

Actinomycotic Osteomyelitis of the Mandible Following Hemodialysis: Report of a Case

Toshihiro KIKUTA¹, Mika SETO¹, Hiromasa TAKAHASHI¹,
George UMEMOTO¹, Taishi OTANI¹, Ryosuke KITA¹,
Naoko AOYAGI¹, Yumiko SAKAMOTO¹, Masao TAKAOKA¹,
Akio KITASHIMA²

¹ *Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Faculty of Medicine, Fukuoka University*

² *Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Hakujuji Hospital*

Abstract: Mandibular osteomyelitis due to actinomycosis following hemodialysis is a particularly rare occurrence.

The patient was a 69-year-old female on her sixth year of hemodialysis. She had undergone chemotherapy for malignant lymphoma for 6 months until 3 months before her initial visit to the clinic.

Her right lower second molar was initially treated by root canal at a private dental clinic to address her cheek pain. Thereafter, her symptoms gradually worsened, and she later was referred to this clinic. She was diagnosed to have a right acute perimandibular abscess and therefore was hospitalized on the day she presented. She had been undergoing chemotherapy and drainage in the right lower buccal gingiva of the molars. The extraction of the right lower second molar and curettage were performed after the acute inflammation resolved.

She experienced two flare-ups of the subcutaneous abscess of her right cheek at two months and five months after the first discharge. Curettage and sequestrectomy of the right mandibular marrow were performed to resolve the inflammation. The third surgery for mandibular osteomyelitis revealed sequestrum from the body via the ramus to the right mandibular condylar head and an actinomycotic colony in the sequestrial lesion was also identified.

The patient had renal osteodystrophy due to the relative long-term hemodialysis and low level immunity after the chemotherapy of the malignant lymphoma. The osteomyelitis explained the infection with not only the usual oral bacteria, but also actinomyces following three rounds of surgical treatment for the infection in the subcutaneous cheek region and the bone marrow of the mandible.

Key words : Actinomycosis, Mandibular Osteomyelitis, Long-term Hemodialysis, Renal Osseous Dysplasia

放線菌性下顎骨骨髓炎を発症した血液透析患者の1例

喜久田利弘¹, 瀬戸 美夏¹, 高橋 宏昌¹,
梅本 丈二¹, 大谷 泰志¹, 喜多 涼介¹,
青柳 直子¹, 坂本悠三子¹, 高岡 昌男¹,
北嶋 哲郎²

¹ 福岡大学医学部医学科歯科口腔外科学講座

² 医療法人白十字会 白十字病院歯科口腔外科

要旨：血液透析患者に発症する放線菌性下顎骨髄炎症例は比較的まれである。症例は初診時69歳の女性で、慢性腎不全にて透析治療導入6年目であった。また、3か月前まで6か月間の悪性リンパ腫に対する化学療法を受けていた。右側頬部の疼痛に対し近歯科医院で右下顎7番の根管治療を受けた。同症状増悪し、当科紹介来院した。右側下顎骨周囲炎の診断にて即日入院となった。右側下顎頬側歯肉部からの切開排膿と消炎化学療法を行い、その後、同歯牙の抜歯と不良肉芽の搔爬を施行した。1回目入院治療の軽快退院後2か月目と5か月目に炎症再燃し、さらに2回の全身麻酔下の骨髄搔爬・腐骨摘出術を施行した。3回目入院の右側下顎骨搔爬時、腐骨は右側下顎骨体部、下顎枝から右側下顎頭部に及んでいた。病理組織検査にて腐骨部に放線菌塊が同定された。本症例は、比較的長期の血液透析による腎性骨異常栄養症と悪性リンパ腫に対する化学療法後の免疫能が低下した状態であった。本症例の頬部皮下膿瘍や下顎骨骨髄への感染に対する3回の外科的治療の施行は、口腔常在菌感染ばかりでなく放線菌まで感染した広範囲の下顎骨骨髄炎へと移行したと考えられた。

キーワード：放線菌症，下顎骨骨髄炎，長期血液透析，腎性骨異常栄養症

緒 言

慢性腎不全に合併する腎性骨異常栄養症や血液透析に伴うアミロイド沈着は他の免疫能低下症状と相まって、重篤な骨髄炎や関節炎を起こすと言われている¹⁾。血液透析患者に合併した化膿性関節炎・骨髄炎の報告例は少ない²⁾。特に下顎骨に発症した報告は渉猟できない。

今回、われわれは血液透析、脳出血、脳梗塞、悪性リンパ腫に対する化学療法の既往を有する患者の下顎大臼歯部根尖病巣から下顎頭部を含む下顎骨片全域に波及した放線菌性下顎骨骨髄炎の症例を経験したので考察を加え報告する。

症 例

患者：69歳，女性
初診：2006年2月下旬

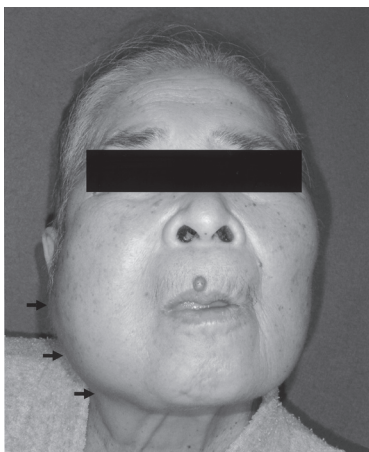


図1. 初診時顔貌所見；→右頬部および顎下部の腫脹

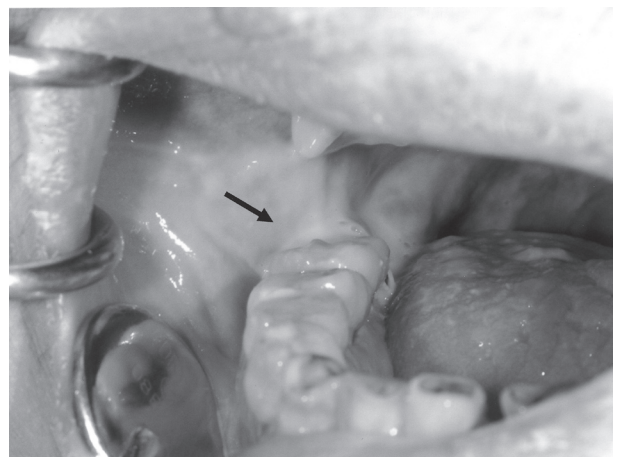


図2. 初診時口腔内所見；→右下顎7番遠心歯肉溝からの排膿

主訴：右頬部が腫れて痛い。

既往歴：1992年右側脳出血による左側不全麻痺を発症。1993年に再出血し、保存的治療を受けた。同年、右側変形性股関節症に対し、某大学病院にて右側大腿骨人工骨頭置換術を施行された。2001年3月より末期慢性腎不全の診断で某医科大学にて血液透析を導入された。2005年には、脳幹部梗塞、両側基底核領域ラクナ梗塞を発症し、保存的治療を受けた。同年7月、左右頸部の悪性リンパ腫にてCHOP療法6クールを施行され、同年12月に当院血液内科にて、ほぼ完全治癒の状態であると診断され経過観察となった。

現病歴：2006年1月中旬、右側頬部に疼痛と軽度の腫脹を自覚し、近歯科医院を受診。右側下顎第2大臼歯の根尖性歯肉炎の診断にて、根管治療を受けたが、症状の改善はなかった。2月中旬より右側頬部の腫脹が増強し、2月下旬、右側下顎骨周囲炎の診断にて同院より当科紹介受診となった。

初診時所見

口腔外所見：右側頬部に瀰漫性腫脹があり，開口距離は20mmと開口障害があった（図1）。

口腔内所見：右側下顎第2大臼歯遠心歯肉溝から排膿があり，周囲歯肉に著明な発赤と圧痛を認めた．全顎的に口腔内清掃状態は不良であった（図2）。

画像所見：初診時パノラマX線写真にて，右側下顎第2大臼歯歯根周囲骨髄に病変は読影できなかった（図3）。

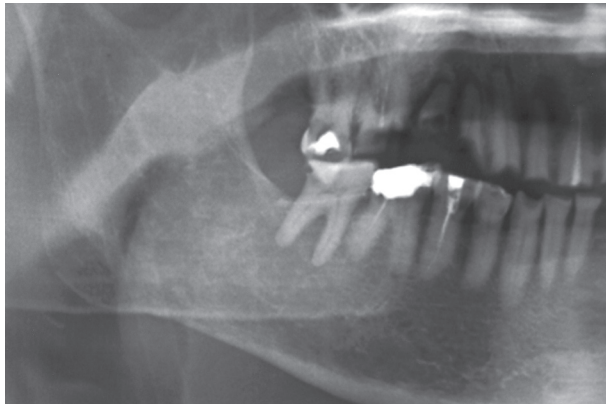


図3. 初診時パノラマX線写真 右下顎7番根尖部の病巣は不鮮明

処置および経過：

1回目入院：当科初診時，右側下顎骨周囲炎の診断にて即日入院となった．同日，口腔内から右側下顎大臼歯部歯肉の切開排膿を行い，セファゾリンナトリウム1g/日の静脈内投与による消炎療法を開始した．血液透析は当院にて入院翌日より3回/週で継続した．初期治療時に採取した膿汁の細菌検査報告が8病日目にあり，Candida, Staphylococcus aureus, Peptostreptococcus, Bacteroidesなどが検出された．Bacteroides fragilisが最も多く検出されたため，感受性の高いスルタミシリン 375mg/日の内服を9病日から開始した．CT所見にて右側下顎第2大臼歯から下顎枝部骨髄の骨破壊像と下顎骨周囲に膿瘍と思われるlow density areaが観察された（図4）．11病日に右側下顎第2大臼歯の抜歯と歯牙周囲骨髄の可及的な不良肉芽搔爬を行った．病理検査結果は，炎症性肉芽病変であった．搔爬後11日目に抜歯窩が上皮化したため退院とした．

2回目入院：退院後52日目，右側頬部に膿瘍を形成し，自壊したため再入院となった（図5）．CT検査にて1回目入院同様に右側下顎枝の外側皮質骨欠損を認めた．下顎骨髄炎の診断にて，頬部膿瘍ドレナージとスルタミシリン 375mg/日の内服による消炎療法を開始した．細菌検査ではKlebsiellaが認められた．12病日に中央手術室，全身麻酔下で右側顎下部皮膚切開アプ

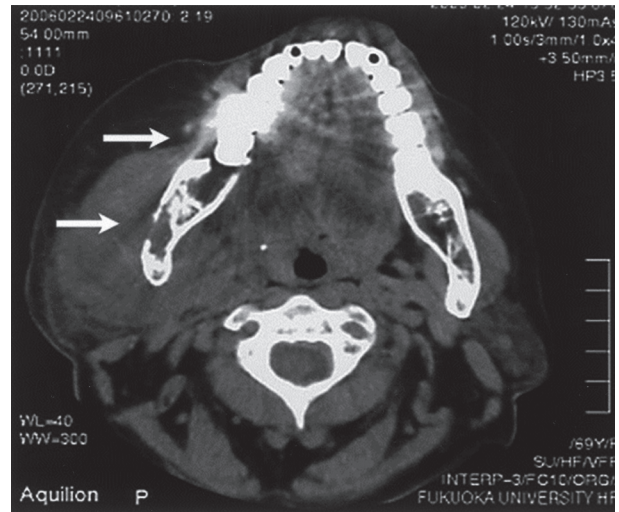


図4. 入院時X線CT写真；→右下顎7番から下顎枝部の骨破壊像と膿瘍形成

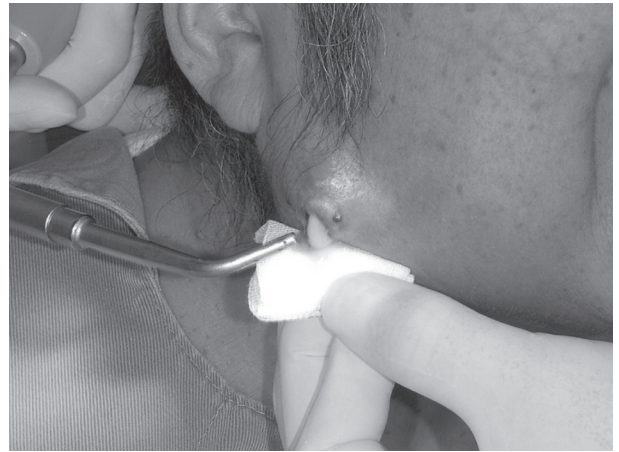


図5. 2回目入院時右頬部所見 右頬部膿瘍の自壊と排膿

ローチによる下顎骨体部骨髄搔爬術を施行し，右側下顎第1大臼歯の抜歯も行った（図6）．病理組織検査結果は炎症性肉芽病変と壊死骨であった．術後45日目に右側顎下創部，右側下顎大臼歯部歯肉粘膜創部ともに閉鎖したため，退院とした．

3回目入院：2回目退院後42日目に，再度頬部膿瘍を形成したため，3回目の入院となった．右側下顎角部に瀰漫性腫脹を認め，自壊した状態であった．CT検査にて右側咬筋の腫脹と右側下顎枝外側および右側下顎頭頂部に遊離した腐骨と思われるX線不透過像を認めた（図7）．同日より2回目入院時と同様にスルタミシリン 375mg/日内服での消炎療法を開始した（図8）．18病日に中央手術室，全身麻酔下にて右側下顎骨体部，下顎枝部および右側下顎頭部の腐骨を含めた切除・搔爬術を施行した（図9）．腐骨の病理検査結果では，壊死骨，炎症性肉芽病変とともに放線菌塊が同定された．下



図6. 2回目入院時手術所見 左:右下顎骨体部, 下顎枝部骨髄搔爬 右:右下顎6番抜歯



図7. 3回目入院時X線CT所見:→右下顎頭部および下顎枝部の腐骨遊離

顎頭は壊死性変化を伴った線維性組織によって囲まれていた。また、下顎頭腐骨の病理像では、壊死骨周囲に炎症性細胞によって囲まれた菌塊を認めた(図10)。術後、顎放線菌に対してアンピシリン溶解液にてドレナージ開放創部の局所洗浄を行った。術後36日目に軽快退院とした。その後、外来にて経過観察を行い、現在、術後5年以上経過しているが、炎症の再燃はない。

考 察

口腔・顎・顔面領域における放線菌症は軟組織型と顎骨型に分けられる。常葉ら³⁾は顎骨型を骨膜炎型と骨髓炎型に分類している。また、新藤ら⁴⁾は骨髓炎の病態を示すものは11.4%と比較的少ないと報告している。

放線菌の培養は一般に困難で診断に苦慮する 경우가多く、その骨吸収像の所見は少ないと言われている⁵⁾。本邦の報告によると腐骨形成を伴った骨膜炎型の顎放線菌症は11例中2例であったとされている⁶⁾。Bartkowskiら⁷⁾は、15例の下顎骨放線菌症を報告し、そのうち切開排膿術を含む腐骨摘出術が9例、搔爬施行が5例と、搔爬症例数以上に多くの腐骨形成症例を報告している。骨膜炎型の顎放線菌症の治療には積極的な腐骨または肉芽組織の摘出が必要との報告がある³⁾。しかし、Bartkowskiら⁷⁾は外科治療後1か月半から2か月での再発が15例中3例で見られたとも報告しており、完治困難な疾患と記述している。

自験例は、1回目入院時には顎骨型の骨膜炎型であったものが、広範な骨破壊を伴う骨膜炎型の下顎骨放線菌症に移行した稀な症例と考えられた。本症例は、骨髓搔爬後も2か月以内に2度の再燃を認めた。これらの原因のひとつに、当科初診3か月前まで、悪性リンパ腫に対するCHOP療法が施行され、初診の1か月前まで継続していたことで免疫能が低下していたこと挙げられる。また、患者は悪性リンパ腫の診断直前に、脳梗塞に罹患し、歩行困難な状態で日常生活動作が低下した状態でもあった。多くの全身的基礎疾患によって患者の免疫能は著しく低下し、右側下顎第2大臼歯の歯根尖病巣が相乗して口腔常在菌感染による下顎骨骨髓炎が惹起され、さらに長期間の炎症によって顎放線菌症を発症したものと推察された。

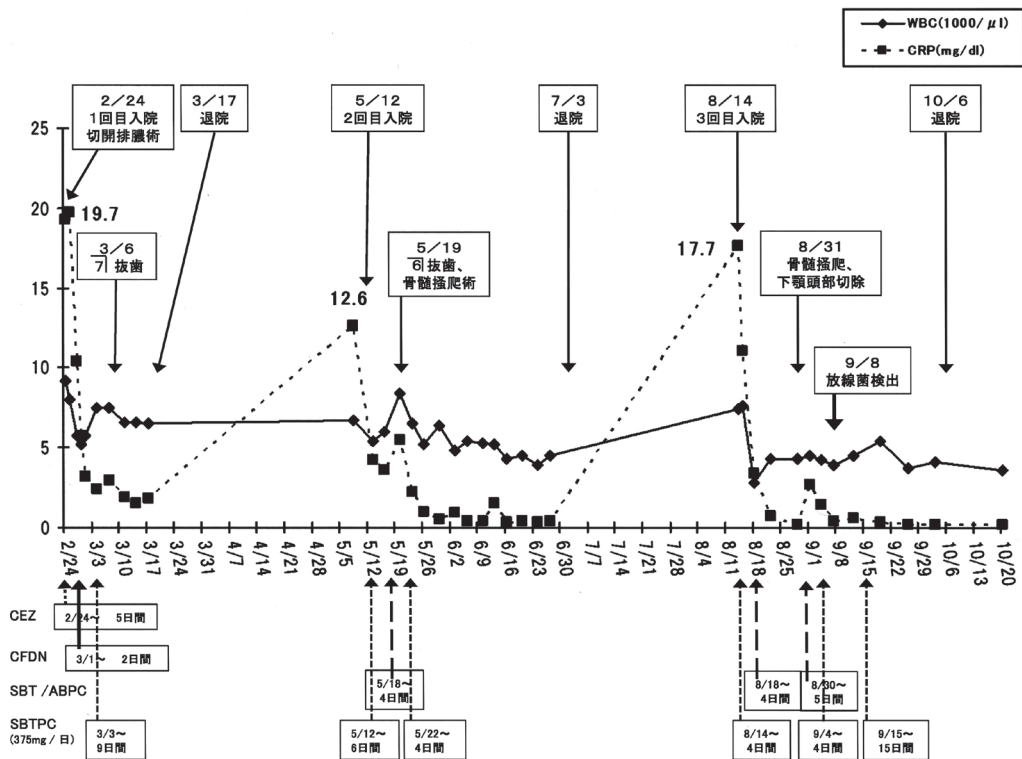


図8. 3回の入院時の抗生薬、白血球数とCRPの変化



図9. 3回目入院時手術所見 左：右下顎頭部腐骨摘出 右：→摘出した下顎頭部腐骨と下顎枝部腐骨および不良肉芽

血液透析患者の放線菌性骨髄炎の報告は整形外科領域において散見される⁸⁾。高橋ら¹⁾は血液透析患者において、骨や関節は腎性骨異栄養症（Renal Osteodystrophy; ROD）になり、アミロイド沈着や患者の高齢化に伴い骨髄炎の発症頻度はさらに増加すると報告している。又賀ら⁹⁾は、顎骨がRODにより画像上スリガラス状変化の所見を呈し、特に歯槽硬線の消失、骨膜下吸収や嚢胞形成が特徴的で、病理組織所見では線維性の骨炎を呈すると記述している。また、顎関節においてはアミロイド

骨関節症のひとつの症状として出現するとも述べている。一般的な下顎骨髄炎であれば腐骨は比較的大きな骨髄腔を有する骨体部から下顎枝部に限定されることが多い。自験例は、腐骨形成が右側下顎大臼歯部の骨体部から下顎枝全域および下顎頭頂部に至る稀な症例であった。骨髄炎が下顎頭に至った原因として、血液透析によるROD、アミロイド沈着、脳梗塞後のADLの低下や高齢など多くの基礎疾患と1回目炎症時が頬部蜂巣織炎を呈し、咬筋部膿瘍が下顎枝外側面の上方に波及し、下顎

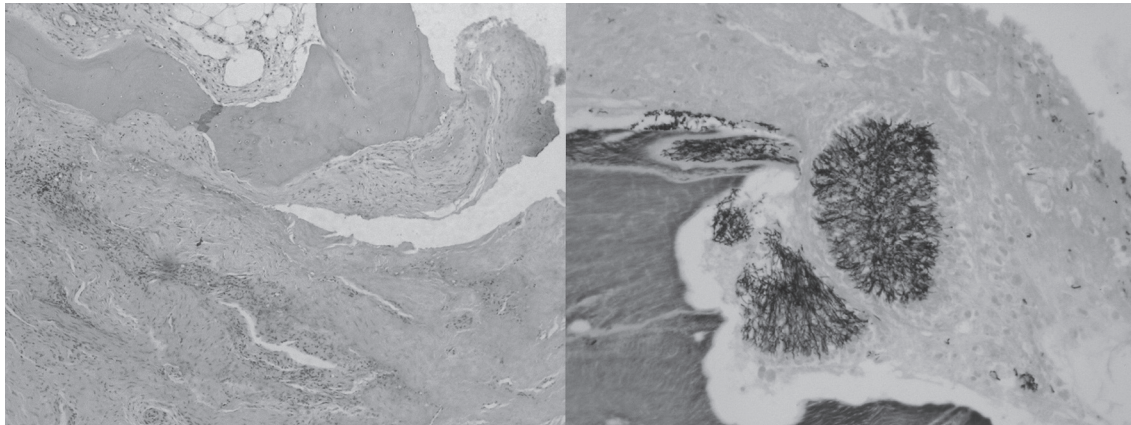


図 10. 3 回目入院時骨髄搔爬時摘出物病理所見 左：下顎頭は壊死性骨変化と線維性組織 右：放線菌塊

関節に至ったことによるのではと考えている。本症例は、免疫能低下を起す多数の疾患に通常の口腔常在菌感染による下顎骨骨髓炎が複数回の外科的消炎手術と重なり、放線菌との混合感染が起きたために炎症の遷延、拡大が起こり、難治性となったものと考えられた。

結 語

今回、下顎大白歯部根尖部病巣から下顎頭に至る放線菌性下顎骨骨髓炎を発症した血液透析患者の外科的治療を経験したので文献的考察を加え報告した。

文 献

- 1) 高橋佳子, 岡田一義, 羽木千尋, 青木京子, 大西禎彦: 長期血液透析患者に合併した化膿性骨髓炎の1例. 臨床透析 19 (11): 101-104, 2003.
- 2) Miller M., Haddad A.J.: Cervicofacial actinomycosis. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod 85: 496-508, 1998.
- 3) 常業信雄: 放線菌と顎部放線菌症. 歯界展望 28, 医師業出版(東京): 665-675, 2003.
- 4) 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: 1879-1888, 1983.
- 5) 長島弘征, 浅田洗一, 山本英雄, 中山礼子, 山口健一, 中川洋一, 石橋克禮: 放線菌感染が疑われた下顎骨骨髓炎の2例. 歯薬療法 25 (2): 47-52, 2006.
- 6) 高久 暹, 森 一将, 佐野次夫, 栗田ゆかり, 篠田智生, 嶋田 淳: 放線菌性下顎骨骨髓炎の1例. 日口診誌 18 (1): 106-109, 2005.
- 7) Bartkowski S.B., Zapala J., Heczko P., Szuta M.: Actinomycotic osteomyelitis of the mandible; review of 15 cases. J Cranio-maxillofaci Surg 26:63-67, 1998.
- 8) Leonard A., Comty C.M., Shapiro F.L., Raiji L.: Osteomyelitis in hemodialysis patients. Ann Int Med 78:651-658, 1973.
- 9) 又賀 泉, 鈴木正司: 透析患者の歯科的諸問題. 日本透析医学会雑誌 17 (3): 400-406, 2002.
(平成 23. 12. 19 受付, 平成 24. 3. 8 受理)