# Síndrome Eagle: reporte de un caso

Raffo Lirios, Marisa \*

#### Resumen

Como Estilalgia o Síndrome Eagle se entiende a una entidad nosológica descripta por W.W Eagle en el año 1937, definida como la elongación de la apófisis estiloides y/o calcificación del ligamento estilohioideo. Si bien dicho síndrome no es frecuente, el profesional debe tenerlo en cuenta en aquellos casos de dolor en la región maxilofacial sin una etiología clara. El presente trabajo reporta el caso de una paciente de sexo femenino de 58 años, cuyo motivo de consulta fue dolor en la región maxilofacial. Consideramos interesante el caso por tratarse de una estilalgia bilateral, forma aún menos frecuente de presentación.

#### **Abstract**

Eagle Syndrome is considered as a nosological entity described by W.W. Eagle in 1937. It is defined as the elongation of the styloid apophysis or the calcification of the styloid ligament. Even if said syndrome is quite rare among the patients, professionals must keep it in mind when facing cases of pain in the maxillofacial area that has no clear etiology. This present work reports the case of a 58 year old female patient whose concern was pain in the maxillofacial area. We consider this case interesting due to the fact that it exposes a bilateral Eagle syndrome, an even more uncommon presentation of this disease.

**Palabras claves:** Síndrome Eagle, estiloides, dolor.

**Keywords**: Eagle Syndrome, styloid, pain.

Fecha recibido: 29.06.12 - Fecha aceptado: 18.08.12

Raffo Lirios, Marisa

<sup>\*</sup> Asistente Titular de Cirugía BMF II Facultad de Odontología Universidad de la República Asistente de Cirugía BMF II Facultad de Odontología Universidad Católica del Uruguay Ex Jefa del Servicio de Cirugía Buco Maxilo Facial del Hospital Central de las Fuerzas Armadas.

### Introducción

El Síndrome Eagle se definió como la elongación de la apófisis estiloide y/o la osificación del ligamento estilohioideo. Las primeras descripciones de este cuadro fueron las de Marchetti (1652), Lucke (1870) Weinlecher (1872) (1). Eagle describió el síndrome en 1937 (2).

La apófisis estiloides es una prolongación de hueso elongada y cilíndrica que se encuentra anteromedial a la apófisis mastoides. Normalmente varía de longitud de 2 a 3 cm. y en 4 a 7 % de la población ésta es de más de 3 cm. A la apófisis estiloide se insertan tres músculos (el estilofaríngeo, estilohioideo y estilogloso) y dos ligamentos (estilomandibular y estilohioideo). El nervio facial emerge posteriormente al forámen estilomastoideo y pasa lateralmente a través de la glándula parótida. Medial a la apófisis estiloides, de posterior a anterior, se encuentra la vena yugular interna (junto con los nervios hipogloso, vago y glosofaríngeo) y la arteria carótida interna. Medial a la punta de la apófisis estiloides, se encuentra el músculo constrictor superior de la faringe y la fascia faringobasilar, cerca de la fosa amigdalina. Lateral a la punta de la apófisis estiloides, está la arteria carótida externa, la cual se bifurca para dar origen a la arteria temporal superficial y la arteria maxilar. El ligamento estilohioideo, se extiende de la apófisis estiloides al asta menor del hueso hioides. A la apófisis estiloides y al ligamento estilohioideo frecuentemente se les agrupa con el nombre de complejo estilohioideo.

La apófisis estiloides, el ligamento estilohioideo y el asta menor del hueso hioides, derivan del cartílago de Reichert, cartílago del segundo arco braquial. A partir del tercer mes de vida intrauterina se diferencia en cinco porciones: timpanohial, estilohial, ceratohial y basohial. Diferentes autores sostienen que la porción ceratohial es quien forma el ligamento estilohioideo. Eagle originalmente describió dos variedades del síndrome:

- El **síndrome clásico** es un dolor persistente en la faringe, agravado al tragar, frecuentemente con dolor referido al oído del lado donde se encuentra la apófisis estiloides elongada. Eagle también notó que hay un aumento en la salivación, náuseas y una sensación de cuerpo extraño. El atribuyó el dolor, a la cicatrización alrededor de la apófisis estiloides después de una amigdalectomía.
- A la segunda variedad le llamo síndrome de la apófisis estiloides - arteria carótida el cual puede ocurrir sin una amigdalectomía previa. Eagle establece que la apófisis estiloides toca la arteria carótida externa del lado afectado, causando carotodinia (dolor producido por compresión de la carótida que se refleja en la nuca y alrededor de los ojos), cefalea intermitente en la región frontal o temporal, otalgia y síntomas de mareo. También estos pacientes tenían sensibilidad al palpárseles el área de la arteria carótida. (3) Otras clasificaciones se han propuesto entre las que se incluye, tres tipos de apariencia radiográfica y cuatro patrones de calcificación o mineralización. (4)

Clasificación según apariencia radiográfica

- Tipo I Elongado Este complejo estilohioideo calcificado, tiene la apariencia radiográfica que se caracteriza por una integridad ininterrumpida de la imagen estiloidea. Si se hace el estudio mediante la observación de radiografías panorámicas, se acepta una longitud de 28 mm. para la apófisis estiloides como normal por la magnificación que sufren la mayoría de éstas.
- Tipo II Pseudoarticulado En este tipo de apariencia radiográfica la apófisis estiloides está unida al ligamento estilomandibular o al ligamento estilohioideo por una sola pseudoarticulación, la cual se en-

Síndrome Eagle: reporte de un caso

cuentra localizada superior al borde inferior de la mandíbula (de manera tangencial). Esto da la apariencia de un proceso que está articulado y elongado.

 Tipo III – Segmentado Este tipo consiste en porciones de la apófisis estiloides que son cortas o largas, que no son continuas o segmentos interrumpidos del ligamento mineralizado. Cualquiera que sea el caso, se ven dos o más segmentos, con interrupciones ya sea arriba o abajo del borde inferior de la mandíbula, o ambos. La apariencia es de un complejo estiloideo que se encuentra mineralizado y segmentado.

Teniendo en cuenta el patrón de calcificación se describe:

Un **contorno calcificado** describe un borde radiopaco y delgado con una radiolucidez central que, constituye la mayoría de la apófisis.

Cuando está **parcialmente calcificada,** nos indica que la apófisis tiene un contorno radiopaco y casi completamente opacificado, pero algunas veces tiene centros discontinuos radiolúcidos.

Una apófisis **nodular**, tiene un contorno ondulado o festoneado. Puede estar parcial o completamente calcificado con varios grados de radiolucidez central.

Una apófisis **completamente calcificada,** es totalmente radiopaca y no muestra ninguna evidencia de radiolucidez en el interior.

En cuanto a la etiología del síndrome existen diferentes teorías que tratan de explicarlo Steinmann (5) propuso tres teorías para justificar el proceso de osificación:

- Teoría de la hiperplasia reactiva: una cirugía o una irritación crónica pueden producir tendinitis, periostitis osificante u osteítis en el aparato estilohideo.
- Teoría de la metaplasia reactiva: asociada a una osificación del tejido fibrocartilaginoso del ligamento estilohioideo, casi siempre como respuesta a un traumatismo previo.
- Teoría de la variación anatómica, sin evidencia de traumatismos sobre el ligamento esti-

lohioideo.

La prevalencia de un proceso estiloideo alargado tiene gran variabilidad en la población. Eagle, en su publicación original, halló el proceso estiloideo alargado en 4% de sus casos. Los pacientes del sexo femenino son los más comúnmente afectados, correspondiendo al 85% de todos los casos relatados; la franja etária en la que más comúnmente se presenta es entre la 2ª y 3ª década de vida. (6)

Muchos autores consideran que el síndrome es característico de la edad adulta, pero adolescentes pueden ser portadores. En pacientes jóvenes se observa apenas una mayor fibrosis del ligamento, siendo ese periodo asintomático; a medida que hay evolución del proceso, ocurre la calcificación, pudiendo o no haber manifestación de los síntomas clásicos.(7)

#### Caso clínico

Paciente de sexo femenino de 58 años de edad, raza blanca, con antecedente de infarto de miocardio con 13 meses de evolución favorable, sin otros antecedentes a destacar, que consultó por dolor en hemicara izquierda. Historia de extracción de pieza 38, hace un año, por considerar a la misma como posible etiología del dolor. Al exámen regional dolor importante a la palpación de la región submandibular izquierda a nivel del ángulo mandibular. La palpación intraoral sin particularidades. Se solicitó ortopantomografía. Fig 1



Fig. 1 Apófisis estiloides elongadas (flechas)

La ortopantomografía mostró un aumento im-

portante de la longitud de ambas apófisis estiloides, (40mm). Las mismas no presentaban el mismo aspecto morfológico; la izquierda un aspecto nodular, mientras que la derecha aparentaba estar parcialmente calcificada. Fig 2





Fig. 2. Diferente patrón de calcificación, ap. estiloides derecha parcialmente calcificada e izquierda de aspecto nodular

Interrogada la paciente sobre las características del dolor, éste era de tipo intermitente, irradiado a la región auricular y temporomandibular; se incrementaba con los movimientos de rotación de la cabeza a izquierda, lo que hacía que la paciente durante la noche durmiera sobre su lado derecho, en ocasiones ocasionaba odinofagia. Cuando se realizó la palpación cervical del lado izquierdo la paciente refirió reproducción del dolor.

#### Discusión

El Síndrome Eagle es generalmente asintomático y representa un hallazgo casual en un examen radiográfico de rutina. En pocos pacientes que tienen el ligamento estilohioideo parcial o completamente calcificado así como la elongación anormal de la apófisis estiloides se pueden observar síndromes de neuralgia facial atípica. En este caso la sintomatología relatada en principio no llevó a pensar en el síndrome, pero al ver la imagenología se comenzó a guiar a la paciente en el interrogatorio surgiendo entonces signos y síntomas que coincidían con los reportados por la literatura (Cuadro 1).

Historia de Trauma	No
Historia de amigdalectomía	No
Odinofagia	No
Dolor de cabeza, mandíbula o cuello	Si
Acufenos	Si
Dolor con los movimientos de inflexión de la cabeza y a la palpación subangulomandibular	Si

Cuadro 1. Signos y síntomas relacionados con el síndrome

En cuanto a la posible etiología, en este caso deberíamos atribuirlo a una variación anatómica, en virtud de no existir historia de trauma ni de cirugía. La paciente tampoco se

hallaba comprendida en la franja etária manejada por la mayoría de los autores (20 y 30 años), aunque algún autor menciona que la franja se ubica entre la tercera y sexta década (8). Si bien la elongación de la apófisis es bilateral, la sintomatología dolorosa relatada por la paciente se limitaba al lado izquierdo. El diagnóstico se puede realizar llevando a cabo una palpación digital de la apófisis estiloides en la fosa amigdalina, lo que exacerba el dolor, situación que encontramos. Los pacientes refieren alivio de los síntomas cuando se les inyecta una solución anestésica en la fosa amigdalina, siendo este procedimiento útil para el diagnóstico. En relación a las imágenes para el diagnóstico, la radiografía panorámica y la lateral de cráneo son las utilizadas en primera instancia; pero su grado de distorsión (37%) puede llevar a errores.

Si se sospecha del síndrome, además de las radiografías antes mencionadas, se deberá realizar una tomografía del paciente con la boca abierta, para determinar el grado de relación (choque) que hay entre el complejo estilohioideo y las estructuras relacionadas con el ángulo de la mandíbula. (4,8)

En el diagnóstico diferencial se deben considerar los tres síndromes del dolor más común que pueden ser confundidos con el dolor odontogénico: tendinitis temporal, síndrome de Ernest (inflamación del ligamento estilomandibular) y la neuralgia trigeminal atípica. Ésta puede tener una localización intra y extraoral en el trayecto del nervio trigémino, con ataques paroxísticos de segundos a minutos, dolor de fondo más continuo y es menos probable que tenga una completa remisión del dolor (9).

También se deben incluir neuralgias glosofaríngeas y trigeminal, artritis temporal, síndrome dolor miofascial, dolor secundario a terceros molares impactados, artritis cervical, tumores, síndrome de la arteria carótida interna y trastornos temporomandibulares. Recordemos que a la paciente se le realizó extracción del tercer molar inferior izquierdo por considerar que era la etiología del dolor que la aquejaba.

El tratamiento del Síndrome Eagle depende de la severidad de los síntomas. Para los pacientes que presentan una sintomatología leve, no es necesario el tratamiento quirúrgico, que es de elección en los casos de sintomatología severa. Éste puede ser realizado de dos maneras: abordaje intra o extra oral. El último es el más utilizado, debido a la relación con estructuras anatómicas nobles, como la arteria carótida y el nervio facial. Este acceso quirúrgico permite mejor visibilidad de esas estructuras, disminuyendo el riesgo de lesiones.

El pronóstico es bueno. (10,11) El laser y el ultra sonido han sido utilizados, pero no hay reportes de su efectividad.

Las opciones de tratamiento conservador incluyen la inyección de esteroides y lidocaína transfaríngea, medicamentos anti-inflamatorios no esteroideos, psicotrópicos, la aplicación de calor y la medicina tradicional china. (12,13,14,15)

En este caso la paciente no quiso someterse a la intervención quirúrgica por lo que se le prescribió tratamiento farmacológico, en base a antiinflamatorios no esteroideos, con los cuales se logró controlar el dolor.

Algunos autores coinciden en que el diagnóstico definitivo del Síndrome Eagle, sólo es posible después que los síntomas desaparecen luego de haberse realizado la intervención quirúrgica para remover parte o toda la apófisis estiloides y/o el ligamento estilohiodeo calcificado.

## **Conclusiones**

El Síndrome Eagle es una alteración del complejo estilohioideo cuyo diagnósico estará basado en la sintomatología del paciente y,

Raffo Lirios, Marisa

principalmente, en el exámen radiográfico, a través de la radiografía panorámica o de la tomografía computada. La sintomatología, cuando está presente, será la determinante del tratamiento a efectuar.

# Referencias bibliográficas

- Ladeira F, Iwaki L, Styloid Stylohiod síndrome: Literature review and case report.
   J Oral Maxillofacial Surg 2007; 65:1346-1353.
- 2. Eagle WW. Elongated styloid process: report of two cases. Arch Otolaryngol 1937; 25:584-7.
- 3. Correll RW. Mineralization of the stylohyoid-stylomandibular ligaments complex. Oral Surg 1979;48:286-91.
- 4. Langlais RP, Miles DA, Van Dis, ML. Elongated and Mineralized Styloid Ligament Complex: A propesed Classification and Report of a Case of Eagle's Syndrome. Oral Surgery 1986;61: 527–531
- 5. Steinmann EP: A new light on the pathogenesis of the styloid syndrome. Arch Otolaryngol, 1970, 91:171-174.
- 6. Aral, I.L.; Karaca, I.; Güngör, N.: Eagle's syndrome masquerading as pain of dental origin. Case report. Aust Dent J 1997; 42(1): 18-9
- 7. Omnell, K.H.; Gandhi, C.; Omnell, M.L.: Ossification of the human stylohyoid ligament: A longitudinal study. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol and Endo. 1998; 85(2): 226-32.
- 8. Chase D.C., Anders Zoramen, Bigelow W.C., Macoy J.M. Eagle's Syndrome: A

- Comparision of Intraoral versus Surgical Approaches, Oral Surgery 1986; 62:625–629
- 9. Shankland, W.E.: Ernest syndrome as a consequence of stylomandibular ligament injury: a report of 68 patients. J. Prosthet. Dent. 1987; 57(4): 501-6.
- 10. Neville, B., Damm, D., Allane, C., Bouquot, J. Oral & Maxillofacial Pathology. Filadelfia:W.B.Saunder Company, 1995. pp 20–21
- 11. Chouvel, P.; Rombaux, P.; Philips, C.; Hamoir, M.: Styloid chain ossification: choice of the surgical approach. Acta Otorhinolaryngol. Belg. 1996; 50(1): 57-61.
- 12. Torres, A.; Alcalá, L. Síndrome de Eagle. Abordaje transoral vs. transcervical. Acta de Otorrinolaringología & Cirugía de cabeza y cuello, 2008; 36 (2): 55-59.
- 13. González JM., Moret de Gonzalez J.Y, 13. Jiménez L.F, Ortiz M.J., Marcano L, Sambrano Mª F. Síndrome de Eagle. Importancia para el odontólogo. Revisión de la Literatura. Acta Odontol Venez [en línea] 2011; 49(2). [Fecha de acceso: 01.09.12] Disponible en: http://www.actaodontologica.com/ediciones/2011/2/pdf/art23.pdf
- 14. Suneet K, Yajuvender Singh H, Asutosh H. Eagle's syndrome. A case report an review of the literature. Saudi Dent J [en línea] 2011; 23: 211–215. [Fecha de acceso: 01.09.12] Disponible en: http://www.saudidentaljournal.com/article/S1013-9052(10)00094-5/fulltext
- 15. Pithon MM. Eagles síndrome in an orthodontic patient. Am J Orthod Dentofacial Orthop. 2012;141(1):113-5

Marisa Raffo Lirios: mraffo10@gmail.com