



Síndrome de Eagle. Manejo del paciente en el Hospital Regional «Lic. Adolfo López Mateos»

Gerardo Romero Jasso,* Ana María Nieto Munguía,** Alejandro R Sánchez Amador***

RESUMEN

El síndrome de Eagle es definido como la elongación del proceso estiloides y calcificación del ligamento estilohioideo; se caracteriza por sintomatología dolorosa faríngea, odinofagia, disfagia, cefalea, irradiación de dolor a la oreja y dolor cervical. El promedio de longitud del proceso estiloides es de 2.5 cm. La etiología del síndrome es poco conocida. Se reporta el caso de un paciente masculino de 53 años de edad con cervicalgia, dolor en la región lateral del cuello, limitación de movimientos de lateralidad del cuello. Inicia el protocolo para exéresis del ligamento estilohioideo por abordaje extraoral de tipo submandibular extendido. El objetivo del artículo es dar a conocer las ventajas del abordaje extraoral para esta patología, así como la terapia complementaria postquirúrgica empleada en el Hospital Regional «Lic. Adolfo López Mateos» del ISSSTE.

Palabras clave: Síndrome de Eagle, ligamentos estilohioideo, ligamento estilomandibular.

SUMMARY

Eagle syndrome is defined as the elongation of the styloid process and calcification of the stylohyoid ligament; it is characterized by painful pharyngeal symptomatology, odynophagia, dysphagia, headache, irradiation of pain to the ear and neck pain. The average length of the styloid process is 2.5 cm. The etiology of the syndrome is poorly understood. We report the case of a 53-year-old male patient with neck pain, lateral neck pain, limitation of neck laterality movements. He initiated our protocol for stylohyoid ligament excision with an extended submandibular type extraoral approach. The objective of the article is to present the advantages of the extraoral approach for this pathology, as well as the post-surgical complementary therapy used at the «Adolfo López Mateos» Regional Hospital.

Key words: Eagle syndrome, stylohyoid ligaments, stylomandibular ligament.

INTRODUCCIÓN

El síndrome de Eagle es clásicamente definido como la elongación del proceso estiloides y calcificación del ligamento estilohioideo. El padecimiento se caracteriza por sintomatología dolorosa farín-

gea, odinofagia, disfagia, cefalea, irradiación de dolor a la oreja y dolor cervical; incluso, se han reportado casos de pacientes que sufren de vértigo y síncope,¹ aunque en muchas ocasiones la sintomatología es muy vaga y no específica, por lo que los pacientes acuden a la consulta de cirujanos,

* Cirujano Maxilofacial de práctica privada.

** Médica adscrita al Servicio de Cirugía Maxilofacial, Hospital Regional «Lic. Adolfo López Mateos» del ISSSTE.

*** Residente de segundo año.

Correspondencia:

Ana María Nieto Munguía

Avenida Universidad Núm. 1321, Col. Florida, Del. Álvaro Obregón, 01030, Ciudad de México.

E-mail: annie_tit@hotmail.com

dentistas, neurólogos o psiquiatras; reciben una gran cantidad de tratamientos, sin mejoría clínica.^{2,3}

El primer caso reportado, en 1652 por Pietro Marchetti, un cirujano de Padua, describe una elongación calcificada del ligamento estilohioideo.⁴ En 1872, Weinlechner reporta el primer caso de elongación del proceso estilohioideo tratado quirúrgicamente. Es hasta 1937 que el doctor Watt W. Eagle de la Universidad de Duke comienza a definir el síndrome como resultado de la elongación del proceso estiloideos, llega a describirlo en dos síndromes (síndrome clásico posterior a tonsilectomía y síndrome estilocarotídeo, no asociado a tonsilectomía) y establece que una longitud mayor a 25 mm de proceso estiloideos es responsable de los síntomas.^{5,6}

La incidencia ha sido reportada entre 1.4 y 30%. Para poder diagnosticar el síndrome es necesario realizar palpación de la fosa tonsilar, infiltración de anestésico local en la fosa tonsilar y la examinación radiológica, en donde en la ortopantomografía se puede llegar a apreciar calcificación del ligamento que se extiende como una imagen radiopaca hasta la región posterior de la rama mandibular.^{3,7} Sin embargo, en muchas ocasiones, la radiografía panorámica puede distorsionar las dimensiones del proceso estiloideos y magnificar la imagen debido a diferentes angulaciones que puede presentar el mismo proceso.⁸ La tomografía computarizada con reconstrucción 3D ha sido de gran ayuda para su diagnóstico, ya que en ella se pueden realizar mediciones precisas y dar un diagnóstico más certero.

El tratamiento de elección es la cirugía de escisión del proceso estiloideos mediante un abordaje extraoral o intraoral. El primer abordaje extraoral fue descrito por Loeser y Caldwell en 1942 como una incisión proximal en cercanía al músculo esternocleidomastoideo hasta la porción del hueso hioides. La fascia parotídea es retraída anteriormente y la vaina carotídea, junto con el esternocleidomastoideo, es llevada posteriormente; las inserciones musculares en el proceso estiloideos son disecadas y el proceso es retirado. Las ventajas de este tipo de abordaje son la adecuada visibilidad y manejo de las estructuras adyacentes, permite una manipulación operatoria estéril, aunque es una técnica quirúrgica que requiere de drenes, suturas y, sobre todo, produce una cicatriz visible en el cuello.^{2,8} El abordaje intraoral fue descrito por Eagle, en donde se localiza el proceso estiloideos mediante la palpación digital en la fosa tonsilar, se realiza una incisión hasta localizar mediante disección roma el proceso estiloideos para, posteriormente, retirarlo; en caso

de estar presente la tonsila palatina, se realizará la tonsilectomía en el mismo tiempo quirúrgico.^{2,4,9,10} Sin embargo, durante el paso de años se han empleado métodos alternativos de manejo como la aplicación de esteroides y lidocaína, así como la fractura transfaríngea del proceso estiloideo.^{3,7}

Como ya se mencionó, esta patología consiste en dos síndromes. El primero, «clásico», se observa tras la tonsilectomía debido a la irritación directa de los tejidos blandos y el nervio glossofaríngeo alrededor de la cadena estilohioidea; el segundo, llamado «síndrome de la arteria carótida» o «síndrome estilocarotídeo» es causado por la presión ejercida del ligamento estilohioideo con las ramas externas e internas de la carótida, lo que genera sintomatología dolorosa en las zonas de irrigación (sobre todo la región periorbitaria y parietal).¹¹

Embriológicamente, el proceso estiloideos se origina del cartílago de Reichter (segundo arco faríngeo), mismo que presenta cuatro centros de crecimiento: timpanohial, estilohial, ceratohial, hipohial. La porción timpanohial forma la base del proceso estiloideos hasta lograr la calcificación final a los ocho años de edad. La porción estilohial forma el cuerpo del proceso estiloideos; el grado de calcificación de esta división determina la longitud del proceso. La porción ceratohial forma el ligamento estilohioideo, mismo que en muchos mamíferos se encuentra calcificado (epihial). La porción hipohial desarrolla el cuerno menor del hioides. El proceso estiloideos se proyecta caudomedialmente en el espacio parafaríngeo, separando este último en dos compartimentos: retroestileo (en donde se encuentran la vena yugular interna, carótida interna, nervios vago, glossofaríngeo, accesorio e hipogloso) y preestileo (que contiene la arteria maxilar, nervios lingual y auriculotemporal, con comunicación al espacio tonsilar inferiormente). Existen tres músculos y dos ligamentos que se insertan en el proceso estiloideos (músculos estilofaríngeo, estilohioideo y estilogloso, y ligamentos estilohioideo y estilomandibular).

El promedio de longitud del proceso estiloideos es de 2.5 cm. La etiología del síndrome de Eagle es poco conocida; sin embargo, se cree que existe una calcificación incrementada de la porción ceratohial. Además, puede existir una calcificación de la porción estilohial, misma que puede ser por potencial embriológico o en respuesta a un traumatismo.¹² En 1986, Langlais y sus colaboradores describieron la clasificación para este padecimiento, donde refieren que puede ser tipo I (elongado), tipo II (pseudoarticulado), tipo III (segmentado),

con diferentes patrones de calcificación (calcificación externa, parcialmente calcificado, nodular y completamente calcificado).¹³

El objetivo del presente artículo es dar a conocer las ventajas del abordaje extraoral para esta patología, así como la terapia complementaria postquirúrgica empleada en el Hospital Regional «Lic. Adolfo López Mateos» del ISSSTE.

REPORTE DE CASO

Se trata de un paciente masculino de 53 años de edad, que acude al Hospital Regional «Lic. Adolfo López Mateos» enviado de su clínica familiar por presentar sintomatología dolorosa en la región cervical durante movimientos de lateralidad de cuello, asociada a probable elongación del ligamento estilohioideo como probable síndrome de Eagle. A la exploración clínica, se observa al paciente masculino de edad aparente a la cronológica, con cráneo normocéfalo, sin hundimientos ni exostosis palpables; normoinserción de la piel cabelluda; rebordes orbitarios íntegros con adecuada población de ceja; pirámide nasal central y simétrica con narinas permeables; reborde maxilar íntegro. A la exploración clínica intraoral, presenta dentición permanente incompleta con mala posición dental, adecuada coloración e hidratación de las mucosas orales, movimientos linguales conservados; aumento de volumen bien circunscrito, no doloroso, del mismo color de la mucosa adyacente, de aproximadamente 0.9 cm; dorso y piso de boca sin alteraciones, al igual que paladar duro, blando y orofaringe; reborde mandibular íntegro, cuello central, corto, cilíndrico, simétrico, con presencia de nevo en el triángulo anterior izquierdo. A la palpación de los músculos de la masticación, se encuentra sintomatología dolorosa en puntos gatillo temporales, maseterinos, esternocleidomastoideo, y en músculos posteriores del cuello. Durante los movimientos laterales del cuello, se aprecia limitación a la lateralidad derecha, con sintomatología dolorosa. Se solicita al paciente tomografía axial computarizada con reconstrucción 3D, donde se aprecia elongación del ligamento estilohioideo de 3.7 cm de longitud, observado en cortes axiales coronales y sagitales, y corroborado con reconstrucción 3D (*Figura 1*). El resto de estructuras no muestra datos de importancia para el padecimiento actual.

Se plantea al paciente la escisión del ligamento estilohioideo calcificado bajo anestesia general balanceada en quirófano, a lo cual accede; firma



Figura 1. TAC con reconstrucción 3D donde se observa la elongación y calcificación del ligamento estilohioideo.

los consentimientos informados. Se procede a realizar incisión lineal submandibular derecha de 10 cm de longitud (*Figura 2*), se disecciona por planos hasta llegar a la región basal del ángulo mandibular, se localiza apófisis estilohioidea y calcificación del ligamento mediante palpación, se disecan músculos insertados en la misma con legra y se fractura con pinzas Kelly (*Figura 3*), se colocan fragmentos de ligamento y apófisis (*Figura 4*) en formaldehído al 10% para su envío a estudio histopatológico. Se sutura por planos, colocando puntos simples invertidos internos y piel con Nylon 6-0 subdérmico. Se termina el procedimiento sin accidentes ni incidentes. Se coloca apósito compresivo en la región submandibular derecha. El paciente sale a recuperación; pasa a piso hemodinámica, cardiopulmonar y neurológicamente estable. Es egresado al día siguiente; se retira apósito y se observa adecuada cicatrización de la herida quirúrgica, sin datos de colección hemática ni salida de material alguno. En su valoración posterior a los siete días, presenta adecuada cicatrización, con disminución de la sintomatología dolorosa cervical, limitación de movimientos de lateralidad del cuello. Se solicitan imágenes tomográficas para valorar el tratamiento quirúrgico. El paciente se presenta a los tres meses con ligera sintomatología dolorosa localizada en el esternocleidomastoideo derecho, con ligera limitación a la lateralidad, por lo que se decide la aplicación de toxina botulínica, 100 UI, en los músculos esternocleidomastoideo, trapecio y posteriores del cuello. Tras la aplicación, se revisa al paciente a los 15 días y se observa mejoría franca del síndrome doloroso muscular. Se obtiene el reporte histopatológico, en el que se reporta «hueso

trabecular y cartílago hialino con calcificación focal, tejido fibroconectivo con hemorragia reciente leve». El paciente continúa con seguimiento por nuestro servicio a los seis y nueve meses, sin cambio alguno (Figuras 5 y 6).

DISCUSIÓN

El síndrome de Eagle es una patología que, debido a sus características clínicas, suele confundirse y malinterpretarse por la gran variedad de síntomas que llega a presentar el paciente. Es importante mencionar que los datos clínicos de dicha patología no son definitivos para diagnosticarla; los estudios radiográficos complementarios (TAC con reconstrucción 3D y orto-



Figura 2. Marcaje del abordaje quirúrgico.

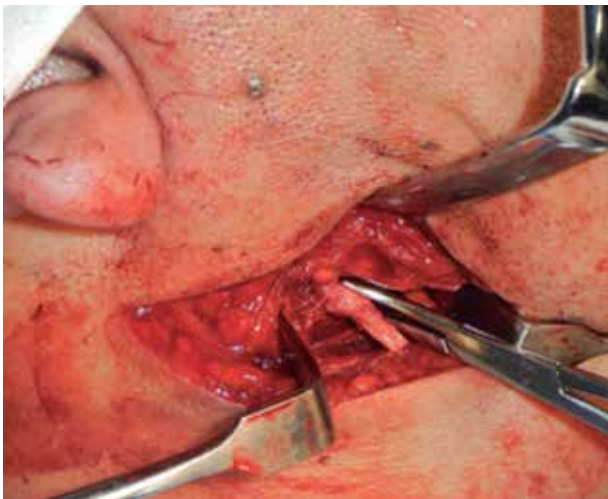


Figura 3. Resección del ligamento estilohioideo calcificado.



Figura 4. Imagen macroscópica del ligamento estilohioideo.

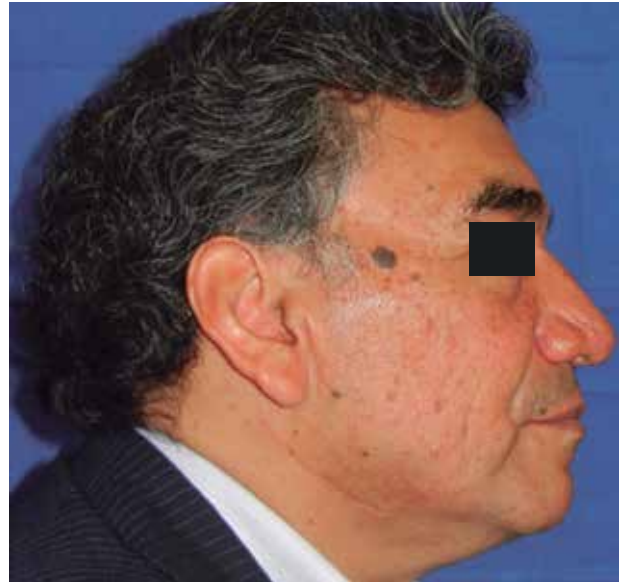


Figura 5. Fotografía lateral postoperatoria que muestra la cicatriz de la herida quirúrgica.

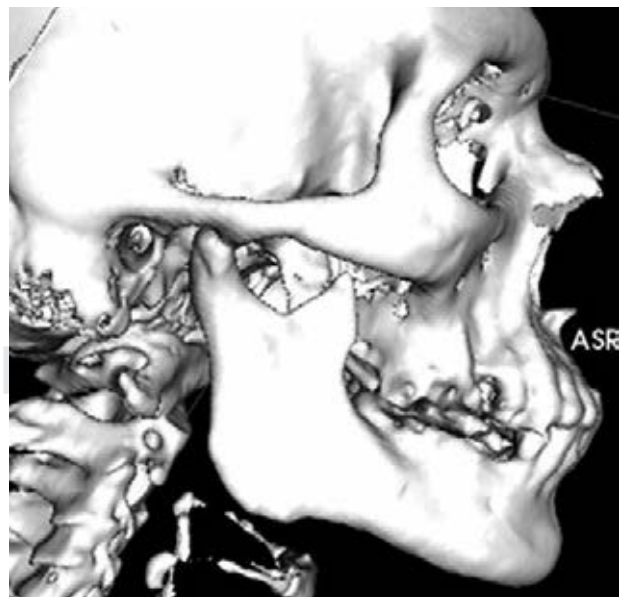


Figura 6. TAC con reconstrucción 3D postoperatoria.

pantomografía) hacen el diagnóstico certero, tal como lo refieren Bagga (2012), Beder (2005) Abdel-Ghany y sus respectivos colaboradores.¹⁴

Se han reportado casos de muerte súbita en donde la autopsia reveló la presencia de elongación del proceso estiloides, donde se presume una irritación continua del nervio vago y del seno carotídeo que lleva a una falla cardíaca súbita.^{15,16}

En el Hospital Regional «Lic. Adolfo López Mateos» del ISSSTE, en el Servicio de Cirugía Maxilofacial, el abordaje empleado para la resección del proceso estiloides en pacientes con síndrome de Eagle es extraoral, de tipo submandibular extendido; se ha observado mejor visión en el campo operatorio en cuanto a las estructuras anatómicas de importancia. Otra ventaja que nosotros hemos encontrado al utilizar este tipo de abordaje es la estética, pues se realiza por debajo del borde mandibular, sobre una línea de expresión facial.

Así mismo, hemos visto que el tiempo quirúrgico se acorta en comparación con el abordaje intraoral; como es más fácil manejar las estructuras vasculares de cercanía, se logran sangrados mínimos durante los procedimientos. En los cuidados postoperatorios, los pacientes reportan mayor facilidad de aseo y, con ello, la ausencia de posibles infecciones en comparación con el abordaje intraoral.

CONCLUSIONES

Tras la valoración del paciente, se observó que el abordaje submandibular extendido realizado en el Hospital Regional «Lic. Adolfo López Mateos» en el Servicio de Cirugía Maxilofacial es una manera eficaz y eficiente de realizar la escisión del ligamento estilohioideo, con pocos riesgos quirúrgicos anatómicos y una adecuada evolución postoperatoria. La terapia aunada con toxina botulínica hace que el paciente disminuya aún más la sintomatología dolorosa inicial. La rehabilitación física postquirúrgica es de suma importancia para desprogramar las cadenas musculares ya modificadas por la restricción del ligamento. Es indispensable dar un seguimiento cercano con el paciente para valorar su evolución.

BIBLIOGRAFÍA

1. Sanz-Gonzalo JJ, Maiz-Cal J, Lao-Luque X, Viscasillas-Pallàs G, Zschaecck-Luzardo C. Eagle's syndrome: transient syncopes as a clinical manifestation; complete stylohyoid ligament calcification. *Acta Otorrinolaringol Esp.* 2010; 61 (3): 233-235.
2. Buono U, Mangone GM, Michelotti A, Longo F, Califano L. Surgical approach to the stylohyoid process in Eagle's syndrome. *J Oral Maxillofac Surg.* 2005; 63 (5): 714-716.
3. Prasad KC, Kamath MP, Reddy KJ, Raju K, Agarwal S. Elongated styloid process (Eagle's syndrome): a clinical study. *J Oral Maxillofac Surg.* 2002; 60 (2): 171-175.
4. Fini G, Gasparini G, Filippini F, Becelli R, Marcotullio D. The long styloid process syndrome or Eagle's syndrome. *J Craniomaxillofac Surg.* 2000; 28 (2): 123-127.
5. Eagle WW. Elongated styloid process; symptoms and treatment. *AMA Arch Otolaryngol.* 1958; 67 (2): 172-176.
6. Villalba-Leyton MA, Miranda-Villasana E. Síndrome de Eagle: reporte de un caso. *Rev Mex Cir Bucal Max.* 2009; 5 (1): 26-31.
7. Beder E, Ozgursoy OB, Karatayli Ozgursoy S. Current diagnosis and transoral surgical treatment of Eagle's syndrome. *J Oral Maxillofac Surg.* 2005; 63 (12): 1742-1745.
8. Ferreira PC, Mendanha M, Frada T, Carvalho J, Silva A, Amarante J. Eagle syndrome. *J Craniofac Surg.* 2014; 25 (1): e84-e86.
9. De Souza-Carvalho AC, Magro-Filho O, Garcia IR Jr, de Holanda ME, de Menezes JM Jr. Intraoral approach for surgical treatment of Eagle syndrome. *Br J Oral Maxillofac Surg.* 2009; 47 (2): 153-154.
10. Bagga MB, Kumar CA, Yeluri G. Clinoradiologic evaluation of styloid process calcification. *Imaging Sci Dent.* 2012; 42 (3): 155-161.
11. Williams JV, McKearney RM, Revington PJ. Eagle's syndrome: a novel surgical approach to the styloid process using a preauricular incision. *J Oral Maxillofac Surg.* 2011; 69 (6): 1617-1622.
12. Rechtweg JS, Wax MK. Eagle's syndrome: a review. *Am J Otolaryngol.* 1998; 19 (5): 316-321.
13. Langlais RP, Miles DA, Van Dis ML. Elongated and mineralized stylohyoid ligament complex: a proposed classification and report of a case of Eagle's syndrome. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol.* 1986; 61 (5): 527-532.
14. Abdel-Ghany AF, Osman NM. Role of three-dimensional multidetector computerized tomography in diagnosis of Eagle's syndrome. *Egypt J Radiol Nucl Med.* 2014; 45 (1): 105-108.
15. Ruwanpura PR, Abeygunasekera AM, Tikiri GK. Sudden unexpected death probably due to Eagle's syndrome: a case report. *Med Sci Law.* 2008; 48 (4): 350-353.
16. Kumar P, Rayamane AP, Subbaramaiah M. Sudden death due to Eagle syndrome: a case report. *Am J Forensic Med Pathol.* 2013; 34 (3): 231-233.