小児の慢性顎骨骨髓炎に関する病理学的検討

福田 容子・戸塚 盛雄・武田 泰典*・工藤 啓吾**
及 川 理***

Pathological analysis for chronic osteomyelitis of the jaws in childhood

Yohko FUKUTA・Morio TOTSUKA・Yasunori TAKEDA*
Keigo KUDO**・Osamu OIKAWA***

Abstract: Pathological analysis of 4 cases (three males and one female) of chronic osteomyelitis of the jaws in childhood was performed.

In case 1 of a 12-year-old male, histopathological finding of maxillary lesion showed typical chronic suppurative osteomyelitis in early stage, but became similar to finding of ossifying fibroma in latter stage. Case 2 of a 9-year-old male and case 3 of a 12-year-old female were diagnosed as chronic diffuse sclerosing osteomyelitis in the mandible. Case 4 of a 15-year-old male revealed a finding of Garre's osteomyelitis in the mandible.

Since histopathologic findings of chronic osteomyelitis in childhood were composed of various patterns of osteomyelitis, the detailed clinical course and histopathological examinations in numerous areas were important for final diagnosis and treatment.

Key words: chronic osteomyelitis, jaw, childhood

緒 言

顎骨骨髓炎は、必ずしも定型的な臨床および病理組織所見を呈するとは限らず、ときには従来の顎骨骨髓炎の分類^{1,2)}に該当しない症例が存在することがある。特に小児の場合、顎骨骨髓炎はまれであり、また代謝、細胞増殖能が旺盛であるため、顎骨の fibro-osseous lesion (特に化骨性線維腫、線維性骨異形成症)との鑑別が臨床的にも病理学的にも問題となってくる。

今回は、まれな小児の慢性顎骨骨髓炎について、顎骨の fibro-osseous lesion との鑑別点を中心に検討を加えたので報告する。

材 料 と 方 法

検索に用いた材料は、本学口腔病理学講座において取り扱った生検および手術材料のうち、小児の慢性顎骨骨髓炎4例(男児3例、女児1例)である。検体は通法に従い、パラフィンまたはセロイジン切片とし、H-E染色をほどこし、これらの病理組織所見と臨床所見とを比較検討した。

岩手医科大学歯学部歯科予診室

(主任：戸塚盛雄教授)

* 岩手医科大学歯学部口腔病理学講座

(主任：鈴木鍾美教授)

** 岩手医科大学歯学部口腔外科学第1講座

(主任：藤岡幸雄教授)

*** 岩手医科大学歯学部口腔外科学第2講座

(主任：関山三郎教授)

Department of Oral Diagnosis, School of Dentistry, Iwate Medical University (Chief: Prof. Morio Totsuka)

* Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Iwate Medical University (Chief: Prof. Atsumi Suzuki)

** Department of Oral & Maxillofacial Surgery I, School of Dentistry, Iwate Medical University (Chief: Prof. Yukio Fujioka)

*** Department of Oral & Maxillofacial Surgery II, School of Dentistry, Iwate Medical University (Chief: Prof. Saburo Sekiyama)

受付日：昭和61年9月8日

表 1 臨床所見

症例	性・年齢	経 過	部 位	臨床症状	X線所見	臨床診断
1	男 12	6 年	6～1	腫 脹	スリガラス様不透過像	線維性骨異形成症
2	男 9	1.5か月	1E～左下顎枝	腫 脹 圧 痛	不規則な骨吸収像中に 不透過像が散在	下顎骨骨髓炎
3	女 12	4 年	2 ～左下顎枝	腫 脹 自発痛(間歇性)	虫食い様像	下顎骨骨髓炎
4	男 15	3 か月	7～4	腫 脹	スリガラス様不透過像	骨腫瘍

結 果

症例の臨床所見の概要は、表1に示すとおりである。

症例 1: 12歳 男。

1. 臨床所見および経過

5～6歳時に右頬部腫脹にて歯科を受診したが、X線検査の結果、異常なしと診断された。7歳時、某公立病院にて右側上顎臼歯部腫脹のため手術を受けたが、症状は軽快しなかった。この時の診断名は不明であった。

9歳時に右上顎臼歯部の腫脹を主訴に本学口腔外科を受診した。初診時、右頬部にび慢性の無痛性腫脹が認められた。口腔内では、右上顎乳犬歯部より第1大臼歯部頬側歯肉に無痛性、骨様硬のび慢性の腫脹が認められた。腫脹部分に含まれる歯はすべて生活歯であった。X線の的に腫脹部は一樣にスリガラス様不透過像を呈していた(写真1)。線維性骨異形成症の臨床診断のもとに9歳時2回、10歳時と12歳時の計4回、膨隆部の骨削除が施行された。なお、抗生物質は奏効しなかった。

2. 病理組織所見

9歳時の初回の手術材料では、顎骨骨髓の骨梁は破壊され、大きな膿瘍が形成されるとともに、細菌集塊も散見された。膿瘍周辺の骨髓は好中球をはじめとした炎症性細胞浸潤を伴う疎な線維性結合組織よりなり、浮腫性の変化も認められた(写真2A)。また、一部では既存の骨に不規則に新生骨が添加し、骨硬化像を呈する部分もみられた(写真2B)。以上より、病理組織診断は慢性化膿性骨髄炎とした。これより2か月後の手術材料では、既存の骨梁に新生骨の添加があり、それらは不規則な改造線により接しており、モザイク様構造を呈していた。骨髓は細胞成分に富む線維性結合組織よりなり、ごく軽度の炎症性細胞浸潤が認められた(写真2C)。12歳時の手術材料では層板骨あるいは線維骨が梁状に活発に増生しており、骨梁周囲には骨芽細胞の配列がみられた。骨梁間は細胞成分に富む密な線維性結合組織よりなり、炎症性細胞浸潤はほとんど認められなかった(写真2D)。また、骨膜に近い部では、層板骨梁が多層性に骨膜と平行に配列している像が認められた。

写真 1 症例 1. 咬合法写真。

6～1部に境界不明瞭なスリガラス様不透過像がみられる。

症例 2: 9歳 男。

1. 臨床所見および経過

1か月半前に左顎角部に出脹が出現し、その後徐々に増大したため本学口腔外科を受診した。口腔内所見では、左下顎第2乳臼歯、第1大臼歯部の歯肉頬移行部から下顎枝にかけて骨様硬の腫脹と圧痛および開口痛が認められた。う蝕、歯の動揺、排膿などはなかった。X線検査では、左下顎第2大臼歯部より下顎枝ならびに筋突起部にかけて境界不明瞭な骨の破壊・吸収像が認められ、その中に不透過巣が散在してみられた(写真3)。顎骨骨髓炎の臨床診断のもとに抗生物質の投与がなされたが奏効せず、化骨性線維腫も考えられた。左下顎第2大臼歯歯胚を含め、病変部の搔爬を行った。

2. 病理組織所見

一部に肉芽組織がみられ、その周囲は活発な線維骨の新生を伴う線維性結合組織よりなっていた(写真4A)。

写真 2 症例 1.

- A. 初回手術時の組織像。骨髓の好中球を伴う炎症性細胞浸潤。(H-E 染色, $\times 60$)
 B. 初回手術時の組織像。既存の骨梁のモザイク様構造と骨髓の線維化。(H-E 染色, $\times 60$)
 C. 2か月後(9歳)の組織像。骨梁はモザイク様構造を呈し、骨梁間は軽度のび慢性炎症性細胞浸潤を伴う、細胞成分に富む線維性結合組織よりなる。(H-E 染色, $\times 150$)
 D. 12歳時の組織像。多量の骨新生をみる。骨梁間は細胞成分に富み、炎症性細胞浸潤はほとんどみられない。(H-E 染色, $\times 150$)

また、他部位では既存の骨梁に新生骨の添加がみられた。骨梁間は疎な線維性結合組織よりなり、び慢性の炎症性細胞浸潤が認められた(写真 4 B)。

症例 3: 12歳 女。

1. 臨床所見および経過

8歳時に左下顎第2乳臼歯部の根尖性歯周炎による疼痛のため、某開業医にて同歯の抜歯を受けたが、その後

も同部の疼痛、腫脹が持続した。薬剤服用により疼痛は軽減したが、腫脹は消退しなかった。その後、間歇的に左頬部の有痛性の腫脹が出現し、9歳時に本学口腔外科を受診した。X線検査にて、左下顎第1小臼歯部より第1大臼歯部にかけて顎骨骨体部に虫くい様の透過像を呈していた。下顎骨骨髓炎の臨床診断のもとに左下顎第1小臼歯抜歯、第2小臼歯歯胚搔爬、同部腐骨除去を施行

写真 3 症例 2.

下顎骨斜位法写真. 「7」部から下顎枝にかけて不規則な骨の破壊・吸収像とその中の不透過像の混在.

写真 5 症例 3. パノラマX線写真. 2+8部から左下顎枝に及ぶ虫くい様像がみられる.

写真 4 症例 2. 病理組織像.

- A. 炎症性肉芽組織とその周囲の新生骨梁. (H-E 染色, $\times 56$)
- B. 骨硬化像. 骨梁間及び慢性炎症性細胞浸潤を伴う疎な線維性結合組織よりなる. (H-E 染色, $\times 56$)

した. 細菌検査では α -ブドウ球菌が検出されたが, 抗生物質は奏効しなかった. さらに4か月後に左下顎第1大臼歯抜歯, 第2大臼歯歯胚搔爬, 腐骨除去を施行したが, 感冒罹患時に左下顎部の有痛性腫脹があった. 12歳

写真 6 症例 3. 病理組織像.

- A. 膿瘍の形成とその周辺の骨破壊と骨新生像の混在. 骨髓の好中球を含む炎症性細胞浸潤を伴う線維化をみる. (H-E 染色, $\times 28$)
- B. 皮質骨周囲の著明な骨硬化像. 骨膜下の骨新生像も同時にみられる. (H-E 染色, $\times 28$)

時, decortication を施行したが効果なく, X線検査で左下顎中切歯部から左下顎智歯部に及ぶ骨体部と, 下顎枝にまで及ぶ虫くい様透過像が認められるにいたった(写真5). さらに, 顔面の著しい非対称をきたすようになったため, 右下顎犬歯部より左下顎智歯部に及ぶ骨体部

写真 7 症例 4. 下顎骨斜位法写真. 7~4 部の境界不明瞭なスリガラス様不透過像.

写真 8 症例 4. 病理組織像. 多層性に骨膜と平行に配列する層板骨梁. 骨梁間の線維性結合組織には軽度の炎症性細胞浸潤がみられる. (H-E 染色, $\times 28$)

と左筋突起を含む下顎枝を連続離断し, 金属プレートと腸骨海綿骨骨髓移植にて再建を行った.

2. 病理組織所見

下顎骨の連続離断手術材料は, 全体的に膨隆していた. 組織学的には, 病変部のほぼ全域に小膿瘍が散在して認められ, 膿瘍に接する既存の骨梁には多数の破骨細胞による骨吸収が認められた. また, 同時に小膿瘍周囲に多数の線維骨の新生があり, これらの周囲には骨芽細胞の不規則な配列がみられた. 骨髓組織はすべて好中球を主とした炎症性細胞浸潤を伴う線維性結合組織により置換されていた (写真 6 A). また一方では, 既存の層板骨梁は肥厚し, 著明な硬化像を呈する部分もみられた. 皮質骨の外側には骨膜性の化骨が認められた. すなわち, 細い骨梁が既存の皮質骨に接して網目状に形成されており, 骨梁間は疎な線維性結合組織より成っていた (写真 6 B).

症例 4: 15歳 男.

1. 臨床所見および経過

約 1 週間ほど前に右下顎臼歯部の疼痛を自覚, 同時に同部顎骨の腫脹にも気づき本学口腔外科を受診した. 口腔外所見では, 右側顎角部に骨様硬の腫脹が認められた. 口腔内では, 右下顎第 1 小臼歯より第 2 大臼歯部骨体部に骨様硬のび慢性腫脹が認められた. また, 右下顎第 1 小臼歯から第 2 大臼歯まではすべて生活歯であった. X線検査により, 右下顎第 1 小臼歯部から第 2 大臼歯部骨体部に境界不明瞭なスリガラス様不透過像が認められた (写真 7). 下顎骨腫瘍の疑いにて生検が施行され, 骨髓炎の診断の下に decortication が施行された. 術後の経過は良好で再発の徴候はなかった.

2. 病理組織所見

層板骨よりなる比較的太い骨梁が, 多層性に骨膜と平行に配列している像が認められた. 一部の骨梁には不規則な改造線がみられた. 骨梁周囲には骨芽細胞の配列がみられたが, ところにより破骨細胞が少数散見された.

骨梁間は疎な線維性結合組織より成り, ごく軽度のび慢性の小円形細胞浸潤が認められた (写真 8).

考 察

一般に小児の顎骨骨髓炎は, 急性骨髓炎³⁾あるいは Garré 氏骨髓炎⁴⁻⁶⁾としての報告が多い. しかし, 小児期の顎骨の慢性び慢性骨髓炎は非常に稀で, 少数の報告をみるにすぎない⁴⁾.

症例 1 は, 長期の経過をとった症例で, 材料の採取時期により組織像の推移がみられた. 初期の病理組織所見は, 骨破壊と膿瘍形成が認められ, 慢性化膿性骨髓炎の像を呈していた. 2 回目の手術材料では炎症性変化は軽度であったが, 骨髓炎に特徴的な, 骨梁に吸収と添加をくり返したモザイク様構造が認められた. 3, 4 回目の手術材料では, 炎症性変化はほとんど認められず, 活発な骨新生像を呈していた. したがって, 後半の手術材料のみでは顎骨の fibro-osseous lesion との鑑別が問題となってくる. 活発な骨新生像は化骨性線維腫に類似しているが, 病変部の境界が非常に不明瞭である点が異なっていた⁷⁾. また, 線維性骨異形成症とは, 多量の層板骨の形成, 多数の骨芽細胞の配列, 一部に同心円状の層板骨の配列がみられるなどの点で異なっていた⁷⁾. 今回は全経過を通して観察できたので組織像の推移を理解できたが, 経過途中の検体のみでは顎骨の fibro-osseous lesion と混同されやすいものと思われた.

症例 2 は, X線的に透過像が主体をなしており, その中に不透過像が散見された. 組織学的には炎症性肉芽組織と骨新生像を呈する部と硬化像を呈する部の混在であり, X線所見と一致していた.

症例 3 は, 長期の経過をとった難治性の症例であった. X線的には広範な虫食い様透過像を呈し, 組織学的には症例 2 と類似していた. 多くの小膿瘍の形成と, そ

の周囲の骨破壊と骨新生の混在像、既存の骨組織の著明な硬化像が特徴的であった。また同時に Garré 氏骨髓炎と同様の骨膜反応も呈していた。浅田⁹⁾は、び慢性硬化性顎骨骨髓炎をX線的に、不透過像の増大を主とするⅠ型、不透過像増強部に種々の程度の透過像の混在がみられるⅡ型に分類している。そして、Ⅱ型は青年層に多く、病変が広範囲で、腐骨分離像は認められないとしている。筆者らの症例2および3は、浅田のⅡ型に相当するものと思われた。

症例4は、骨膜反応が主体をなしていた。Garré 氏骨髄炎は骨膜による化骨が既存の皮質と垂直方向に配列することが多いといわれている^{1,2,4~6)}。また、その原因はほとんどが下顎大臼歯よりの感染か、あるいは他部位の炎症巣の影響といわれている。症例4は原因となる歯は存在せず、他の原因もみあたらなかった。しかし、骨膜反応が主であることと、骨梁の配列が多層性で骨膜と平行であることより、他の顎骨の fibro-osseous lesion のどの範疇にも含まれず、Garré 氏骨髄炎(化骨性骨膜炎)に相当するものではないかと推察された。また、化骨性骨膜炎は単独で存在するばかりではなく、種々の疾患と合併してみられることがある⁶⁾。特に若年者の顎骨では Ewing 肉腫と合併してみられることがあるので注意を要する。また、症例1, 3にも化骨性骨膜炎の合併がみられた。Rowe⁴⁾も小児期の顎骨骨髄炎で化骨性骨膜炎を伴ったものを報告している。このことは、小児は生体の反応が旺盛であるため、顎骨の炎症による骨膜反応が生じやすいことによると思われる。

顎骨骨髄炎は、臨床的ならびに病理組織学的に fibro-osseous lesion と鑑別を要する場合があり^{9~11)}、顎骨骨髄炎を顎骨の fibro-osseous lesion に含めて分類している者もある^{12,13)}。筆者らは、骨髄炎のごとく炎症性疾患であることが明確であるものは、fibro-osseous lesion とは区別して考えた^{14~17)}。特に若年者では臨床的のみならず病理組織学的にも、化骨性線維腫、線維性骨異形成症との鑑別が困難な場合がある。その鑑別点として、不規則な新生骨の増生と既存層板骨の肥厚、不規則な改造線のある層板骨、膿瘍や腐骨の存在、骨髄は疎な線維性結合組織によって置換され多少とも炎症性細胞浸潤がみられる、等があげられている^{12,13)}。

Jacobsson¹⁸⁾は下顎骨の慢性硬化性骨髄炎を組織学的に4つの型に分類しており(Ⅰ. 密な骨硬化像、Ⅱ. 粗な骨梁と壊死巣、Ⅲ. 骨芽細胞の配列を伴う細骨梁、Ⅳ. 巨細胞を含む肉芽組織)、これらの各型は互いに混在すると述べている。筆者らの症例(症例2, 3)でも組織像は一樣ではなく、種々の割合で肉芽組織、骨新生像、骨硬化像の混在がみられた。

また、長期に及んだ症例では、組織像が推移することがあり、全経過の把握が診断に重要であると思われた。

結 語

小児の慢性顎骨骨髓炎の自験例4例について病理学的に検討を加え、以下の結論を得た。

1. 3例は下顎に、1例は上顎に発症しており、いずれも比較的広範囲に及んでいた。
2. 上顎の1例は、初期には典型的な慢性化膿性骨髄炎の像を呈したが、経過とともに化骨性線維腫に類似する像を呈するに至った。
3. 下顎の3例中の2例は、慢性び慢性硬化性骨髄炎に相当するものであった。残る下顎の1例は Garré 氏骨髄炎(化骨性骨膜炎)の範疇に含まれるものと思われた。
4. 病理組織像は変化に富んでおり、材料の採取部位および時期により種々の像を呈するので、診断にあたっては全体像を把握することが重要であると思われた。

引 用 文 献

- 1) 石川梧朗監修：口腔病理学Ⅱ、改訂版、永末書店、京都、1982、321-328頁。
- 2) Shafer, W.G., Hine, M.K., et al.: A Textbook of Oral Pathology. 4th ed., W.B. Saunders Co, Philadelphia, 1983, p 498-508.
- 3) 友利俊一、杉原一正、他：新生児・乳幼児上顎骨骨髄炎の3例。日口外誌 29: 117-122 1983.
- 4) Rowe, N.L. and Heslop, I.H.: Periostitis and osteomyelitis of the mandible in childhood. Br. Dent J 6: 67-78 1957.
- 5) 河島正宣、手島貞一：慢性下顎骨骨髄炎の臨床的観察。第2編 いわゆる Garré 氏骨髄炎について。日口外誌 24: 316-324 1978.
- 6) Eversole, L.R., Leider A.S., et al.: Proliferative periostitis of Garré: its differentiation from other neoperiostoses. J Oral Surg 37: 725-731 1979.
- 7) Pindborg, J.J. and Kramer, I.R.H.: International histological classification of tumours. No. 5, Histological Typing of Odontogenic Tumors, Jaw Cysts, and Allied Lesions. WHO, Geneva, 1971, p 36-37.
- 8) 浅田洗一：び慢性硬化性顎骨骨髄炎に関する臨床的・病理組織学的研究。口病誌 45: 334-363 1978.
- 9) Waldron, C.A., Giansanti, J.S., et al.: Sclerotic cemental masses of the jaws (so-called chronic sclerosing osteomyelitis, sclerosing osteitis, multiple enostosis, and gigantiform cementoma). Oral Surg 39: 590-604 1975.
- 10) Melrose, R., Abrams, A.M., et al.: Florid osseous dysplasia. A clinical-pathologic study of thirty-four cases. Oral Surg. 41: 62-82

- 1976.
- 11) Jacobsson, S., Hallén, O., et al.: Fibro-osseous lesion of the mandible mimicking chronic osteomyelitis. *Oral Surg* 40: 433-444 1975.
- 12) Schmaman A., Smith I. et al.: Benign fibro-osseous lesions of the mandible and maxilla. A review of 35 cases. *Cancer* 26: 303-312 1970.
- 13) 牛込新一郎, 田所 衛, 他: 頭蓋・顎骨の非歯源性 Fibro-osseous lesion の組織診断と鑑別. 聖マリアンナ医大誌 5: 483-492 1977.
- 14) 藤沢(福田)容子, 武田泰典: 顎骨中心性の良性線維性ならびに線維骨性病変に関する病理学的検討. 第1報 症例の概要について. 岩医大歯誌7: 131-138 1982.
- 15) 藤沢(福田)容子, 武田泰典, 他: 顎骨中心性の良性線維性ならびに線維骨性病変に関する病理学的検討. 第2報 多発性セメント質腫. 口科誌 32: 117-130 1983.
- 16) 藤沢(福田)容子, 武田泰典, 他: 顎骨中心性の良性線維性ならびに線維骨性病変に関する病理学的検討. 第3報 根尖性セメント質異形成症の成熟像と考えた病変について. 口科誌 32: 318-327 1983.
- 17) 藤沢(福田)容子, 戸塚盛雄, 他: 顎骨中心性の良性線維性ならびに線維骨性病変に関する病理学的検討. 第4報 線維性病変. 岩医大歯誌8: 187-195 1983.
- 18) Jacobsson, S. and Heyden, G.: Chronic sclerosing osteomyelitis of the mandible. Histologic and histochemical findings. *Oral Surg* 43: 357-364 1977.