Idiopathic Neuralgia of the Superior Laryngeal Nerve

A Case Report

Naomi Hirakawa¹, Masatomo Kawaguchi², Yoshio Taniguchi²,
Kiyoshi Harano¹, Tadahide Totoki² and Tetsuhide Inoue³

¹*Surgical Center and* ²*Department of Anesthesiology, Saga Medical School Hospital, Saga and*
³*Anesthesia Service, Kitakyushu General Hospital, Japan*

(Received 28 December 1990)

Abstract

Superior laryngeal neuralgia is an uncommon disease. It is necessary to discriminate this disease from other laryngeal disease such as inflammatory or neoplastic diseases in larynx. A case of superior laryngeal neuralgia which pain was relieved by pure alcohol injection into the superior laryngeal nerve was reported in this study.

Patient is a 69 years-old man who was suddenly suffered from paroxysmal pain of inner part of left larynx in 1975. Although analgesics had been taken internally, the pain was never decreased. A diagnosis of superior laryngeal neuralgia was made in 1989, and the superior laryngeal nerve block with local anesthetics found to be effective. The nerve block and administration of carbamazepine was continued. The patient was admitted for examination since the duration of the block effectiveness became shortened gradually, and the pain was re-increased. The organic disorder was not observed by the indirect laryngoscopy, CT scan and MRI. Direct injection of pure alcohol into the superior laryngeal nerve seemed necessary to perform in cooperation with otolaryngologists. After exposure of the superior nerve under local anesthesia, pure alcohol was injected into the internal branch of the superior laryngeal nerve. The pain was successfully reduced after the treatment.

Since superior laryngeal neuralgia was first reported by Avellis in 1900, few cases were suspected to be this disease. It can usually be specified by unilateral pain triggered by pressure on the skin over the hyothyroid membrane. In our case, all symptoms suggested the patient to be this disease except for lacking the trigger. Glossopharyngeal neuralgia is the most important differential diagnosis, glossopharyngeal nerve block was not effective for this case. The sensation of larynx is innervated with internal branch of the superior laryngeal nerve, therefore, the pain was relieved by the direct alcohol injection into internal branch.

Key Words : superior laryngeal neuralgia, alcohol injection, superior laryngeal nerve block, carbamazepine.

特発性上喉頭神経痛の1症例

平川奈緒美¹ 川口 正朋² 谷口 良雄² 原野 清¹ 十時 忠秀² 井上 徹英³

¹ 佐賀医科大学附属病院 手術部

² 佐賀医科大学附属病院 麻酔科

³ 北九州総合病院 麻酔科

特発性上喉頭神経痛は、非常にまれな疾患であり、この疾患の診断のためには咽頭や喉頭の器質的疾患や舌咽神経痛との鑑別が必要である。今回、我々は15年来、左喉頭内部に疼痛発作を有する症例に対して、直視下に上喉頭神経のエタノールブロックを行い、痛みが消失した症例を経験したので、報告する。

症 例

69歳 男性 161.0cm 64.0kg

既往歴：糖尿病。

現病歴：昭和50年頃、誘因と考えられるものなく左喉頭内部の疼痛発作が出現した。痛みは会話や嚥下により誘発され、とくに夜間に痛みが強かった。以来多くの病院で、原因不明のまま対症療法的に鎮痛薬の投与を受けていたが、痛みは完全には消失しなかった。平成元年8月、某病院麻酔科で、特発性上喉頭神経痛の診断で、局麻薬による上喉頭神経ブロックをうけ、痛みは一時的に完全に消失した。その後、同病院麻酔科で上喉頭神経ブロック、星状神経節ブロックおよびカルバマゼピンの内服による治療を続けていたが、次第にブロックの効果時間が短くなったので、7月13日、当科に紹介された。

初診時所見：

患者は痛みのため苦悶様の表情で、問診の際には会話により痛みが誘発された。この痛みは喉頭部をおさえたり、咳払いをすることにより軽快すると訴え、問診中も頻回にこの動作を行っていた。患者の訴えによると、痛みは、しみるような、針をさされるような痛みで、痛みがひどいときには、左下顎部から耳介部にまで放散するとのことであった。初診時、外来で診断的治療目的で0.5%ピバカイン3ml

による上喉頭神経ブロックを行った(**Fig. 1**)。ブロック後痛みは完全に消失した。しかし、このブロックによる除痛効果は数時間で、再度痛みが出現したため、精査およびパーマネントブロックを行う目的で入院することになった。入院後の間接喉頭鏡検査、CT-scan、ならびにMRI検査によっても咽頭、喉頭ならびに脳幹部に腫瘍などの器質的疾患は認められなかった。また、他の神経学的所見に異常は認められなかった。

局所麻酔薬による上喉頭神経ブロックで痛みは一時的に消失し、また、下咽頭付近のリドカインスプレーでも痛みは多少軽快したが、鑑別診断のために行った舌咽神経ブロックでは、痛みは消失しなかった。そこで我々は最終的に、耳鼻科の協力を得て、直視下に上喉頭神経エタノールブロックを行うことにした。

耳鼻科医により1%リドカイン使用による局所麻酔を行って上喉頭神経を露出し、この神経の外枝と内枝の分岐部近くで内枝の神経幹に直接に無水エタノール0.3mlを注入した(**Fig. 2**)。局所麻酔下に施行したため、内枝の神経幹に針を刺入したときに前述の部位に痛みが誘発されたが、無水エタノール注入直後に痛みが消失したのが確認できた。手術時に今後のブロックの目印となるように注入部位にヘモクリップを残し、術後にX線撮影により確認した(**Fig. 3**)。

エタノールブロック後1日間は手術部位の刺激症状が認められたが、2日目よりブロック前に訴えていた痛みは消失し経過良好であったため術後7日目に退院となった。

考 察

特発性上喉頭神経痛はきわめてまれな疾患であり、Avellis らにより 1900 年に初めて報告された¹⁾。本邦でも、これまでに 3 例の報告^{7,10,12)} しか認められないし、また海外における症例報告例も少ない²⁻⁶⁾。疼痛の性質は、Brownstone らの報告⁸⁾ のように、両側性の場合もあるが、報告されている症例の大部分では 1 側性で発作性に痛みが生じ、非発作時にはまったく痛みを感じない。この痛みは嚥下や会話により誘発される。針で刺されるようなという表現で訴えられているような激痛発作が数秒から数分間持続する。症例の大部分では梨状窩に trigger point が認められ、甲状軟骨の上外側方には圧痛点が存在し、これは上喉頭神経内枝が舌骨甲状膜を貫いている部位にほぼ一致している。本疾患の診断のためには器質的疾患が存在しないことが原則である。

本症例では明らかな trigger point は認められなかったが、他の所見は上喉頭神経痛の症状に一致しており、また、診断的治療の手段である上喉頭神経ブロックにより痛みは消失した。本例においてもっとも重要な鑑別疾患として舌咽神経痛が考えられるが、これは舌咽神経ブロックにより痛みが軽快しなかったことから否定した。

また、大野ら⁷⁾ は上喉頭神経痛に失神発作を伴った症例を報告している。舌咽神経痛における徐脈や低血圧などの心血管反応の発生機序としては孤束核の異常興奮が隣接する迷走神経背側核へ影響を及ぼすことによると Roa らは推測しており⁹⁾、大野らは孤束核は舌咽神経からの線維のみでなく上喉頭神経からの知覚線維も受けているため上喉頭神経症例においても Roa らの推測と同様の機序で心血管反応が引き起こされると考えている⁷⁾。我々の症例においてはその経過中を通じてこのような症状は発生しなかった。さらに、直視下ブロックの際には心電図および非観血的血圧測定の持続モニタリングを行っていたが、発作が誘発されたときにも循環動態の変化は認められなかった。上喉頭神経は迷走神経下神

Fig. 1 Superior laryngeal nerve block by 3ml of 0.5% bupivacaine.

Fig. 2 Alcohol injection into internal branch of superior laryngeal nerve.

Fig. 3 Marker of injection site.

Fig. 4 Schematic illustration of SLN.

MED: medulla oblongata
 SG: superior ganglion
 IG: inferior ganglion
 SLN: superior laryngeal nerve
 I: internal branch
 L: lateral branch
 HB: hyoid bone
 TC: tracheal cartilage
 T: trachea

経節からでて内頸動脈の内側に沿って甲状軟骨上角に向け下内方に走り、舌骨の高さで内外2枝に分かれ、内枝は主として粘膜枝で甲状舌骨膜を貫いて喉頭内に入り、喉頭の知覚は主としてこの上喉頭神経内枝により支配されている (Fig. 4)。

本症例では頻回の上喉頭神経ブロックがすでに行われており、効果持続時間が短くなっていたため、直視下に外枝との分岐部近くで内枝に選択的に無水エタノールを注入した。また、痛みが再発したときに透視下で確実にブロックが施行できるように目印となるヘモクリップを留置することにより、ふたたび直視下ブロックを行う必要を省いた。

上喉頭神経痛の治療としては、薬物療法としてはカルバマゼピンの投与が有効であると考えられており、カルバマゼピンの投与のみでコントロール可能

であった報告も認められる。しかし、今回の症例ではカルバマゼピンの投与は 300mg/day より開始され、本院初診時には 600mg/day 服用していたが、痛みのコントロールはできていなかった。次に局所麻酔薬による上喉頭神経ブロックは診断的治療法として大切である。上喉頭神経ブロックは舌骨大角と甲状軟骨の上角との中央を刺入点として、容易に行うことができる。しかし、本症例のように何回も繰り返して行われている例では、ブロック後の痛みの消失は認められたが、その効果時間は短くなり、また刺入部位のオリエンテーションもつきにくくなっていた。その他の治療法としては神経内へのエタノール注入、神経切断および高周波熱凝固などがある。本症例ではより確実にエタノールブロックを行うために局所麻酔下の上喉頭神経を露出し神経内にエタノールを注入した。しかしながら、上喉頭神経痛の病因は明らかでなく、神経内エタノール注入や神経切断では再発の可能性が考えられる。考えられている原因として、喉頭の粘膜に存在する知覚のレセプターに異常があるのではないかという報告¹⁰⁾や顔面痙攣や三叉神経痛と同様の治療法として微小血管減圧術を行い¹²⁾、舌咽神経痛の原因¹¹⁾と同じく後下小脳動脈が原因であったという報告も認められる。本症例ではMRI所見上、後下小脳動脈などに異常はなく明らかな原因血管の存在は認められなかった。しかしながら本症例においてもさらに経過を観察しながら、この疾患の病因の検索およびより効果的な治療法を追求していくことが必要だと考えられる。

文 献

- 1) Avellis, G., Typische Form von Kehlkopf-neuralgie, Munch. Med. Wochenschr., **47** (1900) 1592-1594.
- 2) Echols, D. H. and Maxwell, J. H., Ann Arbor, clinical notes, suggestions and new instruments superior laryngeal neuralgia relieved by operation, Jour. A. M. A. Dec., **29** (1934) 2027-2028.
- 3) Schmidt, D. and Strutz, I., Superior laryngeal neuralgia, J. Neurol., **225** (1981) 223-225.

- 4) Bruyn, G. W., Superior laryngeal neuralgia, Cephalalgia, **3** (1983) 235-240.
- 5) Chawla, J. C. and Falconer, M. A., British Medical Journal, **3** (1967) 529-531.
- 6) Karlan, M. S., Beroza, L. and Cassisi, N. J., Anterior cervical pain syndromes, Otolaryngol. Head Neck Surg., **87** (1979) 284-291.
- 7) 大野健次, 湯田康正, 塩谷正弘, 大瀬戸清茂, 唐澤秀武, 若杉文吉: 失神発作を伴った特発性上喉頭神経痛の1例, Pain Clinic, **11** (4) (1990) 548-552.
- 8) Brownstone, P.K., Ballenger, J. J. and Vick, N. A., Bilateral superior laryngeal neuralgia, Arch. Neurol., **137** (1980) 525.
- 9) Roa, N. L. and Krupin, B. R., Glossopharyngeal neuralgia with syncope—anaesthetic considerations, Anesthesiology, **54** (1981) 426-428.
- 10) 佐藤意生, 隈上秀伯: 上喉頭神経痛症例, 耳鼻, **21** (1975) 466-469.
- 11) Miyazaki, S., Fukushima, T., Fujimaki, T., Wakiya, K., Yamamoto, H. and Takusagawa, Y., Microvascular decompression for glossopharyngeal neuralgia, Pain Reseach, **5** (1990) 75-83.
- 12) 立石 修, 長沼芳和, 湯田康正, 塩谷正弘, 大瀬戸清茂, 唐澤秀武, 若杉文吉, 福島孝徳: 舌咽神経痛を合併した上喉頭神経痛の一症例, 第23回日本ペインクリニック学会総会抄録, pp.76

Address for correspondence: Naomi Hirakawa, M. D., Surgical Center, Saga Medical School Hospital, 5-1-1 Nabeshima, Saga 849, Japan.
Telephone: 0952-31-6511