乳臼歯の根尖病巣が原因と考えられる 慢性下顎骨骨髓炎 (Garré 骨髓炎) の 1 例

井村 英人¹⁾・南 克浩¹⁾・久保勝俊²⁾
古川 博雄¹⁾・前田初彦²⁾・夏目長門¹⁾

A case of chronic osteomyelitis of the mandible (Garré's osteomyelitis) caused by a periapical lesion of a deciduous molar

IMURA Hideto¹⁾・MINAMI Katsuhiko¹⁾・KUBO Katsutoshi²⁾
FURUKAWA Hiroo¹⁾・MAEDA Hatsuhiko²⁾・NATSUME Nagato¹⁾

Abstract: Garré's osteomyelitis of the mandible is chronic osteomyelitis with proliferative periostitis induced by slow stimulation or infection in young people. Garré's osteomyelitis caused by deciduous tooth infection is rare. A case of Garré's osteomyelitis caused by infection of the left second deciduous molar of the mandible, with eruption of permanent teeth after treatment, is reported.

An 8-year-old girl came to our hospital because of a painless swelling in the left mandibular angle. X-ray and CT findings showed periosteal reactions and new bone formation, with malposition of the second premolar. Extraction of the decayed teeth and curettage and marsupialization of the premolar lesion were performed under general anesthesia. The histopathologic diagnosis was chronic mandibular osteomyelitis (Garré's osteomyelitis).

On follow-up, there has been no evidence of recurrence. The periosteal reactions and bone formation surrounding the permanent teeth disappeared as of 1 year after operation.

Key words: Garré's osteomyelitis (ガレー骨髓炎), mandible (下顎骨), deciduous tooth (乳歯), child (子供)

緒 言

下顎骨 Garré 骨髓炎は骨膜への緩慢な刺激あるいは感染によって起こるとされる若年者にみられる増殖性骨膜炎を伴う慢性骨髄炎であり、骨髄炎のなかでもまれとされる^{1~4)}。乳歯感染を原因とする Garré 骨髓炎の報告は少ない。今回、左側下顎第二乳臼歯根尖性歯周炎に起因したと思われる Garré 骨髓炎の 1 例に対して、化学療法と抜歯および掻爬を行い、増生骨の消失と良好な永久歯萌出を認めたので報告する。

症 例

初診日：2009 年 6 月。

患 者：8 歳，女兒。

主 訴：左側下顎の腫脹。

既往歴：特記事項なし。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：来院 2 か月前に左側下顎第二乳臼歯の修復物脱離のため、紹介医を受診した。顔面の非対称および左側下顎第二乳臼歯の頬側歯肉の膨隆を認めた。エックス線所見および臨床症状から根尖性歯周炎の診断にて、同歯の歯内治療を行ったが、左側頬部および頬側歯肉の腫脹が消失しなかったため、当科受診となる。

現 症：

全身所見：身長 130cm，体重 22kg，体格小柄で栄養状態は良好であった。

口腔外所見：左側下顎角部にびまん性の腫脹を認め、左側下顎体部および下顎角の頬側に骨膨隆を認めた。顔貌は左側下顎角部に膨隆を認め、非対称的であった(写真 1A)。

¹⁾ 愛知学院大学歯学部附属病院口唇口蓋裂センター
(部長：夏目長門教授)

²⁾ 愛知学院大学歯学部口腔病理学講座
(主任：前田初彦教授)

¹⁾ Cleft lip and Palate Center, Aichi-Gakuin Dental hospital
(Chief: Prof. NATSUME Nagato)

²⁾ Department of Oral Pathology, School of Dentistry Aichi-Gakuin University (Chief: Prof. MAEDA Hatsuhiko)

受付日：2010 年 10 月 20 日

採択日：2011 年 11 月 29 日

同部の皮膚には発赤、圧痛、瘻孔はなく、開口障害並びに下唇の知覚異常も認めなかった。

口腔内所見：左側下顎第一乳臼歯は乳歯冠が装着されており、左側下顎第二乳臼歯は残根状態であった。左側下顎乳犬歯、第一、第二乳臼歯、第一大臼歯に打診痛、動揺は認めなかった。左側下顎第一、第二乳臼歯部頬側歯肉に骨様硬の膨隆を認めた。頬舌側の歯肉および口腔粘膜に浮腫性の腫脹を認めたが、圧痛は認めなかった（写真1B）。

臨床検査所見：血液一般、生化学的検査、尿検査において異常所見は認めなかった。

エックス線写真所見：パノラマエックス線写真で左側下顎第一乳臼歯根尖部に根尖性歯周炎と思われる透過像を認め、左側下顎第二乳臼歯根尖部に左側下顎第二小臼歯の歯冠を含む境界明瞭な嚢胞様透過像と連続していた。左側下顎第二小臼歯の歯胚は遠心に偏位していた（写真2）。咬合法エックス線所見で左側下顎乳犬歯から第二乳臼歯頬側に骨添加様の骨性の膨隆を認めたが、本症例では、たまねぎ状の所見はみられなかった（写真3）。

CT所見：根尖病巣部の周囲顎骨には、骨添加および硬化像がみられ、頬側には骨増生を認めた。

臨床診断：左側下顎第一、第二乳臼歯根尖性歯周炎に起因する増殖性骨膜炎を伴う慢性骨髄炎（Garré 骨髄炎）。

処置および経過：上記診断のもとに化学療法と外科療法が必要と判断した。初診時より消炎目的にCAM 300mg/日による化学療法を1か月間行ったところ、左側下顎第一、第二乳臼歯頬側歯肉の浮腫性の腫脹は消失したが骨膨隆に変化はなかった。また、副作用は認めなかった。全身麻酔下に左側下顎乳犬歯、第一乳臼歯、第二乳臼歯頬側に粘膜骨膜弁を作成し、左側乳犬歯、第一乳臼歯、第二乳臼歯の抜去後、第二小臼歯嚢部に穿刺を行った。炎症性の浸出液と思われる黄色透明な液体を少量吸引した。同部の肉芽組織様の病巣に対し、永久歯歯冠を傷つけないよう、注意深く搔爬を行った。第二乳臼歯根尖部の肉芽組織は一部を病理標本として提出した。嚢胞壁と思われるものは認められなかった。搔爬後、第一、第二小臼歯の歯冠が直視できた。肉眼的に色、形態的な異常はなかったため、同部を開窓し、保隙装置を装着した。抜去した乳犬歯、第一、第二乳臼歯の根尖は吸収されていたが異常吸収はなかった。第二小臼歯頬側の増生骨の性状は周囲皮質骨と同様であったが、第二乳臼歯頬側の増生骨と思われる膨隆部を一部病理標本として提出した。左側下顎第一、第二小臼歯開窓部にはアクロマイシンガーゼを填入した。術後CEZ 1g/日を5日間点滴静注した。術後3か月時の咬合法エックス線写真において術前に認められた左側下顎乳犬歯から第二乳臼歯頬側の新生骨の増生は認められず（写真4）、触診においても骨の膨隆は確認できなかった。術後6か月時の経過観察

写真1 初診時写真

A：左側下顎角部頬側に腫脹（矢頭）を認める。

B：左側下顎第一、第二乳臼歯部頬側歯肉に骨様硬の膨隆を認める。頬舌側の歯肉および口腔粘膜に浮腫性の腫脹を認める。

写真2 初診時パノラマエックス線写真

「E」根尖部に境界明瞭な透過像と「F」歯胚の偏位を認める。

において、開窓部から左側下顎乳犬歯、第一、第二小臼歯の正常位への萌出がみられた（写真5）。現在、術後1年が経過しているが症状の再発なく経過良好である。

病理学的所見：軟組織には、リンパ球、形質細胞を主体

写真 3 初診時咬合法エックス線写真
左側下顎乳犬歯から第二乳臼歯頰側に骨膨隆を認める。

写真 5 パノラマエックス線写真（術後 6 か月）
透過像は消失し，「345」の歯根形成および萌出を認める。

写真 4 咬合法エックス線写真（術後 3 か月）
骨膜反応および新生骨の増生を認めない。

写真 6 病理組織像（H-E 染色 × 200）
A：肉芽組織；軟組織には，リンパ球，形質細胞を主体とする高度炎症性細胞浸潤および出血を伴う肉芽組織の増生を認める。
B：増生骨部；層板構造を示す骨組織がみられ，骨細胞は生存している。

とする高度な炎症性細胞浸潤および出血を伴う肉芽組織の増生を認めたが嚢胞壁は確認できなかった（写真 6A）。また，採取した骨膨隆部の組織には，層板構造を示す骨組織がみられた（写真 6B）。これらの病理所見より，Garré 骨髓炎と診断した。

考 察

骨髓炎は，病期，病因，場所，程度，患者の状態等により分類することができ⁵⁾，その経過は多岐にわたる。そのなかで，1893 年 Garré¹⁾ が若年者の大腿骨，上腕骨など発症する非化膿性の骨腫脹と骨肥厚を伴う特異的な病態を示す骨硬化性骨髓炎を報告した。また，彼は，Tubingen 大学病

表1 本邦における過去30年の乳歯が原因であった下顎骨 Garré 骨髄炎の報告例

症例	報告年	報告者	年齢	性別	部位	原因	治療法	骨膨隆の消失
1	1984	宇根岡ら ¹³⁾	13	女兒	左側下顎骨体部	E 抜歯後感染	不明	不明
2	1987	別府ら ¹⁴⁾	11	男児	左側下顎骨体部	E 根尖性歯周炎	E 抜歯, 新生骨削除	1年4か月後
3	1991	牧ら ¹⁵⁾	7	男児	左側下顎角部	E 根尖性歯周炎	G 抜歯, 新生骨削除	4か月後
4	1991	牧ら ¹⁵⁾	8	男児	右側下顎骨体部	E 根尖性歯周炎	E 抜歯	6か月後
5	1991	牧ら ¹⁵⁾	9	男児	左側下顎骨体部	E 根尖性歯周炎	E 抜歯	7か月後
6	2003	新田ら ⁶⁾	9	男児	右側下顎角部	E 抜歯後感染	5) 抜歯	8か月後
7	2010	自験例	8	女兒	左側下顎骨体部	E 根尖性歯周炎	CDE 抜歯	3か月後

院で経験した骨髄炎 559 例中, この特異型である Garré 骨髄炎は 20 例とまれであること, そして, 顎骨での発症例は認めなかったと報告している. また, 顎骨での骨髄炎の発症頻度は成人に比べ, 小児には少ないとされている⁶⁾. これらのことから, 骨髄炎全体のなかで小児の顎骨での Garré 骨髄炎の発症は少ないものと考えられ, 本疾患の病態を明らかにし, 治療法を確立することは重要と思われる.

Garré 骨髄炎の病態に関して, 第一に Perimann ら⁷⁾ は, Garré 骨髄炎が下顎骨に起こりやすい要因として, 下顎は皮質骨が厚く血液供給を骨膜に依存していることから, 慢性に経過しやすいと述べている. 第二に Pell ら²⁾ や, 河野ら⁸⁾ は, 骨髄炎が発症し, 骨瘻孔を形成して骨膜に達するとこれを覆うように新生骨の添加が起こる. 抗菌薬投与により急性症状が緩解すると, 骨髄炎の原因としての慢性刺激が瘻孔を中心としてその周囲に層状に骨の新生を引き起こすと述べている. しかし, われわれの症例については, 瘻孔の形成を認めておらず, その成因については, 不明な点も多く, 今後の検討が必要と思われる.

Garré 骨髄炎の診断基準については Eversole ら³⁾ が, 1. 骨膨隆により顔貌が非対称を呈していること, 2. 組織学的に骨膜に良性の線維性骨増殖を認めること, 3. 感染, 外傷, あるいは他の刺激源が存在すること, 4. 原因除去後に骨膜の新生骨の消失あるいは部分的消失を認めること, の 4 条件を挙げている. また, この画像所見については, Kawai ら⁹⁾ が, 骨膜反応に関する多彩な所見を報告している. 自験例では, Eversole ら³⁾ の 1, 3, 4 の所見がみられたが, 組織学的に, 2 に関しては省略しても診断に支障がないとの報告¹⁰⁾ があり, 自験例を Garré 骨髄炎と診断した.

下顎骨 Garré 骨髄炎の原因歯について, 下田ら¹¹⁾ は文献的考察を行った 53 例中 36 例について, 下顎第一大臼歯であったと報告している. また, Nortje ら¹²⁾ は文献の考察を行ったなかで顎骨骨髄炎のうち, 顎骨骨膜反応を認めた 81 例について分析し, 下顎第一大臼歯部 42 例 (51.2%), 下顎第二大臼歯 11 例 (13.2%), 下顎小臼歯 7 例 (8.5%), 下顎第二乳臼歯部 7 例 (8.5%) に骨膜反応を認めたとして

おり, 乳歯を原因とした Garré 骨髄炎の頻度は少ないと思われる. われわれが渉猟し得た限りでは本邦における過去 30 年間の乳歯を原因とした顎骨 Garré 骨髄炎の報告例は自験例を含めて 7 例^{6, 13~15)} であった (表 1). そこでこれらについて文献的考察を行った.

発症年齢に関して, 7~13 歳^{6, 13~15)} で平均 9.3 歳であった. 原因は, 乳歯の根尖性歯周炎^{14, 15)} および乳歯の抜歯後感染^{6, 13)} であり, 原因歯はすべての症例で下顎第二乳臼歯であった^{6, 13~15)}. 腫脹を認めた部位は, 自験例を含めたすべての症例で下顎骨体部から下顎角部であった.

治療については, 永久歯を原因とする Garré 骨髄炎では, 歯内療法で良好な結果を得たとの報告¹⁶⁾ や, 原因歯の保存を積極的に試みる必要があるとする報告¹⁷⁾ がある. 一方, 乳臼歯が原因の場合の治療法および経過について, 原因歯の抜歯および同部の搔爬が行われている^{6, 13~15)}. しかし, 乳歯抜去後に, 乳臼歯根尖病巣由来の弱毒菌による持続的刺激が後継永久歯への感染を生じさせ, 永久歯の抜去を余議なくされた報告⁶⁾ もあることから, 乳歯抜去後の後継永久歯への影響を考え, 綿密な治療計画の立案が必要であると考えられる. 本症例においては顎骨への外科的侵襲により顎骨の成長発育に影響を与える可能性を考慮して, 骨皮質除去術, 骨穿孔術等の外科的治療を選択せずに, 可及的に Garré 骨髄炎の原因と考えられる病巣の搔爬と, 抜歯を計画した.

自験例では, 左側下顎第二乳臼歯根尖病巣が慢性化し, 骨膜性の骨形成を認めた. 単純エックス線写真から, 第二小臼歯歯胚の位置異常を認め, 歯胚への感染も疑われたが, 第二小臼歯の変色も形態異常もないことから感染の影響も少ないものと考え, 原因歯の抜去と開窓を選択した. また, 感染源を徹底的に除去するために, 抗菌薬の術前における 1 か月間の投与および術後の 5 日間の投与を行ったところ抗菌薬による副作用の発現もなく, 3 か月で増生骨の消失を認めることができた. 骨膨隆の消失は 1 年 4 か月を要した報告もあったが平均 7.8 か月^{6, 13~15)} であった. 自験例では 3 か月で骨新生部の骨膨隆は消失し, 症状の再発はな

く、左側下顎犬歯、第一、二小臼歯の萌出状態も良好である。病巣を除去することでまた、保険を行うことで良好な結果を得ることができたと考える。

結 語

乳歯を原因とする Garré 骨髓炎の 1 例を経験し、術前後の化学療法と乳歯の抜歯および搔爬を行ったことにより、増生骨は消失し、良好に永久歯の萌出を認めたので文献的考察を加え、報告した。

引 用 文 献

- 1) Garré, C.: Ueber besondere Formen und Folgezustände der akuten infectiosen Osteomyelitis. Beitr Klin Chir 10: 241-298 1893.
- 2) Pell, G.J., Shafer, W.G. et al.: Garré's osteomyelitis of the mandible, report of case. J Oral Surg 13: 248-252 1955.
- 3) Eversole, L.R., Le, A.S. et al.: Proliferative periostitis of Garré in differentiation from other neoperiostoses. J Oral Surg 37: 725-731 1979.
- 4) 井関富雄, 井関ゆかり, 他: 下顎骨に発生した Garré 骨髓炎の 1 例. 歯科医学 51: 975-980 1988.
- 5) Mader, J.T., Ortiz, M., et al.: Update on the diagnosis and management of osteomyelitis. Clin Podiatr Med Surg 13: 701-24 1996.
- 6) 新田哲也, 上川善昭, 他: Odontodysplasia を呈する下顎第 2 小臼歯の根尖部炎症に継発した Garré 骨髓炎の 1 例. 日口外誌 49: 517-520 2003.
- 7) Perimann, A. and Uthman, A.: Periostitis ossificans. Brit J Oral Surg 10: 211-216 1972.
- 8) 河野信彦: Garré 骨髓炎の 1 例. 日口外誌 25: 1402-1406 1979.
- 9) Kawai, T., Hiranuma, H., et al.: Gross periostitis ossificans in mandibular osteomyelitis. Review of the English literature and radiographic variation. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 86: 376-381 1998.
- 10) 浅田洸一, 臼井弘幸, 他: 膿瘍形成を認めた下顎骨 Garré 骨髓炎の 1 例. 歯学療法 26: 61-67 2007.
- 11) 下田恒久, 岡村博久, 他: 下顎骨の Garré 骨髓炎の 3 例. 九州歯学誌 40: 477-488 1986.
- 12) Nortjé, C.J., Wood, R.E., et al.: Periostitis ossificans versus Garré's osteomyelitis. Part II: Radiologic analysis of 93 cases in the jaws. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 66: 249-60 1988.
- 13) 宇根岡実, 楊榮展, 他: 下顎骨の Garré 骨髓炎. 臨床放射線 27: 1283-1286 1982.
- 14) 別府和紀, 川野芳春, 他: Garré 骨髓炎の 1 例. 口科誌 36: 737-742 1987.
- 15) 牧 憲司, 高江州旭, 他: 下顎骨における Garré 骨髓炎の 15 症例. 九歯学誌 45: 537-544 1991.
- 16) McWaiter, G.M. and Schaberg, S.J.: Garré's osteomyelitis of the mandible resolved by endodontic treatment. JADA 108: 193-195 1984.
- 17) 坂下英明, 宮田勝, 他: 下顎骨の Garré 骨髓炎の 2 例. 口科誌 39: 665-672 1990.