Estiloidectomía Bilateral por Abordaje Extraoral en Paciente con Síndrome de Eagle del Hospital San José, Chile: Reporte de un Caso y Revisión Actualizada de la Literatura

Extraoral Approach for Bilateral Styloidectomy on a Patient with Eagle syndrome from Hospital San José, Chile: Case report and updated Review on Eagle's Syndrome Literature

José Miguel López Valladares¹; Carlos Omar Jiménez Cofré¹; Mónica de la Fuente Escalona²; Denise Jiménez Valiente² & Macarena Salas Martínez²

LÓPEZ, V. J. M.; JIMÉNEZ, C. C. O.; DE LA FUENTE, E. M.; JIMÉNEZ, V. D. & SALAS, M. M. Estiloidectomía bilateral por abordaje extraoral en paciente con síndrome de eagle del Hospital San José, Chile: Reporte de un caso y revisión actualizada de la literatura. *Int. J. Odontostomat.*, 17(1):3-8, 2023.

RESUMEN: El síndrome de Eagle es una condición anatómica infrecuente caracterizada por la elongación del proceso estiloides generalmente por osificación del ligamento estilohioides. Clínicamente se presenta como una larga historia de dolor crónico cervicofacial tratado por múltiples especialistas y mediante variadas estrategias terapéuticas, caracterizado por sensación de cuerpo extraño faríngeo, trismus, disfagia, otalgia, tinitus, dificultad para la fonación y movilidad reducida del cuello. El promedio de longitud del proceso estiloides es de 2,5 cm. La etiología de este síndrome es poco conocida. El diagnóstico requiere de un alto índice de sospecha, basado fundamentalmente en la anamnesis y el examen físico que se confirma con tomografía computarizada o radiografía panorámica. Ya identificada la elongación, el paciente podrá recibir un tratamiento conservador o quirúrgico dependiendo de la severidad de los síntomas. El manejo conservador incluye fisioterapia, infiltración con anestésicos locales o corticoides y tratamiento con fármacos antiinflamatorios, anticonvulsivos o antidepresivos. El manejo quirúrgico consiste en fracturar el proceso estiloides bajo anestesia general, a través de abordajes transorales o transcervicales. El objetivo de este estudio es presentar el caso de una paciente de género femenino que consultó por dolor cervicofacial crónico bilateral en el servicio de Cirugía Cabeza y cuello y Maxilofacial del Hospital San José de Santiago y una revisión actualizada de la literatura sobre el síndrome de Eagle, abarcando sus aspectos clínicos relevantes enfocado en su diagnóstico y tratamiento.

PALABRAS CLAVE: Síndrome de Eagle, dolor cervicofacial crónico, osificación ligamento estilohioideo, proceso estiloides.

INTRODUCCIÓN

El síndrome de Eagle fue descrito por primera vez en el año 1937 por el médico americano Watt Eagle, quien reportó dos casos de una serie de síntomas referidos por los pacientes sometidos a tonsilectomías (Gupta et al., 2021). Los síntomas asociados a este síndrome se dividen en 2 grandes grupos de acuerdo al tipo de presentación, el tipo "clásico" y el tipo "carotídeo", lo que hace complejo su diagnóstico, ya que la sintomatología se puede confundir con cuadros clínicos como faringitis, espondilitis cervical, tonsilitis crónica, neuralgia glosofaríngea o in-

cluso desórdenes de la articulación temporomandibular (ATM) (Wang et al., 2022).

Anatomía. El proceso estiloides es una proyección ósea que se origina de la porción inferior del hueso Temporal, anterior y medial al foramen estilomastoídeo, da inserción a los elementos del ramillete estíleo compuesto por: ligamentos estilohioideo y estilomandibular, músculos estilofaríngeo, estilohioideo y estilogloso. Se relaciona con el asta menor del hueso hioides a través del ligamento estilohioideo (Rouvière & Delmas,

¹ Equipo de Cirugía Cabeza y Cuello, Hospital Clínico San José, Santiago, Chile.

² Cirujano Dentista, Hospital Clínico San José, Santiago, Chile.

2005). En cuanto a sus relaciones vasculares, encontramos a las arterias Carótida externa e interna por ambos lados.

El síndrome de Eagle puede ocurrir por 2 condiciones patológicas: elongación del proceso estiloides o la osificación del ligamento estilohioideo. Langlais et al. (1986) proponen una clasificación basada en estudios imagenológicos que se correlaciona con los patrones de calcificación detallada en la Tabla I.

Tabla I. Clasificación de Langlais basada en estudios imagenológicos que se correlaciona con los patrones de calcificación del proceso estiloídeo.

Clasificación	Patrón de calcificación
Tipo 1: Elongado	Contorno calcificado
Tipo 2: Pseudoarticulado	Calcificación parcial
Tipo 3: Segmentado	Nodular
	Calcificación completa

La elongación del proceso estiloides o la mineralización o calcificación del ligamento estilohioideo no es infrecuente, siendo reportado en 18 a 84 % de la población. La incidencia de esta característica crece a medida que aumenta el rango etario. Esta calcificación se presenta habitualmente como bilateral, sin embargo, también puede observarse afección unilateral (Neville *et al.*, 2016).

Clínica. El proceso estiloides mide en normalidad 25 mm. La mayoría de los casos no presentan sintomatología alguna, no obstante, un porcentaje de la población experimenta síntomas del síndrome de Eagle, causado por pinzamiento o compresión de estructuras nerviosas y vasculares adyacentes. Esto habitualmente ocurre cuando el proceso estiloides alcanza tamaños superiores a los 40 mm de largo o más. Los pacientes habitualmente refieren dolor facial intermitente, disfagia, otalgia, sensación de presencia de cuerpo extraño o neuralgia vagal, entre otros (Anuradha et al., 2020).

Tratamiento. En la literatura se han descritos dos formas de tratamiento en pacientes que padecen este síndrome: a través de tratamiento no invasivo o farmacológico y el invasivo o quirúrgico o la combinación de ambos (Gelabert-González & García-Allut, 2008; Martins *et al.*, 2013). Existen dos tipos principales de abordajes reportados, el transoral y el extraoral o transcervical a través de una incisión en cuello. Las ventajas del primero se relacionan con la ausencia de cicatriz visible, menor tiempo operatorio y la factibilidad del uso de anestésicos locales, pero se contraponen

con desventajas como el alto riesgo de infección cervical profunda, reducido campo visual con su consecuente posibilidad de provocar daño nervioso y/o vascular. Por otro lado, el abordaje transcervical aparentemente es más seguro y efectivo, sin embargo existe el riesgo de provocar daño neurológico transitorio al ramo marginal mandibular que transcurre por el sitio del abordaje (Gupta *et al.*, 2021).

CASO CLÍNICO

Descripción del caso. Paciente sexo femenino, 62 años de edad, con antecedentes de hipertensión arterial, historia de enfermedad cerebrovascular, fibromialgia y Síndrome de apnea e hipoapnea del sueño moderado, Acudió el año 2019 al Servicio dental del Hospital San José por dolor en ATM bilateral, EVA 9/10 asociado a cefaleas. Se inició manejo médico con AINES e infiltración local con corticoides (betametasona). Evolucionó con escasa mejoría del dolor, llegando a EVA 8 /10 con acentuación en región cervical alta, pre-auricular, mandibular, temporal y occipital bilateral. Al examen físico presentó tinitus, restricción del movimiento de rotación cervical y odinofagia. Se indicó reposo mandibular y AINES, más estudio imagenológico con tomografía (Cone beam-CT) además se tomaron impresiones maxilares para confección de plano oclusal. Paciente con regular evolución, volvió a las dos semanas, por tinitus bilateral que no cedía a AINES, se realizó instalación de plano oclusal y cambio de esquema farmacológico a pregabalina 75 mg y amitriptilina. El Cone beam-CT informó: calcificación de ligamento estilohoideo bilateral, con sospecha de síndrome de Eagle. Signos de capsulitis, sinovitis y retrodiscitis de ATM derecha. Al control dos semanas después, persiste dolor, por lo que se aumenta dosis de pregabalina a 150 mg noche y 75 mg día, se complementa con infiltración anestésica de Mepivacaína al 3 % y Betametasona a nervios auriculotemporales bilaterales. Se logró un 50 % de alivio del dolor, por lo que se decidió bloqueo de fosa tonsilar con Mepivacaína al 3 % más corticoides para ligamento estilohioideo obteniéndose reducción del dolor a EVA 4 /10, recidivando el cuadro doloroso a las 2 semanas. Se decidió interconsulta a Cirugía Bucal y Maxilofacial del Hospital San José, ingresado con diagnóstico de síndrome de Eagle en estudio, se solicitó TAC de cuello con contraste (Figs. 1 y 2), confirmándose hallazgo de calcificación de ligamento estilohioideo bilateral compatible con sintomatología clínica. Fue derivada al equipo de Cirugía de Cabeza y Cuello donde se planificó estiloidectomía bilateral.

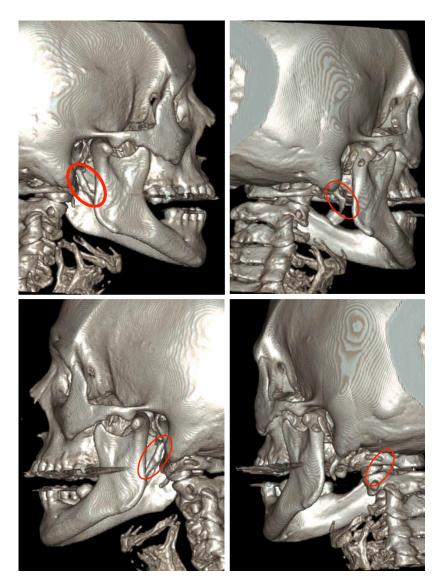


Fig. 1. TC de cuello con reconstrucción ósea 3D. Se observa la proceso estiloides con calcificación de ligamento estilohioideo bilateral compatible con sintomatología clínica



Fig. 2. TC de cuello con ventana ósea. Se observa el proceso estiloides con calcificación del ligamento estilohioideo mayor a 3 cm.

Descripción de la técnica quirúrgica. La estiloidectomía bilateral se realizó durante el mismo acto quirúrgico en dos tiempos operatorios. Bajo anestesia general con intubación naso/traqueal, cabeza en leve hiperextensión y lateralizada. Se inicia por cervical derecho. Se realizó incisión cutánea de 4 cm de largo, a 4 cm por debajo del reborde mandíbular evi-

Fig. 3. Incisión cutánea de aproximadamente 4 cm de largo, a 4 cm o 2 traveses de dedo por debajo del margen basilar mandibular para preservar el ramo marginal del nervio facial.



Fig. 4. Profundización con disección roma logrando retraer hacia superior la glándula parótida y hacia inferior el vientre posterior del músculo digástrico. Este campo permite exponer la vena facial la cual en este caso se mantuvo indemne.

tando rama marginal del nervio facial, entre el margen anterior del músculo esternocleidomastoideo y el hueso hioides (Fig. 3). Mediante disección roma se logra retracción superior de la glándula parótida, retracción inferior del vientre posterior del músculo digástrico, identificación y preservación de la vena facial (Fig. 4).

Se identificó el proceso estiloides alargado y calcificado separándolo distalmente del ligamento estilohioideo mediante legrado. Las inserciones musculares se separan del proceso mediante disección subperióstica (Fig. 5). Finalmente se realiza estiloidectomía total con regularización ósea de su base (Fig. 6). Se instaló drenaje aspirativo tipo Hemosuc® en lecho quirúrgico. Se realizó mismo acto quirúrgico en cervical izquierdo.



Fig. 5. Se observa el proceso estiloides alargado y calcificado. Las inserciones musculares se separan del proceso mediante disección subperióstica con legra.



Fig. 6. Estiloidectomia total mediante sección y regularizando su base ósea mediante legrado.

El paciente en el post-operatorio evolucionó de forma satisfactoria. Se retiró drenaje a las 48 horas dado escaso débito sero-hemático, presentó dolor leve-moderado EVA 4 /10 con adecuada respuesta a AINES orales. No se evidenció signos de parálisis facial periférica. Se dio de alta hospitalaria al paciente al segundo día post operatorio.

DISCUSIÓN

El síndrome de Eagle es una condición infrecuente, rara, caracterizada por una elongación del proceso estiloides y/o una calcificación del ligamento estilohioideo que afecta o irrita variadas estructuras anatómicas adyacentes (Kim et al., 2014). Clínicamente los pacientes presentan una larga historia de dolor crónico cervicofacial, por lo cual son tratados por múltiples especialistas y mediante variadas estrategias terapéuticas.

En cuanto a la prevalencia del síndrome de Eagle varía significativamente en la literatura disponible (Badhey et al., 2017). Gran parte de esta variación es relacionado con la diferencia en el punto de corte en la longitud normal del proceso estiloides. Algunos autores reportan que la longitud anormal del proceso estiloides que produciría síntomas es de más de 4 cm (Piagkou et al., 2009). Con este punto de corte, la incidencia de alargamiento del proceso estiloides fue del 4 % (Khandelwal et al., 2011). Sin embargo, no todos los pacientes con proceso estiloides alargados son sintomáticos (Badhey et al., 2017). Las manifestaciones clínicas son mayoritariamente en relación a cervicalgia y molestias orofaciales, presentando variedad de signos y síntomas como en el caso anteriormente donde además la sintomatología era bilateral, con dolor, sensación de cuerpo extraño en la faringe, limitaciones en la apertura de la cavidad oral, disfagia, otalgia, tinitus, trismo y movilidad reducida del cuello. Es importante tener presente que este cuadro se puede confundir fácilmente con el dolor dental, trastornos de las articulaciones o la función temporomandibular, por este motivo es importante determinar los diagnósticos diferenciales de esta enfermedad y buscar esta condición de forma dirigida, ya que en la mayoría de los casos este síndrome es subdiagnosticado.

Los pacientes pueden ser manejados de forma médica o quirúrgica. El manejo médico incluye kinesioterapia maxilofacial, analgésicos-antinflamatorios, estabilizadores de membrana como los anticonvulsivantes o antidepresivos, corticoides e infiltración con anestésicos locales (Taheri et al., 2014). En este caso la paciente recibió tratamiento médico incluso como estrategia diagnóstica-terapéutica con infiltración de Mepivacaína en la fosa tonsilar bilateral logrando una disminución del dolor en un 50 %.

En cuanto al manejo quirúrgico, este consiste en la sección del proceso estiloides bajo anestesia general a través de dos principales abordajes quirúrgicos: intraoral y transcervical. El abordaje intraoral es siempre el preferido por ser rápido, simple y estético, sin embargo consideramos que en nuestro caso se contraindica el abordaje intraoral dado que al ser una estiloidectomía bilateral el riesgo de obstrucción de vía aérea secundaria al edema bilateral sobrepasa los beneficios de la técnica y expone al paciente a un riesgo innecesario. Además creemos que el abordaje intraoral involucra una gran desventaja, que significa el ser una cirugía limpia contaminada y de un importante inconveniente que significan la pobre exposición anatómica que se consigue con esta técnica y el alto riesgo lesión iatrogénica neurovascular sobre todo carotidea durante la resección del proceso estiloides.

Respecto al seguimiento de esta patología resuelta por vía cervical, en cinco pacientes operados con esta técnica, Martin *et al.* (2008) reportaron la resolución completa de las molestias en el posoperatorio en el 100 %, sostenido hasta un seguimiento de entre 4 a 16 meses. Como únicas complicaciones, 2 pacientes presentaron parestesia de la rama marginal mandibular, que se recuperaron en 3 y 4 meses (Martin *et al.*, 2008). En nuestro caso la resolución de síntomas fue inmediata, a 24 horas post operatorio la paciente relataba mejoría de hasta 80 % de sus síntomas, con movilidad cervicofacial mantenida, además sin evidencia paresia del nervio facial.

CONCLUSIÓN

El síndrome de Eagle debe contemplarse dentro de los diagnósticos diferenciales en pacientes con dolor cervicofacial crónico. La realización de una detallada y minuciosa anamnesis, asociado a un exhaustivo examen clínico, ayudan a determinar los signos y síntomas clásicos, aunque variados de esta enfermedad. El uso de imágenes diagnósticas ayudan a orientar el cuadro diagnóstico y permiten determinar el tipo de alargamiento del proceso estiloideo. El tratamiento quirúrgico dependerá principalmente de las manifes-

taciones clínicas, su severidad y la respuesta negativa al tratamiento conservador. La elección de abordaje quirúrgico deber ser aquel que tenga mayor efectividad pero que además presente el menor riesgo para el paciente, sin importar la preferencia del cirujano.

LÓPEZ, V. J. M.; JIMÉNEZ, C. C. O.; DE LA FUENTE, E. M.; JIMÉNEZ, V. D. & SALAS, M. M. Extraoral approach for bilateral styloidectomy on a patient with eagle syndrome from Hospital San José, Chile: Case report and updated review on Eagle's syndrome literature. *Int. J. Odontostomat.*, 17(1):3-8. 2023.

ABSTRACT: Eagle syndrome is a rare anatomical condition characterized by elongation of the styloid process, usually due to ossification of the stylohyoid ligament. Clinically, it presents as a long history of recurrent cervicofacial pain, treated by multiple specialists and through various therapeutic strategies, characterized by pharyngeal foreign body sensation, trismus, dysphagia, otalgia, tinnitus, difficulty with phonation and reduced mobility of the neck. The average length of the styloid process is 2.5 cm. The etiology of the syndrome is poorly understood. Diagnosis requires a high index of suspicion, based mainly on history and physical examination confirmed with computed tomography (CT) or panoramic radiography. Once the elongation has been identified, the patient may receive conservative or surgical treatment depending on the severity of the symptoms. Conservative management includes physical therapy, infiltration with local anesthetics or corticosteroids, and treatment with anti-inflammatory, anticonvulsant, or antidepressant drugs. Surgical management consists of fracturing the styloid process under general anesthesia, through transoral or transcervical approaches. In this paper we present a case of a female patient who consulted for recurrent bilateral cervicofacial pain in the Head and Neck and Maxillofacial Surgery service of San José Hospital in Santiago and an updated review on Eagle's syndrome literature, focused on relevant clinical aspects such as diagnosis and treatment.

KEY WORDS: Eagle syndrome, chronic cervicofacial pain, tilohioid ligament osification, Stiloid process.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

- Anuradha, V.; Sachidananda, R.; Pugazhendi, S.K.; Satish, P. & Navaneetham, R. Bilateral Atypical Facial Pain Caused by Eagle's Syndrome. *Case Rep. Dent.*, 2020:3013029, 2020.
- Badhey, A.; Jategaonkar, A.; Anglin Kovacs, A.J.; Kadakia, S.; De Deyn, P.P.; Ducic, Y.; Schantz, S. & Shin, E. Eagle syndrome: A comprehensive review. Clin. Neurol. Neurosurg., 159:34-8, 2017.
- Gelabert-González, M. & García-Allut, A. Síndrome de Eagle. Una causa poco frecuente de cervicalgia. *Neurocirugia (Asturias, Spain)*, 19(3):254-6, 2008.

- Gupta, M.; Kumar, Y.; Vig, H. & Rizvi, A. Classic Eagle's syndrome: styloidectomy via the transcervical approach. *BMJ Case Rep.*, 14(8):e244634, 2021.
- Khandelwal, S.; Hada, Y. S. & Harsh, A. Eagle's syndrome: A case report and review of the literature. *Saudi Dent. J., 23(4)*:211-5, 2011.
- Kim, S. M.; Seo, M. H.; Myoung, H.; Choi, J. Y.; Kim, Y. S. & Lee, S. K. Osteogenetic changes in elongated styloid processes of Eagle syndrome patients. J. Craniomaxillofac. Surg., 42(5):661-7, 2014.
- Langlais, R. P.; Miles, D. A. & Van Dis, M. L. Elongated and mineralized stylohyoid ligament complex: a proposed classification and report of a case of Eagle's syndrome. *Oral Surg. Oral Med. Oral Pathol.*, 61(5):527-32, 1986.
- Martin, T. J.; Friedland, D. R. & Merati, A.L. Transcervical resection of the styloid process in Eagle syndrome. *Ear Nose Throat J.*, 87(7):399-401, 2008.
- Martins, W. D.; Ribas, M. O.; Bisinelli, J.; França, B. H. S. & Martins, G. Eagle's syndrome: treatment by intraoral bilateral resection of the ossified stylohyoid ligament. A review and report of two cases. *Cranio*, *31*(*3*):226-31, 2013.
- Neville, B. W.; Damm, D. D.; Allen, C. M.; Chi, A. C. Oral & Maxillofacial Pathology. 4th ed. Missouri, WB Saunders, Elsevier, 2016.
- Piagkou, M.; Anagnostopoulou, S.; Kouladouros, K. & Piagkos, G. Eagle's syndrome: a review of the literature. *Clin. Anat.*, 22(5):545-58, 2009.
- Rouvière, H. & Delmas, A. *Anatomía Descriptiva de la y del Cuello*. Tomo 1. 11ª ed. Paris, Elsevier Masson, 2005.
- Taheri, A.; Firouzi-Marani, S. & Khoshbin, M. Nonsurgical treatment of stylohyoid (Eagle) syndrome: a case report. *J. Korean Assoc. Oral Maxillofac. Surg.*, 40(5):246-9, 2014.
- Wang, J.; Liu, Y.; Wang, Z. B. & Yan, K.S. Intraoral and extraoral approach for surgical treatment of Eagle's syndrome: a retrospective study. Eur. Arch. Otorhinolaryngol., 279(3):1481-7, 2022.

Direccion para correspondencia: Dra. Macarena Salas Martínez Cirujano Dentista Universidad de Los Andes Santiago CHILE

E-mail: macarenasalasmartinez@gmail.com