

## 症 例

### 舌骨と線維性癒着していた茎状突起過長症に対し口外法を応用した 1 例

江 原 雄 一<sup>1)</sup> 本 橋 征 之<sup>2)</sup> 篠 島 一 将<sup>1)</sup> 松 並 晃 弘<sup>1)</sup>  
高 橋 萌<sup>1)</sup> 樽 沼 歩<sup>3)</sup> 長 縄 銅 亮<sup>1)</sup> 松 原 誠<sup>1)</sup>  
村 松 泰 徳<sup>1)</sup> 住 友 伸一郎<sup>1)</sup>

A case of styloid process syndrome treated with an extraoral approach,  
showing fibrous ankylosis with hyoid bone.

EHARA YUICHI<sup>1)</sup>, MOTOHASHI MASAYUKI<sup>2)</sup>, SASAJIMA KAZUMASA<sup>1)</sup>, MATSUNAMI AKIHIRO<sup>1)</sup>,  
TAKAHASHI MOE<sup>1)</sup>, KURENUMA AYUMI<sup>3)</sup>, NAGANAWA KOSHUKE<sup>1)</sup>, MATSUBARA MAKOTO<sup>1)</sup>,  
MURAMATSU YASUNORI<sup>1)</sup>, SUMITOMO SHINICHIRO<sup>1)</sup>

茎状突起過長症は、過剰に伸長した茎状突起あるいは茎突舌骨靱帯の骨化により咽頭および喉頭部の違和感・疼痛、嚥下痛、耳痛、顔面痛、肩凝りなどの多彩な症状を呈する、骨形成異常に起因する疾患である。今回われわれは、将来的に舌骨との骨性癒着を引き起こす可能性が示唆された茎状突起過長症の 1 例を報告する。

患者は 30 歳代の女性で、20XX 年 6 月頃より右側顎下部の違和感および腫脹感を自覚したため、朝日大学村上記念病院歯科口腔外科（現 朝日大学病院歯科口腔外科）を受診した。パノラマエックス線写真上に 94mm と過長な右側茎状突起を認め、その先端は舌骨の近傍に達した。全身麻酔下で口外法により右側茎状突起切除術を行った。舌骨と茎状突起は強固に線維性結合組織により癒着しており、病理組織学的には舌骨と癒着していた茎状突起の先端は線維性結合組織で、コラーゲン線維と軟骨芽細胞様細胞が認められた。術後は自覚症状が消失し、術後 1 年 8 か月が経過するが、現在まで症状の再燃はなく経過良好である。

キーワード：茎状突起過長症、口外法、線維性癒着

*Styloid process syndrome is caused by an over-elongated styloid process and ossification of the stylohyoid ligament that may cause various symptoms such as sore throat, odynophagia, earache, faciocephalgia, and stiff shoulder. We report here a case of styloid process syndrome, which could be future osseous ankylosis (with stylohyoid between the over-elongated styloid process and hyoid bone).*

*A 30s-year-old woman came to the Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Asahi University Murakami Memorial Hospital (Asahi University Hospital), with complains of pressure pain and spontaneous pain at the time of mouth-opening, and discomfort at the right submandibular region in June, 20XX. By a panoramic radiography, it was revealed a right over-elongated styloid process of temporal bone, which was 94 mm in length, and its anterior tip reached to the hyoid bone. The extra portion of (right) styloid process was resected with an extraoral approach under general anesthesia. The extra portion showed firm fibrous*

<sup>1)</sup> 朝日大学歯学部口腔病態医療学講座 口腔外科学分野  
〒 501-0296 瑞穂市穂積 1851

<sup>2)</sup> 北海道立旭川肢体不自由児総合療育センター  
〒 071-8142 北海道旭川市春光台 2 条 1 丁目 1 番 43 号

<sup>3)</sup> 松波総合病院歯科口腔外科  
〒 501-6062 岐阜県羽島郡笠松町田代 185-1

<sup>1)</sup> Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Division of Oral

Pathogenesis and Disease Control. Asahi University  
1851 Hozumi, Mizuho, Gifu 501-0296, Japan

<sup>2)</sup> Hokkaido Asahikawa Habilitation Center for Disabled Children  
1-1-43, Syunkodai, 2-jo, Asahikawa 071-8142, Japan

<sup>3)</sup> Matsunami General Hospital Dentistry and Oral surgery  
185-1, Dendai Kasamatsu-cho, Hashima-gun, Gifu, 501-6062, Japan  
(2020 年 9 月 24 日受理)

*ankylosis with the original stylohyoid process, and histologically the tip of process was fibrous connective tissue composed of collagenous fibers and chondroblast-like cells. The patient has no complications and symptom for 20 months after surgical treatment.*

Key words : styloid process syndrome, extra-oral approach, fibrous ankyloses

## 緒 言

茎状突起過長症は、過長な茎状突起の発育あるいは茎突舌骨靱帯の骨化により咽頭および喉頭部の違和感や疼痛、嚥下痛、耳部放散痛、顔面痛、肩凝りなどの多彩な頭頸部症状を呈する疾患である。Eagle<sup>1)</sup>により初めて詳細に検討されたため、Eagle 症候群とも呼ばれている。また、症状が多彩で不定愁訴などを訴える場合もあることから、患者は耳鼻咽喉科、神経内科、歯科など様々な診療科を受診し、咽頭炎、咽喉頭異常感症、神経症などと診断される場合が多く<sup>2)</sup>、症状の類似した他疾患との鑑別が重要となる。その治療には保存的治療<sup>3)</sup>と過長な茎状突起を切除する外科的治療<sup>4-10)</sup>があり、外科的治療には口内法<sup>4, 5)</sup>と口外法<sup>6-10)</sup>があるが、最近では茎突舌骨靱帯の大半で化骨を認めるような症例に対しては、口外法が適応とされる報告が多い<sup>6, 7, 9, 10)</sup>。

本疾患の発生機序は諸説あるが、茎突舌骨靱帯中には2つの骨核が存在する場合があります、これが上方で化骨して茎状突起と癒合し、まれに下方で化骨して舌骨小角と癒合し、長大な骨桿が形成されるとする Von Eicken 説<sup>11)</sup>が最も支持されている。外科的に切除された過長な茎状突起部分は病理組織学的に成熟した骨組織あるいは骨髄を含む硬組織より成ることが報告されているが<sup>12, 13)</sup>、軟骨組織を伴った茎状突起過長症の報告もみられる<sup>4, 10)</sup>。

今回われわれは、口外法にて過長な茎状突起部分を切除し、組織学的に調べたところ、舌骨との線維性癒着部に軟骨芽細胞様細胞が認められた茎状突起過長症の1例を経験したので、その概要を報告する。

## 症 例

患 者：30歳代、女性。

初 診：20XX年12月。

主 訴：右側顎下部の腫脹感ならびに圧痛。

既往歴：高血圧症。

現病歴：初診同年6月頃より右側顎下部の違和感および腫脹感を自覚した。近医耳鼻咽喉科を受診したところ感冒の診断下で消炎鎮痛薬等の投薬を受けるも、症状の改善は認められなかった。その後、同部の圧痛ならびに開口時痛も認めるようになったため近歯科医院

を受診したが、原因不明なため精査目的で朝日大学村上記念病院（現 朝日大学病院歯科口腔外科）を紹介され受診した。

現 症：

口腔外所見：右側顎下部の圧痛ならびに同部の開口時痛を認めた。また、右側顎下部の腫脹感の訴えもあったが、同部に明らかな腫脹は認められなかった。

口腔内所見：唾液流出障害ならびに下顎右側臼歯部の歯肉腫脹等の特記事項は認めなかった。なお、口腔内からは茎状突起を触知しなかった。

画像所見：

パノラマエックス線所見：右側茎状突起の過長と肥大化が認められ、長さはパノラマエックス線写真上で94mmであった（図1-A）。

3D-CT 像所見：右側顎下腺に唾石ならびに腫瘍性病変を疑う所見は認めなかった。なお、右側茎状突起の先端は舌骨近傍まで達し、癒着している可能性も疑われた。（図1-B）。

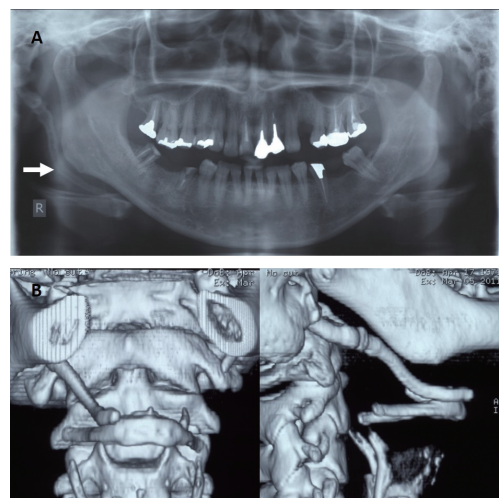


図1 初診時エックス線写真

A：パノラマエックス線写真

過長ならびに肥大化した右側茎状突起を認める（矢印）。

B：3D-CT 像

右側茎状突起の先端は舌骨近傍まで達する。

臨床診断：右側茎状突起過長症。

処置および経過：右側茎状突起切除術を予定したが、患者より手術を延期したい旨の連絡があり、その後の受診が途絶えた。しかし、症状が改善されなかったため、初診+2年6月に再受診、患者の希望もあり同年7月全身麻酔下で右側茎状突起切除術を行った。顎下部に切開線を設定し、皮膚ならびに広頸筋に切開を加え、顎下腹筋後腹を明示した。茎状突起を触知して周囲の筋組織を鈍的に剥離し、末梢側を明示したところ、茎状突起の先端は舌骨と強靱な結合組織で癒着していたが骨性癒着は認めなかった(図2)。同癒着部を電気メスで舌骨より切離し、上方へ剥離を進めて結節部から約10mmの部分まで鈍的に剥離した後、同部を切削バーならびに破骨鉗子にて切断して茎状突起の下半分を摘出した。術後にパノラマエックス線写真ならびに3D-CT像で確認したところ、右側茎状突起は正常範囲内の長さに短縮されていた(図3)。術後、開口時痛は消失し、また術後2週間より術前に認められていた右側顎下部の腫脹感ならびに圧痛も消失した。術後1年8か月の経過では症状の再発はなく経過良好である。

病理組織学的所見：切除標本の長さは58mmであった。病理組織学的には舌骨と癒着していた茎状突起の先端は線維性結合組織で覆われており、コラーゲン線維とともに軟骨芽細胞様細胞が一部認められた(図4)。

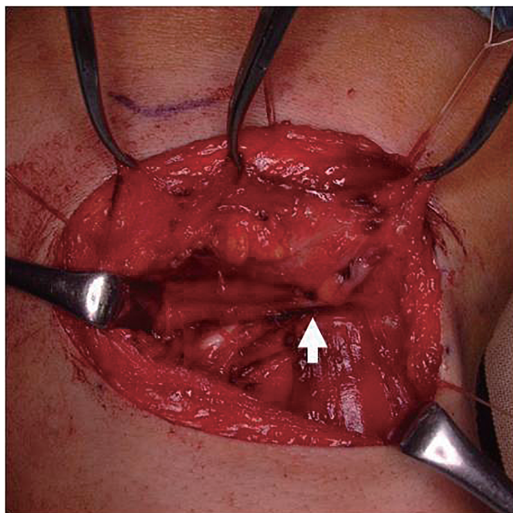


図2 術中写真

茎状突起の先端は舌骨と強靱な線維性結合組織で癒着していた(矢印)。

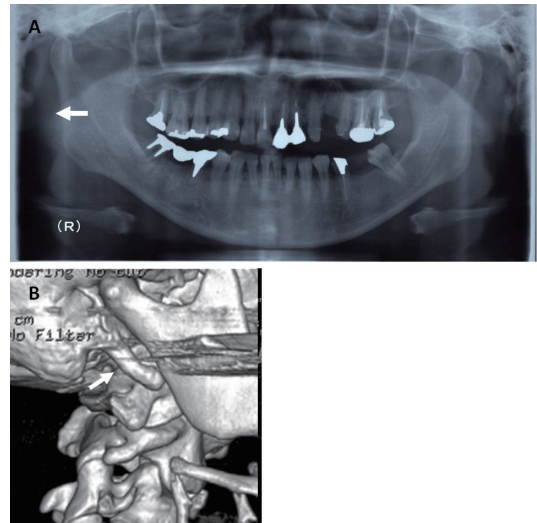


図3 術後エックス線写真

A：パノラマエックス線写真

右側茎状突起は正常範囲内に短縮している(矢印)。

B：3D-CT像

舌骨近傍に達していた右側茎状突起の先端は切除されている。

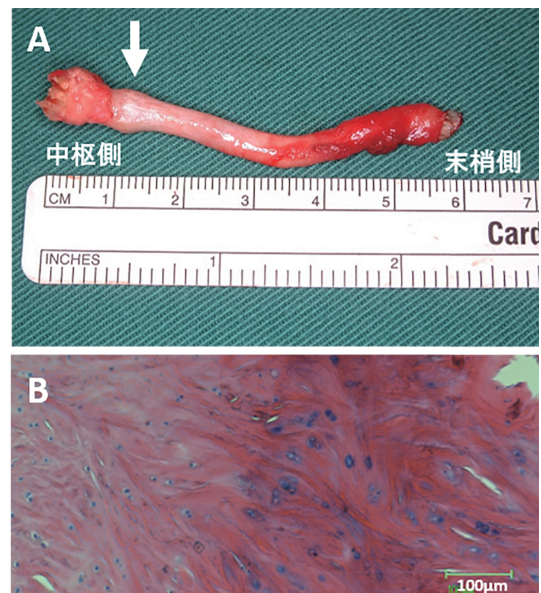


図4 切除標本・病理組織像(H-E染色 B:×400)

A(切除標本)：長さは58mm。結節部(矢印)より約10mm 中枢側で切除した。

B(末梢側先端部の病理組織像)：線維性結合組織で、コラーゲン線維と軟骨芽細胞様細胞が認められた。



## 考 察

茎状突起過長症は、咽頭および喉頭部の違和感や疼痛、嚥下痛、耳部放散痛、顔面痛、肩凝りなどの多彩な頭頸部症状を認め耳鼻咽喉科、神経内科、歯科などを受診し、咽頭炎、神経症などと診断される場合が多い<sup>2)</sup>。そのため、症状の類似した他疾患との鑑別が重要となるが、その茎状突起の観察には歯科で一般的に用いられるパノラマエックス線写真が有用である<sup>14)</sup>。単純エックス線撮影では、茎状突起の判別は前後方向で39.4%、左右方向で48.0%といわれるが<sup>15)</sup>、パノラマエックス線写真では茎状突起は他の部位との重なりが少ないため、93.2%と鮮明に判別でき<sup>16)</sup>、過長な茎状突起を比較的容易にかつ確実に発見することができる。今回われわれも、耳鼻咽喉科で原因不明といわれた顎下部の疼痛に対し、パノラマエックス線写真で容易に過長な茎状突起を発見することができた。

しかしながら、過長な茎状突起の存在が必ずしも本疾患を引き起こすわけではなく、症状の出現率はEagleら<sup>17)</sup>は4%、Correllら<sup>18)</sup>は7.4%と報告している。また、異常に長大化していても無症状で経過し、ある時期から症状が出現する場合もある。その要因として、茎状突起に付着する靱帯の炎症や加齢に伴う持続的な伸長、茎状突起の可動性の変化や舌骨との癒着などが考えられている<sup>6)</sup>。自験例でも3D-CT像で舌骨に接するほどの過長な茎状突起を認めた。症状は約半年前から出現しているが、短期間で急速な茎状舌骨靱帯の化骨は考えにくい。したがって、本症例も以前より過長な茎状突起が認められたが、何らかの要因で症状が出現するようになったと考えられた。

前述のように本疾患は診断に苦慮する疾患ではあるが、診断基準として以下の3項目を挙げられる<sup>19, 20)</sup>。①パノラマエックス線写真上で30mm以上の過長な茎状突起を認めること。②認められる症状に対し、茎状突起過長症以外に原因となる疾患が疑われないこと。③扁桃部での硬固物の触知と同部の圧痛、耳下・下顎枝後縁部の圧痛、顎下三角部の圧痛のうち1つ以上を確認しうること。自験例においても①パノラマエックス線写真上で30mm以上と過長な茎状突起を認めた、②右側顎下部に開口時痛ならびに腫脹感等の自覚症状があったが、3D-CT像では同部に唾石ならびに腫瘍性病変等を疑う所見はなく、過長な右側茎状突起以外には疼痛の原因となる疾患は認められなかった、および③右側顎下部に圧痛を認めたことなどを総合的に判断して右側茎状突起過長症と診断した。

本疾患の治療には保存的治療<sup>3)</sup>と過長な茎状突起部分を切除する外科的治療<sup>4-10)</sup>がある。保存的治療につ

いては、薬物療法、理学療法などが挙げられるが効果は一時的な場合が多く、保存的治療により症状の消失を認めない場合は外科的治療が選択される<sup>9, 10)</sup>。自験例でも耳鼻咽喉科にて消炎鎮痛剤等の薬物療法を受けていたが、症状の改善が認められなかったため当科にて外科的治療を選択した。

茎状突起の外科的切除法には、口内法<sup>4, 5)</sup>と口外法<sup>6-10)</sup>がある。口内法は侵襲が少ない点では有利であるが、周囲には内頸動静脈、舌咽神経、迷走神経などが近接しており、切除に際しては細心の注意が必要である。また、把持が十分に行えず不完全な切除や、切除した茎状突起が周囲の筋に牽引され組織内に迷入したとの報告もある<sup>21, 22)</sup>。それに対し、口外法である頸部からのアプローチは十分な術野を得られるため、主要血管の損傷を回避できること、また、口腔常在菌の混入が避けられ深頸部感染の危険を回避できることなどの利点から、茎状舌骨靱帯の大部分で化骨を認めるような症例に対して最近では口外法が適応とされるようになった<sup>6-10)</sup>。自験例も3D-CT画像上、過長な茎状突起の先端は舌骨近傍に達しており、舌骨との癒着も疑われたため口外法を選択した。

なお、切除にあ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、基部より約30mm以下のところで茎状突起を切断し除去することによって、比較的安全に手術ができ、かつ症状の消失が図れるといわれている<sup>14)</sup>。また長大な茎状突起では、本来の茎状突起と化骨した茎状舌骨靱帯との接点において結節や分節を形成することがある<sup>20)</sup>。細川ら<sup>9)</sup>は術前の画像診断でこれら結節や分節がある場合には、その結節から10mmほど中枢側で切除することにより、確実に術後の茎状突起の長さを正常範囲内(30mm以下)に戻し症状の消失を図ることができると考えており、実際に良好な結果が得られている。今回、われわれもまず過長な茎状突起の先端を明示し、その後、中枢側に剥離を進め、本来の茎状突起と化骨した茎状舌骨靱帯との接合部である結節を確認した。そこからさらに10mmほど茎状突起を明示し同部を切除部位とした。その結果、術後の3D-CT像でも茎状突起は正常範囲内である30mm以下に戻り、しかも本疾患の諸症状の消失を認め、良好な結果を得ることができた。

本疾患の発生機序には様々な説があるが、茎状舌骨靱帯中に2つの骨化中心があり、これが後上方で化骨して茎状突起と癒合し、まれに前下方で化骨して舌骨小角と癒合し、長大な骨桿が形成されるとするVon Eicken説<sup>11)</sup>が最も支持されている。外科的に切除された過長な茎状突起は病理組織学的に成熟した骨組織あるいは骨髄を含む硬組織より成ることが報告されているが<sup>12, 13)</sup>、軟骨組織



を伴った茎状突起過長症の報告もみられる<sup>4, 10)</sup>。本症例でも舌骨と癒着していた茎状突起の先端は線維性結合組織で覆われており、コラーゲン線維とともに軟骨芽細胞様細胞が認められた。したがって、自験例では茎状突起と舌骨は強靱な線維性結合組織を介していたが、放置された場合はさらに化骨が進み、将来的に舌骨と骨性癒着する可能性があった症例とも考えられた。

過長な茎状突起切除術の予後に関しては、Murthyら<sup>23)</sup>は全21症例で、茎状突起の摘出後3か月以内に症状が消失したと報告しているが、Ghoshら<sup>24)</sup>、伊藤ら<sup>25)</sup>は症状の消失を認めた後に症状の再発がみられた症例を報告している。したがって、本症例では術後1年8か月の時点では症状の再発なく経過は良好であるが、茎状突起過長症ならびに過長な茎状突起の再発の報告もあるため、引き続き慎重な経過観察が必要と考えられる。

## 結 語

今回われわれは、舌骨と線維性に癒着していた茎状突起過長症に対し、口外法にて茎状突起切除術を行った。

## 謝 辞

稿を終えるにあたり、病理標本の作製ならびに病理組織学のご指導頂いた朝日大学歯学部口腔病態医療学講座口腔病理学分野の永山元彦教授に深謝いたします。

本論文に関して、開示すべき利益相反状態はない。

## 文 献

- 1) Eagle W.W. and Durham N.C. Elongated styloid process. Arch Otolaryngol. 1937; 25: 584-586.
- 2) 朝隈真一郎, 柴田浩一, 末田卓也. 茎状突起過長症. 臨床と研究. 1975; 52: 1120-1124.
- 3) Masanori K, Sunao H, and Tomio M. Non-surgical therapy for bilateral glossopharyngeal neuralgia caused by Eagle's syndrome, diagnosed by three-dimensional computed tomography: a case report. J Anesth. 2012; 26: 918-921.
- 4) 池田 敦, 神部芳則, 野口忠秀, 赤坂庸子, 草間幹夫, 槻木恵一. 病理組織学的に軟骨の増殖を伴った茎状突起過長症の1例. 日口診誌. 2001; 14: 455-459.
- 5) 清水幹雄, 金子道生, 伊藤康弘, 石原 朗, 高井克憲. 茎状突起過長症の手術経験. 愛院大歯誌. 1996; 34: 327-332.
- 6) 坂口博史, 浅野純志, 佐渡文彦, 増田信弘, 高田憲, 日向 誠, 大島 渉. 外切開にて切除しえた巨大な茎状突起過長症例. 耳鼻臨床. 2000; 93: 971-977.
- 7) 鬼頭良輔, 工 稔, 宇佐美真一. 外切開にて切除した巨

- 大な茎状突起過長症の1例. 口咽科. 2013; 26: 105-109.
- 8) 中島寅彦. 過長茎状突起症 (Eagle 症候群). 耳鼻. 2009; 55: 46-48.
- 9) 細川恵一, 重松久夫, 奥 結香, 堀 智一, 鈴木正二, 坂下英明. 茎状突起過長症に対し口外法により手術した1例. 日口外誌. 2011; 57: 299-303.
- 10) 藤田祐生, 千足浩久, 清水 弦, 加藤逸郎, 今井智章, 由良義明. 舌骨に連続する巨大な過長茎状突起を認めた1例. 日口外誌. 2013; 59: 663-666.
- 11) Eicken C.V. Lange processus styloideals ursache fur schluckbeswerden. Zeitschr Ohrenheilk. 1919; 78: 63-82.
- 12) 富田尚道, 桜田重世, 佐藤 篤, 大島 修, 杉森正英, 堀 雅人, 南雲正男. 茎状突起過長症の3症例. 昭大歯誌. 1992; 12: 230-233.
- 13) 野口 誠, 曾田忠雄, 土屋梅佳. 茎状突起過長症の2例. 日口外誌. 1986; 32: 2164-2169.
- 14) 山下雅資. 茎状突起の画像診断に関する研究. 歯科医学. 2002; 65: 165-180.
- 15) 奈良四郎. 異常茎状突起の臨床的 X 線学的研究. 日耳鼻. 1958; 63: 1286-1301.
- 16) 山崎岐男, 大森桂一, 滝波修一, 飯塚 正, 戸塚靖則, 照井省吾. Eagle 症候群. 臨放. 1983; 28: 977-980.
- 17) Eagle W.W. and Durham N.C. Elongated styloid process symptom and treatment. Arch Otolaryngol. 1958; 67: 172-176.
- 18) Correll R.W., Jensen J.L., Taylor J.B. and Rhyne R.R. Mineralization of the stylohyoid-stylomandibular ligament complex. A radiographic incidence study. Oral Surg. 1979; 48: 286-291.
- 19) Kaufman S.M., Elzay R.P. and Irish E.F. Styloid process variation. Radiologic and clinical study. Arch Otolaryngol. 1970; 91: 460-463.
- 20) Moffat D.A., Ramsden R.T. and Shaw H.J. The styloid process syndrome: aetiological factors and surgical management. J Laryngol Otol. 1977; 91: 279-294.
- 21) Eagle W.W. Symptomatic elongated styloid process. Report of two cases of styloid process-carotid artery syndrome with operation. Arch Otolaryngol. 1949; 49: 490-503.
- 22) 福田広志, 根本一男. 茎状突起過長症における経口的過長茎状突起切除法についての解剖学的検討および手術法. 日科誌. 1986; 35: 912-920.
- 23) Murthy P.S., Hazarika P., Mathai M. and Kumar A. Elongated styloid process: an overview. Int J Maxillofac Surg. 1990; 19: 230-231.
- 24) Ghosh L.M. and Dubey S.P. The syndrome of elongated styloid process. Auris Nasus Larynx. 1999; 26: 169-175.
- 25) 伊藤裕昭, 梅崎博敏, 野田昌作, 湊 誠一郎, 村田義治. 過長茎状突起症における頭痛の臨床的検討. 臨床神経. 1986; 26: 1106-1110.