

A Case of Chronic Sclerosing Osteomyelitis of the Mandible with Severe Trismus

Masayasu HIRASE, Hiromasa TAKAHASHI, Taishi OHTANI,
Masao TAKAOKA, Ryosuke KITA, George UMEMOTO,
Mika SETO, Toshihiro KIKUTA

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

Abstract : We herein report a case of chronic sclerosing osteomyelitis of the mandible with severe trismus. A 28-year-old male visited our clinic complaining of difficulty to eating and severe trismus. An inflammatory reaction was obtained from a blood test. We suspected that the patient had mandibular osteomyelitis. The antimicrobial therapy was unsuccessful. The presence of other diseases such as a tumor, tetanus, TMJ, etc., were ruled out by various examinations.

We tried to perform forced opening under intravenous sedation. We succeeded in opening his mouth 22 mm. Under general anesthesia, we separated the right medial pterygoid muscle and right masseter muscle from the mandible, and performed curettage of the mandible with a mandibular outer cortex ostectomy. The patient had a good post-surgical course.

Based on the patient's clinical course and pathological findings, the definitive diagnosis was chronic sclerosing osteomyelitis of the mandible.

His prognosis has been good without any signs of recurrence after the operation.

Key words : Chronic sclerosing osteomyelitis, Mandible, Medial pterygoid muscle, Trismus

重度の開口障害を伴った慢性硬化性下顎骨骨髓炎の1例

平瀬 正康, 高橋 宏昌, 大谷 泰志,
高岡 昌男, 喜多 涼介, 梅本 丈二,
瀬戸 美夏, 喜久田利弘

福岡大学医学部歯科口腔外科学講座

要旨 : 重度開口障害を伴う慢性硬化性骨髄炎の1例を報告する。28歳の男性は重度開口障害による摂食困難を主訴に、当院を受診した。血液検査で炎症反応を認めた。我々は下顎骨骨髄炎を疑った。しかし、抗菌薬療法は奏功しなかった。腫瘍、破傷風、顎関節症など、その他の疾患も種々の検査で否定された。我々は静脈内鎮静法下での強制開口を行った。22mm開口可能であった。全身麻酔下での下顎骨から右内側翼突筋と咬筋の剥離、下顎骨搔把術と下顎骨外側皮質骨除去術を行った。術後の経過は良好であった。臨床経過と病理学的所見で慢性硬化性骨髄炎と診断した。術後の再発はなく、経過良好である。

キーワード : 慢性硬化性骨髄炎, 下顎骨, 内側翼突筋, 開口障害

緒 言

開口障害の原因には、炎症性、腫瘍性、外傷、神経性、顎関節症、心因性などが挙げられる¹⁾。慢性硬化性骨髄炎は種々の程度の腫脹や開口障害などを伴う炎症性疾患であるが、局所の細菌感染巣に対する周囲の骨硬化反応が生じている場合や、原因不明の骨髄炎である場合などがあり、難治性の病変と言われている^{2,3,4)}。

今回、重度開口障害の原因特定に苦慮し、治療に難渋した慢性硬化性下顎骨骨髄炎の症例を経験したので若干の考察を加え報告する。

症例

患者：28歳、男性。

初診：2012年1月。

主訴：口が開かない。

現病歴：2011年10月、近歯科にて右下顎8番抜歯術を施行された。2011年12月初旬から右顎関節部疼痛と開口障害を自覚。近歯科を受診し、顎関節症と診断され、開口訓練を施行されるも改善しなかった。開口障害は経日的に増強し、右舌の知覚障害も出現した。2012年1月初旬、開口障害のため摂食困難となり、当院救急外来を受診した。

既往歴：アトピー性皮膚炎、喘息。

家族歴：特記事項なし

現症：

全身所見：体温は37.7℃。体格は中等度。全身の皮膚にアトピー性皮膚炎症状があった。

口腔外所見：顔貌は左右対象で、頸部リンパ節の腫大、圧痛などは認めなかった。最大開口量は2.5mmであった。下顎右方運動は数mm可能であったが、下顎左方運動や下顎前方運動は不可能であった(図1)。右下唇、



図1 初診時口腔外写真
顔貌の左右差はなく、開口量は2.5mmであった。



図2 初診時パノラマX線写真
右側下顎8番の抜歯後所見は認めるが、その他の異常所見は認めなかった。

右オトガイ部、右舌前方2/3の知覚鈍麻を認めた。
臨床検査所見：WBC11.1千/ μ l, CRP4.3mg/dlであった。
パノラマX線所見：右下顎8番の抜歯後所見は認めるが、その他の異常所見は認めなかった(図2)。

CT検査所見：骨硬化を疑わせる右下顎骨骨髄のCT値上昇を認めたが、骨破壊像や膿瘍形成を疑う所見、化膿性顎関節炎を示す所見はなかった。右咀嚼筋群、特に右内側翼突筋の腫大を認めた(図3)。

MRI検査所見：T1強調画像で右下顎骨骨髄は軽度低信号を示しており、右咀嚼筋群、特に右内側翼突筋の腫大を認めた。T2強調画像で、近傍の脂肪組織は筋組織より軽度高信号を示していた(図4)。

臨床診断：右下顎骨骨髄炎

処置および経過：経口摂食困難のため、即日入院となり、CTR4g+CLDM1.2g/dayの投与を開始した。同時に徒手による開口訓練を開始した。破傷風などの全身疾患を疑い、総合診療部に対診するも、四肢の強直性痙攣や反弓緊張はないなどの臨床所見から否定された。

第4病日になっても開口量に変化はなく、血液検査で炎症反応は改善しなかったため、抗菌薬をSBT/ABPC6g+ABPC4g/dayに変更した。また入院後より弛張熱が持続した。第5病日目に血液培養検査を行ったが陰性であった。

抗菌薬療法を継続するも、白血球数やCRPは改善しなかったため(図5)、筋性の開口障害の可能性を考え、第12病日目に静脈内鎮静法下での強制開口を実施した。その際、開口には非常に強い力を必要とした。方法は薄い木べらを1枚ずつ挿入して7~8mm程度開口させた後、ハイステル開口器と万能開口器を用いて行った。強制開口距離は22mmであった(図6A)。右下顎8番部舌側歯肉から右軟口蓋、口蓋垂にかけて腫



図 3A

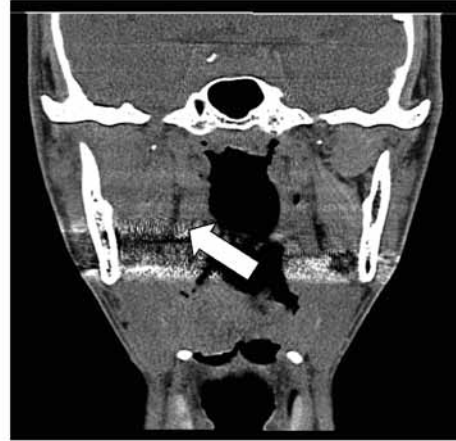


図 3B

図 3 初診時 CT 画像

- A: 水平断では、骨硬化を疑わせる下顎骨骨髄の CT 値上昇があった。(矢印)
B: 冠状断では、右側内側翼突筋の腫大を認めた。(矢印)

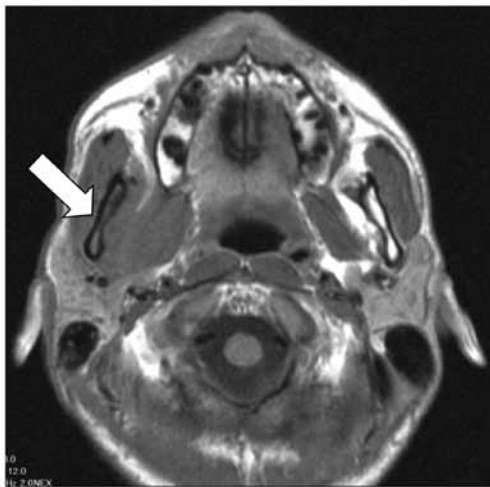


図 4A

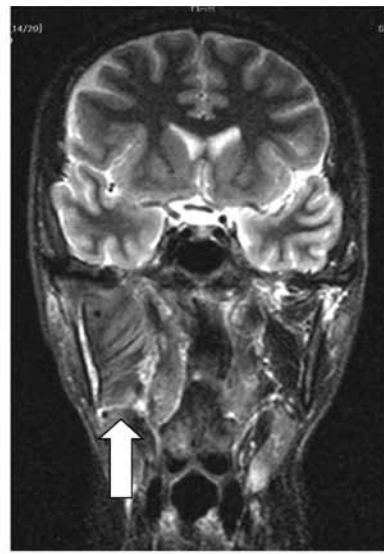


図 4B

図 4 初診時 MRI 画像

- A: 水平断 T1 強調画像では、右側下顎骨骨髄は軽度低信号を示していた。(矢印)
B: 冠状断 T2 強調画像では、右側咀嚼筋群、特に右側内側翼突筋の腫大を認めた。(矢印)
近傍の脂肪組織は筋組織より軽度高信号を示していた。

脹、発赤がみられた。触診には右内側翼突筋部は弾性硬であり、波動は触れなかった (図 6B)。

筋生検が必要と考え、第 15 病日目に全身麻酔下に右内側翼突筋生検、右下顎骨搔把術、右下顎骨外側皮質骨除去術を施行した。

手術は右咬筋を咬筋粗面より全て剥離した後、右内側

翼突筋も翼突筋粗面より全て剥離した。内側翼突筋は病的に硬化しており、剥離困難であった。その後、右下顎骨外側皮質骨を除去し、右下顎骨搔把を行った。右下顎骨骨髄からの出血はほとんどなく、腐敗臭や膿汁の貯留も認めなかった (図 7A, 7B)。術中最大開口距離は 40mm であった。

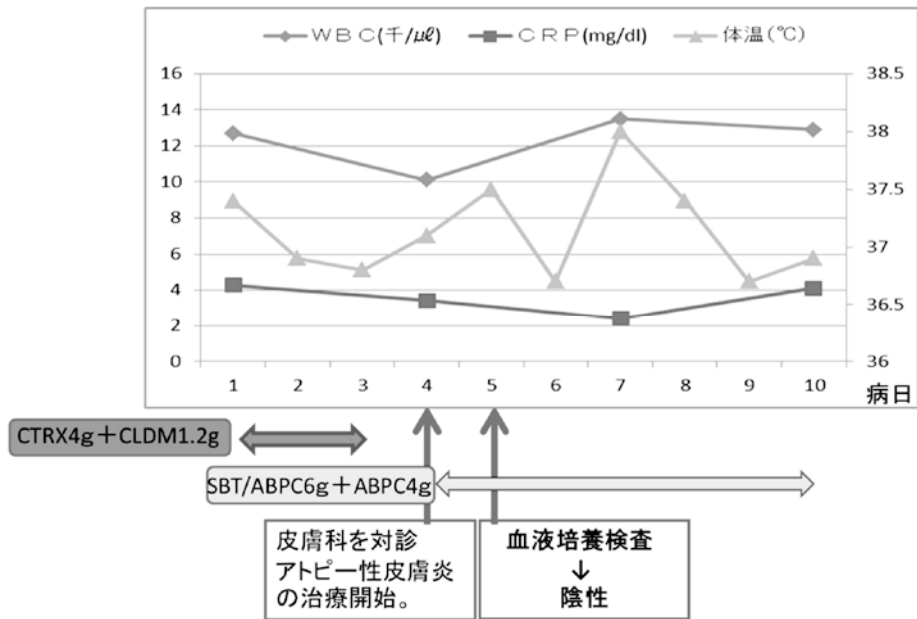


図5 入院中の臨床経過および処置内容



図 6A

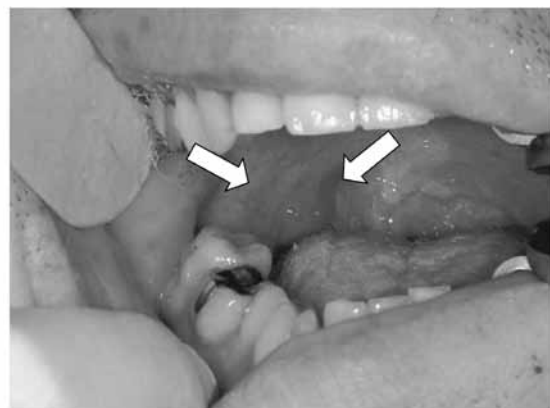


図 6B

図 6 静脈内鎮静法下での強制開口時の術中写真

A: ハイステル開口器と万能開口器を用いて開口させた。強制開口距離は22mmであった。

B: 右側下顎8番部舌側歯肉から右側軟口蓋、口蓋垂にかけて腫脹、発赤がみられた。(矢印)

術後、送気式開口器による開口訓練を頻回に行った。その後、血液検査で炎症所見は消失し、顎下部創の上皮化良好のため、術後42日目に退院となった。自力開口距離は28mmであった。

病理組織学的所見：下顎骨皮質骨は一部、骨梁の増生を認める非特異的な慢性骨髓炎の所見であった。内側翼突筋は慢性の炎症性浸潤物を伴った線維性の肉芽組織であった(図8A, 8B)。

病理組織学的診断：慢性骨髓炎

細菌学的所見：搔爬した骨髓の細菌培養検査を行ったが、起炎菌は同定されなかった。ノカルジアや抗酸菌などの弱毒菌を疑い、長期培養検査を行ったが陰性で

あった。

考 察

開口障害を呈する原因には顎関節症や顎関節強直症など顎関節に由来するものと、破傷風や咀嚼筋腱膜過形成症、筋突起過形成症、側咽頭部蜂窩織炎などの炎症性、腫瘍性、骨格性の顎関節外に由来するものが考えられる¹⁾。

本症例では、初診時の病歴、臨床所見、採血データなどから抜歯を契機とした下顎骨骨髓炎が咀嚼筋群に波及した炎症性開口障害と診断した。しかし、通常の抗菌薬



図 7A

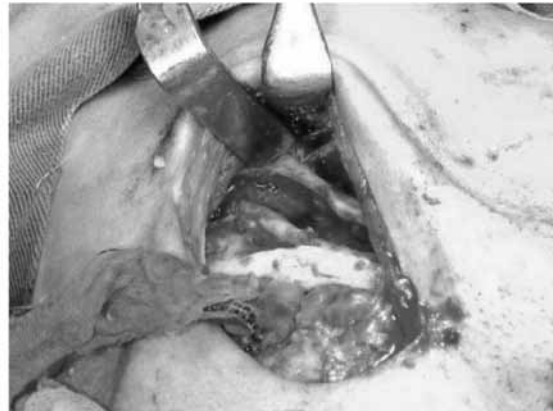


図 7B

図7 全身麻酔下の術中写真

A: 内側翼突筋は病的に硬化しており, 剥離困難であった. その後, 右側下顎骨外側皮質骨を除去した.
B: 右側下顎骨搔把時, 右側下顎骨骨髓からの出血はほとんどなく, 腐敗臭や膿汁の貯留も認めなかった.

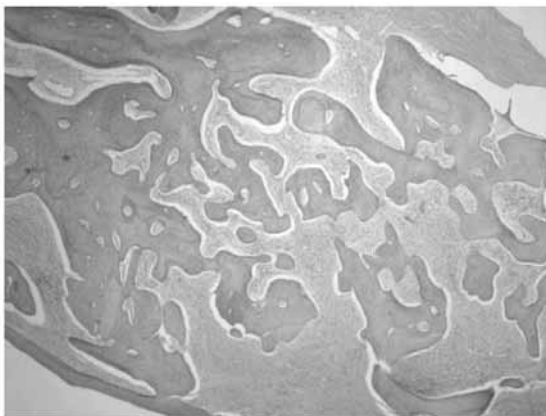


図 8A



図 8B

図8 病理組織像

A: 右下顎骨外側皮質骨 (×40) B: 内側翼突筋 (×100)

下顎骨皮質骨は一部, 骨梁の増生を認める, 非特異的な慢性骨髄炎の所見であった. 内側翼突筋は慢性の炎症性浸潤物を伴った線維性の肉芽組織であった.

療法が奏功せず, 他の器質的疾患が疑われた. 顎関節由来疾患は画像所見から否定的で, 細菌性の破傷風も, 臨床症状から否定され⁵⁾. 咀嚼筋腱膜過形成症も Square mandible 様顔貌はなく, 内側翼突筋の腫大は片側性であることから否定された^{6,7)}. 筋突起過形成症や側咽頭部蜂窩織炎に関しては CT 所見や, MRI 所見から否定された. SAPHO 症候群の部分症状である無菌性骨炎が下顎骨に発症した可能性も検討したが, 掌蹠膿疱症, 膿疱性乾癬, 重度の痤瘡のいずれも伴っておらず, SAPHO 症候群の診断にはいたらなかった^{8,9)}.

その後も, 開口障害と血液検査での炎症反応改善がなかったため, 筋性や腫瘍性の病変を疑い, 静脈内鎮静法下での強制開口を試みた. 容易ではなかったが, 開口は

可能で右下顎8番内側を視診, 触診することができた. その臨床所見から右内側翼突筋部の腫瘍性病変や, 慢性の炎症性所見が疑われた. 自験例のように重度開口障害の患者に対して静脈内鎮静法を用いた強制開口を行った報告は, われわれの渉猟しうる限りなかった. 開口障害の原因が不明で, 抗菌薬療法や徒手による開口訓練で開口量が増加しない症例に対する手術前の検査として, 非常に有意義な臨床検査の1つと言えた.

次に内側翼突筋部の腫瘍性病変の可能性を考慮し, 全身麻酔下に右内側翼突筋生検, 右下顎骨搔把術を行った. 術前の画像診断で腫大していた右内側翼突筋は, 病的に硬化していて, 硬結を伴う瘢痕組織様であり腫瘍性病変は否定的であった. 病理所見でも内側翼突筋部の腫瘍性

病変は否定され、外側皮質骨は慢性骨髓炎の診断であった。骨髓細菌検査でも起炎菌を同定することはできなかった。

菌性感染に起因する下顎骨骨髓炎に継発した開口障害を呈する症例では通常、抗菌薬の投与と原因菌の処置により炎症症状が軽快し、開口障害も自ずと改善されることが多い。開口量が不十分であった場合も開口訓練により改善されることがほとんどである。改善されない場合、外科的消炎術や瘢痕除去、筋突起除去などの全身麻酔下での外科療法が適応となる場合がある^{14, 15, 16)}。

自験例では、結果的に右下顎8番抜歯を契機に下顎骨骨髓炎を惹起し、右下顎8番抜歯窩の舌側歯肉と骨膜の間隙を介して内側翼突筋へ波及し、慢性的な炎症性筋炎からの瘢痕拘縮による開口障害を引き起こした可能性が疑われた。臨床的に疼痛、腫脹などの炎症所見を示すが、排膿や膿瘍形成を認めず、抗菌薬療法は奏功せず、下顎骨内の骨髓炎所見や、病理所見での非特異的な慢性骨髓炎所見などから慢性硬化性骨髓炎と診断した。

慢性硬化性骨髓炎は慢性巣状硬化性骨髓炎とびまん性硬化性骨髓炎に分類されている^{10, 11)}。従来、これらの骨髓炎は全て細菌感染が原因であると考えられてきたが、近年これらの症例の中に原因の明らかでない疾患が混在していることが指摘されるようになってきた¹²⁾。これらの疾患は骨髓炎と比較して非常に難治性であるが、X線学的、病理組織学的には非特異的な慢性骨髓炎の像を呈するため、慢性骨髓炎との鑑別は困難な場合が多くしばしば混同されている¹²⁾。また、抗菌薬の単独使用は効果がないため、病変組織の除去と血行動態の改善を目的とした顎骨搔把術や皮質骨除去術等の外科療法がしばしば併用されている¹³⁾。

慢性硬化性骨髓炎の治療にステロイド剤の単独使用が症状の緩和に有効であるという報告もあるが、自験例では血液検査での炎症反応所見や弛張熱から細菌感染性病変の可能性を完全に否定することはできず、使用には至らなかった¹⁷⁾。

現在、術後約1年の現在まで再発所見は認めず、開口量は38mmと経過良好である。

結 語

今回われわれは重度の開口障害を伴った慢性硬化性下顎骨骨髓炎の症例を経験し、静脈内鎮静法下での強制開口および全身麻酔下での顎骨搔把術、皮質骨除去術にて良好な結果を得たので報告した。

引 用 文 献

1) 日本顎関節学会：顎関節症に関するガイドライン。日本

顎関節学会，東京 2001，2 頁。

- 2) 末井良和，山田信一：Synovitis, Acne, Pustulosis, Hyperostosis and Osteitis Syndrome (SAPHO 症候群) と下顎骨骨髓炎. 歯科放射線 42 (1): 33-45 2002.
- 3) 末井良和 (1996): 下顎骨のびまん性硬化性骨髓炎の病態に関する研究 広島大学歯学部歯科放射線学講座学位論文 (未公刊).
- 4) 浅井洗一：びまん性下顎骨骨髓炎に関する臨床的・病理学的研究：口病誌 45 (2): 334-363 1978.
- 5) 泉智沙子，竹山昌孝：外傷歴がなく開口障害で発症した破傷風例 CPK 測定の有用性：耳鼻咽喉科臨床誌 102: 31-34 2009.
- 6) 井垣勝詞，泉喜和子：開口障害の原因として咀嚼筋腱・腱膜過形成症が疑われた1例：J.Fukuoka Dent. Coll.35 (1): 11-16 2009.
- 7) 長縄憲亮，石井 興：咀嚼筋腱・腱膜過形成症が原因と考えられた開口障害の1例：愛院大歯誌 48 (4): 403-408 2010.
- 8) C.E.Huber, A.G.Judex, J.Freyschmidt: Sequential Combination Therapy Leading to Sustained Remission in a Patient with SAPHO Syndrome: Open Rheumatol J.3: 18-21 2009.
- 9) 山本哲嗣，山本知由：掌蹠膿疱症との関連が疑われた慢性下顎骨骨髓炎の1例：愛院大歯誌 48 (2): 93-98 2010.
- 10) 橋本紀三：顎・顎関節の病変；歯学生のための病理学口腔病理編（二階宏昌，岡邊治男編）. 医歯薬出版. 東京. 1995. 183-190 頁.
- 11) 秋吉正豊：下顎骨骨髓炎：口腔病理学Ⅱ（石川梧朗編）. 改訂版，末永書店，京都，1982，323-328 頁.
- 12) 末井良和，谷本啓二：びまん性硬化性骨髓炎の病態および他の慢性骨髓炎との鑑別：広大歯誌 27, 426-433 1995.
- 13) 黒岩裕一郎，松浦宏昭，阿部 厚ら：慢性硬化性下顎骨骨髓炎の臨床的検討 外側皮質骨除去術および動注療法併用例について：日口外誌 52: 322-325 2006.
- 14) 松下嘉泰，林 常敏：筋突起切除が有効であった瘢痕性開口障害の1例：日口診誌 24 (2): 211-216 2011.
- 15) 寺田典子，周田和華恵：下顎骨骨髓炎から継発した咬筋の瘢痕拘縮により長期に重度開口障害をきたした1例：日口外誌 54 (1): 8-11 2008.
- 16) 原 信吾，新谷 悟：咬筋の瘢痕性変化による重度開口障害の1例：日口外誌 49: 466-469 2003.
- 17) Jacobsson, S.: Diffuse sclerosing osteomyelitis of the mandible. Int. J. Oral Surg. 13, 363-385 1984.

(平成 25. 4. 1 受付，平成 25. 10. 10 受理)