

Síndrome de Eagle: avaliação do tratamento cirúrgico

Romualdo Suzano Louzeiro Tiago¹,
Marcílio Ferreira Marques Filho²,
Clícia Adriana Santos Maia³,
Osvaldo Fonseca Souza Santos⁴

Eagle Syndrome: surgical treatment evaluation

Palavras-chave: síndrome de Eagle, ligamento estilóideo, ossificação.
Key words: Eagle's syndrome, ligament stylohyoid, ossification.

Resumo / Summary

Introdução: A apófise estilóide é uma projeção óssea que se origina na porção timpânica do osso temporal. O aumento desta ou a ossificação do ligamento estilóideo pode originar uma série de sintomas como disfagia, odinofagia, dor facial, otalgia, cefaléia, zumbido e trismo. Este conjunto de sintomas associado à presença da apófise estilóide alongada é conhecido como Síndrome de Eagle. **Objetivo:** Relatar um grupo de quatro pacientes com Síndrome de Eagle, bem como discutir a apresentação clínica e o tratamento mais adequado desta doença. **Forma de estudo:** Clínico retrospectivo. **Material e método:** Realizado estudo clínico retrospectivo de quatro pacientes, operados no HSPE-FMO e HSPM de São Paulo, no período de junho de 1998 a junho de 2001. O tratamento cirúrgico foi a opção terapêutica escolhida, com a retirada da apófise estilóide alongada. Foi avaliada a evolução clínica no pós-operatório. **Resultados:** Dos quatro pacientes, três eram do sexo feminino e um do sexo masculino, com idade variando de 38 a 68 anos e com média etária de 57,25 anos. A apófise estilóide alongada foi encontrada e operada em ambos os lados em 50% dos casos. Houve remissão completa dos sintomas em três pacientes, com melhora parcial no outro paciente. **Conclusão:** Esta doença deve ser considerada em pacientes com sintomas de disfagia, odinofagia, dor facial, otalgia, cefaléia, zumbido e trismo. O tratamento cirúrgico para pacientes que apresentam a apófise estilóide alongada com sintomas compatíveis com a Síndrome de Eagle é a melhor forma de conduzir estes casos, sendo a via de abordagem externa a que oferece mais segurança e que possibilita uma ressecção mais completa.

Introduction: The styloid apophysis is an osseous outgrowth originating in the tympanum portion of the temporal bone. Its growth, or the ossification of the stylohyoid ligament, may cause a series of symptoms, such as dysphagia, odynophagia, facial pain, otalgia, cephalgia, tinnitus and trismus. This set of symptoms associated to the presence of an elongated styloid apophysis is known as the Eagle syndrome. **Aim:** To report on a group of four patients with Eagle syndrome, as well as to discuss the clinical presentation and the most suitable treatment of this disease. **Study design:** Clinical retrospective. **Material and Method:** A retrospective clinical study of four patients who were submitted to surgery at the HSPE-FMO (State Public Servants Hospital) of São Paulo, and at the HSPM (Municipal Public Servants Hospital) of the city of São Paulo, in the period from June, 1998, to June, 2001. The surgical treatment was the therapeutic option selected, with the removal of the elongated styloid apophyses. The clinical evolution was assessed during the postoperative period. **Results:** Of the four patients, three were females and one a male, ages ranging from 38 to 68 years, with an average age of 57.25 years. The elongated styloid apophyses were found and operated in both sides in 50% of the cases. Full remission of the symptoms occurred in three of the patients, and a partial improvement was observed in the other patient. **Conclusion:** This disease should be considered when the patient presents symptoms, such as dysphagia, odynophagia, facial pain, otalgia, cephalgia, tinnitus and trismus. Surgical treatment is the best form of conducting such cases with patients presenting elongated styloid apophysis and symptoms compatible with the Eagle syndrome, with the external approach being the one that offers greater safety and allows for a more complete resection.

¹ Mestre em Otorrinolaringologia e Cirurgia de Cabeça e Pescoço pela UNIFESP-EPM. Médico Assistente do Setor de Cirurgia de Cabeça e Pescoço do Serviço de Otorrinolaringologia do HSPE-FMO-São Paulo/SP. Médico Assistente do Serviço de Otorrinolaringologia do HSPM de São Paulo/SP.

² Pós-Graduando (Doutorado) do Curso de Pós-graduação em Otorrinolaringologia e Cirurgia de Cabeça e Pescoço da UNIFESP-EPM.

³ Pós-Graduanda (Mestrado) do Curso de Pós-graduação em Otorrinolaringologia da Faculdade de Ciências Médicas da Sta. Casa de São Paulo.

⁴ Médico-Residente (R2) do Serviço de Otorrinolaringologia do HSPM de São Paulo/SP.

Instituição: Setor de Cirurgia de Cabeça e Pescoço do Serviço de Otorrinolaringologia do Hospital do Servidor Público Estadual – Francisco Morato de Oliveira São Paulo/SP. Serviço de Otorrinolaringologia do Hospital do Servidor Público Municipal de São Paulo/SP.

Endereço para correspondência: Romualdo S. L. Tiago – Rua Estado de Israel 493, ap 51 – Vila Clementino – São Paulo CEP 04022-001

Tel. (0xx11) 5084.7725 – E-mail: romualdotiago@uol.com.br

Artigo recebido em 26 de novembro de 2001. Artigo aceito em 17 de janeiro de 2002.

INTRODUÇÃO

A apófise estilóide é uma projeção óssea que se origina na porção timpânica do osso temporal. O aumento da apófise estilóide ou a ossificação do ligamento estilohióide pode originar uma série de sintomas como disfagia, odinofagia, dor facial, otalgia, cefaléia, zumbido e trismo. Esta síndrome foi inicialmente descrita em 1937 por W. W. Eagle, que observou sintomatologia cervicofaríngea associada à presença da apófise estilóide alongada (Eagle, 1937; Eagle, 1948)^{1,2}. Na literatura observou-se que existem dois grupos diferentes no que se refere à Síndrome de Eagle, sendo elas a Síndrome de Eagle clássica e a Síndrome da artéria carótida-apófise estilóide (Eagle, 1948)².

O alongamento da apófise estilóide pode ocorrer por processo de ossificação do ligamento estilohióide, que constitui o complexo ligamentar estilohióide, ou por crescimento da apófise decorrente de algum fator que possa desencadear a osteogênese, como, por exemplo, o trauma (Balbuena et al, 1997)³.

O diagnóstico pode ser considerado naqueles pacientes que apresentam sintomas compatíveis com a Síndrome de Eagle, sendo necessário afastar outras etiologias que possam originar quadro clínico semelhante. A palpação digital da loja amigdaliana aumenta a dor relatada pelo paciente e confirma o diagnóstico. A avaliação radiológica fornece parâmetros mais objetivos e permite medir o tamanho da apófise estilóide.

Neste trabalho apresentamos um grupo de quatro pacientes com a apófise estilóide alongada cujos sintomas eram compatíveis com a Síndrome de Eagle, com o objetivo de discutir a apresentação clínica e o tratamento mais adequado desta doença.

APRESENTAÇÃO DE CASOS

Caso 1

S.S.S., 38 anos, sexo feminino, com queixa de dor cervical há aproximadamente seis anos, tipo pontada, em região jugulocarótidea alta, associado à sensação de corpo estranho em orofaringe, odinofagia intensa, dor perioral, disfagia e otalgia bilateral, pior do lado direito. A paciente não referia história de trauma cervical ou amigdalectomia. No início dos sintomas diagnosticou-se disfunção de articulação temporomandibular, não tendo ocorrido melhora com o tratamento clínico. Neste exame inicial não se realizou a palpação da loja amigdaliana.

Com a progressão dos sintomas foi feita pesquisa para doença do refluxo gastroesofágico, sendo afastada esta possibilidade diagnóstica. Como a paciente persistia com os sintomas ela foi reavaliada no nosso Serviço e ao exame físico de palpação da loja amigdaliana notou-se projeção com consistência endurecida, pontiaguda,

bilateral, sendo relatado um aumento da dor. Ao exame do pescoço palpou-se uma lesão nodular, pontiaguda em região jugulocarótidea alta no nível do ângulo da mandíbula. Solicitou-se tomografia computadorizada (TC) de base de crânio e pescoço, com reconstrução em três dimensões, e observou-se apófises estilóides simétricas e proeminentes, medindo cerca de 4 cm cada (Figura 1). As demais estruturas ósseas apresentavam aspecto normal. Uma radiografia panorâmica da mandíbula confirmou o aumento da apófise estilóide e a calcificação do ligamento estilohióide (Figura 2).

A paciente foi submetida a tratamento cirúrgico por meio de cervicotomia alta, de 4 cm de extensão, a 3 cm do ângulo da mandíbula. Realizada identificação do



Figura 1. Tomografia computadorizada de base de crânio com reconstrução tridimensional, mostrando o alongamento da apófise estilóide e a ossificação do ligamento estilohióide, maior do lado direito, chegando próximo ao osso hióide.

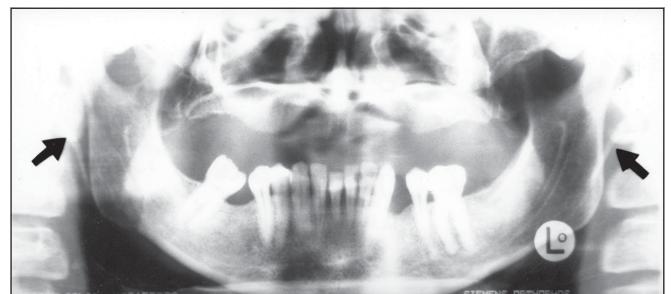


Figura 2. Radiografia panorâmica de mandíbula. As setas indicam as apófises estilóides alongadas

músculo esternocleidomastoideo, ventre posterior do músculo digástrico, artéria carótida interna e externa, processo estilóide e músculos estilohióide, estiloglosso e estilofaríngeo. Em seguida realizou-se o descolamento subperiosteal e retirou-se fragmento de aproximadamente 3 cm da apófise estilóide, de ambos os lados.

Com três meses de seguimento pós-operatório a paciente relatou remissão completa dos sintomas.

Caso 2

L.P.S., 65 anos, sexo feminino, avaliada pelo Serviço de Neurocirurgia do HSPE – FMO, com queixa de dor em hemiface à direita, em uso de carbamazepina, sem melhora com o tratamento clínico. Após quatro anos da primeira avaliação a paciente iniciou com dor intensa em borda lateral direita e base da língua. Realizou-se o bloqueio do nervo glossofaríngeo à direita com 4 ml de lidocaína a 2%, via intraoral, com remissão completa da dor. Após esta prova terapêutica diagnosticou-se Síndrome de Eagle e a paciente foi encaminhada ao Setor de Cirurgia de Cabeça e Pescoço do HSPE-FMO, onde relatou que há aproximadamente sete anos iniciou com dor cervical em região jugulocarotídea alta, com irradiação para borda lateral direita da língua e região occipital. Relatou também dor na mesma região do lado esquerdo, de menor intensidade. A paciente não referia história de trauma cervical ou amigdalectomia. No exame físico, a palpação da loja amigdaliana notou-se projeção com consistência endurecida, pontiaguda, bilateral, relatando o aumento da dor. Ao exame do pescoço palpou-se lesão nodular, pontiaguda em região jugulocarotídea alta no nível do ângulo da mandíbula, maior do lado direito. Solicitou-se TC de base de crânio e pescoço, e observaram apófises

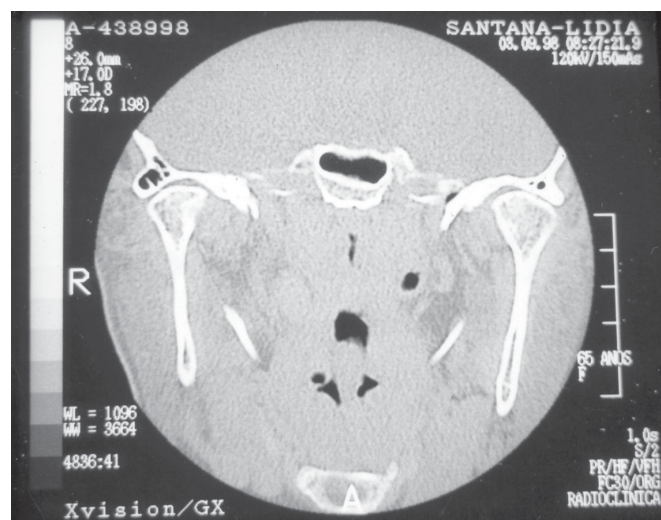


Figura 3. Tomografia computadorizada de base de crânio, mostrando as apófises estilóides alongadas e atingindo o espaço látero-faríngeo.

estilóides simétricas e proeminentes (Figura 3), atingindo o nível de C3, na altura do espaço látero-faríngeo (amígdalas). O Rx de crânio ântero-posterior confirmou o aumento da apófise estilóide e a calcificação do ligamento estilohióide, principalmente do lado direito (Figura 4).

A paciente foi submetida a tratamento cirúrgico por meio de cervicotomia alta, e retirado um fragmento de aproximadamente 3,5 cm da apófise estilóide, de ambos os lados.

Com oito meses de seguimento pós-operatório a paciente relatou remissão parcial dos sintomas, mantendo discreta dor cervical do lado direito.

Caso 3

C.C.N., 58 anos, sexo feminino, com queixa de dor cervical alta há aproximadamente um ano, com irradiação para orelha esquerda, associada à sensação de corpo estranho em faringe e disfagia leve. A paciente não referia história de trauma cervical ou amigdalectomia. No exame físico observou-se hiperemia e espessamento do pilar anterior da amígdala do lado esquerdo e a palpação da loja amigdaliana notou-se projeção com consistência endurecida e pontiaguda. Solicitou-se Rx de mastóide e crânio, que evidenciaram apófise estilóide mais longa do lado esquerdo, e possivelmente alargada no segmento proximal, em relação à apófise estilóide contralateral (Figura 5).

A paciente foi submetida a tratamento cirúrgico por meio de cervicotomia alta, e retirado um fragmento de aproximadamente 4 cm da apófise estilóide do lado esquerdo.

Com cinco meses de seguimento pós-operatório a paciente relatou remissão completa dos sintomas.

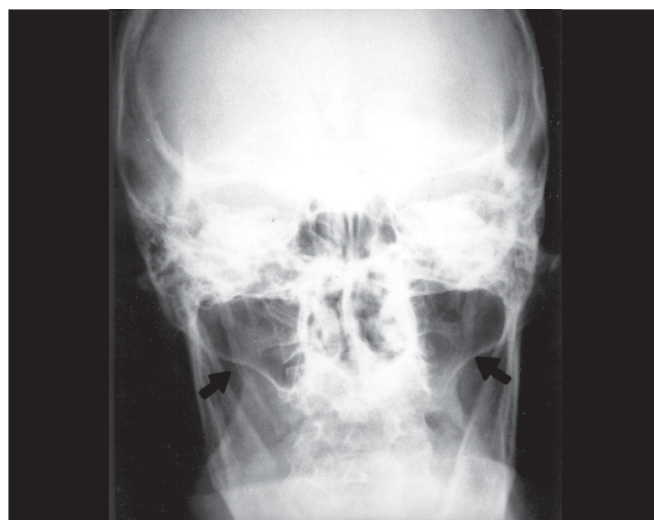


Figura 4. Radiografia simples de crânio antero-posterior – As setas indicam as apófises estilóides alongadas, maior a direita

Caso 4

A.L., 68 anos, sexo masculino, com queixa de sensação de corpo estranho em base de língua há aproximadamente seis anos, associada à dor cervical alta do lado esquerdo, com irradiação para orelha esquerda. O paciente não referia história de trauma cervical ou amigdalectomia. Ao exame físico palpou-se, na loja amigdaliana do lado esquerdo, uma projeção com consistência endurecida e pontiaguda. Solicitou-se planigrafia cervical, que evidenciou a apófise estilóide longa do lado esquerdo.

O paciente foi submetido a tratamento cirúrgico por meio de cervicotomia alta, e retirado um fragmento de aproximadamente 3 cm da apófise estilóide do lado esquerdo.

Com treze meses de seguimento pós-operatório o paciente relatou remissão completa dos sintomas.

RESULTADOS

Foi realizado estudo clínico retrospectivo de quatro pacientes, operados no Hospital do Servidor Público Estadual de São Paulo – FMO e Hospital do Servidor Público Municipal de São Paulo, no período de junho de 1998 a junho de 2001. Dos quatro pacientes, três eram do

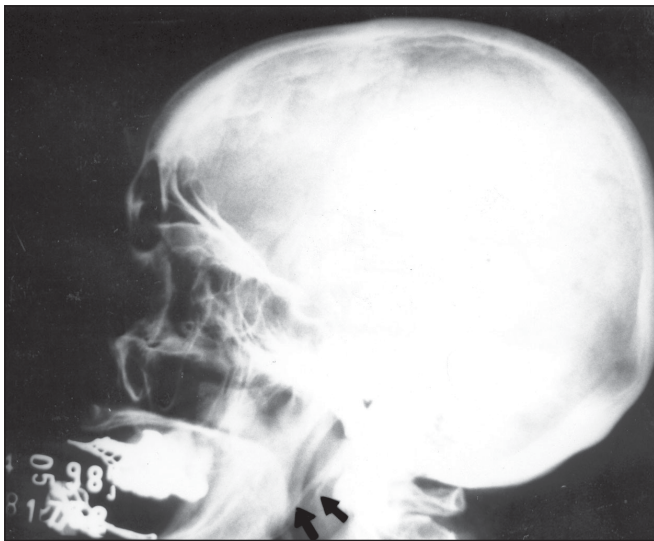


Figura 5. Radiografia simples de perfil de crânio – As setas indicam as apófises estilóides alongadas.

Tabela 1. Resumo dos quatro pacientes relatados

Paciente	Idade	Sexo	Localização	Evolução
SSS	38	F	Bilateral	Remissão completa
LPS	65	F	Bilateral	Remissão parcial
CCN	58	M	Lado esquerdo	Remissão completa
AL	68	F	Lado esquerdo	Remissão completa

sexo feminino e um do sexo masculino, com idade variando de 38 a 68 anos e com média etária de 57,25 anos. A apófise estilóide alongada foi encontrada e operada bilateralmente em 50% dos casos. A via de abordagem escolhida foi a via externa e observou-se remissão completa dos sintomas em três pacientes, com melhora parcial no outro paciente.

DISCUSSÃO

A apófise estilóide é uma projeção óssea alongada, cilíndrica e pontiaguda que se origina ântero-medialmente ao processo mastóideo. O seu comprimento varia de 2 a 3 cm, servindo como ponto de origem (inserção) para os músculos estilohióide, estiloglossos e estilofaríngeo. O nervo facial emerge posteriormente, a partir do forame estilomastóideo, e passa lateralmente através da glândula parótida. Medialmente à apófise estilóide encontramos a veia jugular interna, os nervos cranianos glossofaríngeo, vago, acessório e a artéria carótida interna. Medialmente à ponta da apófise temos o músculo constritor superior da faringe e a fáscia faríngeo-basilar, adjacente à fossa amigdaliana. Lateralmente encontramos a artéria carótida externa. O ligamento estilo-hióide se estende da apófise estilóide ao corno menor do osso hióide. Essas estruturas são derivadas do mesênquima do segundo arco branquial ou cartilagem de Reichert (Balbuena et al, 1997)³.

A ossificação do ligamento estilohióide ou o crescimento da apófise estilóide do osso temporal não é raro, podendo estar presente em cerca de 4% da população geral (Gossman et al, 1977)⁴ e de acordo com outros autores esta incidência pode chegar a 28% (Gorlin et al, 1990)⁵. Aproximadamente 50% dos casos apresentam uma tendência a ocorrerem de ambos os lados e a presença de sintomas está associada à proximidade da apófise estilóide com as artérias carótida interna e externa, nervo trigêmeo, nervo facial, nervo glossofaríngeo, nervo vago, músculos faríngeos e mucosa faríngea (Balbuena et al, 1997; Guo et al, 1997)^{3,6}.

A Síndrome de Eagle foi descrita em 1937, sendo dividida clinicamente em duas categorias: a Síndrome de Eagle Clássica e a Síndrome artéria carótida-apófise estilóide. A Síndrome de Eagle clássica foi descrita como a presença de dor contínua na faringe, com piora durante a deglutição, associada à otalgia reflexa ipsilateral à apófise estilóide alongada, aumento da salivação e sensação de corpo estranho na faringe. A dor foi atribuída ao processo de cicatrização presente após amigdalectomia ou trauma cervical e pode ocorrer em qualquer idade (Eagle, 1937)¹.

A Síndrome da artéria carótida-apófise estilóide não está associada a amigdalectomia, e provavelmente ocorre devido à compressão da artéria carótida interna e externa, resultando na estimulação da cadeia simpática presente na parede destes vasos. O sintoma resultante é a carotidínia, ou seja, dor nas regiões de distribuição das artérias carótidas: cefaléia temporal ou frontal, otalgia, tontura, zumbido (Eagle,

1937; Eagle, 1948; Balbuena et al, 1997)^{1,2,3}. Os sintomas mais comuns na Síndrome da artéria carótida-apófise estilóide são disfagia (80%), sensação de corpo estranho em faringe (50%), otalgia (45%), dor nas regiões de distribuição das artérias carótidas (20%), dor na região da articulação têmporo-mandibular (10%), neuralgia do glossofaringeo (10%) e dor facial (10%) (Guo et al, 1997)⁶. A Síndrome da artéria carótida-apófise estilóide ocorre em pacientes com idade média de 40 anos, decorrente do processo de ossificação anormal do ligamento estilo-hióide (Chouvel et al, 1996)⁷. O diagnóstico definitivo é feito por meio da palpação da apófise estilóide na loja amigdaliana (Eagle, 1948; Gossman et al, 1977)^{2,4}.

O diagnóstico clínico é baseado na história de dor cérvico-faríngea, associado à palpação do processo estilóide através da loja amigdaliana ou cervical alta. A apófise estilóide em pessoas normais não é palpável. Uma resistência firme e pontiaguda na loja amigdaliana sugere o alongamento da apófise estilóide, e esta manobra desencadeia crise de dor semelhante à referida pelo paciente. O diagnóstico pode ser confirmado através da infiltração de lidocaína na loja amigdaliana, que é seguida de remissão completa da dor (Bafaqeeh, 2000)⁸.

A suspeita diagnóstica da apófise estilóide alongada em um paciente sintomático pode ser confirmada a partir de estudo radiológico, que inclui a planigrafia cervical, radiografia de crânio (incidência lateral e antero-posterior), panorâmica de mandíbula e tomografia computadorizada de base de crânio e pescoço. A TC com reconstrução em três dimensões permite medir o comprimento da apófise estilóide e avaliar a ossificação do ligamento estilo-hióide (Bafaqeeh, 2000)⁸.

Existe controvérsia na literatura sobre a real existência desta síndrome já que muitos pacientes que possuem um alongamento da apófise estilóide não possuem sintomatologia clínica, sendo questionado a relação causa e efeito do achado radiológico. Keur et al (1986)⁹ observaram que 33% das mulheres e 29% dos homens apresentaram alterações radiológicas compatíveis com alongamento do complexo estilo-hióide. Destes somente 31% apresentaram dor em região cervical e 16% apresentaram dor facial, sendo os sintomas mais freqüentes no sexo feminino. No entanto, neste estudo, o autor não mencionou o resultado do tratamento clínico ou cirúrgico.

Existem alguns mecanismos que podem explicar a causa da dor na Síndrome de Eagle, sendo as principais:

- Secundário à irritação mecânica da mucosa faríngea;
- Estiramento das terminações nervosas do V, VII, IX e X nervos cranianos, produzido pela fibrose pós-amigdalectomia;
- Fratura do ligamento estilo-hióide ossificado, decorrente de trauma cervical ou movimentação brusca do pescoço, com conseqüente proliferação de tecido de granulação e que pode originar pressão das estruturas que estão em torno do complexo estilo-hióide.

- Pressão sobre a artéria carótida, com estimulação da cadeia simpática que envolve a bainha carotídea;
- Alterações degenerativas no tendão de inserção do músculo estilohióideo ou tendinite de inserção.

O diagnóstico diferencial da Síndrome de Eagle deve incluir todas as possíveis causas de dor na região da cabeça e pescoço, principalmente a neuralgia do trigêmeo e do glossofaringeo. Outras causas incluem: disfunção da articulação têmporo-mandibular, tumores de base de língua e hipofaringe, alterações degenerativas da coluna cervical, amigdalite crônica, faringite crônica e submandibulite crônica (Chouvel et al, 1996)⁷. A neuralgia do glossofaringeo geralmente se manifesta como dor em pontada aguda, recorrente, de curta duração e geralmente desencadeada por estímulos frios ou quentes, e algumas vezes por movimentação da base da língua (Bafaqeeh, 2000)⁸. A principal causa de neuralgia secundária do glossofaringeo é a Síndrome de Eagle, sendo a ressecção da apófise estilóide o principal tratamento (Soh, 1999)¹⁰.

Na literatura podemos observar duas formas de tratar a Síndrome de Eagle quando os sintomas se tornam debilitantes. Alguns autores preconizam o tratamento clínico com infiltração de corticóide ou anestésico (Kunachak, 1995)¹¹. No entanto, o tratamento mais efetivo e satisfatório é a ressecção cirúrgica da apófise estilóide, seja por via externa ou intra-oral (Bafaqeeh, 2000)⁸.

A via intra-oral apesar de ser mais rápida e não deixar cicatriz externa visível (Soh, 1999; Bafaqeeh, 2000)^{8,10} não possibilita uma visualização adequada das estruturas adjacentes à apófise estilóide e apresenta um risco maior de contaminação dos espaços cervicais. Além disto impede uma ressecção mais ampla da apófise estilóide (Chouvel et al, 1996)⁷.

As vantagens da via externa incluem: melhor exposição e preservação das estruturas vasculares e nervosas e ressecção mais ampla da apófise estilóide (Chouvel et al, 1996)⁷. A cicatriz resultante desta via de abordagem é cervical alta, pequena e esteticamente aceitável.

CONCLUSÕES FINAIS

Esta doença deve ser considerada quando o paciente apresentar sintomas como disfagia, odinofagia, dor facial, otalgia, cefaléia, zumbido e trismo. Os pacientes que apresentam dor em região cérvico-faríngea devem ser submetidos a avaliação clínica, incluindo a palpação da loja amigdaliana, e estudo radiológico para pesquisa de ossificação anormal do complexo ósteo-ligamentar estilohióideo.

O tratamento cirúrgico para pacientes que apresentam a apófise estilóide alongada com sintomas compatíveis com a Síndrome de Eagle é a melhor forma de conduzir estes casos, sendo a via de abordagem externa a que oferece mais segurança e que possibilita uma ressecção mais completa.

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Eagle WW. Elongated styloid process. Report of two cases. Arch Otolaryngol 1937;25:584-7.
2. Eagle WW. Elongated styloid process Further observations and a new syndrome. Arch Otolaryngol 1948;47:630-40.
3. Balbuena L, Hayes D, Ramirez SG, Johnson R. Eagle's Syndrome: elongated styloid process. South Med J 1997;91:331-4.
4. Gossman JR, Fla H, Tarsitano JJ. The styloid-stylohyoid syndrome. J Oral Surg 1977;35:555-60.
5. Gorlin RJ, Cohen MM, Levin LS. Syndromes affecting the central nervous system. In Gorlin RJ et al Syndromes of Head and Neck. 3rd edition. New York: Oxford University Press; 1990. p. 608-10.
6. Guo B, Jaovisidha S, Sartoris DJ, Ryu KN, Berthiaume MJ, Clopton P, Brossman J, Resnick D. Correlation between ossification of the stylohyoid ligament and osteophytes of the cervical spine. J Rheumatol 1997;24:1575-81.
7. Chouvel P, Rombaux P, Philips, Hamoir M. Stylohyoid chain ossification: choice of the surgical approach. Acta Otolaryngol. Belg 1996;50:5761.
8. Bafaqeeh SA. Eagle syndrome: classic and carotid types. J Otolaryngol 2000;29:88-94.
9. Keur JJ, Campbell JPS, McCarthy JF. The clinical significance of the elongated styloid process. Oral Surg. Oral Méd Oral Pathol 1986;61:399-404.
10. Soh KB. The glossopharyngeal nerve glossopharyngeal neuralgia and the Eagle's syndrome: currents concepts and management. Singapore Med. J 1999;40:659-65.
11. Kunachak S. Anterior cervical pain syndroms:hyoid thyroid and cricoid cartilages syndroms and their tratment with triamcinolone acetonide. The J Otol Laryngol 1995;109:49-52.