

M. Argüero¹
C. Gay²

El síndrome estilohioideo. Descripción de un caso

¹ Cirujano Maxilofacial de la
Clínica del Perpetuo Socorro, Lleida,
Profesor del Máster de Cirugía Bucal
² Profesor Titular de Patología
Quirúrgica Oral y Maxilofacial.
Director del Máster de Cirugía Bucal.
Facultad de Odontología
Universidad de Barcelona.

Correspondencia:
Dr. Cosme Gay Escoda
C. Ganduxer 140, 4º
08022 Barcelona

RESUMEN

Se describe un caso de síndrome estilohioideo (síndrome de Eagle) producido por la compresión de las arterias carótidas externa e interna debida a la presencia de un aparato hioideo totalmente calcificado.

El síndrome estilohioideo siempre debe tenerse en consideración en el diagnóstico diferencial del dolor craneofacial.

El diagnóstico se basa en la palpación endofaríngea de la apófisis estiloides y el examen radiológico.

La extirpación vía endobucal de la apófisis estiloides proporciona un buen resultado.

PALABRAS CLAVE

Síndrome estilohioideo; Síndrome de Eagle; Arteria carótida interna; Arteria carótida externa; Estiloidectomía; Apófisis estiloides.

ABSTRACT

A case of stylohyoid syndrome (Eagle's syndrome) due to compression of external and internal carotid arteries by a calcified styloid process is reported. Styloid syndrome should be always kept in mind in the differential diagnosis of head and face pain. Diagnosis is established by transpharyngeal palpation and radiographic examination of styloid process.

Good results are achieved with amputation of styloid process.

KEY WORDS

Stylohyoid syndrome; Eagle's syndrome; External carotid artery; Internal carotid artery; Styloidectomy; Styloid process.

112

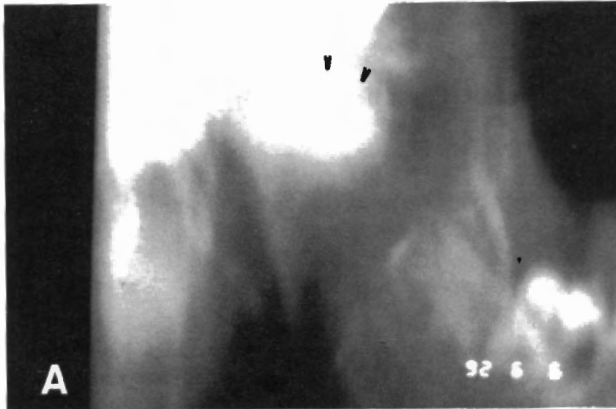


Figura 1. Ortopantografía.

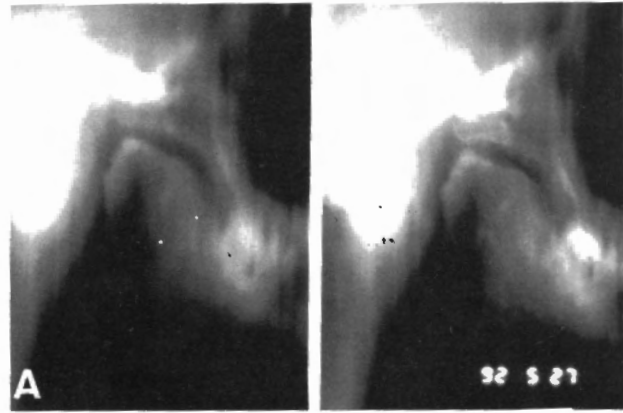


Figura 2. Radiografía de perfil.

INTRODUCCIÓN

Entre los síndromes dolorosos orofaríngeos, el síndrome estilohioideo no es excepcional. Ha sido denominado también síndrome de Eagle, estilodinia, síndrome de la arteria carótida-apófisis estiloides de Messer, estilalgia y síndrome de la apófisis estiloides alargada.

En 1927, Garel⁽¹⁾ describió un cuadro denominado «angina estiloidea crónica», caracterizado por dolor faríngeo de instauración progresiva, continuo, poco intenso, sordo, que se acompañaba de sensación de cuerpo extraño e irradiación hacia oído, cuello y lengua.

En 1932, Thigpen⁽²⁾ describió a un paciente cuyo dolor de oído, cabeza, cuello y región amigdalara, al ser intervenido quirúrgicamente extirpando la apófisis estiloides, mejoró espectacularmente.

En 1937, Eagle⁽³⁾ relacionó el alargamiento de la apófisis estiloides con un cuadro de malestar y dolor de garganta similar al de la faringitis crónica, dolor irradiado al oído y mastoides, disfagia y sensación de cuerpo extraño.

Este mismo autor, en 1948⁽⁴⁾, describió un cuadro doloroso craneofacial motivado por la compresión de las carótidas interna y externa, producida por una apófisis estiloides alargada o desviada, y caracterizado por dolor facial y cefalea en el territorio de distribución arterial. Cuando se comprime la arteria carótida interna, el dolor se centra en el territorio de distribución de la arteria oftálmica; si se afecta la arteria carótida externa, la

distribución del dolor es temporoparietal o temporoccipital.

Estas crisis dolorosas unilaterales y pulsátiles se exacerbaban al realizar movimientos con la cabeza⁽⁵⁻⁸⁾. En este mismo sentido, algunos neurólogos⁽⁹⁾ relacionan ciertos episodios de breve pérdida de conocimiento, después de efectuar movimientos del cuello, con la irritación del plexo perivascular carotídeo por la apófisis estiloides alargada.

Shenoi⁽¹⁰⁾ y Steinmann⁽¹¹⁾ publicaron cuadros superponibles al síndrome de Eagle, sin presencia de apófisis estiloides alargadas, debidos a tendinitis de la plega de reflexión del tendón intermedio del músculo digástrico.

Sataloff⁽¹²⁾ describió un cuadro de estilalgia, relacionado con el avance de la mandíbula, motivado por el estiramiento del ligamento estilomandibular, y Braun⁽¹³⁾ comentó el hecho que una apófisis estiloides alargada podía ser un obstáculo importante en la cirugía ortognática.

DESCRIPCIÓN CLÍNICA

Mujer de 39 años que fue remitida a nuestro Servicio por «molestias en hemifacies derecha».

La paciente manifestó que sufría crisis hipertensivas refractarias al tratamiento médico habitual y de etiología desconocida, y pérdida de visión del ojo derecho.

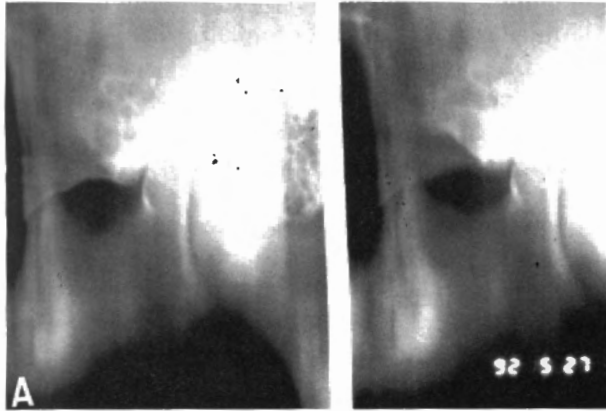


Figura 3. Tomografía axial computadorizada.

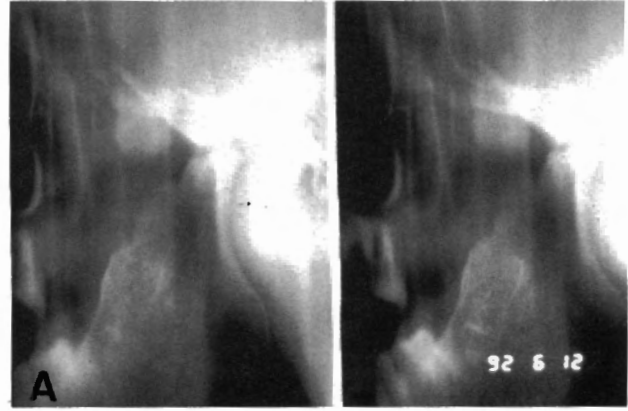


Figura 4. Arteriografía.

Desde hacía 2 años refería molestias en hemifacies derecha, más acentuadas en la región del subángulo mandibular derecho, que se habían agudizado últimamente y se acompañaban de cefaleas frontales y retroorbitarias homolaterales. Manifestaba dolor de garganta y disfagia moderados.

En la exploración física, se apreció un punto doloroso en el subángulo mandibular derecho y la provocación del dolor con la rotación hacia la derecha de la cabeza flexionada. La paciente no presentaba adenopatías ni trismus.

El estudio radiológico (Figs. 1 y 2) demostró la existencia de un aparato hioideo completamente calcificado en el lado derecho.

La tomografía axial computadorizada TAC (Fig. 3) puso de manifiesto un puente óseo entre la punta de la apófisis estiloides y el hioides en el lado derecho pero no demostró claramente una compresión de la carótida derecha, por lo que se practicó un Doppler de troncos supraaórticos, el cual objetivó un aumento de la velocidad y turbulencias en la carótida interna y carótida externa, la arteria oftálmica presentaba un sentido normal con un aumento de la velocidad, y en la arteria vertebral una disminución de la velocidad. La arteriografía (Fig. 4) demostró la compresión de las carótidas interna y externa.

Con el diagnóstico de síndrome estilohioideo, la paciente fue intervenida quirúrgicamente bajo anestesia general. La vía de abordaje de la apófisis estiloides fue

endofaríngea. Se practicó una incisión vertical a través del pilar anterior del velo. La disección, muy prudente, fue guiada principalmente por palpación digital. El aparato estilohioideo fue fragmentado desde el asta menor del hioides hacia atrás y extirpado, con lo que se obtuvieron siete fragmentos hísticos alargados de consistencia ósea; el mayor de los cuales midió 2 x 0,5 cm (Fig. 5).

La evolución postoperatoria fue buena; la disfagia persistió durante una semana, pero el dolor desapareció inmediatamente, así como las crisis hipertensivas.

El diagnóstico anatomopatológico fue de fragmentos de tejido óseo (osificación endocondral).

DISCUSIÓN

La embriología y la anatomía del aparato estilohioideo han sido ya descritas^(14,15). Sin embargo, es importante recordar que éste deriva del esqueleto cartilaginoso del segundo arco (cartílago de Reichert), cuyas dos extremidades se osifican, mientras que su parte media regresa, dejando como reliquia el ligamento estilohioideo; la extremidad craneal del cartílago forma el hueso estribo (con exclusión de la platina) y la apófisis estiloides, que, más tarde, se soldará al temporal; la extremidad inferior dará origen al asta menor del hioides.

El conjunto de estas tres formaciones, apófisis estiloides, ligamento estilohioideo y asta menor del

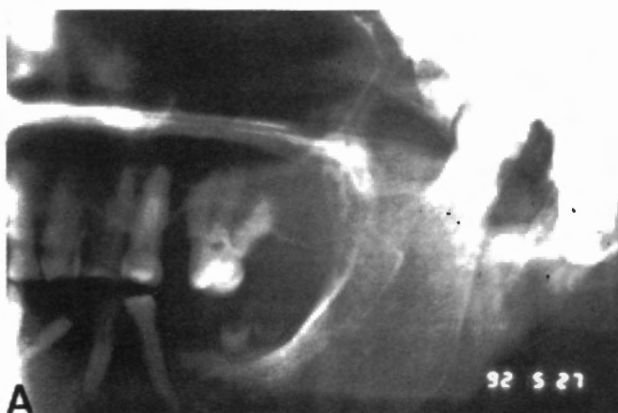


Figura 5. Aparato estilohioideo extirpado. Mide unos 10 cm de longitud.

hueso hioides, forman la cadena hioidea normalmente constituida.

La longitud habitual de la apófisis estiloides es de 2,5 cm, aunque puede llegar a alcanzar 7,5 cm o más^(4,7,16-21). Se estima que el 4% de los individuos presenta estiloides que superan los 2,5 cm; para Kaufman⁽¹⁸⁾, la incidencia es del 28%.

Numerosas hipótesis han intentado explicar la presencia del aparato hioideo, parcial o totalmente calcificado, como en nuestro caso. Para ciertos autores, representaría la persistencia de la segmentación primitiva del cartílago del arco hioideo; para otros⁽²²⁾, su existencia sería el resultado de la persistencia y de la evolución del estado fetal; otros opinan que la apófisis estiloides está en continuo crecimiento y que la mineralización o calcificación del ligamento estilohioideo está modulada por la edad. Así, Monsour⁽²⁸⁾ mantiene que se entelence entre los 30 y 50 años y se acelera después, en contraposición con los estudios de Bernfeld⁽²⁴⁾, en los que se determinó que la osificación se completa y finaliza a los 5-8 años.

Carroll⁽²⁵⁾ señaló un incremento de la calcificación durante las tres primeras décadas, un aumento gradual entre la cuarta y séptima décadas, y una calcificación completa en la octava.

Merecen especial mención las estructuras relacionadas con el aparato hioideo para llegar a comprender el síndrome estilohioideo.

La apófisis estiloides presta inserción a los músculos del ramillete de Riolo que forman el diafragma estileo (músculos estilogloso, estilofaríngeo y estilohioideo, y los ligamentos estilomandibular y estilohioideo) que se extiende desde el esternocleidomastoideo hasta la faringe y separan el espacio retroestiloideo del paraamigdalino y parotídeo.

Parte de los elementos del espacio retroestiloideo se relacionan íntimamente con la apófisis estiloides o con el aparato hioideo, al tener que atravesar el diafragma para abordar las regiones preestileas.

El nervio glossofaríngeo, después de salir del endocráneo a través del agujero rasgado posterior, cruza el flanco externo de la carótida interna y sigue el borde inferior del músculo estilogloso hasta la base de la lengua.

En la parte inferior del espacio, la carótida externa atraviesa el diafragma estileo para ingresar en la celda parotídea.

El nervio facial, después de su salida por el agujero estilomastoideo, cruza la cara externa de la base de la apófisis estiloides antes de penetrar en la glándula parotídea; de ahí que la localización por tacto de la misma sea un punto de referencia para la localización y disección del nervio.

Cuando la apófisis estiloides adquiere una longitud desusada^(7,16,21) puede llegar a contactar con la fosa amigdalina y el nervio glossofaríngeo por la parte interna y lateralmente con la bifurcación carotídea⁽²⁶⁾.

La desviación interna de la apófisis estiloides alargada puede condicionar el pinzamiento de la carótida interna entre aquella y la apófisis transversa del atlas^(8,27). Los estudios angiográficos⁽²⁸⁾ han demostrado la compresión de la carótida externa causada por el ligamento estilohioideo calcificado al efectuar rotación de la cabeza hacia el mismo lado, como en nuestro caso.

También la distopia de los componentes del diafragma estileo puede ser fuente de dolor, así el ligamento estilomandibular⁽¹²⁾, que se inserta en el ángulo de la mandíbula, puede estar distendido en osteotomías de avance mandibular, sobre todo cuando su inserción es muy anterior.

El síndrome de Eagle es más frecuente en mujeres según la mayoría de los autores^(19,29,30). Aparece a partir de la tercera década.

Es frecuente la existencia de una apófisis alargada bilateralmente^(19,28) pero no se corresponde

necesariamente con la aparición de clínica en ambos lados.

Los mecanismos patogénicos que se postulan se basan en los siguientes aspectos:

- Impactación de la apófisis sobre los vasos carotídeos afectando la circulación e irritando el plexo simpático periarterial⁽³⁾.
- Fractura del ligamento osificado que no va seguido de reparación⁽³¹⁾.
- Compresión neural⁽²⁹⁾ (del nervio glossofaríngeo y trigémino fundamentalmente).
- Degeneración o inflamación en la porción tendinosa de la inserción⁽³⁰⁾.
- La irritación de la pared faríngea por la propia apófisis alargada o por la fibrosis tras amigdalectomía^(2-5,32) y encapsulación con irritación de terminaciones nerviosas de los pares craneales V, VII, IX y X.
- Cambios involutivos relacionados con la edad que conllevan una cervicoartrosis con disminución de la altura de la columna vertebral cervical y descenso consiguiente de la apófisis estiloides⁽²⁹⁾.

De todos estos mecanismos, nos parece que el más verosímil aplicado a nuestra observación es el propugnado por Eagle o conocido como síndrome de la arteria carótida-apófisis estiloides de Messer, ya que el cuadro sintomático era el de un algia vascular con crisis hipertensivas.

Algunos autores⁽³³⁾ han preconizado un tratamiento no quirúrgico del síndrome de Eagle post-amigdalectomía, consistente en la administración de una inyección transfaríngea de esteroides y lidocaína en régimen ambulatorio. Sin embargo, su eficacia a largo plazo no ha sido demostrada.

Otro tratamiento conservador consiste en la manipulación transfaríngea, con anestesia local y sedación, de la apófisis estiloides procediendo a su fractura manual.

Algunos autores franceses^(16,34) prefieren realizar inicialmente psicoterapia, eventualmente acompañada de un tratamiento médico (infiltración de xilocaína o de corticoides).

Según la opinión más generalizada, sin embargo, el tratamiento del síndrome estilohioideo debe ser quirúrgico a través de un abordaje extraoral o transfaríngeo.


Varios autores⁽³⁵⁾ han criticado el abordaje extraoral por la duración de la intervención quirúrgica, la morbilidad y las estructuras anatómicas adyacentes. El

paciente se coloca en posición supina con el hombro ipsilateral ligeramente elevado y la cabeza y el cuello extendidos y rotados hacia el lado opuesto. Después de la incisión submandibular de la piel e identificación y división de la extensión posterior del músculo platisma, se utiliza una combinación de disección aguda y roma a lo largo del borde posterior de la mandíbula, identificando una porción del sistema de la arteria carótida externa, que puede ser retraído hacia delante. Inmediatamente debajo de la fascia que envuelve la carótida externa o la maxilar interna, la apófisis estiloides es fácilmente palpable e identificable. Se extirpa la fascia superficial a la apófisis estiloides, se practica una incisión en el periostio y se procede a su despegamiento y al de las inserciones musculares. La apófisis estiloides puede dividirse cerca de su base con disección del ligamento estilohioideo en un punto distal a la porción calcificada.

El abordaje transfaríngeo, recomendado por Glogoff⁽³⁵⁾, se efectúa con intubación nasotraqueal, con el cuello en hiperextensión y con la boca abierta. Si la apófisis estiloides se palpa en la fosa amigdalina, servirá de referencia para la incisión en la mucosa faríngea; se efectuará disección roma por la vecindad de importantes estructuras anatómicas y reflexión de los tejidos adyacentes a la apófisis estiloides y extirpación de la misma. En esta vía, la palpación digital es muy importante ya que la visualización es deficiente.

En nuestra opinión, se elegirá la vía transfaríngea en los casos en que la apófisis estiloides se palpe en la fosa amigdalina, ya que se acorta la duración de la intervención quirúrgica y no habrá cicatrices externas. Sin embargo, si la apófisis estiloides no puede palpase en la fosa amigdalina, es recomendable la vía externa. Otros autores⁽³⁶⁾ son partidarios de la vía externa porque consideran que por la transfaríngea es difícil acortar radicalmente la apófisis estiloides.

No siempre es fácil establecer un diagnóstico de síndrome estilohioideo. Habitualmente, pasa desapercibido y se confunde con un síndrome doloroso disfuncional, neuralgias del glossofaríngeo, del trigémino, del laríngeo superior y de Sluder, problemas dentales⁽³⁷⁾, amigdalitis crónicas, artropatías cervicales, tumores faríngeos y de la base de la lengua entre otros.

Quisiéramos destacar, por último, la importancia del diagnóstico correcto pues el tratamiento quirúrgico,  curativo.

BIBLIOGRAFÍA

- 1 Garel J. Angine styloïdienne chronique. *Lyon Med* 1927;9:654.
- 2 Thigpen CA. The styloid process. *Tr Am Laryngol Rhinol Otol Soc* 1932;38:408.
- 3 Eagle WW. Elongated styloid process. Report of two cases. *Arch Otolaryngol* 1937;25:584.
- 4 Eagle WW. Elongated styloid process. *Arch Otolaryngol* 1948;47:630.
- 5 Eagle WW. Symptomatic elongated styloid process. *Arch Otolaryngol* 1949;49:490.
- 6 Eagle WW. Elongated styloid process. *Arch Otolaryngol* 1958;67:179.
- 7 Glogoff MR, Baum SM, Cheifetz I. Diagnosis and treatment of Eagle's syndrome. *J Oral Surg* 1981;39:941.
- 8 Grossman JR, Tarsitano JJ. The styloid-stylohyoid syndrome. *J Oral Surg* 1977;85:555.
- 9 Warot P. L'apophyse styloïde longue. *Rev Otoneuroophthalmol* 1976;48:145.
- 10 Shenoï PM. Styloid syndrome. *J Laryngol Otol* 1972;86:1203.
- 11 Steinmann EP. Styloid syndrome in absence of an elongated process. *Acta Otolaryngol* 1968;66:347.
- 12 Sataloff RT, Price DB. Mandibular osteotomy complicated by styloid pain. *J Oral Surg* 1983;56:25.
- 13 Braun TW, Sotereanos GC. The styloid process as an anatomic hindrance in orthognathic surgery. *J Oral Max Fac Surg* 1983;41:676.
- 14 Rouvière H. *Anatomía Humana*. Bailly-Bailliere. Madrid, 1974.
- 15 López JS, González M, Vicente JC, García M-J. Consideraciones acerca del síndrome arteria carótida-apófisis estiloides de Messer. *Rev Esp C Oral Maxillofac* 1988;10:75.
- 16 Laufer J, Ruf R. Les anomalies de minéralisation de l'appareil stylien. *Rev Stomatol Chir Maxillofac* 1981;5:318.
- 17 Stafne EC, Hollinshead WH. Roentgenographic observations on the styloid chain. *J Oral Surg* 1962;15:1195.
- 18 Kaufman SM, Elzay RP, Irish EF. Styloid process variation: Radiologic and clinical study. *Arch Otolaryngol* 1970;91:460.
- 19 Moffat DA, Ramsdem RT, Shaw HJ. The styloid process syndrome: Aetiological factors and surgical management. *J Laryngol Otol* 1977;91:279.
- 20 Lawrence FR. Eagle's syndrome. *J Oral Surg* 1982;40:307.
- 21 Chandler JR. Anatomical variations of the stylohyoid complex and their clinical significance. *Laryngoscope* 1977;87:1692.
- 22 Corsy F. *Evolution de l'appareil byo-branchial*. Thèse de doctorat. Paris 1933.
- 23 Monsour PA, Young WG. Variability of the styloid process and stylohyoid ligament in panoramic radiographs. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1986;61:522.
- 24 Bernfeld K. Zur Begriffsleestimmung und Pathogenese eines neuem Krankhertsbildes, des sog: Styloideus-Symptomenkomplexes. *Z Laryngol Rhinol* 1982;23:107.
- 25 Carroll MK, Miss J. Calcification in the stylohyoid ligament. *J Oral Surg* 1984;58:617.
- 26 Koebke J. Kompression der A. carotis extern (Ein anatomischer befund zum Eagleschen syndrom). *Laryngol Rhinol Otol Otsch* 1976;55:913.
- 27 Frommer J. Anatomic variations in the stylohyoid chain and their possible clinical significance. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1974;38:659.
- 28 Messer EJ, Abramson AM. The styloid syndrome. *J Oral Surg* 1975;33:664.
- 29 Härmä R. Stylalgia. *Acta Otolaryngol (Stockholm) Supplement* 1967;224:149.
- 30 Steinmann EP. A new light on the pathogenesis of the styloid syndrome. *Arch Otolaryngol* 1970;91:171.
- 31 Balasubramanian S. The ossification of the stylohyoid ligament and its relation to facial pain. *Br Dent J* 1964;114:108.
- 32 Donohue WB. Styloid syndrome. *J Can Dent Assoc* 1959;25:283.
- 33 Evans JT, Clairmont AA. The nonsurgical treatment of Eagle's syndrome. *Ear Nose Throat J* 1976;55:44.
- 34 D'Erceville T, Guennal P. Le syndrome etylohyoidien. *Rev Stomatol Chir Maxillofac* 1985;86:49-52.
- 35 Glogoff MR, Gavan SM, Cheifetz J. Diagnosis and treatment of Eagle's syndrome. *J Oral Surg* 1981;39:941.
- 36 Chase DC. Eagle's syndrome: A comparison of intraoral versus extraoral surgical approaches. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1986;62:625.
- 37 Zohar Y, Strauss M, Laurian N. Elongated styloid process syndrome masquerading as pain of dental origin. *J Max Surg* 1986;14:294.