全身の骨病変を伴った過長茎状突起症例

鈴木 慎二¹⁾・庄司 和彦¹⁾・高北 晋一²⁾・池上 聡¹⁾
河田 恭孝³⁾・丸毛みゆき¹⁾・岸本 曜¹⁾・児嶋 剛¹⁾

Elongated Styloid Process with Systematic Ossifying Changes

Shinji Suzuki, Kazuhiko Shoji, Satoshi Ikegami,
Miyuki Marumo, Yo Kishimoto and Tsuyoshi Kojima

(Tenri Hospital)

Shinichi Takagita

(Kyoto National Hospital)

Yasutaka Kawata

(Shizuoka General Hospital)

We report a 44-year-old man with elongated styloid process and greater cornu of hyoid bone. The chief complaint was right neck pain on turning his head and the symptom had continued for one year. CT scan was useful for the diagnosis of both lesions. Surgical shortening of elongated styloid process and greater cornu of the hyoid bone was performed using the transcervical approach, and his symptom disappeared. The transcervical approach had the advantage of wide visualization and we could perform the surgical therapy safely.

The case involved hypertrophy of the tibial tuberosity and block vertebra (Th7-8). These findings suggest that the elongated styloid process and hyoid bone were part of systematic ossifying changes of the osteo-chondro tissue.

Key words : elongated styloid process, hypertrophy of tibial tuberosity, block vertebra

はじめに

過長茎状突起が頸部痛を引き起こすことはよく知られている。しかし、頻度は多くないため日常診療においては見落とされやすく、不運にもノイローゼとして精神科や心療内科で治療された例も報告されており¹⁾、忘れてはならない疾患である。最近当科で過長舌骨を伴った過長茎状突起症例を経験し、治療として頸部外切開のアプローチによる手術を行ったが、この症例は脛骨粗面の肥

大と胸椎の癒合椎もみられ、本疾患との関連が示唆されたため以下に報告する。

症 例

症 例 : 44 歳, 男性。

主 訴 : 右顎下部から耳後部痛。

既往歴 : 高脂血症 (内服中)。

現病歴 : 平成 13 年秋頃にあくびをしたり首を動かした

1) 天理よろづ相談所病院耳鼻咽喉科

2) 国立京都病院耳鼻咽喉科

3) 静岡県立総合病院耳鼻咽喉科

図 1 頭部単純 X 線写真正面像
茎状突起を矢印で示す。

図 2 歯槽骨パノラマ X 線写真
茎状突起を矢印で示す。

りした時に、右の顎下部から耳後部にかけての痛みが出現したため、当院口腔外科および整形外科を受診したが、特に異常を指摘されなかった。その後、徐々に痛みが増強するため、平成 14 年 10 月 28 日に神経内科を受診した。脳 CT で異常がなかったため、翌日当科紹介受診となった。

局所所見：扁桃炎や咽頭炎はなく、扁桃窩を触診すると弾性のある索状硬結物を触れ両側とも圧痛があった。しかし頸部の触診では自覚症状のある右側にのみ圧痛があった。

頭部単純 X 線所見：図 1 は正面像を示す。茎状突起は

描出されているが、顔面骨との重なりのために辺縁がはっきりしない。

歯槽骨パノラマ X 線所見：単純 X 線写真と比べて、茎状突起の辺縁がよく描出され、通常より長くなっているのが確認された（図 2）。この歯槽骨パノラマ X 線写真から推定した茎状突起の長さは両側とも約 4 cm であった。

頸部 CT 所見：口蓋扁桃レベルの水平断（図 3a）では、頸動脈の前内方に茎状突起が描出されている。舌骨レベル（図 3b）では舌骨大角部は通常より長くなっている。以上の結果から過長茎状突起および過長舌骨との診断に至った。

図 3 頸部 CT 所見（造影なし・水平断）

矢印は口蓋扁桃レベル（a）では茎状突起を、舌骨レベル（b）では舌骨大角部を示す。

図4 術中所見

(a) (b)とも上が頭側，下が尾側である．*は顎下腺，矢頭は顔面動脈を示す．矢印は(a)では茎状突起先端を，(b)では同基部を示す．

経過：本人は手術治療を希望し，茎状突起と舌骨の一部を切除するために，頸部外切開によるアプローチを選択した．過長茎状突起および過長舌骨以外に原因があることもありうるため，その場合は手術してもよくならないことを本人に説明して了解を得た上で，平成15年2月19日に全身麻酔下で手術を行った．

術中所見：顎下腺摘出術と同じレベルでそれより少し長い皮切(約10 cm)を入れ，まず顎下腺と顎二腹筋後腹の間からアプローチした．顔面動脈を確認し，その深部に茎状突起先端を触れた(図4a)．その先端に付着する筋組織(茎突咽頭筋と茎突舌筋)を切開剥離して茎突舌骨筋を切断した後，茎状突起の末梢側を引き出し，茎状突起全体を明視下においた．図4bのように茎状突起の基部の方は筋が付着しておらず疎な結合組織がついてのみであり，周囲組織から容易に剥離できた．最後に上向きスタンツェを用いてなるべく基部に近いところで切除した．

次に，舌骨の大角部に付着している筋組織を切開剥離して大角部を引き出し，この大角部のほとんどを骨剪刀で切除した．術中の出血量は10 mlと少量であった．

摘出標本：図5に切除した3 cmを超える舌骨大角部と3 cm弱の茎状突起を示す．

術後経過：術後は顔面神経下顎縁枝の麻痺はみられず，術前に悩まされていた痛みは消失した．また，術後半年

図5 摘出標本

経った現在まで症状の再発はみられていない．

複数部位において骨の異常が存在したため，全身骨の検索を行ったところ，ほかに脛骨粗面の肥大(図6a)と第7-8胸椎の癒合椎(図6b)があった．脛骨粗面の肥大による関節痛のため以前に局所注射療法を受けたことがあり，癒合椎に関しては腰痛の精査時にたまたま発見されたとのことであった．このことから本症例の過長茎状突起および過長舌骨は，全身の骨軟骨組織および靱帯組織における異常骨化に伴った病態の一部である可能性が示唆された．

図 6 随伴する骨軟骨病変

(a) は肥大した脛骨粗面を, (b) は第 7-8 胸椎の癒合椎を矢印で示す。

考 察

過長茎状突起は思春期以降の骨化が進行して生じるといわれており, 20 代から高齢者に至るまであらゆる年齢層にみられる。過長舌骨については過去の報告も少なく発生機序も不明だが, 他の頸部疾患のために撮影した CT 写真を注意深く観察すると意外に頻度は多いともいわれている。本症例の過長茎状突起, 過長舌骨とも stylohyoid chain の骨化²⁾ による一連の変化と考えるられる。

茎状突起の長さについては, 本邦人の平均は約 1.75 cm で, 欧米人の平均は 2.5 cm といわれている³⁾。本邦人において 3.5 cm 以上で口蓋扁桃に達する可能性があり, 5 cm 以上をもって舌骨に達する可能性があるといわれている³⁾。中田ら⁴⁾ も本邦人のパノラマ X 線写真による計測で 2.5 cm を超える症例は 15.5% に達すると述べ, Correll ら⁵⁾ は, 欧米人に関して 3 cm を超える症例は 18.2% に達するが, そのうち症状を呈するのはきわめてわずかであったと述べている。過長茎状突起の基準ははっきりと定められているわけではないが, 本邦の文献上では 3 cm 以上で過長茎状突起と分類している例が多い。

過長茎状突起に伴う症状としては, 頸部痛, 咽頭痛, 耳痛, 咽喉頭異常感や肩こりなどが代表的である。痛みの原因として, 舌咽神経, 迷走神経や三叉神経などの頸部を走行する神経への物理的刺激が考えられ, 特に頸部捻転時に痛みが増強することが多い。さらに, 舌咽神経は耳管や鼓室内に神経叢を形成しているため耳痛や耳鳴りなどの耳症状も引き起こす。肩こりは茎状突起により

刺激された神経に吻合する交感神経が影響を受け, 局所の自律神経失調として疼痛および循環障害が生じた結果であるといわれている⁶⁾⁷⁾。茎状突起の長さ以外の形態異常が症状に及ぼす影響として, 内方への屈曲が強いほど症状も強い傾向にあるといわれており⁸⁾, これは内側を走行する舌咽神経が機械的刺激を受ける可能性が高くなるためと考えられている。本症例においても茎状突起の末梢側は途中で内方に屈曲していた。

過長舌骨に伴う症状としては咽喉頭異常感が主な症状であるが, なかには頸部捻転時の頸部痛, 甲状軟骨や頸椎突起との擦過により生じるクリック音⁹⁾¹⁰⁾ などがある。痛みの原因としては, 長くなった舌骨大角部による咽頭周囲の神経, 舌咽神経頸動脈洞枝や頸動脈洞周囲の交感神経叢への機械的刺激が考えられている³⁾。過長舌骨による疼痛は典型的な症状ではないため, 前述のように本症例では過長茎状突起による痛みの可能性が高いと思われたが, 術後に咽喉頭異常感や痛みが残る可能性も考えられたため, 長くなっている舌骨大角部も同時に切除した。

治療としては, 筋弛緩剤, 鎮痛剤や安定剤などの保存的治療が有効なことも多く, まず試みるべきであると思われる。保存的治療で抵抗性の場合は手術的治療を考慮すべきである。本症例では 1 年間にわたり疼痛に悩まされており, 患者が手術を希望したため保存的治療として術前に鎮痛剤を使用したのみであった。外科的切除のアプローチとしては口内法と頸部外切開法があるが, 特に

過長茎状突起に対しては過去の文献をみても口内法で治療されている例^{8)11)~13)}が多い。口内法の長所として、①頸部に術創が残らない、②短い距離で茎状突起まで到達できる点が挙げられる。その反面短所として、①口腔内の術創から深頸部感染をきたす可能性がある、②視野が狭く大血管周囲を操作する際には危険が伴う、③扁桃摘出を行う場合は術後の疼痛が強い、④茎状突起が長い場合は口内から摘出するのは難しい点がある。口内法による合併症として、皮下気腫¹⁴⁾や内頸動脈血栓症¹⁵⁾の報告も過去にみられる。しかし、Strauss ら¹⁴⁾は最終的には症例に応じてアプローチ法を選択すればよいと述べている。過長舌骨に対しては口内法による切除は非常に困難で、過去の文献では頸部外切開で治療を行っている例⁹⁾¹⁰⁾が多い。本症例では過長舌骨も伴っていたため頸部外切開で手術を行ったが、視野良好で術中の出血量も少なく、安全に行うことができた。もちろん年齢や性別により、特に若年女性などの外切開に抵抗を感じる例では、本症例のような場合でも口内法を考慮しなければならないときもあると思われる。

本症例では脛骨粗面の肥大や癒合椎を伴っていたが、茎状突起と舌骨も含めて骨の異常がみられた部分の病態として、軟骨あるいは靱帯の骨化が進行した結果と考えられる。通常、茎状突起の基部と先端は軟骨が存在し茎状突起の可動性があれば発症しないが、基部と先端が固定されて可動性がなくなると周囲の神経への刺激が生じて痛みなどの症状が出現するとのことである³⁾。過去に stylohyoid chain の骨化例において頸椎前縦靱帯の異常骨化を伴った報告¹⁶⁾はあるが、それ以外に全身の骨病変を伴った例についてはほとんど報告されていない。しかし、本症例で特に遺伝性は認めなかった。実際、全身の他の部位に異常があったとしても、部位によってそれぞれ骨化が進行する時期が異なるため症状出現にズレがあったり、骨化が進行しても無症状であることもあるために、発見あるいは指摘されにくいのではないかと考えられた。

まとめ

- 1) 過長舌骨を伴う過長茎状突起の1例を報告した。
- 2) 頸部外切開による切除手術は、視野良好で安全な術式である。
- 3) 脛骨粗面の肥大と癒合椎を伴っており、骨軟骨組織および靱帯組織における異常骨化に伴った病態の一部である可能性が示唆された。

本論文の要旨は、日本口腔・咽頭科学会第16回学術講演会(2003年9月13日、東京都)において口演した。

参考文献

- 1) 添田 弘, 水川 保, 木村 晴, 他: 精神異常を思わせる訴えを伴った茎状突起過長症—訴えの心理学的考察—. 耳展 12: 23 ~ 25, 1969.
- 2) Krennmair G and Piehslinger E: Variants of ossification in the stylohyoid chain. Cranio 21: 31 ~ 37, 2003.
- 3) 奈良四郎: 異常茎状突起の臨床的X線学的研究. 日耳鼻 61: 1295 ~ 1301, 1958.
- 4) 中田正之, 西尾順太郎, 綿谷和也, 他: 茎状突起の發育に関するX線学的検討. 日口外誌 33: 2224 ~ 2229, 1987.
- 5) Correll RW, Jensen JL, Taylor JB, et al.: Mineralization of the stylohyoid-stylomandibular ligament complex; a radiographic incidence study. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 48: 286 ~ 291, 1979.
- 6) 田中 明: 異常茎状突起症に関する研究. 日耳鼻 63: 2371 ~ 2391, 1960.
- 7) Eagle WW: Symptomatic elongated styloid process. Arch Otolaryngol 49: 490 ~ 503, 1949.
- 8) 田中和成, 小澤博史, 北嶋和智: 過長茎状突起症の4例. 耳鼻臨床 90: 1255 ~ 1261, 1997.
- 9) 本多德行, 斎藤 等, 山田武千代, 他: 舌骨過長症の一治験例. 耳鼻臨床 補 63: 154 ~ 157, 1993.
- 10) 勝見直樹, 岩武博也, 富澤秀雄, 他: 舌骨症候群例. 耳鼻臨床 93: 223 ~ 228, 2000.
- 11) 朝隈真一郎, 柴田浩一, 末田卓也: 過長茎状突起症. 臨床と研究 52: 1120 ~ 1124, 1975.
- 12) 古市一郎, 八幡則子, 馬場廣太郎, 他: 咽喉頭異常感症の局所的要因. 耳展 21: 295 ~ 301, 1978.
- 13) 鶴田至宏, 佐藤武男, 宮原 裕, 他: 咽喉異常感を訴えた過長茎状突起症の4症例. 耳鼻臨床 78: 2783 ~ 2791, 1985.
- 14) Strauss M, Zohar Y and Laurian N: Elongated styloid process syndrome; intraoral versus external approach for styloid surgery. Laryngoscope 95: 976 ~ 979, 1985.
- 15) Riediger D and Ehrenfeld M: Pathogenesis and clinical manifestation of the styloid syndrome. Dtsch Zahnärztl Z 44: 968 ~ 970, 1989.
- 16) Guo B, Jaovisidha S, Sartoris DJ, et al.: Correlation between ossification of the stylohyoid ligament and osteophytes of the cervical spine. J Rheumatol 24: 1575 ~ 1581, 1997.

原稿受付: 平成15年9月29日

原稿採択: 平成15年12月24日

別刷請求先: 鈴木慎二

〒632-8552 天理市三島町200

天理よろづ相談所病院耳鼻咽喉科