

Síndrome de Eagle - Relato de caso e revisão da literatura

Eagle Syndrome - Case report and literature review

Bernardo Carvalho Araujo • Paulo Vera Cruz • António Larroudé

RESUMO

Os autores descrevem o caso clínico de um homem de 46 anos com queixas de odinofagia persistente resistente à terapêutica médica. As queixas do doente eram despertáveis com a rotação da cabeça e com a palpação da região do músculo estilo-hioideu. A tomografia computadorizada (TC) confirmou a presença de uma apófise estiloideia alongada com calcificação do ligamento estilo-hioideu, confirmando-se assim o Síndrome de Eagle como a mais provável hipótese de diagnóstico. É também apresentada uma revisão da literatura do Síndrome de Eagle.

Palavras-chave - Síndrome de Eagle; estiloideu; apófise estiloideia

INTRODUÇÃO

O Síndrome de Eagle (SE) é um conjunto de sintomas causado por uma apófise estiloideia longa ou por um processo de mineralização (ossificação/calcificação) de parte ou todo o ligamento estilo-hioideu^{1,2,3,4}.

Os autores apresentam neste artigo um caso clínico de SE de um doente do sexo masculino com 46 anos, bem como uma breve revisão da literatura sobre o tema.

MATERIAL E MÉTODOS

Apresentação de caso clínico e revisão da literatura, com pesquisa bibliográfica em manuais de ORL, base de dados online PubMed e Cochrane Library em Abril de 2017 com os termos “Eagle Syndrome”; “stylohyoid syndrome”; “stylocarotid syndrome”.

RELATO DE CASO

Um homem de 46 anos recorreu à consulta de ORL por queixas de odinofagia persistente com irradiação ao ouvido apesar de múltiplas terapêuticas com analgésicos, anti-inflamatórios e inibidores da bomba de protões. Referia também sensação de corpo estranho faríngeo com a deglutição. Ao exame objectivo foi possível despertar as queixas com a rotação da cabeça e com a palpação do trajeto do estilo-hioideu, sinais estes que levaram ao pedido de TC de pescoço em primeira instância. O restante exame objectivo, incluindo a (mas não limitado a) inspecção da cavidade oral e faringe bem como a palpação da articulação temporo-mandibular, não revelou qualquer outra alteração.

A TC revelou uma apófise estiloideia alongada até ao ângulo da mandíbula à direita e uma apófise estiloideia espessada à esquerda com calcificação parcial do ligamento estilo-hioideu (Figuras 1 a 5).

Apesar do esclarecimento informado, o doente recusou qualquer medida terapêutica adicional.

Bernardo Carvalho Araujo
Centro Hospitalar de Lisboa Central

Paulo Vera Cruz
Hospital da Luz

António Larroudé
Hospital da Luz

Correspondência
Bernardo Carvalho Araújo
bernardocarvalhoaraujo@hotmail.com

Artigo recebido a 4 de Junho de 2017. Aceite para publicação a 10 de Outubro de 2017.

FIGURA 1

TC, corte coronal



FIGURA 2

TC, corte sagital, apófise estiloideia direita

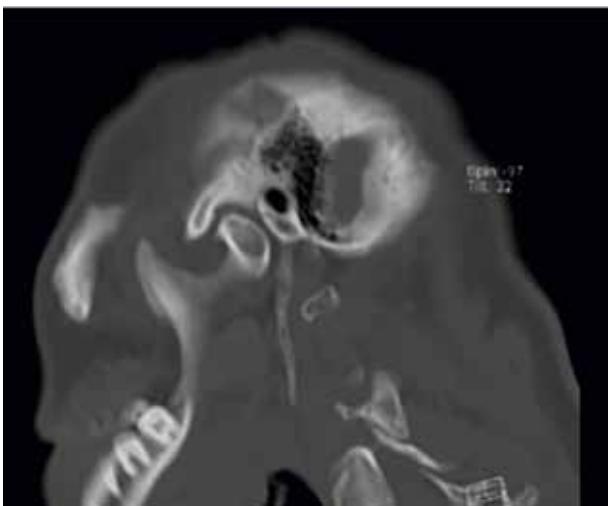


FIGURA 3

TC, corte sagital, apófise estiloideia esquerda com calcificação do ligamento estilo-hioideu



FIGURA 4

TC, reconstrução tridimensional, apófise estiloideia direita

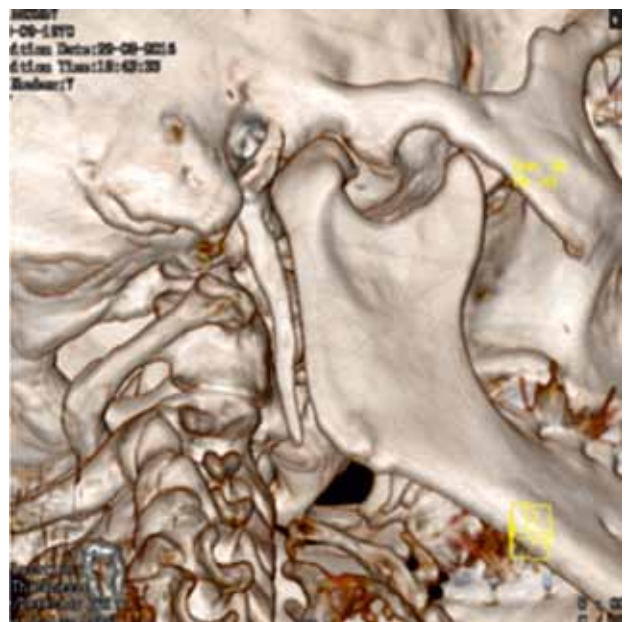
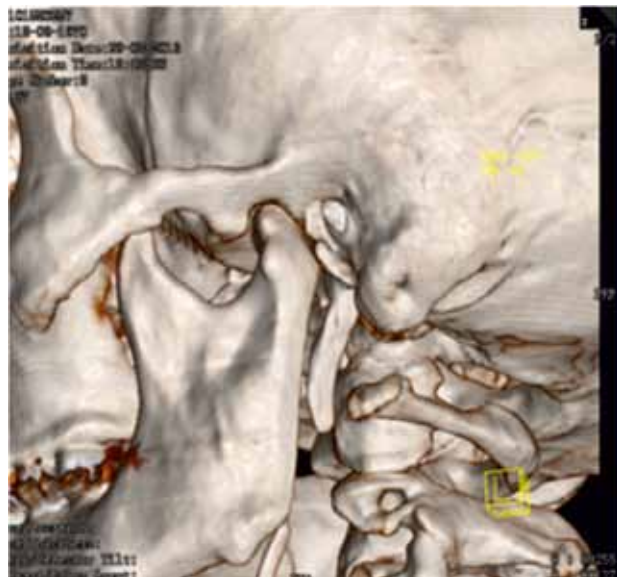


FIGURA 5

TC, reconstrução tridimensional, apófise estiloideia esquerda com calcificação do ligamento estilo-hioideu

**DISCUSSÃO**

O SE continua a ser um diagnóstico raro na prática clínica diária. Foi teorizado que o conjunto de sinais e sintomas atribuídos a uma apófise estiloideia longa fará o diagnóstico, no entanto existem autores que defendem que, mais importante do que a dimensão da apófise ou a calcificação do ligamento, é a angulação anterior da estilóide que condiciona o quadro do SE⁵. Na análise da literatura internacional, os termos “Síndrome de Eagle”, “Síndrome Estiloideu”, “Nevralgia da apófise estiloideia” e “mineralização sintomática do complexo ligamentar estilo-hioideu-estilomandibular” são utilizados indiscriminadamente para o mesmo quadro sintomático.

Apesar de já reconhecido desde o século XVII por Pietro Marchetti, foi nos anos 40 do século XX que Watt Eagle descreveu as duas formas reconhecidas de “síndrome da apófise estiloideia longa” ou “síndrome de Eagle”: a forma “clássica” e a forma da “artéria carótida”. A primeira geralmente surge após amigdalectomia e é caracterizada pela sensação de corpo estranho faríngeo, dor referida ao ouvido, disfagia, disfonia e odinofagia persistente. Eagle teorizou que a cicatrização pós cirúrgica poderia causar compressão e/ou estiramento das estruturas nervosas subjacentes à loca amigdalina (Trigémio, Facial, Glossofaríngeo e Vago) na proximidade da apófise estiloideia. A forma da “artéria carótida” resulta da compressão da artéria e do plexo simpático pericarotídeo por uma apófise estiloideia longa ou por um ligamento estilo-hioideu calcificado, podendo causar cervicalgia com irradiação orbitária na rotação ipsilateral da cabeça (compressão da carótida externa) ou cefaleia occipito-frontal e periorbitária (compressão da carótida interna e plexo simpático- carotidínia). Mais recentemente^{6,7} ficou provado que o SE poderia causar acidentes isquémicos transitórios por compressão carotídea ou acidentes vasculares cerebrais por dissecação da mesma artéria.

Apesar de esta divisão ainda ser utilizada, a sua validade tem vindo a ser questionada, uma vez que é possível encontrar muitos casos assintomáticos de calcificação do complexo estilo-hioideu, casos sintomáticos mas sem relação com a extensão da ossificação e casos sintomáticos sem história de cirurgia ou trauma cervical prévios⁴.

Várias séries publicadas descrevem o comprimento “médio” da estilóide^{8,9,10,11,12,13,14}, tendo sido reportados valores médios mínimos de 21mm¹⁴ e máximos de 29,5mm¹⁰. Consensualmente, considera-se que uma apófise estiloideia com mais de 30mm de comprimento confere um risco acrescido de SE^{15,16}. Uma apófise estiloideia alongada encontra-se em cerca de 4 a 7,3% da população, geralmente de forma bilateral^{10,17}. Considerando a calcificação do ligamento estilo-hioideu, a prevalência pode aumentar até 78% da população¹⁸, sendo que apenas 4 a 10,3% dos doentes com apófise estiloideia longa ou calcificação do ligamento estilo-hioideu apresentam sintomatologia sugestiva de SE¹⁹, mais frequentemente unilateral²⁰. Woolery²¹ sugere que o SE ocorre mais em mulheres e que a variante anatómica do complexo estilo-hioideu é mais frequente numa população feminina idosa.

Dado o quadro inespecífico deste síndrome, é frequente os doentes recorrerem por diversas vezes a múltiplas especialidades médicas e cirúrgicas antes de obterem um diagnóstico correto. Pelas queixas sobreponíveis, o diagnóstico diferencial é vasto, sendo habitual considerar os diagnósticos de dentes não erupcionados, nevralgias essenciais, disfunção da articulação temporo-mandibular (ATM), patologia otológica, faringite crónica, amigdalite crónica, bursite hioideia, síndrome de Sluder, cefaleia em salvas (cluster), enxaqueca, divertículo esofágico, arterite temporal, artrite vertebral cervical ou neoplasia. Dever-se-á também considerar patologia músculo-esquelética e psicogénica, como o síndrome de dor miofascial e a fibromialgia. Numa publicação recente, Shankland²² reviu as causas de síndromes de odinofagia anterior, com especial enfoque em cinco patologias com sintomatologia sobreponível: síndrome de Eagle, síndrome de Ernest, síndrome da artéria carótida, síndrome do hióide e síndrome do constritor superior da faringe. Em especial o síndrome de Ernest, uma tendinite de inserção do ligamento estilo-mandibular, poderá ser particularmente difícil de diferenciar do síndrome de Eagle e de disfunção da ATM.

O tratamento clássico é a remoção da apófise estiloideia/complexo ligamentar por via transbucofaríngea (intra-oral transamigdalina) ou por via cervical externa^{23,24}. A estiloidectomia poderá ser parcial ou total. Apesar das dúvidas iniciais, a via transoral oferece menor tempo operatório, menor tempo de hospitalização, menor taxa de infeções cervicais profundas, retorno precoce à atividade normal e melhor resultado estético^{23,24,25}.

Em alternativa à cirurgia, poder-se-á optar por tratamentos conservadores, tranquilizando o doente, iniciando-se fisioterapia²⁶, infiltração local com anestésicos ou corticóides na loca amigdalina e áreas de tensão²⁷ ou ainda com medicação oral com antidepressivos, anticonvulsivantes ou analgésicos²⁸.

Contudo, os resultados das terapêuticas não cirúrgicas são geralmente temporários e não totalmente satisfatórios na reversão da sintomatologia. As alternativas de tratamento conservador que fornecem melhores resultados são as infiltrações locais com corticóide²⁸, não se tendo, no entanto, criado linhas de orientação terapêutica standard pela raridade dos casos. A injeção periamigdalina e em áreas de tensão de 1 mL de triamcinolona 10 mg com mL de mepivacaína 0,3% parece ter resultados promissores nos casos publicados, geralmente em associação com a gabapentina 300 mg/dia e analgesia PO.

Quer utilizado como tratamento conservador, quer como complemento à cirurgia, a fisioterapia tem um papel importante na recuperação funcional da mobilidade, nas queixas álgicas e na prevenção da recidiva das queixas. Terapêuticas como a mobilização dos tecidos moles (MTM), intervenções manuais dirigidas à coluna dorsal superior, deslizamento posterior-anterior dirigido a C2, exercícios de flexão crânio-cervical, exercícios oculomotores e de ombros têm o seu papel na reabilitação destes doentes²⁹.

CONCLUSÃO

O Síndrome de Eagle continua a ser uma patologia rara na prática clínica, razão pela qual não existem tratamentos otimizados e guidelines definidas para o seu diagnóstico e tratamento. Dos 4% da população que apresenta apófise estiloidea longa, apenas 4% apresenta sintomas, pelo que a existência de uma apófise estiloidea longa, por si só, não faz o diagnóstico de SE, podendo ser apenas um achado radiológico.

O tratamento de escolha continua a ser a abordagem cirúrgica de estiloidectomia, por via transoral ou cervical externa. No entanto, existem também alternativas médicas como a injeção local com corticóide e medicação com antidepressivos, anticonvulsivantes ou analgésicos. A fisioterapia também poderá ter um papel interessante complementar à terapêutica cirúrgica e médica.

O Síndrome de Eagle deverá continuar a ser incluído no diagnóstico diferencial da sintomatologia cervical inespecífica, a par de outras patologias de etiologia inflamatória, infecciosa, músculo-esquelética, infiltrativa neoplásica primária ou secundária, traumática ou psicogénica, entre outras.

Proteção de pessoas e animais

Os autores declaram que os procedimentos seguidos estavam de acordo com os regulamentos estabelecidos pelos responsáveis da Comissão de Investigação Clínica e Ética e de acordo com a Declaração de Helsínquia da Associação Médica Mundial.

Confidencialidade dos dados

Os autores declaram ter seguido os protocolos do seu centro de trabalho acerca da publicação dos dados de doentes.

Conflito de interesses

Os autores declaram não ter nenhum conflito de interesses relativamente ao presente artigo.

Fontes de financiamento

Não existiram fontes externas de financiamento para a realização deste artigo.

Referências Bibliográficas

1. Revilla Borjas C, Stuyt MT (1989) El síndrome estiloideo: a proposito de 3 casos. *Annales de Otorrinolaringologia Iberoamericana* 659-666
2. Winkler S, Sammartino F: Stylohyoid syndrome: report of a case. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 51(2): 215e217, 1981
3. Babad MS (1995) Eagle's syndrome caused by traumatic fracture of a mineralized stylohyoid ligament—literature review and a case report. *Cranio* 13:188-192
4. Camarda AJ, Deschamps C, Forest D: I. Stylohyoid chain ossification: a discussion of etiology. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1989; 67:508-514.
5. Yavuz H, Caylakli F, Yildirim T, Ozluoglu LN: Angulation of the styloid process in Eagle's syndrome. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 265(11): 1393e1396, 2008
6. Farhat HI, Elhamady MS, Ziayee H, Aziz-Sultan MA, Heros RC: Eagle syndrome as a cause of transient ischemic attacks. *J Neurosurg* 110(1): 90e93, 2009
7. Cano LM, Cardona P, Rubio F: Eagle syndrome and carotid dissection. *Neurologia* 2010; 25:266-267.
8. Bozkir MG, Boga H, Dere F (1999) The evaluation of elongated styloid process in panoramic radiographs in edentulous patients. *Tr J Med Sci* 29:481-485
9. Hwang JY, Hwang EH, Lee SR (2005) A study on the styloid process in panoramic radiographs. *Korean J Oral Maxillofac Radiol* 35:105-110
10. Kaufman SM, Elzay RP, Irish EF (1970) Styloid process variation. *Radiologic and clinical study. Arch Otolaryngol* 91:460-463
11. Lengele BG, Dhem AJ (1988) Length of the styloid process of the temporal bone. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 114:1003-1006
12. Masashi Y (2002) Radiographic images of the styloid process. *J Osaka Odontol Soc* 65:165-180
13. Scaf G, Freitas DQ, Loffredo LC (2003) Diagnostic reproducibility of the elongated styloid process. *J Appl Oral Sci* 11:120-124
14. Sokler K, Sandev S (2001) New classification of the styloid process length—clinical application on the biological base. *Coll Antropol* 25:627-632
15. Keur JJ, Campbell JP, McCarthy JF, Ralph WJ: The clinical significance of the elongated styloid process. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol* 1986; 61:399-404.
16. Prasad KC, Kamath MP, Reddy KJM, et al. Elongated styloid process (Eagle's syndrome): a clinical study. *J Oral Maxillofac Surg* 2002;60: 171-5.
17. Eagle WW: Elongated styloid process; symptoms and treatment. *AMA Arch Otolaryngol* 1958; 67:172-176.
18. Miller DB: Eagle's syndrome and the trauma patient. Significance of an elongated styloid process and/or ossified stylohyoid ligament. *Funct Orthod* 1997; 14:30-35.
19. Murtagh RD, Caracciolo JT, Fernandez G: CT findings associated with Eagle syndrome. *Am J Neuroradiol* 2001; 22: 1401-1402.
20. Jan A: Stylohyoid syndrome. *J Pak Med Assoc* 1989; 39:23.
21. Woolery WA: The diagnostic challenge of styloid elongation (Eagle syndrome). *J Am Osteopath Assoc* 1990; 90:88-89.
22. Shankland WE II: Anterior throat pain syndromes: causes for undiagnosed craniofacial pain. *J Craniomandib Pract* 2010; 28:50-59.
23. Buono U, Mangone GM, Michelotti A, et al. Surgical approach to the stylohyoid process in Eagle's syndrome. *J Oral Maxillofac Surg* 2005; 63:714-16
24. Hossein R, Kambiz M, Mohammad D, et al. Complete recovery after an intraoral approach for Eagle syndrome. *J Craniofac Surg* 2010;21:275-6.
25. Koivumäki A, Marinescu-Gava M, Järnstedt J, et al. Trauma induced eagle syndrome. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2012;41:350-3.
26. Wong ML, Rossi MD, Groff W, Castro S, Powell J. Physical therapy management of a patient with Eagle syndrome. *Physiother Theory Pract.* 2011;27:319-327.
27. Glogoff MR, Baum SM, Cheifetz I. Diagnosis and treatment of Eagle's syndrome. *J Oral Surg.* 1981;39:941-944
28. Min Kyu Han, MD, Do Wan Kim, MD. Non Surgical Treatment of Eagle's Syndrome - A Case Report -Korean J Pain. 2013 Apr; 26(2): 169-172.
29. Marlon L Wong, PT, DPT, OCS, MTC, Mark D Rossi, PT, PhD, CSCS, Wade Groff, SPT, Sonia Castro, SPT, Jennifer Powell, SPT; Physical therapy management of a patient with Eagle syndrome; *Physiotherapy Theory and Practice*, 27(4):319-327, 2011