

Manejo de fístula liquórica com histórico de cefaléia associada: relato de caso

¹Izabela bezerra Pinheiro Espósito; ²Bruna Rezende Telles; ²Maria Fernanda Esposito Santin Lucas; ³Gianne Hanna Guimarães Dib; ³Omar César dos Santos; ⁴Mário Pinheiro Espósito.

¹Médica Residente do Hospital Otorrino, Cuiabá - MT

²Acadêmica de medicina da Universidade de Cuiabá – UNIC, Cuiabá - MT

³Médico do Hospital Otorrino, Cuiabá - MT

³Médico Otorrinolaringologista do Hospital Otorrino, Cuiabá - MT

Resumo

Fístula liquórica é a uma comunicação anormal entre o espaço que contém o líquido cefalorraquidiano (LCR) e o ambiente externo. Os sintomas associados podem incluir cefaleia, causada pela diminuição do volume de LCR ao redor do cérebro com redução da pressão, desencadeando a dor de cabeça, rinorreia ou otorreia liquórica e infecções recorrentes. **Objetivo:** Relatar um caso de fístula liquórica em paciente, com histórico de cefaléia associada, com possível fator causal de hipertensão intracraniana, ainda não esclarecido. **Descrição caso:** Paciente, feminina, 47 anos, apresenta rinorreia hialina, unilateral, incolor e fluida, principalmente ao inclinar a cabeça há 5 meses, associado a quadro de cefaléia intensa, em pressão, que precede e coexiste com a manifestação clínica relatada, a qual melhora ao gotejamento de substância. Ao exame físico otorrinolaringológico, como rinoscopia e oroscopia, não foram detectadas qualquer alteração, exceto pela presença de rinorreia hialina. Em relação aos exames complementares, foram utilizados os métodos de ressonância magnética do encéfalo e face, tomografia computadorizada de seios da face, videonasofaringoscopia e análise de substância, os quais, em sua maioria foram sugestivos de fístula liquórica. A paciente até o presente momento faz acompanhamento multidisciplinar com profissional da área de neurologia para melhor elucidação do quadro e decisão terapêutica definitiva por método cirurgia. Por ora, realiza tratamento conservador. **Conclusão:** A condição de fístula liquórica está relacionada a grande morbimortalidade devido seu elevado risco de complicações, como infecções do SNC. Sendo assim, difundir o correto manejo do quadro pode contribuir com informações para a redução de morbimortalidade.

Palavras-chave: Fístula, Rinorreia de Líquido Cefalorraquidiano, Cefaleia.

Abstract

Liquoric fistula is attribute to an abnormal communication among the space containing cerebrospinal fluid (CSF) and the external environment. CSF leaks can trigger a low-pressure headache, rhinorrhea or otorrhea and recurrent infections. **Objective:** Reported the case of a cerebrospinal fluid leak of a patient that present a history of associated headache, with a possible causal factor of intracranial hypertension, which has not yet been elucidated. **Case report:** Female, 47 years old, presents with hyaline, unilateral, colorless, and fluid rhinorrhea, mainly when tilting her head for 5 months, associated with an intense pressure headache, which precedes and coexists with the reported clinical manifestation, which improves with drip of substance. During physical otorhinolaryngological clinical examination, such as rhinoscopy and oroscopy, no changes were detected, except for the presence of hyaline rhinorrhea. Regarding complementary exams, it was requested a magnetic resonance imaging of the brain and face, computed tomography of the sinuses, video nasopharyngoscopy and material analysis, most of which were suggestive of cerebrospinal fluid fistula. The patient is currently undergoing multidisciplinary follow-up with a neurology professional to better elucidate the condition and adjust a definitive therapeutic decision by surgery. For now, she is undergoing conservative treatment. **Conclusion:** The condition of CSF fistula is related to high morbidity and mortality due to its high risk of complications, such as CNS infections. Therefore,

disseminate information about the correct management of the condition can contribute to reduce morbidity and mortality.

Key word: Fistula, Cerebrospinal Fluid Rhinorrhea, Cefalea.

Introdução

O líquido cefalorraquidiano (LCR) trata-se de uma substância incolor, que circula entre as estruturas do sistema nervoso central, sendo elas, o cérebro, medula e meninges, sendo em maior quantidade secretado pelo Plexo Coróideo dos Ventriculos cerebrais. Dentre as principais funções do Liquor, destaca-se a proteção mecânica e imunológica das estruturas nobres do sistema nervoso central, nutrição, manutenção do equilíbrio¹.

O Liquor é primordialmente constituído por proteína, glicose, enzimas, potássio, magnésio, lactato, dentre outros eletrólitos e minerais. Sendo assim, é considerado normal um LCR que contenha baixa concentração de proteínas e células e aspecto límpido, em "água de rocha". Dessa forma, infere-se que os aumentos dos níveis proteicos indicam alterações na barreira hematoliquórica ou à produção de células de defesa. Além disso, condições como edema cerebral, hipertensão intracraniana, hemorragia das meninges, tumores no SNC e distúrbios metabólicos também apresentem anormalidade liquórica¹.

Contudo, entende-se como Fístula Líquórica (FL) o extravasamento de Líquor aquém do sistema nervoso central, decorrente de lesão araquinóidea, dura-mater, osso e mucosa, podendo ser classicamente dividido em causa rinogênica (mais comum) e otológica. Além disso, pode ser de origem traumática, normalmente associada à traumatismo crânio-fácil e não traumática^{2,3}.

As fístulas liquóricas rinogênicas são oriundas de uma comunicação do espaço subaracnóideo com a cavidade nasal ou seios paranasais, manifestando-se como rinorréia hialina e, normalmente, unilateral, que ocorre ao movimentar a cabeça anteriormente. As fístulas não traumáticas, como já mencionado, são provenientes de alterações que ocorrem no sistema nervoso central, podendo ser secundárias à hipertensão intracraniana, edema cerebral, tumores, doenças metabólicas, dentre outras afecções^{3,4}.

Dessa forma, deve-se iniciar investigação nos casos suspeitos, evitando complicações, como meningite. O diagnóstico é realizado a partir da coleta e análise do líquido proveniente da rinorréia, que pode ser pesquisado por meios dos métodos de pesquisa de β -2-transferrina ou β -traço-proteína, injeção de fluoresceína no líquido cefalorraquidiano e características da amostra, como, a quantidade de glicose, sendo alterado acima de 30mg/dL^{4,5}.

Durante suspeição de um quadro de Fístula Líquórica, deve-se atentar-se à história clínica do paciente e interrogá-lo a respeito de cirurgia prévias, tumores, traumas anteriores, tosse paroxística e

fatores de melhora e piora da sintomatologia, a fim de desvendar motivos que possam aumentar a pressão intracraniana e desencadear a liquorréia³⁻⁵.

Além disso, dispõe-se da Tomografia Computadorizada (TC) de crânio como método de imagem padrão-ouro para identificação anatômica do problema, podendo também, utilizar a Ressonância Magnética (RNM). Sendo assim, quando a alteração não pôde ser detectada em métodos de imagem convencionais, pode-se lançar mão Tomocisternografia, que consiste na injeção de contraste intratectal, o que permite localizar a fistula⁵.

O tratamento definitivo é realizado com a resolução cirúrgica da fistula por técnica endonasal ou transesfenoidal, a depender do caso. Entretanto, medicamentos como acetazolamida, antibiótico profilático, laxativos e repouso com decúbito elevado, podem ser prescritos^{1,3-5}.

Relato de caso

Paciente, 47 anos, feminina, acompanha no serviço de Otorrinolaringologia devido quadro de rinorréia iniciado, há 5 meses. Refere ter contraído quadro gripal em fevereiro deste dado ano, de caráter secretivo com saída de secreção nasal fluida, incolor, contínua e unilateral, até então sem características dignas de nota, assemelhando-se aos sintomas virais esperados. Desde então, quadro arrastou-se e não foi notada remissão de sintomatologia referida, persistindo rinorréia com os mesmos padrões relatados anteriormente.

Portanto, paciente relata ainda, episódios frequentes de forte cefaléia acentuada em região frontal, que melhoram com uso de analgésicos e com a liberação nasal da substância citada acima. Além disso, possui como histórico avaliação de neurologista há 16 anos devido quadros recorrentes de cefaléia, graduada como 8, numa escala de 0 a 10, sem caráter de migrânea com aura e sem fatores de melhora efetivos. Na ocasião, foram solicitados exames como conduta investigava, os quais não foram encontrados relatos formais atuais. Devido alterações nos exames realizados e história clínica, segundo relatos da paciente, optou-se por iniciar quimioprofilaxia para cefaléia, a qual fez uso por um período de tempo determinado, medida esta, suficiente para amenizar os sintomas da paciente.

Vale ressaltar que durante coleta de história clínica, descartou-se quaisquer episódios de trauma craniano, cirurgias faciais anteriores e/ou quadros infecciosos recentes, tendo sido constatado somente condição de asma desde a infância compensada com medicamentos. Além disso, não houveram quaisquer outras alterações ao exame físico, sobretudo, otorrinolaringológico, como rinoscopia e oroscopia, exceto pela rinorréia hialina e unilateral presente ao inclinar a cabeça da paciente para frente, compatível com liquorréia.

Portanto, como forma de investigar o quadro referido foram solicitados exames complementares, como Ressonância Magnética do encéfalo e face, Videonasofaringoscopia,

Tomografia computadorizada de seios da face e citologia de secreção nasal. Sendo assim os resultados obtidos pela Ressonância Magnética do encéfalo e face evidenciaram Imagem linear junto ao aspecto anterior da lâmina cribiforme à direita com aparente comunicação com a cavidade nasal superior, havendo pequena quantidade de conteúdo hipertenso em T2, não podendo excluir eventual fistula liquórica, ou ainda secreção (Figura 1), tendo sido indicado TC de seios da face para elucidação, a qual demonstrou Espessamento mucoso discreto nos seios paranasais, infundíbulos etmoidais, recessos frontais e esfenoidais sem obliterações e rinofaringe sem particularidades (Figura 2). Além disso, à Videonasofaringoscopia conclui-se sinais de rinite, hipertrofia de cornetos inferiores, desvio septal, possível falha óssea em teto etmoide à direita com pulsação à manobra de Valsava, interrogado presença de fistula liquórica (Figura 3). Em relação à citologia de conteúdo nasal, esta fora prejudicada devido ao reduzido número de leucócitos na amostra, sendo inconclusiva para a investigação.

Atualmente paciente segue em acompanhamento no serviço de otorrinolaringologia, utilizando Corticoide nasal e anti-histamínico. Realiza seguimento também com neurologista, em aguardo de conduta e no pneumologista devido doença asmática de base.

Dessa forma, apesar de fortes evidências da presença de Fístula Liquórica, sua etiologia ainda não fora completamente compreendida, podendo ter como origem rara complicação de uma rinosinusite, ou então, possuir relação direta com as fortes cefaléias referidas a longa data, indícios de hipertensão intracraniana, sendo necessária maiores investigações, bem como avaliação médica multidisciplinar das demais áreas, como neurologia para elucidação de quadro neurológico. O mesmo vale para emprego de demais procedimentos resolutivos da condição, como a abordagem endoscópica nasal, a qual necessita realização de seguimento clínico anterior para efetivação.

**RESSONÂNCIA MAGNÉTICA DO ENCÉFALO
E DA FACE**

Indicação clínica: Suspeita de fistula.

Técnica: Sequências multiplanares T1, T2, difusão, Gradiente Echo EFLAIR.

Não foi realizada a infusão endovenosa do meio de contraste paramagnético devido a ausência de consentimento formal da paciente.

Análise:

Parênquima encefálico com morfologia e intensidade de sinal normais.

Sulcos corticais e fissuras cerebrais preservados.

Sistema ventricular supratentorial com morfologia e dimensões normais.

Estruturas da fossa posterior preservadas.

Estruturas centromedianas sem desvios em relação à linha média.

Ausência de coleções intra ou extra-axiais, formações expansivas intraparenquimatosas ou sinais de hemorragia aguda/subaguda.

Ausência de áreas com restrição à livre movimentação das moléculas de água.

Fluxo habitual ao nível das grandes artérias dos sistemas vértebro-basilar e carotídeo, segundo o critério Spin-Echo.

Sinais de sela túrcica parcialmente vazia.

Imagem linear junto ao aspecto anterior da lâmina cribiforme à direita e que aparentemente se comunica com a cavidade nasal superior, havendo pequena quantidade de conteúdo hiperintenso em T2, não se podendo excluir eventual fistula líquórica, ou ainda secreção. Sugiro prosseguir investigação com estudo por tomografia computadorizada da face, para melhor avaliação das estruturas ósseas.

Espessamento do revestimento mucoso nos seios maxilares.

Septo nasal sem desvios significativos.

Cornetos nasais têm morfologia habitual.

As estruturas intra-orbitárias têm morfologia e intensidade de sinal preservadas.

Impressão diagnóstica:

• Sinais de sela túrcica parcialmente vazia.

• Imagem linear junto ao aspecto anterior da lâmina cribiforme à direita e que aparentemente se comunica com a cavidade nasal superior, havendo pequena quantidade de conteúdo hiperintenso em T2, não se podendo excluir eventual fistula líquórica, ou ainda secreção. Sugiro prosseguir investigação com estudo por tomografia computadorizada da face, para melhor avaliação das estruturas ósseas.

Figura 1 - Laudo do exame de Videonasofaringoscopia

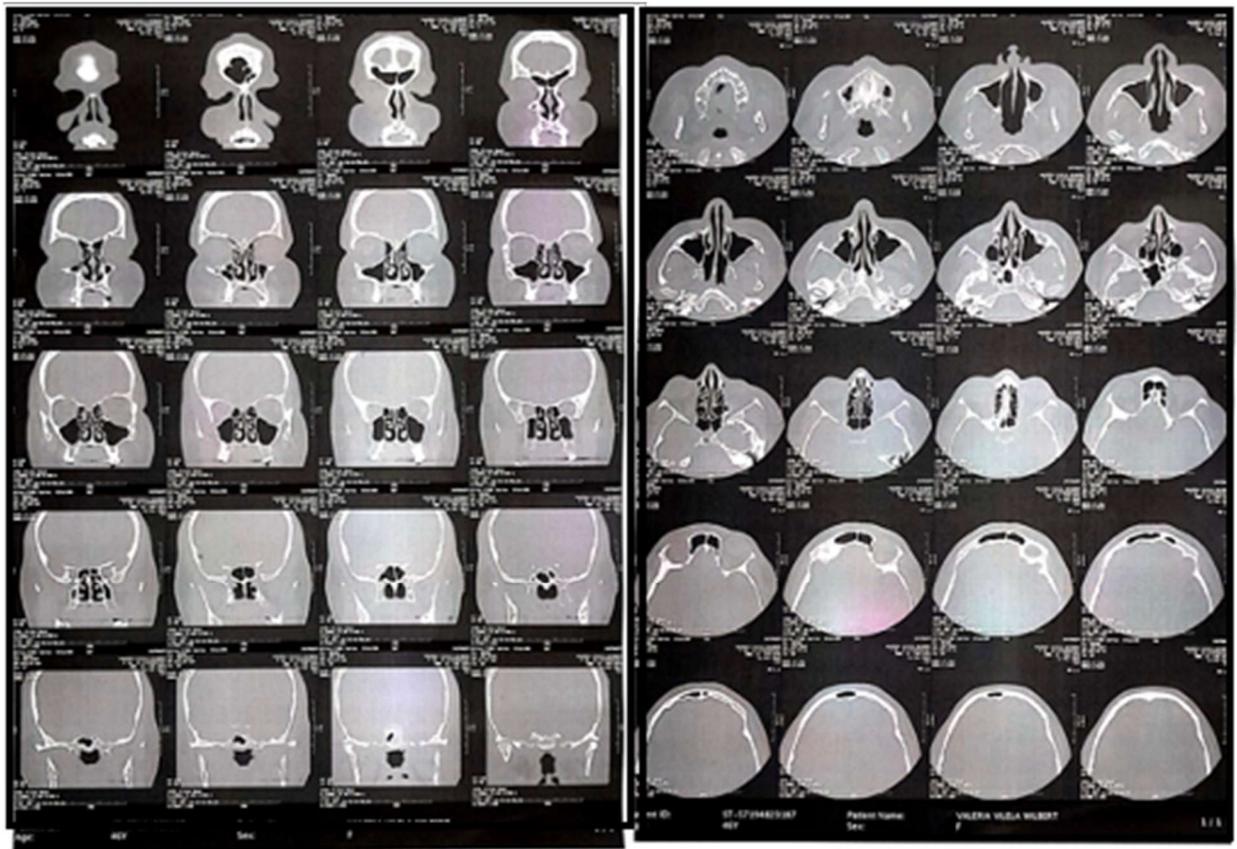


Figura 2 – Tomografia Computadorizada de seios da face

Mucosa:
Mucosas normais,
Secreção:
Secreção hialina em ambas as fossas nasais,
Secreção com pequena quantidade em ambas as fossas nasais,
Septo Nasal:
Septo nasal com desvio lado direito tipo esporão, grau II, área III, área IV,
Meato Médio:
Meato médio com secreção hialina em ambas as fossas nasais,
Meato Inferior:
Meato inferior normal bilateral,
Recesso Esfenoetmoidal:
Recesso esfenoetmoidal normal em ambas as fossas nasais,
Espaço Olfatório:
Espaço olfatório normal em ambas as fossas nasais,
Corneto Inferior:
Corneto inferior bilateral hipertrófico de grau 2+/3+,
Corneto Médio:
Corneto médio normal bilateral,
Cavum:
Cavum livre,
Tórus Tubário:
Tórus tubário livre
Pólipos ou Lesões:
Ausência de pólipos e lesões,
Manobra de Muller:
Manobra de muller não realizada,
Considerações:
Conclusão:
Rinite,
Hipertrofia de cornetos inferiores,
Desvio septal,
- Possível falha ossea em teto de etmoide a direita com pulsação à manobra de valsalva. ,
- Fistula liquórica a direita?,
- Sugiro tomografia da face a critério clínico

Figura 3 - Laudo do exame de Videonasofaringoscopia

Discussão

A Fístula Liquórica é proveniente do extravasamento da substância além das estruturas do Sistema Nervoso Central habituais. O líquido céfalo-raquidiano (LCR) tem função de proteger e nutrir o cérebro e demais estruturas nobres e quaisquer alterações na composição ou circulação desta substância interferem em inúmeros processos fisiológicos, além de promoverem diversas complicações, tais como infecções e alteração da pressão intracraniana¹, uma vez que todo processo ocorre em ambiente fechado, o que necessita de adequadas pressões e condições para bom funcionamento.

O LCR em condições normais possui aspecto límpido e incolor, em semelhança a “água de rocha” e com baixo teor de células e proteínas. Este ocupa o espaço subaracnóide e ventricular, tendo sua produção nos plexos coróides dos ventrículos cerebrais, sendo produzido e reabsorvido diariamente, processo dependente de pressão, com valores de referência entre 5 a 20 cmH₂O¹, podendo ser, a anormalidade de pressão intracraniana a potencial etiologia deste caso, com necessidade de confirmação.

Sendo assim, a fístula liquórica ocorre na vigência de comprometimento dos componentes das meninges e/ou estruturas ósseas e mucosa¹. A etiologia decorre de processos traumáticos ou não traumáticos, sendo este último compatível com o caso descrito, que pode originar-se às custas de altas pressões, como ocorre em tumores do SNC e hidrocefalia, ou em pressões normais, em casos congênitos, osteomielite ou esforço físico². Diante do exposto, a paciente em questão possui indicações para investigação de hipertensão intracraniana devido histórico de fortes cefaléias que precedem liquorréia, tendo sido excluída quaisquer possibilidades de eventos traumáticos ou cirúrgicos que possam ter desencadeado o quadro.

Ademais, outro fato que corrobora com o descrito é a prevalência de acometimento da Fístula Líquórica rinogênica idiopática, que tem predileção por ocorrer em mulheres a partir da quarta década de vida e com componentes referentes à disfunções metabólicas, como elevado IMC^{3,4}, apesar deste último não ser relativo ao quadro descrito, possuindo como comorbidades somente asma controlada desde a infância.

Em relação aos métodos diagnósticos que podem ser empregados, além da clínica sugestiva de rinorréia hialina unilateral ao inclinar-se, destacam-se a coleta e análise do líquido proveniente da rinorréia, sendo realizada sua contagem de proteínas, células e glicose, considerado alterado valores acima de 30mg/dL; A pesquisa de β -2-transferrina ou β -traço-proteína, componentes presentes especialmente no líquor e a injeção de fluoresceína, que além de detectar a presença de LCR, localiza o local de fístula^{3,4}. Sendo assim, na paciente do caso, o estudo do líquido não fora conclusivo devido amostra quantitativamente inadequada de leucócitos, além disso os demais métodos citados não foram utilizados devido indisponibilidade.

Além disso, exames como Tomografia Computadorizada e Ressonância magnética são capazes de elucidar localização da fistula liquórica ao analisar estruturas ósseas e integridade da mucosa ^{5,6}. Dos métodos de imagem disponíveis, fora realizado TC de seios da face com contraste endovenoso, evidenciando espessamento mucoso discreto de seios paranasais e desvio septal, mas nenhuma particularidade conclusiva para o caso, tendo então sido empregado o estudo através da RNM do encéfalo e face, demonstrando imagem linear junto ao aspecto anterior da lâmina cribiforme à direita, com aparente comunicação com a cavidade nasal superior, havendo pequena quantidade de conteúdo hipertenso em T2, não podendo excluir eventual fistula liquórica, necessitando melhor avaliação de estruturas ósseas. Ainda assim, fora realizado Videonasofaringoscopia, interrogando para possível fistula liquórica à direita e falha óssea em teto de etmóide à direita com pulsação à manobra de Valsalva.

Dentre as abordagens terapêuticas que podem ser empregadas destacam-se o tratamento conservador, com uso de laxativos, antibióticoprofilaxia e repouso relativo, sendo necessária reavaliação dentro de semanas, com necessidade de abordagem cirúrgica na maior parte dos casos ⁵. Dessa forma, o tratamento definitivo é realizado por meio do fechamento da fistula rinogênica por meio do método endoscópico nasal, preferencialmente ^{4,5}. Sendo assim, a paciente do presente estudo segue em realização de abordagem conservadora, fazendo uso corticoide tópico e anti-histamínico, além de repouso relativo e uso de analgésico para controle das cefaléias.

Portanto, devido escassez de informações a respeito do caso clínico apresentado, até o momento não fora possível concluir o fator causal da fistula liquórica, apesar de haver fortes indícios em se tratar de uma complicação de hipertensão intracraniana, levando-se em consideração a apresentação de rinorréia hialina unilateral precedida de forte cefaléia do tipo pressão, que melhora ao gotejamento da substância. Entretanto, a investigação diagnóstica apresenta-se incompleta, necessitando avaliação e acompanhamento multidisciplinar médico com parecer da neurologia para uma melhor abordagem, tal como o emprego do método terapêutico definitivo.

Conclusão

Este estudo evidencia a relevância em se realizar um correto diagnóstico e tratamento das condições relacionadas a fistulas liquóricas e suas repercussões, uma vez que correspondem processos de alta morbimortalidade. Sendo assim, a coleta de uma boa história clínica aliada a métodos diagnósticos e exame físico permitem chegar à principal hipótese diagnóstica, bem como seu fator causal, neste caso, possivelmente relacionado à hipertensão intracraniana. Dessa forma, uma abordagem definitiva deve ser empregada para evitar a instalação de complicações, sendo a cirurgia endoscópica endonasal a mais indicada, entretanto, para que seja efetivada, é necessário uma melhor

investigação e parecer de outras especialidades médicas, como neurologia, no caso relatado para este estudo. Diante deste cenário, a conduta conservadora têm sido a empregada até o momento enquanto aguarda a avaliação multidisciplinar para concluir com melhor acurácia o diagnóstico, etiologia e reparo definitivo, sendo que, até o dado momento não fora possível levantar demais conclusões sobre o caso. Além disso, deve-se levar em consideração as demais comorbidades da paciente descrita, dando a devida importância para os quadros de cefaléia que precedem e coexistem com a rinorréia apresentada, além de demais sintomas referidos.

Referências Bibliográficas

1. Reiber H. Cerebrospinal fluid data compilation and knowledgebased interpretation of bacterial, viral, parasitic, oncological, chronic inflammatory and demyelinating diseases: Diagnostic patterns not to be missed in Neurology and Psychiatry. *Arq Neuro-Psiquiatr.* 2016;74(4):337-50. <http://dx.doi.org/10.1590/0004-282X20160044>
2. Zanini FD, Lench RY, Steiner L da SPO, Junior AJ de OP, Silva AH da. Fístula líquórica espontânea: relato de caso. *Arquivos Catarinenses de Medicina.* 2021 13 [cited 2023;50(1):144–50. Available from: <https://revista.acm.org.br/index.php/arquivos/article/view/914/494>.
3. Pin LC. Discussão de casos: fístula Líquórica Rinogênica. *Revista Científica Multidisciplinar Núcleo do Conhecimento* [Internet]. 2019 Jan 9 [cited 2023 Aug 24];2(1):102–11. Available from: <https://www.nucleodoconhecimento.com.br/saude/fistula-liquorica-rinogenica>.
4. Schlosser RJ, Wilensky EM, Grady MS, Bolger WE. Elevated intracranial pressures in spontaneous cerebrospinal fluid leaks. *Am J Rhinol.* 2003 Jul-Aug;17(4):191-5. PMID: 12962187.
5. Matsuda T, Pirana S, Salaroli A, Luiz G, Signorelli, Tavares A, et al. Fístula líquórica esfenoidal espontânea -relato de caso. *Rev. Salusvita.* 2018;37(2):365-370. Available from: https://secure.unisagrado.edu.br/static/biblioteca/salusvita/salusvita_v37_n2_2018/salusvita_v37_n2_2018_art_06.pdf.
6. Fístula Líquórica: Métodos Diagnósticos [Internet]. *oldfiles.bjorl.org.* [cited 2023 Aug 24]. Available from: <http://oldfiles.bjorl.org/triologico2007/anais/artigos/4386.htm>