



Asociación Mexicana de
Cirugía Bucal y Maxilofacial,
Colegio Mexicano de Cirugía
Bucal y Maxilofacial, A.C.

Vol. 5, Núm. 1 • Enero-Abril 2009 • pp. 26-31

Síndrome de Eagle: reporte de un caso

Marcelo Antonio Villalba Leyton,* Ernesto Miranda Villasana**

RESUMEN

El síndrome de Eagle, también llamado estilalgia, es una entidad raramente identificada clínica y anatomopatológicamente, descrito por primera vez por W.W. Eagle en 1937. El síndrome de Eagle es definido como elongación del proceso estiloideo y/o osificación del ligamento estiloideo. En el caso reportado, se trata de paciente de 48 años de edad, con los síntomas clínicos de síndrome de Eagle; se observa con los estudios de imagenología, elongación del proceso estiloideo. Los síntomas se resolvieron realizando la amputación del proceso elongado, con abordaje extraoral, con evolución favorable a tratamiento quirúrgico en sus controles postoperatorios, sin datos de sintomatología dolorosa.

Palabras clave: Síndrome de Eagle, estilohioideo, calcificación, sensación de cuerpo extraño.

SUMMARY

Eagle's Syndrome, also called stylalgia, is an entity that is rarely clinically and anatomopathologically identified. This syndrome was described for the first time by W.W. Eagle in 1937. Eagle's Syndrome is defined as the elongation of the styloid process and/or the ossification of the styloid ligament. In our reported case, it is a patient being 48 years old, presenting the clinical symptoms of Eagle's Syndrome. This is observed through imaging studies and the elongation of the styloid process. The symptoms were solved performing the amputation of the elongated process, by means of an extra-oral approach. There was a favorable evolution after the surgical treatment according to the post-operative controls, without data records of painful symptomatology.

Key words: Eagle's Syndrome, stylohyoid, calcification, strange sensation in the body.

INTRODUCCIÓN

El síndrome de Eagle es definido como elongación del proceso estiloideo y/o osificación del ligamento estiloideo.

Este término se otorgó a los síntomas que produce la elongación del proceso estiloides, la mineralización de los ligamentos estiloides y estilomandibular. El primero en describir esta elongación del

proceso estiloideo fue Marchetti en 1652^{2,20} y en 1872 Weinlechner.⁴

En 1907, Dwight clasificó la anatomía del complejo estilohioideo con base en radiografías, encontrando osificaciones de éste con sintomatología clínica. En 1932, Thigpen reportó once casos de procesos estilohioideos elongados; en 1937, W.W. Eagle^{2,3,17,19,20,21} describió un caso de dolor asociado con la elongación del proceso estiloideo; poste-

* Alumno de cuarto año del Postgrado de la Facultad de Odontología.

** Jefe y Profesor Titular de la Especialidad de Cirugía Maxilofacial.
UNAM-ISSSTE Hospital Regional "General Ignacio Zaragoza".

Correspondencia:

Marcelo Antonio Villalba Leyton

Calzada Ignacio Zaragoza Núm. 1711, Col. Ejército Constitucionalista 09220. Delegación Iztapalapa, México, D.F. Tel: 57 16 52 00 ext. 16748.

E-mail: kmarceb@hotmail.com

riormente publicó más de 200 artículos;^{9,20} otros autores le dieron diferentes términos como síndrome estilohioideo, estiloides y estilohioideo, neuralgia del proceso estilohioideo y por último mineralización del complejo estilo-hioideo-mandibular.²

El término síndrome de Eagle puede aplicarse a pacientes de cualquier edad; el término de síndrome estiloideo puede aplicarse cuando el proceso estiloideo y/o la cadena estilohioidea se encuentra osificada, y por último el término pseudoestilalagia puede ser reservado a pacientes de edad avanzada, con antecedentes de trauma.^{20,21} Recientemente se propone el uso de síndrome estilo-estilo-hioideo, pero se sabe que existen 4 síndromes en la actual literatura.^{2,17}

Embriológicamente, esta estructura deriva del 2 arco branquial o también llamado hioideo, donde se origina el cartílago de Reichert. A partir del 3er mes de vida intrauterina se transforma en 5 porciones timpanohial, estilohial, ceratohial, hipohial y basohial. Según diferentes autores, la porción cetohial es la que forma el ligamento estilohioideo. En la apófisis estiloides se inserta el ramillete de Riolo, con la aponeurosis estilofaríngea; divide el espacio vertebromaxilofaríngeo en parotídeo, preestiloideo y por último, el espacio retroestiloideo.

El proceso estiloideo está ubicado entre la carótida externa e interna, y cerca de la pared faríngea; en esta estructura se insertan 3 músculos: estilofaríngeo, estilohioideo y el estilogloso, así como los ligamentos estilohioideo y el estilomandibular.⁸ La punta se continúa con el ligamento estilohioideo, que se extiende hasta el cuerno menor del hueso hioideos. El músculo estilomandibular se inserta en el ángulo de la mandíbula y limita los movimientos de protrusión.⁸

Eagle fue quien reportó dos casos con sintomatología faríngea y facial por irritación de las carótidas en la bifurcación común de éstas, además de varios casos de síntomas cervicofaríngeos en el estudio complementario radiográfico donde observó la apófisis estiloides osificada y elongada.

Eagle originalmente describió dos distintos tipos de síndrome:^{11,17} el clásico, generado posterior a tonsilectomía, que origina los siguientes datos clínicos: Sensación de cuerpo extraño en la faringe,^{17,19} disfagia, odinofagia, otalgia del lado afectado, trismus, limitación de movimientos a la excursión lateral. Otros síntomas que refieren diferentes investigadores son: incremento de la salivación,^{13,17} dolor a la rotación de la cabeza^{8,19} y vértigo,²⁰ que pueden involucrar a los nervios craneales, como el V, VII, IX y X;^{11,19} en el postquirúrgico, con tejido fibroso, puede envolver estos nervios.¹⁷

El segundo síndrome^{2,8,17} es de la arteria carótida; no es consecuencia de una cirugía faríngea previa; está bien documentado que es por irritación mecánica y estimulación del plexo simpático en las paredes de las arterias carótidas externa e interna, con la punta estiloidea o la osificación del ligamento, ocasionando los siguientes síntomas:

Dolor en regiones infraorbitaria, temporal, auricular, occipital, cuello y cefalea.^{3,13,17}

La mineralización o calcificación de complejo estiloideo es común y ocurre en 2 a 4%.¹⁷ El estudio de Gossman y Tarsitano, de 4,200 radiografías panorámicas en pacientes del sexo masculino en edades comprendidas entre 18 a 22 años, sólo observó el 1.4%, con proceso estiloideo elongado por arriba de 25 mm. Correll y col. examinaron 1,771 radiografías con una incidencia de 18.2% que tenían una elongación bilateral; el 8% de 103 pacientes presentó síntomas clínicos, concluyendo su estudio sin la relación clínica e imagenológica.¹⁷

Kauffman y colaboradores observaron radiográficamente el 7.3% de incidencia de elongación simple, pero no relacionaron los síntomas clínicos con radiográficos; mencionan que la incidencia es mayor en mujeres de 30 años o mayores a esta edad.¹⁹

El estudio imagenológico¹⁹ usado en primera instancia es la radiografía panorámica y lateral de cráneo donde claramente se observa radiodensidad; en la tomografía computada con reconstrucción tridimensional (TCT)^{9,17} en base a su hiperdensidad, podemos medir la longitud de la apófisis estiloides y la calcificación del ligamento estilohioideo.

Langlais y col.^{8,17} clasificaron la apófisis estiloides radiográficamente:

Tipo I	Elongada
Tipo II	Pseudoarticulada
Tipo III	Segmentada

Por el tipo de calcificación tenemos

A	Calcificada fuera de la línea
B	Parcialmente calcificada
C	Nodular
D	Completamente calcificada

Diferentes teorías tratan de explicar la entidad causante del síndrome de Eagle:

- El cartílago contiene unidades mesenquimatosas con capacidad osteoformativa, lo que resulta una osificación antes que maduración normal de tejido fibroso (desarrollo ontogenético recesivo).²⁷

- Un elemento condral del arco de Reichert sufre cambio metaplásico y osificación, sea por estrés mecánico y/o traumático (metaplasia reactiva).
- Previa cirugía o irritación crónica, llevan a un resultado de osteítis, periosteítis osificante y tendinitis, produciendo miositis (hiperplasia reactiva).¹¹
- Se cree que es un proceso que se transmite autosómico recesivo, con baja expresividad (genética).
- Dimorfismo congénito: existe una alta incidencia de anomalías estiloideas en aquellas personas que presentan malformaciones en la articulación atloidea occipital.
- Hiperplasia reactiva: cirugía o irritación crónica pueden producir osteítis, periosteítis osificante o tendinitis en el aparato estilohioideo, también una retracción cicatrizal o miositis.^{2,27}
- Teoría endocrina: proceso estiloideo osificado y sintomático en mujeres menopáusicas.¹⁷
- Trauma cervical en la cabeza y el cuello; puede producir la fractura de apófisis estiloides.¹⁷

La norma de longitud del proceso estiloideo varía con gran frecuencia en la mayoría de los pacientes; éstos pueden presentar de 20 a 30 mm^{2,8,11,17,21} de longitud; de la apófisis estiloides, esta medida se puede considerar en rangos de alargado; se deben tener signos clínicos asociados a la elongación de la apófisis estiloides, lo cual fue descrito por Eagle en 1934, llamándolo síndrome de Eagle o estilalgia, el que ocurre con muy baja frecuencia; al estudio radiográfico se puede evidenciar la calcificación; estos pacientes tienden a recurrir en primera instancia al odontólogo de práctica general, al otorrinolaringólogo, al neurólogo, y hasta al psiquiatra para recibir tratamiento, confundiendo con la clínica.^{24,27}

La incidencia de elongación de apófisis estiloides ocurre en pacientes jóvenes adultos, con presentación unilateral o bilateral.

A través de la historia se han descrito métodos de tratamiento que van desde la aplicación de una inyección de esteroides (prednisona) y anestésico local (lidocaína) en el asta inferior del hueso hioides o en la fosa amigdalina. Éste es en la actualidad un tratamiento local y conservador todavía muy utilizado aún, pero el tratamiento definitivo siempre es quirúrgico.

Existen tratamientos conservadores a base de infiltración de esteroides¹¹ sin buen sustento; inclusive la fractura manual de la elongación, tratamiento realizado sólo por manipulación y a ciegas.

El abordaje quirúrgico intraoral se realiza junto con la misma técnica que una amigdalectomía clásica, seguido por una incisión longitudinal con la disec-

ción de los músculos faríngeos. En la actualidad, sólo se utiliza cuando hay que retirar la porción caudal del proceso estiloideo, y cuando esta porción es fácilmente palpable a través de la fosa amigdalina es un procedimiento difícil, pues se realiza a ciegas y con alto riesgo de lesionar el nervio glossofaríngeo, el nervio facial o la arteria carótida externa.

Este abordaje puede ser utilizado sólo para la parte distal, o la punta del proceso estiloideo, debido a que el campo quirúrgico es limitado.¹⁷

El abordaje quirúrgico extraoral consiste en un abordaje Hinds; después de rechazar la glándula submandibular, nos acercamos al espacio submandibular inferior, localizando el tendón y el músculo digástrico con las estructuras vasculares.

La resección del ligamento se hace con mayor seguridad, pues se visualizan directamente estructuras anatómicas vasculares y nerviosas y se corre mínimo riesgo de lesionarlas.

OBJETIVOS

Integración y análisis de la valoración, diagnóstico y tratamiento quirúrgico del síndrome de Eagle a través de un protocolo clínico y quirúrgico sustentado en los reportes de investigación actualizados.

MÉTODOS

Descripción de caso clínico de paciente de sexo femenino de 48 años de edad, sin antecedentes sistémicos, alergia a medicamentos o intervenciones quirúrgicas en área cervical; el motivo de consulta fue dolor difuso nivel 6 (determinado con la escala análoga del dolor de 0 a 10) en región retromandibular bilateral, dolor irradiado a región cervical, mandibular, maseterina, auricular bilateral, odinofagia, con limitación de movimientos mandibulares y cervicales; intraoralmente parcialmente edéntulo, sin desviación mandibular.

Los estudios radiográficos de ortopantomografía y tomografía computada con reconstrucción tridimensional evidencian la elongación e hipermineralización del proceso estiloideo igual o mayor a 20 mm, parámetro característico del síndrome de Eagle (*Figuras 1 y 2*).

La paciente se ingresa al Hospital Regional General Ignacio Zaragoza ISSSTE ciudad de México, con diagnóstico de síndrome de Eagle; es intervenida quirúrgicamente bajo anestesia general, en posición decúbito dorsal con lateralización de la cabeza al lado contrario del que se realizará el procedimiento quirúrgico; se inicia el abordaje ex-

traoral incisión tipo Hinds (*Figura 3*) paralela al borde posterior mandibular de 2.5 cm buscando como referencia el borde anterior del músculo esternocleidomastoideo, evitando lesionar las ramas del nervio facial; se realiza la localización de la apófisis estiloides por disección roma del estilofaríngeo, estilohioideo y estilogloso y los ligamentos estilohioideo y estilomandibular (*Figura 4*); se fractura la apófisis estiloides en su base, previa hemostasia; se sutura por planos los tejidos del lecho quirúrgico.

HALLAZGOS INTRAOPERATORIOS

Apófisis estiloides derecha, de 38 mm de longitud, y del lado izquierdo apófisis estiloide con una longitud de 35 mm (*Figura 5*).

Las piezas fueron remitidas al Servicio de Anatomía Patológica obteniendo resultados compatibles con hipermineralización, o calcificación parcial de la muestra enviada. La paciente fue egresada el tercer día y permanece asintomática



Figura 1. Ortopantomografía; se observa apófisis estiloides elongadas.

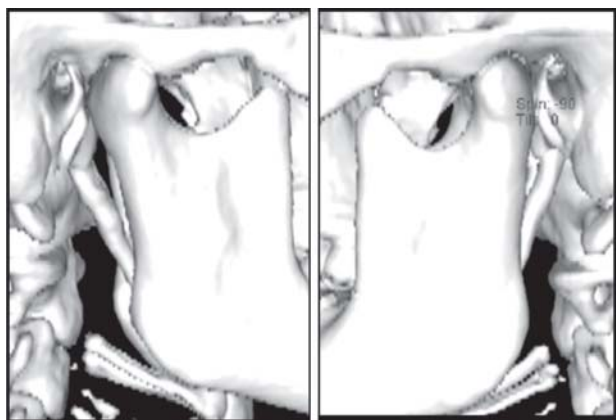


Figura 2. TC. Apófisis estiloides elongadas (Derecha e izquierda).

RESULTADOS

El tratamiento médico-quirúrgico para la resección de la apófisis estiloides en el caso clínico fue exitoso ya que se logró la resección de todo el proceso hipermineralizado, sin daño a estructuras anatómicas importantes y con resultados estéticos aceptables.

La técnica utilizada para la resección quirúrgica de las apófisis estiloides no tuvo complicaciones postoperatorias.

Otra ventaja es la exposición del campo quirúrgico, adecuado para identificar las estructuras anatómicas correctamente, y retirar la apófisis estiloides en su totalidad.

Respecto a otras técnicas quirúrgicas, la desarticulación de la apófisis estiloides se realiza a ciegas, con la posibilidad de lesionar estructuras vecinas.

La paciente, a seis meses y un año del postoperatorio, no presenta secuelas de parestesia, irregularidades cicatrizales, eliminando la sintomatología dolorosa.

DISCUSIÓN

Muchos estudios previos coinciden en que la elongación del proceso estiloides, calcificación del ligamento estilohioideo o el complejo síndrome estiloides-estilohioideo no está clara todavía; existen teorías que mencionan elementos cartilaginosos que se convierten en tejido óseo.¹⁹

En este caso clínico, fue posible identificar el padecimiento debido a la sintomatología y a las evidencias imagenológicas que caracterizan al síndrome de Eagle; es claro que el proceso estiloides y la calcificación del ligamento estilohioideo o el complejo estilohioideo se ubican en una zona anatómica compleja con múltiples estructuras nerviosas y vasculares cercanas a su recorrido anatómico.

Los síntomas que determinan el síndrome de Eagle de la paciente están más relacionados con las estructuras vasculares y neurológicas en el recorrido del proceso estiloides elongado, el ligamento estilohioideo y síndrome estiloides-estilohioideo que con la compresión de las arterias carótidas, y mucosa orofaríngea, pero en nuestra experiencia no encontramos una evidencia clínica clara, entendiendo además que el proceso estiloides elongado, calcificación del ligamento estilohioideo y complejo estiloides-estilohioideo anatómicamente siguen en dirección hacia el hueso hioides y no hacia la luz de la cavidad oral. El mecanismo de dolor puede producirse por un tirón súbito en región cervical y como consecuencia, la fractura de la apófisis estiloides, sin producir-

se unión, causando presión alrededor de las estructuras adyacentes, sobre todo en las estructuras nerviosas.

En pacientes con amigdalectomía previa se ha descrito la irritación como posible causa de hipercalcificación, así como de la sintomatología dolorosa debido al procedimiento quirúrgico; se altera la anatomía de esta región y se produce en forma tardía algún grado de retracción por el proceso cicatricial que como sabemos puede ser diferente en cada uno de los pacientes, razón importante por la que preferimos procedimientos quirúrgicos por vía extraoral.



Figura 3. Diseño de incisión.

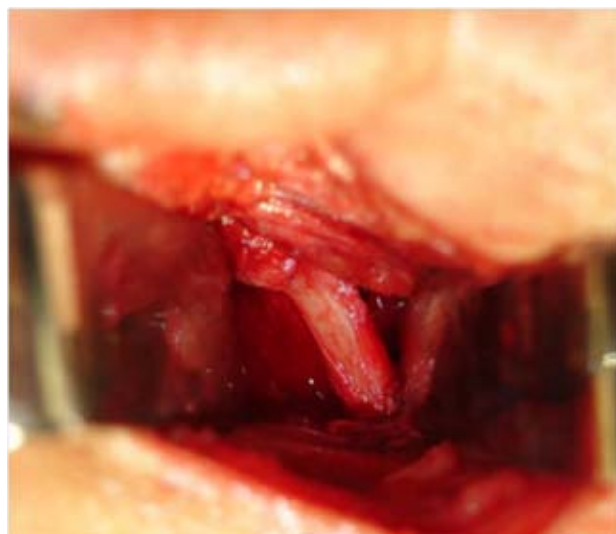


Figura 4. Apófisis estiloides mineralizada.

La calcificación del ligamento estilohioideo presenta calcificaciones fragmentadas que siguen el eje que va desde el proceso estiloideo hasta el hueso hioides en su asta mayor.

Es un hecho que los remanentes primarios de los huesos estilohial, ceratohial e hipohial pueden tener zonas donde no se produce una completa fusión, presentando pseudoarticulaciones en los procesos estiloideos. Estos remanentes, por presentar un mayor espesor, pueden producir irritación focal como parte de la sintomatología en esta entidad clínica.

En la actualidad es frecuente el retiro quirúrgico del proceso estilohioideo por vía tonsilar; nosotros proponemos un abordaje extraoral con una posición más posterior a la habitual, es decir, tipo Hinds; así evitamos al máximo lesiones a los ramos de los nervios glossofaríngeo, facial, glándula submaxilar y arteria carótida, estructuras que se encuentran involucradas en el abordaje extraoral; observamos también que en el periodo postquirúrgico la paciente cursó sin dolor, su recuperación inmediata con movimientos cervicales adecuados; actualmente se encuentra asintomática.

CONCLUSIONES

Los resultados obtenidos en el caso clínico descrito tratado en el Servicio de Cirugía Maxilofacial del Hospital Regional Gral. Ignacio Zaragoza del ISSSTE fueron exitosos, logrando una remisión total de la sintomatología preoperatoria, sin lesión a estructuras anatómico-quirúrgicas relacionadas y una cicatrización estética aceptable.

El síndrome de Eagle es una entidad rara y es necesario conocer su existencia para poder diagnosticarlo y tratarlo adecuadamente.

La incidencia de pacientes con la sintomatología mencionada es muy baja, debido a que se puede enmascarar con otras patologías.



Figura 5. Apófisis estiloides.

Pacientes con abordajes intraorales presentan pronta recuperación, pero tienen mayor riesgo de infección, sobre todo porque se realiza la incisión en la faringe y eso puede ocasionar infección cervical.

Los pacientes sometidos al abordaje quirúrgico extraoral cuentan con la ventaja de que, al tener un campo operatorio ampliamente expuesto con estructuras anatómicas visibles, previenen hemorragias, parestesias o alteraciones en la cicatrización.

BIBLIOGRAFÍA

1. Setúbal AG, Crusóe RL et al. Three-dimensional identification of vascular compression in Eagle's syndrome using computed tomography: Case report. *J Oral Maxillofac Surg* 2008; 66: 169-176.
2. Ladeira F, Iwaki L. Styloid-stylohyoid syndrome: Literature review and case report. *J Oral Maxillofac Surg* 2007; 65: 1346-1353.
3. Abie H, Mendelsohn BA, Gerald S. Heterogeneity in the clinical presentation of Eagles syndrome. *Otolaryngology-Head and neck Surgery* 2006; 134: 389-393.
4. Ilguy M, Guler N et al. Incidence of the type and calcification patterns in patients with elongated styloid process. *J Int Med Res* 2005; 33(1): 96.
5. Beder E, Bagis OO. Current diagnosis and transoral surgical treatment of Eagles syndrome. *J Oral Maxillofac Surg* 2005; 63:1742-1745.
6. Buono U, Michel G. Surgical approach to the stylohyoid process in Eagle's syndrome. *J Oral Maxillofac Surg* 2005; 63: 714-716.
7. Beder E, Ozgursoy OB, Ozgursoy SK. Current diagnosis and transoral surgical treatment of Eagle's syndrome. *J Oral Maxillofac Surg* 2005; 63:1742.
8. Kursoglu P, Unala F. Radiological evaluation of the styloid process in young adults resident in Turkey's Teditipe University faculty of Dentistry. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2005; 100: 491-494.
9. Jung T, Tschernitschek H et al. Elongated styloid process: when is it really elongated? *Dentomaxillofac Radiol* 2004; 33(2): 119-124.
10. Lee S, Hillel A. Three dimensional computed tomography imaging of Eagles syndrome. *Am J Otolaryngol* 2004; 25: 109.
11. Salamone FH, Falciglia M, Steward DL. Eagle's syndrome reconsidered as a cervical manifestation of heterotopic ossification: Woman presenting with a neck mass. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2004; 130: 501.
12. Takada Y, Ishikura R, Ando K et al. Imaging findings of elongated styloid process syndrome (Eagle's syndrome): Report of two cases. *Nippon Igaku Hoshasen Gakkai Zsshi* 2003; 63: 56.
13. Mortellaro C, Biancucci P, Picciolo et al. Eagles syndrome: important of a corrected diagnosis and adequate surgical treatment. *J Craniofac Surg* 2002; 13(6): 755-758.
14. Chandra KMS, Panduranga KM. Elongated styloid process (Eagles syndrome): A clinical study. *J Oral Maxillofac Surg* 2002; 60: 171-175.
15. Prasad KS, Kamath MP, Reddy JM et al. Elongated styloid process (Eagle's syndrome): A clinical study. *J Oral Maxillofac Surg* 2002; 60: 171.
16. Kay JD, Har-El G, Lucente FE. A complete stylohyoid bone with a stylohyoid joint. *Am J Otolaryngol* 2001; 22: 358.
17. Diamond Lh, Cottrell DA, Hunter MJ. Eagles syndrome: A reporter of 4 patients treated using a modified extraoral approach. *J Oral Maxillofac Surg* 2001; 59: 1420.
18. Gorlin DDS, Cohen Jr DMD. *Syndromes of the head and neck* fourth edition 2001.
19. Quereshy FA, Gold ES, Arnold J et al. Eagle's syndrome in an 11-year-old patient. *J Oral Maxillofac Surg* 2000; 59: 94.
20. Giuseppina F, Gasparini GG, Filippini F et al. The long styloid process syndrome or Eagles syndrome. *J Cranio-maxillofac Surg* 2000; 28: 123.
21. Van der Westhuijzen AJ, Van der Merwe J. Eagles syndrome: lesser cornu amputation: an alternative surgical solution? *Int J Oral Maxillofac Surg* 1999; 28: 335-337.
22. Miloro M. Fracture of the styloid process: A case report and review of the literature. *J Oral Surg Oral Maxillofac Surg* 1994; 52: 1073.
23. Keur JJ, Campbell JPS, Mc Carthy JF et al. The clinical significance of the elongated styloid process. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1986; 61: 399-404.
24. Lindeman P. The elongated styloid process as a cause of throat discomfort: Four case reports. *J Laryngol Otol* 1985; 99: 505.
25. Langland OE, Langlais RP, Morris CR. *Principles and practice of panoramic radiology*, Philadelphia: PA, Saunders 1982; 362: 26.
26. Lee KJ, Klein TR. Surgery of cysts and tumor of the neck. *Otolaryngology* 1980; 65: 298.
27. Lacet de Lima J Jr, Ferreira RJ, Dias RE, Santos CV, De Sousa EM. Síndrome de Eagle's: Revisión de la literatura. *Acta Odontológica Venezolana*. [serial on line] [Aceptado para publicación: 07/06/2006]. Available from: URL: http://www.actaodontologica.com/ediciones/2007/2/sindrome_eagle.asp