

# 茎状突起過長症の2例—非定型的臨床病態

瀧田正亮 西川典良 京本博行 高橋真也

大阪府済生会中津病院 歯科口腔外科

## 和文抄録

症例1：30歳代男性，2年前に $\overline{8}$  抜歯後左側口蓋咽頭部付近の「じりじりした痛み」を主訴として8医療機関を経て当科に紹介された。患側茎状突起は34.9mmを計測するも，口腔内からは触知できず，手術適応に乏しいと考えられた。症例2：50歳代男性，右側下顎角部の痛みに対する治療を希望して来院された。4年前に他院で茎状突起過長症の診断下で切除術を受けており，画像上も同部の形態異常は見られなかった。2例とも摂食時には訴えは軽減しており，本疾患の病態の多様性について考察した。

Key Words：茎状突起，非定型的口腔・顔面痛，心身のストレス

## 緒言

茎状突起は，側頭骨錐体下面頸静脈窩の後縁から下方に向かう突起であり付着する茎突舌骨靭帯の石灰化により過長となると，Eagle 症候群と称される極めて多彩な臨床症状を呈する病態となる<sup>1</sup>。医学中央雑誌やPub Med からの検索では現在でも特異な例を閲覧することができるが，耳鼻咽喉科・頭頸部外科や歯科口腔外科以外にも，内科<sup>2</sup>，麻酔科<sup>3</sup>，脳神経外科<sup>4</sup>等からの報告がみられ，本疾患の病態の複雑さが示唆される。今回われわれは患者の訴えの続く茎状突起過長症に該当する2例を経験したのでその病態について考察した。

## 症例

症例1：30歳代男性

初診：A年B月〇日。

主訴：左側軟口蓋から上下顎間部および舌根部にかけての「ジリジリした痛み」(患者の表現)(図1)。

現病歴：4年前に左側耳痛・耳閉感の訴えがあり，2年前に同側下顎智歯抜歯を近隣の歯科医院で受けてからは上記の訴えとなった。以後耳鼻咽喉科2医療機関，歯科口腔外科3医療機関，歯科医院1医療機関，ペインクリニック1医療機関，内科1医療機関に受診され，エチゾラム錠，カルバマゼピンの他，抑肝散，半夏厚朴湯，小紫胡湯加桔梗石膏等の漢方薬が処方されたが，いずれも効果がなく，内科より口腔心身症の

疑いで紹介を受けた。なお，訴えはデスクワーク時に強く，体動時，摂食時，入浴時には緩和しチューインガムを咬んでいる時は更に緩和することであった。

初診時所見：身体他部の異常は認めず，左側軟口蓋部と同側内側翼突筋部に圧痛を認めたが，他に異常所見を認めなかった。パノラマ所見でも明らかな異常は確認できなかった。

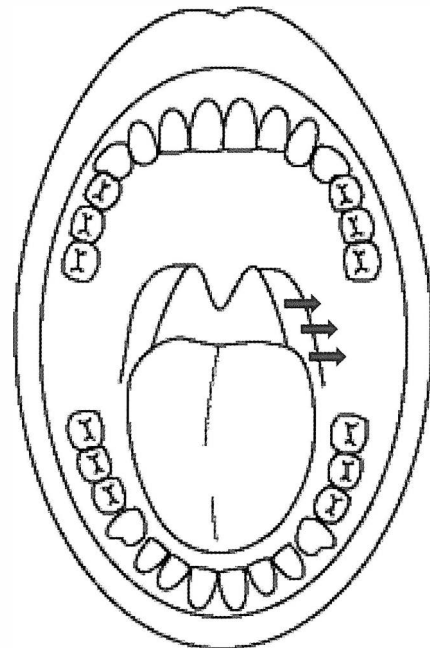


図1 症例1の非定型痛「ジリジリした痛み」の範囲を示す。左側内側翼突筋に圧痛を認める以外異常を認めなかった。

受け付け：平成30年2月28日

## 茎状突起過長症

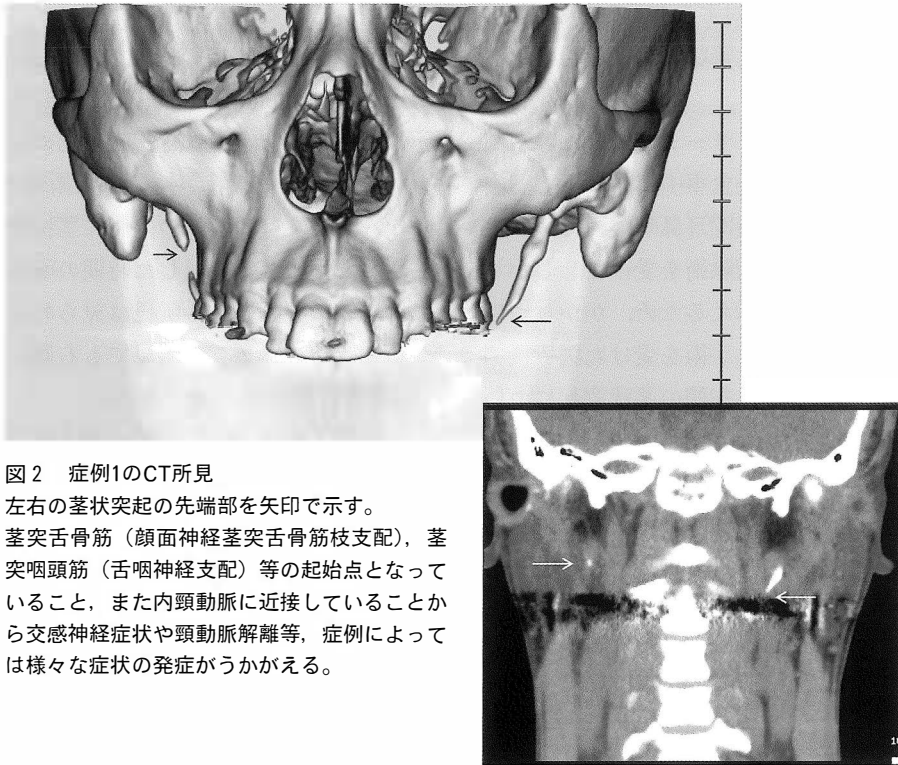


図2 症例1のCT所見

左右の茎状突起の先端部を矢印で示す。茎突舌骨筋（顔面神経茎突舌骨筋枝支配）、茎突咽頭筋（舌咽神経支配）等の起始点となっていること、また内頸動脈に近接していることから交感神経症状や頸動脈解離等、症例によっては様々な症状の発症がうかがえる。

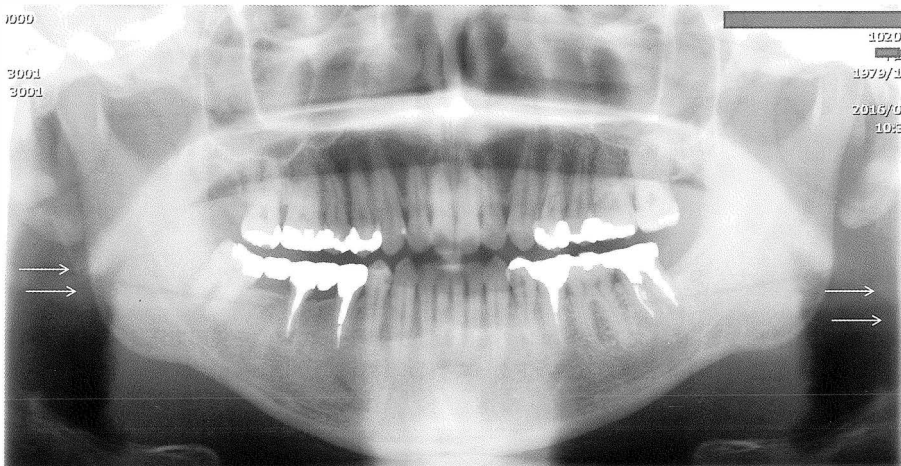


図3 症例1初診時のパノラマ写真の所見 CT所見を参考にすると茎状突起の左右差が示唆される（右側：細く正常計測値、左側：太く過長）。

経過：エペリゾン塩酸塩製剤の内服により一時的に緩和傾向が見られたが（初回投与2週間）、訴えは続いた。診察上異常を認められないものの訴えが続くため、患者の希望により1ヶ月間隔で観察を続けていた。初診1年3ヶ月を経過した時点で茎状突起過長症も否定できないと考えCT検査を行ったところ茎状突起の長さは右側18.8mmに対して左側は34.9mmであり、茎状突起過長症として手術の適応を検討した。画像上では診断されたものの口腔内からは当該突起は触知できず、近隣医療機関の病院年報を参考にして手術経験

のある医療機関に紹介したところ、手術適応は難しく引き続き当科での観察を求められた。しかし、患者の治療要望が強いため、患者在住地域の大学病院に紹介した。紹介後3ヶ月を経過する。

画像所見：3-D CT上では上述のごとく患側の茎状突起は34.9mmと計測された（図2）。レトロスペクティブに初診時のパノラマ所見を再度検討すると、患側の茎状突起は右側よりも肥大・延長が示唆された（図3）。

症例2：50歳代男性。

主訴：右側下顎角部の疼痛に対する手術希望（図4）。

既往歴：10年前に右側突発性難聴を発症，現在も継続している。

現病歴：4年3ヶ月前にマッサージを受けた際右側下顎角部を強く指圧されその後食事中に右側下顎臼歯部に痛みを訴え，近隣の医療機関耳鼻咽喉科で茎状突起過長症の診断下に茎状突起切除術を受けた。しかし以後も同側下顎角部の疼痛を訴えるため，かかりつけの歯科医院より紹介を受けた。手術を受けた医療機関での定期観察は続けられおり，左側の茎状突起については時期をみて切除予定との説明を受けていた。なお，患者の右側下顎角部の疼痛はトレーニングジムでの筋力トレーニングを行った際に激痛が走るとのことであり，摂食時に疼痛が増悪するという訴えはなくむしろ

軽減している様子であった。

初診時の顎・口腔所見：開口障害（-），両側下顎角部付近胸鎖乳突筋部（顎二腹筋後腹部）に圧痛を認めた以外に特記すべき所見を認めなかった。

画像所見：患者が持参した術前と術後2年後のCTデータからは，術前の両側の茎状突起過長の所見が示され，術後2年経過した時期の所見では右側には患者の訴えの原因となる所見は見られなかった。なお，当科初診時のパノラマ所見でも右側については，異常所見は見られなかった（図5）。

経過：患者には主訴の右側茎状突起に関しては手術適応となる所見は見られないことを説明した。そして同一病態で2医療機関に重複して受診されるよりは，現在通院中の医療機関に継続受診されることを勧め，

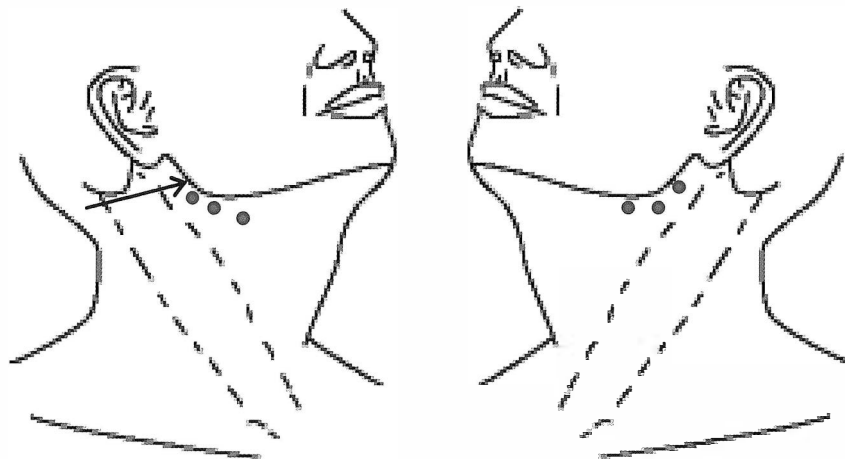


図4 症例2の主訴（「筋力トレーニング時に激痛が走る」）の部位を矢印で示す。触診上は両側の顎二腹筋後腹に圧痛を認めるのみであった（●印で示す）。

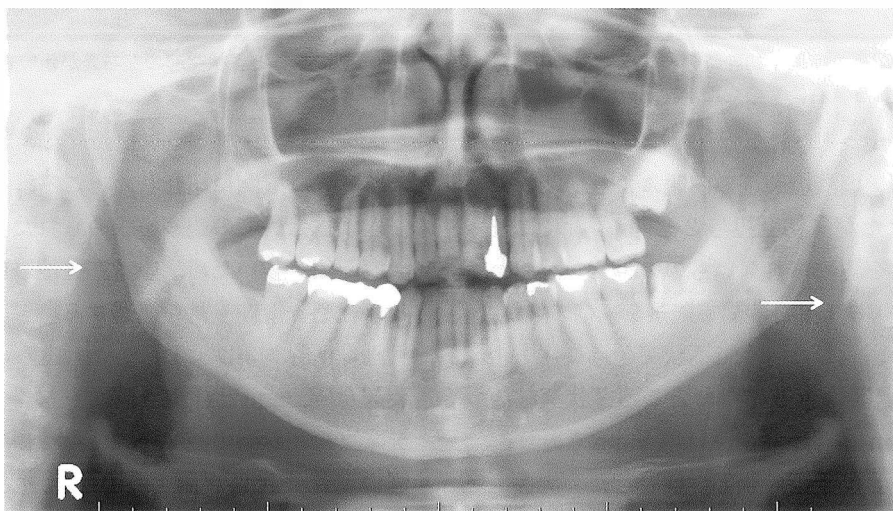


図5 症例2のパノラマ写真の所見。右側茎状突起の過長は見られない。左右の茎状突起先端部を矢印で示す。

先方には当方の所見を報告した。

考 察

茎状突起の異常による症状はEagle 症候群として口腔病理学では非定型的顔面痛の項目で扱われており<sup>1</sup>、本邦における標準的口腔外科の成書でも「神経疾患やその他の疼痛」の項目で扱われてきた<sup>5</sup>。しかし、同書を年次比較すると初版（1998年）の本疾患の原因、症状、診断についての記載は第3版（2014年）でも改訂なく、治療法が初版の手術療法のみ記載から、第3版では「対症的に薬物療法、理学療法を行うこと」へと改訂され<sup>6</sup>手術療法の適応が縮小されている。この背景には、症例数の増加に伴う様々な例が経験され、茎状突起の形態異常に関連する種々の病態要因への評価の必要性が示唆される。本疾患の診断は、画像所見として茎状突起の長さ30mm以上が観察されること、関連する臨床症状が見られること、理学所見として扁桃部の硬固物の触知と圧痛、下顎枝後縁部の圧痛や顎三角部の圧痛がみられること等<sup>7,8</sup>が準用されてきたが、外傷を誘引とする報告<sup>9,10</sup>も見られる。われわれの経験例でも症例1は患側下顎智歯の抜歯後に、症例2はマッサージで下顎角後方を強く指圧された後から症状が発現していた。

一方、本疾患の様々な臨床症状については、その病態が一様ではない<sup>11</sup>ことが窺われる（表1）。また、その多彩な症状のために耳鼻咽喉科、歯科、歯科口腔外科、心療内科、神経内科等複数の医療機関や診療科に受診されている例が本邦では多く、緒言でも述べたごとく、近年では内科<sup>2</sup>、麻酔科<sup>3</sup>、脳神経外科<sup>4</sup>からの報告が見られることは本疾患の病態に関連して注目されている<sup>12</sup>。症例1は4年間に実に8医療機関に受診され様々な投薬を受けていた。当科では、患側内側翼突筋に圧痛が見られ、またデスクワーク以外の日常動作では患者の訴えが軽減していることから、日常のストレス緩和を勧め、エペリゾン塩酸塩製剤を投与したところ僅かに改善傾向がみられたため、茎状突起周辺の筋緊張も症状の発現に関連していたと推測された。提示した2例の共通点は顎顔面の筋緊張がやわらぐ食事の際には疼痛の訴えがない点であった。症例2はトレーニングジムでの筋肉トレーニング時に右側下顎角部に激痛が走ることが再手術希望の動機であり、自らインターネットで閲覧した症例報告<sup>13</sup>のコピーを持参され、辛さを理解して欲しいと強く訴えられていた。症例1も心理的辛さの訴えは強く本疾患の患者の心理的苦痛

表1 茎状突起過長症の臨床症状文献11の記載を参考に症例1、症例2の症状を比較

	症例1	症例2
<b>茎状突起の機械的刺激に基づく症状</b>		
喉頭、舌根部の違和感	(-)	(-)
嚥下痛	(-)	(-)
<b>頸動脈への圧迫に基づく交感神経刺激症状</b>		
耳痛	[+]a	(-)
顔面痛	(-)	(+)
歯痛	(-)	[+]b
頭痛	(-)	(-)
頭部回旋時痛	(-)	(-)
<b>舌咽神経の圧迫に基づく症状</b>		
舌咽神経様疼痛	(-)	(-)
<b>舌骨に達する過長茎状突起に基づく症状</b>		
舌骨の運動障害による嚥下痛	(-)	(-)
雑音（偽関節を形成する場合）	(-)	(-)
<b>口腔外科領域に関連した症状</b>		
顎関節症	(+)c	(-)
突発性三叉神経痛	(-)	(-)
特発性舌咽神経痛	(-)	(-)
非定型顔面痛	(-)	(+)d
咽頭部異常感症	(+)	(-)

(-)：当科初診時の症状（食事の際には緩和）

[ ]：当科初診以前に見られた症状

a：閉塞感を伴う、左側下顎智歯の抜歯後は消失

b：初発時の症状

c：開口障害は見られないが患側内側翼突筋の圧痛から潜在性顎関節症が示唆された。

d：トレーニングジムで筋肉トレーニングをした時の激痛（右側下顎角部）

に対しては定型治療や単期日での対応が極めて難しいことが痛感された。

なお、症例1は仕事上のストレス、症例2は1日8時間以上のパソコン作業による心身のストレス過剰状態（ITストレス）<sup>14</sup>が主訴に関連していた可能性が推測された。症例1では心身のストレスから開放された時間帯では症状がやや緩和していたこと、症例2では心身のストレス緩和のためにトレーニングジムでの筋力トレーニングを行うという心理行動面よりその可能性が考えられた。ところで、咀嚼筋群は情動ストレスにより異常緊張することが知られており<sup>15</sup>、茎状突起に起始し舌骨に停止する茎突舌骨筋は舌骨を後方に牽引する働きを有するが<sup>16</sup>、心身のストレスや姿勢なども茎状突起の形状に相互に影響して患者の症状に関与している可能性を念頭に置くことも必要と考えられた。上述した口腔外科書最新版での茎状突起過長症の理学療法、薬物療法の適応を第一適応とした成書の記載の

意味の一つがここにあるのかもしれない。しかし、現在でも手術療法を推奨する報告<sup>17,18</sup>がみられる一方で術後に呼吸困難、嚥下障害、構音障害などの舌下神経麻痺を合併した報告<sup>3</sup>、あるいは症状の発現と茎状突起の長さや太さには相関性がないとする報告<sup>19</sup>も見られ、更には異時性に両側に出現する例の報告<sup>20</sup>も見られる。本症に関わる病態への解明と治療には、更に必要と考えられるが、訴えの改善に乏しくとも十分な患者への傾聴と関連診療科への紹介等患者支援の立場からも重要な疾患と考えられる。

#### 結 語

当科で経験した茎状突起過長症の2例を提示し、自身のストレスも要因と考えられる病態の多様性について考察した。

稿を終えるにあたり症例1の治療にあたりお世話になりました本院形成外科部長宗内 巖先生に深謝いたします。

#### 参 考 文 献

1. Shafer W G, Hine M K, Levy B M, et al: Disease of the nerves and muscles ; A Textbook of Oral Patholgy 4th Edition.W B Saunders Co, Philadelphia, 1983, pp854-875
2. Hagiya H, Waseda K, Ogawa H, et al: Eagle's Syndrome Manifesting as Chronic Swallowing Pain. Intern Med, 2015. 54: 1321
3. Altun D and Camci E: Bilateral hypoglossal nerve paralysis following elongated styloid process resection: case report. J Anesth, 2016. 30: 1082-1086
4. 瀧野 透, 土屋尚人, 浜間 啓, 他: 両側内頸動脈解離をきたしたEagle症候群の1例 (抄録). 新潟医誌, 2017. 131: 249-251
5. 山岡 稔: 神経疾患と心因性病態; 口腔外科学第2版 (宮崎 正監修, 松矢篤三, 白砂兼光編), 医歯薬出版, 東京, 2000, pp503-533
6. 山岡 稔, 安田浩一: 神経疾患と心因性病態; 口腔外科学第3版 (白砂兼光, 古郷幹彦編) 医歯薬出版, 東京, 2014, pp463-488
7. Kaufman SM, Elzay RP, Irish EF : Styloid process variation. Radiologic and clinical study. Arch Otolaryngol, 1970. 91: 460-463.
8. Moffat D A, Ramsdem R T, Schaw H J: The srtyloid process syndrom: aetiological factor and surgical treatment. J Laryngol Otol, 1997. 91: 279-294
9. Piagkou M, Anagnostopoulou S, Kouladouros K, et al: Eagle's syndrome: a review of the literature. Clin Anat, 2009. 22: 545-558
10. Klécha A, Hafian H, Devauchelle B, et al: A report of post-traumatic Eagle's Syndrome. Ann Maxillofac Surg, 2017. 7: 232-236
11. 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摘出した1例. 日口外誌, 2011. 57: 299-303
12. 中島寅彦: 茎状突起過長症 (Eagle症候群). 耳鼻, 2009. 55: 46-48
13. 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. 耳鼻咽喉科展望, 1969. 23-25
14. Padma V, Anand NN, Gurukul SM, et al: Health problems and stress in information technology and business process outsourcing employees. J Pharm Bioallied Sci, 2015. 7(Suppl 1): S9-S13
15. Lavigne GJ, Abe S, Khoury S, et al: Bruxism physiology and pathology: an overview for clinicians. J Oral Rehabil, 2008. 35: 476-479
16. 森 於菟, 大内 弘: 解剖学1 筋学 頸部の筋. 金原出版, 東京 pp281-291
17. 熊井良彦, 湯本英二: 茎状突起過長症10例の検討 (抄録). 日耳鼻咽喉会報, 2015. 118: 592
18. 館 順子, 吉村貴, 木村 緑, 他: 茎状突起過長が原因と考えられた頭頸部痛の1症例 (抄録). 日ペインクリニック誌, 2016. 23: 418
19. 楠 威志, 本間博友, 城所淑信, 他: 最近当科で経験で経験した茎状突起過長症の3症例 (抄録). 日耳鼻咽喉会報, 2017. 120: 568
20. Shigematsu H, Hoshino M, Oku Y, et al: A case of styloid process syndrom with complete bilateral ossification of the styloid ligament. J Oral Maxillifac Sur Med Patho, 2013. 25: 143-146

## Two cases of elongated styloid process : Atypical clinical behavior

Masaaki Takita, Noriyoshi Nishikawa  
Hiroyuki Kyomoto and Shinya Takahashi

Department of Dentistry and Oral Surgery, Saiseikai Nakatsu Hospital, Osaka

Case 1: A 30-year-old man was referred to us because of burning pain of the left anterior palatine arch that had initially developed 2 years previously before when he had undergone tooth extraction: (8̄). He had been examined in eight clinics, although an accurate diagnosis had not been made. In our department, an elongated styloid process could be diagnosed by 3D-computed tomography (left and right lengths: 34.9 and 18.8mm, respectively). However, the bony process was not palpable. Surgical treatment was not indicated. Case 2: A 50-year-old man with pain of the right mandibular angle, who had undergone surgical resection of the right-side elongated styloid process at another hospital 4 years previously. An X-ray examination revealed a styloid process length within the normal range. Pain on a swallowing was absent in both patients and their atypical pain was relieved on food taking. Various clinical behavior of elongated styloid process are discussed