

Dispneia alta como forma de apresentação de laringopiocele misto: caso clínico

Mixed laryngopyocele presenting as acute airway obstruction: case report

Susana Ribeiro • Sara Viana Baptista • Carla Amaro • Vítor de Sousa • José Ezequiel Barros

RESUMO

O laringocelo é uma dilatação anómala do sáculo ventricular, com comunicação com o lúmen laríngeo. Pode ser congénito ou adquirido, sendo a etiopatogénese do tipo adquirido multifactorial. O laringocelo adquirido pode estar relacionado com um aumento prolongado da pressão intralaríngea. Manifesta-se sobretudo em indivíduos do sexo masculino, caucasianos, na quinta ou sexta décadas de vida; é mais frequentemente unilateral e do tipo combinado ou misto. Habitualmente a sua evolução é lenta; no entanto, a sua forma de apresentação pode ser súbita, com dispneia laríngea que pode requerer intubação orotraqueal ou uma traqueotomia de urgência, como no caso da sobreinfecção, com formação de um laringopiocele.

Apresentamos o caso clínico de uma doente do sexo feminino, de 71 anos de idade, vendedora de flores na rua, que dá entrada na Urgência. do Hospital São José por odinofagia e disфонia com um mês e meio de evolução e que, na sequência de primeira toma de antibiótico, tem reacção alérgica com necessidade de internamento por Otorrinolaringologia. A ulterior investigação revelou laringopiocele misto. O laringocelo é uma patologia rara e que raramente se apresenta sob a forma de obstrução da via aérea. A sua sobreinfecção ocorre em apenas 8% dos casos o que torna este caso clínico particularmente raro. No entanto consideramos importante ter em mente esta patologia no diagnóstico diferencial da obstrução aguda da via aérea superior.

Palavras-Chave

Dispneia alta; laringopiocele; laringocelo misto

SUSANA RIBEIRO

Interna de Otorrinolaringologia do Hospital de São José

SARA VIANA BAPTISTA

Assistente Hospitalar de Otorrinolaringologia do Hospital de São José

CARLA AMARO

Interna de Otorrinolaringologia do Hospital de São José

VÍTOR DE SOUSA

Assistente Graduado de Otorrinolaringologia do Hospital de São José

JOSÉ EZEQUIEL BARROS

Director do Serviço de Otorrinolaringologia do Hospital de São José

CORRESPONDÊNCIA

Susana Teixeira Ribeiro
Rua Aristides de Sousa Mendes nº11 3º EF 1600-412 Lisboa
Tel: 919707356; e-mail: ribeirosusana30@hotmail.com

Trabalho apresentado no 56º Congresso Nacional de Otorrinolaringologia e Cirurgia Cérvico-Facial

ABSTRACT

A laryngocele is an abnormal dilatation of the laryngeal sacculle which communicates with the laryngeal lumen. It may be congenital or acquired; the acquired type has a multifactorial etiopathogenesis and may be related to the increase in the intralaryngeal pressure. Typically it is found in caucasian male individuals and in their fifth or sixth decades of life; it is more frequently unilateral and combined or mixed type. Usually it develops slowly; however it may present as acute airway obstruction requiring urgent intubation or tracheotomy, as in the case of infection with the formation of a laryngopyocele. We report a case of a 71-year-old female patient, who sells flowers in a street, admitted in the Hospital de São José-Urgency Room with a history of odynophagia and dysphonia for one month and a half and that after being medicated with a new antibiotic develops an allergic reaction in need of Otorhinolaryngology care. The subsequent investigation revealed a mixed laryngopyocele. The laryngocele is a rare pathology and very few present as airway obstruction. It becomes infected in only 8% of the cases which makes this case report particularly rare. However we consider important to have this pathology in mind in the differential diagnosis of acute airway obstruction.

Keywords

Airway obstruction; laryngopyocele; mixed laryngocele

INTRODUÇÃO

O laringocelo é uma dilatação anómala do sáculo ventricular, com comunicação com o lúmen laríngeo. Pode ser congénito ou adquirido sendo a etiopatogénese do tipo adquirido multifactorial. O laringocelo adquirido pode estar relacionado com um aumento prolongado da pressão intralaríngea como sucede em cantores, músicos tocadores de instrumentos de sopro, sopra-dores de vidro, na tosse crónica, na laringite crónica/esforço fonatório e no carcinoma da laringe (é de primordial importância investigar a existência de um carcinoma laríngeo subjacente a um laringocelo)^{1,2}. Manifesta-se sobretudo em indivíduos caucasianos de sexo masculino, numa relação de 5:1, na quinta ou sexta décadas de vida. Em 85% dos casos é unilateral e apenas 15% são bilaterais³. Em 1970, DeSanto e colaboradores definiram a

classificação de laringocelos actualmente aceite, dividindo-os em internos, externos, combinados ou mistos⁴. Os laringocelos internos estendem-se posterosuperiormente em direcção à prega ariepiglótica e banda ventricular, diminuindo o espaço supraglótico e estão confinados à laringe. Os laringocelos externos expandem-se superiormente, herniam através da membrana tirohioideia, junto ao nervo e vasos laríngeos superiores e tornam-se extra-laríngeos, condicionando uma tumefacção cervical. Por fim os laringocelos mistos são uma combinação de ambas as formas e são os mais frequentes: cerca de 50% são combinados ou mistos, 30% são externos e 20% são internos¹.

Os laringocelos são na maioria das vezes assintomáticos. Ocasionalmente podem causar disфонia, tosse, dispneia, disfagia, odinofagia, sensação de corpo estranho faringolaríngeo, tumefacção na região anterolateral do pescoço, por vezes com sinal de Bryce presente (som de gorgolejo ou sopro quando se comprime manualmente a massa cervical, manobra esta que deve ser evitada pelo risco de comprometer a via aérea ao interiorizar a massa). Habitualmente a sua evolução é lenta; no entanto podem apresentar-se subitamente, com dispneia laríngea requerendo intubação orotraqueal (IOT) ou traqueotomia de urgência para assegurar a via aérea.

Cerca de 8% dos laringocelos sobreinfectam como consequência da estase de secreções glandulares, formando-se um laringopiocelelo⁵. Os agentes mais frequentemente isolados são o *Streptococcus β-haemolyticus*, a *Escherichia coli*, o *Staphylococcus aureus*, e a *Pseudomonas Aeruginosa*⁶. Os sintomas incluem dor local, disфонia, disfagia, dispneia e obstrução glótica (que pode variar de mínima até total), tumefacção cervical com sinais inflamatórios e febre. No entanto este último pode não se manifestar. Seguidamente apresentamos o caso clínico de uma doente do sexo feminino, de 71 anos de idade, vendedora de flores na rua, que dá entrada no Serviço de Urgência (S.U.) do Hospital de São José (H.S.J.) por dispneia e estridor laríngeo, como forma de apresentação de laringopiocelelo misto à direita.

CASO CLÍNICO

Doente do sexo feminino, 71 anos de idade, vendedora de flores na rua, internada pelo S.U. do H.S.J. por dispneia e estridor com quatro horas de evolução.

Referia odinofagia lateralizada à direita e disфонia com um mês e meio de evolução, tendo sido medicada por clínica geral, subsequente a diagnóstico de infecção faríngea, com cefalosporina de 3ª geração, quatro horas antes da admissão no S.U.. Negava outras

queixas. Antecedentes de hipertensão arterial (HTA) e acidente vascular cerebral (AVC) há três anos, sem sequelas significativas.

Por se tratar da primeira toma deste antibiótico e apresentar edema supraglótico exuberante, a situação clínica foi inicialmente interpretada como uma reacção alérgica, tendo a doente sido medicada com adrenalina, corticóide endovenoso (e.v.), anti-histamínico e suplemento de oxigénio (O₂) por máscara facial, permanecendo na Sala de Reanimação do S.U., mantendo saturações de O₂ superiores a 98%, mas sem melhoria da dispneia e do estridor. À auscultação pulmonar apresentava murmúrio vesicular mantido. Na nasofaringolaringoscopia endoscópica confirmou-se edema exuberante da hemilaringe direita, envolvendo a prega ariepiglótica direita, com epiglote basculada, não permitindo a visualização das cordas vocais. A doente foi informada da possível necessidade de uma traqueotomia de urgência caso a situação clínica se agravasse, com descida das saturações de O₂. Foi transferida para a unidade de cuidados intensivos (UCI) e iniciou antibioterapia empírica com piperacilina, tazobactam e metronidazol; corticoterapia, hidratação e.v. e analgesia. Foram pedidas tomografias computadorizadas (TC) cervical e torácico urgentes. Verificou-se uma melhoria progressiva da dificuldade respiratória e do estridor laríngeo nas primeiras horas de internamento na UCI, mas a doente iniciou um quadro de agitação psicomotora, com discurso incoerente, recusando realizar as TC cervical e torácica e não colaborando para tal, pelo que só a realizou ao 3º dia de internamento, quando a situação clínica estabilizou.

Apresentava à data do internamento um aumento dos parâmetros inflamatórios analíticos: 26.6 x 10⁹/L leucócitos com 92,9% neutrófilos; PCR 28,2 mg/dL e VS 50. A TC cervical revelou laringopiocelelo misto à direita, sem evidência de sinais atribuíveis a lesão neoformativa homolateral (Figuras 1 e 2).

A TC torácica revelou volumosa hérnia do hiato e a doente foi posteriormente encaminhada para Gastroenterologia, para estudo, tendo sido diagnosticada Hérnia do hiato tipo III com conteúdo intratorácico (Figura 3).

A situação clínica evoluiu favoravelmente, com a regressão progressiva da sintomatologia e do edema laríngeo. A doente foi transferida para o Serviço de otorrinolaringologia (ORL) ao 5º dia de internamento, tendo sido retirado cateter venoso central e iniciado alimentação oral. Manteve-se sempre apirética e verificou-se normalização dos parâmetros inflamatórios analíticos. A terapêutica antibiótica endovenosa foi continuada durante 10 dias.



Figura 1 - Laringopiocelo misto à direita.



Figura 2 - Laringopiocelo com conteúdo líquido e gasoso.

A doente teve alta ao 12º dia, não apresentando alterações ao exame laringoscópico.

Cerca de dois meses após a alta foi submetida a excisão de laringocelo por via externa – tirotomia lateral - e a funduplicatura de Nissen por abordagem laparoscópica no mesmo tempo cirúrgico. Não houve necessidade de realizar traqueotomia; o pós-operatório decorreu sem complicações e a doente é actualmente seguida em consulta externa, encontrando-se bem e sem queixas (Figura 4).



Figura 3 - Trânsito baritado evidenciando divertículo distal do esófago e hérnia de deslizamento medindo cerca de 6 cm.

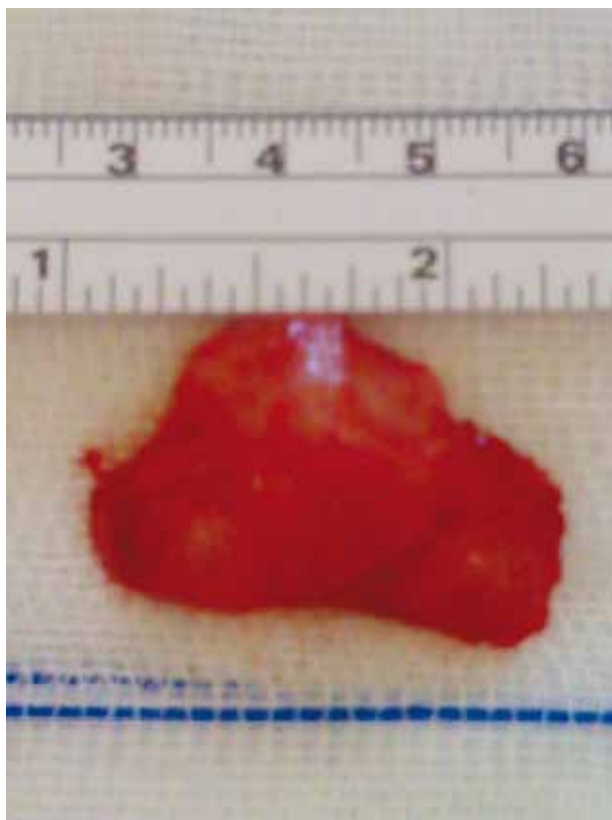


Figura 4 - Peça cirúrgica que foi enviada para exame histopatológico: “epitélio respiratório colunar estratificado”.

DISCUSSÃO

Existe controvérsia sobre o que constitui uma dilatação patológica do sáculo ventricular. Virchow estipulou arbitrariamente que o limite para um sáculo normal é o bordo superior da cartilagem tiróide⁵. No entanto serão os sintomas, mais que os limites anatómicos que determinarão o que constitui um laringocelo e a necessidade de o tratar.

No caso apresentado existia uma história de disфонia arrastada, com aumento do esforço vocal (apesar de não ser valorizada pela doente) e odinofagia com início cerca de um mês e meio, antes da instalação súbita do quadro de dispneia e estridor. Coincidentemente esta sintomatologia instalou-se após a primeira toma de um antibiótico, com edema laríngeo exuberante subsequente o que correspondeu a uma intercorrência em todo este processo.

Consideramos que a actividade profissional da doente, com constante esforço vocal, a existência concomitante de uma volumosa hérnia do hiato, denunciando uma pressão intra-abdominal aumentada e o refluxo faringolaríngeo são factores que contribuem também para um aumento da pressão intralaríngea e estão na etiologia deste laringocelo. Também a lassidão dos tecidos laríngeos relacionada com a idade da doente pode contribuir para a sua formação.

A abordagem inicial de um laringopiocelo com obstrução da via aérea superior pode requerer IOT ou traqueotomia de urgência e/ou aspiração de pús para descompressão⁷.

Neste caso foram suficientes medidas mais conservadoras, conseguindo-se controlo da situação com antibioterapia de largo espectro, corticoterapia, analgesia e hidratação. No entanto, tal só foi possível estando a doente numa unidade de cuidados intensivos e sempre com presença física de Otorrinolaringologia. O tratamento definitivo é a excisão cirúrgica que, no caso de laringocelos externos ou mistos, se faz preferencialmente por via externa, enquanto que os internos podem ser excisados endoscopicamente com ou sem uso de laser de CO₂.

O laringocelo é uma patologia rara, com uma incidência estimada de 1: 2,500,000 pessoas por ano⁸. Raramente apresenta-se sob a forma de obstrução da via aérea e a sua sobreinfecção ocorre em apenas cerca de 8% dos casos o que torna este caso clínico particularmente raro.

No entanto consideramos importante ter em mente esta patologia no diagnóstico diferencial da obstrução aguda da via aérea superior.

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Isaacson G, Sataloff RT. Bilateral laryngoceles in a young trumpet player: case report. *Ear Nose Throat J* 2000;79:272-4
2. Celin SE, Johnson J, Curtin H, Barnes L. The association of laryngoceles with squamous cell carcinoma of the larynx. *Laryngoscope* 1991;101:529-36
3. Verret DJ, Defatta RJ, Sinard R. Imaging case study of the month: Combined laryngocele. *Ann Otol Rhinol Laryngol* 2004;113:594-96
4. De Santo LW, Devine KD, Weiland LH. Cysts of the larynx – classification. *Laryngoscope* 1970;80:145-76
5. Canalis RF, Maxwell DS, Hemenway WG. Laryngocele – an updated review. *J Otolaryngol* 1977;6:191-9
6. Cassano L, Lombardo P, Ragona RM, Pastore A. Laryngopyocèle: three new clinical cases and review of the literature. *Eur. Arch. Otorhinolaryngol* 2000;257:507-11
7. Fredrickson KL, D'Angelo AJ Jr. Internal laryngopyocèle presenting as acute airway obstruction: case report. *Ear Nose Throat* 2007;86(2):104-6
8. Weissler MC, Fried MP, Kelly JH. Laryngopyocèle as a cause of airway obstruction. *Laryngoscope* 1985;95:1348-51