

—症例報告—

顎放線菌症の治療中に DIC および上部消化管出血を併発した一例

唐木田 りえ, 越沼 伸也, 村井 崇人,
鳴神 伊織, 岡村 武志, 山元 貴弘, 山本 学
滋賀医科大学医学部歯科口腔外科学講座

抄録: 顎放線菌症の治療中に播種性血管内凝固症候群(Disseminated Intravascular Coagulation : DIC)および上部消化管出血を併発した症例を報告する。患者は 89 歳女性。2021 年 10 月中旬に左側下顎 8 部歯肉の排膿および左側頬部腫脹のため当科を紹介受診した。初診時、著しい開口障害と左側頬部腫脹および疼痛を認め、左側下顎 8 番智歯周囲炎および左側頬部蜂窩織炎と診断した。その後、切開排膿時に採取した膿の細菌検査にて *Actinomyces meyeri* およびその菌塊が検出されたため、顎放線菌症と最終診断した。処置および経過: 初診日に入院し、入院 3 日目の血液検査にて血小板数の低値および FDP, アンチトロンビン, TAT の高値を認め、日本血栓止血学会の定める診断基準より感染症型 DIC と診断した。入院 4 日目に口腔外切開排膿術およびメロペネム投与を開始し、入院 11 日目に感染症型 DIC からの離脱を認めた。また入院 9 日目より顎放線菌症に対しスルバシリン 3.0g/日を 15 日間静脈内投与し左側頬部腫脹の軽減を認めていたが、入院 18 日目に吐血と著しい貧血を認め内視鏡検査にて上部消化管出血と診断しクリッピングおよび焼灼止血を行い止血した。その後全身状態および開口障害と左側頬部腫脹の改善を認めたため入院 43 日目に軽快退院となった。

キーワード: 顎放線菌症, 播種性血管内凝固異常症, 上部消化管出血

緒言

顎放線菌症は、開口障害や板状硬結といった特有の臨床症状を引き起こす特異性炎の一種である。また播種性血管内凝固症候群は、微小血管内に血栓が多発し、それに伴う線溶亢進と凝固障害により出血傾向を呈する病態を指す。今回、われわれは顎放線菌症の治療中に感染症型 DIC および上部消化管出血を併発した 1 例を経験したので報告する。

症例

患者: 89 歳, 女性。

初診: 2021 年 10 月。

主訴: 左側頬部腫脹および疼痛。

既往歴: 脳静脈血栓症, びらん性胃炎, 高血圧症, 骨粗鬆症, アルツハイマー型認知症, B 型慢性肝炎, 大動脈弁狭窄症, 狭心症, 慢性腎不全。

内服薬: バイアスピリン, 酸化マグネシウム, クエン酸第一鉄 Na, ボノプラザンフマル酸塩, アトルバスタチン Ca 水和物, アムロジピンベシル酸塩。

家族歴: 特記事項なし。

現病歴: 2021 年 9 月某日に左側頬部の腫脹と疼痛を自覚し、他病院歯科口腔外科を受診し抗菌薬及び鎮

痛薬処方され経過観察をしていたが、10 月中旬に左側頬部腫脹の腫大および疼痛の増悪を認めたため、かかりつけ内科受診時に相談し、精査目的に当科紹介初診となった。

現症:

全身状態: 体温 36.8°C。その他バイタルサインに異常所見は認めなかった。ECOG Performance Status は 3 であった。食事は前日夕にゼリーを数口摂取して以降食事摂取を認めなかった。

口腔外所見: 左側頬部から下顎にかけて 70×85 mm の発赤および熱感を伴う腫脹を認め(写真 1)、波動を触知し、硬結は認めなかった。

口腔内所見: 初診時開口量は 5 mm を認めた。また、左側下顎 8 番周囲歯肉の発赤、腫脹および頬側歯頸部からの排膿を認めた。

画像所見:

パノラマ X 線写真: 左側下顎 8 番近心および遠心歯槽骨に透過像(→)を認めた(写真 2)。

単純 CT 写真: 左側頬部から下顎下縁部にかけて軟部陰影(→)を認めた(写真 3, 4)。

単純 MRI 写真: 左側頬部から下顎下縁部にかけて境界明瞭、分葉状で内部やや不均一な T2 高信号領域(→)

を認めた（写真 5）。

血液検査所見：白血球数 183,00/ μ L、CRP11.43 の上昇を認めた。その他血液検査の数値に異常所見は認めなかった。

初診時臨床所見：左側下顎 8 番智歯周囲炎を原因とする左頬部蜂窩織炎。

処置および経過：消炎および栄養管理目的に当科入院した。慢性腎不全の既往を考慮し蜂窩織炎に対し抗菌薬（クリンダマイシン 1200mg/日）投与を開始した。入院 3 日目の血液検査にて血小板数の低下、FDP、アンチトロンビン、TAT の高値を認め、日本血栓止血学会の定める DIC の診断基準（表 1）にて感染症型 DIC と診断し、アルブミン、メロペネム水和物、乾燥濃縮人アンチトロンビンⅢを投与開始した。

| 項目 | 感染症型 (5点以上) | 10/20 採血結果 | 点数 |
|----------------|-------------------|------------|----|
| 血小板数 | 120000< 0点 | 76000 | 2点 |
| | 80000< ≤120000 1点 | | |
| | 50000< ≤80000 2点 | | |
| | ≤50000 3点 | | |
| FDP | <10 0点 | 19.7 | 1点 |
| | 10≤ <20 1点 | | |
| | 20≤ <40 2点 | | |
| | 40≤ 3点 | | |
| フィブリノゲン | 150< 0点 | 319 | 0点 |
| | 100< ≤150 1点 | | |
| | ≤100 2点 | | |
| プロトロンビン時間比 | <1.25 0点 | 1.21 | 0点 |
| | 1.25≤ <1.67 1点 | | |
| | 1.67< 2点 | | |
| アンチトロンビン | 70< 0点 | 47 | 1点 |
| | ≤70 1点 | | |
| TAT, SFまたはF1+2 | 基準値上限の | 52.9 | 1点 |
| | 2倍未満 0点 | | |
| | 2倍以上 1点 | | |
| 肝不全 | なし 0点 | なし | 0点 |
| | あり +3点 | | |

表 1 日本血栓止血学会の診断基準（一部改変）^[4]

入院 4 日目に局所麻酔下に左側頬部から下顎下縁部の腫脹に対し口腔外切開排膿術を行った。触診しながら NO.15 メスにて切開し、膿瘍腔に到達後モスキートにて鈍的に剥離を進めると多量の膿の流出を認めた。創部にドレーン留置し縫合固定し手術終了した。採取した膿を細菌検査に提出した結果、*Actinomyces meyeri* およびその菌塊（写真 6）が検出されたため、顎放線菌症と最終診断した。

その後、顎放線菌症の診断を受け当院感染制御部の協力の元、抗菌薬変更した場合の利益が大きいと判断し腎機能を考慮した上で抗菌薬（スルバシリン 3.0 g/日）へと変更を行った。左側頬部腫脹の改善および疼痛の軽減を認めたが、開口量は 5 mm と術前と比較し改善を認めなかった。開口障害に伴い食事摂取不良を認めたため、ビーフリード輸液およびソルデム輸液に

て補液を継続した。

入院 19 日目に意識消失が生じ、血液検査にて RBC2.70 mg/dL、Hb7.3、Ht24.7%と著しい貧血の進行を認めた。入院 20 日目に上部消化管内視鏡検査を実施したところ、胃体上部大弯に軽度出血および血餅付着を認めた（写真 7）。開口量が 6 mm と少なく、経鼻内視鏡での検査であったため止血困難と判断し、同部の吸引およびトロンビン散布を実施した。同日深夜に吐血し、血液検査にて Hb5.3 と低値を認めたため RCC4 単位投与し、その後 Hb8.7 と軽度改善を認めた。その後開口量が 16 mm と上昇を認めたため、入院 25 日目に再度上部消化管内視鏡検査を実施し、胃体中部大弯から穹隆部大弯にかけて軽度出血を認めたため、クリッピングおよび焼灼止血を施行した。

その後は開口量も 20 mm と手術直後より改善し、左側頬部腫脹も改善を認めたため、入院 43 日目に軽快退院となった。



写真 1 初診時顔貌写真

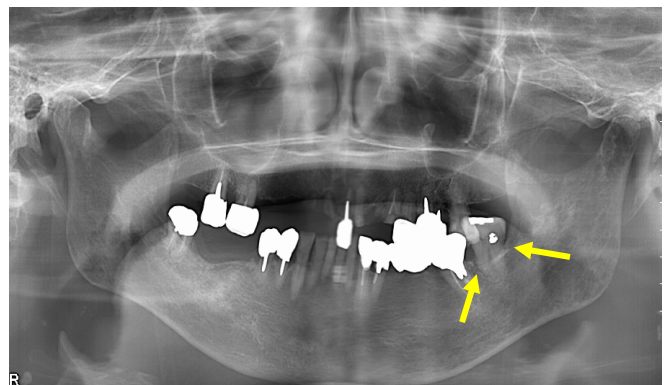


写真 2 初診時パノラマ写真

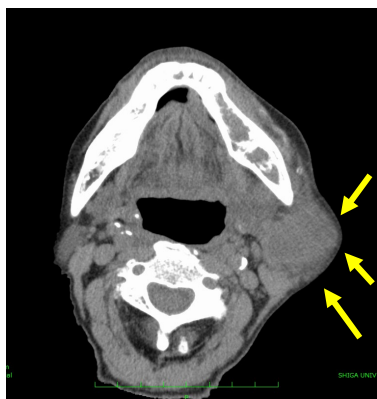


写真 3 単純 CT 写真 (水平断)

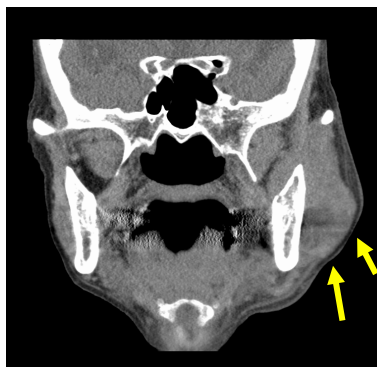


写真 4 単純 CT 写真 (前頭断)

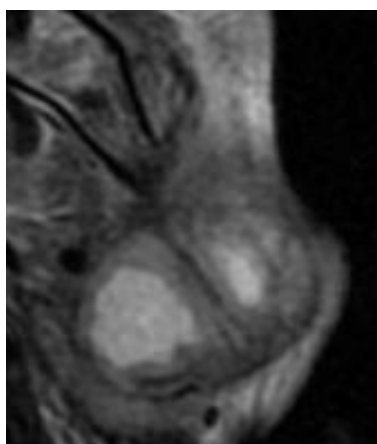


写真 5 MRI 写真 T2 強調画像 (水平断)

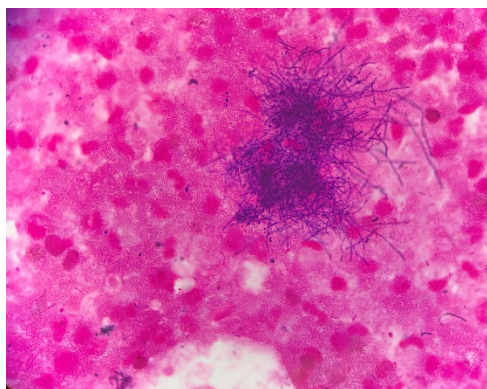


写真 6 *Actinomyces meyeri* およびその菌塊

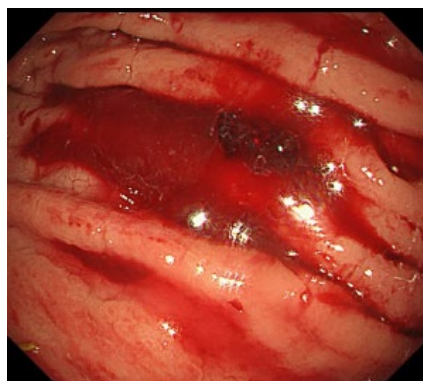


写真 7 内視鏡検査にて確認した胃出血部

考察

顎放線菌症は, *Actinomyces israelii* 等 *Actinomyces* 属を原因菌とする特異性炎で, 臨床症状として板状硬結, 多発性膿瘍形成, 開口障害などを呈する. 近年は抗菌薬の発達に伴い典型的な症例が少なく, また診断困難な症例も少なくない. 治療法としては, ペニシリン系, セフェム系, マクロライド系, テトラサイクリン系の抗菌薬投与が有効とされており^[1], また放線菌症は顎口腔内に好発し, 55~65%以上を占めるとされている.^[2] 頭頸部領域においては, 板状硬結を生じることで抗菌薬の組織移行性が低下するため一般的に顎放線菌症に対する抗菌薬の投与期間は他の感染症と比較し長期間となることが多いとされている^[3]. 今回, 顎放線菌症に加え治療中に DIC および上部消化管出血を発症するという特異的な経過をたどっており, 本症例と同様および類似した症例報告はなく, 極めて稀だと考える.

DIC および上部消化管出血が生じる機序は, 朝倉^[4]が示すように, まず炎症や外傷, 悪性疾患といった基礎疾患の存在下に全身的に持続する著しい凝固活性が生じ, 微小血栓が多発することで DIC が生じる. さらに, DIC 発症に伴い消費性凝固障害, 線溶活性が生じ, 出血症状として上部消化管出血を生じると考える.

また高齢者の上部消化管出血のリスク因子に関して山尾ら^[5]によると ADL 低下, 低栄養状態, 感染症, DIC などが上部消化管出血発現のリスク要因となるとされている.

本症例では, 慢性腎不全の既往を認めており, 入院時の eGFR が 24.1 であったため, 腎機能を考慮し当初はクリンダマイシンを使用したが, 口腔外からの切開排膿術施行が入院 4 日目と処置が遅れたことや, 抗血小板薬の内服に加え, 高齢に伴う ADL の低下, 開口量低下を伴う開口障害 (表 2) およびそれに伴う低栄養状態 (表 3), 顎放線菌症および DIC を認めたため, 上部消化管出血のリスクが極めて高く上部消化管出血につながったと考える.

| | 開口量 |
|----------|-------|
| 入院当日 | 5 mm |
| 入院 15 日目 | 7 mm |
| 入院 22 日目 | 10 mm |
| 入院 25 日目 | 16 mm |
| 入院 27 日目 | 17 mm |
| 入院 34 日目 | 21 mm |
| 入院 41 日目 | 27 mm |

表 2 開口量

| | 全粥刻み食 摂取量 |
|----------|--------------|
| 入院 5 日目 | 4 割 |
| 入院 18 日目 | 8 割 |
| 入院 26 日目 | 10 割 |
| 入院 33 日目 | 10 割 |

表 3 食事摂取量

また今回、抗菌薬による顎放線菌症の治療を集中的に行うとともに、DIC の治療としてノイアートおよびメロペネム、アンチトロンビン製剤を投与した。これ

に加え、口腔外切開排膿術および頻回の創部洗浄、継続した開口訓練を行うことで改善を認めた。

以上のことから予備能力の少ない高齢者の場合には、食事摂取量のモニタリングにより栄養管理を行うことや、口腔内などの局所状態に留まらず、血液検査やバイタルサインに注視し随時全身状態に目を向け、DIC 移行の可能性を考慮した入院管理を行うことが重要だと考える。

文献

- [1] 石原博史, 鈴木克也, 浜本宜興, 河野正己, 新垣普, 中島民雄, 小宮隆瑞, 福島祥紘. 顎放線菌症 36 例の臨床的検討. 新潟歯会誌, 21:141-149, 1991
- [2] 五百蔵 一男, 大峰 隆浩, 小林 ちづ子, 松本 めぐみ, 久木元 喜昭, 柴原 孝彦, 福武 公雄, 高橋 隆一. 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. 国立医療学会雑誌, 42:861-865, 1988
- [3] 長谷川利聡, 奥井達雄, 伊原木聰一郎, 國定勇希, 竜門省二, 佐々木朗. 顎放線菌症治療中に発症した急性出血性直腸潰瘍の 1 例. 日本口腔外科学会, 65:105-109, 2019
- [4] 朝倉 英策. 播種性血管内凝固 (DIC) の診断と治療. 日本内科学会雑誌, 109:1378-1385, 2020
- [5] 山尾 純一, 松本 昌美, 松村 吉庸, 菊池 英亮, 中山 雅樹, 西村 公男, 植村 正人, 久保 良一, 松村 雅彦, 福井 博, 森田 倫史, 辻井 正. 高齢層における上部消化管出血とその背景因子の検討. 日消内視鏡会誌, 31:2106-2112, 1989

A case of the actinomycosis of the jaw complicated with disseminated intravascular coagulation (DIC) accompanied by intestinal hemorrhage

Rie Karakida, Shinya Koshinuma, Takato Murai,
Iori Narukami, Takeshi Okamura, Takahiro Yamamoto, Gaku Yamamoto

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Shiga University of Medical Science,
Japan

Abstract : Actinomycosis of the jaw, which is slightly rare disease at the oral and maxillofacial region, progress to the disseminated intravascular coagulation irregularly. Here, we report a rare case of the actinomycosis of the jaw complicated with disseminated intravascular coagulation (DIC) accompanied by intestinal hemorrhage. The patient was an 89-years-old woman who had the swelling of the left buccal region and lower-left

mandibular gingiva. Above the findings of imaging and bacteriological examination, diagnosis of the actinomycosis of the jaw was made. During antibacterial treatment, her general condition deteriorated rapidly, and the blood test results met the diagnostic criteria of DIC. Moreover, the hematemesis and significant anemia developed during the intensive care, and endoscopy findings showed the hemorrhage at the greater curvature of stomach. Watchful general care should be needed during treatment actinomycosis of the jaw, in particular, affect the elderly.

Keywords: jaw actinomycosis, disseminated intravascular coagulation (DIC), upper gastrointestinal hemorrhage