ球菌による感染性心内膜炎やサルモネラ腸炎、急性巣状細菌性腎炎に MERS を合併したという報告がある<sup>18-20)</sup>。感染症以外では、電解質異常、代謝異常、腎不全、血管炎などに MERS が合併することがあると言われている。MERS は軽症の場合は支持療法のみで一過性に軽快することも多いが、免疫応答や神経毒素の産生に伴う神経細胞の一過性浮腫が MERS の病態と考えられており、ステロイド投与も治療選択肢の一つとされ、特に重症化が疑われる場合は、デキサメタゾンやプレドニゾロン (PSL) もしくは mPSL パルス療法などのステロイド療法や  $\gamma$ -グロブリン療法を行う場合がある<sup>21, 22)</sup>。細菌感染が原因と考えられた場合、抗生剤投与のみで経過をみる場合もあるが、今回入院当初に認められた発熱、頭痛、嘔吐、意識障害、活気不良などの症状に重篤感があり、MERS と診断した後、重症化の可能性を考えて抗生剤に PSL を 1 週間併用し、PSL 投与終了時には MERS の病変は消失した。また、本症例では敗血症の増悪の可能性があるため mPSL パルス療

法は行わなかった。血栓形成や免疫抑制の副反応の可能性を考慮すると、今回のように頭頸部合併症を併発した場合、ステロイドパルス療法は特に症例を吟味し慎重に行うべきと考えられた。

小児における脳静脈洞血栓症は稀な疾患であり、発症率は小児 10 万人当たり 0.67 人と言われている<sup>23)</sup>。出血や静脈性梗塞を伴うことがあり、神経学的後遺症は 43~62% にみられ、死亡率は 3~12% と高い<sup>24-25)</sup>。脳静脈洞血栓症の誘発因子は多彩であり、危険因子としては血流の停滞、静脈壁の障害、血液凝固能の亢進があげられるが、本症例ではプロテイン C・プロテイン S、アンチトロンビン III は正常であり、明らかな血栓素因は認められなかった。従って蝶形骨洞炎が契機となって海綿静脈洞炎や頭蓋底斜台部膿瘍を発症し、横静脈洞から S 状静脈洞に対して感染に起因する炎症が血行性に波及し血栓を形成した可能性が考えられた。脳静脈洞血栓症の臨床症状は頭蓋内圧亢進と局所の脳障害に伴う症状からなり、頭痛、複視、片麻痺、失語、感覚障害、精神症状などを認めることがある<sup>23)</sup>。今回、後頸部痛が遷延し頭部 MRI を撮像することで診断できたが、小児における脳静脈洞血栓症は症状が特異的ではないことも多く、確定診断するためには画像診断が重要であることを改めて認識した。脳静脈洞血栓症の診断精度は頭部 MRI が優れており、MR venography (MRV) を併用することも多い<sup>26)</sup>。D-dimer は脳静脈洞血栓症の診断上有用とされており、D-dimer $<0.5\text{ }\mu\text{g/ml}$  未満は脳静脈洞血栓症の除外診断において感度 93.9%、特異度 89.7% と報告されている<sup>27)</sup>。また、血栓の拡がりや D-dimer の値にも相関があるとされている<sup>28)</sup>。本症例でも入院後の D-dimer 上昇が遷延し、脳静脈洞血栓症診断時の D-dimer は  $1.8\text{ }\mu\text{g/ml}$  であった。急性期の抗凝固療法を早期に行うことが予後の改善につながるため<sup>29)</sup>、早期診断が重要と考えられた。

## 結 語

今回我々は *Streptococcus anginosus* を起炎菌とした蝶形骨洞炎に敗血症、MERS、頭蓋底・頸椎背部の硬膜外膿瘍及び脳静脈洞血栓症といった多彩な合併症を認めた症例を経験した。 *Streptococ-*

*cus anginosus* は常在菌であるが病原性が高く、頭頸部膿瘍を形成しやすいので、発熱、頭痛、後頸部痛、活気不良などの症状が遷延し熱源不明の場合、蝶形骨洞炎や付随する頭頸部合併症を鑑別する必要がある。

本症例は第124回日本小児科学会学術集会で報告した。

本論文に関連し、開示すべき利益相反はありません。

## 文 献

- 1) 畠山邦也, 大和俊太, 川島陽介. 激しい頭痛を訴え、蝶形骨洞炎と診断された3例. *小児臨* 2009; **62**: 2387-2391.
- 2) 渡部 達, 増田怜史, 金城健一, 他. 蝶形骨洞炎を伴う methicillin susceptible *Staphylococcus aureus* 敗血症の14歳男児例. *小児臨* 2015; **68**: 2047-2053.
- 3) Whiley RA, Beighton D, Winstanley TG, et al. *Streptococcus intermedius*, *Streptococcus constellatus*, and *Streptococcus anginosus* (the *Streptococcus milleri* group): association with different body sites and clinical infections. *J Clin Microbiol* 1992; **30**: 243-244.
- 4) Jiang S, Li M, Fu T, et al. Clinical Characteristics of Infections Caused by *Streptococcus Anginosus* Group. *Sci Rep*. 2020; **10**: 9032.
- 5) Gossling J. Occurrence and pathogenicity of the *Streptococcus milleri* group. *Rev Infect Dis* 1988; **10**: 257-285.
- 6) 藤吉達也, 岡坂健司, 吉田雅文, 他. 深頸部膿瘍における *Streptococcus milleri* group の検出頻度とその病原性. *日耳鼻会報*. 2001; **104**: 147-156.
- 7) Shinzato T, Saito A. A mechanism of pathogenicity of "Streptococcus milleri group" in pulmonary infection: synergy with an anaerobe. *J Med Microbiol* 1994; **40**: 118-123.
- 8) Lew D, Southwick FS, Montgomery WW, et al. Sphenoid sinusitis. A review of 30 cases. *N Engl J Med*. 1983; **309**: 1149-1154.
- 9) Deutschmann MW, Livingstone D, Cho JJ, et al. The significance of *Streptococcus anginosus* Group in Intracranial Complications of Pediatric Rhinosinusitis. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg*. 2013; **139**: 157-60.
- 10) 坂井田 寛, 小林正佳, 石永一, 他. 耳鼻咽喉科領域における *Streptococcus milleri* group 感染症の検討. *日耳鼻感染症研究会誌* 2013; **31**: 143-147.
- 11) 光野典子, 播 智宏, 玉川信吉, 他. A 群レンサ球菌迅速診断キットの基礎的検討 *Streptococcus pyogenes* および A 群多糖体抗原を有するその他の *Streptococcus* spp. を対象として 感染症誌 2006; **80**: 665-673.
- 12) Aljundi R, Ang J. A rare case of *Bacteroides fragilis* and *Streptococcus anginosus* sepsis associated with superior mesenteric vein thrombophlebitis in a teenager. *Pediatrics*. 2020; **146**: 458-459.
- 13) 重福隆太, 鈴木通博, 小林 稔, 他. *Streptococcus anginosus* group による化膿性肝膿瘍の3症例. *日消誌*. 2013; **110**: 1468-1480.
- 14) Daniel SD, Harber, Hwather RH, James TG. Sequential Intravenous-Oral Therapy for Pediatric *Streptococcus anginosus* Intracranial Infections. *Open Forum Infect Dis*. 2022; **9**: ofab 628
- 15) 志馬伸朗. 小児敗血症の臨床. *小児科*. 2019; **60**: 1375-1384.
- 16) Evans IV, Phillips GS, Alpern ES, et al. Association between the New York sepsis care mandate and in-hospital mortality for pediatric sepsis. *JAMA*. 2018; **320**: 358-367.
- 17) Hoshino A, Saitoh M, Oka A, et al. Epidemiology of acute encephalopathy in Japan, with emphasis on the association of viruses and syndromes. *Brain Dev*. 2012; **34**: 337-343.
- 18) 加藤雅弘, 鹿野博明. サルモネラ腸炎を契機に可逆性脳梁膨大部病変を伴う軽症脳炎・脳症 (MERS), 横紋筋融解症を発症した男児の1例. *小児感染免疫*. 2018; **30**: 245-251.
- 19) 穴田涼子, 温井孝昌, 林 智宏. 黄色ブドウ球菌による感染性心内膜炎から clinically mild encephalitis/encephalopathy with a reversible splenic lesion (MERS) を呈した1例. *臨神経*. 2019; **59**: 666-668.
- 20) 東 純史, 桂 聡哉, 梶田聡美, 他. 可逆性脳梁膨大部病変を伴う軽症脳炎・脳症を合併した急性巣状細菌性腎炎の1例. *小児感染免疫*. 2015; **27**: 311-316.
- 21) Masiello E, Gatto A, Lazzareschi I, et al. Mild encephalopathy with reversible splenic lesion associated with echovirus 6 infection: a case report and review of the literature. *Turk J Pediatr*. 2020; **62**: 293-309.
- 22) Takanashi J. Two newly proposed encephalitis/encephalopathy syndromes. *Brain Dev*. 2009; **31**: 521-528.
- 23) De Veber G, Andrew M, Adams C. et al. Cerebral sinovenous thrombosis in children. *N Engl J Med*. 2001; **345**: 417-423.

- 24) Ichord RN, Benedict SL, Chan AK, et al. International Paediatric Stroke Study Group. Paediatric cerebral sinovenous thrombosis: findings of the International Paediatric Stroke Study. *Arch Dis Child* 2015; **100**: 174-179.
- 25) 池田 梓, 高橋裕美子, 霧崎 悠, 他. 小児の脳静脈洞血栓症 5 例の臨床のおよび画像的検討. 脳と発達. 2017; **49**: 396-400.
- 26) Hedlund GL. Cerebral sinovenous thrombosis in pediatric practice. *Pediatr Radiol*. 2013; **43**: 173-188.
- 27) Dentali F, Squizzato A, Marchesi C, et al. D-dimer testing in the diagnosis of cerebral vein thrombosis: a systematic review and meta-analysis of the literature. *J Thromb Haemost*. 2012; **10**: 582-589.
- 28) Kosinski CM, Mull M, Schwarz M, et al. Do normal D-dimer levels reliably exclude cerebral sinus thrombosis? *Stroke*. 2004; **35**: 2820-2825.
- 29) Sébire G, Tabarki B, Saunders DE, et al. Cerebral venous sinus thrombosis in children: risk factors, presentation, diagnosis and outcome. *Brain*. 2005; **128**: 477-489.



## A 14-year-old girl with sepsis and various head and neck complications triggered by *Streptococcus anginosus* sphenoid sinusitis

Department of Pediatrics, Japanese Red Cross Kyoto Daini Hospital  
Kazunori Watanabe, Shota Fukuhara, Naoe Fujita, Ryo Ikushima,  
Tasuku Konishi, Taeko Saito, Toshihiro Tomii, Kimito Todo,  
Naho Kobayashi, Shigemi Morioka, Noriko Fujii, Gen Kano,  
Toshio Osamura

### Abstract

A 14-year-old girl who was healthy by nature was admitted to our department with complaints of fever, headache, posterior neck pain, and vomiting. Computed tomography (CT) of the head showed sphenoid sinusitis. Based on the findings of blood tests, the patient was considered to have sepsis and was started on antimicrobial therapy; however, head magnetic resonance imaging (MRI) performed due to persistent posterior neck pain, revealed mild encephalitis and encephalopathy with high signal areas in the vastus lateralis of the reversible corpus callosum (MERS) and an epidural abscess at the base of the skull and on the back of the 1st and 2nd cervical vertebra. Blood culture revealed *Streptococcus anginosus*, and sinus CT showed exacerbation of sphenoid sinusitis. After changing antibacterial agents to MEPM and performing sinus drainage, the inflammatory response became negative, and MERS on head MRI and the epidural abscesses in the skull base and back of the cervical spine improved. However, a new thrombus was found in the right lateral sinus and sigmoid sinus, so anti-thrombotic therapy was started. The patient was discharged from the hospital after taking warfarin without any worsening of cerebral venous sinus thrombosis. Sphenoid sinusitis is prone to various head and neck complications, and *Streptococcus anginosus* may cause serious complications.

**Key words:** Sphenoid sinusitis, *Streptococcus anginosus*, Sepsis, epidural abscess, Cerebral sinus thrombosis