

茎状突起過長症4例の臨床的検討

多根総合病院 耳鼻咽喉科¹大阪公立大学大学院医学研究科 耳鼻咽喉病態学・頭頸部外科学²金本紀亜¹ 天津久郎¹ 大野峻¹ 寺西裕一²
角南貴司子²

要 旨

茎状突起過長症は咽頭痛、顎下部痛、耳下部痛など非特異的な症状をきたすが、複数の医療機関を受診しても原因が分からず長期の経過を辿る例がある。保存的加療で症状が改善しない場合には手術が検討される。手術には口内法と頸部外切開法があるが、それぞれ利点と欠点があり、どちらを選択するかについて議論の余地がある。今回われわれは、多根総合病院と大阪市立大学（現・大阪公立大学）医学部附属病院で経験した4例を報告する。診断には頸部CTの3D構築画像に加え、本疾患を念頭において身体所見を取ることが有用であった。3例は保存的加療で症状は軽快し、1例は保存的加療で改善せず手術加療を行った。口内法で茎状突起を切除したが、咽頭痛が軽快せず、さらに外切開による全摘出を行って咽頭痛を消失させることができた。4症例の茎状突起過長症の診断方法、外科的治療法の選択について若干の文献的考察を加えて報告する。

Key words : 茎状突起過長症 ; 3D-CT ; 頸部外切開法

はじめに

茎状突起過長症は、発生の過程において過長した茎状突起、もしくは茎突舌骨靭帯の骨化により、咽頭痛・開口時痛・耳痛・咽頭違和感・頸部痛など、様々な症状をきたすが、診断に苦慮することも多い。治療は薬物治療と手術治療に大別される。後者は、口内法もしくは頸部外切開による茎状突起の切除である。

今回われわれは、茎状突起過長症4例を経験した。4例について、年齢、性別、主訴、初診時身体所見、初診時の茎状突起の長さ（頸部3D-CTによる測定）、臨床経過についてまとめた（表1）。3例は保存的治療で症状が軽快した。1例は両側の過長茎状突起により両側の咽頭痛を生じており、保存的治療で改善せず、手術加療を行った。前医にて口内法での右茎状突起切除術を施行されたが、症状は軽快しなかった。その後頸部外切開法を行い、右茎状突起を基部から切除し全

摘出することで症状が消失した。さらに左側咽頭痛に対しても頸部外切開法にて左茎状突起を基部より切除し、全摘出したところ、疼痛は消失した。代表的症例の経過とともに茎状突起過長症の診断と治療方針について若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

〈症例1〉

患者：60歳、男性。

主訴：右耳下部痛。

現病歴：約1か月前からの開口時、嚥下時、顎を動かした際の右耳下部痛で多根総合病院耳鼻咽喉科を受診した。

身体所見：触診で右扁桃上極に圧痛を認めた。口腔内・両側鼓膜・外耳道に異常所見は認めなかった。開口時に顎関節のクリック音は認めなかった。顎下腺、耳下腺周囲を含め、顔面頸部に腫瘍は触知しなかった。



表1 茎状突起過長症4例

	症例1	症例2	症例3	症例4
年齢	60	58	64	45
性別	男性	男性	男性	男性
主訴	・開口時の右耳下部痛	・両側咽頭痛 ・右拍動性耳鳴 ・両側扁桃窩の硬結の自覚	・右耳下部痛 ・右下顎角裏面に自発痛	・右顎下部痛
初診時身体所見	右口蓋扁桃上極に圧痛	特記すべき異常所見なし	特記すべき異常所見なし	右口蓋扁桃窩に圧痛
初診時の茎状突起の長さ(頸部3D-CTによる測定)	右: 50 mm 左: 30 mm	右: 25 mm 左: 47 mm	右: 40 mm 左: 44 mm	右: 28 mm 左: 29 mm
臨床経過	鎮痛薬内服し症状は徐々に軽快. 初診後約2年で症状消失.	右側茎状突起を頸部外切開法で摘出後, 右側咽頭痛と右拍動性耳鳴は消失. 左側咽頭痛も左茎状突起摘出後に消失.	鎮痛薬内服し初診後2週間で症状消失.	鎮痛薬内服し初診後数日で症状は消失.

臨床経過：内視鏡検査では咽喉頭に明らかな異常所見は認めなかった。開口時の右耳下部痛であり、当初は顎関節症を疑い、その他耳下腺腫瘍などを鑑別に挙げ、頸部超音波検査、単純CT検査を施行した。画像所見では顎関節や顎下腺、耳下腺、リンパ節などに異常所見は認めなかったが、両側茎状突起の過長所見を認めた。CTの3D構築画像から、右茎状突起は50mm、左茎状突起は30mmであった。右茎状突起は本来の茎状突起の延長線上に化骨した茎突舌骨靭帯を認め、先端部は右口蓋扁桃上極に達していた(図1)。CT所見、右扁桃上極の圧痛所見と開口時、嚥下時、顎を動かした際の右耳下部痛を合わせ、茎状突起過長

症による疼痛と考え、鎮痛薬を処方した。徐々に症状は軽快し、初診後約2年経過した頃、症状は消失した。

〈症例2〉

患者：58歳，男性。

主訴：両側咽頭痛，右拍動性耳鳴。

現病歴：約3年前から両側咽頭痛と扁桃窩の硬結を自覚していた。また、心拍と同期する右耳鳴も自覚しており、左側咽頭痛は頸部捻転時や欠伸の際に誘発された。前医耳鼻咽喉科にて頸部単純CTで両側茎状突起過長症を指摘された(図2)。口内法にて右茎状突起の過長部分(化骨した茎突舌骨靭帯)を摘出された

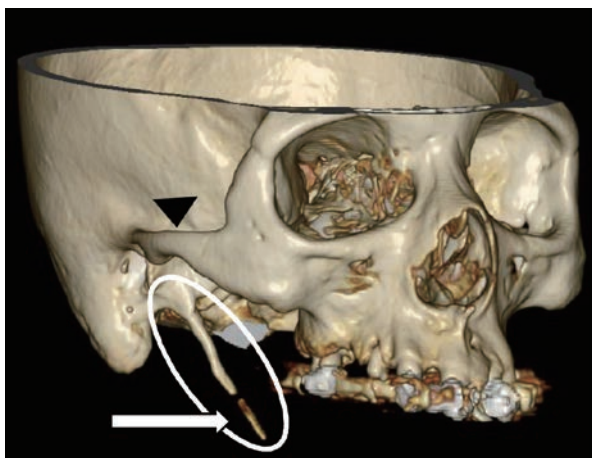


図1

症例1：頭部3D-CT 右前方からの所見
本来の右茎状突起の延長線上に化骨した茎突舌骨靭帯(→)を認め、右茎状突起は全長(楕円)で50mmであった。

▼：右頬骨弓

〈電子版カラー掲載〉

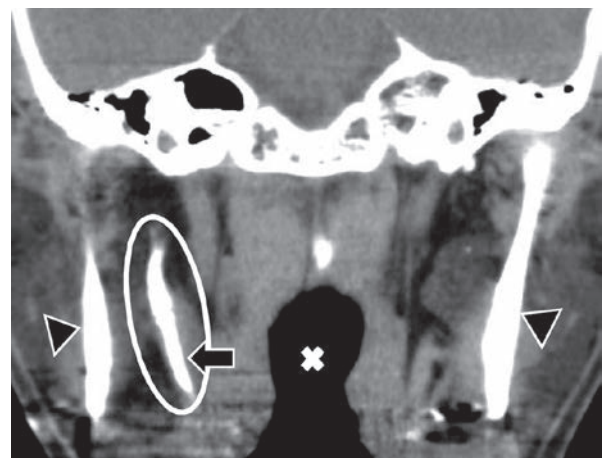


図2

症例2：前医初診時 頸部単純CT(冠状断)
本来の右茎状突起の延長線上に化骨した茎突舌骨靭帯(←)を認める。

×：口腔・咽頭腔 ▲：下顎骨 ○：右茎状突起

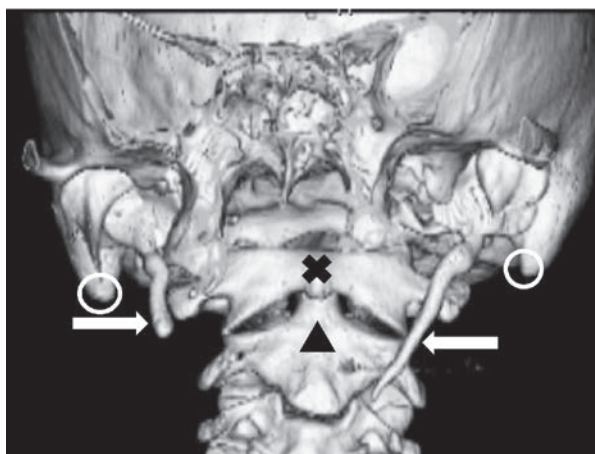


図3

症例2：当科初診時 頭頸部3D-CT（冠状断）前方から見た画像
 右茎状突起（→）は前医での口内法術後であり約25 mmに短縮，左茎状突起（←）は約47 mmで過長を認めた。
 ○：乳様突起 ×：環椎 ▲：軸椎

が、症状は一時的に軽減するも、術後3か月で右咽頭痛が再燃した。前医では追加手術は困難と判断され、手術目的で大阪市立大学（現・大阪公立大学）医学部附属病院耳鼻咽喉科・頭頸部外科を紹介受診した。

初診時所見：口腔内に異常所見を認めず、内視鏡検査で咽頭頭に明らかな異常所見は認めなかった。頸部3D-CTでは右茎状突起は前医での口内法による手術により約25 mmに短縮しており、左茎状突起は約47 mmで、中咽頭粘膜下まで達していた（図3）。右側咽頭痛は、残存した右茎状突起が原因となっている可能性を考えた。右側の疼痛症状が強く、受診後約2か月後に右側の茎状突起切除術を施行した。茎状突起基部より切除するため、頸部外切開法によるアプローチを選択した。

手術所見：右下顎骨下縁より1.5横指下方にて皮膚に横切開をおいた。顔面神経下顎縁枝は同定しなかったが、顎下腺を前上方に、耳下腺下縁を後上方に挙上し、深部にて茎状突起を確認した。茎突舌骨筋など周囲の筋組織と剥離し、茎状突起を可及的に頭側へ追って付着部位にて舌骨剪刀で切断し、摘出した。断端はヤスリにて滑らかにし、手術終了した。摘出した茎状突起は25 mm長であった。

術後経過：右側術後、右側咽頭痛と右拍動性耳鳴は消失した。また、頸部捻転時や欠伸の際の左側咽頭痛を認めており、頸部3D-CTと疼痛部位より左茎状突起過長症による症状と考えた。患者の希望もあり、右側手術の約1か月後に頸部外切開法にて左側過長茎状突起切除術を施行した。右側同様に突起基部より切除

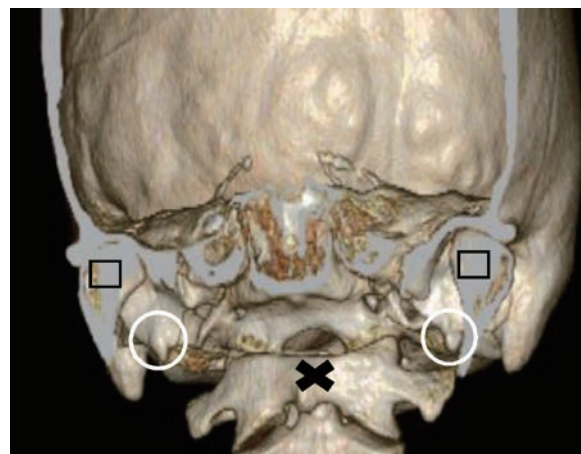


図4

症例2：両側茎状突起切除術術後 頸部3D-CT（冠状断）前方から見た画像
 両側ともに茎状突起が基部まで切除できていることを確認した。
 ○：茎状突起基部 □：下顎骨関節突起 ×：環椎
 （電子版カラー掲載）

し、全摘出した。摘出した左茎状突起は47 mm長であった。左側術後、左側咽頭痛も消失した。術後、頸部3D-CTにて両側ともに基部より摘出されていることを確認した（図4）。顔面神経麻痺症状や開口障害など明らかな術後合併症は認めなかった。術後3年間経過観察を行ったが、両側ともに疼痛の再燃は認められなかった。

考 察

茎状突起過長症は、発生の過程において過長した茎状突起、もしくは茎突舌骨靭帯の骨化により非特異的で多彩な症状をきたす。咽頭痛や耳痛、耳下部痛、顎下部痛、開口時痛などの症状は扁桃炎や中外耳炎、顎下腺炎、歯髓炎、顎関節症、舌咽神経痛、耳下腺癌、顎下腺癌、中咽頭癌などの疾患と鑑別が必要であり、身体診察、咽頭頭内視鏡検査、頸部超音波検査、頸部CT検査にてそれらの疾患の除外が必要である。本疾患において診断は頸部3D-CTと口蓋扁桃を中心とした周囲の触診が有用とされている。茎状突起の長さは本邦では平均18.8 mmと報告されている¹⁾。25 mmから30 mm以上を過長としている文献が多く、Eagleは茎状突起が25 mmを超える症例は成人の4%程度に存在し、そのうち約4%に症状を認めると報告している²⁾。茎状突起の長さとの相関を示す報告はない³⁾。画像所見のみでは本疾患が症状の原因かどうかは断定できない。本報告の4症例いずれも、頸部CTにて過長した茎状突起過長を認めたこと、扁桃周囲の痛みや圧痛を認めたことにより診断に至っ

た。本疾患は稀な疾患であるが、耳下部痛、顎下部痛、咽頭痛などの症状では、本疾患を念頭におき診療することが重要である。

症状出現の病態としては2つに大別され、①過長茎状突起自体の咽頭・舌根部・舌骨の物理的刺激による症状、②頸動脈圧迫による頸部交感神経症状や舌咽神経などの神経の刺激による症状に分けられる⁴⁾。神経や脈管と茎状突起の位置関係が変わることにより症状が改善される症例も報告されている⁵⁾。症例2では術後に咽頭痛、拍動性耳鳴症状が消失した。頸部CT上、茎状突起自体は頸動脈に接している所見はなかったが、茎状突起摘出により頸動脈と周囲組織との位置関係が変化したことが要因と考えられた。

治療には保存的療法と外科的治療がある。前者は消炎鎮痛薬や塩酸チザニジン、ジアゼパムの投与などである。それらで改善がない場合、外科的治療が選択肢となる。手術のアプローチには口内法と頸部外切開法がある。頸部外切開法は頸部に術創が残る点、顔面神経麻痺・開口障害の可能性があるという欠点があるが、利点は術中に血管の走行が把握でき、広い術野で長く肥大化した茎状突起を切除できることである⁴⁾。一方、口内法は頸部に術創を残さない利点はあるが、視野が狭く周囲血管損傷のリスクがあること、茎状突起基部までの確認が困難であり、完全な切除が困難という欠点がある⁴⁾。

切除する範囲に関しては、延長部のみの切除、もしくは茎状突起基部から30 mm以下に短縮させると症状は消失するといった報告があるが^{4,6,7)}、中には再度症状を呈する可能性があることに留意しなければならない。Ceylanらは61例の頸部外切開症例について報告しているが、61例のうち4例は症状が残存し、手術後も疼痛が残存する原因の一つとして、茎状突起の不完全な切除を挙げている⁸⁾。口内法では術野が狭く、突起基部までの到達が困難であると考えられ、茎状突起を全摘出するためには頸部外切開法が必要である。

症例2では、前医での口内法術後に右茎状突起は25 mmに短縮し症状は一旦軽快したが、術後3か月で症状が再発した。その後われわれは、処理にあたっての安全性、到達距離の観点から、頸部外切開法にて残存した右茎状突起を全摘出した。その結果、術後合併症は認めず、術後右側咽頭痛は消失した。口内法術後に残存していた茎状突起により、舌咽神経もしくは咽頭の物理的刺激、その他頸部組織に何らかの影響を及ぼし、症状再発を呈していた可能性が考えられる。茎状突起過長症の症状消失のためには口内法より、確

実な全摘出が可能となる頸部外切開法による切除が望ましいと考えられた。

結 語

茎状突起過長症は診断が難しく、複数の医療機関を受診しても診断に至らないことが多い。嚥下時違和感や咽頭痛、耳痛、頸部痛、開口時痛などの症状の場合、本疾患を念頭に置く必要があるが、耳下腺癌や顎下腺癌などの腫瘍性病変やその他の疾患の除外も必要である。

いずれの症例も頸部CTの3D構築に加え、問診、触診が診断において重要であった。

口内法の切除では改善せず、頸部外切開での再手術にて突起基部より全摘出し、改善した茎状突起過長症の症例を経験した。茎状突起過長症の症状消失のためには頸部外切開法による全摘出が望ましいと考えられた。

著者は申告すべき利益相反を有しない。

本論文の要旨は第34回日本口腔・咽頭科学会総会ならびに学術講演会(2021年9月2日~3日, 大阪市)で発表した。

文 献

- 1) 中田正之, 西尾順太郎, 綿谷和也, 他: 茎状突起の発育に関するX線学的検討. 日口腔外会誌, 33 (11): 2224-2229, 1987
- 2) Eagle WW: Symptomatic elongated styloid process. Arch Otolaryngol, 49 (5): 490-503, 1949
- 3) Murtagh RD, Caracciolo JT, Fernandez G: CT findings associated with Eagle syndrome. AJNR Am J Neuroradiol, 22 (7): 1401-1402, 2001
- 4) 鬼頭良輔, 工 穰, 宇佐美真一: 外切開にて切除した長大な茎状突起過長症の1例. 口腔咽頭科, 26 (1): 105-109, 2013
- 5) 三上 豊, 虫本浩三, 白数力也: 茎状突起過長症の1症例. 日口腔外科会誌, 35 (3): 684-688, 1989
- 6) 細川恵一, 重松久夫, 奥 結香, 他: 茎状突起過長症に対し口外法により手術した1例. 日口腔外会誌, 57 (5): 299-303, 2011
- 7) 山下雅資: 茎状突起の画像診断に関する研究. 歯科医, 65 (2): 165-180, 2002
- 8) Ceylan A, Köybaşıoğlu A, Celenk F, et al:

Surgical treatment of elongated styloid process :
experience of 61 cases. Skull Base, 18 (5) :

289-295, 2008

Editorial Comment

茎状突起過長症は稀な疾患であり、咽頭痛や嚥下時痛、顎下部痛など多彩な症状の原因となりうる。しかし、視診上特徴的所見はなく触診でも頸部から茎状突起自体は触れず、したがって茎状突起過長症はしばしば見過ごされていると思われる。

本論文は、この稀な茎状突起過長症を4例集積した貴重な報告である。特に病歴では、耳下部痛を訴える2例で開口時に疼痛を訴えたこと、また口蓋扁桃周囲の触診を試み、うち2例で圧痛を認めた点が外来診療で本疾患を疑う有用な情報であり、今後の診療の参考になる。まずは消炎鎮痛剤による保存的治療が行われるが、難治例では外科的治療の対象となる。外科的治療は口蓋扁桃を摘出後、扁桃窩の背側にある茎状突起にアプローチし切除する経口法と、頸部切開によりアプローチする外切開法がある。いずれも内頸動脈や顔面神経、下位脳神経などの損傷に留意する必要がある。近年はナビゲーションや超音波骨メスを用いた手術の報告^{1,2)}もある。本論文の症例2、両側茎状突起過長例では両側とも外切開での切除を行い、副損傷な

く症状の消失が得られている。また術後CTの3-D画像では両側の茎状突起が基部から十分に切除されていることがわかる。以上より茎状突起過長症に対する外科的治療は有用であり、保存治療では難治な症例に対し考慮すべきであることが本論文より理解することができる。

大阪医科薬科大学病院 耳鼻咽喉科・頭頸部外科
萩森伸一

文献：

- 1) Spalthoff S, Zimmerer R, Dittmann O, et al : Piezoelectric surgery and navigation : a safe approach for complex cases of Eagle syndrome. *Int J Oral Maxillofac Surg*, 45 (10) : 1261-1267, 2016
- 2) 鈴木綾子, 宮本俊輔, 中山明仁, 他 : ナビゲーションガイド下に切除した茎状突起過長症例. *耳鼻臨床*, 109 (5) : 327-331, 2016

茎状突起 styloid process は細く尖った骨突起の総称で、本論文で論じられている側頭骨の他に橈骨、尺骨、第3中手骨にも茎状突起が存在する。側頭骨茎状突起は耳の直下にあり、側頭骨下面から前下方に伸び、舌や咽頭に関係した筋の附着部を形成する。専門外の方にも理解しやすいように言うと、少し乱暴な表現だが、細く尖った茎状突起は頭蓋底から喉に突き出た釘のようになっているため、その過長症では咀嚼や嚥下に際して咽頭の組織が釘（茎状突起）に擦られ神経（舌咽神経）の痛みとして感じられる¹⁾。

耳鼻咽喉科以外に脳神経外科の関連領域でもあり、もう少し解説すると側頭骨茎状突起は発生学的にライヘルト軟骨 Reichert cartilage の軟骨内骨化から形成される（詳細には異論もある²⁾）。第二咽頭弓（舌骨弓 hyoid arch, 支配神経は顔面神経）に由来し、茎状突起からは3つの筋が起始する。茎突舌骨筋 stylohyoid muscle（顔面神経支配）、茎突咽頭筋 stylopharyngeus muscle（舌咽神経支配）、茎突舌筋 styloglossus muscle（舌下神経支配）である。それぞれ異なる咽頭弓/体節が発生母地となるため支配神経が異なる²⁾。覚えにくく、約30年前に専門医試験の受験勉強で苦労した覚えがある。専門医取得後に留学する機会があったが、当時、米国の神経外科レジデントも咽頭弓の発生を勉強していた。上記の文献2)は、

小生の留学先（米国 Barrow Neurological Institute, Robert F. Spetzler 先生）からの総説で、何処も同じだなと感じた思い出がある。

茎状突起過長症は、本文に文献2)として引用されている米国 Duke 大学の耳鼻科医 Watt W. Eagle (1898-1980) によってその臨床像が詳しく報告され、Eagle 症候群と呼ばれている。二つのタイプがあり、頸部の痛み（茎状突起の痛みなので stylalgia と呼ぶ）や嚥下障害をきたす classic type と、失神、一過性脳虚血発作、脳卒中（内頸動脈 internal carotid artery の閉塞・解離）を呈する carotid type (carotid artery syndrome) に分けられる^{2,3)}。Classic type は耳鼻咽喉科/頭頸部外科で、carotid type は脳神経外科/脳神経内科で診療することが多い。多彩な症状を示すために鑑別診断も多岐にわたるが、本論文に述べられているように本疾患を念頭に置いた病歴聴取、触診が Eagle 症候群に辿り着くための鍵となる。先天性、外傷、加齢など様々な機序が原因として想定されているが、臨床像も含めて未だ不明な点も多い。最近、内頸静脈 internal jugular vein が圧迫されて頭痛や特殊なくも膜下出血 (peri-mesencephalic hemorrhage) を生じる jugular variant⁴⁾、ベル麻痺 (Bell's palsy) 類似の末梢性顔面神経麻痺^{5,6)}も報告されている。

上述したように、頭蓋外の内頸動脈狭窄、動脈解

離, 仮性動脈瘤などの疾患群の中に茎状突起過長に起因するEagle症候群(carotid type)が含まれ, 脳神経外科医/脳血管内治療医にとっても注意が必要である。近年, 脳血管内手術として頸動脈ステント留置術 carotid artery stenting (CAS) が普及したが, 術前に見逃された過長茎状突起によるステント断裂 stent fracture が報告されている。ステントの種類としては従来のCarotid WALLSTENT[®](Stryker)^{7,8)}の他, 新しいCASPER RX[®](Microvention-Terumo)⁹⁾, flow diverter であるFRED[®](Microvention)¹⁰⁾でも報告がある。緊急避難的にCASが必要な場合もあり, 後で茎状突起切除を追加するかどうかなど個別に治療方針を考える必要がある^{11,12)}。本論文やこれらの報告からは, 稀少疾患を正確に診断する重要性を学ぶことができる。

また, 本論文では大阪公立大学大学院医学研究科耳鼻咽喉病態学・頸頭部外科学教室と合同で貴重な4症例が集められている。編集部として, このような取り組みが今後も発展してほしいと願っている。

神経・脳卒中センター 脳神経外科
小川竜介

文献:

- 1) Wikipedia: 側頭骨茎状突起. 2022. <https://ja.wikipedia.org/wiki/側頭骨茎状突起> (参照2023. 2. 12)
- 2) Fusco DJ, Asteraki S, Spetzler RF: Eagle's syndrome: embryology, anatomy, and clinical management. *Acta Neurochir (Wien)*, 154 (7): 1119-1126, 2012
- 3) Badhey A, Jategaonkar A, Kovacs AJA, et al: Eagle syndrome: A comprehensive review. *Clin Neurol Neurosurg*, 159: 34-38, 2017
- 4) Zamboni P, Scerrati A, Menegatti E, et al: The Eagle jugular syndrome. *BMC Neurol*, 19 (1): 333, 2019
- 5) Péus D, Kollias SS, Huber AM, et al: Recurrent unilateral peripheral facial palsy in a patient with an enlarged styloid process. *Head Neck*, 41 (3): E34-E37, 2019
- 6) Nunes F, Fernandes MJ, Silva M, et al: Eagle's Syndrome presenting as peripheral facial palsy. *Cureus*, 14 (2): e22499, doi: 10.7759/cureus.22499, 2022
- 7) Hooker JD, Joyner DA, Farley EP, et al: Carotid stent fracture from stylocarotid syndrome. *J Radiol Case Rep*, 10 (6): 1-8, 2016
- 8) Yano T, Sasaki I, Kiyohara K, et al: Carotid stent fracture due to eagle syndrome after endovascular stenting for the treatment of acute ischemic stroke caused by internal carotid artery dissection: Case report. *JNET*, 13 (11): 454-461, 2019
- 9) Tan D, Crockett MT, Chiu AHY: Delayed tine displacement of a CASPER carotid artery stent due to styloid process compression. *Clin Neuroradiol*, 29 (3): 567-569, 2019
- 10) Pfaff JAR, Weymayr F, Killer-Oberpflazer M: Fracture of a flow diverter in the cervical internal carotid artery due to Eagle syndrome. *Neurointervention*, 18 (1): 72-75, 2023
- 11) Torikoshi S, Yamao Y, Ogino E, et al: A staged therapy for internal carotid artery dissection caused by vascular Eagle syndrome. *World Neurosurg*, 129: 133-139, 2019
- 12) Okada Y, Mitsui N, Ozaki H, et al: Carotid artery dissection due to elongated styloid process treated by acute phase carotid artery stenting: A case report. *Surg Neurol Int*, 13: 183, 2022