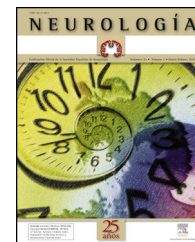




NEUROLOGÍA

www.elsevier.es/neurologia



ORIGINAL

Tratamiento del dolor orofacial en pacientes con síndrome del ligamento estilomandibular (síndrome de Ernest)

D. Peñarrocha-Oltra^a, J. Ata-Ali^{a,b,*}, F. Ata-Ali^a, M.A. Peñarrocha-Diago^a
y M. Peñarrocha^a

^a Facultad de Medicina y Odontología, Universidad de Valencia, Valencia, España

^b Equipo de Atención Primaria, Agencia Valenciana de Salud, Valencia, España

Recibido el 8 de febrero de 2012; aceptado el 30 de junio de 2012

Accesible en línea el 14 de agosto de 2012

PALABRAS CLAVE

Síndrome de Ernest;
Dolor miofascial;
Estilomandibular;
Síndrome de Eagle;
Dolor orofacial

Resumen

Introducción: El síndrome de Ernest se define como una alteración del ligamento estilo-mandibular, caracterizado por la presencia de dolor en la región preauricular y en el ángulo mandibular, irradiado al cuello, el hombro y el ojo del mismo lado, asociado a dolor durante la palpación del ligamento estilomandibular. El objetivo es presentar las características clínicas, el tratamiento y la evolución de una serie de pacientes con el síndrome de Ernest.

Métodos: Se realizó un estudio clínico, observacional, retrospectivo, entre los años 1998 y 2008. Se recogieron todos los datos con respecto a la edad, el sexo, el tiempo de evolución y las características del dolor. A todos los pacientes se les infiltró 40 mg de acetónido de triamcinolona en la inserción mandibular del ligamento estilomandibular.

Resultados: Se incluyó a 6 pacientes. La edad media fue de 40,3 años (rango 35-51). El 100% eran mujeres. Cuatro de las 6 pacientes recibieron tratamientos odontológicos prolongados el mes previo a la aparición del dolor. El tiempo de evolución medio antes de la primera visita fue de 23 meses. Tras el tratamiento realizado, se obtuvo una resolución completa de todos los pacientes, con un periodo de seguimiento mínimo de 12 meses.

Conclusiones: Se han analizado las características clínicas del dolor, el tratamiento recibido y la evolución de 6 pacientes con el síndrome de Ernest. Es importante realizar un correcto diagnóstico para poder establecer el tratamiento correcto. Creemos que esta enfermedad es más prevalente de lo encontrado en la literatura, pudiéndose confundir con otros dolores orofaciales.

© 2012 Sociedad Española de Neurología. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: javiataali@hotmail.com (J. Ata-Ali).

KEYWORDS

Ernest syndrome;
Myofascial pain;
Stylomandibular;
Eagle syndrome;
Orofacial pain

Treatment of orofacial pain in patients with stylomandibular ligament syndrome (Ernest Syndrome)**Abstract**

Introduction: Ernest syndrome involves the stylomandibular ligament. It is characterised by pain in the preauricular area and mandibular angle, radiating to the neck, shoulder, and eye on the same side, and associated with pain during palpation of that ligament. The purpose of this study is to describe the clinical characteristics, treatment, and course of the disease in a series of patients with Ernest syndrome.

Methods: Retrospective observational study covering the period from 1998 to 2008. We recorded patients' age, sex, duration of the disorder, and pain characteristics. All patients were injected with 40 mg triamcinolone acetonide at the mandibular insertion of the stylomandibular ligament.

Results: The study included a total of 6 patients. Mean age was 40.3 years (range, 35-51). All of the subjects were women. Four patients had undergone lengthy dental treatments in the month prior to onset of the pain. The mean time between pain onset and first consultation was 23 months. The syndrome resolved completely in all cases after treatment, with a minimum follow-up period of 12 months.

Conclusions: We analysed the clinical characteristics, treatment, and course of disease in 6 patients with Ernest syndrome. Correct diagnosis is the key to being able to provide proper treatment. This disorder is sometimes confused with other types of orofacial pain, and may therefore be more prevalent than the literature would indicate.

© 2012 Sociedad Española de Neurología. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introducción

El síndrome de Ernest fue descrito por el Dr. Ernest en 1981 y publicado un año después¹, siendo Shankland et al². los primeros en publicar una serie de pacientes en la base de datos Pubmed. Se define como una alteración del ligamento estilomandibular, caracterizado por la presencia de dolor en la región preauricular y en el ángulo mandibular, irradiado al cuello, el hombro y el ojo del mismo lado, asociado a dolor durante la palpación del ligamento estilomandibular. Desde que en 1987 Shankland et al². describieran a 68 pacientes con el síndrome de Ernest, no se han publicado nuevas series en la literatura científica.

Una historia clínica adecuada, un examen manual de la inserción del ligamento estilomandibular en el ángulo goniaco y la anestesia local en esta zona aliviarán inmediatamente la sintomatología, confirmando el diagnóstico^{2,3}.

En el presente artículo, se presentan 6 casos adicionales con dolor orofacial masticatorio diagnosticados de síndrome de Ernest y se discuten la clínica, el tratamiento y la evolución.

Pacientes y métodos

Se realizó un estudio clínico, observacional y retrospectivo, entre los años 1998 y 2008, de todos los pacientes que acudieron a la Unidad de Cirugía Bucal de la Clínica Odontológica de la Facultad de Medicina y Odontología de la Universidad de Valencia por presentar un dolor orofacial. Los criterios de inclusión para considerarlos como síndrome de Ernest fueron: a) dolor localizado en la región preauricular y en el ángulo mandibular; b) dolor a la palpación

de la inserción mandibular del ligamento estilomandibular; c) alivio del dolor tras la inyección de mepivacaína al 3% (Laboratorios Normon, Madrid, España) en la inserción mandibular del ligamento estilomandibular doloroso, y d) ausencia de alteraciones significativas en la radiografía panorámica extraoral.

Se recogieron todos los datos con respecto a la edad, el sexo, el tiempo de evolución y las características del dolor. Se relacionó también la aparición del dolor con algún episodio traumático o con la realización de algún tratamiento odontológico prolongado, considerándolo como antecedente positivo si el tratamiento fue realizado el mes anterior a la aparición del dolor. En todos los casos se exploraron la cavidad oral, los músculos masticatorios, el ligamento estilomandibular (fig. 1) y la articulación temporomandibular. Se realizaron también radiografías panorámicas extraorales. El dolor se anotó de acuerdo a una escala: 0: ausencia de dolor; 1: dolor leve (el dolor está presente, pero no produce



Figura 1 Paciente con dolor a la palpación de la inserción mandibular del ligamento estilomandibular.

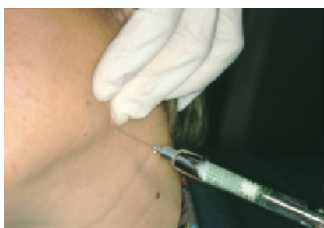


Figura 2 Punción con acetónido de triamcinolona en la inserción del ligamento estilomandibular. La aguja sigue una dirección ascendente para alcanzar la cara interna del ángulo mandibular, lugar donde este ligamento se inserta.

malestar); 2: moderado (el dolor es molesto pero es soportable), y 3: intenso (el dolor produce mucho malestar y es difícil de soportar).

Una vez establecido el diagnóstico de síndrome de Ernest, a todos los pacientes se les infiltraron 40 mg de acetónido de triamcinolona (Trigon depot®, Bristol-Myers Squibb, Madrid, España) en la inserción mandibular del ligamento estilomandibular (fig. 2). En los casos en que persistió la sintomatología, se repitió la infiltración a los 15 días de haber realizado la primera infiltración. En todos los pacientes se restauró la oclusión con prótesis y se les instruyó para que no realizaran aperturas mandibulares forzadas, aconsejándoles dieta blanda durante los siguientes 15 días al tratamiento. El seguimiento mínimo fue de un año. Todos los pacientes dieron su consentimiento informado por escrito antes del tratamiento para ser incluidos en el estudio; se realizó de acuerdo con los principios de la Declaración de Helsinki.

Resultados

Las características clínicas de los pacientes se reflejan en la tabla 1. Se incluyó a 6 pacientes (todas mujeres), con edades comprendidas entre los 35 y los 51 años, con una media de edad de 40,3 años. Ninguna de las pacientes refirió antecedentes traumáticos previos, aunque sí en 4 de las 6 mujeres la aparición del dolor fue posterior a tratamientos odontológicos previos; en 2 pacientes tras la realización de endodoncias y en otras 2 después de exodoncias complejas, indicando que permanecieron en apertura mandibular forzada durante un tiempo prolongado.

El tiempo de evolución del dolor antes de acudir a la primera visita varió entre 6 meses y 4 años, con una media de 23 meses. El dolor fue leve en 3 pacientes y moderado en

otras 3; todas relataron que era un tipo de dolor sordo, continuo, mal definido, con un comienzo lento y que no estaba desencadenado por ningún estímulo. En todas las pacientes la sintomatología era unilateral, con predominio en el lado izquierdo (66,6% de las pacientes).

En la exploración intraoral, se observaron ausencias dentarias en 5 pacientes. A la palpación de los músculos masticatorios, 2 pacientes tenían dolor en maseteros y 2 en maseteros y pterigoideos internos, siempre en el lado afectado. En ningún caso la palpación de la articulación temporomandibular fue dolorosa.

Tras el tratamiento (tabla 2), se consiguió la remisión completa de la sintomatología en 4 pacientes y en las otras 2 fue necesario repetir la infiltración 15 días después de la primera, por persistir un dolor residual. En las 5 pacientes con ausencias dentarias, se restauró la oclusión, 4 con prótesis parcial removible (casos 2 a 5) y una con prótesis fija (caso 1) (tabla 2). En todos los casos se consiguió la resolución completa tras el tratamiento y esta curación se mantuvo al menos durante los meses siguientes que fueron revisados (seguimiento mínimo 12 meses).

Discusión

En el presente estudio, se presentan 6 casos clínicos con dolor orofacial diagnosticados de síndrome de Ernest. Existen otros cuadros similares, como el síndrome de Eagle, que se presenta como una alteración asociada a dolor del proceso estilohioideo en pacientes amigdalectomizados y fue descrita en 1937 por el Dr. Eagle⁴. Este síndrome presenta una etiología y una patogénesis llena de controversias⁵, y cursa con la mineralización, la elongación o incluso la calcificación del ligamento estilohioideo. Clínicamente, esta alteración ocurre a menudo de manera bilateral, a diferencia del síndrome de Ernest, donde solo incluye el ligamento estilomandibular, y particularmente en su inserción mandibular². En la tabla 3 se presentan las características clínicas, radiológicas y terapéuticas de ambos síndromes.

Desde que en 1987 se presentara un estudio² con la serie más grande publicada en la literatura sobre esta enfermedad, no se han publicado nuevas series en la literatura científica. En dicho estudio², realizado sobre 68 pacientes, la edad media fue de 37,7 años y afectó a un 82% de mujeres, resultados similares al estudio que presentamos, donde la edad media era de 40,3 años y el 100% eran mujeres. En un estudio retrospectivo¹¹ sobre 850 pacientes con disfunción temporomandibular, la proporción hombre:mujer

Tabla 1 Características de los pacientes: edad, sexo, tratamientos dentales previos y tipo del dolor

	Edad (años)	Sexo	Tratamientos odontológicos previos	Anamnesis dolor			
				Evolución (meses)	Intensidad	Irradia	Lado
Caso 1	42	Mujer	Sí	12	Moderada	Brazo	Izquierdo
Caso 2	51	Mujer	Sí	48	Leve	Cuello	Izquierdo
Caso 3	35	Mujer	No	6	Leve	Hombro	Derecho
Caso 4	38	Mujer	No	12	Moderada	Cuello	Izquierdo
Caso 5	35	Mujer	Sí	36	Leve	No	Izquierdo
Caso 6	41	Mujer	Sí	24	Moderada	Ojo	Derecho

Tabla 2 Se recogen los datos referentes a la exploración clínica, tratamiento y el tiempo de seguimiento

	Exploración clínica		Tratamiento		Tiempo control (meses)
	Ausencias dentaria	Dolor palpación músculos masticatorios	N.º dosis (40 mg de triamcinolona)	Prótesis	
Caso 1	Inferior	Sí	1	P. fija	14
Caso 2	Sup. e inf.	Sí	2	PPR	17
Caso 3	Sup. e inf.	No	1	PPR	12
Caso 4	No	Sí	2	No	12
Caso 5	Sup. e inf.	No	1	PPR	14
Caso 6	Sup. e inf.	Sí	1	PPR	15

N.º dosis: número de dosis; P. fija. prótesis fija; PPR: prótesis parcial removible; Sup. e inf.: superior e inferior.

fue de 1:6,2, lo que demuestra la mayor afectación del sexo femenino. Son varios los estudios¹¹ que han intentado explicar las diferencias entre hombres y mujeres evaluando factores psicosociales, endocrinos, constitucionales y de comportamiento sin llegar a ninguna conclusión.

Al realizar una búsqueda automática en la base de datos Pubmed con las palabras clave «Ernest syndrome» y «stylomandibular ligament», únicamente se obtienen 7 citas, 2 de ellas duplicadas, por lo tanto, únicamente 5 citas están relacionadas con este síndrome; 4 son revisiones^{9,12-14} y una serie de pacientes que corresponde a la de Shankland et al.². Esta escasa repercusión bibliográfica puede ser debida a que este síndrome es poco conocido, siendo posiblemente en muchas ocasiones infradiagnosticado. Este hecho podría cambiar si este síndrome se incluyera en la Clasificación Internacional de las Cefaleas¹⁵.

El ligamento estilomandibular es una banda ancha de fascia que va desde la apófisis estiloides hasta el borde posterior de la rama mandibular, situándose en posición medial al ángulo mandibular. La función del ligamento estilomandibular es limitar los movimientos de apertura y protrusión mandibular. La etiopatogenia del síndrome de Ernest no está completamente aclarada; podría estar en el macrotrauma atribuible a golpes en la mandíbula, traumas craneales o síndromes del latigazo «whiplash» debido a accidentes de circulación^{16,17}. Todo ello conlleva el mismo significado clínico: la distensión del ligamento que une la apófisis estiloides al ángulo goniaco mandibular^{9,18}. Se ha descrito que cuando este ligamento se distiende más de 25-30 mm, puede causar dolor cervical y faríngeo, así como al tragar, hablar y

abrir la boca, con sensación de cuerpo extraño en la orofaringe y dolor irradiado al oído^{5,19}. Se ha sugerido que los tratamientos odontológicos prolongados podrían producir la elongación y la distensión del ligamento estilomandibular, produciendo como consecuencia la sintomatología dolorosa². En 4 de nuestras pacientes, el dolor apareció durante el mes siguiente a la realización de tratamientos odontológicos prolongados, lo cual apoya esta hipótesis.

El dolor del síndrome de Ernest puede confundirse con el que aparece en las alteraciones de los músculos masticatorios, sobre todo en los cuadros de dolor miofascial, y otros procesos como síndrome de Eagle, neuralgia de la tercera rama del trigémino, neuralgia del glosofaríngeo, síndrome de dolor facial persistente idiopático, síndrome de disfunción de la articulación témporo-mandibular, dolor asociado a terceros molares con proceso patológico infeccioso, dolor parotídeo y dolor de origen cervical. La neuralgia trigeminal es un trastorno relacionado con las fibras periféricas o centrales del nervio trigémino y, por tanto, supone un dolor confinado al territorio de inervación de una o más ramas del nervio trigémino. La neuralgia trigeminal puede ser de origen idiopático o presentar una causa responsable del cuadro (secundarias o sintomáticas). En la *tabla 4* se presenta el diagnóstico diferencial entre la neuralgia trigeminal idiopática y sintomática²⁰.

En un estudio de Shankland et al.² sobre 68 pacientes con el síndrome de Ernest, el 77,9% de los pacientes fueron tratados con éxito mediante tratamiento no quirúrgico, con una inyección de una solución anestésica en la inserción del ligamento, inyecciones localizadas de corticoides y

Tabla 3 Diagnóstico, clínica, etiología y tratamiento de ambos síndromes

Tipo síndrome	Síndrome de Ernest	Síndrome de Eagle
Clínica	Fase inicial: sensibilidad infraauricular y en la mandíbula, cerca del ángulo mandibular	1. ^a forma presentación: dolor espástico y persistente en la faringe, en pacientes amigdalectomizados con unas estiloides > 3 cm u osificación del ligamento estilohioideo
	Fase posterior: dolor en ATM, zona orbital y temporal, orofaringe, apófisis coronoides y odontalgia en dientes posteroinferiores ^{1,6}	2. ^a forma presentación: dolor faríngeo que se acentúa con los movimientos de la cabeza, dolor de cabeza y vértigo en pacientes que no han sido sometidos a cirugías previas ⁷
Radiología	No es muy útil, ya que la patogenia del síndrome está relacionada con la inflamación del ligamento estilomandibular ^{1,6}	La radiología simple de la columna cervical muestra el alargamiento de la estiloides, que se confirma con TC al observar una estiloides con una longitud superior a los 3 cm ⁸
Tratamiento	Infiltraciones locales con corticoides y anestésicos locales. Tratamiento quirúrgico en casos severos ⁹	Infiltraciones locales con corticoides y anestésicos locales y resección quirúrgica siguiendo una vía orofaríngea si fracasa el tratamiento médico ^{4,10}

Tabla 4 Diagnóstico diferencial entre la neuralgia trigeminal idiopática y sintomática

Neuralgia trigeminal	Idiopática	Sintomática
Exploración clínica	Normal y sin alteraciones ni enfermedad orgánica responsable del cuadro	Déficits sensitivos o motores de pares craneales y signos propios del origen (traumático, infeccioso, tumoral o asociado a NTSB)
Exploración complementaria	Sin alteraciones	Con alteraciones
Edad	Avanzada	Cualquiera
Localización	2. ^a y 3. ^a rama trigeminal	1 o más de 1
Lado	Unilaterales	Uni o bilaterales
Antecedentes	No	Sí

NTSB: neuropatía trigeminal sensorial benigna.

dieta blanda; el mismo tratamiento seguido en el presente estudio.

A pesar de que el tamaño muestral es escaso, tras el tratamiento se consiguió la remisión completa de la sintomatología en 4 pacientes y en las otras 2 fue necesario repetir la infiltración 15 días después de la primera infiltración, por persistir un dolor residual. Es por esto que pensamos que este tratamiento, siendo un procedimiento tan sencillo de realizar, puede mejorar el dolor y la calidad de vida de los pacientes. Se han analizado las características clínicas, el tratamiento y la evolución de 6 pacientes con el síndrome de Ernest. Creemos que esta enfermedad es más prevalente de lo encontrado en la literatura, pudiéndose confundir con otros dolores orofaciales.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

- Ernest EA 3rd. Temporomandibular joint & craniofacial pain—An orthopedic & neurological approach to diagnosis and management. 1st ed. 1982. p. 114.
- Shankland 2nd WE. Ernest syndrome as a consequence of stylo-mandibular ligament injury: a report of 68 patients. *J Prosthet Dent*. 1987;57:501–6.
- 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.
- Eagle WW. Elongated styloid processes: report of two cases. *Arch Otolaryngol*. 1937;25:584–7.
- De Souza Carvalho AC, Magro Filho O, Garcia Jr IR, de Holanda ME, de Menezes Jr JM. Intraoral approach for surgical treatment of Eagle syndrome. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 2009;47:153–4.
- Ernest EA. Three disorders that frequently cause temporomandibular joint pain: internal derangement, temporal tendonitis and Ernest syndrome. *J Neurol Orthop Surg*. 1986;7:789–91.
- Slavin KV. Eagle syndrome: entrapment of the glossopharyngeal nerve? Case report and review of the literature. *J Neurosurg*. 2002;97:216–8.
- Gelabert-González M, García-Allut A. [Eagle syndrome. An unusual cause of neck pain]. *Neurocirugía (Astur)*. 2008;19:254–6.
- Shankland 2nd WE. Common causes of nondental facial pain. *Gen Dent*. 1997;45:246–53, quiz 263–4.
- Sun CK, Mercuri V, Cook MJ. Eagle syndrome: an unusual cause of head and neck pain. *Arch Neurol*. 2006;63:294–5.
- Poveda-Roda R, Bagán JV, Jiménez-Soriano Y, Fons-Font A. Retrospective study of a series of 850 patients with temporomandibular dysfunction (TMD). Clinical and radiological findings. *Med Oral Patol Oral Cir Bucal*. 2009;14:e628–34.
- DuPont Jr JS. Panoramic imaging of the stylohyoid complex in patients with suspected Ernest or Eagle's syndrome. *Cranio*. 1998;16:60–3.
- Shankland 2nd WE. Anterior throat pain syndromes: causes for undiagnosed craniofacial pain. *Cranio*. 2010;28:50–9.
- Brown CR. Ernest syndrome: insertion tendinosis of the stylomandibular ligament. *Pract Periodontics Aesthet Dent*. 1996;8:762.
- Headache Classification Subcommittee of the International Headache Society. The International Classification of Headache Disorders: 2nd ed. Cephalgia. 2004;24(Suppl. 1):9–160.
- Koelbaek Johansen M, Graven-Nielsen T, Schou Olesen A, Arendt-Nielsen L. Generalised muscular hyperalgesia in chronic whiplash syndrome. *Pain*. 1999;83:229–34.
- Keidel M, Rieschke P, Stude P, Eisentraut R, van Schayck R, Diener H. Antinociceptive reflex alteration in acute posttraumatic headache following whiplash injury. *Pain*. 2001;92:319–26.
- Ernest 3rd EA, Salter EG. Hyoid bone syndrome: a degenerative injury of the middle pharyngeal constrictor muscle with photomicroscopic evidence of insertion tendinosis. *J Prosthet Dent*. 1991;66:78–83.
- Raina D, Gothi R, Rajan S. Eagle syndrome. *Indian J Radiol Imaging*. 2009;19:107–8.
- Peñarrocha M, editor. Dolor orofacial. Barcelona: Masson; 1997. ISBN: 84-458-0524-X.