

Caracterização da função vestibular de uma população com otosclerose – Um estudo piloto de caso e controlo

Artigo Original

Autores

Miguel Campos Lopes

Centro Hospitalar de Entre o Douro e Vouga, Portugal

Alexandra Correia

Centro Hospitalar de Entre o Douro e Vouga, Portugal

Hélder Silva

Centro Hospitalar de Entre o Douro e Vouga, Portugal

Natália Oliveira

Centro Hospitalar de Entre o Douro e Vouga, Portugal

Diana Ribeiro

Centro Hospitalar de Entre o Douro e Vouga, Portugal

Vanessa Neves

Centro Hospitalar de Entre o Douro e Vouga, Portugal

Vera Miranda

Centro Hospitalar de Entre o Douro e Vouga, Portugal

Carlos Carvalho

Centro Hospitalar de Entre o Douro e Vouga, Portugal

Correspondência:

Miguel Campos Lopes

miguelcamposlopes@outlook.com

Artigo recebido a 9 de Abril de 2023.

Aceite para publicação a 26 de Maio de 2023.

Resumo

Objetivos: Caracterização da função vestibular de uma população com otosclerose e sua comparação com uma população saudável.

Desenho do Estudo: Estudo de caso-e-controlo.

Material e Métodos: Foram recrutados doentes com suspeita clínica/audiológica de otosclerose (confirmada cirurgicamente) e controlos saudáveis ajustados para idade e sexo. A função vestibular foi avaliada com recurso ao *Video Head Impulse Test* e ao questionário *Dizziness Handicap Inventory* (DHI).

Resultados: Foram incluídos um total de 24 participantes (12 casos e 12 controlos), dos quais 91.6% do sexo feminino, cuja idade média era de 44±8 anos. Os ganhos médios dos canais semicirculares não apresentaram diferença estatisticamente significativa entre os 2 grupos. Por outro lado, a pontuação no DHI diferiu de forma significativa entre os grupos (24.1 vs. 6.3; Mann-Whitney $p < 0.01$).

Conclusão: É possível verificar um compromisso funcional subjetivo do equilíbrio em doentes com otosclerose, que não parece estar associado a uma disfunção dos canais semicirculares.

Palavras-Chave: Otosclerose; Função Vestibular; *Video Head Impulse Test*; *Dizziness Handicap Inventory*

Introdução

A otosclerose é uma das doenças otológicas mais frequentes, com uma prevalência clínica estimada entre 0.3% a 0.4% da população. É uma doença com preponderância no sexo feminino e manifesta-se tipicamente entre a 3ª e a 4ª décadas de vida. Cursa com surdez de condução progressiva secundária a fixação otospongiótica da platina do estribo, podendo evoluir até envolver a cóclea e condicionar também uma perda auditiva neurosensorial.¹ A componente auditiva da otosclerose está bem estudada e descrita de forma compreensiva na literatura.^{2,3} No entanto, a evidência relativa

ao compromisso vestibular é escassa. Estudos recentes sugerem que poderá haver algum grau de atingimento do sistema vestibular em doentes com otosclerose, com potencial de ser objetivado por via de uma avaliação vestibular compreensiva, nomeadamente recorrendo ao *video head impulse test* (vHIT), provas calóricas e potenciais evocados miogénicos vestibulares cervicais (cVEMPs) e oculares (oVEMPs).⁴⁻⁶ No entanto, não existe ainda um consenso relativamente à etiologia e fisiopatologia deste compromisso vestibular, assim como à melhor forma de o avaliar.

O objetivo deste estudo foi caracterizar a função vestibular de uma população com otosclerose não operada, recorrendo ao *video head impulse test* (vHIT), e a qualidade de vida relacionada com sintomas vestibulares com recurso ao questionário *Dizziness Handicap Inventory* (DHI), assim como compará-las com uma população saudável.

Material e Métodos

Amostra

Estudo transversal observacional de caso-e-controlo. Foram recrutados participantes entre outubro de 2022 e fevereiro de 2023, tendo estes sido divididos em 2 grupos. O primeiro grupo (Casos), é composto por doentes com otosclerose provenientes da consulta de otorrinolaringologia de um hospital terciário (Centro Hospitalar de Entre o Douro e Vouga), recrutados por amostragem consecutiva. Os critérios de inclusão foram a suspeita clínica e audiológica de otosclerose (evidência de hipoacusia de condução com uma membrana timpânica íntegra), com doença uni ou bilateral em ouvidos não previamente operados, e cujo diagnóstico foi confirmado a posteriori intra-operatoriamente. Os critérios de exclusão definidos foram a presença de patologia vestibular, história de cirurgia otológica prévia, otite média crónica e a ausência de confirmação cirúrgica do diagnóstico.

Foi também incluído no presente estudo um grupo de Controlo, que inclui uma amostra de controlos hospitalares saudáveis recrutados através de uma amostragem por conveniência,

sem antecedentes de patologia otológica ou vestibular, ajustados para idade e sexo.

Avaliação Vestibular

A função vestibular foi avaliada pré-operatoriamente com recurso ao sistema *Video Head Impulse Test* (vHIT) (*ICS Impulse System, GN Otometrics*). Após uma avaliação inicial para a presença de nistagmo espontâneo, o aparelho foi calibrado e o exame foi realizado com 20 colheitas de impulso céfálico para cada direção em cada um dos 3 planos vestibulares - Horizontal, RALP (*right anterior/left posterior*) e LARP (*left anterior/right posterior*). Os critérios utilizados para definir uma disfunção de canal semicircular foram ganhos inferiores a 0.8 (nos canais semicirculares horizontais) ou 0.7 (nos canais semicirculares verticais), assimetria >15%, assim como a presença de sacadas corretivas (*overt* e *covert*), definidas como patológicas de acordo com o *software* do sistema, após inspeção visual do traçado para exclusão de artefactos.⁷ Os exames foram levados a cabo por um médico ou um audiologista com experiência na sua execução.

Foi também aplicado o questionário *Dizziness Handicap Inventory* (DHI), nomeadamente a sua versão traduzida e validada em português⁸, composto por 25 itens (pontuados de 0 a 4) referentes à avaliação subjetiva da sintomatologia vestibular e do equilíbrio, e consequentemente à qualidade de vida associada a estes sintomas. Este questionário encontra-se subdividido em 3 domínios, nomeadamente o físico, funcional e emocional.

Análise Estatística

Foi utilizada estatística descritiva para documentar as características da população. A distribuição normal foi avaliada através de inspeção visual de histograma. As variáveis categóricas estão apresentadas como frequências e percentagens (n, %) e as variáveis contínuas normais como média \pm desvio padrão (DP). Foram utilizados os testes não-paramétricos de Mann-Whitney,

Wilcoxon e Kruskal-Wallis para comparar o ganho médio do reflexo vestibulo-ocular (VOR) dos canais semicirculares entre grupos, tendo sido utilizado o teste de Mann-Whitney para comparar a pontuação obtida no DHI. Foi aplicado o teste Exato de Fisher para comparar a presença de sacadas corretivas no vHIT entre ambos os grupos. Todos os dados foram processados e analisados utilizando o *software IBM SPSS Statistics*, versão 27, tendo sido definido um cutoff de $p < 0.05$ para definição de significância estatística.

Consentimento Informado

Todos os procedimentos levados a cabo neste estudo estão de acordo com os regulamentos estabelecidos pela Comissão para Investigação Clínica e Ética da instituição e de acordo com a Declaração de Helsínquia de 1964 da Associação Médica Mundial e posteriores revisões. O trabalho recebeu parecer positivo e aprovação por parte da comissão de ética supracitada, com a referência CES N.º 57_2022. Foi fornecido um consentimento informado para participação no estudo, tendo sido assinado por todos os participantes.

Resultados

Caracterização da amostra

A amostra final continha um total de 24 participantes, dos quais 12 no grupo de otosclerose e 12 no de controlo. Um total de 22 participantes (91.6%) era do sexo feminino e a idade média nos 2 braços era de 44 ± 8 anos. No grupo de otosclerose, de referir que 6 doentes (50%) apresentavam suspeita clínica e audiológica de doença bilateral à data do diagnóstico, e nenhum apresentava

evidência de otosclerose coclear⁹ (definida como hipoacusia neurosensorial ou mista atribuível à doença). A tabela 1 apresenta as características clínicas e demográficas da amostra incluída.

Análise comparativa dos resultados do vHIT

Os ganhos médios do VOR dos canais semicirculares horizontais no grupo de otosclerose e no grupo de controlo foram de 0.97 e 1.04 para o ouvido direito, e de 0.90 e 0.97 para o ouvido esquerdo respetivamente. Esta diferença nos resultados não se demonstrou estatisticamente significativa (Man-Whitney $p = 0.89$ à direita e $p = 0.76$ à esquerda). O mesmo se verificou para os restantes canais semicirculares, assim como para a presença de sacadas corretivas (Fisher $p = 0.32$).

Os resultados supracitados encontram-se ilustrados na tabela 2.

Foi posteriormente levada a cabo uma análise por subgrupos, comparando os ganhos do VOR dos três pares de canais semicirculares entre os subgrupos controlo, otosclerose unilateral e otosclerose bilateral. Não se registou uma diferença significativa entre os ganhos médios ao longo dos três subgrupos para nenhum dos canais (Kruskal-Wallis $p > 0.05$), assim como para cada conjunto de dois subgrupos individualmente (Man-Whitney $p > 0.05$).

Ao comparar os resultados obtidos entre os ganhos dos canais semicirculares horizontais direito e esquerdo em toda a amostra, observou-se uma superioridade estatisticamente significativa para as medições à direita (Wilcoxon $p < 0.001$), não tendo sido realizada uma análise a nível de ouvido afetado.

Tabela 1
Características clínicas e demográficas da amostra (n=24)

	Otosclerose (n=12)	Controlos (n=12)
Sexo Feminino (n, %)	11 (91.6)	11 (91.6)
Idade (média \pm DP)	44.4 ± 7.6	44.0 ± 7.9
Doença bilateral (n, %)	6 (50)	-
Otosclerose coclear (n, %)	0 (0)	-

Os valores estão apresentados como (n, %) nas variáveis categóricas e como (média \pm DP) na variável contínua

Tabela 2
Análise Comparativa dos resultados obtidos no vHIT

	Otosclerose (n=12)	Controlos (n=12)	p
Ganho VOR CSC Horizontal D	0.97 ± 0.07	1.04 ± 0.22	0.89
Ganho VOR CSC Horizontal E	0.90 ± 0.07	0.97 ± 0.20	0.76
Ganho VOR CSC Anterior D	1.05 ± 0.33	0.91 ± 0.09	0.32
Ganho VOR CSC Anterior E	0.85 ± 0.13	0.91 ± 0.08	0.30
Ganho VOR CSC Posterior D	0.80 ± 0.09	0.86 ± 0.08	0.06
Ganho VOR CSC Posterior E	0.86 ± 0.22	0.83 ± 0.10	0.21
Presença de sacadas corretivas	4 (33.33)	2 (16.67)	0.32

vHIT – *Video Head Impulse Test*; VOR – reflexo vestibulo-ocular; CSC – canal semicircular; D – direito; E – esquerdo; Os valores de ganho estão apresentados como (média ± DP), estando a presença de sacadas corretivas representada como (n, %)

Tabela 3
Análise Comparativa dos resultados obtidos no DHI

	Otosclerose (n=12)	Controlos (n=12)	p
Pontuação Total Média	24.08	6.25	0.007*
Domínio Físico	6.25	2.33	0.02*
Domínio Funcional	8.42	2.67	0.006*
Domínio Emocional	9.42	1.25	0.003*

DHI – *Dizziness Handicap Inventory*; Os valores apresentados correspondem a médias aritméticas simples; *valores considerados significativamente diferentes entre grupos, assumindo um cutoff de p<0,05 para definição de significância estatística

Análise Comparativa dos resultados obtidos no DHI

No que diz respeito ao DHI, verificou-se uma diferença estatisticamente significativa entre a pontuação total média do grupo com otosclerose e a do grupo controlo (24.1 vs. 6.3; Mann-Whitney p<0.01). O mesmo se verificou para as 3 componentes do DHI (física, funcional e emocional). Os resultados respeitantes à análise comparativa da pontuação do DHI encontram-se ilustrados na tabela 3.

Discussão

A otosclerose é uma das causas mais frequentes de hipoacusia progressiva na população adulta.² No entanto, apesar da sua aparente relação com sintomas vestibulares, a evidência objetiva relativa ao atingimento vestibular per se é escassa, tendo vindo recentemente a ser alvo de investigação clínica.⁴⁻⁶

A associação entre a otosclerose e a sintomatologia vertiginosa e do equilíbrio

tem vindo a ser descrita na literatura ao longo do tempo.¹⁰⁻¹² Uma das causas propostas como possível etiologia para estes sintomas é o atingimento otosclerótico do próprio órgão vestibular, com alguma evidência histopatológica que o suporta.^{11,13} Outra teoria refere que este atingimento se dá a nível do gânglio vestibular de Scarpa.¹⁴ No entanto, existe sempre a possibilidade de a sintomatologia reportada pode corresponder patologia vestibular concomitante.¹⁵ Estão reportados na literatura casos isolados de vertigem posicional paroxística benigna (VPPB) que poderão estar relacionados com a localização e extensão da otosclerose¹⁶, e que parecem ser mais comuns no período pós-operatório precoce devido ao trauma cirúrgico.¹⁷

Passando para a perspetiva dos estudos mais recentes que procuraram avaliar esta temática, Catalano *et al.*⁴ analisaram prospectivamente uma amostra de doentes com otosclerose comparativamente a um

grupo de controlo, tendo sido feita uma avaliação pré e pós-operatória. Apesar de reportarem uma ausência de diferença significativa nos parâmetros medidos pelo vHIT entre os 2 grupos, os autores sugerem um papel dos cVEMPS na avaliação da vertigem pós-operatória, apontando para uma possível disfunção sacular de etiologia traumática devido à sua proximidade da janela oval.

Por outro lado, Satar *et al.*⁵ colocam uma hipótese semelhante, comparando doentes com otosclerose previamente operados, não previamente operados e um grupo controlo. Os achados reportados pela equipa apontam para uma redução significativa dos ganhos dos canais semicirculares horizontais nos grupos de otosclerose, assim como uma maior prevalência de sacadas corretivas.

Mais recentemente, Rajati *et al.*⁶ procuraram estudar a mesma problemática com uma amostra maior e de forma mais abrangente. Os investigadores reportam uma disfunção vestibular no grupo de otosclerose através de um atingimento do sistema otolítico, objetivado por resultados alterados nos oVEMPs e cVEMPs, assim como dos canais semicirculares, através das provas calóricas e do vHIT (cujos ganhos demonstraram ser significativamente inferiores em comparação com o grupo de controlo).

Até à data, no conhecimento dos autores, nenhum estudo publicado na literatura procurou avaliar subjetivamente a qualidade de vida relacionada com sintomatologia vestibular em doentes com otosclerose através de um estudo comparativo com uma população saudável. Os achados elencados no presente estudo não parecem indicar uma diferença significativa dos resultados do *video head impulse test* no grupo com otosclerose (doença unilateral e bilateral) comparativamente ao grupo de controlo, nomeadamente nos ganhos calculados para o reflexo vestibulo-ocular dos canais semicirculares e na presença de sacadas corretivas (Tabela 2).

Por outro lado, a pontuação total obtida no questionário DHI, assim como as

pontuações parcelares atribuídas aos três domínios do questionário (físico, funcional e emocional) apresentaram uma diferença estatisticamente significativa entre os dois grupos em estudo (Tabela 3). Assim, o conjunto dos dados apresentados permite inferir que há uma eventual relação entre a otosclerose e uma maior prevalência de sintomatologia vestibular, que não parece ser explicada por uma disfunção dos canais semicirculares objetivada pelo vHIT. Os achados apresentados estão em concordância com os resultados obtidos por Catalano *et al.*⁴, que apontam para uma ausência de efeito da otosclerose na função dos canais semicirculares, mensurável através do vHIT. No entanto, estes achados divergem dos dois estudos mais recentes sobre o tema (Satar *et al.*⁵ e Rajati *et al.*⁶), que reportam atingimento deste sistema.

A principal limitação do presente estudo prende-se com o reduzido tamanho amostral, que condiciona uma diminuição da capacidade de medição de efeito. É também importante realçar o facto de a análise ter sido realizada a nível do indivíduo e não a nível do ouvido afetado, uma vez que isto pode ter implicações na análise estatística nomeadamente na inclusão de ouvidos saudáveis no grupo de otosclerose unilateral. O fator determinante para esta limitação corresponde ao facto do aparelho utilizado (*ICS Impulse System, GN Otometrics*) ser um sistema de captação monocular, que tende a sobrestimar os ganhos do lado onde a câmara se encontra instalada (lado direito). A utilização de um sistema de captação binocular seria útil para contornar esta limitação.

No que diz respeito à execução do vHIT, ressalva-se a limitação de os exames terem sido realizados por mais que um operador, com possíveis vieses de técnica inerentes. Outra limitação importante, transversal a todos os estudos que avaliem respostas a questionários, prende-se com a grande subjetividade de interpretação e preenchimento, assim como possíveis fatores excepcionais não passíveis de controlo que possam influenciar o inquirido no momento do preenchimento.

No futuro, esta problemática deverá ser abordada com amostras maiores, procurando realizar um estudo compreensivo de todos os componentes da função vestibular de forma a ter uma avaliação global destes doentes. Deverá também ser empregue uma avaliação comparativa pré e pós-operatória, com o intuito de compreender o impacto da estapedotomia na função vestibular, assim como avaliar a presença de possíveis fatores modificadores

Conclusões

Este estudo permite verificar um compromisso funcional subjetivo do equilíbrio em doentes com otosclerose (tal como demonstrado pelo questionário DHI), que não parece estar associado a uma disfunção dos canais semicirculares evidente no vHIT. Estudos futuros deverão procurar avaliar esta problemática com amostras maiores, assim como avaliar os restantes componentes da função vestibular em doentes com otosclerose, nomeadamente através de VEMPs e provas calóricas.

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.

Política de privacidade, consentimento informado e Autorização do Comité de Ética

Os autores declaram que têm o consentimento por escrito para o uso de dados dos pacientes neste artigo.

Financiamento

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

Disponibilidade dos Dados científicos

Não existem conjuntos de dados disponíveis publicamente relacionados com este trabalho.

Referências bibliográficas

1. House JW, Cunningham CD. Otosclerosis. In: Flint P, Haughey B, Lund V, Robbins K, Thomas JR, Lesperance M. et al Cummings Otolaryngology - Head and Neck Surgery. 7th ed. Philadelphia: Elsevier; 2021. p. 2197-2206.
2. Chole RA, McKenna M. Pathophysiology of otosclerosis. *Otol Neurotol*. 2001 Mar;22(2):249-57. doi:10.1097/00129492-200103000-00023.
3. Hannley MT. Audiologic characteristics of the patient with otosclerosis. *Otolaryngol Clin North Am*. 1993 Jun;26(3):373-87. doi:10.1016/S0030-6665(20)30816-1
4. Catalano N, Cammaroto G, Galletti B, Freni F, Nicita RA, Azielli C. et al. The role of cVEMPs and vHIT in the evaluation of otosclerosis and its eventual vestibular impairment: preliminary findings. *B-ENT*. 2017;13(1Suppl 27):31-36.
5. Satar B, Karaçaylı C, Çoban VK, Ozdemir S. Do otosclerosis and stapedotomy affect semicircular canal functions? Preliminary results of video head impulse test. *Acta Otolaryngol*. 2021 Apr;141(4):348-353. doi:10.1080/00016489.2021.1873416.
6. Rajati M, Jafarzadeh S, Javadzadeh R, Disfani MF, Yousefi R. Comprehensive vestibular evaluation in patients with otosclerosis: a case control study. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg*. 2022 Dec;74(4):582-587. doi:10.1007/s12070-022-03147-5.
7. Halmagyi GM, Chen L, MacDougall HG, Weber KP, McGarvie LA, Curthoys IS. The video head impulse test. *Front Neurol*. 2017 Jun 9;8:258. doi:10.3389/fneur.2017.00258.
8. Garcia FV, Luzio CS, Benzinho TA, Veiga GB. Validação e adaptação do dizziness handicap inventory para a língua e população portuguesa de Portugal. *Acta ORL*. 2008;26(2):128-132.
9. Cureoglu S, Baylan MY, Paparella MM. Cochlear Otosclerosis. *Curr Opin Otolaryngol Head Neck Surg*. 2010 Oct;18(5):357-62. doi:10.1097/MOO.0b013e32833d11d9.
10. Morales-Garcia C. Cochleo-vestibular involvement in otosclerosis. *Acta Otolaryngol*. 1972 Jun;73(6):484-92. doi:10.3109/00016487209138969.
11. Ghorayeb BY, Linthicum FH Jr. Otosclerotic inner ear syndrome. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 1978 Jan-Feb;87(1 Pt 1):85-90. doi:10.1177/000348947808700115.
12. Cody DT, Baker HL Jr. Otosclerosis: vestibular symptoms and sensorineural hearing loss. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 1978 Nov-Dec;87(6 Pt 1):778-96. doi:10.1177/000348947808700605.
13. Sando I, Hemenway WG, Miller DR, Black FO. Vestibular pathology in otosclerosis temporal bone nistopathological report. *Laryngoscope*. 1974 Apr;84(4):593-605. doi:10.1288/00005537-197404000-00012.

14. Saim L, Nadol JBJr. Vestibular symptoms in otosclerosis - correlation of otosclerotic involvement of vestibular apparatus and Scarpa's ganglion cell count. *Am J Otol.* 1996 Mar;17(2):263-70.
15. Morozova SV, Dobrotin VE, Kulakova LA, Kaspranskaia GR, Ovchinnikov IuM. Vestibular disorders in patients with otosclerosis: prevalence, diagnostic and therapeutic options. *Vestn Otorinolaringol.* 2009;(2):20-2.
16. Crossland G, De R, Axon P. Far advanced otosclerosis and intractable benign paroxysmal positional vertigo treated with combined cochlear implantation and posterior semicircular canal occlusion. *J Laryngol Otol.* 2004 Apr;118(4):302-4. doi: 10.1258/002221504323012076.
17. Atacan E, Sennaroglu L, Genc A, Kaya S. Benign Paroxysmal Positional Vertigo After Stapedectomy. *Laryngoscope.* 2001 Jul;111(7):1257-9. doi: 10.1097/00005537-200107000-00021.