

### Revista Portuguesa de Estomatologia, Medicina Dentária e Cirurgia Maxilofacial

REV PORT ESTOMATOL MED DENT CIR MAXILOFAC. 2019;60(4):216-222

#### Caso Clínico

# Tratamento cirúrgico por abordagem extraoral da síndrome do complexo estiloide – dois casos clínicos



Ana Millán <sup>a,\*</sup>, Cátia Mateus <sup>a</sup>, Pedro Gomes de Oliveira <sup>a</sup>, José Maria Barros <sup>b</sup>, David Pratas Vital <sup>a</sup>, Paulo Valejo Coelho <sup>a,c</sup>

- a Serviço de Cirurgia Maxilofacial, Centro Hospitalar Lisboa Central E.P.E., Lisboa, Portugal
- <sup>b</sup> Serviço de Radiologia, Centro Hospitalar Lisboa Central E.P.E., Lisboa, Portugal
- <sup>c</sup> NOVA Medical School Faculdade de Ciências Médicas, Lisboa, Portugal

#### INFORMAÇÃO SOBRE O ARTIGO

#### Historial do artigo:

Recebido a 22 de outubro de 2017 Aceite a 10 de outubro de 2019 On-line a 22 de outubro de 2019

#### Palavras-chave:

Artéria carótida interna
Dor facial
Dor orofacial
Síncope
Síndrome de Eagle
Síndrome do processo estiloide
alongado

#### RESUMO

A síndrome do complexo estilo-hióideo (SCE), por vezes chamada como síndrome de Eagle inclui a dor orofacial resultante de um processo estiloide alongado, da mineralização do ligamento estiloide ou do prolongamento do corno menor do osso hioide. As condições acima descritas originam limitação da distensibilidade do complexo estilo-hióideo causando irritação das estruturas circundantes com os movimentos cervicofaciais. O tratamento desta síndrome é primeiramente médico e, em caso de falência do mesmo deve avançar-se para uma abordagem cirúrgica. O objetivo do tratamento cirúrgico é a realização de estiloidectomia. As abordagens cirúrgicas incluem via intra e extraorais, e o risco de morbilidade associada advém da complexidade anatómica das estruturas contíguas. Neste artigo apresentamos dois casos clínicos em que após falência do tratamento médico as doentes foram submetidas ao tratamento cirúrgico por via extraoral, uma por abordagem de cervicotomia lateral e outra por pré-auricular modificada. (Rev Port Estomatol Med Dent Cir Maxilofac. 2019;60(4):216-222)

© 2019 Sociedade Portuguesa de Estomatologia e Medicina Dentária.

Publicado por SPEMD. Este é um artigo Open Access sob uma licença CC BY-NC-ND

(http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/).

Correio eletrónico: anaromillan@gmail.com (Ana Rato Ordiales Millán).

<sup>\*</sup> Autor correspondente.

## Extraoral surgical approaches for stylohyoid complex syndrome treatment – two case reports

#### ABSTRACT

#### Keywords:

Internal carotid artery
Facial pain
Orofacial pain
Syncope
Eagle's syndrome
Elongated styloid process syndrome

The stylohyoid complex syndrome, also called Eagle syndrome, is a cause of orofacial pain due to an elongation of the styloid process, mineralization of the stylohyoid ligament or elongation of the lesser cornu of the hyoid bone. These pathologic conditions result in reduced mobility of the stylohyoid complex, causing irritation of the surrounding cervical structures upon cervical movements. The primary treatment of this syndrome is medical. If this approach does not provide a satisfactory outcome, the surgeon should proceed to surgical treatment by total or partial styloidectomy. The surgical approach can be intra or extraoral, and morbidity is mainly related to the complex structures near the styloid process. In this paper, we present two cases of stylohyoid complex syndrome treated by styloidectomy. We used a lateral cervicotomy approach on one patient and a modified preauricular approach on the other. (Rev Port Estomatol Med Dent Cir Maxilofac. 2019;60(4):216-222)

© 2019 Sociedade Portuguesa de Estomatologia e Medicina Dentária. Published by SPEMD. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/).

#### Introdução

A Síndrome do Complexo Estiloide (SCE), por vezes nomeada como Síndrome de Eagle, inclui sintomatologia recidivante, entre as quais odinofagia, globo faríngeo, disfagia, lipotimia e dor cervical.¹ A etiologia ainda não está completamente esclarecida, mas possivelmente terá origem num processo estiloide (PE) alongado, na mineralização do ligamento estiloide ou num prolongamento do pequeno corno do osso hioide e, em casos extremos, na união óssea da apófise estiloide ao osso hioide ou, até, espessamento do ligamento tendinoso.¹-3

O complexo estiloide deriva embriologicamente da cartilagem de Reichert do segundo arco branquial e é constituído pelo PE, ligamento estilo-hióideo e pequeno corno do osso bioido.

O PE localiza-se na face inferior do osso temporal, anterior e medial à apófise mastoide e passa entre as artérias carótida interna e externa. Limitado lateralmente pela glândula parótida e pelo nervo facial, medialmente pela veia jugular interna e pelos nervos glossofaríngeo, vago e hipoglosso, tendo como limite distal habitual a parede lateral da faringe. Neste processo originam-se os músculos estilo-hióideo, estiloglosso e glossofaringeo (bouquet de Riolan) e os ligamentos estilo-hióideo e estilomandibular.<sup>4</sup>

O comprimento normal do PE varia entre 2,5 e 3 cm,<sup>5-7</sup> encontrando-se alongado em 4% da população.<sup>6</sup> No entanto, apenas 4% destes indivíduos apresentam sintomatologia, com um *ratio* 3:1 mulher/homem, entre a quarta e a sexta décadas de vida. <sup>1,5,6</sup>

Esta síndrome foi inicialmente descrita por Eagle em 1937 como "estilalgia", <sup>2</sup> identificada em dois doentes com PE alongado e dor orocervical. <sup>3</sup> Em 1948 o autor descreveu duas formas da síndrome: a descrita inicialmente, conhecida atualmente como "clássica" e a estilocarotídea ou síndro-

me da artéria carótida. <sup>3,4,6</sup> A primeira implica habitualmente um antecedente de trauma faríngeo ou amigdalectomia, apresentando globo faríngeo, disfagia, odinofagia, acufenos, otalgia, que agravam com a palpação amigdalina. Esta forma relaciona-se com a menor distensibilidade tecidual, desencadeando a irritação de estruturas adjacentes ao complexo estilo-hoideo que agravam como os movimentos de lateralidade do pescoço. <sup>3,6</sup> A síndrome da artéria carótida apresenta-se com enxaquecas, cefaleias tipo cluster ou sintomatologia neurológica transitória causada pela irritabilidade do plexo nervoso simpático periarterial. <sup>3</sup> O SPE pode estar associado a fenómenos isquémicos cerebrais transitórios, existindo relatos de defeito de preenchimento da artéria carótida interna com os movimentos cervicais, documentados por angiografia. <sup>2,8</sup>

#### Casos clínicos

#### Caso clínico 1

Mulher de 44 anos, encaminhada para a especialidade de Cirurgia Maxilofacial, pelo médico de família, por dor orocervical e otalgia à direita, desde há um ano. Na avaliação clínica a doente descrevia um agravamento do quadro álgico orocervicofacial resistente aos anti-inflamatórios não esteroides (AINEs) e analgésicos, associado a tonturas e episódios de lipotimia com os movimentos cervicais de lateralidade. Negava outra clínica acompanhante ou antecedentes de traumatismo facial ou cranioencefálico.

No início do quadro foi avaliada por Otorrinolaringologia que excluiu patologia otológica e por Estomatologia, tendo sido submetida a exodontia dos dentes 18 e 48, sem melhoria clínica.

Ao exame objetivo não apresentava qualquer assimetria orocervicofacial e à avaliação intraoral não se observaram

quaisquer alterações, exceto a intensificação álgica à palpação amigdalina direita.

A ortopantomografia demonstrou a presença de PEs muito alongados, estendendo-se inferiormente ao plano oclusal (Figura 1).

A tomografia axial computorizada (TAC) revelou a presença de PEs alongados: à esquerda com 62 mm e à direita 60 mm, apresentando calcificação quase total do ligamento (Figura 2), sendo este mais espesso.

Tendo em conta o quadro clínico e os exames complementares, foi diagnosticada Síndrome do Complexo Estiloide com as duas formas, clássica e estilocarotídea.

Dado o tratamento prévio farmacológico sem sucesso foi proposta a estiloidectomia direita por cervicotomia lateral. Apesar de ambos PEs estarem alongados, propôs-se apenas abordar o que apresentava sintomatologia acompanhante.

Sob anestesia geral, por cervicotomia lateral submandibular, desde o bordo anterior do esternocleidomastóideo (Figura 3), procedeu-se à dissecção do tecido celular subcutâneo e do músculo platisma, identificando-se o ventre posterior do músculo digástrico e o músculo estilo-hióideo. Seguindo ambos os músculos numa direção cranial identificou-se todo o PE (Figura 4) procedendo-se, mediante visualização direta, à ostecto-



Figura 1. Ortopantomografia: PEs alongados estendendo-se inferiormente ao plano oclusal.



Figura 2. TAC com reconstrução em três dimensões onde se pode observar PE esquerdo com 62 mm e o direito com 60 mm.

mia 15 mm abaixo da sua origem (Figura 5). Encerramento da ferida operatória por planos. Dreno aspirativo durante 24 horas. O pós-operatório imediato decorreu sem intercorrências, com alta ao terceiro dia. Na avaliação pós-operatória, ao primeiro mês e primeiro ano, a doente apresentava resolução completa das queixas, sem outra sintomatologia acompanhante (Figuras 6, 7 e 8).



Figura 3. Abordagem laterocervical



Figura 4. Exposição cirúrgica de todo o Processo Estiloide



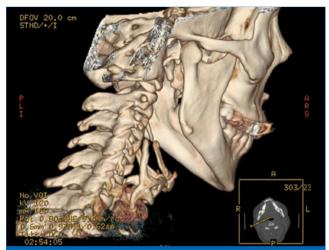


Figura 6. Imagem em TAC com reconstrução em três dimensões onde se comprova a resseção do PE direito alongado.

#### Caso clínico 2

Mulher de 55 anos, encaminhada para a especialidade de Cirurgia Maxilofacial pelo neurologista, por queixas álgicas cervicofaciais bilaterais, exacerbadas pela deglutição e rotação do pescoço para ambos os lados, resistente à terapêutica farmacológica. A clínica apresentada era limitativa das suas atividades diárias, obrigando ao uso de colar cervical, para além da impossibilidade de andar de transportes.

Ao exame objetivo, não apresentava assimetria facial, havendo apenas agravamento da dor à palpação das regiões amigdalinas palatinas, bilateralmente.

A TAC demonstrou a presença de ambos PEs alongados, com 45 mm à esquerda e 40 mm à direita (Figura 9). O Eco Doppler cervical verificou diminuição da velocidade do fluxo sanguíneo ao nível da artéria carótida interna direita com a rotação cervical direita.

Perante o quadro clínico e os exames complementares de diagnóstico, foi diagnosticada Síndrome do Complexo Estiloi-



Figura 7. Doente depois de um ano de pós-operatório com mímica facial mantida.



Figura 9. TAC com reconstrução 3D que mostra a presença de PEs alongados 45 mm à esquerda e 40 mm à direita.



Figura 8. Doente depois de um ano de pós-operatório, resultado estético cicatricial.



Figura 10. Via pré-auricular identificação do nervo facial – isolado na referência azul – para abordagem de PE.







Figura 12. Cicatriz no primeiro mês de pós-operatório.



Figura 13. Mímica facial mantida no primeiro mês de pós-operatório.

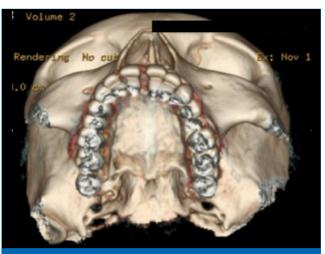


Figura 14. Imagem em TAC com reconstrução em três dimensões onde se comprova a resseção dos PEs alongados.

de bilateral, forma estilocarotídea, tendo sido proposta estiloidectomia bilateral por via externa, pré-auricular.

Sob anestesia geral, procedeu-se bilateralmente à incisão cutânea, desde o trago até à apófise mastoide, passando pelo bordo inferior do lobo do pavilhão auricular. Num plano profundo identificou-se a origem do ventre posterior do digástrico e o nervo facial na sua saída do foramen estilomastoideo, por forma a evitar lesões iatrogénicas deste último (Figura 10). Seguidamente por medial, identificou-se o PE e procedeu--se à sua ressecção após a dissecção cuidadosa dos tecidos circundantes (Figura 11). A ferida operatória foi encerrada por planos, deixando-se um dreno aspirativo na loca durante as primeiras 24 horas. O pós-operatório imediato decorreu sem intercorrências, pelo que a doente teve alta ao terceiro dia. Na avaliação pós-operatória, no final do primeiro mês, a doente apresentava resolução completa das queixas, sem qualquer outra sintomatologia acompanhante (Figuras 12, 13 e 14).

#### Dicussão e conclusões

A Síndrome do Complexo Estiloide é uma entidade diagnosticada com base na história clínica, no exame objetivo e em exames complementares de diagnóstico. O diagnóstico diferencial da dor orocervicofacial lateral deve incluir, entre outros, a nevralgia do glossofaríngeo e do trigémeo, disfunção da articulação temporomandibular, arterite temporal, doenças das glândulas salivares, amigdalite crónica, tumores da faringe e base da língua, refluxo laringofaríngeo, patologia dentária, cefaleias atípicas e mastoidite. A SCE deve ser considerada em doentes com dor persistente e recorrente laterocervical, faríngea ou submandibular que não é justificada pela presença de nenhuma das etiologias descritas anteriormente.<sup>3,9</sup> No entanto, em casos de dor bilateral com a rotação cervical, este diagnóstico deve ser considerado inicialmente. Alguns autores sugerem como manobra diagnóstica a infiltração de anestésicos locais na loca amigdalina que, em caso de

positiva, produz uma melhoria da sintomatologia. <sup>10</sup> Esta manobra, não exclui outras patologias como, por exemplo, a nevralgia do glossofaríngeo. <sup>3</sup>

O tratamento da SCE deve ser faseado, iniciando-se com uma atitude conservadora, mediante tratamento farmacológico, e no caso de persistência do quadro clínico avançar para o tratamento cirúrgico por estiloidectomia. O sucesso dos tratamentos, médico e cirúrgico, é inferior a 80%. Pensa-se que o insucesso do tratamento esteja relacionado com outros factores desconhecidos implicados na sua etiopatogénese.<sup>5</sup>

O tratamento conservador baseia-se no tratamento da dor neuropática mediante o uso de AINEs, carbamazepina, valproato, gabapentina ou amitriptilina. Uma opção eficaz na paliação sintomática aguda é a infiltração da loca amigdalina de um anestésico local ou de corticoesteroides. Esta opção pode ser eficaz na paliação sintomática aguda, no entanto a durabilidade está limitada pela semivida dos fármacos, para além de que administrações repetidas podem provocar efeitos deletérios. Há descrições de manipulação indireta digital do PE através da loca amigdalina provocando fratura do mesmo, mas esta técnica não foi provada como sendo segura ou reprodutível. 2,7

O tratamento cirúrgico consiste na estiloidectomia, por abordagem intraoral ou extraoral, não havendo consenso de qual é a mais indicada, <sup>11</sup> em particular em situações de alongamentos moderados.

A abordagem intraoral, descrita inicialmente por Eagle em 1937, com uma incisão de aproximadamente 1 cm sobre o PE que é dissecado das estruturas envolventes, procedendo-se à sua secção. Uma adaptação da técnica original, que incluía a realização de uma amigdalectomia quando a mesma não tinha sido realizada anteriormente, propõe uma incisão no pilar amigdalino anterior evitando-se a necessidade de amigdalectomia. 2

Alguns autores recomendam o uso destas técnicas com controlo endoscópico ou navegação intraoperatória, reduzindo assim a taxa de complicações.<sup>2,9,12</sup>

As vantagens da abordagem intraoral são, menor duração do procedimento, ausência de cicatrizes visíveis, menos dissecção dos tecidos adjacentes e mais rápida recuperação. 3,5,7,11,12 As desvantagens são potencialidade da infeção dos espaços cervicais profundos, campo operatório limitado, difícil visualização e escassa exposição das estruturas contíguas, havendo risco acrescido de lesão neurovascular. O risco de complicações pós-operatórias, nomeadamente trismos e edema da via aérea, 1,7,11,12 faz com que a abordagem intraoral bilateral no mesmo tempo operatório seja considerada uma contraindicação relativa. 2

A abordagem extraoral foi descrita inicialmente por Loeser e Cardwell<sup>4</sup> em 1942 como uma abordagem de cervicotomia lateral, como a realizada no caso clínico 1, mais adequada para PEs muito alongados.

Alternativas a esta abordagem, com a principal vantagem de terem um melhor resultado estético, são as abordagens de ritidectomia e a pré-auricular, <sup>4,7,13</sup> particularmente útil para PEs moderadamente alongados.

A abordagem pré-auricular, como a realizada no caso clínico 2, descrita classicamente desde a raiz do hélix até ao lobo auricular, foi adaptada para melhor visualização do campo operatório.

A vantagem principal da abordagem extraoral, em particular a submandibular para casos de apófises estiloides muito longas, <sup>14</sup> como no caso clínico 1, é a melhor visualização do campo operatório e das estruturas adjacentes, reduzindo a possibilidade de lesão de estruturas neurovasculares. <sup>1,3,5,7,9,11,12,15</sup>

As desvantagens principais das abordagens extraorais são a cicatriz cutânea, o maior tempo cirúrgico e risco de lesão do nervo facial,<sup>5</sup> do ramo mandibular na abordagem submandibular ou do troncos principais na abordagem pré-auricular.

Da experiência adquirida e pelos bons resultados obtidos, tanto estéticos como funcionais, consideramos que ambas as abordagens extraorais apresentadas fornecem soluções cirúrgicas seguras e eficazes. No entanto, as opções terapêuticas devem ser cuidadosamente avaliadas e individualizadas para cada caso clínico.

A Síndrome do Complexo Estiloide deve fazer parte do diagnóstico diferencial de dor orocervicofacial. O seu tratamento deve ser faseado, iniciando-se sempre por medidas conservadoras. Nos casos de necessidade de abordagem cirúrgica, esta deve ser adaptada a cada caso clínico, permitindo a abordagem extraoral uma melhor visualização do campo operatório reduzindo a possibilidade de lesão de estruturas neurovasculares.

#### Responsabilidades éticas

**Proteção de pessoas e animais.** Os autores declaram que não se realizaram experiências em seres humanos e/ou animais.

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

Direito à privacidade e consentimento escrito. Os autores declaram ter recebido consentimento escrito dos pacientes e/ou sujeitos mencionados no artigo. O autor para correspondência está na posse deste documento.

#### Conflito de interesses

Os autores declaram não haver conflito de interesses.

#### REFERÊNCIAS

- Peng GG, Chen WL, Wu JW, Pan JY. Eagle's syndrome treated with dissection of the styloid process via an extraoral approach combined with antidepressants. Chin J Dent Res. 2011;14:37-40.
- Badhey A, Jategaonkar A, Anglin Kovacs AJ, Kadakia S, De Deyn PP, Ducic Y, et al. Eagle syndrome: A comprehensive review. Clin Neurol Neurosurg. 2017;159:34-8.
- Colby CC, Del Gaudio JM. Stylohyoid complex syndrome: a new diagnostic classification. Arch Otolaryngol Head Neck Surg. 2011;137:248-52.
- Fini G, Gasparini G, Filippini F, Becelli R, Marcotullio D. The long styloid process syndrome or Eagle's syndrome. J Craniomaxillofac Surg. 2000;28:123-7.

- Kiralj A, Illic M, Pejakovic B, Markov B, Mijatov S, Mijatov I. Eagle's syndrome – A report of two cases. Vojnosanit Pregl. 2015;72:458-62.
- Papadiochos I, Papadiochou S, Sarivalasis ES, Goutzanis L, Petsinis V. Treatment of Eagle syndrome with transcervical approach secondary to a failed intraoral attempt: Surgical technique and literature review. J Stomatol Oral Maxillofac Surg. 2017;118:353-8.
- Williams JV, McKearney RM, Revington PJ. Eagle's syndrome: a novel surgical approach to the styloid process using a preauricular incision. J Oral Maxillofac Surg. 2011;69:1617-22.
- 8. Farhat HI, Elhammady MS, Ziayee H, Aziz-Sultan MA, Heros RC. Eagle syndrome as a cause of transient ischemic attacks. J Neurosurg. 2009;110:90-3.
- Dou G, Zhang Y, Zong C, Chen Y, Guo Y, Tian L. Application of surgical navigation in styloidectomy for treating Eagle's syndrome. Ther Clin Risk Manag. 2016;12:575-83.
- Dolan EA, Mullen JB, Papayoanou J. Styloid-stylohyoid syndrome in the differential diagnosis of atypical facial pain. Surg Neurol. 1984;21:291-4.

- Cheng C, She C, Zhang Q. The experience of treatment of coblation assisted surgical approach to Eagle's syndrome. Am J Otolaryngol. 2017;38:301-4.
- 12. Al Weteid AS, Miloro M. Transoral endoscopic-assisted styloidectomy: How should Eagle syndrome be managed surgically? Int J Oral Maxillofac Surg. 2015;44:1181-7.
- 13. Buono U, Mangone GM, Michelotti A, Longo F, Califano L. Surgical approach to the stylohyoid process in Eagle's syndrome. J Oral Maxillofac Surg. 2005;63:714-6.
- 14. Coelho P, Bento M, Loureiro L, Duarte L. Patologia do Aparelho Estiloioideo. Rev Port Cir Craniomaxilofac. 1995;1:21-7.
- 15. Spalthoff S, Zimmerer R, Dittmann O, Tavassol F, Dittmann J, Gellrich NC, et al. Piezoelectric surgery and navigation: a safe approach for complex cases of Eagle syndrome. Int J Oral Maxillofac Surg. 2016;45:1261-7.