

Neck-tongue syndrom

MUDr. Michael Pipka, MUDr. Pavel Menci

Neurologické oddělení Nemocnice Na Homolce, Praha

Neck-tongue syndrom je vzácně se vyskytující onemocnění, které je zahrnuto a definováno v Mezinárodní klasifikaci bolestí hlavy (ICHD-3). Klinickými projevy neck-tongue syndromu (NTS) jsou náhle vzniklá bolest hlavy v zátylku a senzo-motorické příznaky z postižené inervace jazyka, vzniklé v návaznosti na prudký pohyb hlavou. Diagnóza je v klinické praxi stanovena per exclusionem, tedy po vyloučení frekventnějších a potenciálně závažnějších stavů, zejména cévních patologií (disekce pre/intracerebrálních tepen a subarachnoidální krvácení). Dominantně se v terapii uplatňují nefarmakologické přístupy, které jsou reprezentovány fyzioterapií subokcipitální a krční krajiny. Prezентuji kazuistiku 53leté pacientky, přijaté pro akutně vzniklou dysarthrii a silnou cefaleu, vzniklou ve vazbě na usilovné kýchnutí.

Klíčová slova: neck-tongue syndrom, dysarthrie, pseudoatetóza, atlantoaxiální skloubení, propiocepce, n. hypoglossus.

Neck-tongue syndrome

Neck-tongue syndrome is a rarely occurring disease which is included and defined in the International Classification of Headache Disorders (ICHD-3). The clinical manifestations of neck-tongue syndrome (NTS) are sudden-onset headache at the back of the neck and sensory-motor signs due to impairment of tongue innervation, occurring as a result of vigorous head movement. In the clinical practice, the diagnosis is made by exclusion, that is after ruling out more frequent and potentially more serious conditions, particularly vascular pathologies (pre/intracerebral artery dissection and subarachnoid haemorrhage). The treatment predominantly involves nonpharmacological approaches represented by physiotherapy of the suboccipital and cervical regions. A case report is presented of a 53-year-old female patient admitted for acute-onset dysarthria and severe headache, occurring as a result of sneezing hard.

Key words: neck-tongue syndrome, dysarthria, pseudoathetosis, atlantoaxial joint, proprioception, hypoglossal nerve.

Úvod

Neck-tongue syndrom je zahrnut v Mezinárodní klasifikaci bolestí hlavy (ICHD-3) v kategorii 13, tedy bolestivé léze hlavových nervů a jiné obličejové bolesti. Prevalence v dospělé populaci je 0,22 % (Sjaastad, 2006). Definován je náhle vzniklou, unilaterální bolestí v týle či horní části krční páteře s ipsilaterálními senzitivními (parestezie) a/nebo motorickými (paréza) příznaky, kterým předchází prudký pohyb hlavou (tabulka 1). Tento syndrom byl poprvé popsán Lancem a Anthonym již v roce 1980 (Lance, 1980). Dosud bylo prezentováno několik možných patofyziologických mechanismů vzniku onemocnění. Obecně přijímanou teo-

rií je subluxace laterálního atlantoaxiálního skloubení s kompresí a lézí ramus ventralis C2, kterým vedou aferentní propioceptivní vlákna z ipsilaterální části jazyka. Tato deafferentace způsobuje nejen příznaky motorické, ale také lehké senzitivní postižení (Bogduk 1981). Paréza a hypotonie svalstva jazyka je způsobena zejména poškozením propioceptivních nervových vláken v komprimovaném nervu. Porucha propiocepce vede k ataxii jazyka, a tím k poruše obratnosti s veškerými jejími klinickými důsledky. Jistou paralelou k vysvětlení senzitivních fenoménů lze nalézt v Bellově paréze, která je často doprovázena ipsilaterálními paresteziemi při zachování citlivosti v distribuci n. trigeminus (Bogduk,

1980). Pseudoatetóza jazyka, jako očekávaný projev ztráty propiocepce, nebyla tak často zmiňovaným příznakem v prezentovaných případech.

Onemocnění můžeme dělit na nekomplikované (idiopatické, asociované s traumatem, hereditární) a komplikované (asociované se zánětlivými či degenerativními onemocněními).

Tab. 1. Kritéria NTS dle ICHD-3

A) Dvě epizody musejí splňovat body B až D
B) Ostrá či bodavá jednostranná bolest okcipitálně či v horní části krční páteře s přítomností abnormálních ipsilaterálních senzitivních a/nebo motorických příznaků jazyka
C) Epizoda spuštěná prudkým pohybem hlavy
D) Obtíže trvající od sekund do několika minut
E) Vyloučena jiná příčina bolesti hlavy



KORESPONDENČNÍ ADRESA AUTORA:

MUDr. Michael Pipka, michael.pipka@homolka.cz

Neurologické oddělení Nemocnice Na Homolce, Roentgenova 2, 150 30 Praha

Cit. zkr: *Neurol. praxi.* 2021;22(4):90-92

Článek přijat redakcí: 21. 5. 2020

Článek přijat k publikaci: 21. 7. 2020

mi krční páteře). Vzhledem k závažné a náhle vzniklé symptomatice se v klinické praxi často jedná o diagnózu per exclusionem. V akutním stadiu je nezbytné vyloučit cévní mozkovou příhodu, demyelinizační onemocnění, frakturu baze lební či spondylogenní onemocnění. Z výše popsaného základního dělení NTS vyplývají také očekávané nálezy na zobrazovacích metodách (MRI/CT mozku a krční páteře). V případě nekomplikovaného NTS jsou nálezy v normě, u komplikovaného NTS to bývají degenerativní změny v horní části krční páteře. Mimo uvedená základní diagnostická kritéria jsou pacienti často referováni doprovodné příznaky, jako zvýšená citlivost k hluku, brnění patra, nazální kongesce, sialorhea, dysestezie v mandibulární krajině, obličejové parestezie, parestezie v oblasti ramene a jiné (Gelfand et al., 2018).

Onemocnění postihuje všechny věkové kategorie. Častější výskyt je v dětském a dospívajícím věku, což dokládá možnou příčinou souvislost s vývojem laxity ligamentózního aparátu. Věkový medián u popsaných případů byl 16 let (Gelfand et al., 2018). V některých kazuistikách byly popsány rodiny, kde se onemocnění vyskytovalo častěji, nabízí se tedy možná genetická souvislost (např. se spekuluje o kolagenopatiích) (Lewis et al., 2003). Malá zkušenost s tímto onemocněním zatím nevedla k vytvoření ucelené strategie léčby podložené studiemi. V terapii vycházíme z dílčích publikovaných kazuistik. Kromě farmakoterapie se v léčbě NTS uplatňuje řada nefarmakologických postupů. V terapii je zkušenost s NSAID, prednisonem, karbamazepinem, gabapentinem, topimarátem, tizanidinem a lokálními obklady. Žádný z těchto léků úspěšností nepřevyšoval efekt fyzioterapie, konkrétně mluvíme o kloubní mobilizaci subokcipitální a krční krajiny, trakčních metodách, úpravách svalových dysbalancí a autoterapii v domácích podmínkách. Efekt se průměrně dostavil do dvou týdnů (Borody, 2004). Zkoušela se také imobilizace krčním

límecem, kde efekt hovořil spíše v jeho pozitivní prospěch (Niethamer, 2016).

Kazuistika

Pacientka, 53 let, dosud vážně nestonající vyjma migrén v osobní anamnéze, byla v únoru 2020 přivezena na naši neurologickou JIP pro náhle vzniklou dysarthrii a krutou bolest v levém zátylku. Obtíže vznikly bezprostředně po usilovném kýchnutí. Dominujícím steskem byla bolest vysoké intenzity v levém zátylku s akcentací při pohybu hlavou, pocit ztuhlosti jazyka a porucha artikulace. Objektivně byla zhlédána jasně klinicky vyjádřená paréza n. hypoglossus s hypotonii levé poloviny jazyka, bolestivá palpce cerviko-kraniálního přechodu s omezeným rozsahem hybnosti krční páteře. Akutně bylo provedeno nativní CT mozku a CTA precerebrálních a intrakraniálních tepen, jež bylo bez nálezu jakékoliv cévní či kostěné patologie. Druhý den, při stacionárním neurologickém nálezu, byla doplněna MRI mozku a krční páteře, kde se rovněž neprokázalo vysvětlení pro přetrvávající klinický obraz. K podrobení mozkomíšního moku nejen spektrofotometrické analýze nám chyběl souhlas pacientky s provedením lumbální punkce. ORL vyšetření potvrdilo izolovanou parézu n. XII sin. Nálezy na zobrazovacích metodách byly podstoupeny ještě second opinion na společném neuroradiologickém semináři, kde strukturální podklad pro klinický projev nezhledán.

Při dimisi po čtyřdenní hospitalizaci trvala dysarthrie, porucha polykání, paréza n. XII sin., již jen lehká bolest cerviko-kraniálního přechodu, akcentovaná rotací a předklonem. S odstupem tří týdnů bylo doplněno elektromyografické vyšetření a klinická kontrola, při které byla pozorována regrese parézy a bolestí. Pacientka byla bez nových symptomů. Při elektromyografickém vyšetření jazyka zachyceno minimálně pozitivních ostrých vln v jehlové studii.

Poškození n. hypoglossus vyhodnoceno jako dominantně demyelinizační s minimální axonální lézí. Při retrospektivním doplnění anamnézy pacientka udávala pocity ztuhlosti krční páteře s nekonstantní píchavou bolestí hlavy v oblasti proc. mastoideus na postižené straně. Tyto obtíže můžeme vysvětlit iritací ramus ventralis C2, do jehož inervační oblasti mastoid patří.

Diskuze

NTS je vzácné onemocnění, jehož diagnóza je v klinické praxi stanovena per exclusionem, tedy po vyloučení frekventnějších a potenciálně závažnějších stavů, zejména cévních patologií, jako disekce pre/intracerebrálních tepen a subarachnoidální krvácení. Mimo senzomotorické poruchy jazyka jsou pacienti často referováni i jiné doprovodné symptomy, jako např. brnění patra či obličejové parestezie (viz úvod), které nám mohou komplikovat stanovení diagnózy. Pacientka prezentovaná ve výše uvedené kazuistice splňuje diagnostická kritéria neck-tongue syndromu a současně nad jejich rámec byla pozorována paréza n. hypoglossus s klinickým a elektrofyziologickým korelátem. Předpokládáme tedy koincidentální lehkou lézi n. hypoglossus při vyústění z canalis n. hypoglossi. Tato sdružená patologie již byla popsána u pacientky s NTS a artropatií postihující atlantoaxiální skloubení (Surabhi et al., 2009).

Závěr

Od první zmínky o tomto onemocnění uběhlo 30 let a povědomí o této diagnóze je stále nedostatečné. V tomto krátkém klinickém sdělení prezentuji kazuistiku pacientky s neck-tongue syndromem. Dle dostupných informací se jedná o první prezentovanou kazuistiku tohoto onemocnění v české literatuře. Věřím, že toto sdělení bude sloužit k seznámení se s touto jasně definovanou nosologickou jednotkou.

LITERATURA

1. Bogduk N. An anatomical basis for the Neck-Tongue. *Journal of Neurology Neurosurgery and Psychiatry*. 1981;44(3):202-208. Dostupné z: <https://jnnp.bmj.com/content/44/3/202.long>.
2. Borody C. Neck-tongue syndrome. *Journal of Manipulative and Physiological Therapeutics*. 2004;27(5):e8. Dostupné z: [https://www.jmptonline.org/article/S0161-4754\(04\)00053-](https://www.jmptonline.org/article/S0161-4754(04)00053-3/fulltext)

[3/fulltext](https://www.jmptonline.org/article/S0161-4754(04)00053-3/fulltext).

3. Cassidy D, Diakow P. Treatment of neck-tongue syndrome by spinal manipulation: a report of three cases. *The Pain Clinic*. 1986;1:41-46. Dostupné z: <https://pdfs.semanticscholar.org/3cf6/f72448957512d1548c97701583cd02f233f3.pdf>.
4. Gelfand AA, Johnson H, Lenaerts ME. Neck-Tongue syndrome: a systematic review. *Cephalalgia – an international jour-*

nal of headache. 2018;38(2):374-382. Dostupné z: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/28100071/>.

5. Headache Classification Committee of the International Headache Society (IHS) The International Classification of Headache Disorders, 3rd edition. *Cephalalgia – an international journal of headache*. 2018;38(1):1-211. Dostupné z: <https://ichd-3.org/classification-outline/>.

6. Lance JW, Anthony M. Neck-tongue syndrome on sudden turning of the head. *Journal of Neurology Neurosurgery and Psychiatry*. 1980;43(2):97-101. Dostupné z: <https://jnnp.bmj.com/content/43/2/97.long>.
7. Lewis DW, Frank LM, Toor S. Familial neck-tongue syndrome. *Headache – the Journal of head and face pain* 2003;43(2):132-134. Dostupné z: <https://headachejournal.onlinelibrary.wiley.com/doi/full/10.1046/j.1526-4610.2003.03032.x>.
8. Niethamer L, Myers R. Manual therapy and exercise for a patient with neck-tongue syndrome: a case report. *Journal of Orthopaedic and Sports Physical Therapy*. 2006;46(3):217-224. Dostupné z <https://www.jospt.org/doi/full/10.2519/jospt.2016.6195>.
9. Sjaastad O, Bakkeiteig LS. Neck-tongue syndrome and related (?) conditions. *Cephalalgia – an international journal of headache*. 2006;26(3):233-240. Dostupné z: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/16472328/>.
10. Surabhi W, Romanowski CH, Akil M. An unusual cause of Neck-Tongue syndrom. *The Journal of Rheumatology*. 2009;36(4):857. Dostupné z: https://www.researchgate.net/publication/24254294_An_Unusual_Cause_of_the_Neck-Tongue_Syndrom.