

Síndrome de Gradenigo associada a otite recidiva e trombose do seio sigmoide: Relato de caso

Gradenigo Syndrome associated with recurrent otitis and sigmoid sinus thrombosis: Case report

DOI:10.34119/bjhrv3n6-172

Recebimento dos originais: 03/11/2020

Aceitação para publicação: 03/12/2020

Felipe dos Santos Souza

Acadêmico do segundo ano de Medicina

Instituição: Universidade do Estado de Mato Grosso (UNEMAT)

Endereço: Rua Rosuleta S. de Oliveira, 303, Nova Esperança, Aragarças-GO

E-mail: felipe_maraca@hotmail.com

Matheus Furlan Chaves

Acadêmico do segundo ano de Medicina

Instituição: Universidade do Estado de Mato Grosso (UNEMAT)

Endereço: Rua cigana, 25, Carandá, Campo Grande MS

E-mail: mfurlan472@gmail.com

Mariana Sandy Mada

Acadêmica do terceiro ano de Medicina

Instituição: Universidade Federal de Santa Catarina (UFSC)

Endereço: Rua Lauro Linhares 1921, Trindade, Florianópolis-SC

E-mail: m_madapp@hotmail.com

Isabelle de Almeida Ladeia

Interna de Medicina da UNIFAGOC

Instituição: UNIFAGOC

Endereço: Rua Farmacêutico Gordiano de Faria Alvin n205 apt401, Ubá-MG

E-mail: isabelleladeia1@hotmail.com

Túlio de Souza Mendes

Médico

Instituição: Hospital Santa Isabel em Ubá/MG

Endereço: Rua Nicola Campanha, 44B, Derminas, Ubá-MG

E-mail: tuliosouza95@hotmail.com

Álvaro Moreira Rivelli

Especialização em neurologia

Instituição: UNIFAGOC - professor de neuroanatomia

Endereço: Rua Santa Cruz 567 apto 101, Centro, Ubá-MG

E-mail: alvaro_rivelli@hotmail.com

RESUMO

INTRODUÇÃO: A Síndrome de Gradenigo (SG) é caracterizada pela tríade clássica de otite média complicada com otorreia purulenta, dor na área de inervação do primeiro ou segundo ramo

do nervo trigêmeo e paralisia do nervo abducente. **OBJETIVO:** Neste artigo visamos relatar caso de paciente com SG associada a lesão no nervo abducente devido a uma complicação de otite média aguda supurativa. **METODOLOGIA:** Através da realização de uma análise qualitativa de artigos nos periódicos em português e inglês indexados nas seguintes bases de dados: PubMed (Public Medical Literature Analysis and Retrieval System Online), Lilacs (Literatura Latino-Americana e do Caribe em Ciências da Saúde) e Scielo (Scientific Electronic Library Online). Além disso, analisou-se prontuários clínicos, neuroimagens e exames que forneceram os achados significativos e que foram utilizados na construção do relato **RELATO DE CASO:** feminina, 60 anos, queixa de cefaleia intensa de duração rápida, tipo choque. História mórbida pregressa de otites recidivas há 6 meses, com otalgia importante. Ao exame físico apresenta-se pálida com presença de neuralgia trigeminal de forte intensidade. Na otoscopia há presença de líquido purulento na direita. Ao exame neurológico: identificada lesão no nervo abducente. Solicitado RM e TC de crânio e seios da face que evidenciou: alteração das partes moles do lado homolateral da lesão e trombose do seio sigmoide. Paciente foi internada e iniciado antibioticoterapia com Clindamicina e Ceftriaxona (Rocefin). **RESULTADO E DISCUSSÃO:** Devido à popularização da antibioticoterapia a SG tornou-se uma entidade rara nos dias atuais. Casos graves podem evoluir com hemorragia por lesão da parede da carótida e/ou trombose dos seios venosos basais. No caso da paciente, ela apresentou trombose do seio sigmoide e lesão do nervo abducente. A presença de cefaleia do tipo choque indicou o quadro de cefaleias trigemicoautônômicas sugestiva de neuralgia do trigêmeo. Como fisiopatologia, a cefaleia da SG ocorre pela infiltração edematosa do Gânglio de Gasser (sede das células nervosas cujos dendritos constituem a porção sensitiva do trigêmeo). A dor no ouvido é intensa e profunda podendo irradiar para a região temporoparietal, retrocular ou mandibular. **CONCLUSÃO:** A SG deve ser considerada quando houver presença de cefaleia tipo choque associada a quadro de otite média, lesão do nervo abducente e trombose do seio sigmoide como complicação.

Palavras-chave: Lesão do nervo abducente, Otite, Síndrome de Gradenigo.

ABSTRACT

INTRODUCTION: Gradenigo Syndrome (GS) is characterized by the classic triad of otitis media complicated with purulent otorrhea, pain in the innervation area of the first or second branch of the trigeminal nerve and abdominal nerve paralysis. **OBJECTIVE:** In this article we aim to report a case of a patient with GS associated with a lesion in the abducent nerve due to a complication of acute suppurative otitis media. **METHODOLOGY:** Through a qualitative analysis of articles in Portuguese and English journals indexed in the following databases: PubMed (Public Medical Literature Analysis and Retrieval System Online), Lilacs (Latin American and Caribbean Literature in Health Sciences) and Scielo (Scientific Electronic Library Online). In addition, clinical charts, neuroimages and examinations were analyzed, which provided the significant findings that were used in the construction of the **CASE REPORT:** female, 60 years old, complaining of severe headache of rapid duration, shock type. morbid history of recurrent otitis for 6 months, with significant otalgia. on physical examination it presents pale with the presence of trigeminal neuralgia of strong intensity. In otoscopy there is the presence of purulent fluid on the right. On neurological examination: a lesion in the abducent nerve is identified. MRI and CT of the skull and sinuses were requested and showed: alteration of the soft tissues of the homolateral side of the lesion and thrombosis of the sigmoid sinus. The patient was admitted and antibiotic therapy with Clindamycin and Ceftriaxone (Rocefin) was started. **RESULT AND DISCUSSION:** Due to the popularization of antibiotic therapy the GS has become a rare entity nowadays. Severe cases can evolve with hemorrhage due to injury of the carotid wall and/or thrombosis of the basal venous sinuses. In the case of the patient, she presented sigmoid sinus thrombosis and lesion of

the abducent nerve. The presence of shock type headache indicated trigemicoautonomous headache suggestive of trigeminal neuralgia. As a physiopathology, GS headache occurs due to edematous infiltration of the Gasser's Ganglion (seat of nerve cells whose dendrites constitute the sensitive portion of the trigeminal). The pain in the ear is intense and deep and may radiate to the temporoparietal, retrocular or mandibular region. **CONCLUSION:** The GS should be considered when there is the presence of shock type headache associated with otitis media, abdominal nerve injury and sigmoid sinus thrombosis as a complication.

Keywords: Abducent nerve injury, Otitis, Gradenigo syndrome.

1 INTRODUÇÃO

A Síndrome de Gradenigo (SG) é caracterizada pela tríade clássica de otite média complicada com otorreia purulenta, dor na área de inervação do primeiro ou segundo ramo do nervo trigêmeo e paralisia do nervo abducente. Dentre as complicações mais comuns temos mastoidite, petrosite, abscesso intracraniano e até trombose dos seios cavernosos nos casos mais graves. Tal patologia ocorre devido à disseminação por contiguidade da infecção do ouvido médio através das células ósseas aeradas até o ápice da parte petrosa do osso temporal. Essas estruturas ficam próximas dos nervos abducente e trigêmeo, fato que pode ocasionar paralisia e dor na área de inervação destes. **OBJETIVO:** Relatar caso de paciente com síndrome de Gradenigo associada a lesão no nervo abducente devido a uma complicação de otite média aguda supurativa. **RELATO DE CASO:** Paciente feminina, 60 anos, procura ambulatório neurológico com queixa de cefaleia intensa de duração rápida, tipo choque. Comorbidades: Hipertensão Arterial Sistêmica (HAS) e Diabética Mellitus (DM). História Progressiva: otites recidivas há 6 meses, com otalgia importante. Exame Físico: Paciente pálida devido ao uso excessivo de opioides. Presença de neuralgia trigeminal de forte intensidade. Na otoscopia há presença de líquido purulento na direita. Ao exame neurológico: identificada lesão no nervo abducente. Solicitado RM e TC de crânio e seios da face que evidenciou: alteração das partes moles do lado homolateral da lesão e trombose do seio sigmoide (IMAGEM 1). Paciente foi internada e iniciado antibioticoterapia com Clindamicina e Ceftriaxona (Rocefin), além de solicitação de exames laboratoriais.

IMAGEM 1: Ressonância Magnética (RM) de crânio evidenciando alteração das partes moles do lado homolateral da lesão e trombose do seio sigmoide.

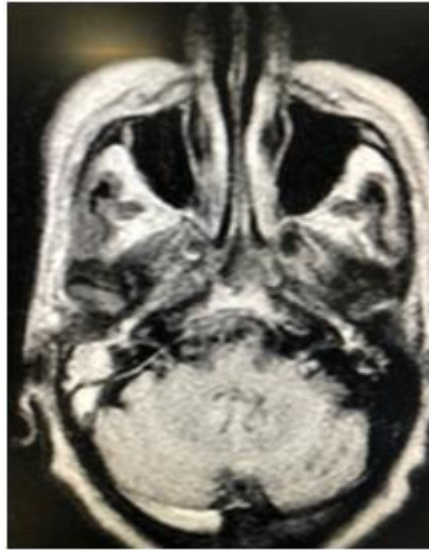


IMAGEM 2. Ressonância Magnética (RM) de Crânio evidenciando imagem ponderada em T1 pós contraste, corte axial, apresentando interrupção do fluxo do contraste nos seios sigmoide e transverso à esquerda, sugestivo de trombose venosa.

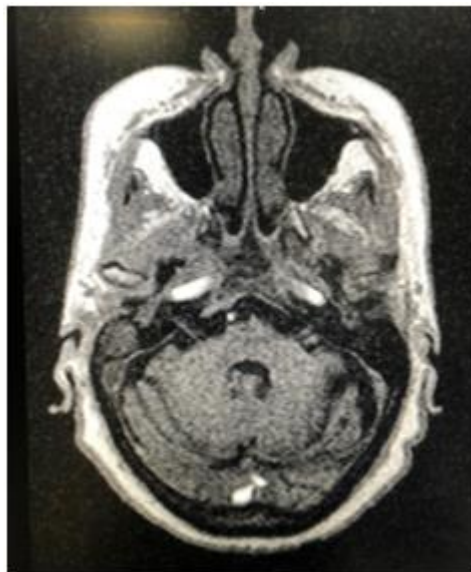
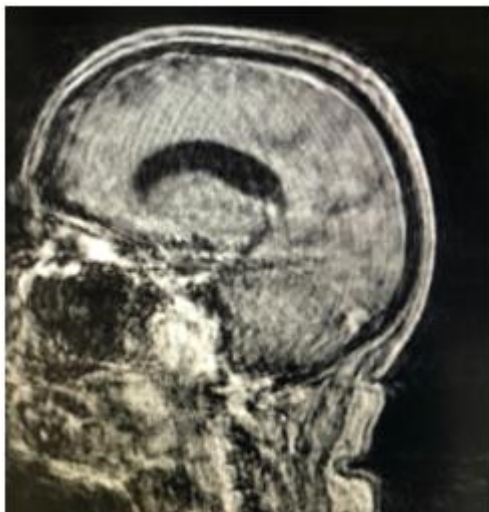


IMAGEM 3. Ressonância Magnética (RM) de Crânio evidenciando imagem em reconstrução, corte sagital, apresentando contraste na confluência dos seios.



2 RESULTADOS E DISCUSSÃO

Devido à popularização da antibioticoterapia a Síndrome de Gradenigo tornou-se uma entidade rara nos dias atuais. Todavia, importantes complicações podem ocorrer como mastoidite, petrosite, meningite, abscesso intracraniano/parafaríngeo/pré-vertebral, disseminação pelo plexo simpático ao redor da artéria carótida (síndrome de Claude-Bernard-Horner) e disseminação para a base do crânio acometendo os nervos IX, X e XI (síndrome de Vernet). Casos graves podem evoluir com hemorragia por lesão da parede da carótida e/ou trombose dos seios venosos basais.

No caso da paciente, ela apresentou trombose do seio sigmoide e lesão do nervo abducente. A presença de cefaleia do tipo choque indicou o quadro de cefaleias trigemicoautônômicas sugestiva de neuralgia do trigêmeo. Como fisiopatologia, a cefaleia da SG ocorre pela infiltração edematosa do Gânglio de Gasser (sede das células nervosas cujos dendritos constituem a porção sensitiva do trigêmeo). A dor no ouvido é intensa e profunda podendo irradiar para a região temporoparietal, retrocular ou mandibular.

3 CONSIDERAÇÕES FINAIS

A SG deve ser considerada quando houver presença de cefaleia tipo choque associada a quadro de otite média, lesão do nervo abducente e trombose do seio sigmoide como complicação. Sendo esta patologia um evento raro, evidencia-se a importância de relatos de caso sobre essa doença, possibilitando à comunidade científica um conhecimento mais amplo sobre a mesma. Possibilitando, assim, uma abordagem adequada, podendo-se empregar o tratamento conservador até cirurgia para casos crônicos e refratários à terapia com antibioticoterapia.

REFERÊNCIAS

- 1- Suzich KL, Adelson S, Choi CS. An Interesting Case of Gradenigo Syndrome. *J Binocul Vis Ocul Motil.* 2019 Jan-Mar;69(1):1-2. doi: 10.1080/2576117X.2018.1540909. Epub 2019 Jan 7. PMID: 30615575.
- 2- Rossi N, Swonke ML, Reichert L, Young D. Gradenigo's syndrome in a four-year-old patient: a rare diagnosis in the modern antibiotic era. *J Laryngol Otol.* 2019 Jun;133(6):535-537. doi: 10.1017/S0022215119001026. Epub 2019 May 28. PMID: 31134874.
- 3- Taklalsingh N, Falcone F, Velayudhan V. Gradenigo's Syndrome in a Patient with Chronic Suppurative Otitis Media, Petrous Apicitis, and Meningitis. *Am J Case Rep.* 2017 Sep 28; 18:1039-1043. doi: 10.12659/ajcr.904648. PMID: 28955030; PMCID: PMC5629926.
- 4- Bozan N, Düzenli U, Yalinkilic A, Ayril A, Parlak M, Turan M, Kiroglu AF. Gradenigo Syndrome Induced by Suppurative Otitis Media. *J Craniofac Surg.* 2018 Oct;29(7):e645-e646. doi: 10.1097/SCS.0000000000004660. PMID: 29894453.
- 5- Özkaçmaz S. Acute otitis media associated with Gradenigo syndrome and transverse sinus thrombosis: a case report. *J Int Med Res.* 2019 Mar;47(3):1348-1352. doi: 10.1177/0300060518823404. Epub 2019 Jan 22. PMID: 30669916; PMCID: PMC6421389.
- 6- Kazemi T. Acute Otitis Media-Induced Gradenigo Syndrome, a Dramatic Response to Intravenous Antibiotic. *Iran J Otorhinolaryngol.* 2017 May;29(92):165-169. PMID: 28589111; PMCID: PMC5448032.
- 7- Valles JM, Fekete R. Gradenigo syndrome: unusual consequence of otitis media. *Case Rep Neurol.* 2014 Jul 30;6(2):197-201. doi: 10.1159/000365843. PMID: 25232331; PMCID: PMC4164058.
- 8- Tornabene S, Vilke GM. Gradenigo's syndrome. *J Emerg Med.* 2010 May;38(4):449-51. doi: 10.1016/j.jemermed.2007.08.074. Epub 2008 Mar 4. PMID: 18296009.
- 9- Dorner RA, Ryan E, Carter JM, Fajardo M, Marsden L, Fricchione M, Higgins A. Gradenigo Syndrome and Cavitory Lung Lesions in a 5-Year-Old With Recurrent Otitis Media. *J Pediatric Infect Dis Soc.* 2017 Sep 1;6(3):305-308. doi: 10.1093/jpids/pix018. PMID: 28903516.
- 10- Jensen PV, Hansen MS, Møller MN, Saunte JP. The Forgotten Syndrome? Four Cases of Gradenigo's Syndrome and a Review of the Literature. *Strabismus.* 2016;24(1):21-7. doi: 10.3109/09273972.2015.1130067. Epub 2016 Mar 16. PMID: 26979620.
- 11- Costa JV, João M, Guimarães S. Bilateral papilledema and abducens nerve palsy following cerebral venous sinus thrombosis due to Gradenigo's syndrome in a pediatric patient. *Am J Ophthalmol Case Rep.* 2020 Jul 10; 19:100824. doi: 10.1016/j.ajoc.2020.100824. PMID: 32695930; PMCID: PMC7363656.
- 12- Colpaert C, Van Rompaey V, Vanderveken O, Venstermans C, Boudewyns A, Menovsky T, de Veuster I, Van de Heyning P, Hamans E. Intracranial complications of acute otitis media and Gradenigo's syndrome. *B-ENT.* 2013;9(2):151-6. PMID: 23909122.

- 13- Athapathu AS, Bandara ERS, Aruppala AAHS, Chandrapala KMAU, Mettananda S. A child with Gradenigo syndrome presenting with meningism: a case report. *BMC Pediatr.* 2019 Oct 13;19(1):350. doi: 10.1186/s12887-019-1754-6. PMID: 31607266; PMCID: PMC6790238.
- 14- Guedes V, Gallegos P, Ferrero A, García Minúzzi M, Casanovas A, Georgetti B, Potaznik J, Cairolí H, Schenone N. Síndrome de Gradenigo: comunicación de un caso [Gradenigo's syndrome: a case-report]. *Arch Argent Pediatr.* 2010 Jun;108(3):e74-5. Spanish. doi: 10.1590/S0325-00752010000300012. PMID: 20544125.
- 15- Sherman SC, Buchanan A. Gradenigo syndrome: a case report and review of a rare complication of otitis media. *J Emerg Med.* 2004 Oct;27(3):253-6. doi: 10.1016/j.jemermed.2004.03.014. PMID: 15388211.
- 16- Lutter SA, Kerschner JE, Chusid MJ. Gradenigo syndrome: a rare but serious complication of otitis media. *Pediatr Emerg Care.* 2005 Jun;21(6):384-6. doi: 10.1097/01.pec.0000166731.70847.d5. PMID: 15942518.
- 17- Villa G, Lattere M, Rossi A, Di Pietro P. Acute onset of abducens nerve palsy in a child with prior history of otitis media: a misleading sign of Gradenigo syndrome. *Brain Dev.* 2005 Mar;27(2):155-9. doi: 10.1016/j.braindev.2004.02.003. PMID: 15668058.
- 18- Kong SK, Lee IW, Goh EK, Park SE. Acute otitis media-induced petrous apicitis presenting as the Gradenigo syndrome: successfully treated by ventilation tube insertion. *Am J Otolaryngol.* 2011 Sep-Oct;32(5):445-7. doi: 10.1016/j.amjoto.2010.07.018. Epub 2010 Oct 2. PMID: 20888067.
- 19- Hananya S, Horowitz Y. [Gradenigo syndrome and cavernous sinus thrombosis in fusobacterial acute otitis media]. *Harefuah.* 1997 Oct 2;133(7-8):284-6, 335. Hebrew. PMID: 9418358.
- 20- McLaren J, Cohen MS, El Saleeby CM. How well do we know Gradenigo? A comprehensive literature review and proposal for novel diagnostic categories of Gradenigo's syndrome. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol.* 2020 May; 132:109942. doi: 10.1016/j.ijporl.2020.109942. Epub 2020 Feb 8. PMID: 32065876.
- 21- Bloching M, Heider C, Amm S, Kösling S. Gradenigo-Syndrom. Immer noch eine bedrohliche otogene Komplikation [Gradenigo syndrome--still a threatening complication of otitis media]. *HNO.* 2005 Oct;53(10):884-8. German. doi: 10.1007/s00106-004-1163-4. PMID: 15340703.
- 22- Tutuncuoglu S, Uran N, Kavas I, Ozgur T. Gradenigo syndrome: a case report. *Pediatr Radiol.* 1993;23(7):556. doi: 10.1007/BF02012150. PMID: 8309765.