

Douleur au cou atypique: exemple d'un syndrome peu connu

Drs PAUL BAJGROWICZ^a, CHRISTOPHE MONNEY^a, Pr BERNARD FAVRAT^a, Drs CARLOS MADRID^b et KARMA LAMBERCY^c

Rev Med Suisse 2020; 16: 1891-3

Le syndrome d'Eagle est un diagnostic méconnu. Sa suspicion est d'abord clinique et ses symptômes sont divers. Le diagnostic est confirmé par imagerie. Sa prise en charge est chirurgicale: résection du processus styloïde par voie transorale ou trans-amygdalienne. Les patients consultent souvent plusieurs spécialistes et les investigations sont nombreuses avant que le bon diagnostic soit posé.

Atypical neck pain: an example of a little-known syndrome

Eagle's syndrome is an unknown disease. Its suspicion is first and foremost clinical and his symptoms are diverse. The diagnosis is confirmed by imaging. Its management is surgical: resection of the styloid process by trans-oral or trans-amygdala route. Patients often consult several specialists and there are many investigations before the right diagnosis is made.

INTRODUCTION

La région cervico-faciale est une zone anatomique complexe, ce qui rend le diagnostic différentiel des douleurs dans ce territoire d'autant plus difficile. Nous allons discuter d'un syndrome rare et déroutant par sa symptomatologie variable.

VIGNETTE CLINIQUE

Une patiente de 40 ans, en bonne santé habituelle, développe dans un premier temps une infection des voies respiratoires supérieures, traitée par antibiotiques. L'évolution est lente, mais finalement favorable. Au décours de cette infection, la patiente présente des douleurs gingivales supérieures droites, nouvelles, parfaitement localisées. Ces douleurs sont à type de brûlure, dans le territoire des dents 17-18, irradiant du maxillaire supérieur droit vers la région rétromandibulaire droite, mais également à gauche; elles irradient aussi au niveau nasal homolatéral et dans la région pharyngo-laryngée droite. Elles sont fluctuantes et tendent à augmenter en fin de journée. Il n'y a pas de perturbation gustative ni de la salivation. Les douleurs ne sont pas liées aux repas, il n'y a pas de trouble de la déglutition ni de douleur des articulations temporo-mandibulaires.

A l'examen clinique, les douleurs dans la région de l'isthme du gosier et du pharynx sont aggravées par la palpation des régions sous-hyoïdiennes et surtout sus-hyoïdiennes. La palpation de la région styloïdienne déclenche également ces douleurs. Le status neurologique est sans particularité, l'état dentaire normal.

À QUOI PENSER?

Il est utile de s'intéresser à la chronologie, à la localisation et au caractère des douleurs. Dans un premier temps, au vu de la localisation de celles-ci, une origine dentaire (infection dentaire, gingivite, abcès...) doit être évoquée. La patiente a été vue par deux dentistes, dont l'examen clinique et l'orthopantomogramme (OPG) sont décrits initialement comme «normaux». Une origine ORL (sinusite, tumeur cervicale ou de la face, dysfonction de l'articulation temporo-mandibulaire) doit évidemment aussi être évoquée. Chez cette patiente, devant un doute sur une dysfonction des articulations temporo-mandibulaires, une IRM est réalisée, qui ne montre pas de lésion compatible avec ce diagnostic.

Le caractère de la douleur, à type de brûlure, peut aussi évoquer une origine neuropathique et la localisation peut orienter vers une névralgie du nerf glosso-pharyngien ou une névralgie du nerf trijumeau droit.^{1,2} Le caractère bilatéral, même s'il y a une prédominance droite, n'est pas typique, toutefois, les neurologues consultés retiennent une névralgie du trijumeau droit atypique. La patiente bénéficie d'un traitement par prégabaline, progressivement augmenté, cependant mal toléré. Par la suite, un traitement de gabapentine est initié, sans amélioration des symptômes.

Malgré ces multiples investigations et plusieurs essais de traitements antalgiques, elle ne trouve aucun répit et voit se développer un état anxiodépressif qui complique encore le diagnostic. Seules des séances de chiropraxie lui procurent un soulagement partiel.

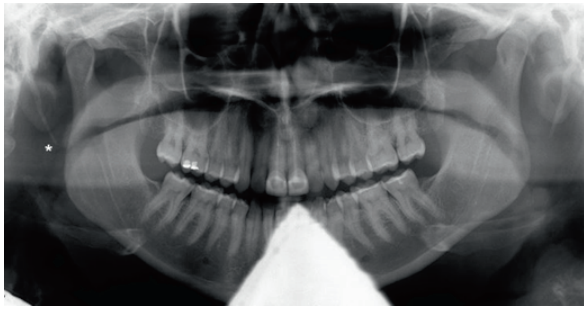
QUE FAIRE?

Devant la persistance des symptômes, le diagnostic différentiel doit être élargi. Dans ce cas, étant donné le caractère et la localisation des douleurs, un avis stomatologique par le chirurgien-dentiste est demandé. Le réexamen de l'OPG (figure 1) a permis de remarquer des processus styloïdes anormalement longs, également retrouvés lors de la palpation du cou avec le déclenchement de la douleur, y compris dans le territoire gingival susmentionné. Un scanner du cou et des

^a PMU, 1011 Lausanne, ^b Biopôle Dental Clinic SA, Route de la Corniche 1, 1066 Epalinges, ^c Service d'oto-rhino-laryngologie, CHUV, 1011 Lausanne paul.bajgrowicz@chuv.ch | christophe.monney@hospyd.ch bernard.favrat@chuv.ch | carlos.madrid@centredentairebiopole.ch karma.lambercy@chuv.ch

	FIG 1	Orthopanthomogramme	
--	--------------	---------------------	--

*: Extrémité du processus styloïde droit.



cervicales confirme une anomalie de longueur des processus styloïdes, tant à droite qu'à gauche, dépassant 4 cm, alors que leur longueur normale devrait être de 2,5 à 2,9 cm (figure 2).^{3,4}

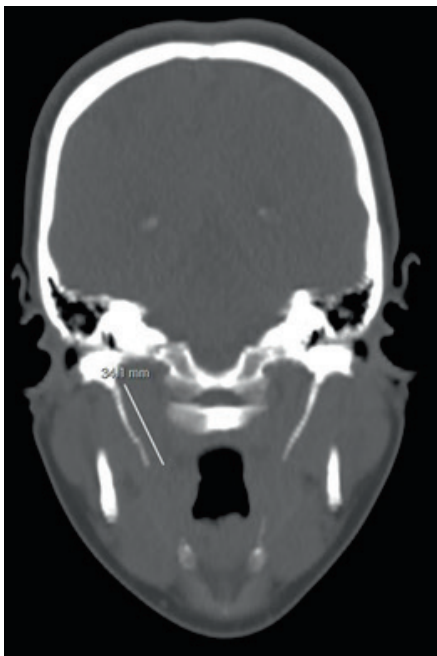
QUEL DIAGNOSTIC ÉVOQUER?

Cet excès de longueur du processus styloïde est décrit depuis de nombreuses années dans la littérature spécialisée en ORL et en chirurgie maxillo-faciale sous la dénomination de syndrome d'Eagle.

SYNDROME D'EAGLE

Le syndrome d'Eagle a été décrit pour la première fois en 1937 par Watt Weems Eagle,^{5,6} un oto-rhino-laryngologiste, chirurgien cervico-facial de l'Université Duke à Durham en

	FIG 2	Scanner cérébral avec mesure du processus styloïde sur le plan coronal	
--	--------------	--	--



Caroline du Nord. On distingue deux types de manifestations, selon leur cause: la forme classique et le syndrome stylo-carotidien.

Forme classique

La forme classique est due à une calcification du ligament stylo-hyoïdien.⁷ Elle se manifeste par des douleurs dans l'oropharynx et dans la région amygdalienne, avec parfois une dysphagie, une hypersalivation et une sensation de corps étranger dans l'oropharynx. Les patients peuvent également présenter des douleurs cervicales, à proximité de la loge amygdalienne, qui peuvent être déclenchées par la palpation de la loge amygdalienne. Il peut également y avoir une otalgie associée (comme chez notre patiente) (figure 3).

Syndrome stylo-carotidien

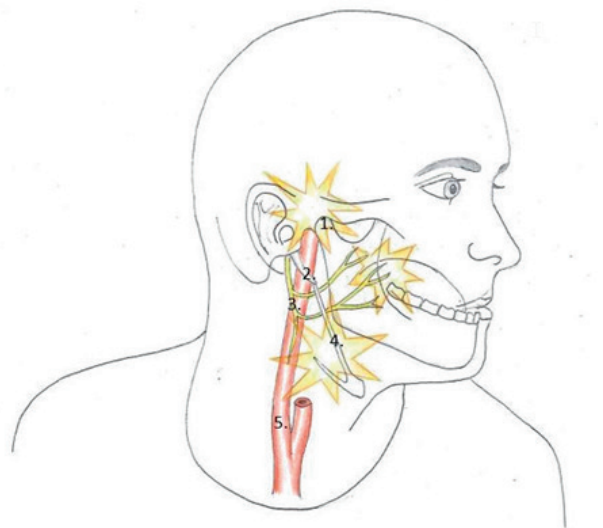
Le syndrome stylo-carotidien est dû à la compression des artères carotides du côté unilatéral, lors des mouvements de rotation de la tête, pouvant se manifester par des symptômes d'accident ischémique transitoire (étourdissements, céphalées, syncope).⁸

DIAGNOSTIC

Comme discuté dans ce cas, la suspicion diagnostique est d'abord clinique. Le tableau clinique typique comprend des douleurs dans la région de l'oropharynx et la région amygdalienne, une sensation de corps étranger dans la gorge, une hypersalivation. Les douleurs peuvent irradier dans l'oreille et dans la région cervicale, reproductibles par la palpation de la région styloïdienne. Les symptômes sont typiquement unilatéraux, bien qu'un cas de syndrome d'Eagle bilatéral ait été récemment décrit dans une forme stylo-carotidienne.

	FIG 3	Zones douloureuses lors du syndrome d'Eagle	
--	--------------	---	--

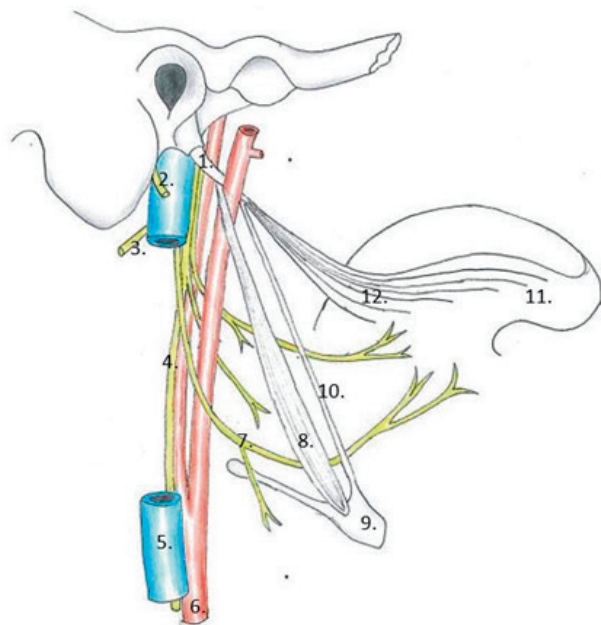
1. Articulation temporo-mandibulaire; 2. Processus styloïde; 3. Nerf glosso-pharyngien; 4. Ligament stylo-hyoïdien; 5. Artère carotide interne.



(Dessin de l'auteur, inspiré de réf.13).

FIG 4 Rapports anatomiques du processus styloïde

1. Processus styloïde; 2. Nerf facial; 3. Nerf spinal accessoire; 4. Nerf vague; 5. Nerf hypoglosse; 6. Artère carotide commune; 7. Nerf hypoglosse; 8. Muscle stylo-hyoïdien; 9. Os hyoïde; 10. Ligament stylo-hyoïdien; 11. Langue; 12. Muscle stylo-glosse.



(Dessin de l'auteur, inspiré de réf.14).

Le diagnostic est ensuite confirmé par imagerie (CT-scan cervical) en mettant en évidence un processus styloïde droit allongé (plus de 3 cm). Dans le cas de cette patiente, plus de 4 cm à droite, et à gauche proche des 4 cm. On peut également visualiser une calcification du ligament stylo-hyoïdien dans le prolongement direct du processus; c'est d'ailleurs l'étiologie du syndrome d'Eagle.

La prévalence d'un processus styloïde allongé dans la population est estimée à 4% mais un très faible pourcentage de ce groupe s'avère symptomatique.

TRAITEMENT

Le traitement de choix est l'excision du processus styloïde.⁹⁻¹¹ Celle-ci peut se faire par voie trans-orale ou cervicale. Les

avantages de la voie trans-orale sont un temps opératoire plus court et l'absence de cicatrice cervicale. Les inconvénients sont la moins bonne exposition des structures cervicales, y compris les gros vaisseaux du cou, et le risque infectieux au niveau des structures cervicales profondes, plus important (figure 4). Ces complications dépendent également de l'expérience de l'opérateur. La patiente a bénéficié de la voie trans-orale assistée par le robot Da Vinci.¹²

L'évolution des symptômes a d'abord été lente avec actuellement une nette amélioration. La patiente note une disparition de la sensation de corps étranger, une quasi-disparition des douleurs neuropathiques à type de brûlure, et une disparition de la dysphagie et de l'hypersalivation.

CONCLUSION

Devant une douleur cervicale persistante et inexpliquée, il est important d'évoquer le syndrome d'Eagle dans le diagnostic différentiel. Dans les cas cliniques, décrits dans la littérature, le syndrome d'Eagle est souvent évoqué tardivement dans la démarche diagnostique et les patients souffrent de l'absence d'explication. Quand celui-ci est finalement évoqué, il existe des possibilités de traitement chirurgical, pouvant mener à une nette amélioration, voire une disparition des symptômes.

Conflit d'intérêts: Les auteurs n'ont déclaré aucun conflit d'intérêts en relation avec cet article.

IMPLICATIONS PRATIQUES

- Le syndrome d'Eagle est défini comme une élévation symptomatique du processus styloïde ou comme une calcification du ligament stylo-hyoïdien
- Devant des douleurs cervicales unilatérales, de l'oropharynx, dans la région amygdalienne, accompagnées d'une sensation de corps étranger, d'une dysphagie, ou même d'une otalgie, il faut évoquer le syndrome d'Eagle
- Pour confirmer le diagnostic, effectuer un CT-scan et rechercher un processus styloïde d'une longueur supérieure à 3 cm
- Deux options de traitement chirurgical sont proposées: trans-cervicale et trans-orale avec de bons résultats sur la symptomatologie

1 Kumai Y, Hamasaki T, Yumoto E. Surgical management of Eagle's syndrome: an approach to shooting craniofacial pain. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2016;273:3421-7.
 2 Khan M, Nishi SE, Hassan SN, Islam MA, Gan SH. Trigeminal neuralgia, glossopharyngeal neuralgia, and myofascial pain dysfunction syndrome: an update. *Pain Res Manag* 2017;2017:7438326.
 3 * Scheller K, Eckert AW, Scheller C. Transoral, retromolar, para-tonsillar approach to the styloid process in 6 patients with Eagle's syndrome. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal* 2014;19:e61-6.

4 Othieno FA, Williams JR, Myers LL. A patient with cervicgia. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg* 2015;141:767-8.
 5 Eagle WW. Elongated styloid processes. Report of two cases. *Arch Otolaryngol* 1937;25:584-7.
 6 * Eagle WW. Elongated styloid process; further observations and a new syndrome. *Arch Otolaryngol* 1948;47:630-40.
 7 Mortellaro C, Bianucci P, Picciolo G, et al. Eagle's syndrome: importance of a corrected diagnosis and adequate surgical treatment. *J Craniofac Surg* 2002;13:755-8.
 8 Dewan MC, Morone PJ, Zuckerman SL,

Mummareddy N, Ghiassi M. Paradoxical ischemia in bilateral Eagle syndrome: a case of false-localization from carotid compression. *Clin Neurol Neurosurg* 2016;141:30-2.
 9 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.
 10 Müderris T, Bercin S, Sevil E, Beton S, Kiris M. Surgical management of elongated styloid process: intraoral or transcervical? *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2014;271:1709-13.
 11 Jalisi S, Jamal BT, Grillone GA. Surgical

management of long-standing Eagle's syndrome. *Ann Maxillofac Surg* 2017;7:232-6.
 12 * Kim DH, Lee YH, Cha D, Kim SH. Transoral robotic surgery in Eagle's syndrome: our experience on four patients. *Transoral Acta Otorhinolaryngol Ital* 2017;37:454-7.
 13 Waldmann SD. Atlas of uncommon pain syndromes. 3rd Edition. Paris : Elsevier, 2013.
 14 www.exodontia.info
 * à lire
 ** à lire absolument