症例報告

下顎に発生した顎放線菌症の1例

— 本邦における顎放線菌症の過去集計と現状との比較検討 —

小 畑 協 一 伊 原 木 聰 一 郎 矢 尾 真 弓
柴 田 茜 吉 岡 徳 枝 志 茂 剛
佐 々 木 朗

抄録：顎放線菌症は開口障害や板状硬結、多発性膿瘍といった特徴的な症状を有する特異性炎である。しかし近年典型的な症状を示す症例が減少していることから診断が困難となっている。症例は85歳の女性で、左側頬部の腫脹と開口障害で当院を受診した。X線写真検査で下顎骨の破壊と融解を認めた。悪性腫瘍を疑ったが、病理組織学的診断は放線菌症であった。外科的搔爬を行い、ベンジルペニシリンとアモキシシリンの投与を行った。

キーワード：放線菌症、骨髓炎、抗菌薬

緒 言

顎放線菌症は、下顎骨周囲軟組織に好発し、開口障害や板状硬結、多発性膿瘍といった特有の臨床症状を呈する特異性炎である^{1, 2)}。しかし近年、これら臨床症状が乏しい症例が増えており、一因として抗菌薬の発達と安易な使用が挙げられているが、関連性について検討した報告はない。また本症の集計報告は1983年以降われわれの渉猟した範囲ではなく、現状が十分把握できていない状態である⁵⁻⁸⁾。そこで今回われわれは、当科で経験した骨破壊を伴った下顎骨顎放線菌症の1例を報告するとともに、1983年以前の集計報告3報⁵⁻⁸⁾と、1983年以降報告された37例（自験3例含む）^{2-4, 9-33)}との比較検討を行った。

症 例

患者：85歳、女性。

初診：2013年12月上旬。

主訴：左側頬部腫脹と開口障害。

既往歴：変形性膝関節症、ニューロパチー。

現病歴：2013年11月上旬に近医歯科で、左側下顎第二大臼歯の抜歯を受けた。しかし11月下旬になっても抜歯窩が治癒せず、左側頬部の強度な腫脹と開口障害が出現したため、精査加療を目的に当科紹介となった。

現症：

口腔外所見：栄養状態は良好だったが、体温は37.0℃で

全身倦怠感があった。左側頬部にびまん性の発赤と、中央に硬結を伴った腫脹を認めた。開口量は2横指と開口障害を認めたが、所属リンパ節の腫脹はなかった。

口腔内所見：左側下顎第二大臼歯の抜歯窩内に骨露出を認め、周囲歯肉は発赤と腫脹を呈していた。同部を圧迫すると、抜歯窩から黄白色の排膿を認めた。

臨床検査所見：白血球数は6,200/ μ lと正常範囲内であったが、白血球分画では好中球が77.0%と増加していた。CRPは0.93mg/dlであった。

画像所見：CT画像で抜歯窩を中心とし、骨髓内にびまん性に広がる骨破壊像と、頬側皮質骨の融解像を認めた。

臨床診断：左側下顎骨骨髓炎。

処置および経過：消炎目的でアモキシシリン（AMPC）750mg/日の内服を開始したが増悪傾向にあったため、6日後に当科入院とし、セフトリアキソンナトリウム1g/日の点滴を開始した。しかし頬部の腫脹がさらに増悪してきたため、造影MRI検査を施行したところ、抜歯窩周囲の骨髓はT1強調像で低信号を、STIR像で不均一な高信号を示しており、また所属リンパ節の腫大がないことから、悪性腫瘍の可能性を指摘された。そこで局所麻酔下で骨髓内部の組織を採取し病理検査を施行したところ、異型細胞はなく、放線菌の菌塊を認めたため、顎放線菌症と診断に至った。ベンジルペニシリンを12,000単位/日で19日間投与したところ、硬結は残存するものの、頬部の腫脹が改善したため退院とした。その後AMPCを750mg/日で4か月間内服を継続したところ、硬結も消失した。現在初診より4年だが、経過良好である。

病理組織学的所見：好中球を主体とした著明な炎症性細

Fig 1 Photo at first visit (A: cheek, B: left lower molar region)
There was swelling accompanied by induration with redness on the left cheek. Moreover, there was bone exposure in extraction space.

Fig 2 Imaging test (A: CT, B: MRI-T1, C: MRI-STIR)
A: Diffuse bone destruction existed around the extraction space. B: Low signal area is existed. C: High signal area is existed.

胞浸潤像中に、ヘマトキシリン好染の菌糸とエオジン好染の棍棒体が放射状に多数配列した菌塊を認めた。

病理組織学的診断：下顎骨顎放線菌症。

考 察

顎放線菌症は *Actinomyces israeli* 等を原因菌とする特異性炎で、全放線菌症の 55 ～ 65% を占める^{3, 32)}。抗菌薬が発達する以前は高頻度に認められる難治性疾患であったが、近年典型的な症状を呈す症例が少なくなり、また症例数自体も減少傾向にある¹⁰⁻¹²⁾。

本症に関して、1931 年から 1966 年に常葉ら⁶⁾ が、1963 年から 1982 年に新藤ら⁷⁾ が、1970 年から 1979 年に黒川ら⁸⁾ が集計報告している。しかし 1983 年以降の集計報告は見つからなかった。そこでわれわれは 1983 年以降に報告された 34 例^{2-4, 9-33)} と自験例 3 例の合計 37 例を集計し、前述 3 報⁶⁻⁸⁾ との比較検討を行った。

性別発症頻度は女性より男性の方が 1.8 倍高く、発症年齢は 11 ～ 87 歳で、50 ～ 59 歳が最も多かった。一方 3 報

Fig 3 Pathological tissue photo (H-E Bar = 100 μm)

では性別発症頻度は女性より男性の方が 1.6 ～ 2.3 倍高く大きな変化はなかったが、発症年齢は 21 ～ 30 歳⁶⁾、20 ～ 29 歳⁷⁾、40 ～ 49 歳⁸⁾ が最も多く、高齢化が認められた。

発症部位は頬部が最も多く 56.8% (21 例) であった。ま

Table 1 Case of actinomycosis in oral region

症例	年齢	性別	部位	腫脹	硬結	開口障害	膿瘍形成	疼痛	初診時診断	外科処置	抗菌薬
1 鈴木ら ¹⁵⁾	14	M	頬部	+	+	+	+	+	骨髓炎	摘出	CAZ → CLDM
2 大内ら ¹⁶⁾	18	M	頬部	+	+	+	+	-	蜂窩織炎	口腔外切開	CFTM-PI → AMPC
3 木村ら ³⁾	21	M	頬部	+	-	+	+	+	骨髓炎	不明	不明
4 小山ら ¹¹⁾	30	F	頬部	+	-	+	-	+	骨髓炎	摘出	AMPC
5 岡田ら ⁴⁾	43	M	頬部	-	-	-	-	-	腫瘍	切除	CAM
6 木村ら ³⁾	45	M	頬部	+	-	-	-	+	耳下腺炎, 腫瘍	不明	不明
7 木村ら ³⁾	51	M	頬部	+	-	+	+	+	耳下腺炎, 腫瘍	不明	不明
8 山田ら ¹⁷⁾	51	F	頬部	+	-	-	-	-	骨髓炎, 上顎洞炎	摘出	不明
9 加納ら ¹⁸⁾	52	M	頬部	+	-	+	+	+	頬部膿瘍, 腫瘍	口腔外切開	PCG
10 山本ら ⁹⁾	52	F	頬部	+	+	+	+	+	悪性腫瘍, 蜂窩織炎	外科なし	ABPC → AMPC
11 向井ら ¹⁹⁾	54	M	頬部	+	-	-	-	+	上顎洞炎	口腔内搔爬	ペニシリン系
12 山本ら ⁹⁾	57	M	頬部	+	+	+	+	-	骨髓炎, 蜂窩織炎	口腔内切開	ABPC → AMPC
13 水谷ら ²⁰⁾	58	M	頬部	+	+	+	-	+	蜂窩織炎	口腔外切開	PAPM → CFPN-PI
14 大平ら ²¹⁾	59	M	頬部	+	+	+	-	+	腫瘍	口腔外切開	PIPC → AMPC
15 石川ら ²²⁾	60	M	頬部	+	+	+	-	+	悪性腫瘍, 炎症	外科なし	ABPC/CVA
16 松浦ら ²³⁾	66	F	頬部	+	-	-	-	-	悪性腫瘍	口腔内切開	ABPC
17 藤井ら ²⁴⁾	71	F	頬部	+	-	-	-	+	悪性腫瘍	生検	ABPC
18 長島ら ¹²⁾	82	F	頬部	+	-	-	+	+	骨髓炎	口腔外切開	ABPC + CLDM
19 飯島ら ¹⁴⁾	87	F	頬部	+	+	+	+	-	頬部膿瘍	摘出	ABPC
20 畑ら ²⁵⁾	11	F	顎下部	+	+	-	+	+	顎下腺炎	口腔内切開	AMPC
21 生駒ら ²⁶⁾	19	F	顎下部	+	+	+	+	-	不明	摘出	AMPC → CPDX-PR
22 武田ら ²⁷⁾	43	F	顎下部	+	-	-	-	-	腫瘍	口腔外切開	ABPC → LAPC
23 長島ら ¹²⁾	48	M	顎下部	+	+	+	+	-	骨髓炎	口腔外切開	ABPC
24 生駒ら ²⁶⁾	52	M	顎下部	+	+	-	+	+	不明	摘出	PCG → AMPC
25 木村ら ²⁸⁾	56	M	顎下部	+	+	-	-	+	炎症	口腔外切開	PIPC → AMPC
26 畔田ら ²⁹⁾	56	M	顎下部	+	+	-	-	-	悪性腫瘍	郭清	不明
27 長谷部ら ³⁰⁾	58	M	顎下部	+	+	+	-	+	骨髓炎	不明	不明
28 高ら ²⁾	65	M	顎下部	+	+	-	-	-	骨髓炎, 悪性腫瘍	口腔内搔爬	AMPC
29 石川ら ¹³⁾	66	M	顎下部	+	+	-	-	+	炎症, 悪性腫瘍	摘出	AMPC
30 水谷ら ²⁰⁾	66	F	顎下部	+	+	-	-	+	蜂窩織炎	口腔外切開	ABPC
31 宗像ら ³¹⁾	42	M	上顎臼歯部	+	-	-	-	-	嚢胞	摘出	不明
32 佐藤ら ¹⁰⁾	53	M	上顎臼歯部	+	+	-	-	-	骨髓炎, 腫瘍	生検	FMOX → CDTR-PI
33 五百蔵ら ³²⁾	18	M	下顎臼歯部	+	+	+	+	+	顎関節症, 顎放線菌症	口腔内搔爬	PCG
34 原田ら ³³⁾	51	F	下顎臼歯部	+	-	-	-	+	骨髓炎, 悪性腫瘍	生検	PIPC → CDTR-PI
35 自験例 1	69	M	頬部	+	+	+	-	+	骨髓炎	口腔外切開	PCG → AMPC
36 自験例 2	85	M	頬部	+	+	+	-	+	蜂窩織炎	口腔外切開	PCG → AMPC
37 自験例 3	85	F	下顎臼歯部	+	+	+	-	+	悪性腫瘍	生検	PCG → AMPC

ABPC: アンピシリン AMPC: アモキシシリン AMPC/CVA: アモキシシリン/クラブリ酸 CAM: クラリスロマイシン CAZ: セフトラジウム CDTR-PI: セフトロペンピボキシル CFPN-PI: セフカペンピボキシル CFTM-PI: セフテラムピボキシル CLDM: クリンダマイシン CPDX-PR: セフボドキシムプロキシセチル FMOX: フロモキシセフ LAPC: レナペンシリン PAPM: パニペネム PCG: ペンジルベニシリン PIPC: ピペラシリン

た発症原因の記載があった28例中、抜歯後や歯周病等による症例が60.7% (17例)で、菌性感染との関連性が示唆された。また原因菌種の記載があった17例中、70.6% (12例)が下顎臼歯部で、特に下顎第三大臼歯が最も多かった。3報⁶⁻⁸⁾でも同様の集計結果を報告しており、下顎臼歯部の菌性感染を原因とし、頬部等の顎骨周囲組織に炎症が波

及する病態には大きな変化がないことがわかった。

初診時臨床診断は、炎症性疾患や腫瘍性疾患と診断した症例が多く、諸症状等から顎放線菌症と診断できた症例はわずか2.0% (1例)であった (重複含む)。また腫瘍性疾患と診断した症例のうち53.3% (8例)で画像所見等から悪性腫瘍を疑っていた。顎放線菌症と診断に至った根拠

は、病理組織検査が最も多く 81.1% (30 例) で、細菌検査は 10.8% (4 例) と少なかった。細菌検査の検出率に関して 3 報は 46.9%⁶⁾, 42.4%⁷⁾, 62.5%⁸⁾ と報告しているおり検出率の低下がみられた。低下の理由として、近年の抗菌薬の発達、特に 1980 年頃から抗菌力の強い第三世代セフェム等が使用可能となったことで、細菌検査時には検出不能な数まで減少していることが挙げられる^{5, 13, 26)}。自験例も第三世代セフェム系抗菌薬が投与されていたため、細菌検査で検出できなかったと考えられる。

治療については、73.0% (27 例) で消炎手術を行っていた。また使用した抗菌薬はペニシリン系が最も多く、特に AMPC が選択されていた。金川ら³⁴⁾ による *Actinomyces* 属の薬剤感受性報告によるとペニシリン系、セフェム系等はほぼ 100% の感受性を有するのに対し、ニューキノロン系等では耐性を示す株が 9 割近くあった。また抗菌薬の投与期間について、記載のあった 27 例中 1~2 か月以内の症例が 74.1% (20 例) と最も多くを占めていた。本症例は 4 か月間抗菌薬を投与したが、投与期間の短縮を考慮すべきであったと考えられた。これらの結果から本症の治療として、積極的な消炎手術を行いつつ、ペニシリン系やセフェム系抗菌薬を症状に応じて 1~2 か月程度投与することが望ましいと考えられた。

結 論

今回われわれは、当科で経験した骨破壊を伴った下顎骨顎放線菌症の 1 例を報告するとともに、本症の現状について過去の報告との比較検討を行った。

本論文について申告すべき利益相反状態はありません。

文 献

- 1) 塩田重利, 富田喜内: 下顎部における特異性炎. 最新口腔外科学, 第 4 版, 医歯薬出版, 東京, 1999, 662-663 頁.
- 2) 高 楠旻, 櫻井仁亨, 小村 健: 骨破壊を伴った放線菌性下顎骨骨髓炎の 1 例. 日口外誌 56: 90-94, 2010.
- 3) 木村幸紀, 荒木和之, 花澤智美, 他: 顎放線菌症の CT・US 所見. 歯科放射線 41: 231-239, 2001.
- 4) 岡田康男, 片桐正隆, 飯濱 剛, 他: 頬粘膜部に発症した放線菌症の 1 例. 日口外誌 54: 546-549, 2008.
- 5) 砂川慶介: 抗菌薬の小児への開発. 小児感染免疫 23: 265-270, 2011.
- 6) 常葉信雄: 顎部放線菌症, その診断と治療. 歯界展望 44: 557-563, 1974.
- 7) 新藤潤一: 口腔領域における放線菌症の現況—全国 45 施設・140 症例の分析—. 日口外誌 29: 1879-1889, 1983.
- 8) 黒川英雄, 梶山 稔, 銅城将紘, 他: 顎部に発現した放線菌症の 3 症例. 口科誌 32: 219-228, 1983.
- 9) 山本祥子, 石井保雄, 北川善政, 他: 顎放線菌症の MR 画像診断. 口科誌 47: 504-509, 1998.
- 10) 佐藤 仁, 宮手浩樹, 横田光正, 他: 上顎骨に生じた放線菌症の 1 例. 日口外誌 45: 354-356, 1999.
- 11) 小山宏樹, 柴田孝典, 山本 郁, 他: 妊婦の下顎智歯抜去後に生じた顎放線菌症の 1 例. 日有病菌誌 13: 15-19, 2004.
- 12) 長島弘征, 浅田洸一, 山本英雄, 他: 放線菌感染が疑われた下顎骨骨髓炎の 2 例. 歯薬療法 25: 47-52, 2006.
- 13) 石川敏夫, 戸島 均, 石井純一, 他: 頭頸部放線菌症の 4 症例. 耳鼻臨床 93: 1041-1046, 2000.
- 14) 飯島 響, 栗田 浩, 戸木田怜子, 他: 顎放線菌症を併発した下顎切痕部の含菌性嚢胞の 1 例. 日口外誌 54: 674-678, 2008.
- 15) 鈴木英弘, 高木律男, 今井信行, 他: 多剤薬物アレルギーを有する小児顎放線菌症の 1 例. 小児口外, 12: 15-20, 2002.
- 16) 大内 浩, 八木正篤, 福田喜安, 他: 下顎角部に生じた放線菌症の 1 例. 日口外誌 40: 287-289, 1994.
- 17) 山田 芽, 早津良和, 水柿雄三, 他: 放線菌による上顎骨骨髓炎の 1 例. 日口外誌 46: 375-377, 2000.
- 18) 加納欣徳, 杉浦正幸, 杉本 綾, 他: *Actinomyces meyeri* による頬部放線菌症の 1 例. 日口外誌 44: 348-350, 1998.
- 19) 向井隆雄, 高尾香名, 松浦麗華, 他: 歯の脱落后に発症した放線菌感染を疑う上顎骨骨髓炎の 1 例. 日口外誌 56: 428-431, 2010.
- 20) 水谷雅英, 向井隆雄, 東 けい, 他: 骨破壊を伴った顎顔面放線菌症の 2 例. 日口外誌 53: 150-154, 2007.
- 21) 大平明範, 杉山芳樹, 関山三郎, 他: 関節突起に骨吸収を伴った顎放線菌症の 1 例. 口科誌 47: 141-146, 1998.
- 22) 石川 均, 新井直也, 石井純一, 他: 悪性腫瘍を疑い病理組織学的に放線菌症と診断された 1 例. 歯薬療法 23: 83-87, 2004.
- 23) 松浦 隆, 上松隆司, 堂東亮輔, 他: 頬部に発症した放線菌症の 1 例. 日口外誌 51: 295-298, 2005.
- 24) 藤井智子, 長野紀也, 谷池直樹, 他: 悪性腫瘍を疑った放線菌症による上顎骨骨髓炎の 1 例. 口科誌 58: 64-68, 2009.
- 25) 畑 毅, 福田道男, 細田 超: 歯塊中心部に唾石が存在した顎下腺部放線菌症の 1 例. 口科誌 46: 76-79, 1997.
- 26) 生駒誓子, 竹内裕美, 生駒尚秋: 顎下部放線菌症の 2 例. 耳鼻と臨 41: 48-51, 1995.
- 27) 武田久仁美, 小坂橋勉, 三科正見, 他: 腫瘍性病変が疑われた顎放線菌症の 1 例. 日口診誌 24: 364-367, 2011.
- 28) 木村 寛: *Actinomyces naeslundii* による顎部放線菌症の 1 例. 日耳鼻 114: 620-623, 2011.
- 29) 畔田 貢, 大類 晋, 渡邊昭仁, 他: 顎下腺放線菌症の 1 例. 口科誌 43: 277-280, 1994.
- 30) 長谷部逸人, 神部芳則, 野口忠秀, 他: パノラマ X 線写真にて著明な骨吸収像を認めた顎放線菌症の 1 例. 歯科放射線 42: 234-235, 2002.
- 31) 宗像源博, 中野佳央, 新中康史, 他: 石灰化した放線菌塊を伴った歯根嚢胞の 1 例. 口科誌 57: 283-287, 2008.
- 32) 五百蔵一男, 大峰隆浩, 小林ちづ子, 他: 特発性血小板減少性紫斑病に合併した顎放線菌症の 1 例. 医療 42: 861-865, 1988.
- 33) 原田奈奈, 津山泰彦, 木村幸紀, 他: 下唇の Paresthesia を呈した放線菌性下顎骨骨髓炎の 1 例. 歯科放射線 52: 30-34, 2012.
- 34) 金川昭啓, 上村俊介, 中村 功, 他: 放線菌属の分離状況と薬剤感受性の検討. 日嫌気性菌感染症研 31: 130-135, 2001.

別冊請求先: 佐々木 朗 〒700-8558 岡山県岡山市北区鹿田町 2 丁目 5-1
岡山大学病院口腔外科 (病態系) 医局

A Case of Mandibular Actinomycotic Osteomyelitis

— A Review of the Comparison Between the Past and the Present Case of Actinomycosis in Japan —

Kyoichi OBATA, Soichiro IBARAGI, Mayumi YAO,
Akane SHIBATA, Norie YOSHIOKA, Tsuyoshi SHIMO,
and Akira SASAKI

*Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Okayama University Graduate School of Medicine,
Dentistry and Pharmaceutical Science
(Chief: Prof. Akira SASAKI)*

J. Jpn. Oral Medicine, 23 : 23 ~ 27, 2017

Abstract : Actinomycosis is a specific inflammatory disease that shows typical symptoms of trismus, plate-like induration, and multiple abscess formation. However, it has recently become difficult to diagnose because of a decreased number of cases show typical symptoms. A 85-year-old woman was referred to our clinic because of swelling with left molar region and trismus. Radiographic examination revealed bone destruction and lysis of the mandible. Although a malignant tumor was suspected, the histopathological diagnosis was actinomycosis. Surgical curettage was performed, and Benzylpenicillin and Amoxicillin was administered.

Key words : actinomycosis, osteomyelitis, antibacterial drugs

Reprint requests to Akira SASAKI, Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Okayama University Graduate School of Medicine, Dentistry and Pharmaceutical Science, 2-5-1, Shikata-cho, Kita-ku, Okayama 700-8558, Japan.

[Received February 16, 2017 : Accepted May 4, 2017]