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

新田 哲也・上川 善昭・有村 憲治
坂元 亮一・川島 清美・杉原 一正

A case of Garré's osteomyelitis with odontodysplasia subsequent to apical periodontitis of the lower second premolar

NITTA Tetsuya · KAMIKAWA Yoshiaki · ARIMURA Kenji
SAKAMOTO Ryoichi · KAWASHIMA Kiyomi
SUGIHARA Kazumasa

Abstract: Garré's osteomyelitis of the jaw is a unique clinicopathologic entity that is characterized by asymptomatic focal osteomyelitis and exuberant periosteal deposition of bone. Odontodysplasia is a rare developmental anomaly of tooth formation in young children. Its causes remain unknown.

A 9-year-old boy presented for evaluation of a painless swelling in the right side of the mandible. The swelling was bone hard and nonfluctuant. Intraoral examination showed partial obliteration of the mucobuccal fold by a bony mass, and the erupted lower right second premolar was malformed. Several kinds of X-ray examinations revealed proliferative periostitis with new bone formation. In addition, the lower right second premolar showed a so-called ghost-like appearance radiographically. Biopsy of the periosteal mass was performed, and the histopathologic diagnosis was reactive bone formation of the periosteum.

In this rare case, the periosteal bony reaction in the mandible was successfully treated by tooth extraction with curettage and antibiotic therapy.

Osteomyelitis in our patient might have been caused by dental caries of the deciduous lower right second molar. Odontodysplasia resulted from periapical inflammation of the deciduous lower right second molar subsequent to osteomyelitis with periostitis.

Key words: Garré's osteomyelitis (Garré 骨髓炎), odontodysplasia (歯牙異形成症), mandible (下顎骨), child (小児), premolar (小臼歯)

緒 言

Garré 骨髓炎は、顎口腔領域では若年者の下顎臼歯部、特に第 1 大臼歯の根尖部に生じることが多い緩慢な刺激ないし感染によって生じる反応性骨増生を伴う慢性化骨性骨膜骨髓炎である¹⁾。また odontodysplasia は、エナメル質や象牙質の著しい形成不全と石灰化不全を特徴とするまれな歯牙形成異常²⁾である。今回われわれは、下顎乳臼歯の根尖病巣に継発したと思われる odontodysplasia を伴った

Garré 骨髓炎の 1 例を経験したので、その概要を報告する。

症 例

患 者：9 歳、男児。

初 診：2002 年 4 月

主 訴：右下顎部の無痛性腫脹。

既往歴：6 歳時と 7 歳時に左前腕骨折。小児喘息が年に 1～2 回発症する。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2002 年 3 月初旬頃より、右下顎部の腫脹を自覚するも無痛性のため放置していた。3 月下旬に再会した知人に同部位の腫脹を指摘され、近耳鼻科を受診したところ、右下顎第 2 小臼歯との関連を疑われ、精査加療目的に当科を紹介され来院した。

鹿児島大学歯学部口腔外科学第一講座
(主任：杉原一正教授)

First Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Kagoshima University Dental School (Chief: Prof.
SUGIHARA Kazumasa)

受付日：2003 年 1 月 6 日

採択日：2003 年 5 月 27 日

写真1 初診時写真

- a: 正面顔貌 右下顎部の腫脹を認めた。
b: 口腔内写真 右下顎臼歯部歯肉頬移行部に骨様硬の膨隆を認めた。

写真2 初診時 X 線写真 (1)

- a: パノラマ X 線像
b: 頭部 P-A 像 右下顎臼歯部骨体部の骨硬化像と右下顎下縁部には半球状に膨隆した添加骨様不透過像を認めた。

現 症:

全身所見；身長132cm, 体重37kg で全身的な発育, 栄養状態は良好であり, 発熱もなく他に異常所見は認められなかった。

口腔外所見；顔貌は非対称で右下顎正中中部から下顎角にかけて, びまん性腫脹が認められ, 同部に小鶏卵大の骨様硬の膨隆を触知し軽度の圧痛を認めるも, 発赤, 局所熱感 は認められなかった (写真1 a)。所属リンパ節は, 右顎下部に小指頭大で弾性軟, 可動性のものを1個, 左顎下部には豌豆大で弾性軟, 可動性のものを1個触知したが, いず

写真3 初診時 X 線写真 (2)

- a: 咬合法 X 線像 玉ネギ皮様と針状の骨膜反応の混在した像が認められた。
b: デンタル X 線像 右下顎第2小臼歯のエナメル質, 象牙質は形成不全と石灰化不全により幻影状を呈していた。

れも圧痛は認めなかった。開口障害および右オトガイ部の知覚異常は認められなかった。

口腔内所見；右下顎犬歯から第2大臼歯相当の歯肉頬移行部には, 圧痛を伴った骨様硬の膨隆が認められたが, 歯肉の腫脹や発赤はなかった。右下顎第2小臼歯は, 矮小歯様で歯冠形態も不整であり打診痛を認めたが, 口腔内の萌出歯はすべて電気歯髄診で生活反応を示した (写真1 b)。

X 線所見；パノラマ, P-A 法, および咬合法 X 線写真では, 右下顎臼歯部骨体部の骨硬化像と, 右側下顎犬歯部から第1大臼歯相当下顎下縁部に半球状に膨隆した添加骨様不透過像を認めた (写真2, 3)。また, P-A 法, 側方斜位法 X 線写真では, 同部のいわゆる層板状の骨膜反応である玉ネギ皮様と針状の骨膜反応の混在した所見が認められた。デンタル X 線写真では, 右下顎第2小臼歯のエナメル質, 象牙質は形成不全と石灰化不全により幻影状を呈し, 短根で歯髓腔は広く, 根尖部には透過像が認められた (写真3 b)。CT 写真では, 右下顎骨骨体部骨髓部分の硬化性変化とその外方の低 CT 値の骨新生部分, さらにその外表面に骨皮質部分が認められ, また同部海綿骨部分には広く硬化性病変が認められた。^{99m}Tc MDP シンチグラフィーでは, 右下顎臼歯部に一致して限局性で均一な強い異常集積が認められたが, 全身的な異常集積は認められなかった。

写真 4 病理組織像

- a: 生検時 線維性間質中に索状で、未熟な骨芽細胞を含む骨梁の形成が認められた (H-E 染色, $\times 200$).
- b: 手術時 慢性炎症性細胞の浸潤した線維性組織中に、不規則に吸収された骨組織が認められた (H-E 染色, $\times 200$).

写真 5 抜去した右下顎第 2 小臼歯写真

- a: 肉眼所見 黄褐色で全体的に小さく、歯冠外形も不整で、解剖学的歯頸線も不明瞭であった。
- b: 軟 X 線写真 歯質の低石灰化と歯髓腔の拡大、短根を呈していた。

臨床検査所見: 白血球数 $6200/\mu\text{l}$, CRP 0.4mg/dl で基準値内であり、血沈は 20mm/h と軽度に亢進していた。

臨床診断: 右下顎骨 Garré 骨髄炎の疑い。

処置および経過: ただちに当科入院の上、4 月 11 日に生検を実施したところ、肥厚した骨膜様組織が存在し、その深部に新生したと思われる菲薄な骨が認められた。

生検組織は凹凸不整の小骨片であり、組織学的には平行に並んで層状に骨が新生し、新生骨梁の辺縁には骨芽細胞が多数並んでみられ、骨梁間には軽度の炎症性細胞浸潤を伴った線維組織から構成されていた。病理学的診断結果は、骨膜増生反応であった (写真 4 a)。生検組織の細菌検査では、グラム陽性球菌である *Streptococcus mitis* が同定され、嫌気性菌は陰性であった。4 月 11 日に局麻下に原因病巣と考えられた右下顎第 2 小臼歯の抜歯と根尖部の搔爬術を行った。抜歯窩内の周囲骨は硬化しており、十分に搔爬の上、小骨片を含めて軟組織塊を摘出した。術後は、2 週間クラリスロマイシンの経口投与を行った。当科退院後、外来にて経過観察中で術後 8 か月の時点で、正貌において顔面の腫脹、顎骨膨隆は軽減し、X 線的にも右下顎骨の添加骨量の減少が認められ、抜歯窩の治癒も良好で、炎症の再燃も認めることなく経過良好である。

摘出標本所見: 抜去した右下顎第 2 小臼歯は、黄褐色で全体的に小さく、歯冠外形も不整で、解剖学的歯頸線も不明瞭であった (写真 5 a)。抜歯窩内よりの搔爬組織は、小骨片を含んだ赤褐色の肉芽様軟組織であった。

抜去歯の軟 X 線所見: 抜去した右下顎第 2 小臼歯は、歯質の低石灰化と歯髓腔の拡大、短根が認められた (写真 5 b)。

病理組織学的所見: 抜去した右下顎第 2 小臼歯は、odontodysplasia を呈しその開大した歯髓腔には正常な歯乳頭組織が存在し、その直下の慢性炎症性細胞の浸潤した線維性組織中に、不規則に吸収された骨組織が認められた (写真 4 b)。

病理組織学的診断: 慢性下顎骨骨髄炎。

考 察

小児の顎骨骨髄炎は成人に比べ発生頻度は非常に少なく、近年の抗菌薬の発達や小児における重症う蝕の減少に伴い、顎顔面領域における骨髄炎を発症する小児も減少してきている。また小児の歯の交換期には顎骨内に永久歯胚が存在し、さらに小児の下顎骨骨髄は反応性に富んだ赤色骨髄が多く、成人では増齢とともに黄色骨髄が増加するという組織学的性状の差異から、小児の顎骨骨髄炎は成人のそれとは異なった様相を呈する。当科においても過去 17 年間に 4 例の小児顎骨骨髄炎を経験し^{3, 4)}、成人とは異なった多様な病変像を示すことから、他疾患との鑑別が重要であると考えている。

顎骨骨髄炎の発症原因としては、外傷後感染や菌性感染および隣接組織からの連続性感染や血行性感染が挙げられるが、自験例では処置前に原因菌および感染源が確定せず、また小児の慢性顎骨骨髄炎自体がまれであることより、鑑別診断として Ewing 肉腫などの腫瘍性病変あるいは線維性骨異形性症、Paget 病などの骨疾患^{5, 6)} も疑い、生検を施行した。

本疾患の診断基準として、1) 骨膨隆により顔貌が非対称を呈する、2) 組織学的には骨膜部に良性的線維性骨増殖を示す、3) 感染、外傷、あるいは他の刺激源が存在する、4) 原因除去後に過剰骨の完全、あるいは部分的な消失があるなどの 4 条件が挙げられている⁶⁾。自験例では、1) 初診時の右下顎骨膨隆による左右非対称な顔貌、2) 添加骨は、組織学的に線維性間質中に索状で未熟な骨芽細胞を含む骨梁を形成し、3) X 線的にも右下顎第 2 小臼歯根

尖部に透過像を認め、病理組織学的にも抜歯窩よりの感染組織を確認し、4) 抜歯後4か月の段階で過剰骨の部分的な消失を認めた、以上の4点より Garré 骨髓炎と診断した。

初診時の X 線所見では、下顎骨下縁部に骨添加像が認められ、さらに CT 像からより明確に顎骨の罹患部位と骨新生の状況を特定できた。今回の症例では MRI 検査は実施していないが、近年、正常骨髓と異常骨髓を比較的明瞭に区別できるといわれている MRI は、骨髓炎の診断および経過の観察には有用であると報告されている⁷⁾。

自験例の成立機転としては、右下顎第2乳臼歯う蝕が発端であったと考えられる。すなわち、初診時にすでに喪失していた右下顎第2乳臼歯は、初診の約4年前(5歳時)に C₃にて断髄の上レジン修復処置が施行され、当時のデンタル X 線写真では、同歯の根間に右下顎第2小臼歯の歯胚を確認できなかった。しかしながら、何らかの原因で右下顎第2乳臼歯の歯髄壊死をきたした同歯根尖由来の弱毒菌による持続的刺激が、下方に存在した後継第2小臼歯歯胚周囲から周辺骨へと拡大し、第2小臼歯の odontodysplasia、さらに右下顎骨体部の慢性硬化性骨髓炎から骨膜へと炎症が波及した結果として、右下顎骨下縁部の反応性骨増殖を引き起こした可能性が高いものと推察された。

Odontodysplasia は、その X 線像より Rushton²⁾ は、患歯を ghost teeth と呼んでおり、歯根形成のみられる症例でもその外形は貧弱で、短根を呈するとされている。発症原因については、Bergman ら⁸⁾ は局所の外傷や感染による歯堤の局部における体細胞の突然変異に起因すると示唆しており、また局所の血流障害により細胞障害が起こるのではないかと推察している。本症例では、右下顎第2乳臼歯より波及した炎症によって、その後の右下顎第2小臼歯の歯胚形成初期の一時期に、象牙質の基質形成とエナメル質の基質形成が障害されたことによって、odontodysplasia を発症したと考えられた。

一般に歯の萌出に関しては、歯根膜が歯の萌出力の原動力であるといわれており、実際に抵抗因子としての歯冠部を被覆する骨や軟組織との不均衡が萌出力となることが考えられている⁹⁾。自験例においては、歯髄壊死に起因する根尖病変から先行乳臼歯が早期脱落した上に、炎症の波及により右下顎第2小臼歯の歯冠部を被覆していた骨が萌出力に抵抗できなかった結果として、反対側同名歯よりも早期に萌出したものと思われた。萌出した odontodysplasia 罹患歯は、形態異常および石灰化不全のため齲蝕罹患性が

高いとされ、長期観察例では歯根の形成不良が認められた¹⁰⁾という報告や、障害の程度が軽症の場合における正常な歯根形成¹¹⁾についても報告されている。本症例の場合は、罹患歯の根尖部病巣の存在からこれ以上の萌出や根完成、支台歯としての役割は期待できず、感染病巣除去、咬合育成の観点から保存する意義は低かったと考える。これまでの報告でも治療と予後については、歯内療法や抜歯などにより容易に治癒し、予後は良好^{1, 5, 12)}とされており、今後は右下顎骨病変部の予後観察とともに、歯列形成期における咬合誘導にも十分配慮した口腔管理が重要である。

引用文献

- 1) Pell, G.J., Shaker, W.G., et al.: Garré's osteomyelitis of the mandible: report of case. *J Oral Surg* 13: 248-252 1955.
- 2) Rushton, M.A.: Odontodysplasia: Ghost teeth. *Brit Dent J* 119: 109-113 1965.
- 3) 川島清美, 上川善昭, 他: 幼児に生じた慢性化膿性下顎骨骨髓炎の1例. *児口外誌* 8: 18-24 1998.
- 4) 友利優一, 杉原一正, 他: 新生児・乳幼児上顎骨骨髓炎の3例. *日口外誌* 29: 117-122 1983.
- 5) Eversole, L.R., Leider, A.S., et al.: Proliferative periostitis of Garré's: its differentiation from other neoperiostosis. *J Oral Surg* 37: 725-731 1979.
- 6) 河島正宜, 手島貞一: 慢性下顎骨骨髓炎の臨床的観察 第2編 いわゆる下顎の Garré 氏骨髓炎について. *日口外誌* 24: 138-146 1978.
- 7) Kaneda, T., Minami, M., et al.: Magnetic resonance imaging of osteomyelitis in the mandible: comparative study with other radiologic modalities. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 79: 634-640 1995.
- 8) Bergman, G., Lysell, L., et al.: Unilateral malformation: report of two cases. *Oral Surg* 16: 48-60 1963.
- 9) 川本達雄監修: 埋伏歯の臨床. 医歯薬出版, 東京, 1998, 222-225頁.
- 10) 細矢由美子: Regional odontodysplasia の一症例—11年間にわたる口腔管理—. *小児歯誌* 33: 624-632 1995.
- 11) Kerebel, B. and Kelebel, L.M.: Enamel in odontodysplasia. *Oral Surg* 52: 404-410 1981.
- 12) Jacobson, H.L.J., Baumgartner, J.C. et al.: Proliferative periostitis of Garré: report of a case. *Oral Surg Oral Pathol Oral Radiol Endod* 94: 111-114 2002.