

ACCES DOULOUREUX AU NIVEAU DU COU

PAINFUL SIGN AT THE NECK

I. ACHOUR¹, B.HAMMAMI¹, S.AYADI¹, B. SOUISSI², A. CHAKROUN¹,
I .CHARFEDDINE¹, M. MNEJJA¹, A. GHORBEL ¹

1- Service ORL. Hôpital Habib Bourguiba , Sfax.

2- Service de radiologie. Hôpital Habib Bourguiba , Sfax.

3- Faculté de Médecine, Université de Sfax-Tunisie

Résumé

La compression de la neuvième paire crânienne (IX : nerf glossopharyngien) par une méga artère est une cause rare de névralgie du IX secondaire.

Nous rapportant un cas rare d'une névralgie du IX secondaire à la compression de la racine du glossopharyngien par une méga artère vertébrale.

Un patient âgé de 52 ans nousa consultés pour des douleurs cervicales au niveau de la région sous angulo-mandibulaire gauche. Les accès algiques, apparus depuis huit ans, étaient paroxystiques durant quelques secondes. Elles survenaient par des crises stéréotypées pouvant être déclenchées par la parole ou la déglutition. L'examen de la sphère ORL ainsi que l'examen neurologique étaient normaux. Le diagnostic d'une névralgie du glossopharyngien était retenu. Une IRM de l'angle ponto cérébelleux a mis en évidence une méga artère vertébrale gauche comprimant la face latérale du bulbe et de la jonction bulbo protubérantielle, responsable d'une compression du nerf glossopharyngien gauche.

La névralgie glossopharyngienne (NVG) est une entité clinique rare. Les formes secondaires sont liées à une anomalie du nerf IX le long de son trajet. Parmi ces lésions, il peut s'agir d'une compression du IX par une méga artère vertébrale, comme dans notre cas. A notre connaissance, il n'existe que 3 cas similaires rapportés dans la littérature depuis 1956 jusqu'au nos jours. L'exploration radiologique des ces patients doit comprendre des séquences d'IRM 3D-T1 sans et avec injection de gadolinium, 3D-T2-haute résolution et ARM-TOF. Le traitement de la névralgie du IX secondaire à un conflit vasculo-nerveux est médico-chirurgical : les antiépileptiques et la décompression microchirurgicale.

Mots clés : douleur du cou, paires crâniennes.

Summary

The compression of the ninth cranial nerve (IX glossopharyngeal nerve) by a mega artery is a rare cause of secondary IX neuralgia.

We report a rare case of secondary IX neuralgia due to the glossopharyngeal nerve root's compression by a mega vertebral artery.

A 52- year-old patient presented to our department for eight years history of upper laterocervical pain. The patient complained of paroxysmalpain, the duration of these episodes was few seconds. The pain was triggered by speech or swallowing. The ENT and neurological examination were normal. The diagnosis was a glossopharyngeal neuralgia. A MRI of the angle ponto cerebellar highlighted a mega left vertebral artery compressing the side of the bulb and the ponto medullary junction, causing a compression of the left glossopharyngeal nerve.

The IX Neuralgia is a rare clinical entity. Secondary forms are associated with an abnormality of theninth nerve along its path. Among these injuries, it may be a compression of IX by a mega vertebral artery, as in our case. To our knowledge, there are only three similar cases reported in the literature since 1956 until today. Exploration of these patients should include 3D-T1 MRI sequences with and without gadolinium, 3D-T2-high resolution TOF-MRA. The treatment of IX neuralgia due to a neurovascular conflict is medical and surgical: antiepileptics drugs and microsurgical decompression.

Keywords: neck pain, cranial nerve

ملخص

الضغط على العصب القحفي التاسع (اللساني البلعومي) عن طريق شريان ضخّم هو سبب نادر من الألام الثانوية للتوائم التاسع. نجر لكم عن حالة نادرة من الألم العصبي التاسع الثانوي لضغط جذر العصب القحفي التاسع عن طريق شريان فقري ضخّم مريض عمره 52 سنة حضر لعيادتنا لألام الرقبة في المنطقة تحت الفك السفلي الأيسر. ظهرت الأعراض منذ ثماني سنوات في شكل أزمات النمطية سببها الكلام أو البلع. أظهر فحص الأنف والحنجرة والفحص العصبي حالة طبيعية. أبرز التصوير بالرنين المغناطيسي للمخيخ شريان فقري ضخّم ضغط على العصب اللساني البلعومي الألام الثانوية للتوائم التاسع هي كيان سريري نادر. قد يكون ضغط من شريان فقري ضخّم مثلما جاء في حالتنا. على حد علمنا، لا يوجد سوى ثلاثة حالات مماثلة نشرت منذ عام 1956 حتى اليوم. وينبغي أن يشمل التنقيب الإشعاعي من هؤلاء المرضى التصوير بالرنين المغناطيسي مع وبدون الجادولينيوم. علاج الحالة يتطلب تدخل طبي و جراحي: مضادات الصرع والجراحة المجهرية.

الكلمات المفتاح: آلام الرقبة، العصب القحفي

INTRODUCTION

La dolichoectasie artérielle intracrânienne est une artériopathie caractérisée par une augmentation de la longueur et du diamètre artériels [1]. Les courbes et les boucles artérielles qui en résultent, peuvent comprimer les structures nerveuses, les paires crâniennes à proximité [1]. Dans ce cadre, la compression de la neuvième paire crânienne (IX : nerf glossopharyngien) par une méga artère est une cause exceptionnelle d'une névralgie du glossopharyngien secondaire.

Nous rapportant un cas rare d'une névralgie du IX secondaire à la compression de la racine du glossopharyngien par une méga artère vertébrale.

OBSERVATION

Il s'agit d'un patient âgé de 52 ans sans antécédents pathologiques particuliers qui a consulté pour des douleurs cervicales au niveau de la région sous angulo-mandibulaire gauche. Les accès algiques, apparus depuis huit ans, étaient paroxystiques durant quelques secondes. La douleur était très intense et strictement localisée à gauche. Elle survenait par des crises stéréotypées pouvant être déclenchées par la parole ou la déglutition. On ne notait pas de signes végétatifs associés. L'examen de la sphère ORL ainsi que l'examen neurologique étaient normaux. Le diagnostic d'une névralgie du glossopharyngien était retenu. Une IRM de l'angle ponto cérébelleux réalisée, a exploré la jonction bulbo protubérantielle par des coupes axiales pondérée T2 et T1 sans et avec gadolinium, coronales T2 et T1 avec et sans gadolinium. Elle a mis en évidence une méga artère vertébrale gauche comprimant la face latérale du bulbe et de la jonction bulbo protubérantielle, responsable d'une compression du nerf glossopharyngien gauche (figure 1).

DISCUSSION

La névralgie glossopharyngienne (NVG) est une entité clinique rare, qui touche environ 0.7/100.000 personnes de la population mondiale [2]. Comparée à la névralgie du trijumeau, elle ne représente dans la littérature que 1% de cette dernière [3].

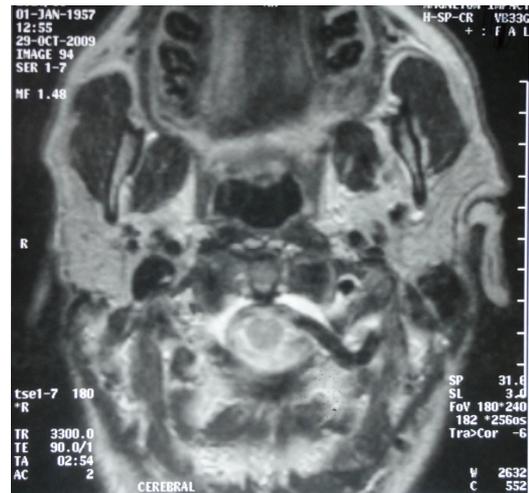


Fig. 1 : IRM cervicale en coupe axiale séquence T2 : méga artère vertébrale gauche

Son incidence augmente avec l'âge et elle touche surtout les sujets de sexe masculin âgés de plus de 50 ans [4]. Les accès algiques liés à ce syndrome douloureux sont brefs, strictement unilatéraux, paroxystiques et stéréotypés chez le même patient. Ils peuvent intéresser un ou plusieurs points de projection du territoire sensitif du nerf glossopharyngien [5]. Le diagnostic positif d'une NVG repose sur la classification officielle des céphalées adoptée par l'« International Headache Society (IHS) » [6].

Sur le plan étiologique, l'IHS a distingué deux types de NVG : idiopathique et symptomatique. La NVG idiopathique est caractérisée par une douleur intermittente avec un examen clinique normal et un bilan radiologique normal. La NVG symptomatique, ou secondaire, associée avec les accès paroxystiques un fond douloureux persistant, et parfois un trouble de la sensibilité du territoire du nerf IX à l'examen neurologique [6]. Ces formes secondaires sont liées à une anomalie du nerf IX, au niveau de son trajet allant depuis la médullaire jusqu'au foramen jugulaire [3]. Parmi ces lésions, il peut s'agir d'une compression du glossopharyngien par une méga artère vertébrale, comme dans notre cas. Il s'agit d'une cause rare de malformation vasculaire responsable d'un tableau de conflit vasculo-nerveux (VN) avec le nerf IX.

A notre connaissance, il n'existe que 3 cas similaires rapportés dans la littérature depuis 1956 jusqu'à nos jours [7-9].

Une méga artère vertébrale est un artériopathie appartenant à l'ensemble des dolichoectasies artérielles intra crâniennes. La maladie dolichoectasique artérielle intra crânienne est définie par une augmentation de la longueur et du diamètre artériel [10]. Elle intéresse essentiellement le tronc basilaire, les artères vertébrales et plus rarement les artères carotides et cérébrale moyenne [10]. Son incidence varie entre 0.06-5.8% de la population générale [11]. Par conséquent, les méga artères vertébrales ne peuvent toucher que moins de 0.05% de la population générale [12]. Plusieurs personnes ayant cette malformation sont asymptomatiques. En fait, un conflit vasculo-nerveux n'est responsable d'une névralgie des paires crâniennes que lorsque la compression s'exerce sur la racine du nerf et plus précisément au niveau de la zone entrée/sortie (REZ : Root Entry/exit zone) [13]. Cette zone correspond à une région d'hyper réactivité et d'hyperexcitabilité, localisée anatomiquement au niveau de la zone de transition entre la myéline centrale et la myéline périphérique [14]. La rareté des névralgies du glossopharyngien peut être expliquée par la différence de siège de la REZ zone entre les nerfs crâniens [14]. Au niveau du glossopharyngien, la zone myélinisée centrale est de faible longueur et volume, mettant donc à l'abri la REZ zone d'un éventuel conflit vasculo-nerveux [14].

Le diagnostic positif de la maladie dolichoectasique artérielle en général et d'une méga artère vertébrale, n'est pas aisément reconnu par les radiologues vu la fréquence des variations normales de la longueur et du diamètre artériel. Avec l'avènement de la tomodensitométrie (TDM), la résonance magnétique (IRM) cérébrale et l'imagerie vasculaire, la méga artère vertébrale peut être diagnostiquée de façon non invasive. L'exploration radiologique doit comprendre des séquences d'IRM 3D-T1 sans et avec injection de gadolinium, 3D-T2-haute résolution et ARM-TOF [15]. Cette exploration permet d'identifier le conflit VN, préciser le degré de compression du nerf, prévoir les difficultés chirurgicales, le suivi évolutif de la maladie et de caractériser le degré de compression du nerf [15, 16]. Les séquences 3D-T1 et 3D-T2-haute résolution donnent un bon contraste entre le liquide cébrospinal et des structures vasculo-nerveuses.

L'ARM-TOF en coupes natives et reconstruction vertébro-basilaire, montre les structures vasculaires artérielles ectasiques en hypersignal, permettant

ainsi de bien différencier les vaisseaux des nerfs crâniens [15]. En effet, la sensibilité de l'IRM est estimée de 97% et sa spécificité de 100 % pour la détection d'une compression vasculo-nerveuse [15]. Cependant, on n'a pas retrouvé dans la littérature d'évaluation spécifique de la sensibilité/spécificité de l'IRM pour la détection d'une méga artère vertébrale. Malgré les avancées techniques radiologiques, il n'existe pas de critères radiologiques quantitatifs acceptés pour un diagnostic positif de la dolichoectasie de l'artère vertébrale [10]. Pour cette raison, certains auteurs proposent que le diagnostic d'une méga artère vertébrale symptomatique soit retenu devant des signes cliniques évocateurs de dysfonctionnement vasculaire de la circulation postérieure associé à une artère vertébrale ectasique visible à l'imagerie, c'est-à-dire une artère vertébrale de diamètre >4mm, en absence de toute autre anomalie de la circulation postérieure pouvant expliquer la symptomatologie [9, 12]. Actuellement, l'artériographie n'est indiquée que si un geste neuroradiologique est envisagé [16].

Le traitement de la névralgie du glossopharyngien secondaire à un conflit vasculo-nerveux est médico-chirurgical. Le traitement médical repose essentiellement sur les antiépileptiques : carbamazépine, gabapentine, phénytoïne... L'administration de l'anti coagulation à long terme, et un contrôle strict de la tension artérielle ne sont pas recommandés de façon systématique [5, 17]. Un traitement chirurgical est indiqué en cas d'intolérance, d'allergie, ou d'inefficacité du traitement médical [5]. Plusieurs techniques chirurgicales sont disponibles, mais la décompression microchirurgicale reste la technique de choix [4, 18].

REFERENCES

1. Pereira-Filho AA, de Barros Faria M, Bleil C, Kraemer JL. Brainstem compression syndrome caused by vertebrobasilar dolichoectasia. *Arq Neuropsiquiatr.* 2008;66: 408-411.
2. Manzoni GC, Torelli P. Epidemiology of typical and atypical craniofacial neuralgias. *Neurol Sci.* 2005;26:65-7
3. Sindou M, Keravel Y. Neurosurgical treatment of vago-glossopharyngeal neuralgia. *Neurochirurgie.* 2009; 55:231-5
4. Gaitour E, Nick ST, Roberts C, Gonzalez-Toledo E, Munjampalli S, Minagar A et coll. Glossopharyngeal neuralgia secondary to vascular compression in a patient with multiple sclerosis: a case report. *J Med Case Rep.* 2012 ;19:213.
5. Blumenfeld A, Nikolskaya G. Glossopharyngeal neuralgia. *Curr Pain Headache Rep.* 2013;17:343.

6. Headache classification subcommittee of the international headache society. The primary headaches. *Cephalalgia*. 2004; 24:23-136.
7. Hamada O, Ogata T, Abe H, Okawa M, Higashi T, Matsumoto J, et coll. A patient with vertebral artery dissection who initially suffered from pharyngeal pain. *No ShinkeiGeka*. 2013;41:1081-5.
8. Soga Y, Ito Y. Sudden onset pharyngeal pain associated with dissecting vertebral artery aneurysm. *Acta Neurochir (Wien)*. 2002;144:835-8.
9. Brihaye J, Perier O, Smulders J, Franken L. Glossopharyngeal neuralgia caused by compression of the nerve by an atheromatous vertebral artery. *J Neurosurg*. 1956;13:299-302.
10. Lou M, Caplan LR. Vertebrobasilar dilatative arteriopathy (dolichoectasia). *Ann N Y Acad Sci*. 2010;1184:121-33.
11. Kwon HM, Lee YS. Dolichoectasia of the intracranial arteries. *Curr Treat Options Cardiovasc Med*. 2011;13:261-7.
12. Pereira-Filho A, Faria M, Bleil C, Kraemer JL. Brainstem compression syndrome caused by vertebrobasilar dolichoectasia: microvascular repositioning technique. *Arq Neuropsiquiatr*. 2008;66:408-11.
13. De Ridder D, Moller A, Verlooy J, Cornelissen M, De Ridder L. Is the root entry/exit zone important in microvascular compression syndromes? *Neurosurgery*. 2002;51:427-33.
14. Guclu B, Sindou M, Meyronet D, Streichenberger N, Simon E, Mertens P. Cranial nerve vascular compression syndromes of the trigeminal, facial and vago-glossopharyngeal nerves: comparative anatomical study of the central myelin portion and transitional zone; correlations with incidences of corresponding hyperactive dysfunctional syndromes. *Acta Neurochir (Wien)*. 2011;153:2365-75
15. Leal PR, Froment JC, Sindou M. Predictive value of MRI for detecting and characterizing vascular compression in cranial nerve hyperactivity syndromes (trigeminal and facial nerves). *Neurochirurgie*. 2009 ;55:174-80.
16. Kamaoui I, Faiz F, Benzagmout M, Fedoul B, Sqalli Houssaini N, Messouak O, et coll. Dolichoectasie vertébro-basilaire : pathologie évolutive. *Feuillets de Radiologie*. 2006 ;46 :433-439.
17. Yuh SJ, Alkherayf F, Lesiuk H. Dolichoectasia of the vertebral basilar and internal carotid arteries: A case report and literature review. *Surg Neurol Int*. 2013, 29:153.
18. Chakravarty A. Hemifacial spasm, glossodynia, and dolichoectasia of the basilar artery. *J Stroke Cerebrovasc Dis*. 2012;21:78-81.