

DOI:10.11798/j.issn.1007-1520.202423229

· 病案报道 ·

非典型茎突综合征 2 例

王梦舒, 郭瑾, 黄东海, 方兴, 王芸芸

(中南大学湘雅医院耳鼻咽喉头颈外科耳鼻咽喉重大疾病研究湖南省重点实验室湖南省咽喉嗓音疾病临床医学研究中心国家老年疾病临床医学研究中心, 湖南长沙 410008)

中图分类号: R766.4

茎突综合征又称为 Eagle syndrome, 由 Eagle^[1] 于 1937 年首次提出, 是由于茎突过长或茎突舌骨韧带、茎突下颌骨韧带钙化压迫周围血管、神经引起一系列相关症状的综合征。本文报道 2 例分别以肢体麻木无力伴头晕、耳鸣、耳痛为主要表现的茎突-颈动脉综合征, 帮助临床医生提高认识, 避免误诊、漏诊。

1 临床资料

1.1 病例 1

患者, 男, 36 岁, 因反复左侧肢体麻木无力 2 年余于 2022 年 3 月 8 日就诊于中南大学湘雅医院。患者 2 年前出现转头、上厕所、运动等体位改变后头眩、视物模糊、左侧肢体麻木无力、肌肉紧张、不自觉抖动, 持续约 0.5~1 h。外院诊断脑梗伴右侧颈内动脉夹层, 拟行右侧颈内动脉支架置入术, 患者及家属要求转至我院进一步明确诊断。既往肺结核, 现已治愈, 家族无类似疾病病史。专科查体: 左上肢浅感觉稍差, 余肢体浅深感觉无明显异常, 四肢肌力正常, 克氏征、布氏征阴性。腱反射(++), 左侧霍夫曼征(+), 余病理征未引出。双侧扁桃体区未触及坚硬突起, 触诊无明显咽部异物感及吞咽疼痛。辅助检查: 颅脑 MRI 平扫示右侧基底节区、右额顶枕叶梗塞灶。DSA 脑血管造影示右侧颈内动脉 C1 段夹层可能。茎突三维 CT 示右侧茎突过长, 约 68 mm, 达右侧咽旁隙前部, 走行于颈内外动脉, 右侧颈内动脉小隆起。左侧茎突长约 43 mm。于 2022 年 4 月 11 日于我院行颈外入路右侧茎突截断术, 打开颈动脉鞘, 探查颈内外动脉及后组脑神经,

咬骨钳自茎突根部截断。术后相关症状明显缓解, 切口愈合佳, 无面瘫及其他并发症。患者随访近 1 年, 术后继续在神经内科医师指导下服用阿司匹林等抗凝药。

1.2 病例 2

患者, 男, 40 岁, 因右耳痛伴耳鸣 3 个月于 2022 年 11 月 10 日就诊于中南大学湘雅医院。患者 3 个月前出现间断性右耳刺痛、耳闷, 伴右眼眶、枕后胀痛, 双耳嗡嗡样耳鸣。有咽部异物感, 伸舌时有牵拉痛。吞咽转头时以上症状明显加重。无听力下降、视物改变、吞咽困难等。3 年前诊断地中海贫血, 有青霉素过敏史。专科查体: 患者双耳无牵拉痛, 乳突区及枕后无按压痛, 双侧外耳道干洁, 鼓膜完整, 标志清。右耳听力正常, 左耳 2 kHz 以上高频听力中度感音神经性耳聋, 耳内镜下双侧外耳道干洁, 鼓膜完整, 标志清。各鼻窦区无按压痛, 无明显眼震及眼球运动受限。右侧扁桃体区可触及坚硬突起, 有触痛。辅助检查: 茎突三维 CT 示双侧茎突过长, 左侧约 37 mm、右侧约 61 mm, 局部紧贴颈内动脉, 颅脑 CT 平扫及颅内动脉 CTA 未见明显异常。于 2022 年 11 月 11 日于我院行颈外入路右侧茎突截断术, 常规找到茎突、游离其附着的肌肉及韧带至根部, 持针器截断茎突根部。术后伤口愈合良好, 随访 4 个月, 症状缓解, 无相关并发症。

2 讨论

茎突是颞骨发出的细长骨性突起, 其尖端为软骨状, 中国人平均长度约为 2.5 cm^[2]。茎突前后分别毗邻颈外动脉、颈内动脉, 颈动脉鞘周围有交感神

基金项目: 国家自然科学基金(82103631); 湘雅医院青年科学基金(2020Q03)。

第一作者简介: 王梦舒, 女, 在读博士研究生; 郭瑾, 女, 在读硕士研究生。王梦舒与郭瑾对本文有同等贡献, 为并列第一作者。

通信作者: 黄东海, Email: huang3301@126.com

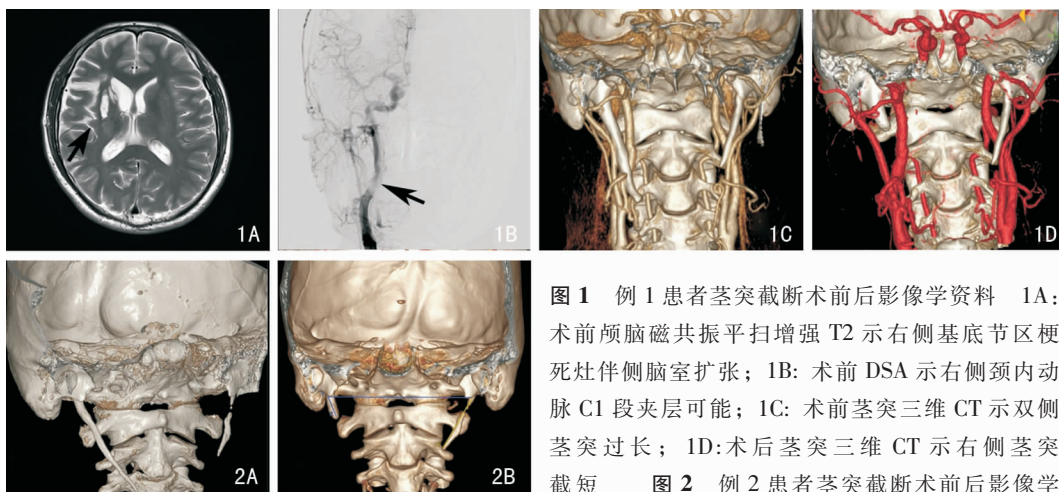


图1 例1患者茎突截断术前影像学资料 1A:术前颅脑磁共振平扫增强T2示右侧基底节区梗死灶伴侧脑室扩张;1B:术前DSA示右侧颈内动脉C1段夹层可能;1C:术前茎突三维CT示双侧茎突过长;1D:术后茎突三维CT示右侧茎突截短

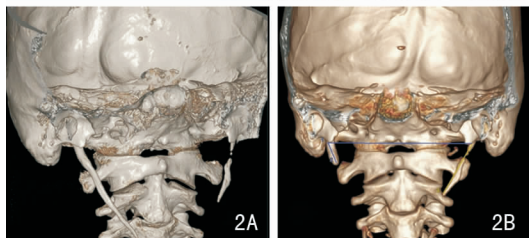


图2 例2患者茎突截断术前影像学资料 2A:术前茎突三维CT示右侧茎突过长,左侧茎突骨不连;2B:术后茎突三维CT示右侧茎突截短

经分布,颈动脉体及动脉窦有迷走神经及舌咽神经分布,后者出颅后位于茎突内侧,沿着茎突舌骨韧带向下、向内至咽部扁桃体。茎突的解剖变异可导致两种不同类型的茎突综合征:经典茎突综合征临床中更为常见,发病率为4%~7.2%^[3-4],以咽痛、吞咽困难、咽部异物感、梗阻感等为主要症状,扁桃体窝内常可扪及硬物;另一类茎突-颈动脉综合征是由于茎突压迫刺激颈动脉及周围伴行的神经如舌咽神经、迷走神经等引起,可表现为发作性晕厥、头面部麻木疼痛、颈部疼痛、肢体麻木、短暂性脑缺血发作或卒中等^[5-6]。

本文报道2例临床表现非典型的茎突-颈动脉综合征,第1例患者考虑其颈部血管长期受茎突外部物理压迫及摩擦,转头运动时茎突与血管间角度改变、压迫加重,引起血管堵塞、血管壁受损,表现为短暂性脑缺血发作,长期可形成血栓、栓塞、夹层,继而导致各种脑缺血不良事件发生^[7-8]。患者2年内反复发作性左侧肢体麻木无力伴头晕、视物模糊,后并发脑梗死、颈内动脉夹层。在既往病例报道中也可见类似情况,如茎突-颈动脉综合征导致颈内动静脉受压、脑静脉窦血栓等情况^[7,9-10]。第2例患者主要表现为耳痛耳鸣伴有咽部异物感,可能与过长茎突压迫舌咽神经、迷走神经相关。影像学检查对茎突-颈动脉综合征的筛查、鉴别及确诊至关重要。茎突X线片简便、经济,但不够准确和直观,常常作为筛查的首选方法。3D-CT重建是诊断茎突综合征的金标准,可以精准直观反映茎突的长度、倾斜角度、毗邻关系,影像上茎突长度大于2.5 cm可诊断茎突过长,但有研究表明茎突综合征的发病率与茎突长度之间不存在相关性^[11],常为单侧发病,患者

双侧茎突过长可只表现一侧的相关症状^[12]。茎突倾斜角度与疾病分型、临床症状密切相关,国内外对于茎突内倾角、前倾角定义不同,两者互为补角关系,国外报道茎突内倾角均值为57.3~67.5°,外倾角为57.3~75.2°^[13-16]。国内文献指出内外倾角均应在30°左右,大于40°或小于20°都为异常。但根据解剖关系,茎突过度向前向内倾斜可能与刺激扁桃体窝及咽侧壁相关,过度前倾可压迫周围神经,过度外倾可压迫颈部动脉^[15,17]。有研究统计了125例患者茎突与颈内动脉之间的平均距离为(8.2±3.3)mm,该距离小于5 mm则提示压迫风险^[14]。此外头颈部血管超声、经颅彩色多普勒超声检查TCD、脑血管DSA等检查也可协助诊断,应注意的是检查时配合患者进行转头运动更易得出阳性结果^[18]。

若患者茎突长度、方位、形态存在异常,但无任何症状及并发症可诊断为单纯茎突过长,而非茎突综合征,可暂时随访观察,必要时再行干预,严禁非必要的手术治疗。如病例1、病例2患者均左侧茎突单独过长,而无任何相关症状体征,不宜诊断为茎突综合征而行手术治疗。对于经典茎突综合征可选用保守治疗,提供暂时的症状缓解,如使用非甾体类抗炎药联合卡马西平、加巴喷丁等抗焦虑药物,或扁桃体窝内局部注射利多卡因^[19]。对于茎突-颈动脉综合征或症状较为明显、并发症较多的患者,推荐长期疗效更佳的手术治疗。手术分为口内、口外入路。经典茎突综合征可选用口内入路,适合在扁桃体窝处扪及突起者,可明显缓解患者咽部异物感等症状,手术创伤小,恢复快,但可能并发咽旁隙的感染、出血等。若茎突长度大于35~40 mm,口外经颈

入路更易于暴露术野、方便操作、避免损伤毗邻结构,安全性更高,也适用于部分经口手术困难者。经颈可沿下颌缘作切口,游离暴露茎突根部行截断,但有损伤面神经或腮腺的风险;也可以下颌角为切口起点,沿胸锁乳突肌前缘作切口,经二腹肌进入咽旁隙,循茎突尖端游离至根部再行截断,可以充分暴露及探查颈动脉鞘等结构^[4,20]。近年来兴起3D模型支持下的手术导航,可以显著提升术者操作性、缩短手术时长、减少并发症^[20-21]

综上所述,茎突综合征类型多,临床表现复杂多样,具有非特异性症状,临床医生应谨慎诊疗,需综合考虑临床表现及各种辅助检查如3D重建CT、颈部动脉CTA等进行排除性诊断。明确诊断后可根据患者症状轻重、治疗意愿等选择保守或手术治疗,手术根据患者茎突及周围解剖结构等因素选择口内或口外入路,可明显缓解相关症状^[22],但无法逆转茎突对周围组织结构造成的器质性病变。

参考文献:

[1] Eagle WW. Elongated styloid processes: report of two cases[J]. Arch Otolaryngol, 1937, 25(5): 584-587.

[2] 张庆泉, 迟作强. 茎突综合征的诊断和治疗[J]. 中华耳鼻咽喉头颈外科杂志, 2009, 44(3): 262-264.

[3] Kaufman SM, Elzay RP, Irish EF. Styloid process variation: radiologic and clinical study[J]. Arch Otolaryngol, 1970, 91(5): 460-463.

[4] Badhey A, Jategaonkar A, Anglin Kovacs A J, et al. Eagle syndrome: a comprehensive review [J]. Clin Neurol Neurosurg, 2017, 159(8): 34-38.

[5] Eagle WW. Symptomatic elongated styloid process report of two cases of styloid process-carotid artery syndrome with operation[J]. Arch Otolaryngol, 1949, 49(5): 490-503.

[6] Eagle WW. Elongated styloid processes: further observations and a new syndrome[J]. Arch Otolaryngol, 1948, 47(5): 630-640.

[7] Aldakkan A, Dunn M, Warsi NM, et al. Vascular Eagle's Syndrome: two cases illustrating distinct mechanisms of cerebral ischemia[J]. J Radiol Case Rep, 2017, 11(8): 1-7.

[8] 张爱萍, 张丽. 茎突综合征伴晕厥2例[J]. 中国耳鼻咽喉颅底外科杂志, 2007, 13(1): 67-68.

[9] Ogura T, Mineharu Y, Todo K, et al. Carotid artery dissection caused by an elongated styloid process: three case reports and review of the literature[J]. NMC Case Rep J, 2015, 2(1): 21-25.

[10] Smoot TW, Taha A, Tarlov N, et al. Eagle syndrome: a case report of stylocarotid syndrome with internal carotid artery dissection [J]. Interv Neuroradiol, 2017, 23(4): 433-436.

[11] Waclawek M, Pietkiewicz P, Niewiadomski P, et al. Own experience in the diagnosis and treatment of elongated styloid process syndrome [J]. Otolaryngol Pol, 2020, 75(2): 21-27.

[12] Piagkou M, Anagnostopoulou S, Kouladouros K, et al. Eagle's syndrome: a review of the literature [J]. Clin Anat, 2009, 22(5): 545-558.

[13] Kosar MI, Atalar MH, Sabancıoğulları V, et al. Evaluation of the length and angulation of the styloid process in the patient with pre-diagnosis of Eagle syndrome [J]. Folia Morphol (Warsz), 2011, 70(4): 295-299.

[14] Eraslan C, Ozer MA, Govsa F, et al. Relationship of stylohyoid chain and cervical internal carotid artery detected by 3D angiography [J]. Surg Radiol Anat, 2017, 39(8): 897-904.

[15] Ayyıldız VA, Senel FA, Dursun A, et al. Morphometric examination of the styloid process by 3D-CT in patients with Eagle syndrome [J]. Eur Arch Otorhinolaryngol, 2019, 276(12): 3453-3459.

[16] Burulday V, Akgül MH, Bayar Muluk N, et al. The importance of medial-lateral styloid process angulation/coronal plane angle in symptomatic eagle syndrome [J]. Clin Anat, 2017, 30(4): 487-491.

[17] 江晓昱, 蔡谦, 谢明伟, 等. 三维CT重建对茎突综合征的诊断价值 [J]. 中国耳鼻咽喉头颈外科, 2012, 19(11): 597-600.

[18] 董佳, 宋庆斌, 王玉林, 等. 复合手术治疗颈动脉茎突综合征一例并文献复习 [J]. 中国脑血管病杂志, 2019, 16(3): 150-152.

[19] Gupta M, Kumar Y, Vig H, et al. Classic Eagle's syndrome: Styloidectomy via the transcervical approach [J]. BMJ Case Rep, 2021, 14(8): 244634.

[20] Czako L, Hirjak D, Simko K, et al. 3D navigation in surgery of Eagle syndrome [J]. Bratisl Lek Listy, 2019, 120(7): 494-497.

[21] Dou G, Zhang Y, Zong C, et al. Application of surgical navigation in styloidectomy for treating Eagle's syndrome [J]. Ther Clin Risk Manag, 2016, 12(1): 575-583.

[22] 邓海华, 赵光明, 尹娟, 等. 三维CT重建对茎突综合征的诊断价值 [J]. 中国耳鼻咽喉头颈外科, 2012, 19(11): 597-600.

(收稿日期:2023-07-19)

本文引用格式:王梦舒,郭瑾,黄东海,等. 非典型茎突综合征2例 [J]. 中国耳鼻咽喉颅底外科杂志, 2024, 30(5): 112-114. DOI: 10.11798/j.issn.1007-1520.202423229