

Otite externa necrotizante com paralisia facial periférica e trombose do seio cavernoso: relato de caso

Necrotizing external otitis with peripheral facial paralysis and cavernous sinus thrombosis: case report

Fabiana Martins Menh¹, Ruth Elisa Sued Paulino², Larissa Aparecida Pereira da Silva², Paloma Feitosa Pinho Gomes³, Laila Moraes Nahass Franco⁴, Bernardo Campos Faria⁵

Menh¹ FM, Paulino RES, Silva LAP, Gomes PFP, Franco LMN, Faria BC. Otite externa necrotizante com paralisia facial periférica e trombose do seio cavernoso: relato de caso / *Necrotizing external otitis with peripheral facial paralysis and cavernous sinus thrombosis: case report*. Rev Med (São Paulo). 2019 maio-jun.;98(3):226-30.

RESUMO: Otite externa necrotizante (OEN), conhecida antigamente como otite externa maligna (OEM), atinge o conduto auditivo externo, causando otalgia intensa, otorreia fétida, e em casos mais severos, comprometimento dos ossos do crânio e déficit neurológico. O agente etiológico mais comum é a *Pseudomonas aeruginosa*. Acomete principalmente pacientes idosos, diabéticos e imunodeprimidos. O comprometimento de nervo craniano levando a paralisia facial e trombose dos seios intracranianos são de piores prognósticos. O diagnóstico depende da suspeita clínica inicialmente. Os exames complementares são imprecisos, embora essenciais no seguimento. A abordagem multidisciplinar é sempre recomendada. O objetivo do trabalho é relatar as complicações clínicas de um caso de otite externa necrotizante com paralisia facial que evoluiu para trombose do seio cavernoso, levando ao óbito.

Descritores: Otite externa; Imunidade; Paralisia facial; Trombose intracraniana; Seio cavernoso.

ABSTRACT: Necrotizing external otitis (NEO), formerly known as malignant external otitis (MEO), strikes the external auditory canal, causing severe otalgia, fetid otorrhea, and in more severe cases, impairment of the skull bones and neurological deficit. The most common etiological agent is *Pseudomonas aeruginosa*. It mainly affects elderly, diabetic and immunodepressed patients. Cranial nerve impairment leading to facial paralysis and intracranial sinus thrombosis are of bad prognosis. The diagnosis depends on the clinical suspicion. Complementary exams are imprecise, although essential in the follow-up. The multidisciplinary approach is always recommended. The objective of this paper is to report the clinical complications of a case of necrotizing external otitis with facial paralysis and cavernous sinus thrombosis, leading to death.

Keywords: Otitis externa; Immunity; Facial paralysis, Intracranial thrombosis; Cavernous sinus.

1. Nutricionista, pós-graduada lato sensu em Administração e Qualidade em Unidade de Alimentação e Nutrição - Associação Educacional do Vale do Itajaí-Mirim Faculdade do Itajaí-Mirim – FAVIM. Acadêmica do curso de medicina do Centro Universitário Atenas (UniAtenas). ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-9830-3031>. E-mail: fabianamenho@gmail.com.
2. Acadêmicas do curso de medicina do Centro Universitário Atenas (UniAtenas), Paracatu - MG. Paulino RES - ORCID: 0000-0001-6083-2333; Silva LAP - ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-3545-645X>. E-mail: ruthelisasued@hotmail.com, larissaaparecidap@gmail.com.
3. Médica residente em Otorrinolaringologia no Hospital Santa Marta, Taguatinga - DF. ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-8485-1886>. E-mail: paloma-pinho@hotmail.com.
4. Médica residente em Clínica Médica no Hospital Regional Asa Norte (HRAN), Brasília – DF. ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-0404-6909>. E-mail: lailamnahass@gmail.com.
5. Médico otorrinolaringologista pela UFTM, docente do Centro Universitário Atenas (UniAtenas). ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-0723-9025>. E-mail: faria.bernardo@gmail.com.

Endereço para correspondência: Fabiana Martins Menh¹. R. João Gonçalves Carvalho, nº 11. Bairro Santa Lúcia. Paracatu, MG. CEP: 38.600-352.

INTRODUÇÃO

Conhecida no passado como otite externa maligna (OEM), a otite externa necrotizante (OEN) é uma infecção do conduto auditivo externo que pode comprometer ossos do crânio, sendo comum em pacientes idosos diabéticos ou qualquer outro tipo de imunodepressão do sistema imunológico. A primeira descrição de osteomielite do osso temporal foi feita em 1838 por Telmouche, em Paris, e em 1959, Meltzer e Keleman descreveram osteomielite do osso temporal, zigomático, mandibular e base do crânio causada por *Pseudomonas aeruginosa*¹.

Apesar da maior parte da OEN ser causada por *P aeruginosa*, há relatos que também pode ser causadas por *S. aureus*, *S. epidermidis* e *C. albicans*².

O processo inflamatório se estende do meato acústico externo (MAE) para a fissura de Santorini, que é a junção osteocartilaginosa do conduto. Por esta fissura a infecção se propaga até chegar ao osso temporal, podendo atingir o nervo facial (VII par)². A paralisia facial é caracterizada pela diminuição da mímica facial, além de alteração da sua raiz sensitiva, como a sensibilidade da concha auricular e da gustação nos 2/3 anteriores da língua³.

A OEN é de grande relevância devido a sua alta taxa de mortalidade, sendo de 20% quando não existe comprometimento de nervo craniano, 50% quando ocorre paralisia facial periférica e de 60% quando há comprometimento de outros nervos cranianos¹.

A maior incidência nos diabéticos deve-se ao estado de imunossupressão, cerume com pH mais alto, menor concentração de lisozima, comprometimento da irrigação sanguínea local e menor quimiotaxia. Além disso, ocorre microangiopatia diabética, que pode levar a degeneração da cartilagem do conduto auditivo. Com isso, ocorre dificuldade de penetração de antibióticos, propiciando um ambiente para multiplicação de bactérias⁴.

A tomografia computadorizada (TC) de ossos temporais permite avaliar a orelha externa e média e todo o osso temporal, articulação têmporo-mandibular e cavidade intracraniana, demonstrando a extensão da otite. As complicações intracranianas podem ser melhor avaliadas por ressonância magnética (RNM). A cintilografia com gálio define o diagnóstico de osteomielite, mas sua evolução é melhor avaliada com cintilografia com tecnécio.

O objetivo deste trabalho é apresentar caso clínico de otite externa necrotizante com paralisia facial periférica unilateral, que evoluiu com trombose de seio cavernoso e óbito. A família autorizou para apresentação do caso, sendo que o termo de consentimento livre e esclarecido foi assinado pela esposa do paciente.

RELATO DE CASO

M. R. O., sexo masculino, 67 anos, casado, residente em Paracatu (MG), caminhoneiro, hipertenso e diabético há 10 anos, doença renal crônica (DRC) grau IV não dialítico e artrite gotosa há 02 anos. Iniciou quadro de otite externa em orelha direita em dezembro de 2017, sendo tratado ambulatorialmente. O quadro arrastou-se por 3 meses, recebendo os seguintes antibióticos por via oral: amoxicilina 500mg de 8/8 hs, amoxicilina com clavulonato 500/125mg de 8/8 horas, ciprofloxacino 500mg 12/12hs, levofloxacino 500mg 1x ao dia e amoxicilina com sulbactam 875/125mg de 8/8 hs. Todos os esquemas da antibioticoterapia foram completos por pelo menos 10 dias e sem resolução do quadro.

No dia 14/03/2018, deu entrada no pronto socorro do Hospital Municipal de Paracatu (HMP) queixando de otalgia intensa à direita, saída de secreção amarelada, dor à mastigação na articulação têmporo-mandibular e astenia. A otoscopia mostrava edema intenso do meato acústico externo (MAE), membrana timpânica não visualizada, secreção purulenta e extrema dor a palpação do pavilhão. Foi internado para receber antibioticoterapia endovenosa (EV), avaliação pelo otorrinolaringologista e realização de exames: hemograma, ureia, creatinina, sódio, potássio, tomografia computadorizada sem contraste de ossos temporais e coleta de secreção otológica com antibiograma. Foi então introduzido ampicilina com sulbactam 2g de 8/8h por 10 dias e amicacina 1g na 1ª dose e 600 mg em dosagens seguintes de 24/24h por 07 dias, ajustado conforme o clearance de creatinina.

O resultado da secreção otológica evidenciou presença de *Staphylococcus aureus* com sensibilidade apenas para os seguintes antibióticos: linezolida, clindamicina, rifampicina e vancomicina. Dessa forma, em 16/03/2018, substituiu-se ampicilina com sulbactam e Amicacina por vancomicina 1g EV 12/12h, por 7 dias com ajuste da dosagem de 05 em 05 dias conforme o clearance de creatinina.

A tomografia evidenciou ossículos íntegros bilateralmente, porém otomastoidite crônica à direita, displasia fibrosa dos ossos temporal e esfenoidal à esquerda, sinusopatia etmoidal à esquerda e maxilar à direita (Figura 1).

No terceiro dia de administração da vancomicina, o paciente apresentou aumento dos escores nitrogenados, sendo suspenso conforme orientações do nefrologista. Após o 3º dia de suspensão da vancomicina, foi introduzido ciprofloxacino 400mg 12/12hs e clindamicina 600mg 8/8hs, ambos por 7 dias.

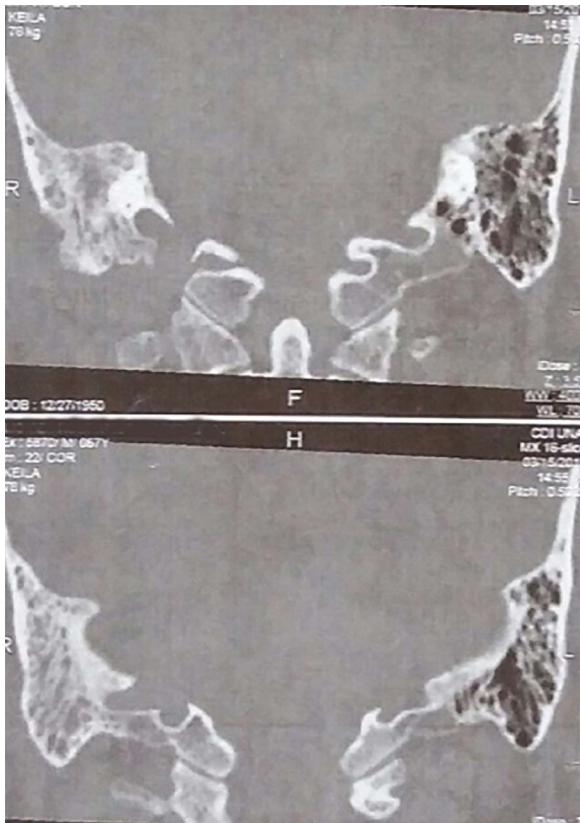


Figura 1: Tomografia computadorizada mostrando otomastoidite à direita

Com o resultado desta tomografia, o otorrinolaringologista prescreveu administração de ciprofloxacino 400 mg EV 24/24h por 7 dias conforme o clearance (CICr = 18 ml/min), clindamicina EV 600 mg 8/8h por 7 dias e curativo otológico diário com ciprofloxacino tópico. Em 36h destes antibióticos, paciente apresentou melhora da otalgia e cefaleia hemicraniana à direita, porém sem visualização da membrana timpânica devido a grande quantidade de secreção presente.

Em 7 dias de uso de antibiótico endovenoso, apresentou melhora significativa da otalgia, abertura em 50% do conduto auditivo externo direito, sendo visualizada pouca secreção próxima à membrana timpânica. A medicação foi estendida por mais 7 dias e acompanhamento em conjunto com o especialista.

Em todo o período de internação apresentou otalgia sendo administrados analgésicos e antibióticos conforme prescrições. A dosagem de sódio, potássio, ureia e creatinina foram realizadas diariamente para avaliação da função renal. Apresentou oscilações da otalgia, otorreia e cefaleia. Hemograma evidenciava leucocitose importante e aumento do PCR.

Em 29/03/2018, 9º dia de uso de ciprofloxacino e clindamicina, evoluiu com otalgia intensa, otorreia, edema em região pré e retroauricular com dor a palpação superficial, sendo medicado com analgésicos e sem melhora

da dor. Com isto, os antibióticos foram substituídos por imipenem EV 1g 8/8h por 10 dias. Conforme clearance de creatinina, ajustado para 250mg de 12/12h no 5º dia.

No 9º dia de imipenem, o paciente apresentou paralisia facial periférica (House Brackmann III), sendo então transferido para realização de cirurgia exploratória da orelha afetada em serviço de referência. Foi realizada mastoidectomia com descompressão do nervo facial sem intercorrências, com retirada de moderada quantidade de tecido infectado em conduto auditivo externo e ouvido médio, encaminhado para análise anátomo-patológica, gram e cultura. Após procedimento, o paciente retornou ao Hospital Municipal de Paracatu para antibioticoterapia EV de cefepime 2g EV 24/24h e clindamicina 600mg EV 6/6h, ambos por 4 a 8 semanas conforme sugestão da infectologia.

No 28º dia de cefepime e clindamicina, evoluiu com oligúria, edema importante em membros inferiores, hemiplegia à esquerda e rebaixamento do nível de consciência. Foi levantada a hipótese de acidente vascular encefálico (AVE) isquêmico e encaminhado para UTI. Assistido pelo neurologista realizou tomografia de crânio sem contraste na admissão e outra 48h depois, ambos com resultados normais. Durante o período de internação na UTI, continuou com assistência pelo nefrologista devido às necessidades diárias de hemodiálise.

No 6º dia na UTI sem melhora do quadro neurológico, foi solicitado tomografia de crânio com contraste (FIGURA 2), que mostrou áreas de hipodensidade alta em substância branca, coroa radiada a direita com aumento da densidade em regiões de seios venosos. As hipóteses diagnósticas levantadas foram: trombose venosa cerebral ou abscesso cerebral. Solicitada angiorressonância venosa cerebral e prescrito piperacilina + tazobactam sódico e enoxaparina sódica 1g/kg/dose, conforme função renal.

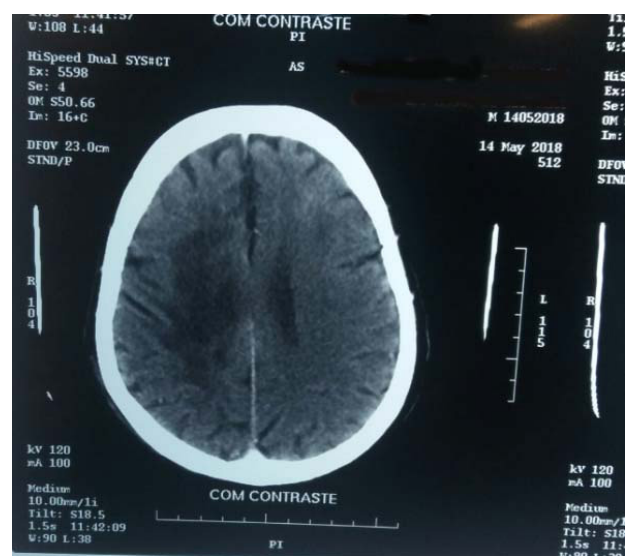


Figura 2: Tomografia computadorizada de crânio com contraste evidenciando área de hipodensidade cerebral à direita

Apesar dos cuidados, ao 10º dia de internação na UTI houve piora dos parâmetros laboratoriais e clínicos. O paciente veio a óbito por falência múltipla de órgãos.

DISCUSSÃO

Otite externa necrotizante apresenta, na maioria dos casos, prognóstico ruim devido às sequelas e a potencial letalidade, por isso deve ser diagnosticada e tratada em tempo hábil^{1,6}.

A hipótese diagnóstica é levantada quando o paciente apresenta quadro sugestivo de otite externa refratária à terapêutica^{1,2,6}. Nos estudos, foi observada uma média de 42,7 dias entre o primeiro sintoma e o diagnóstico da otite externa necrotizante⁶. No caso relatado, este intervalo foi de aproximadamente 90 dias, sendo que o paciente foi tratado com antibióticos via oral sem resolução do quadro.

Os sintomas mais comuns relatado pelo paciente e também descritos na literatura são: cefaleia, otalgia e otorreia. A otorreia persistente sem resposta a antibióticos tópicos e a otalgia com irradiação para articulação têmporo-mandibular são os sintomas mais característicos⁵. Alguns autores consideram a presença de tecido de granulação na junção ósteo-cartilaginosa do conduto auditivo externo como sinal patognômico da doença⁷.

O agente etiológico mais comum é *Pseudomonas aeruginosa*, gram-negativo aeróbio obrigatório, responsável por aproximadamente 96% dos casos^{1,2,6}. No caso relatado, apesar do swab de secreção demonstrar *Staphylococcus aureus*, acreditou-se haver contaminação do material. Portanto, optou-se por antibióticos que também cobrissem *P. aeruginosa*: ciprofloxacino, posteriormente substituído por imipenem.

A patogênese não é completamente esclarecida, porém sabe-se que a interação entre fatores do hospedeiro e do patógeno são essenciais para determinar a gravidade do processo infeccioso⁶. A hiperglicemia crônica presente nos diabéticos de longa duração, como no caso do

paciente do relato, resulta em alterações circulatórias e consequentemente em má perfusão, além de alterações na imunidade humoral (influência nos níveis de citocinas e proteínas do sistema complemento) e celular, principalmente com diminuição da função fagocitária^{2,8}.

O paciente do relato evoluiu com o sintoma neurológico mais comum: a paralisia do VII par craniano (nervo facial), devido à sua localização no osso temporal, sendo resultado da progressão do processo inflamatório para o forame estilomastoideo^{4,10}. O quadro neurológico causado pelo acometimento do nervo facial nem sempre tem resolução, porém quando outros nervos cranianos são afetados, há maior chance de recuperação com o tratamento⁶.

De acordo com o estadiamento de Benecke⁴ o paciente do relato apresentou otite externa necrotizante estágio III. Esta classificação de 1989 propõe o estadiamento em 3 categorias: sendo o estágio I quando a otite está limitada ao tecido mole e cartilagem; estágio II se houver erosão do osso temporal e estágio III quando há extensão intracraniana e erosão além do osso temporal.

A principal hipótese da causa de hemiplegia à esquerda e rebaixamento do nível de consciência apresentado pelo paciente foi de trombose venosa cerebral, porém não foi confirmada devido óbito antes da realização da angiorressonância magnética.

CONCLUSÃO

A OEN é pouco descrita na literatura e possui evolução clínica rápida e de prognóstico ruim principalmente em pacientes idosos e imunodeprimidos. No caso clínico apresentado foi notável a gravidade do quadro. A paralisia facial evidenciou mau controle clínico apesar da antibioticoterapia adequada. A exploração cirúrgica com desbridamento amplo, mastoidectomia e decompressão do nervo facial não evitou a complicação intracraniana e o óbito.

Participação dos autores: *Menhõ FM*: busca ativa do paciente com contato direto com a família, descrição do caso clínico e elaboração do artigo. *Silva LAP*: elaboração da discussão do artigo e revisão. *Paulino RES*, *Franco LMN* e *Gomes PFP*: trabalharam no levantamento de literatura e edição de imagens. *Faria BC*: orientador e revisão do artigo.

REFERÊNCIAS

1. Antunes A, Macedo GRM, Leão RS, Caldas NCR. Otite externa necrotizante com paralisia facial periférica bilateral: relato de caso e revisão de literatura. *Rev Bras Otorrinolaringol* (São Paulo). 2004;70(1):137-42. <http://dx.doi.org/10.1590/S0034-72992004000100024>.
2. Eckley CA, Rodrigues NFZ, Filho OCL. Otite externa maligna: tratamento com ciprofloxacino. *Braz J Otorhinolaryngol*. 1996;62(4):296-304. Disponível em: <http://oldfiles.bjorl.org/conteudo/acervo/acervo.asp?id=2224>.
3. Passos KO, Rabioli AG, Simonetti BL, Almeida S. Disfagia orofaríngea pode ser uma consequência da otite externa necrotizante: relato de caso. *Disturb Comum* (São Paulo). 2016;28(4):633-7. Disponível em <https://revistas.pucsp.br/index.php/dic/article/viewFile/29482/21983>
4. Machado, Ângelo. *Neuroanatomia funcional*. 2a ed. São Paulo: Atheneu; 2006.
5. Filho RC. Otite externa necrotizante: relato de caso e revisão de literatura [TCC]. São Paulo: Hospital Servidor público Municipal de São Paulo; 2011. Disponível em: <http://pesquisa.bvsalud.org/portal/resource/pt/sus-28034>
6. Cançado SAV, Souza LD, Faleiro RM, Siqueira JM. Otite externa necrotizante: uma doença pouco conhecida entre os

neurocirurgias. Arq Bras Neurocir (Rio de Janeiro). 2016. doi: 10.1055/s-0036-1596052.

7. Lameiras AR, Cabral RM, Silva VC, Reis LR, Escada R. Proposta de critérios de diagnóstico e de tratamento da otite externa necrotizante. Rev Portuguesa Otorrinolaringol Cir Cervico-Facial (Lisboa). 2016;54(2):80-4. Disponível em <https://www.journalsporl.com/index.php/sporl/article/view/324/522>.
8. Grandis JR, Branstettes BF, Yu VL. The changing face of malignant (necrotising) external otitis: clinical, radiological, and anatomic correlations. Lancet. 2004;4(1):34-9. doi: [https://doi.org/10.1016/S1473-3099\(03\)00858-2](https://doi.org/10.1016/S1473-3099(03)00858-2).
9. Cantuária APC. Efeito da hiperglicemia crônica na resposta imunológica em humanos [TCC]. Brasília. Universidade Católica de Brasília; 2014. Disponível em <https://repositorio.ucb.br/jspui/bitstream/10869/4415/1/Ana%20Paula%20de%20Castro%20Cantu%e3%a1ria.pdf>.
10. Lee KJ. Princípios de otorrinolaringologia: cirurgia de cabeça e pescoço. São Paulo: Artmed; 2010.

Recebido: 09.07.18
Aceito: 17.12.18