

血液カタラーゼ欠陥に因る歯性進行性 壞疽性顎炎に就いて

第二編 臨床的経過に就いて

岡山大学医学部耳鼻咽喉科教室（主任 高原教授）

宮 本 久 雄

〔昭和27年3月10日受稿〕

緒 言

私共が中山家の4症例に遭遇したのは昭和21年の暮である。以来約3年間に亘り此等の症例の治療を行うと同時に、次々と現われる症状を注意深く観察して来た。決して血液に根本的な治療が施された訳ではないが、永らく悩まされた頑固な口腔疾患が最近1年近くは各症例共一頓挫を示し、大いに愁眉を開いている次第である。依つて本編に於ては逐次各症例の辿った臨床的経過を紹介するが、本症患は臨床症状の方面からも極めて特異にして且興味深い点が指摘される。

症 例

第1例 T.N. 満11才（初診昭和21年12月現在）女。

主訴：右上顎骨々疽。

既往症：身心共に発育順調にして特記すべき疾患なし。歯牙の萌生は正常。

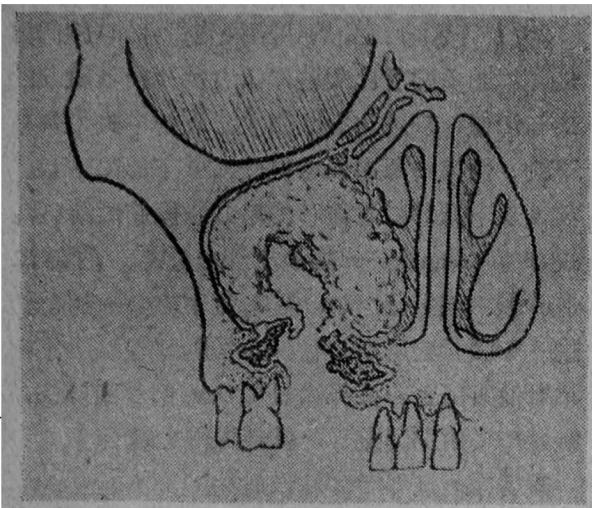
家族歴：考按の項に一括記述する。

現症：昭和19年（9才）秋頃より $\text{3}\frac{1}{2}$ の歯間乳頭部に汚穢な小潰瘍が形成され、鈍痛を訴えた。某歯科医の治療を受け一時軽快したが、間もなく再発し、歯齦縁の潰瘍は徐々に拡大し、口内に腐敗臭を放つ様になつた。其後も歯齦の荒廃は次第に激しくなり、歯槽を崩壊し、其為め歯頸は長く露出し甚しく弛緩動搖する様になつた。以上が約1年間の経過であるが、幸い $\text{3}\frac{1}{2}$ の抜去により病巣は治癒した。

翌年夏より $5\frac{1}{4}$ の歯齦が全く同様の病変に襲われた。然し自覚症が少ないので放置していた所、翌昭和21年夏には相等進行し、 $5\frac{1}{4}$ の動搖愈々甚しく、 $5\frac{1}{4}$ は9月になつて自然に脱落した。其頃より $4\frac{1}{2}$ の疼痛は強い上顎骨痛と変り、同側の顔面は腫脹し、犬歯窩に圧痛を訴える様になつた。体温は 37°C 前後であるが時に悪寒と共に 38°C 近く発熱する。又頭痛は殊に患側に強く、精神陰鬱にして睡眠食慾障害され、10月某歯科医で $4\frac{1}{2}$ の拔歯を受けた所、翌日拔歯創腔より小指頭大の腐骨を排出し、其部より上顎洞え瘻孔を形成した。其頃より病勢は急激に悪化し、骨崩壊は上顎洞より鼻腔側壁を破り鼻腔に及び、上顎洞並びに右鼻腔は腫瘍状肉芽及び汚穢な壞死物質で充満し、膿性分泌物は漸次増量し、強い腐敗臭を放つ様になつた。12月に入つてからは 38°C を越える弛張熱あり、右頬は浮腫状に腫れ、自発痛、頭重感增强す。此間多くの医家の門を叩いたが経過好転せず、遂に思い立つて12月22日私達の外来を訪うた。

局所々見：1)、右鼻腔は腫瘍状肉芽で充満され、極めて臭い膿性分泌を多量に流出し、恰も進行性鼻壞疽を疑わす様な所見であった。此の肉芽の切片を作つたが悪性腫瘍の像は認められなかつた。下鼻道側壁を消息すると該部の骨は欠損し深く上顎洞内に挿入し得る。左鼻腔は正常。（附図1）2). $5\frac{1}{4}$ の部に於て歯槽骨及び上顎骨は崩壊し、直徑 $1\frac{1}{2}\text{cm}$ 程度の瘻孔より窺うと、上顎洞内は肉芽及び濃汁を湛える。咽頭に所見なし。

(附図 1)



3). 両側顎下腺は拇指頭大に腫脹し、右側には圧痛強し。

一般所見：体格栄養稍不良。体温 37.5°C。脈搏 85。顔面に中等度の貧血あり。胸腹部臓器に異常を認めない。

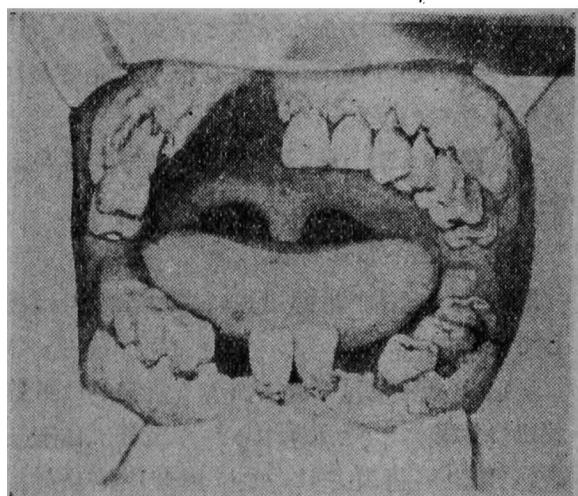
25/XI 入院。赤沈、1時間 32, 2時間 54, 赤血球 345 万。白血球 9400, 血色素 65% (ザーリー)。出血及び凝固時間略正常。血液梅毒反応陰性。血液像 (附表 1)。潰瘍面より検菌すると、大半は連球菌で其他葡萄球菌、双球菌、紡錘状桿菌、スピロヘータ等を認めた。糞便に鉤虫卵を認む。潜血反応陰性。尿所見なし。

26/XI デンケル氏術式に従つて病巣部切除手術施行：型の如く粘膜切開を加え剥離を進めた所、上顎顔面壁は歯槽より犬歯窩にかけて欠損し、その周囲の骨面は灰白色汚穢な壞死物質で掩わる。洞内は肉芽を以て充され、之と剥離除去すると、鼻腔側骨壁は欠損し、下甲介は崩壊し、肉芽は腫瘍状に鼻腔に充满す。梨子状孔縁を鑿除すると、壞疽は鼻腔底より更に鼻中隔の下部に及んでいた。此等の病変部を悉く鉗除し術を終つた。篩骨蜂窩は正常。術後オキンドールで洗滌した所、術野は瞬く間に黒褐色となつた。之を繰返す事によつてオキンドールで黒変するのは創面より流出して来る血液である事、及び其際気泡の発生しない事を知つた。当時の状況に就いては第一編に詳しく述べた。

術後経過順調で頬部の腫脹は次第に去り、20日後には鼻汁も減り口臭も無くなつた。そ

れから 1 週程して 5|1 及び 7|2 の歯齦縁に再び潰瘍を形成し、続いて上顎骨は又 3|1 の上部に於て骨疽を作つた。依つて 3|2 を抜歯し病巣を歯槽突起と共に鑿除した。一時は之で治るかに思われたが 2 月初め又々上顎骨の瘻孔の周縁は壞疽となつた (附図 II)。依つて

(附図 II)



1|1 を抜き腐骨を除去し瘻孔部は開放的に処置した。其後経過良好で 3 月に一応退院した。

暫くは大した異変もなかつたが、同年末より 5|4 の歯齦は潰瘍により段々崩壊されて來た。翌昭和 23 年 1 月抜歯したが其跡が再び潰瘍となり、疼痛激しく、仲々治癒する様子もなく寧ろ拡大の傾向を示して來た。周章して再三創面を搔爬し、後リバノール液で洗滌し、ズルファミン剤を投与したが、殆んど効果なく、口腔底より更に舌根部へと壞疽は急速に進行して、一時はどうなる事かと危ぶまれた。之は恐らく膿汁が常に創腔内に溜まし汚染されている事が悪いのだろうと考え、早速頤下部に切開を加え病巣部への対孔を作り、之にゴム管を通じ、以來約 1 ヶ月に亘りリバノール液を以て根気よく持続洗滌を行つた。之が効果を齎した様で漸く進行を止める事が出来た。又同年 9 月 14 の歯齦の病変が悪化して來た。よつて今度は比較的早期に抜歯したが、其際挫滅された組織が間もなく潰瘍となり段々と下顎骨及び其周囲組織の崩壊を始めた。10 月中旬より急激に増悪し、頬部は著明な浮腫を起し自発痛加わり、一般状態

も可成り障礙されて來た。試みにペニシリンG 40万筋注を行つた所、之が卓効を示し數日後には頬の腫脹も全く去り、間もなく歯槽より腐骨を排出して完治した。

過去の経験から患者及び両親は患歯の口腔内に遺残する事を恐れ、以来希望により歯齦に病変の認められた歯牙は時を失せず次々と抜去し、現在では全く無歯となつてゐる。最近ではすつかり健康体となり、栄養發育共に良好となつて來た。

第2例 S.N. 満13才(初診21年12月現在)男。

主訴：左下顎骨々疽

既往症：10才夏腎臓炎に罹つた以外は概して健康。

現症：転齒期(7才)頃より散発的に彼処此處の歯齦縁に潰瘍が作られ、次第に歯齦及び歯槽骨が消耗され、為に歯牙は弛緩動搖し、間もなく自然に脱落していった。此間鈍齒痛を訴える他特別自覺症はなかつた。

昭和20年(12才)秋、[3]の動搖甚しいため某歯科医で拔歯を受けた所、其後創腔は深い潰瘍となり、惡臭を放ち、治療を加えても却つて壞疽は益々拡大し、又左顎下部より頬部にかけて次第に腫脹し、持続的鈍痛及び圧痛あり、微熱並びに全身違和を招來し、何等治療の効なきを以て、翌21年1月当院外科を訪うた。

局所々見：顎下部は正中線より左に偏し強く腫脹し、軽度の皮膚発赤あり、下顎骨は肥厚す。頸腺豌豆大に数個腫大し、硬固、多少圧痛あり、口腔底を見ると左下顎歯列は[7]を除き全部脱落し、[3]に相当する歯齦部に指頭を挿入し得る程度の深い潰瘍あり下顎骨中に侵入する。潰瘍底は汚穢黃褐色を呈し、腐敗臭強く、露出した骨組織を消息し得る。病変部より組織切片を作り検すると、皮下結合織は線維性肉芽組織に変じ、所々に細胞浸潤あり。腫瘍の像は認められない。

一般所見：体格栄養中等、脉搏整頻、結膜軽度の貧血あり、赤血球505万、白血球11200、血色素量70%，血液像(附表1)、出血及び

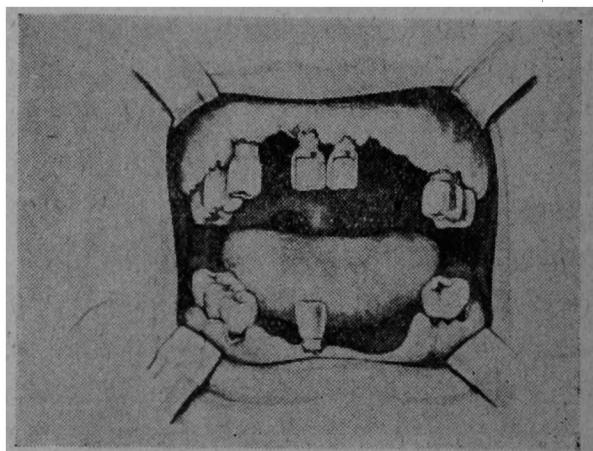
凝固時間正常、便中に鉤虫卵を証明す。

23/I 下顎骨部分的切除術施行：口腔内潰瘍底にある腐骨は銳匙により出来得る限り除去した後、口腔内を閉鎖す。頤部中央で口唇下約2横指の部に刀を真直に頤下部に下し、其より下顎骨に並行して略二腹顎筋に沿い、長さ3×5cm L型の皮切を置く。内部に進み頤下腺を摘出し、更に舌下腺の一部を切除。下顎骨を露出し骨膜を切開剝離し、骨病巣を健康部との境界に於て3cm巾切断除去、銀線にて索引固定し、軟部組織を縫合す。

術後経過良好で2月末退院。

再び4月口腔底に潰瘍形成され、腐敗臭増強したが、約1カ月の治療で創は癒つた。然し其後下顎骨の切断端は癒着しなかつたので此の欠損部は患者の肋骨を移植し、骨縫合に成功を収めた。

附図 III (第2例)



私が此患者を知つたのは丁度其頃で、即ち昭和21年の暮である。当時の口腔内所見は附図IIIの如くである。

之から約半年後、[6]の拔歯を行つたが、其跡から壞疽が始まり、次第に上顎洞内に侵入し、頬は腫れ疼痛が加わつて來た。よつて第1例と同様デンケル氏術式に従つて病巣を切除する事によつて幸い大事とならず間もなく治癒せしめ得た。

其後も歯齦の病変が悪化する毎に患歯は次々と拔歯し、歯牙を悉く抜去してからは長く異常なかつた。

昭和24年6月上旬右頬に瘤瘻が出来た。爪で搔いたゝめ之が化膿し、2,3日して同側

の顎下腺が腫大し鈍痛を訴える様になつた。よつて家庭に於て疼痛を我慢しつつ強くマッサージしたゝめ、翌日から急激に頸部の瀰漫性腫脹が始まり、夜半より浮腫状腫脹は愈々強度となり、自発痛強く、発熱 38.5°C となり、丁度ルドウイッヒ氏口峽炎様となり、次第に呼吸困難を訴え始めた。夜の明けるのを待つて早速来院し、直ちに気管切開術を施行し、引き続き右顎下部に大きく皮切を置き、病巣の開放と膿汁の排出を図った。予想に反し膿汁は少量であつたが悪臭が非常に強く、之を培養した所、溶連菌が大半を占めていた。ゴムドレーンを入れ術を終つたのであるが、其後毎日リバノール液を以て創腔を洗滌する一方ベニシリンG 100万単位の筋注を続けた。経過順調にして7月上旬には完全に治つた。

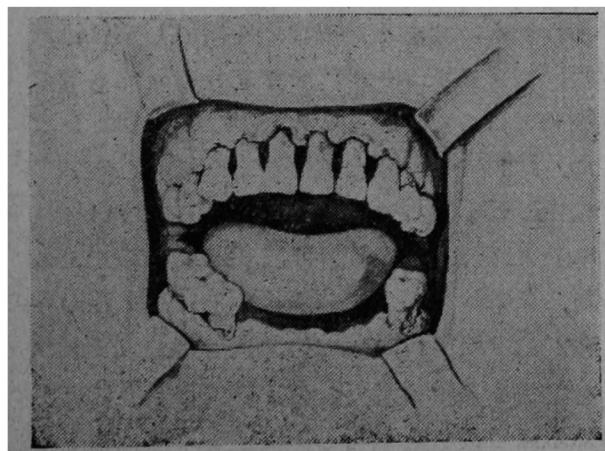
第3例. I. N. 满3才(初診昭和21年12月現在)女。

主訴：歯齦潰瘍。

既往症：特記事項なし。

現症：昭和19年(1才)秋より下顎前歯部の歯齦縁は一帯に灰白色壞疽性と変り、歯齦は徐々に消耗され、歯牙は動搖し始めた。翌20年9月某歯科医を訪れ、患歯5本の抜去を受けた。其後経過順調で潰瘍は全く治癒した。此の経過中抜歯創腔より永久歯の芽萌らしいもの1,2個排出したと云う。此間につつても乳歯は型の如く萌生して來た。

附図 IV



昭和21年秋より上顎歯列が同様の病変に襲われた。此患者も第2例と同日の初診であ

るが、其時の局所々見は上顎前歯部の患歯は悉く歯頸を長く露出し、歯齦は汚穢な潰瘍となり、一寸触れても容易に出血する。其様相は到底人の口とは思われない程の氣味悪さを覚えしめた。(附図IV)。

一般所見：発育栄養可。平温平脉。顔色多少蒼白。頸腺触れず。胸腹部臓器に所見なし。赤血球503万、白血球8500、血色素量74%，血液像(附表1)、出血時間正常。

早速甚しく動搖する患歯は悉く抜き、其後も残存する歯牙が病変に見舞われる毎に次々に抜去し、半年後には乳歯は1本も無くなつた。此儘の無歯症で一生を送らねばならないのかと思つていた所、最近になつて(7才)2,3新しく永久歯の萌生を見つゝある。現在迄歯齦に特別異変は認められない。

第4例. K. N. 满9才(初診昭和21年12月現在)女。

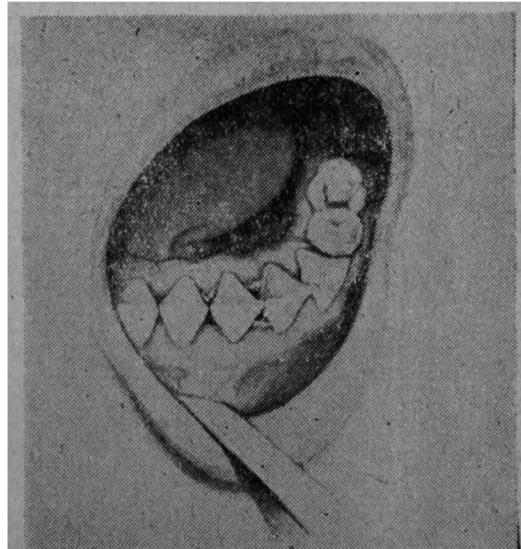
主訴：鈍歯痛。

既往症：生来健康。

現症：第1例入院の際兄妹全部を呼寄せ、血液検査を行つた事は第一編に述べた如くである。其時初めて此患者の血液がオキシドール滴加により異変する事を知つた。然し当時口腔内には何等病変は認められなかつた。

其後注意していると案の定翌22年8月から夜間就眠時に4|3の鈍痛を訴え始めた。見ると4|3の歯間乳頭は可成り退縮し、表

、
附図 V



面は小さい潰瘍と化していた。9月には①②、10月には①②に全く同様の歯痛が現れ、且歯間乳頭に小潰瘍が認められた。(附図V)。其後も度々散発的に同様の症状を示した事もあるが概して軽症で、医治の必要もなく間もなく治癒している。

総括及び考按

以上4症例に就いて各々症状発現以来現在迄の経過の大要を紹介した。之によつて本疾患の臨床像の特異性は略指摘出来たと考えるが、更に本項に於ては此等4症例に照らして、その臨床的経過を総合的に検討しよう。

発病:は歯牙が萌生してからである。第3例では早く乳歯期(1才)にして既に症状を現わしているが、他の3例では7才前後の丁度永久歯えの転歯期に於て発病している。即ち発病の条件として支柱となるべき歯牙の存在が必要の様である。初発症候としては先づ何処かの歯間乳頭の部に小さい潰瘍が形成され、漸次乳頭は退縮を始める。そのため歯間にすいた様な感を与える。此時期では就眠時にイジイジする歯痛を訴える程度で、全身的には全く健康である。此病変は経過中に一時治癒する事もあるが、再発を繰返す間に乳頭部の潰瘍は徐々に拡がつて行く。此様にして大体相隣る2本の歯牙を一つの単位として病巣が彼処此処と作られる。

第2期:私は定型的な歯牙支持組織炎及び歯槽骨炎を招來した時期を仮に第2期とした。患部歯齦は壞疽性炎症により徐々に浸蝕され、表面は汚穢な壞死物質で掩われ、口臭も次第に加わる。病勢に多少の消長はあるが常に進行性にして、続いて歯槽骨炎を起し、次第に歯槽の頬廻吸收を來す。依つて患歯は挺出し、弛緩動搖甚しく、遂には自然に脱落するか或は抜歯を余儀なくされる。自発痛は一般に軽度なるも病勢増悪と共に漸次強く、頸下リンパ節も次第に腫大する。精神陰鬱となり、微熱を伴う事もあるが全身状態は一般に良好である。

患歯の脱落或は抜歯後潰瘍面は幸い上皮又

は瘢痕形成により全治する事もあるが、時として治癒遷延するのみか、顎骨炎を誘発し、病勢の急激なる悪化を来す事がある。こうなる迄には大体発病から1/2~1年の期間を必要とする様である。

第3期:に入れば病像は今迄と一変し、顎骨々膜炎は軟部組織の瀰漫性腫脹を起し、皮膚は発赤し光沢を放ち多少熱感あり、顎骨々膜炎は日を追つて加速度的に進行し、一時病巣限局し腐骨を形成し之を排出する事もあるが、多い場合更に壞疽は深部に波及し、為に観血的に病巣を徹底的に除去し、開放的に処置する所以なければ、骨崩壊は容易に停止しない。進行性壞疽は更に周圍軟部組織に波及し、或は口腔底に或は頬部に深く侵入し、一種独特の腐敗臭を放つ。然し大体に於て炎症々状が余り顯著でないのが特徴である。然し自発痛は可成り強く、又患側の偏頭痛を訴え、時に耳内に放散する。

全身症状としては顔面次第に血色を失い、倦怠感あり、微熱あり時に悪寒戰慄と共に38~39°Cの発熱あり弛張する。次いで食思不振睡眠不良のため次第に衰弱する。然し病変の高度なる割合に比し、一般状態はよく、愈々悪化する所以なければ臥床する事のない点も注意されねばならない。

治療:更に治療的観点に立つて本疾患を検討してみよう。病勢の進行度は決して速くはないが、症状は極めて頑固にして且再発を繰返し、何れの症例に於ても治療には随分悩まされたものである。或は之を清拭し或は硝酸銀、プロタルゴール、マキュロクローム等の塗布を行つたが、凡そ大勢には影響なかつた。此間に知り得た治療法としては、病変の相当進行し膿汁の滯留した場合、夫を機械的に持続洗滌する事が可成り効果ある点である。又本疾患の予防的立場からは、歯齦の病変が余り高度にならない間に原因歯たる患歯を抜去する事である。第1例及び第2例は共に患歯の抜去を敢行し、其後全く無歯症となつたのであるが、然しそれ以来すつかり健康体となり、未だ一度も口腔粘膜に潰瘍を再発

した事がない。此事実より口腔内に歯牙さえ残つていなければ仮令血液がオキシドール添加により黒変しても、即ち血液カタラーゼを欠除していても再発の心配は先づないものと判断された。要する歯牙が本疾患進行の支点となると考えられる。では患歯抜去の時期は何時にすべきか。前述の如く本疾患は炎症性徵候が顕著でなく、自覚症も比較的軽いので鬼角病変を軽視し易い。夫故時機を失すれば病変は急激に顎骨及び周囲組織に拡大し收拾がつかなくなる。よつて経過観察には細心の注意を払い、拔歯の時期は寧ろ速かなるを可とする。但し発育旺盛な幼少時に於て歯牙を徒らに抜去する事は患者にとって可成りの傷手であり、又後に義歯挿入の場合にも相当困難を伴うので拔歯の時期決定には仲々慎重を要する。

次にペニシリン剤の卓効に就いて強調しなければならない。当初はペ剤の入手極めて困

難な頃であつたため、専らスルファン剤に頼つていた。然しそは余り効果が期待出来なかつた。其後ペ剤を試用して意外の効果に驚くとともに、可成り進行した病巣をも治癒せしめ得る自信を得た次第である。然しそも一時的に病勢の悪化を防ぐ事は出来たが、根本的な治療法ではなかつた。再発の度に之を常用する事は病原菌に抵抗性を獲得せしめる危険があつた。

私の今日の念願は是非とも拔歯をしないで病巣を治し度い。更に進んで根本的に病巣の出来ない様な予防法が知り度い事である。然し残念ながら此の念願は遂に果し得なかつた。

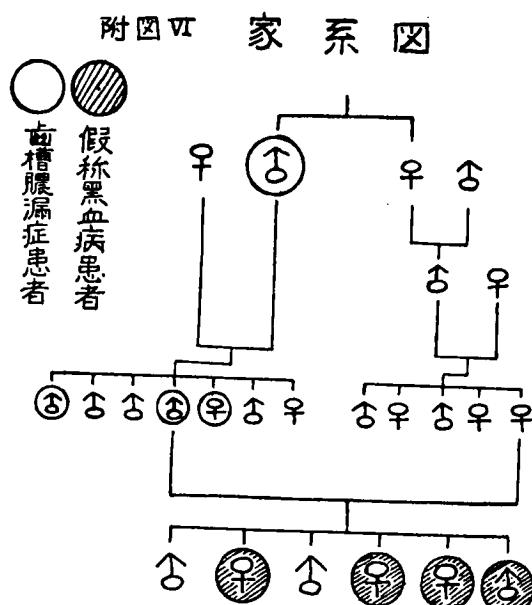
血液像に就いて：附表1は入院時患者同胞の血液像一覽表であるが一見して解かる様に皆15~25%のエオジノフィリーを有している。一時は此のエオジノフィリーが本疾患の一特性かとも考え、尙父の兄妹も殆んど皆可

(附表I) 患者の兄弟の血液像(入院時)

	鉤虫	白血球数	Mbl	ProM	My	J	St	Sg	Ly	E	Mo
症例 I	駆除前	11,200	0.2	1.3	3.8	1.0	10.0	23.1	37.4	22.0	0.2
	〃後	7,600	0.0	1.0	4.0	1.0	5.5	34.5	48.5	3.5	2.0
症例 II	〃前	9,400	0.0	2.6	2.4	1.8	8.2	38.4	29.6	15.6	1.2
	〃後	5,600	0.1	0.5	1.5	2.0	7.5	31.6	41.8	2.5	2.5
症例 IV	〃前	7,400	0.0	2.1	3.3	0.6	5.0	36.1	31.4	21.3	0.2
	〃後	5,100	0.0	1.2	1.0	0.5	4.0	39.8	44.5	7.0	2.0
第四子	/	7,500	0.0	0.6	1.2	2.4	5.0	38.8	33.4	19.2	0.4
症例 III	/	8,500	0.1	2.4	2.0	0.8	2.8	31.5	43.7	16.1	0.6
第六子	/	8,000	0.0	2.1	1.8	0.5	3.2	18.2	45.4	28.6	0.4

成りのエオジノフィリーを持つていたので、或は家族的エオジノフィリーではあるまいかとも疑つた。所が本罹患児の兄妹は皆糞中に鉤虫卵が多数証明されたので、之を駆除する必要があつた。第1, 2, 4例及び第4子に就いて之を試み其結果は同じく同附表に掲載したが、第1, 2例では殆んど正常値に復し、他も著しく減少の傾向にある。即ち本患者家系に見られたエオジノフィリーは鉤虫寄生によるものと解釈された。

家族的関係に就いて：之は注意しなければならない。附図VIは患者家系の大要を示したものである。患者には同胞6名あり、其中4名迄が前述の進行性壞疽性顎炎に罹つている。母方は皆健在であるが父は20才頃より重症の歯槽膿漏症に罹り、30才迄に歯牙は全部拔歯或は脱落した。尙父の兄妹は7名であるが、其内2名も同様歯槽膿漏症のため次々と歯牙を失い、現在では無歯に均しく、又父方の祖父にも歯槽膿漏症の既往ありと云う。



家族の述懐によると、其病像も4名の罹患児のそれと可成りよく似ているが、一般に軽症で顎炎其他の症状を続発した者もなく、概ね患歯の脱落によつて治癒に赴いている。

尙此処に注意すべき事は、患者の父母が従兄妹半の近親間に於て結ばれている点である。以上の諸点より本疾患の発現には家族的遺伝因子が相等重要な役割を演じている様に惟われる。恐らく父方の潜在していた因子が血族結婚により其子供の代に現れ、前述の如く4名の兄妹に重篤な歯性顎炎を発病せしめたものかと想像される。

血液の特異性に就いて：最も特異とするのは此等4名の罹患児の血液が共通して、オキシドールを添加すると気泡を殆んど発生せず、その鮮紅色が瞬時に黒褐色に変る事実である。之は將に偶然の発見であつて、高原教授は此血液の特異な反応に大いに疑問を抱かれ、私は同教授の指導の下に各方面より

検索を進めた結果、之は其血液中にカタラーゼ酵素を欠除しているためであつて、血液が黒褐色に変るのは、添加せられたオキシドールのために酸化ヘモグロビンがメトヘモグロビンに酸化されたものと解かつた。且此血液カタラーゼの欠除が本疾患の成立及び進展の根本的原因をなすのであろう事も大体理解出来た。其等に関しては追つて稿を改めて報告する。

結 語

最近高原教授並に私は従兄妹半関係にある両親より生れた6名の子供の中4名(12才♂, 11才♀, 9才♀, 3才♀)に相踵いで発病した極めて興味ある歯性進行性壞疽性顎炎を経験した。本疾患は極めて特異な経過を示し、即ち歯齦より始まり徐々に歯齦、歯槽骨を崩壊し、之を放置すれば往々顎骨及び其周囲組織を進行して行く壞疽性炎症であつて、種々の治療にも頑固に抵抗し病勢は容易に停止しなかつた。

病勢の悪化を防ぐには原因歯たる患歯を速かに抜去する事が必要である。又ペニシリン剤の使用並びに局所の薬液持続洗滌は効果的治療法であつた。

最も特異とするのは4名の罹患児の血液が共通してオキシドールの添加により瞬時に黒変する点であつて、之は其血液中にカタラーゼ酵素を欠除するためと解り、且之が本疾患成立の根本原因をなすものと想像された。

本稿を終るに臨み御懇意なる御指導御校閲を賜つた恩師高原教授に深謝する。