

SINDROMUL EAGLE. PREZENTARE DE CAZ CLINIC

Alexei Gulpe,
asistent universitar;
Maxim Gorea,
asistent universitar;
Mihail Radzichevici,
conferențiar universitar.

*Catedra de chirurgie oro-maxilo-facială și
implantologie orală „Arsenie Guțan”*

Rezumat

Sindromul Eagle reprezintă totalitatea simptomelor cauzate de alungirea apofizei stiloide. Aceasta poate provoca iritarea structurilor neuro-vasculare din vecinătatea sa, ca exemplu nervul glosofaringian ce poate provoca dereglări în deglutiție, disfagie, glob faringian, dureri cervico-faciale și cefalee. Este un diagnostic de excludere și necesită un grad înalt de suspiciune clinică fiind o condiție rară fără raportări de incidență printre populația R. Moldova. În acest articol este prezentat un caz de alungire bilaterală ale apofizelor stiloide ce cauza dureri cervico-faciale persistente la pacient fără ameliorare în urma administrării de analgezice. Pacientului i s-a efectuat stiloidectomie unilaterală prin abord cervical, rezultând în dispariția simptomelor.

Cuvinte cheie: *sindromul Eagle, alungirea apofizei stiloide, megastyloid.*

Introducere

Apofiza stiloidă al osului temporal este localizat postero-lateral de fosa jugulară la fața inferioară a stâncii temporalului. Este format din cel de-al 2-lea arc visceral (arc hioid sau sublingual). Atașează trei mușchi și două ligamente, care compun buchetul stilian al lui Riolan (m.stiloglos, m.stilofaringian, m.stilohioidian, lig.stilohioidian, lig.stilomandibular). Ligamentul stilomandibular însă nu este decât o condensare a fasciei stiliene. Lungimea apofizei variază [5, 13].

Eagle W.W. a raportat despre lungimea apofizei stiloide care variază între 25 și 30 mm (Fig. 1). O valoare mai mare a lungimii maxime menționate este considerată factor patogenetic pentru sindromul Eagle. Alungirea apofizei stiloide pentru prima dată a fost descrisă de către chirurgul italian Pietro Marchetti în anul 1652. În 1937 Eagle W.W. a introdus termenul „stilalgie” pentru a descrie durerea asociată cu alungirea procesului stiloid [6, 11].

EAGLE'S SYNDROME. A CLINICAL CASE

Alexei Gulpe,
assistant professor;
Maxim Gorea,
assistant professor;
Mihail Radzichevici,
associate professor.

*Department of oral-maxillofacial surgery and oral
implantology „Arsenie Guțan”*

Summary

Eagle syndrome represents the set of symptoms caused by the elongation of styloid process. This can trigger the irritation of neuro-vascular structures near its vicinity, for example the glossopharyngeal nerve that can lead to deglutition disorders, dysphagia, globus sensation, neck and facial pain, headache. It is a diagnosis of exclusion and needs a high level of clinical suspicion being a rare condition without reports of incidence in the population of Moldova. In this article we present a case of bilateral elongation of styloid processes that caused persistent neck and facial pain in a patient that does not respond to analgetic drugs. The patient underwent unilateral styloidectomy by cervical approach, which resulted for the symptoms to disappear.

Key words: *Eagle's syndrome, styloid process elongation, megastyloid.*

Introduction

The styloid process of the temporal bone is located postero-lateral to the jugular fossa at the inferior surface of the squamous part. It is formed from the second visceral arch (hyoid or sublingual arch). Attaches three muscles and two ligaments, compose the so-called Riolan's bouquet (styloglossus m., stylopharyngeus m., stylohyoid m., stylohyoid l., stylo-mandibular l.). Stylo-mandibular ligament represents a condensation of the stylopharyngeus fascia. The length of the process varies [5, 13].

Eagle W.W. reported about the length of the styloid process which varies between 25 and 30 mm (Fig. 1). A higher value of the mentioned maximal length should be considered a pathogenic factor for Eagle syndrome. The elongation of the styloid process was described for the first time by an Italian surgeon Pietro Marchetti in 1652. In 1937 Eagle W.W. introduced the term „stylalgia” to describe the pain associated with the elongation of the styloid process [6, 11].

Termenul de mega-stiloid denotă o hipertrofie avansată și este rar întâlnit. Apofiza stiloidă mult alungită este, de obicei, unilaterală și mai frecventă la bărbați. Simptomatologia este dominată de stilalgie – sindrom dureros faringian, iradiant spre ureche și senzația de arsură în limbă. Examenul clinic va include palparea bimanuală, cu



Fig. 1. Procesul stiloid

Fig. 1. Styloid process

un index înapoia gonionului și cu celălalt se palpează peretele hipofaringian lateral, înapoia pilierului anterior, se evidențiază o masa liniară, puțin elastic. Examenul radiologic în incidență laterală arată o osificare liniară a regiunii valedulare. Cauza alungiri nu este bine documentată. Poate fi congenitală datorită persistenței elementelor cartilajinoase precursore apofizei stiloide, sau dobândită, datorită proliferării țesutului osos la nivelul inserției ligamentului stilo-hioid [4, 9, 10].

Simptomele pacienților cu sindromul Eagle au explicații fiziopatologice variate. De exemplu, simptomele pot apărea prin fractura apofizei stiloide ducând la proliferarea țesutului de granulație, ceea ce duce la presiune pe structurile învecinate; compresia nervilor adiacenți, precum nervul glosofaringian, nervul timpanic, ramura inferioară a nervului trigemen; schimbări degenerative sau inflamatorii pot apărea în porțiunea tendinoasă a inserției ligamentului stilo-hioid, cunoscută ca tendinită inserțională. Un alt mecanism fiziopatologic este iritația mucoasei faringiene ce apare prin compresie direct sau prin cicatrizare defectuoasă posttonsilectomie, implicând nervii cranieni V, VII, IX. De asemenea, este descrisă împingerea vaselor carotide, ce duce la iritația nervilor simpatici din teaca arterială. Astfel, pacienții pot suferi de durere unilaterală în gât, baza limbii, în ureche și în articulația temporomandibulară, spontan sau în urma mișcării capului, deglutiției,

The term mega-styloid denotes an advanced hypertrophy and is rarely seen. The elongation of styloid process is usually unilateral and is found frequently in male patients. Symptomatology is dominated by stylalgia — a pharyngeal pain syndrome, with irradiation to ear and burning sensation in the tongue. Clinical examination will include bimanual palpation, with one index posterior to gonion and the another will palpate the lateral wall of the hypopharynx, behind the anterior pillar, a little elastic linear mass will be evident. The radiological examination in lateral incidence shows a linear ossification of the valdecular region. The cause of this elongation is not well documented. It may be congenital due to persistence of the cartilaginous elements of the precursors of the styloid process, or acquired, due to the proliferation of bone tissue at the level of the insertion of the stylohyoid ligament [4, 9, 10].

The symptoms of the patients with Eagle syndrome have various pathophysiological explanations. For example, symptoms can occur through the fracture of the styloid process leading to the proliferation of granular tissue, which leads to pressure on the surrounding structures; the compression of adjacent nerves, such as the glossopharyngeal nerve, the tympanic nerve, the lower branch of the trigeminal nerve; degenerative and inflammatory changes may occur in the tendinous portion of the insertion of the stylohyoid ligament, known as insertional tendinitis. Another pathophysiological mechanism is the irritation of the pharyngeal mucosa, which occurs through direct compression or faulty scarring post-tonsillectomy, involving cranial nerves V, VII, IX. It also describes the pushing of the carotid vessels, which produces the irritation of the sympathetic nerves in the arterial sheath. Thus, patients may suffer unilat-

Thus, patients may suffer unilat-

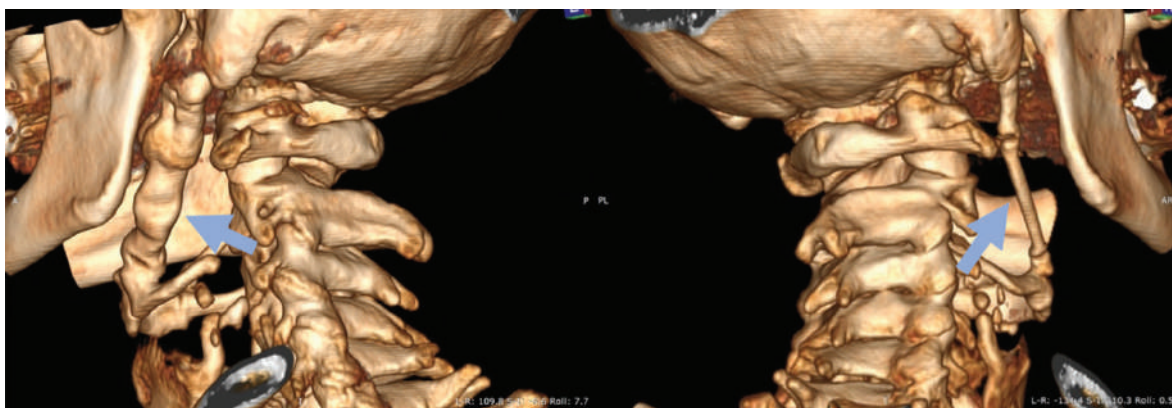


Fig. 2. Imagine CT 3D ale apofizelor stiloide, stângă și dreaptă

Fig. 2. 3D-CT of both styloid processes, left and right

masticăției; odinofagie, tinitus, glob faringian; iar când marele vase ale gâtului sunt implicate, pacienții pot suferi atacuri cerebrale, rupturi vasculare etc [1, 7, 8, 9, 10, 14].

Sindromul Eagle poate fi diagnosticat radiologic și prin examen fizic. Apofiza stiloidă alungită poate fi palpată în fosa amigdaliană, palparea la acest nivel putând duce la exacerbarea simptomatologiei. Această alungire poate fi confirmată radiologic folosind radiografia convențională sau tomografia computerizată. TC tridimensional ajută în planificare și permite chirurgului să explice mai bine pacientului leziunea și detaliile chirurgicale. De asemenea, ajută la obținerea de măsurători tridimensionale la toate nivelurile apofizei stiloide, în timp ce în TC clasică apare o subestimare a lungimii apofizei stiloide, unde, chiar și în plan coronal, secțiunile nu sunt de obicei paralele cu apofiza [2, 9].

Sindromul Eagle poate fi tratat prin metode chirurgicale și non-chirurgicale. Tratamentul non-chirurgical implică folosirea analgezicelor și injectărilor de steroizi pentru a oferi pacientului un minim de confort. Tratamentul chirurgical este unul care în general scutește pacientul de alte vizite la medic, și pot fi folosite una din următoarele două abordări: transfarinagiană și constă în rezecția parțială distală a apofizei alungite, după o amigdalectomie, sau cervicală. Abordul cervical este considerat a fi superioară datorită faptului că este mai puțin probabil să apară o infecție profundă a gâtului [2, 3, 12].

Prezentare de caz clinic. Rezultate și discuții

Pacient în vârstă de 65 de ani, fost fumător, fără antecedente personale patologice, se adresează la IMSP Institutul de Medicină Urgentă, acuzând durere în urechea stângă, disfagie, senzație de corp străin faringian, simptomatologie debutată în urmă cu aproximativ 1 an și agravată în ultimele 2 săptămâni când a urmat tratament medical bazat pe antiinflamatoare și analgezice dar fără efect asupra simptomatologiei. La examenul fizic s-a decelat o zonă indurată situată laterocervical stânga, începând posterior de mușchiul sternocleidomastoidian

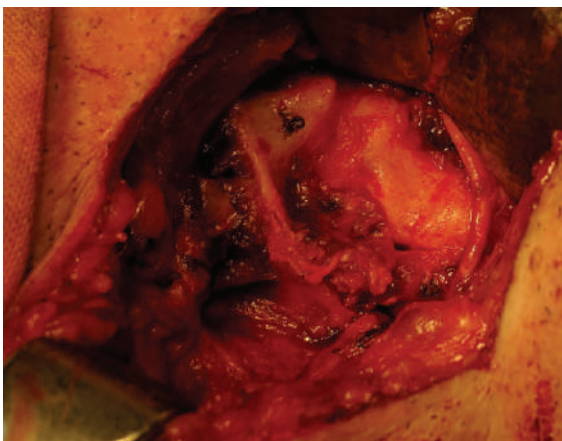


Fig. 3. Abordul laterocervical stânga
Fig. 3. Left latero-cervical approach

eral pain in the neck, the base of the tongue, the ear and the temporomandibular joint, spontaneously or caused by head movement, swallowing, chewing; odynophagia, tinnitus, pharyngeal globus, and when large neck vessels are involved, patients may suffer strokes, vascular ruptures, etc. [1, 7, 8, 9, 10, 14].

Eagle's syndrome can be diagnosed radiologically and by physical examination. The elongated styloid process can be palpated in the tonsillar fossa, and palpation at this level can lead to an increase in the intensity of the symptomatology. This elongation can be radiologically confirmed using conventional radiographs or computed tomography. Three-dimensional CT helps with planning and allows the surgeon to better explain to the patient the lesion and the surgical details. It also helps to obtain three-dimensional measurements at all levels of the styloid process, while in the classical CT, there is an underestimation of the length of the styloid process, where even in the coronal plane, the sections are not usually parallel to the styloid process [2, 9].

Eagle's syndrome can be treated by surgical and non-surgical means. Non-surgical treatment involves the use of analgesics and injections of steroids to give the patient a minimum of comfort. Surgical treatment is one that generally relieves the patient from other visits to the doctor, and may be performed using one of the following two approaches: transpharyngeal, that consists of a distally partial resection of the elongated process, after tonsillectomy, or extraoral. The latter is considered to be superior because it is less likely to cause a deep neck infection [2, 3, 12].

Clinical case. Results and discussions

A 65-year-old male patient, former smoker, without personal medical history was presented at the Public Healthcare Institution, Institute for Emergency Medicine accusing left ear pain, dysphagia and pharyngeal foreign body sensation, symptoms started for about 1 year ago and aggravated the last 2 weeks when was following medical treatment based on anti-inflammatory and analgesics but without any effects on the symptoms. At the physical examination, a dull



Fig. 4. Dezinserarea de la osul temporal
Fig. 4. Disinsertion from temporal bone

și terminându-se lateral în dreptul cartilajului tiroid. Tomografia computerizată 3D a arătat că ambele apofize stiloide erau alungite, cea stângă măsurând aproximativ 82 mm în lungime; apofiza stiloidă de partea dreaptă măsoară 70 mm în lungime și prezentând o pseudoarticulație la 35 mm de bază (Fig. 2). Pacientul a fost operat folosind abordul laterocervical pe stânga (Fig. 3) unde s-a pus în evidență apofiza stiloidă stângă alungită și hipertrofiată în vecinătatea nemijlocită al osului hioid, grosimea aproximativ 20 mm. Pe lungimea sa se scheletează până la contactul său cu osul temporal, nervul hipoglos atent deplasat posterior și superior. Cu ajutorul daltei și ciocănașului s-a dezinsurat de la osul hioid (Fig. 4), prin rotație ușoară la aproximativ 80 de grade se dezinsură de la osul temporal (Fig. 5). Simptomatologia pacientului a început să se amelioreze imediat postoperator și a dispărut complet la 30 de zile postoperator.



Fig. 5. Megastiloidul înlăturat

Fig. 5. The removed megastyloid

and the styloid process on the right side measuring 70 mm in length and having a pseudo-articulation at 35 mm from the base (Fig. 2). The patient underwent surgery using the left latero-cervical approach (Fig. 3) where the elongated and hypertrophic styloid process is reached in the vicinity of the hyoid bone, the width measured about 20 mm. It is then prepared in its full length until the contact with temporal bone is reached, hypoglossal nerve is gently moved posteriorly and superiorly. With a chisel and mallet, it was disinserted from the hyoid bone (Fig. 4), through a slight rotation at 80 degrees approximately, it is then disinserted from the temporal bone (Fig. 5). The symptoms improved immediately after surgery and completely disappeared 30 days postoperatively.

Concluzii

Problema durerii și a numeroaselor sale etiologii, combinată cu observația că mulți pacienți au alungirea unui ligament stilohioidian osificat fără a fi prezentă și simptomele cauzate de aceasta ridică o serie de întrebări asupra relației cauză-efect între descoperirea radiologică a sindromului Eagle în cadrul complexului de simptome. Deși mulți pacienți nu descriu complexul detaliat de simptome ale lui Eagle, sindromul merită luat în considerare în cazul pacienților cu durere la masticăție, deglutiție, durere faringiană de cauză necunoscută.

Conclusions

The problem of pain and its numerous etiologies, plus the observation in many patients with the elongation of an ossified stylohyoid ligament without being present, and the symptoms of this, caused some questions as to the cause-effect relationship of radiographic discovery of Eagle's syndrome of the complex of symptoms. Although many patients do not describe the complex of Eagle's detailed symptoms, the syndrome deserves consideration when dealing with patients with pain during mastication, deglutition, pharyngeal pain with unknown cause.

Bibliografie/Bibliography:

1. Ababii Ion, Maniuc Mihail, Sandul Alexandru [et al.], Otorinolaringologie: Manual, (Tipogr. „Print Caro”), Univ. de Stat de Medicină și Farmacie „Nicolae Testemițanu”, Chișinău, 2019, 430 p.
2. Ahmet S., Lokman U., “Three dimensional CT of Eagle's syndrome”, Diagnostic and Interventional Radiology, Nr.11(4)/2005, pp. 206-209
3. Balica N.C., Poenaru M., Doros C.I., Baderca F., Preda M., Iovan V.C., Stanca H.T., “The management of the oropharyngeal anterior wall cancer”, Romanian Journal of Morphology & Embryology, Nr.59(1)/2018, pp. 113-119
4. Birke W.P., Majewski V.J. “Das Megastyloid” Deutsche Stomatologie, Nr.19/1969, pp. 612-621
5. Catereniuc I., Lupașcu T., Ștefăneț M. [et. al], Aparatul de susținere și mișcare: Culegere de cursuri, (Tipogr.-Sirius SRL), Univ. de Stat de Medicină și Farmacie „Nicolae Testemițanu”, Catedra Anatomia Omului. – Chișinău: 2011, 264 pag.
6. Eagle W.W., “The symptoms, diagnosis and treatment of the elongated styloid process.” Am Surg. 1962; Nr.28/1962, pp. 1-5
7. Godden D.R., Adam S., Woodward R.T., “Eagle's syndrome: An unusual cause of a clicking jaw”, British Dental Journal, Nr.186(10)/1999, pp. 489-490
8. Karam C., Koussa S., “Eagle syndrome: the role of CT scan with 3D reconstructions”, Journal of Neuroradiology, Nr.34(5)/2007, pp. 344-345
9. Olusesi A.D. “Traumatic eagle syndrome: Does neck trauma result in complete ossification in partially ossified stylohyoid ligament” International Journal of Otorhinolaryngology, Nr.4(2)/2006, pp. 1-3
10. Orhan K.S., Güldiken Y., Ural H.I., Cakmak A. “Elongated styloid process (Eagle's syndrome): literature review and a case report”, The journal of the turkish society of algology, Nr.17(2)/2005, pp. 23-25
11. Roopashri G., Vaishali M.R., David M.P., Baig M., Shankar U. “Evaluation of elongated styloid process on digital panoramic radiographs” Journal of Contemporary Dental Practice, Nr.13(5)/2012, pp. 618-622
12. Ryan M.D., Jamie C.T., Gaspar F., “CT findings associated with Eagle's syndrome”, American Journal of Neuroradiology, Nr.22(7)/2001, pp. 1401-1402
13. Ștefăneț Mihail, Anatomia omului: (pentru uzul studenților) Vol.1, Centrul Editorial-Poligrafic Medicina, Univ. de Stat de Medicină și Farmacie “Nicolae Testemițanu”, Chișinău: 2007, 372 p.
14. Waldman S.D., Atlas of Uncommon Pain Syndromes, Elsevier Health Sciences, Philadelphia, 2014, 371 p.