

Anomalias do bulbo da jugular e suas implicações cirúrgicas

Jugular bulb abnormalities and their surgical implications

Alexandra Gomes • Patrícia Gomes • Pedro Salvador • Rita Lopes Moura • Rui Fonseca

RESUMO

Introdução: As anomalias do bulbo da jugular (ABJ) são maioritariamente assintomáticas e manifestam-se como achados acidentais durante a intervenção cirúrgica.

Apresentam-se quatro casos clínicos de doentes com esta patologia, submetidos a cirurgia de ouvido médio.

Casos Clínicos: Realizou-se miringotomia numa criança de 7 anos, com uma massa azulada retrotimpânica. A TC e RM revelaram um bulbo da jugular alto. O segundo e terceiro doentes foram submetidos a timpanotomia exploradora. Num dos casos, no levantamento do retalho timpanomeatal, constatámos uma protrusão do bulbo jugular no mesotímpano, adjacente à articulação incudoestapédica. Este achado, correspondente a divertículo jugular levou-nos a suspender a cirurgia. No outro caso foi realizada estapedotomia, cuja TC revelava a presença de bulbo da jugular alto associado a pequeno divertículo medial. A última doente foi submetida a mastoidectomia por colesteatoma. Na abordagem do ouvido médio ocorreu hemorragia proveniente do bulbo da jugular alto. A intercorrência foi controlada por tamponamento com Surgicel®.

Conclusão: As ABJ são um desafio diagnóstico pré-operatório, podendo resultar numa lesão inadvertida do sistema venoso. **Palavras-chave:** bulbo jugular; ouvido médio; divertículo; hemorragia

ABSTRACT

Introduction: Jugular bulb abnormalities (JBA) are mostly asymptomatic and present as an incidental finding during surgical exploration. We report four cases of JBA in patients undergoing middle ear surgery.

Cases Reports: A miringotomy was performed in a 7-year-old child with a bluish mass behind the tympanic membrane. CT and MR revealed a high-riding jugular bulb. The second and third patients underwent exploratory tympanotomy. One case, on raising the tympanomeatal flap, we verified a jugular bulb protruding into the mesotympanum, nearby incudostapedial joint. This finding let us to abort the operation because of a jugular diverticulum. The other consisted in a stapedotomy, whose CT revealed a high-riding jugular bulb accompanied by a medial diverticulum. The last patient underwent mastoidectomy for cholesteatoma. While entering the middle ear, a high jugular bulb bleeding occurred. It was controlled by applying Surgicel®.

Conclusion: JBA diagnosis becomes challenging before operation, leading to an inadvertent entry into the venous system.

Keywords: jugular bulb; middle ear; diverticulum; bleeding

INTRODUÇÃO

O bulbo da jugular encontra-se abaixo do hipotímpano do ouvido médio e é uma estrutura de grande variabilidade relativamente à forma, tamanho e configuração. O seu desenvolvimento ocorre no período pós-natal, aquando da adoção da posição ereta, contribuindo para importantes trocas da circulação venosa.¹ As anomalias do bulbo da jugular enquanto malformações venosas são incomuns e podem-se apresentar como: divertículo, deiscência ou bulbo da jugular alto. A localização do seio sigmóide e a posição e altura do bulbo da jugular são, em parte, determinados pela pneumatização da mastóide. Nos ossos temporais com pouca pneumatização perilabiríntica, a distância entre o canal auditivo externo e o seio sigmóide é mais curta, o bulbo da jugular é mais alto e, o risco para o desenvolvimento de divertículo é maior.²

O bulbo da jugular alto tem uma incidência entre 6-34% e é definido por uma das seguintes situações: atingimento da lamela basal da cóclea,¹ extensão da sua porção mais cefálica 2mm acima do teto do canal auditivo interno³ ou quando se projeta acima do anulus

Alexandra Gomes

Interna Formação Específica Otorrinolaringologia - Hospital Senhora Oliveira - Guimarães

Patrícia Gomes

Interna Formação Específica Otorrinolaringologia - Hospital Senhora Oliveira - Guimarães

Pedro Salvador

Interno Formação Específica Otorrinolaringologia - Hospital Senhora Oliveira - Guimarães

Rita Lopes Moura

Assistente Hospitalar - Hospital Senhora Oliveira - Guimarães

Rui Fonseca

Assistente Graduado - Hospital Senhora Oliveira - Guimarães

Correspondência:

Alexandra Gomes
xana_g25@hotmail.com

Artigo recebido a 27 de Junho de 2018. Aceite para publicação a 28 de Janeiro de 2019.

timpânico (na porção inferior).⁴ Caracteriza-se pela presença de uma fina lâmina óssea que separa o bulbo da jugular da cavidade do ouvido médio e, que caso se encontre ausente, favorece a protrusão do bulbo dentro do ouvido médio, constituindo uma deiscência. O divertículo é uma bolsa irregular que se pode insinuar no ouvido médio, cavidade mastoideia ou, medialmente em direção ao ápex petroso e a sua incidência situa-se entre menos de 1% a 8%.⁵

Globalmente, as anomalias do bulbo da jugular correspondem a alterações assintomáticas, cujo diagnóstico constitui um achado radiológico. No entanto, de acordo com a posição do bulbo e estruturas com as quais contacta, podem surgir sintomas como hipoacusia de condução, acufeno pulsátil, vertigem e, raramente, paralisia facial periférica.

Durante a cirurgia de ouvido médio, a presença destas variantes anatómicas pode, facilmente desencadear uma hemorragia, tendo em conta a fragilidade da parede do vaso. Nesse sentido é fundamental a planificação cirúrgica, bem como o diagnóstico diferencial com outras lesões de natureza vascular.

Apresentamos 4 casos clínicos de doentes submetidos a cirurgia e, durante a qual se constatou a presença das anomalias supracitadas.

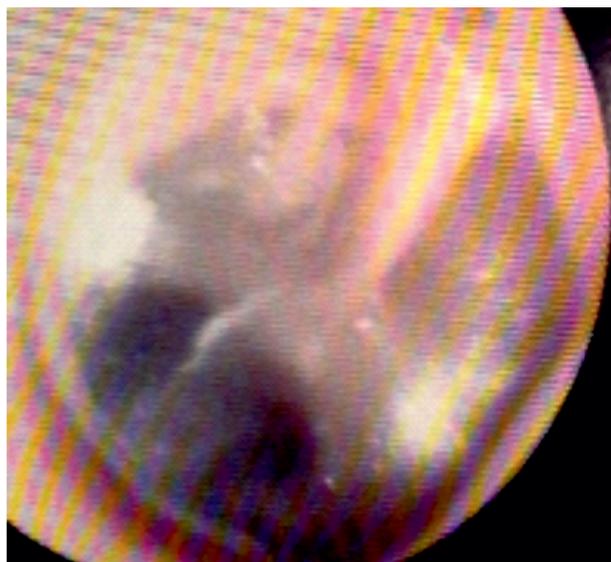
CASOS CLÍNICOS

Caso Clínico 1:

Criança de 7 anos, do género masculino seguida em consulta de Otorrinolaringologia por adenoamigdalites de repetição e hipoacusia bilateral. Na otoscopia do ouvido direito apresentava uma membrana do tímpano íntegra, retraída, de aspeto blue ear drum (Figura 1), integrada no quadro de otite média com efusão refratária à terapêutica. Sem referência a outros sintomas concomitantes e com antecedentes pessoais irrelevantes. O audiograma revelava uma hipoacusia de condução direita, com limiares da via aérea de 30dB e

FIGURA 1

Massa vascular retrotimpânica



gap aero-ósseo de 10 a 40dB entre 250 e 2000Hz (Figura 2). O timpanograma direito era do tipo B. O doente foi submetido a adenoamigdalectomia e miringotomia, durante a qual se constatou a presença de uma neoformação retro-timpânica, de coloração azulada, no quadrante pósterio-inferior do ouvido direito. A incisão radial foi realizada antero-inferiormente, não se verificando presença de glue nos ouvidos e, sem necessidade de colocação de tubos de ventilação trans-timpânicos. No pós-operatório foi solicitada Tomografia Computorizada (TC)(figura 3) com contraste que revelou, à direita, um bulbo jugular proeminente e alto, procidente na membrana do tímpano e com deiscência associada. A angio-Ressonância (angio-RM) (figura 4) corroborou os achados da TC, referindo uma proeminência global do sistema sinuso-jugular direito. O doente mantém seguimento em consulta, até à data sem queixas de novo ou intercorrências.

FIGURA 2

Audiograma pré-operatório

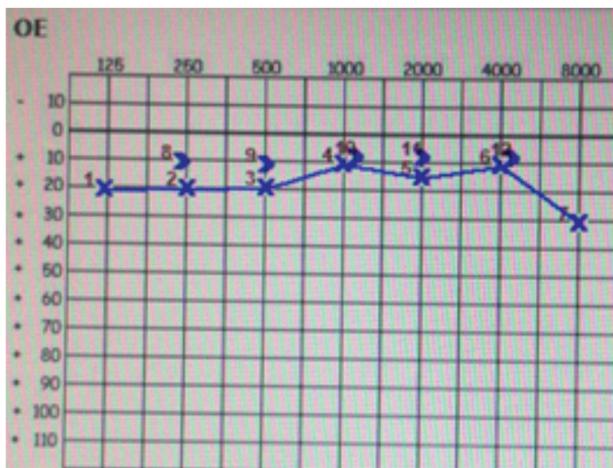
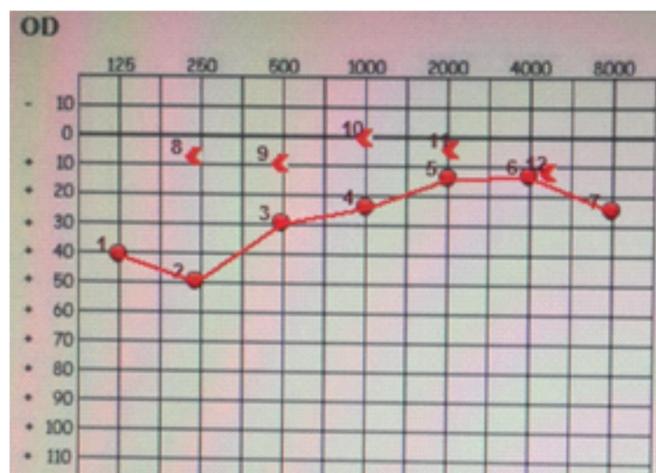
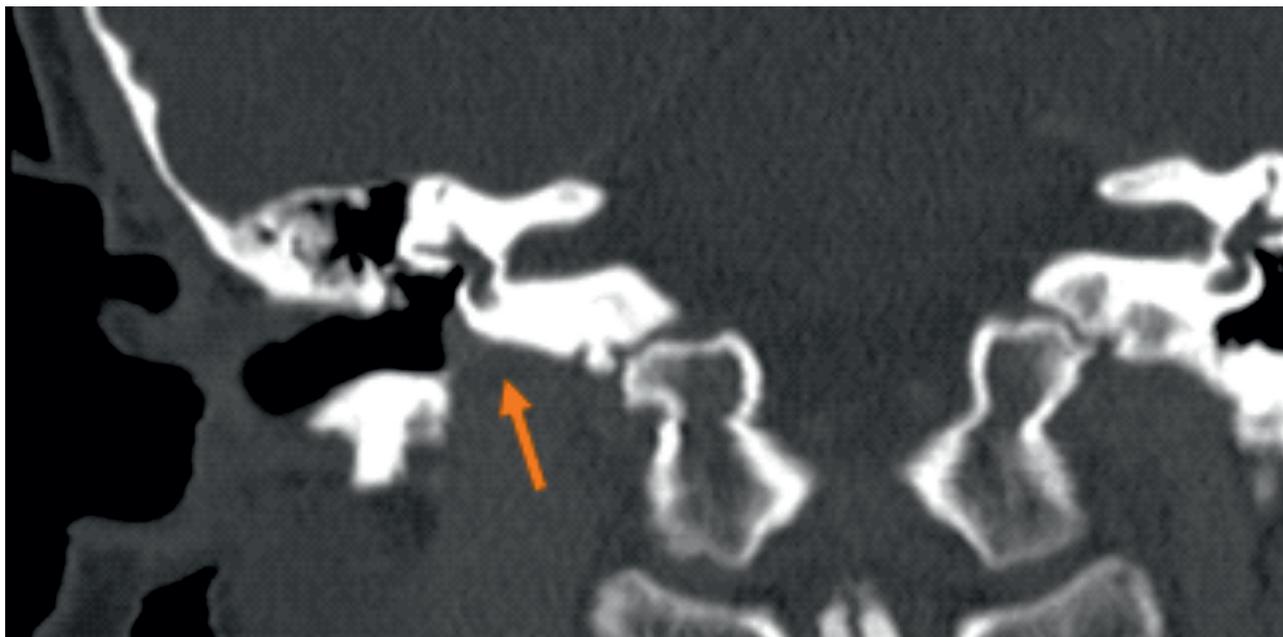
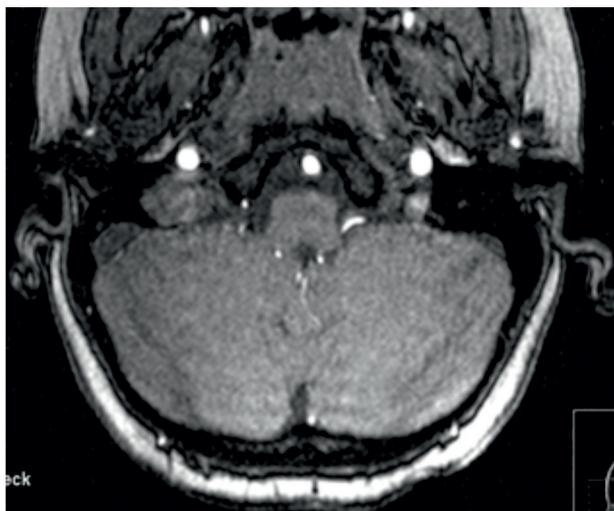


FIGURA 3

– TC ouvidos (corte coronal): Bulbo jugular alto e deiscente à direita

**FIGURA 4**

AngioRM (corte axial): proclividade sinuso-jugular direita



Caso Clínico 2:

Doente de 53 anos, do género feminino seguida em consulta de Otorrinolaringologia por hipoacúcia direita com 10 anos de evolução. Negava outras queixas otológicas nomeadamente, otites de repetição, hipoacúcia, acufenos, vertigem ou sensação de plenitude aural. Referia seguimento em consulta de Medicina Interna-Doenças Auto-Imunes por Síndrome de CREST (Calcinose, Fenómeno de Raynaud, Dismotilidade Esofágica, Esclerodactilia e Telangiectasias).

À observação, na otoscopia, a membrana timpânica encontrava-se íntegra, espessada e de aspeto baço, sobretudo à direita. Sem outras alterações objetiváveis. Na acumetria, o Rinne era negativo à direita e o Weber

lateralizava para a direita (diapasões 256Hz e 512Hz). Do estudo complementar, o audiograma revelava uma hipoacúcia de condução direita, com limiares da via aérea de 45dB, gap aero-ósseo de 10 a 20dB e SRT de 100% (figura 5). No ouvido esquerdo a acuidade auditiva estava preservada. O timpanograma era do tipo As no ouvido direito e de tipo A no ouvido esquerdo, com presença de reflexos estapédicos à esquerda e ausência à direita. Após esta avaliação considerou tratar-se de um quadro de otosclerose direita e a doente foi proposta para realização de timpanotomia exploradora.

Durante o procedimento cirúrgico, aquando do levantamento do anulus timpânico, verificou-se a presença de uma neoformação de coloração vinosa, aderente à membrana do tímpano, proveniente do hipotímpano e com projeção no mesotímpano. A referida massa obstruía o nicho da janela redonda, contactava a articulação incudo-estapédica e não apresentava pulsatilidade. Perante este achado optou-se por não avançar com a cirurgia e proceder à recolocação da membrana timpânica. Uma semana após a cirurgia foi solicitada TC dos ouvidos com contraste que revelou deiscência da parede do bulbo da jugular, sem excluir, contudo, outros diagnósticos possíveis, nomeadamente de paraganglioma (figura 6). A doente realizou angio-RM que documentou a presença de um volumoso divertículo da jugular (figura 7). Atualmente, a hipoacúcia mantém-se estável, sem agravamento significativo e foi-lhe proposta adaptação protésica, que recusou.

FIGURA 5
Audiograma pré-operatório

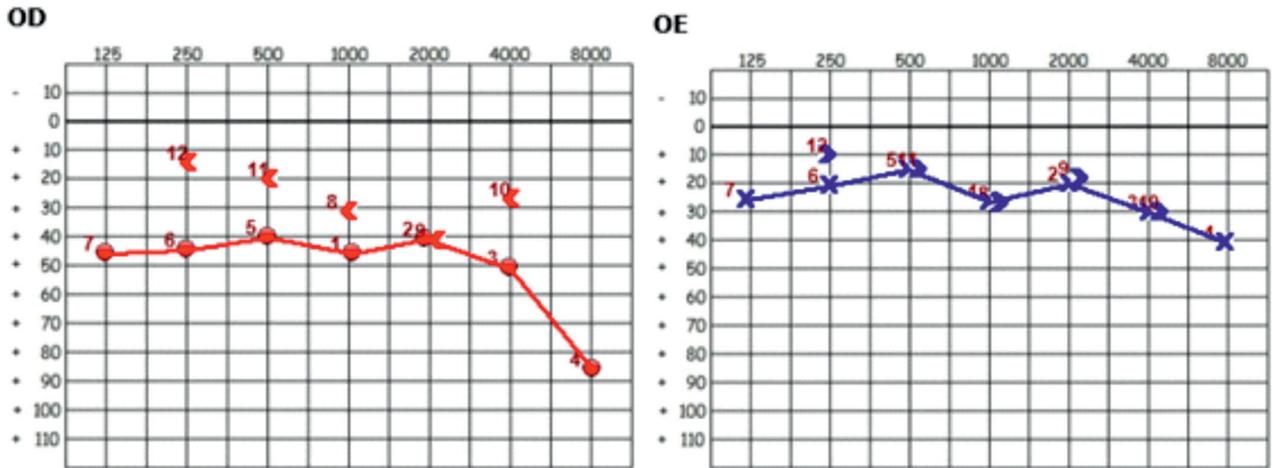


FIGURA 6
TC ouvidos (corte coronal): Deiscência e neoformação jugular direita

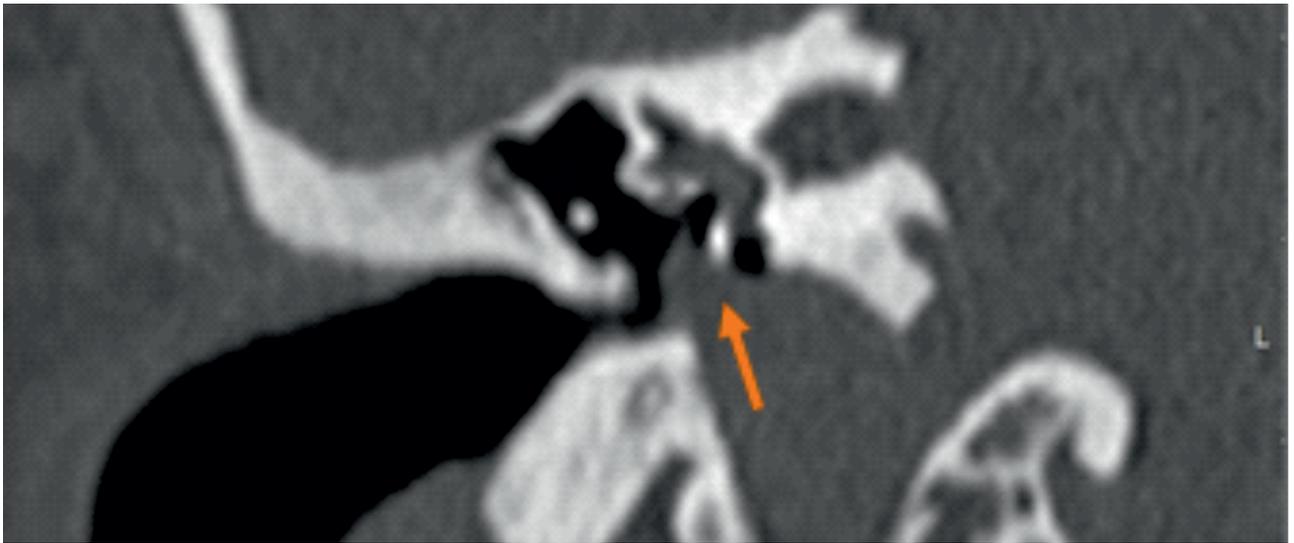
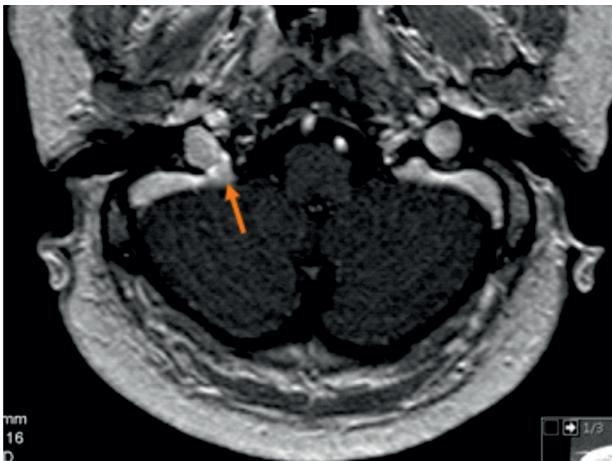


FIGURA 7
AngioRM (corte axial): Volumoso divertículo jugular



Caso Clínico 3:

Doente de 34 anos, do género feminino seguida em consulta de Otorrinolaringologia por hipoacusia direita desde há 2 anos. Sem outros sintomas concomitantes. Sem exposição a ruído. Sem história familiar de surdez. Ao exame objetivo, a otoscopia revelou membrana timpânica íntegra bilateralmente, sem sinais inflamatórios. Na acumetria, o Rinne era negativo à direita e o Weber lateralizava para a direita (diapasões 256Hz e 512Hz). Da avaliação audiométrica resultou hipoacusia de condução direita com limiares da via aérea de 50dB, gap aero-ósseo de 30 a 40dB, SRT de 100% e entalhe de Carhart nos 2000Hz (figura 8). No ouvido esquerdo os limiares auditivos eram de 20dB. O timpanograma era do tipo As no ouvido direito e de tipo A no ouvido esquerdo, com ausência de reflexos estapédicos bilateralmente. Foi realizada

FIGURA 8

Audiograma pré-operatório

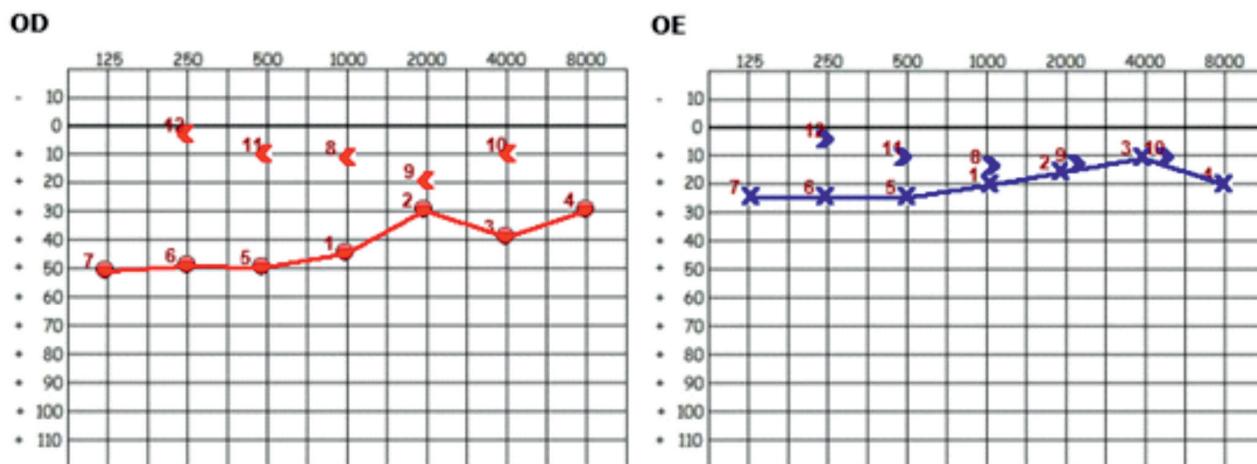
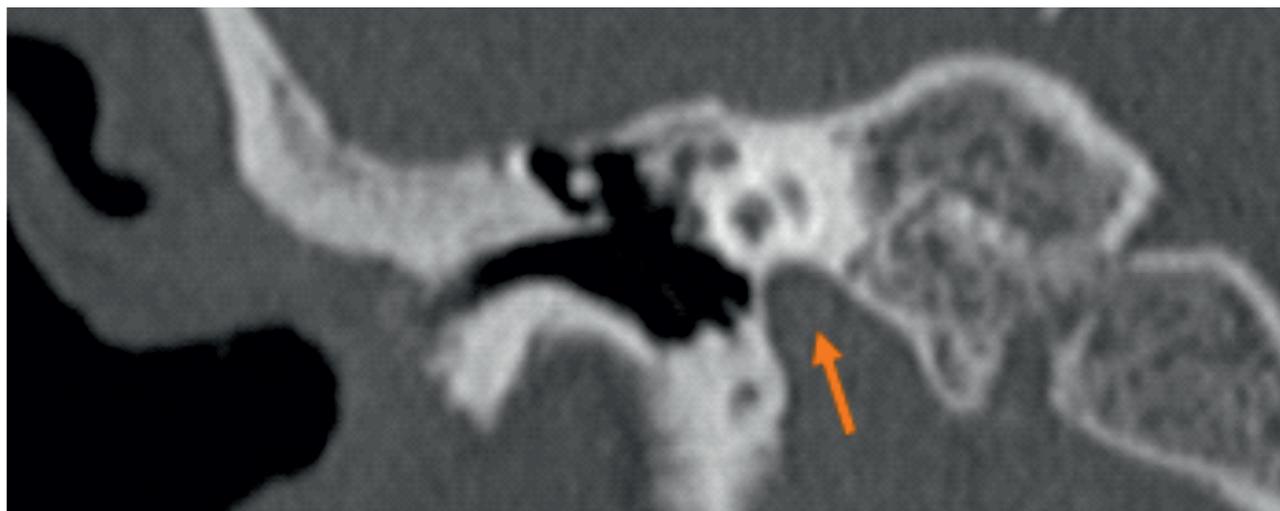


FIGURA 9

– TC ouvidos (corte coronal): Bulbo jugular alto direito



TC de ouvidos que revelou focos de otospongiose na fissula ante fenestram direita, sugestivo de otosclerose. Adicionalmente constatou-se posição alta do bulbo da jugular e pequeno divertículo medial no ouvido direito (figura 9). A doente foi submetida a timpanotomia exploradora, tendo-se realizado estapedotomia direita. As alterações vasculares não interferiram com a cirurgia e procedeu-se à colocação de uma prótese de Cause, 4,5x0,6 mm. Ao segundo mês de pós-operatório, o gap aero-ósseo do ouvido direito foi encerrado.

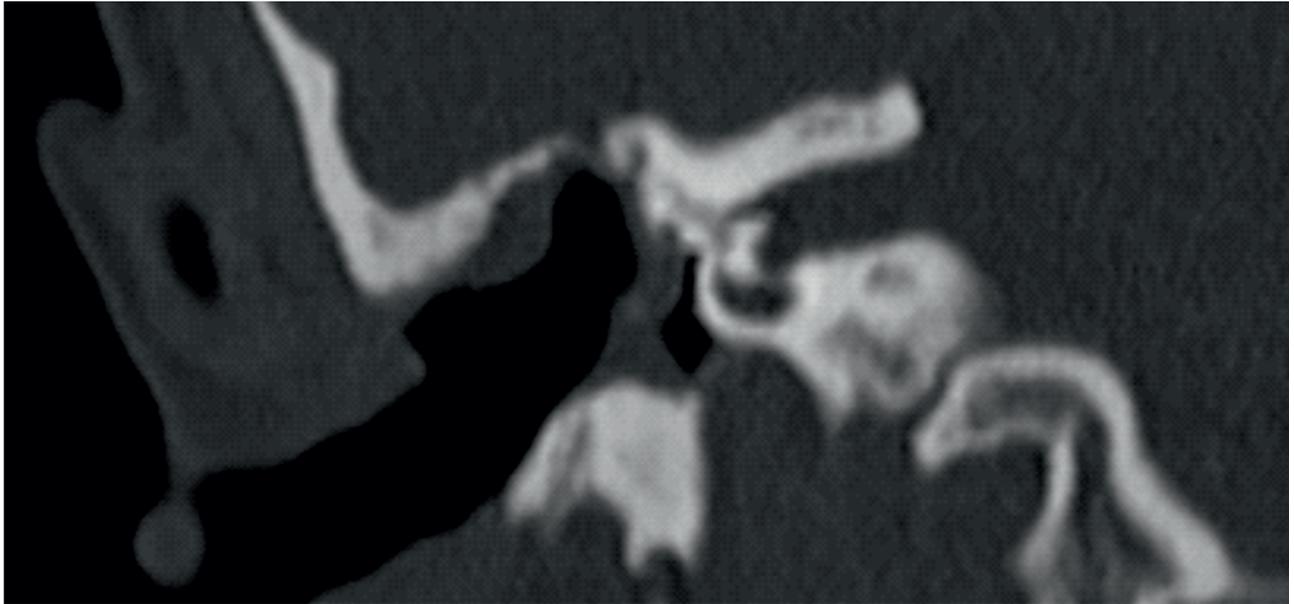
Caso Clínico 4:

Doente de 23 anos, do género feminino, seguida em consulta de Otorrinolaringologia por hipoacusia e otorreia fétida à direita, de agravamento progressivo e com três anos de evolução. Referia ter sido submetida a cirurgia otológica direita aos 16 anos por sintomas semelhantes. A observação microscópica do ouvido direito revelava túnel atical com neoformação polipóide

e matriz de queratina, não controlável por otoscopia. O ouvido esquerdo não apresentava alterações. A doente realizou audiograma tonal que demonstrou uma ligeira hipoacusia de condução à direita, com PTA de 25dB e gap aero-ósseo de 20dB. A acuidade auditiva à esquerda estava preservada. A TC de ouvidos, para avaliação complementar dos achados, revelou preenchimento do epítimpano e antro mastoideu por neoformação com densidade de tecidos moles, com erosão do tegmen timpani e projeção para o canal auditivo externo, sugestiva de colesteatoma. Adicionalmente o golfo da jugular encontrava-se em posição alta, com um pequeno divertículo posterior adjacente (figura 10). A doente foi, então, submetida a mastoidectomia canal down à direita, para remoção de colesteatoma. Durante o procedimento cirúrgico, na realização da mastoidectomia constatou-se saída de conteúdo hemático (proveniente do golfo da jugular). Esta intercorrência implicou a necessidade

FIGURA 10

TC ouvidos (corte coronal): Bulbo jugular alto direito



de tamponamento com Surgicel®, que surtiu efeito e foi suficiente para se prosseguir com a cirurgia. Para além da mastoidectomia wall-down, foi ainda colocada uma prótese parcial de osso cortical sobre o estribo, no sentido de preservar a acuidade auditiva, tendo em conta a idade da doente.

DISCUSSÃO

A etiologia das anomalias do bulbo da jugular permanece incerta, subjacente a alterações congénitas estáveis ou patologia adquirida. O ouvido direito é o mais afetado, já que na maioria da população o bulbo da jugular é dominante à direita^{6,7}, o que constatámos nos quatro casos descritos.

A otoscopia revela, caracteristicamente, a presença de uma massa de tom azulado atrás de uma membrana do tímpano intacta, como verificámos no primeiro doente. Essa massa pode-se distender com a manobra de Valsalva ou por compressão da veia jugular ipsilateral.

A hipoacusia de condução enquanto sintoma inaugural é infrequente e os mecanismos implicados estão relacionados com a posição da anomalia: contacto com a membrana do tímpano, interferência com a cadeia ossicular e obstrução da janela redonda.^{8,9} Se houver atingimento do canal auditivo interno, ducto ou saco endolinfático, como acontece nos divertículos, podem surgir sintomas Ménière-like.

Na nossa série, o segundo e terceiro casos correspondiam a doentes com hipoacusia de condução e otoscopia com membrana timpânica íntegra, cuja história clínica e avaliação complementar sugeria o diagnóstico de otosclerose. A terceira doente dispunha de TC de ouvidos pré-operatória que foi essencial para a estratificação cirúrgica. Na segunda doente esse exame não foi requerido, por opção da equipa médica, o que

se traduziu num achado intra-operatório inesperado que implicou interromper a cirurgia.

O estudo imagiológico pré-operatório não é imperativo numa timpanotomia exploradora. No entanto, a sua realização permite identificar não só anomalias vasculares, mas também sinais indiretos de risco aumentado de Gusher intra-operatório, nomeadamente a dilatação da porção lateral do canal auditivo interno ou alargamento do aqueduto vestibular. Acresce, ainda, o seu papel relevante na avaliação de outros diagnósticos, tais como a deiscência do canal semicircular superior, oclusão da janela redonda ou comprometimento da cadeia ossicular (fixação/descontinuidade).

Neste sentido, parece-nos fundamental o pedido sistemático da TC de ouvidos pré-operatória, num doente com hipoacusia de condução e membrana do tímpano íntegra, proposto para cirurgia de ouvido médio.

Por outro lado, a realização de Angio-RM deve ser reservada para casos selecionados em que é necessário caracterizar as lesões de índole vascular; esta permite diferenciar as anomalias do bulbo da jugular entre si e, relativamente, aos paragangliomas, granulomas de colesterol, artéria carótida aberrante e persistência da artéria estapédica, por exemplo.⁷⁻¹⁰

O conhecimento pré-operatório das variações anatómicas vasculares deve suscitar ponderação e avaliação caso a caso sobre a necessidade de realização de cirurgia, designadamente miringotomia ou cirurgias do ouvido médio. No caso do bulbo da jugular ocluir a janela redonda ou contactar com a cadeia ossicular é sensato abortar a cirurgia e discutir outras opções viáveis com o doente e a sua família, o que acabou por acontecer no nosso segundo caso.

Na eventualidade de hemorragia durante a cirurgia,

dever-se-à tamponar com cera ou pó de osso, esponja gelatinosa ou fascia temporal.^{6,8} Como constatámos no último caso, estes incidentes ocorrem e há que definir a melhor estratégia para controlar as perdas hemáticas e reconsiderar o procedimento cirúrgico. Em casos de hemorragia maciça pode ser necessário laquear a veia jugular a nível cervical para prevenir embolização e tamponar o bulbo e o lúmen proximal do seio sigmóide.⁸ De referir ainda, que o doente deverá estar alerta e ser devidamente informado relativamente ao uso de materiais potencialmente traumáticos no ouvido e suas consequências. Na literatura não há descrição de ruturas espontâneas de bulbos da jugular. Um follow-up de 2-3 anos parece ser consensual para monitorização do quadro clínico atual e potencial aparecimento de complicações e sintomas de novo.⁸

CONCLUSÃO

A procidência do bulbo da jugular na caixa do tímpano é relativamente frequente (3,5 a 7%) e ocorre quer em idade pediátrica, quer em idade adulta. A sua identificação é feita durante a otoscopia (membrana do tímpano azul), pré-operatoriamente em exames de imagem ou peri-operatoriamente, com maior risco hemorrágico associado.

Para além de uma história clínica e exame objetivo minuciosos é imperativa a realização de TC de ouvidos com contraste e/ou angio RM, já que estas anomalias podem limitar e dificultar a abordagem cirúrgica. Apesar de a sua presença não ser contra-indicação para cirurgia, os otorrinolaringologistas devem estar atentos a estas variantes anatómicas para poderem atuar em conformidade caso surjam complicações.

Protecção de pessoas e animais

Os autores declaram que os procedimentos seguidos estavam de acordo com os regulamentos estabelecidos pelos responsáveis da Comissão de Investigação Clínica e Ética e de acordo com a Declaração de Helsínquia da Associação Médica Mundial.

Confidencialidade dos dados

Os autores declaram ter seguido os protocolos do seu centro de trabalho acerca da publicação dos dados de doentes.

Conflito de interesses

Os autores declaram não ter nenhum conflito de interesses relativamente ao presente artigo.

Fontes de financiamento

Não existiram fontes externas de financiamento para a realização deste artigo.

Referências bibliográficas:

1. Wadin K, Thomander L, Wilbrand H. Effects of a high jugular fossa and jugular bulb diverticulum on the inner ear. *Acta Radiol Diagn (Stockh)*. 1986 Nov-Dec;27(6):629-36.
2. Ichijo H, Hosokawa M, Shinkawa H. The relationship between mastoid pneumatization and the position of the sigmoid sinus. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 1996;253(7):421-4.
3. Rausch SD, Xu WZ, Nadol JB Jr. High jugular bulb: implications for posterior fossa neurotologic and cranial base surgery. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 1993 Feb;102(2):100-7.
4. Hourani R, Carey J, Yousem DM. Dehiscence of the jugular bulb and vestibular aqueduct: findings on 200 consecutive temporal bone computed tomography scans. *J Comput Assist Tomogr*. 2005 Sep-Oct;29(5):657-62.
5. Atilla S, Akpek S, Uslu S, Ilgit ET, Isik S. Computed tomographic evaluation of surgically significant vascular variations related with the temporal bone. *Eur J Radiol*. 1995 May;20(1):52-6.
6. Kennedy DW, el-Sirsy HH, Nager GT. The jugular bulb in otologic surgery: anatomic, clinical and surgical considerations. *Otolaryngol Head Neck Surg*. 1986 Jan;94(1):6-15.
7. Lin DJ, Hsu CJ, Lin KN. The high jugular bulb: report of five cases and a review of the literature. *J Formos Med Assoc*. 1993 Aug;92(8):745-50.
8. Weiss RL, Zahtz G, Goldofsky E, et al. High jugular bulb and conductive hearing loss. *Laryngoscope*. 1997 Mar;107(3):321-7.
9. Vachata P, Petrovicky P, Sames M. An anatomical and radiological study of the high jugular bulb on high-resolution CT scans and alcohol-fixed skulls of adults. *J Clin Neurosci*. 2010 Apr;17(4):473-8.
10. Friedmann DR, Le BT, Pramanik BK, Lalwani AK. Clinical spectrum of patients with erosion of the inner ear by jugular bulb abnormalities. *Laryngoscope*. 2010 Feb;120(2):365-72.