

# Acufeno pulsátil - Caso clínico de fístula arteriovenosa dural e revisão da literatura

## Pulsatile tinnitus - Case report of dural-arteriovenous fistula and review of the literature

Daniel Monteiro • João Lino • Isabel Carvalho • Miguel Gonçalves Ferreira • João Xavier • Cecília Almeida e Sousa

### RESUMO

O acufeno é definido como uma percepção consciente de um som na ausência de fonte externa. Embora não seja considerado uma doença, muitos doentes sofrem deste sintoma. Tem múltiplas etiologias sendo que, apenas algumas são conhecidas. As malformações vasculares constituem a principal causa de acufenos pulsáteis.

Descrevem-se dois casos clínicos de doentes com acufeno pulsátil. Ambos realizaram angio-ressonância que evidenciou fístula arteriovenosa dural (DAVF) do seio lateral direito, uma do tipo I e outra do tipo IIa de Cognard. Foram submetidas a angiografia crânio-encefálica com embolização, recorrendo a partículas de polivinil álcool (PVA) e a Onyx®, com encerramento da fístula e resolução das queixas.

O tratamento das fístulas arteriovenosas durais deve ser ponderado de acordo como tipo de fístula, segundo as escalas de Cognard ou de Borden e, com a existência ou não de sintomatologia.

Palavras chave: Acufeno Pulsátil, Fístula Arteriovenosa Dural, embolização

### ABSTRACT

*Tinnitus is defined as being a conscientious sensation of noise, without an external stimulation. Although tinnitus is not considered a disease, many patients suffer from this symptom. It has many different etiologies, but only a few are known. Vascular malformations are the main cause of pulsatile tinnitus.*

*We describe two cases of patients presenting with pulsatile tinnitus. Both patients were submitted to a magnetic resonance angiogram that diagnosed a dural arteriovenous fistula of the right lateral sinus, one with a type I and another with a type IIa Cognard fistula. A cerebral angiography was performed and the embolization of the fistulas was achieved by the use of polyvinyl alcohol particles and Onyx®.*

*The treatment of dural arteriovenous fistulas should be pondered in depending on the type of fistula, according to the Cognard or Borden Classification systems and if symptoms exist or not.*

*Keywords: Pulsatile tinnitus, Dural Arteriovenous Fistula, embolization*

### INTRODUÇÃO

#### Fístula arteriovenosa dural (DAVF)

O acufeno é definido como uma percepção consciente de um som, na proximidade da cabeça, na ausência de fonte externa<sup>1</sup>. Pode ser percebido em um ou em ambos os ouvidos, dentro ou à volta da cabeça, ou como um ruído à distância<sup>2</sup>. Pode ser contínuo (um som persistente) ou intermitente, pulsátil ou não pulsátil. Pode ainda ser subjectivo ou objectivo<sup>3,4</sup>. Não é específico de nenhuma faixa etária, mas a sua prevalência vai aumentando com a idade, estimando-se que 12-15% da população mundial, com idade superior a 65 anos, apresente acufeno<sup>5</sup>. Dado o aumento da longevidade e a exposição elevada ao ruído no trabalho e no lazer, a incidência tem tendência a aumentar<sup>5</sup>. É mais frequente no sexo masculino e em indivíduos com hábitos tabágicos<sup>2</sup>. O impacto na qualidade de vida do doente pode ser significativo. Há doentes que apresentam acufeno, enquanto outros, sofrem de acufeno, isto devido à activação do sistema límbico e do sistema nervoso autónomo<sup>1,2</sup>.

A patogénese do acufeno não é conhecida na sua totalidade, mas sabe-se que pode ser produzido em qualquer localização, ao longo da via auditiva<sup>5</sup>.

De entre os diferentes tipos de acufeno, o pulsátil é o mais preocupante, uma vez que a sua causa poderá ser mais grave<sup>2</sup>. Sons somáticos de várias etiologias, intracranianas ou extracranianas, poderão ser percebidos como acufeno

#### Daniel Monteiro

Interno do Internato Complementar de ORL do Centro Hospitalar do Porto

#### João Lino

Interno do Internato Complementar de ORL do Centro Hospitalar do Porto

#### Isabel Carvalho

Assistente Hospitalar do Serviço de ORL do Centro Hospitalar do Porto

#### Miguel Gonçalves Ferreira

Assistente Hospitalar do Serviço de ORL do Centro Hospitalar do Porto

#### João Xavier

Director do Serviço de Neurorradiologia do Centro Hospitalar do Porto

#### Cecília Almeida e Sousa

Directora do Serviço de ORL do Centro Hospitalar do Porto

#### Correspondência:

Daniel Russo Monteiro  
Serviço de Otorrinolaringologia – Centro Hospitalar do Porto  
Largo do Prof. Abel Salazar,  
4099-001 Porto  
Telefone: 222077500  
E-mail: orietnomdaniel@gmail.com

pulsátil e normalmente têm a sua origem próximo da cóclea<sup>2,3</sup>. Estes sons são frequentemente gerados por estruturas vasculares, mas também podem ser produzidos por estruturas musculares (como mioclonias do músculo faringo-palatino), patologias neurológicas (ex.: fasciculações dos músculos do ouvido médio) e alterações intracranianas (ex.: hipertensão intracraniana, malformações de Chiari)<sup>2,3</sup>.

Alterações vasculares que poderão provocar acufeno pulsátil são neoplasias vasculares, anomalias vasculares e malformações vasculares<sup>2,3</sup>. As neoplasias vasculares mais frequentes são os paragangliomas<sup>2,3</sup>. As anomalias vasculares podem ser de origem arterial (ex.: sopros arteriais do sistema carotídeo petroso, displasia fibromuscular da artéria carótida interna ou sua deiscência, persistência da artéria estapédica) ou de origem venosa (ex.: sopros venosos em doentes com hipertensão arterial ou hipertensão intracraniana)<sup>2,3</sup>. As malformações vasculares são constituídas, na sua maioria, por shunts arteriovenosos, entre os quais, fístulas arteriovenosas (FAV) adquiridas, fístulas arteriovenosas durais (DAVF), malformações arteriovenosas congénitas e por bolbo jugular dominante ou deiscente<sup>2,3</sup>. As malformações vasculares cerebrais ocorrem em 0,1-4% da população em geral, sendo as DAVF responsáveis por 10-15% dos shunts<sup>6,7</sup>. De facto, qualquer patologia que provoque o aumento do fluxo sanguíneo, da sua turbulência ou o aumento da sua viscosidade pode provocar acufeno pulsátil<sup>3</sup>.

O acufeno pulsátil pode ser síncrono com a pulsação e exacerbado com o exercício físico<sup>2</sup>. Normalmente estes doentes não apresentam outras queixas otológicas, como hipoacusia, vertigem ou plenitude aurial<sup>2</sup>. A avaliação das características do acufeno vai determinar qual o melhor exame complementar a realizar<sup>2,3</sup>.

## CASOS CLÍNICOS

### Caso clínico 1

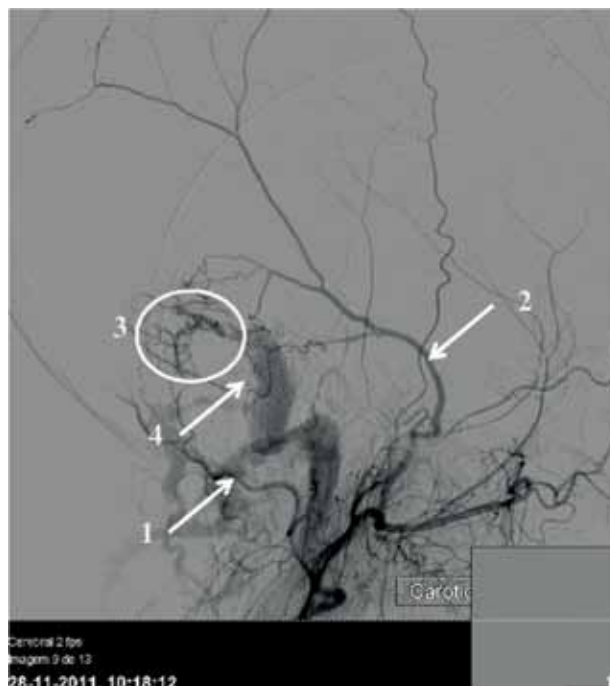
Doente do sexo feminino, com 50 anos de idade, sem antecedentes patológicos e sem factores de risco. Recorre à consulta de otorrinolaringologia (ORL) por apresentar, desde há 2 anos, acufeno pulsátil à direita, que a perturbava e diminuía a sua qualidade de vida. Já tinha sido observada em consulta de ORL, sendo o exame objectivo normal, bem como o audiograma e o timpanograma realizados. Não apresentava sopros audíveis ou frémitos palpáveis. Já tinha efectuado tomografia computadorizada (TC) e ressonância magnética (RM) cerebral e aos ouvidos, ambas normais. Foi pedida uma angiressonância (Angio-RM), onde foi possível diagnosticar uma DAVF do tipo I de Cognard. Os vasos responsáveis pela sua irrigação eram a artéria occipital direita e esquerda e, ainda, a artéria meníngea média direita.

Foi submetida a angiografia crânio-encefálica com embolização, recorrendo a Onyx® (eV3, Irvine, California, USA), com encerramento da fístula e resolução das queixas. (Figura 1 e 2). Na última avaliação efectuada a doente encontrava-se bem, sem acufeno pulsátil e sem evidência da DAVF.

### FIGURA 1

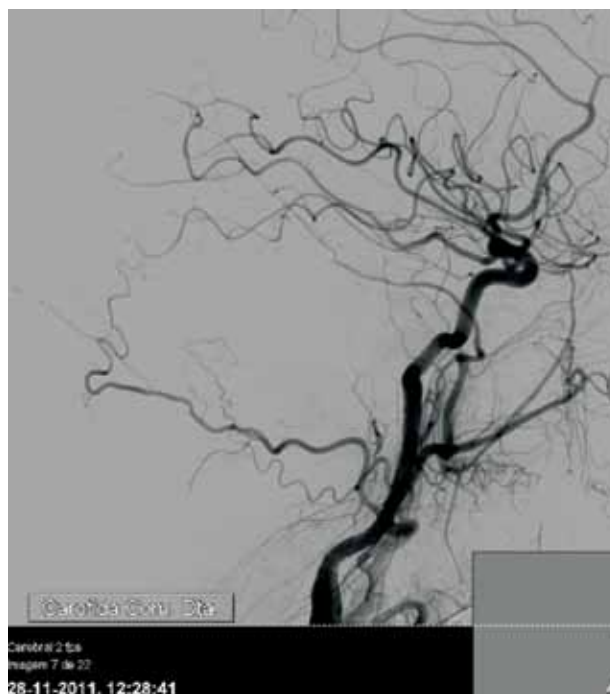
Angiografia cerebral com evidência de DAVF previamente à embolização. Visualiza-se as aferências da artéria occipital direita e da artéria meníngea média direita.

1- Artéria occipital; 2- Artéria meníngea média; 3- DAVF; 4- Seio transversal



### FIGURA 2

Angiografia cerebral após embolização com Onyx®, onde se verifica resolução da DAVF



### Caso clínico 2

Doente do sexo feminino, com 36 anos de idade, sem antecedentes patológicos e sem factores de risco. Recorre à consulta de ORL por apresentar acufeno pulsátil no ouvido

direito, com 6 meses de evolução e alodinia na região temporal e occipital direita, tendo já realizado TC que se encontrava normal. Ao exame objectivo apresentava um sopro retroauricular direito pelo que a doente completou investigação com angio-RM. Este exame confirmou a suspeita clínica de fístula dural, com aferências dependentes da artéria occipital direita, havendo também contributo de ramos tentoriais da artéria carótida interna direita e da artéria faríngea ascendente direita. (Figura 3)

Foi-lhe diagnosticada uma fístula DAVF do tipo IIa de Cognard, tendo sido submetida a angiografia crânio-encefálica com embolização das aferências da fístula, recorrendo a partículas de polivinil álcool (PVA), com resolução das queixas.

### FIGURA 3

Angiografia cerebral com evidência de DAVF previamente à embolização. Visualiza-se as aferências da artéria occipital direita e da artéria meníngea média direita.

1-Artéria occipital; 2 - DAVF; 3 - Seio transverso



### DISCUSSÃO

A hipertensão intracraniana benigna é descrita como sendo a causa mais frequente de acufeno pulsátil subjectivo<sup>3,4</sup>. A DAVF é a causa mais frequente de acufeno pulsátil objectivo, em doentes com exame otoscópico normal<sup>3,4</sup>.

A DAVF consiste na comunicação anómala entre artérias durais e veias durais, sem a existência de um leito capilar interposto, sendo que a fístula atravessa ou tem relação próxima com a dura-máter<sup>8,9,10,11</sup>. A DAVF é perfundida normalmente por ramos da carótida externa e interna e apresenta uma veia de maior calibre que a drena, nomeadamente o seio transverso, o seio sigmóide ou o seio cavernoso<sup>3</sup>. A DAVF está frequentemente associada à trombose do seio venoso dural craniano, que pode ocorrer por causa idiopática, infecciosa, traumática, neoplásica ou cirúrgica<sup>2,7,8</sup>.

Inúmeros vasos corticais poderão estar envolvidos, o que vai condicionar um fluxo sanguíneo elevado, podendo apresentar

um fluxo retrógrado nos seios referidos anteriormente<sup>3</sup>. Este fluxo retrógrado compromete a drenagem venosa cortical provocando hipertensão intracraniana<sup>3</sup>. Nestas situações considera-se que a fístula tem um comportamento agressivo, com pior prognóstico, dado que predispõe à hemorragia intracerebral e a défices neurológicos<sup>7,8,10</sup>. Foi com base nestes dados que, tanto Cognard como Borden, elaboraram escalas de classificação, para indicar quais seriam as DAVF com indicação para tratamento<sup>8,10</sup> (Tabela 1). As fístulas tipo I de Cognard ou de Borden são benignas e têm apenas indicação para tratamento em situações específicas (ex.: deterioração da qualidade de vida por acufeno pulsátil), dado que a transformação agressiva ocorre em apenas 2% dos casos<sup>7,8,10,11,12,13</sup>. As restantes, tipo II a V de Cognard, têm sempre indicação para tratamento<sup>7,8,12</sup>.

### TABELA 1

Escala de Borden e Escala de Cognard de classificação de fístulas arteriovenosas durais. Adaptado de Hu YC et al. Cranial dural arteriovenous fistula: transarterial Onyx embolization experience and technical nuances. J Neurointervent Surg. 2011.3: 5-13.

Classificação	Descrição
<b>Borden</b>	
Tipo 1	Drenagem venosa directamente para seio dural ou veias meníngeas
Tipo 2	Drenagem venosa para seio dural com refluxo venoso cortical
Tipo 3	Apenas drenagem venosa directa para veias corticais
<b>Cognard</b>	
Tipo I	Drenagem venosa anterógrada normal para seio dural
Tipo IIa	Drenagem venosa retrograda para seio dural
Tipo IIb	Drenagem venosa retrograda para veias corticais
Tipo IIa+IIb	Drenagem venosa retrograda para seio dural e com refluxo para veias corticais
Tipo III	Drenagem venosa directa para as veias corticais sem ectasia venosa
Tipo IV	Drenagem venosa directa para as veias corticais com ectasia venosa > 5mm
Tipo V	Drenagem venosa directa para o plexo perimedular espinhal

Os sintomas mais comuns da DAVF são acufeno pulsátil, proptose pulsátil, cefaleias e alterações neurológicas, podendo existir um frémito palpável ou eventualmente audível à auscultação<sup>8,9,10,12</sup>.

O gold standard para o diagnóstico das FAV é a angiografia cerebral<sup>2,8,10</sup>. O diagnóstico também pode ser efectuado de forma menos invasiva recorrendo a angio-RM ou a angiogramografia computadorizada<sup>8,10</sup>. Doentes com DAVF benignas

(tipo I), clinicamente estáveis, podem ser seguidos com exames imagiológicos não invasivos e apenas, no caso de ocorrerem alterações clínicas, terão indicação para a realização de angiografia<sup>7,8,10,11,13</sup>.

As complicações mais severas das DAVF são a hemorragia intracraniana, as convulsões, a alteração do estado mental, a demência, a paralisia de nervos cranianos ou mesmo a morte<sup>7,8,10,12</sup>. As fístulas tipo 1, segundo a escala de Borden, devido à ausência de fluxo retrógrado cortical, possuem um baixo risco de hemorragia intracraniana (<1% por ano); as tipo 2 e 3, com drenagem venosa cortical comprometida mas assintomática, possuem um risco de hemorragia intracraniana intermédio (1,4-1,5% por ano); e as tipo 2 e 3, com drenagem venosa cortical comprometida e sintomática, possuem risco elevado de hemorragia (7,4-7,6% ao ano)<sup>10,11</sup>.

O tratamento das DAVF pode ser efectuado por via aberta ou por cirurgia endovascular, ou seja, embolização endovascular, arterial ou venosa<sup>7,8,10</sup>. O objectivo é obstruir todos os afluentes da fístula<sup>8</sup>. Na técnica endovascular recorre-se à cateterização suprassselectiva com identificação das aferências e introdução de micropartículas ou de “colas” especializadas, nomeadamente Onyx<sup>®7</sup>. Esta técnica deve ser efectuada por neurorradiologistas de intervenção experientes, dados os riscos do procedimento<sup>10</sup>. A radiocirurgia poderá vir a ter um papel importante na resolução desta patologia, mas apenas em casos em que os procedimentos descritos anteriormente não sejam possíveis ou acarretem riscos incomportáveis<sup>7,8</sup>.

## CONCLUSÃO

A caracterização do acufeno determina qual a estratégia de avaliação e, caso seja necessário, qual o melhor exame imagiológico para o avaliar<sup>3</sup>. O acufeno pulsátil sugere presença de neoplasia vascular, de anomalia vascular ou de malformação vascular<sup>2,3</sup>. As DAVF são uma das possíveis causas de acufeno pulsátil e o seu diagnóstico poderá ser difícil nos exames imagiológicos convencionais<sup>2,3</sup>. O tratamento está indicado nos tipos agressivos<sup>7,8,12</sup>.

## Referências Bibliográficas

1. Weber SR, Eduardo P. Zumbido no trabalhador exposto ao ruído. Rev Bras Fonoaudiol 2011;16(4):459-65.
2. Dinces EA, Deschler DG, Sokol HN. Etiology and diagnosis of tinnitus. UpToDate (Online). 2011 Nov. [www.uptodate.com/contents/etiology-and-diagnosis-of-tinnitus](http://www.uptodate.com/contents/etiology-and-diagnosis-of-tinnitus) Acedido em Fevereiro 7, 2012.
3. Weissman JL, Hirsch BE. Imaging of Tinnitus: A review. Radiology 2000 Aug;216: 342-349.
4. Orabi AA, Ramsden R. Spontaneous resolution, after superselective angiography, of pulsatile tinnitus resulting from dural arteriovenous fistula. International Tinnitus Journal 2004;10:51-53.
5. Moller AR, Langguth B, DeRidder D, Kleinjung T. Textbook of tinnitus. New York : Springer, 2011.
6. Singer RJ, Ogilvy CS, Rordorf G. Vascular malformations of the central nervous system. UpToDate (Online). 2011 Fev. [www.uptodate.com/contents/vascular-malformations-of-the-central-nervous-system](http://www.uptodate.com/contents/vascular-malformations-of-the-central-nervous-system). Acedido em Fevereiro 7, 2012.
7. Hu YC, Newman BC, Dashti SR, Albuquerque FC, et al.. Cranial dural arteriovenous fistula: transarterial Onyx embolization experience and technical nuances. J Neurointervent Surg. 2011; 3: 5-13.
8. Adams W, Whitfield P. Intracranial Dural Arteriovenous Fistulae. 2007. 7:10-12.
9. Dobrin I, Dobrin N, Poeata I, Chiriac A. Dual arteriovenous fistula - Two cases presentations. Romanian Neurosurgery 2012;1.

10. Zipfel GJ, Shah MN, Refai D, Dacey RG, et al.. Cranial dural arteriovenous fistulas: modification of angiographic classification scales based on new natural history data. Neurosurg Focus. 2009; May;26:1-7.

11. Strom RG, Botros JA, Refai D, Moran CJ et al.. Cranial Dural arteriovenous fistulae: asymptomatic cortical venous drainage portends less aggressive clinical course. Neurosurgery 2009 Fev;64:241-248.

12. Soderman M, Pavic L, Edner G, Holmin S, et al.. Natural history of dural arteriovenous shunts. Stroke 2008 Jun;39:1735-1739.

13. Heros RC. Benign dural arteriovenous fistulas. J Neurosurg. 2002;97:749-750.