

# Otorrquia como complicação tardia de cirurgia otológica

Joana Maria Soares Ferreira • Leandro Ribeiro • Nuno Medeiros • Cristina Aguiar • António Faria de Almeida • Manuel Sousa • Óscar Alves • Artur Condè

## RESUMO

Apresentamos o caso de uma fistula de líquido cefalorraquidiano e meningoencefalocelo como sequelas tardias de cirurgia otológica. Este artigo tem como objetivo alertar para esta condição clínica rara, as suas manifestações, diagnóstico e tratamento, assim como para as potenciais complicações do seu não reconhecimento precoce. Descrevemos o caso de um homem de 81 anos, com antecedentes de cirurgia otológica há 20 anos, que recorreu ao serviço de urgência por otorreia com um mês de evolução e refratária ao tratamento médico. Objetivamente, apresentava uma otorreia incolor e que aumentava com manobra de valsava, associada a uma lesão polipoide a ocupar o canal auditivo externo. Foi realizada uma tira-teste que foi positiva para glicose. A TC dos ouvidos e a RMN craniana revelaram a presença de meningoencefalocelo na cavidade timpânica associado a um defeito osteo-dural ao nível do tégmen timpani. O doente foi tratado cirurgicamente, com sucesso, através de uma abordagem combinada envolvendo uma equipa multidisciplinar.

Palavras-chave: otorreia de líquido cefalorraquidiano; meningoencefalocelo craniano; procedimentos cirúrgicos otológicos

### Joana Maria Soares Ferreira

Serviço de Otorrinolaringologia, Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia e Espinho, Portugal

### Leandro Ribeiro

Serviço de Otorrinolaringologia, Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia e Espinho, Portugal

### Nuno Medeiros

Serviço de Otorrinolaringologia, Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia e Espinho, Portugal.

### Cristina Aguiar

Serviço de Otorrinolaringologia, Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia e Espinho, Portugal.

### António Faria de Almeida

Serviço de Otorrinolaringologia, Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia e Espinho, Portugal

### Manuel Sousa

Serviço de Otorrinolaringologia, Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia e Espinho, Portugal

### Óscar Alves

Serviço de Neurocirurgia, Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia e Espinho, Portugal

### Artur Condè

Serviço de Otorrinolaringologia, Centro Hospitalar Vila Nova de Gaia e Espinho, Portugal

### Correspondência

Joana Maria Soares Ferreira  
joana\_msf@hotmail.com

Artigo recebido a 11 de Novembro de 2021. Aceite para publicação a 25 de Janeiro de 2022.

## INTRODUÇÃO

A otorrquia é um sinal clínico que representa a saída de líquido cefalorraquidiano (LCR) pelo canal auditivo externo<sup>1</sup>. Pode ter origem congénita ou adquirida, esta última, por sua vez, classificada em traumática, não traumática ou espontânea<sup>1</sup>. O diagnóstico pode ser claro, na presença de uma causa evidente<sup>1,2</sup>. Contudo, na sua ausência, é necessário um elevado índice de suspeição de forma a evitar complicações potencialmente fatais<sup>1-3</sup>. O tratamento depende da etiologia subjacente podendo ser conservador ou cirúrgico<sup>2,3</sup>. Neste artigo, os autores apresentam um caso raro de fistula de LCR e meningoencefalocelo otológicos identificados clinicamente e tratados cirurgicamente, apresentando uma breve revisão da literatura.

## DESCRIÇÃO DO CASO CLÍNICO

Doente do sexo masculino, 81 anos, caucasiano, com antecedentes pessoais de mastoidectomia radical esquerda, no contexto de otite média crónica com colesteatoma, realizada há 30 anos noutra instituição, tendo ficado cófotico desse ouvido desde essa altura. Recorreu ao serviço de urgência de Otorrinolaringologia do Centro Hospitalar de Vila Nova de Gaia/Espinho por otorreia esquerda com cerca de um mês de evolução, refratária à antibioterapia instituída (amoxicilina e ácido clavulânico 875/125 mg). Negava febre, otalgia, cefaleias, outras queixas otológicas ou neurológicas. Não apresentava história de traumatismo recente.

Ao exame objetivo, apresentava uma otorreia ativa, de médio débito, aquosa e incolor e que aumentava com a manobra de valsava. (Figura 1A e B)

A otomicroscopia revelou uma lesão polipoide na parede postero-superior do canal auditivo externo, que impossibilitava, pelas suas dimensões, a visualização da membrana timpânica. O restante exame otorrinolaringológico e o exame neurológico sumário não revelavam alterações. Mediante a suspeita de uma fistula de LCR, foi realizada uma tira-teste da amostra de otorreia que foi positiva para glicose. (Figura 2 A e B)

Foi solicitada Tomografia Computorizada (TC) dos ouvidos que revelou a presença de uma lesão de tecidos moles que ocupava a mastóide, a cavidade timpânica e o canal auditivo externo. A lesão destruía o *scutum* e apresentava solução de continuidade ao nível do tégmen timpani. (Figura 3 A e B)



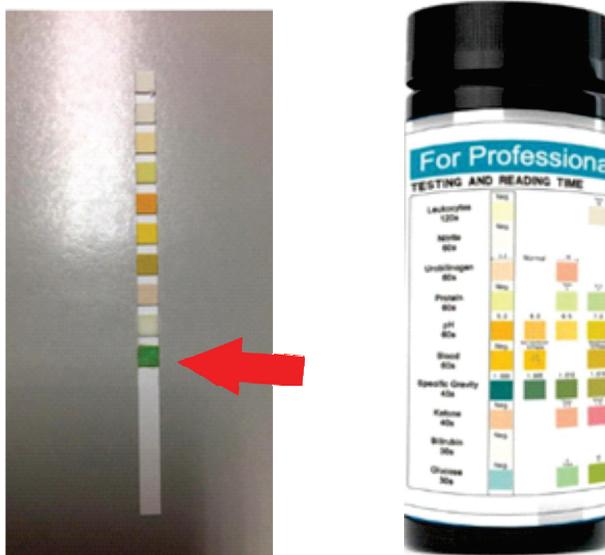
**FIGURA 1**

Otorreia aquosa, incolor, de médio débito visualizada à inspeção



**FIGURA 2**

Tira-teste da amostra de otorreia positiva para glicose



De forma a complementar o estudo, realizou-se Ressonância Magnética Nuclear (RMN) craniana que revelou um componente tecidual no canal auditivo externo com sinal idêntico ao do parênquima encefálico, correspondendo muito provavelmente a um meningoencefalocelo temporal. Além disso, o ouvido médio e o canal auditivo externo encontravam-se preenchidos por fluido hiperintenso em T2, que suprimia na sequência FLAIR, correspondendo a LCR.

Estes achados confirmaram a suspeita de fístula de LCR com meningoencefalocelo temporal. (Figura 4 A, B e C) O doente foi internado e medicado com antibiótico (ceftriaxone 2mg, 12/12h, ev) e com recomendações de repouso, elevação de cabeceira, dieta laxante e vigilância de sinais de infecção do sistema nervoso central.

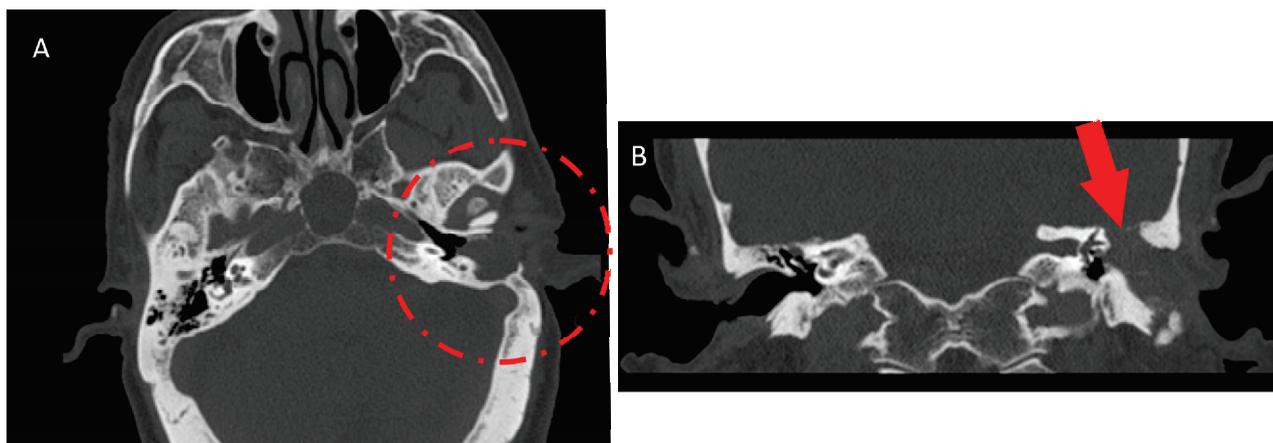
Foi proposta cirurgia por abordagem multidisciplinar com a equipa de neurocirurgia tendo sido realizada uma via combinada (via fossa média e transmastóideia). Após exploração, identificação e excisão do meningoencefalocelo, via fossa média, procedeu-se a alargamento da cavidade de esvaziamento da mastoidectomia radical prévia, constatando-se vestígios de meningoencefalocelo, que foi excisado e enviado para análise anátomo-patológica. Esta confirmou tratar-se de tecido cerebral, excluindo a existência de colesteatoma. O defeito osteo-dural foi encerrado através de múltiplas camadas de material autólogo e heterólogo: fásia lata liofilizada (underlay e overlay), osso de craniotomia, Durassel®, cera de osso, cola de fibrina e Surgicel®. (Figura 5 A e B)

O doente manteve-se sobre estritas recomendações no pós-operatório (repouso, elevação da cabeceira e dieta laxante), mantendo terapêutica com ceftriaxone 2mg, 12/12h, ev.

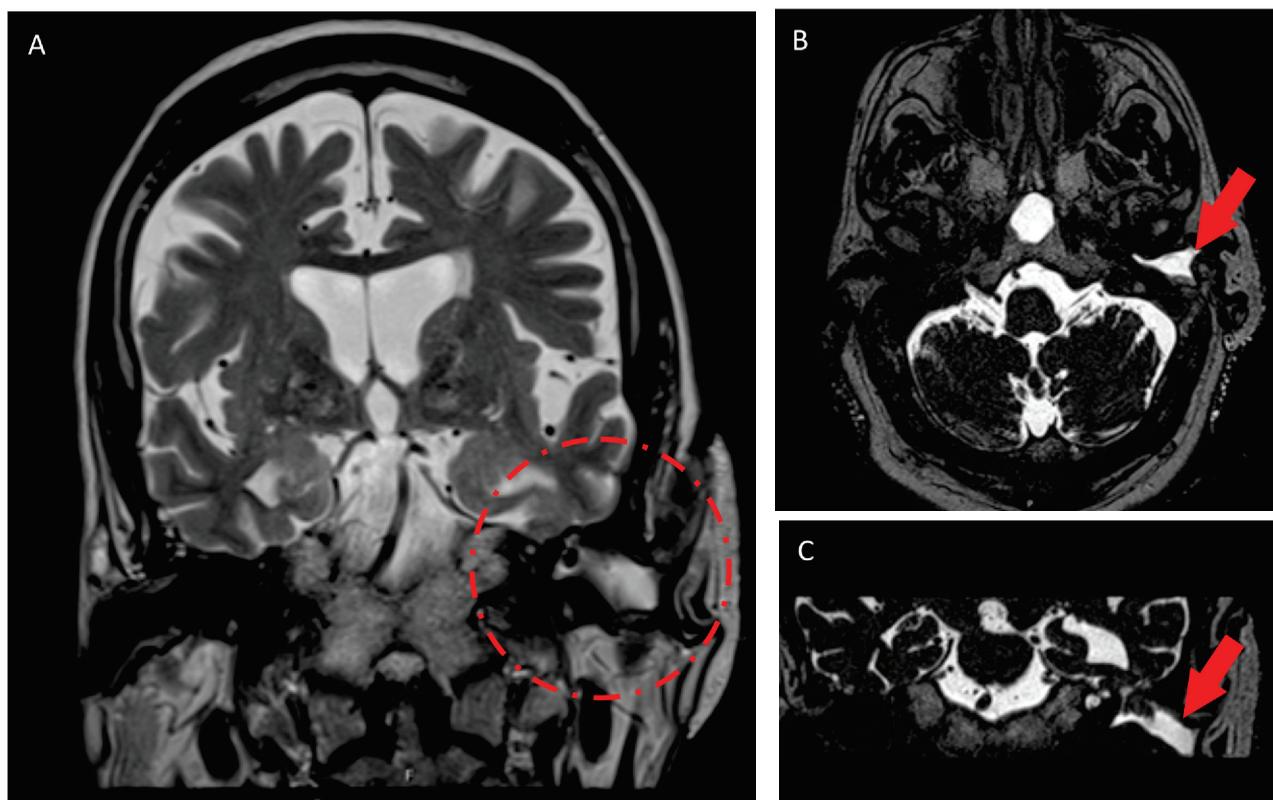
A TC de controlo do pós-operatório revelou aparente encerramento da fístula (Figura 6), tendo o doente tido alta ao oitavo dia de pós-operatório, com total resolução da otorrquia.

**FIGURA 3**

TC de Ouidos, A - Corte Axial: formação arredondada de tecidos moles a ocupar a mastóide, cavidade timpânica e canal auditivo externo (linha tracejada); B- Corte Coronal: destruição do *scutum* e solução de continuidade ao nível do tégmen timpani (seta).

**FIGURA 4**

RMN craniana, A- corte coronal em T1; B- corte axial em T2, demonstrando meningoencefalocelo temporal (Linha a tracejada) e líquido cefalorraquidiano no ouvido médio (setas.)



O doente encontra-se em vigilância na instituição sem sequelas cirúrgicas ou intercorrências registradas.

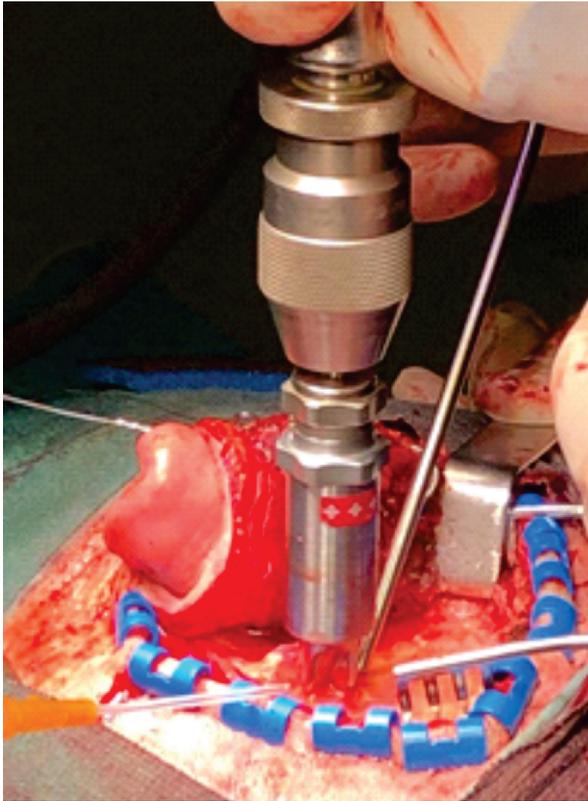
**DISCUSSÃO**

As fistulas de LCR otológicas caracterizam-se pela saída de líquido da cavidade intracraniana através de uma comunicação anormal entre o espaço subaracnoideu e uma estrutura pneumatizada da fossa média, devido à presença de um defeito osteo-dural<sup>1</sup>. Quando esse defeito é suficientemente amplo, e na presença de

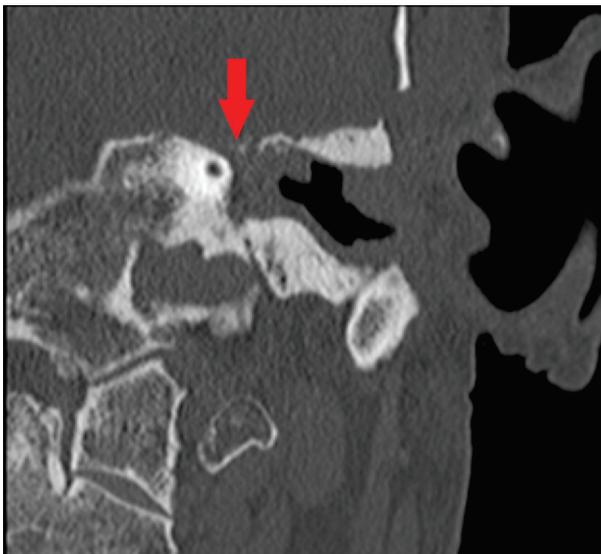
fatores predisponentes como infecções crônicas ou hipertensão intracraniana, pode acompanhar-se da herniação da meninge, (meningocele) ou, mais raramente, de tecido cerebral (meningoencefalocelo)<sup>3</sup>. De acordo com a sua etiologia, as fistulas de LCR otológicas podem ser classificadas em congênitas ou adquiridas<sup>1,4</sup>. As adquiridas, podem, por sua vez, ser classificadas em traumáticas (traumatismo craniano, agressão cirúrgica), não traumáticas (devidas a infecções ou tumores), ou espontâneas, quando não existe uma

**FIGURA 5**

Abordagem cirúrgica combinada: A- neurocirurgia (via fossa média); B- otorrinolaringologia (via transmastóideia)

**FIGURA 6**

TC de controlo revelando encerramento do defeito osteo-dural (seta).



causa evidente<sup>1,4</sup>. As fistulas de LCR traumáticas são as mais comuns, correspondendo a 80-90% dos casos<sup>1</sup>. As manifestações clínicas são variadas, dependendo da etiologia, do tamanho do defeito osteo-dural e da integridade das estruturas do ouvido médio<sup>1,4-6</sup>. No caso clínico apresentado era evidente a presença de otorrquia devido à ausência de integridade das

estruturas do ouvido médio. Contudo, as manifestações podem ser mais subtis, no caso de uma membrana timpânica íntegra, com saída de *líquor* pela trompa de eustáquio e, conseqüentemente, pela rinofaringe (rinorrquia), que poderá ser assintomática<sup>1</sup>. Da mesma forma, poderão manifestar-se com hipoacusia, plenitude aural, cefaleias ou meningites recorrentes<sup>2,5</sup>. Deste modo, será necessário um elevado índice de suspeição, sobretudo nas fistulas de LCR espontâneas, uma vez que a sua forma de apresentação pode mimetizar situações otorrinolaringológicas mais comuns como a otite media serosa, a otite media crónica ou até mesmo uma rinite alérgica ou vasomotora<sup>2,4,5,7</sup>.

Pelo facto de constituir uma porta de entrada para o SNC, a meningite bacteriana é a sua complicação mais comum, ocorrendo em 25-50% dos casos<sup>4,8</sup>. De facto, perante um doente com história de meningites recorrentes dever-se-á suspeitar e excluir a presença de uma fistula de LCR<sup>2,8</sup>. Outras potenciais complicações são a cerebrita, o abscesso intracraniano, o pneumatocelo e até mesmo a morte<sup>2,7-10</sup>.

O diagnóstico clínico é tipicamente confirmado pelo doseamento de beta 2 transferrina numa amostra de *líquor*. A beta 2 transferrina é um polipeptídeo encontrado apenas no LCR, perilíngua e humor aquoso, com uma especificidade e sensibilidade de 97% e 99%, respectivamente<sup>7,10</sup>. Outro biomarcador do LCR é a beta-trace-proteína, cuja sensibilidade e especificidade são, respectivamente, 91% e 100%. Tem a vantagem

de ser um teste menos dispendioso e mais rápido, quando comparado com a beta 2 transferrina<sup>7</sup>. No caso clínico apresentado, dada a indisponibilidade destes biomarcadores em contexto de urgência, foi realizada uma tira teste para a pesquisa de glicose numa amostra de otorreia, uma vez que o LCR apresenta uma concentração de glicose 60% superior a outros líquidos biológicos. Embora não permita estabelecer o diagnóstico definitivo, trata-se de um teste rápido e facilmente disponível à cabeceira do doente.

Após a confirmação do diagnóstico, com o doseamento de beta 2 transferrina, dever-se-á solicitar um exame de imagem para determinar a localização e a extensão da fistula assim como a existência de complicações<sup>4,7,10</sup>. A informação fornecida pela TC e pela RMN complementam-se<sup>4,7,10</sup>. Enquanto a primeira permite a avaliação dos defeitos ósseos (sensibilidade de 92% e especificidade de 100%), a RMN avalia os tecidos moles, permitindo a realização de uma cisternografia nas sequências T2<sup>4,7,10</sup>. A cisternografia intra-tecal, por TC ou radionucleotídeos, que outrora fora o *goldstandard* do diagnóstico está atualmente reservada para os casos mais complexos nomeadamente na presença de múltiplas fraturas ou defeitos osteo-durais ou em doentes cuja TC não revela o defeito ósseo<sup>4,7,10</sup> permitindo uma identificação mais exacta da localização do defeito osteo-dural.

O tratamento das fístulas de LCR depende da etiologia subjacente<sup>2</sup>. A abordagem conservadora consiste em antibioterapia profilática em doses meníngeas (ex. ceftriaxone 2mg, 12/12h, ev), repouso absoluto no leito com cabeceira elevada, evicção de manobras de Valsalva facilitada com a instituição de uma dieta laxante e uso de anti-histamínico, restrição hídrica, administração de diuréticos e em casos seleccionados (nomeadamente em fístulas de grandes dimensões ou de alto débito), punção lombar ou drenagem lombar externa contínua.<sup>4,8,10</sup> É o tratamento de primeira linha nas fistulas traumáticas apresentando uma taxa de resolução de até 90%<sup>8</sup>. A cirurgia está assim reservada nos casos em que o tratamento conservador falha, quando há história de meningites de repetição, na presença de herniação cerebral ou meníngea (como foi o caso do doente apresentado) ou na penetração óssea cerebral<sup>1,4,6,10</sup>. O tipo de abordagem cirúrgica não é consensual na literatura, dependendo de vários fatores, designadamente do local e tamanho do defeito osteo-dural, da audição útil do doente mas também da experiência do próprio cirurgião, podendo optar-se por uma abordagem aberta (via fossa média), uma abordagem fechada (via transmastoidia) ou por uma abordagem combinada<sup>3,4,5,6,8</sup>. O encerramento do defeito osteo-dural deverá ser efetuado em múltiplas camadas, em detrimento do encerramento direto, com utilização de uma combinação de materiais autólogos (exemplo: fásia temporal, fásia lata, periósteo, pericôndrio, dura mater, cartilagem e gordura) e heterólogos (exemplo:

dura liofilizada, solução alcoólica de prolamina, cola de fibrina e cola de acrilato)<sup>5,6,7,9</sup>.

O presente artigo teve como objetivo apresentar um caso clínico de uma fístula de LCR e meningoencefalocelo, como secura tardia de cirurgia otológica, cujo diagnóstico precoce e abordagem combinada, em equipa multidisciplinar, permitiu um desfecho clínico favorável.

### Conflito de Interesses

Os autores declaram que não têm qualquer conflito de interesse relativo a este artigo.

### Confidencialidade dos dados

Os autores declaram que seguiram os protocolos do seu trabalho na publicação dos dados de pacientes.

### Proteção de pessoas e animais

Os autores declaram que os procedimentos seguidos estão de acordo com os regulamentos estabelecidos pelos diretores da Comissão para Investigação Clínica e Ética e de acordo com a Declaração de Helsínquia da Associação Médica Mundial.

### Financiamento

Este trabalho não recebeu qualquer contribuição, financiamento ou bolsa de estudos.

### Disponibilidade dos Dados científicos

Este trabalho foi apresentado publicamente como comunicação oral na Sexta Reunión interhospitalaria de la Sociedad Gallega de Otorrinolaringología y Patología Cérvico-Facial e como poster no 68o congresso Nacional da Sociedade Portuguesa de Otorrinolaringologia e Cirurgia de Cabeça e Pescoço.

### Referências bibliográficas

- 1- Alonso RC, de la Peña MJ, Caicoya AG, Rodríguez MR, Moreno EA, de Vega Fernandez VM. Spontaneous skull base meningoencephalocèles and cerebrospinal fluid fistulas. *Radiographics*. Mar-Apr 2013;33(2):553-70. doi: 10.1148/rg.332125028.
- 2- Rao N, Redleaf M. Spontaneous middle cranial fossa cerebrospinal fluid otorrhea in adults. *Laryngoscope*. 2016 Feb;126(2):464-8. doi: 10.1002/lary.25461.
- 3- Perez E, Carlton D, Alfarano M, Smouha E. Transmastoid repair of spontaneous cerebrospinal fluid leaks. *J Neurol Surg B Skull Base*. 2018 Oct;79(5):451-457. doi: 10.1055/s-0037-1617439.
- 4- Gupta A, Sikka K, Irugu DVK, Verma H, Bhalla AS, Thakar A. Temporal bone meningoencephalocèles and cerebrospinal fluid leaks: experience in a tertiary care hospital. *J Laryngol Otol*. 2019 Mar;133(3):192-200. doi: 10.1017/S0022215119000203.
- 5- Rao AK, Merenda DM, Wetmore SJ. Diagnosis and management of spontaneous cerebrospinal fluid otorrhea. *Otol Neurotol*. 2005 Nov;26(6):1171-5. doi: 10.1097/01.mao.0000179526.17285.cc.
- 6- Grinblat G, Dandinarsaiah M, Prasad SC, Piras G, Piccirillo E, Fulcheri A. et al. Temporal bone meningo-encephalic-herniation: etiological categorization and surgical strategy. *Otol Neurotol*. 2018 Mar;39(3):320-332. doi: 10.1097/MAO.0000000000001693.
- 7- Eljazzar R, Loewenstern J, Dai JB, Shrivastava RK, Iloreta AM Jr. Detection of cerebrospinal fluid leaks: is there a radiologic standard of care? A systematic review. *World Neurosurg*. 2019 Jul;127:307-315. doi: 10.1016/j.wneu.2019.01.299.
- 8- Kutz JW Jr, Tolisano AM. Diagnosis and management of spontaneous cerebrospinal fluid fistula and encephalocèles. *Curr Opin*

Otolaryngol Head Neck Surg. 2019 Oct;27(5):369-375. doi: 10.1097/MOO.0000000000000568.

9- Connor SEJ. Imaging of skull-base cephaloceles and cerebrospinal fluid leaks. Clin Radiol. 2010 Oct;65(10):832-41. doi: 10.1016/j.crad.2010.05.002.

10- Hiremath SB, Gautam AA, Sasindran V, Therakathu J, Benjamin G. Cerebrospinal fluid rhinorrhea and otorrhea: A multimodality imaging approach. Diagn Interv Imaging. 2019 Jan;100(1):3-15. doi: 10.1016/j.diii.2018.05.003.

11- Jerónimo A, Amaral A, Sousa V, Eliseu A, Gama I, Barros E. Fístulas de LCR: encerramento por cirurgia endoscópica nasossinusal. Revista Portuguesa de Otorrinolaringologia e Cirurgia de Cabeça e Pescoço 2013 Dez; 51(4):227-233. doi: 10.34631/sporl.46