茎状突起過長症に対し口外法により手術した1例

細川 恵一・重松 久夫・奥 結香
堀 智一・鈴木 正二・坂下 英明

Extraoral surgical treatment for styloid process syndrome: a case report

HOSOKAWA Keiichi · SHIGEMATSU Hisao · OKU Yuka
HORI Tomokazu · SUZUKI Seiji · SAKASHITA Hideaki

Abstract: This report describes a case of styloid process syndrome (Eagle's syndrome) with ossification of the stylohyoid ligament. A 58-year-old woman was referred to our department because of right submandibular pain in December 2009. She presented with a 2-month history of spreading pain of the right submandibular region. She had spontaneous pain of the submandibular region, which spread to the right side of the face. On examination, the patient reported some discomfort when she turned her head right. She could open her mouth, but complained of painful limitation of mandibular opening at 39 mm. Bernfeld's digital examination elicited pain of the right posterior region of the ramus of the mandible. She had no throat pain on swallowing. On oral examination, there was no abnormality; however, palpation detected a bony structure and elicited pain of the right tonsillar fossa. A right elongated styloid process was demonstrated on a panoramic radiography and 3D-CT. These radiographic findings showed a mineralized stylohyoid ligament, approximately 70 mm in length, posterior to the right ramus of the mandible. Although glossopharyngeal neuralgia should be included in the differential diagnosis, a clinical diagnosis of styloid process syndrome was made on the basis of radiographic findings, the nature of the patient's symptoms, and positive results of the digital examination. The patient was given NSAIDs for 1 month, but the symptoms did not resolve. In April 2010, the patient underwent a styloid process resection by a transcervical approach under general anesthesia. The right elongated process was removed and measured 45 mm in length. The postoperative course was uneventful. The patient has been free of symptoms since the operation. Histologic examination of the mineralized tissue showed normal mature bone with a central cavity, containing viable marrow and cartilage.

Our findings support the concept that the transcervical resection of an elongated styloid process is safe and effective, especially in patients with complete ossification of the stylohyoid ligament.

Key words: styloid process syndrome (茎状突起過長症), Eagle's syndrome (Eagle 症候群), transcervical approach (頸部アプローチ), elongated styloid process (過長茎状突起), ossification of the stylohyoid ligament (茎突舌骨靱帯の化骨)

緒 言

茎突舌骨靱帯の化骨についての報告は極めて古く Dwight¹⁾によると 1652 年 De Marchetti にさかのぼる。臨床的な報告は 1870 年の Lücke²⁾ によるものが初めであり、

過長茎状突起の発生とさまざまな臨床症状との関係についての詳細な報告は Eicken³⁾ 以降である。さらに Eagle⁴⁾ は、症状を引き起こす機序の違いから、それまで言われてきた咽喉頭部の異常感、咽頭痛、嚥下痛、耳部に放散する痛みなどの諸症状 (古典的症候群) に加えて、肩凝り、顔面痛、頭痛などの症状を頸動脈症候群として提唱し、今日に至っている。本疾患が Eagle 症候群とも称されるのはそのためであるが、本疾患は、口腔顎顔面領域の広範な部位に多彩な臨床症状を呈することから、頭頸部領域における痛みを主症状とするさまざまな疾病と鑑別を要し、今日でもその

明海大学歯学部病態診断治療学講座口腔顎顔面外科学分野 2
(主任: 坂下英明教授)

Second Division of Oral and Maxillofacial Surgery, Department
of Diagnostic & Therapeutic Sciences, Meikai University,
School of Dentistry (Chief: Prof. SAKASHITA Hideaki)

受付日: 2010 年 7 月 8 日

採択日: 2011 年 2 月 22 日

写真1 初診時パノラマX線写真
右側茎状突起の著しい過長を認める。

写真2 初診時3D-CT写真
右側茎状突起は舌骨と近接する。

診断^{5, 6)}や手術法めぐり多くの報告^{7~9)}がなされている。今回我々は、茎突舌骨靭帯の化骨を伴う茎状突起過長症症例に対し、頸部アプローチによる茎状突起切除術を適應した1例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患 者：58歳，女性。

初 診：2009年12月X日。

主 訴：右側顎下部の疼痛。

既往歴：高血圧症で降圧剤を服用中である。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：2009年10月，りんごを食べた後に右側顎下部の自発痛が発現した。一時症状は改善したが，12月に入り症状が再燃し，近歯科医院から当科を紹介され来院した。

現 症：

全身所見：体格中等度，栄養状態は良好であった。

写真3 術中写真

胸鎖乳突筋，顎二腹筋前腹をよけて茎状突起を露出し，結節部から10mmほど中枢側にてこれを切除した。

局所所見：右側顎下部から顔面に放散する痛み，ならびに耳痛の訴えがあった。開口量は39mmまで可能であったが，最大開口時に右側顎下部の痛みの訴えがあった。触診で右側耳下・下顎枝後縁部の圧痛（Bernfeldの圧痛）を認め，同部に右側頭部回旋時痛が確認された。嚥下時の痛みの訴えはなかった。口腔内所見では，右側扁桃部に硬固物の触知と同部の圧痛を認めた。その他，特記事項は認められなかった。なお，左側はBrenfeldの圧痛を認めず，扁桃部についても硬固物を触知したものの圧痛は認めなかった。

X線所見：パノラマX線写真上において，茎状突起は右側が7cm，左側が4.5cmで，両側茎状突起の過長を認めた。右側は茎突舌骨靭帯の化骨が著明であり，本来の茎状突起と化骨した茎突舌骨靭帯が癒合し長大な過長茎状突起の所見を呈していた。過長茎状突起の中央部には癒合部と思われる結節を認め，その先端部は舌骨付近にまで及んでいた。また，下顎枝後縁から頸部にかけての水平断，前額断のCT写真で腫瘍性病変を疑う所見はなく，3D-CT写真では左右とも茎状突起が内下方に傾斜して認められた。

臨床診断：右側茎状突起過長症。

処置および経過：来院時より消炎鎮痛剤（アンフェナクナトリウム水和物1日150mg分3）を処方の上，1か月間経過観察をしたが自覚症状は改善しなかった。その後，睡眠時にも右側口底部から顎下にかけての痛みが発現するとの訴えが認められるようになり，患者および家族の強い希望により，右側の過長茎状突起部分の切除を行うこととした。2010年4月Y日，全身麻酔下に右側茎状突起切除術を行った。右側耳下部から顎下部にかけて7cm，広頸筋に及ぶ皮膚切開を加え，頸筋膜を剥離後，胸鎖乳突筋前縁，顎

写真4 術前 (A) と術後 (B) のパノラマ X 線写真

術後の右側茎状突起の長さは X 線写真上で 30mm 以下と正常範囲であることが確認された。

写真5 切除標本と軟 X 線写真

切除標本の長さは 45 mm (A), 軟 X 線写真では髓腔の存在が示唆された (B)。

二腹筋後腹を明示した。茎状突起を触知のうえ、茎状突起に付着する筋組織を鈍的に、中枢側から末梢側へと剥離し、茎状突起全体を明示した。末梢側は舌骨と接しており、ここで分離した。中枢側は、茎状突起の結節部から 1cm の部分で、破骨鉗子を用いて切断した。術後 2 週にて諸症状の消失を確認し、5 か月を経過した現在、症状の再燃はなく経過良好である。

切除標本所見：切除標本の長さは 45mm であり中枢側

に骨の癒合部と思われる結節を認めた。組織学的には細長い骨組織であり、中枢側に軟骨組織が、結節部には髓腔構造が認められた。

考 察

茎状突起過長症については、茎状突起の長さだけが問題となるわけではないが、過長茎状突起の存在は本疾患の発症要因の 1 つであることは論を待たない。茎状突起の長さは通常 2.5 ～ 3 cm 以内であり、これを超えるものを過長茎状突起と評価する報告は少なくない^{4, 9～11)}。過長茎状突起の発生機序¹²⁾は本来の茎状突起の伸長によるものばかりではない。茎状突起と舌骨小角およびこれらを連結する靭帯は、発生学的には Stylo-hyoid chain と呼ばれる一連の器官であり¹⁾、舌骨に接するような長い茎状突起の発生については、この Stylo-hyoid chain の石灰化として捉える必要がある。

Stylo-hyoid chain は中胚葉に由来する第二鰓弓の Reichert 軟骨より発生する。Reichert 軟骨は近位端より順にアブミ骨の一部と茎状突起を形成する Tympanohyal と Stylohyal、茎突舌骨靭帯を形成する Ceratohyal、そして舌骨の一部を形成する Hypohyal の 4 部分からなる^{1, 12)}。Tympanohyal は出生時にすでに石灰化しており、Stylohyal は生後徐々に石灰化されるとされる。通常、茎状突起は Tympanohyal と Stylohyal の化骨により生後発育を終了する。これが本来の茎状突起でありこの部が過長をきたすものもあるが、舌骨にまで及ぶような長大な茎状突起については本来の茎状突起の過長に加えて茎突舌骨靭帯の石灰化が問題となる。すなわち、茎突舌骨靭帯中にある 2 つの骨核が上方に化骨して本来の茎状突起と癒合することにより長大な茎状突起が発生する³⁾。その時期については 19 歳ごろまでに急激に進むとするもの¹³⁾から、30 歳ごろまで経年的に進行するとするもの¹⁴⁾までさまざまである。

自験例は、本来の茎状突起と化骨した茎突舌骨靭帯の癒合部と思われる部位が結節状を呈しており、組織学的には同部に軟骨性化骨を示す所見を認め、Eicken を始めとする過去の報告^{3, 12)}と一致する結果と思われた。また、自験例では茎突舌骨靭帯のほぼ全体が化骨した結果、過長となった茎状突起は舌骨付近にまで及んでいたが、何歳までに化骨がここまで進行したのかを推察する資料は得られなかった。また、極めてまれに、石灰化が茎突舌骨靭帯全体からさらに下方の舌骨小角にまで及び骨性に癒合した症例報告

写真6 切除物の組織所見（低倍，高倍）
軟骨組織（A）と髓腔構造（B）が認められた。

もみられる^{1, 15, 16)}が、自験例は舌骨との癒合は認めなかった。

過長茎状突起の評価には、パノラマX線写真がその形態と長さをみるうえで極めて有用である^{9～11, 14, 17, 18)}。パノラマX線写真上での計測は、基準点の設定の問題や、拡大率の問題などからやや客観性に乏しいとの指摘もある。このため、画像診査ではむしろパノラマX線写真における茎状突起と下顎枝の相対的な位置関係での評価が有用との報告^{10, 17, 18)}もあるが、概ね30mmを超えるものは過長と判断しうる。ただし、過長茎状突起の発生と茎状突起過長症の発症とは区別すべきであり、診断に当たっては臨床症状と理学所見が重要となる。

茎状突起過長症の具体的な臨床症状としては、①機械的刺激に基づく症状³⁾として、咽頭あるいは舌根部の違和感、食餌停滞感、嚥下痛などが、②頸動脈への圧迫に基づく交感神経刺激症状⁴⁾として、耳痛、顔面痛、頭痛、歯痛、頭部回旋時痛が、③過長茎状突起による舌咽神経への圧迫に基づく症状¹⁹⁾として、舌咽神経痛様疼痛が、そして、④舌骨に及ぶ過長茎状突起の化骨に基づく症状として、舌骨の運動制限と嚥下障害が発生する¹⁾。また、過長茎状突起における偽関節形成がみられる場合には雑音（摩擦音）を認めることもある。このように多彩な症状を示すことから、日常臨床においてはその診断に苦慮することがある。鑑別すべき疾患としては口腔外科領域では日常的に見られる顎関節症を筆頭に、特発性三叉神経痛、特発性舌咽神経痛、

非定型顔面痛、咽頭癌、Plummer-Vinson症候群、咽頭部異常感症、群発頭痛などが挙げられる⁵⁾。

本疾患の診断基準としては、前述した画像診断やこれらの臨床症状に加えて、理学的所見が重要となる。すなわち、

①画像診断：パノラマエックス線写真で30mmを超える過長な茎状突起が観察されること

②臨床症状：茎状突起過長症に関連する何らかの症状が認められ、かつ他に原因となる疾患がないこと

③理学所見：扁桃部の触診による硬固物の触知と同部の圧痛、耳下・下顎枝後縁部の圧痛（Bernfeldの圧痛）、顎下三角部の圧痛のうち1つ以上を確認しうること

以上の3項目が挙げられる^{11, 12)}。パノラマX線写真を用いての評価で、Correllら⁹⁾、Monsourら¹⁴⁾、Kaufmanら¹¹⁾は、過長茎状突起の発現率をそれぞれ、

18.2%、19.9%、そして28.0%としており、必ずしも茎状突起の過長そのものはまれなものとはしていない。その一方で、過長茎状突起であると評価されたもののうちで発症する率については、Eagle⁴⁾は4%、Ilgiyirら²⁰⁾は6.3%、Correllら⁹⁾は7.4%に過ぎなかったとしており、過長茎状突起の存在が本疾患に直結するものでもない。したがって、本疾患の診断に当たっては、上記の診断基準と照らし合わせて、画像診断、臨床症状、理学的所見を総合的に評価した上で慎重に行う必要がある。自験例では夜間においても右側顎下から口底部への放散痛の発現を認めるなど、特発性舌咽神経痛との鑑別⁷⁾は必要と思われたが、①パノラマX線写真で茎状突起が70mmと過長を認めること、②顎下部から顔面へ放散する痛みや頭部回旋時痛など特徴的な症状を呈していたこと、そして、③理学的所見としてBernfeldの圧痛を認め、口腔内所見では右側扁桃部に硬固物を触知し、同部に圧痛を認めること、などを総合的に評価し本疾患と診断し得た。

本疾患の治療法には、大きく分けて保存的療法¹⁷⁾と外科的療法^{7, 8)}がある。保存的療法には、薬物療法（自律神経遮断薬、消炎鎮痛薬）や理学療法（赤外線照射）などがあげられ、本疾患患者についてはまず保存的療法にて対処すべきである。外科的療法は保存的療法で症状が改善されない場合に適応となる。茎状突起の切除法には、口内法^{4, 6, 7)}と口外法^{8, 16, 19)}があり、それぞれ利点と欠点が挙げられる。本疾患に対しては術式の簡便さや頸部に瘢痕を残さな

いなどの利点から口内法が適応となることが多い^{4, 6, 7)}。しかしながら、頸部からのアプローチは、十分な術野が得られ舌下神経や主要血管の損傷を回避できること、口腔内雑菌の混入が避けられることにより深頸部感染の危険を回避できることなどの利点から、茎突舌骨靭帯の大半で化骨を認めるような症例に対して適応とされることは少なくない^{5, 8, 12, 16, 19)}。なお、両側性の場合には、片側ずつ手術を勧めるべきである。

自験例では、まず保存的療法で薬物療法（アンフェナクナトリウム水和物1日150mg分3）を1か月間行ったが、症状の改善がみられなかったため外科的に過長な茎状突起部を切除することとした。手術に当たっては、茎状突起の長さが正常の範囲内となるように過長な茎状突起部分を切除することが推奨される¹⁸⁾。口内法、口外法のいずれにしても、不十分な過長茎状突起部の摘出は、再発につながるおそれがあり、特に長大な症例に対しては注意が必要である。長大な茎状突起過長症症例では、本来の茎状突起と化骨した茎突舌骨靭帯との接点において結節や分節を形成することが少なくない¹²⁾。著者らは、術前の画像診断にて、これら結節や分節がある場合にはその位置を術前に確認の上、術中はそれらを目安として中枢側の切除部位を決定することにより、確実に術後の茎状突起の長さを正常範囲内（30 mm 以下）にもどし、症状の消失を図ることができると考えている。自験例では、術前の評価で結節から10 mm ほど中枢側まで切除することとし、良好な結果を得ている。なお、頸部からのアプローチに際しては、顔面神経下顎縁枝の麻痺について注意が必要であることが指摘されている⁸⁾。自験例では、術後、患側下唇部の運動麻痺を若干認めたが、2週間にて麻痺症状は完治した。予後については、14年を経て茎状突起が再生したという報告²¹⁾があり、自験例についても引き続き慎重な経過観察が必要と考えている。

結 語

58歳の女性に発症した右側茎状突起過長症症例に対して、口外法により過長な茎状突起部分の切除を行い良好な結果を得た。茎突舌骨靭帯の化骨を伴うような長い茎状突起過長症症例に対しては、口外法による手術がより安全・確実な方法であると思われた。

引 用 文 献

- 1) Dwight, T.: Stylo-hyoid ossification. *Ann Surg* 46:721 1907.
- 2) Lücke, I.: Praktische Bedeutung des abnorm langen und verbogenen Processus Styloides des Schläfenbeins. *Virchow's Arch Pathol Anat Physiol* 51: 140-141 1870.
- 3) Eicken, C.V.: Lange Processus styloidei als Ursache für Schluckbeschwerden. *Zeitschr Ohrenheilk* 78: 63-82 1919.
- 4) Eagle, W.W.: Symptomatic elongated styloid process.: Report of two cases of styloid process-carotid artery syndrome with operation. *Arch Otolaryngol* 49: 490-503 1949.
- 5) Shin, J.H., Herrera, S.R., et al.: Entrapment of the glossopharyngeal nerve in patients with Eagle syndrome: surgical technique and outcomes in a series of 5 patients. *J Neurosurg* 111: 1226-1230 2009.
- 6) Beder, E., Ozgursoy, O.B., et al.: Current diagnosis and transoral surgical treatment of Eagle's syndrome. *J Oral Maxillofac Surg* 63: 1741-1745 2005.
- 7) Hossein, R., Kambiz, M., et al.: Complete recovery after an intraoral approach for Eagle syndrome. *J Craniofac Surg* 21: 275-276 2010.
- 8) Martin, T.J., Friedland, D.R., et al.: Transcervical resection of the styloid process in Eagle syndrome. *Ear Nose Throat J* 87: 399-401 2008.
- 9) Correll, R.W., Jengen, J.L., et al.: Mineralization of the styloid—stylomandibular ligament complex. *Oral Surg* 48: 286-291 1979.
- 10) 重松久夫, 加賀谷雅之, 他: 過長茎状突起に関するパノラマ X 線学的検討. *口科誌* 49: 57-61 2000.
- 11) Kaufman, S.M., Elzay, R.P., et al.: Styloid process variation. *Arch Otolaryngol* 91: 460-463 1970.
- 12) Moffat, D.A., Ramsden, R.T., et al.: The styloid process syndrome: aetiological factor and surgical treatment. *J Laryngol Otol* 91: 279-294 1977.
- 13) Carrol, M.K.O. and Miss, J.: Calcification in the stylohyoid ligament. *Oral Surg* 58: 617-621 1984.
- 14) Monsour, P.A., Young, W.G., et al.: Variability of the styloid process and styloid ligament in panoramic radiographs. *Oral Med Oral Pathol* 61: 522-526 1986.
- 15) Blythe, J.N., Matthews, N.S., et al.: Eagle's syndrome after fracture of the elongated styloid process. *Br J Oral Maxillofac Surg* 47: 233-235 2009.
- 16) Kawai, T., Simozato, K., et al.: Elongated styloid process as a cause of difficult intubation. *J Oral Maxillofac Surg* 48: 1225-1228 1990.
- 17) 中田正之, 西尾順太郎, 他: 茎状突起の発育に関する X 線学的検討. *日口外誌* 33: 2224-2229 1987.
- 18) 山下雅資: 茎状突起の画像診断に関する研究. *歯科医学* 65: 165-180 2002.
- 19) Graf, C.J.: Glossopharyngeal neuralgia and ossification of the stylohyoid ligament. *J Neurosurg* 16: 448-453 1959.
- 20) Ilgüy, M., Ilgüy, D., et al.: Incidence of the type and calcification patterns in patients with elongated styloid process. *J Int Med Res* 33: 96-102 2005.
- 21) Steinmann, E.P.: A new light on the pathogenesis of the styloid syndrome. *Arch Otolaryngol* 91: 171-174 1970.