

DISTONIA OROMANDIBULAR APÓS ACIDENTE VASCULAR CEREBRAL ISQUÊMICO EM REGIÃO DE GÂNGLIOS DA BASE: UM ESTUDO DE CASO

Lara Paula Martins¹
Victor Alexandre Dantas de Miranda²
José Eduardo Paes de Barros³
Mayko da Silva Botaro⁴
André Cintra Bachega⁵
Maria Eduarda Bernardino⁶

RESUMO: A distonia oromandibular (DOM) é um distúrbio do movimento caracterizado por contrações musculares involuntárias e mantidas da região orofacial. Este estudo objetiva investigar a relação entre acidente vascular cerebral isquêmico (AVCI) em região de gânglios da base e o desenvolvimento de DOM, discutindo sua fisiopatologia, fatores predisponentes e condutas terapêuticas. O estudo tem como objetivo apresentar um caso clínico de um paciente que desenvolveu DOM após AVCI, com gatilho pelo uso prévio de antipsicóticos.

Palavras-chave: Distonia Oromandibular. AVC Isquêmico. Gânglios da Base. Antipsicóticos.

INTRODUÇÃO

A distonia oromandibular (DOM) é uma condição neurológica rara e debilitante, caracterizada por contrações involuntárias e mantidas dos músculos da face, mandíbula e língua. Essas manifestações podem resultar em dificuldades na alimentação, fala e na qualidade de vida dos pacientes (HALLETT, 2018). A etiologia da DOM pode ser primária, quando não há uma causa subjacente identificável, ou secundária, decorrente de fatores como traumatismo craniano, uso prolongado de antipsicóticos e lesões estruturais cerebrais, incluindo as sequelas de um acidente vascular cerebral (AVC) (CHARLESWORTH et al., 2019).

O uso de antipsicóticos tem sido amplamente relacionado ao desenvolvimento de distonias secundárias, incluindo a DOM. Essas medicações, especialmente as de primeira geração, bloqueiam os receptores dopaminérgicos no estriado, levando a disfunções motoras (ALBANESE et al., 2019). Além disso, a neurotoxicidade induzida por esses fármacos pode amplificar alterações já existentes em pacientes com lesões estruturais, como aquelas decorrentes de um AVC (JANKOVIC, 2021).

¹Médica Residente do segundo ano de clínica médica do Hospital do Mandaqui.

²Orientador: Neurologista Preceptor da Residência de clínica médica do Hospital do Mandaqui.

³Médico Residente do segundo ano de clínica médica do Hospital do Mandaqui.

⁴Médico Residente do segundo ano de clínica médica do Hospital do Mandaqui.

⁵Médico Residente do segundo ano de clínica médica do Hospital do Mandaqui.

⁶Médica Residente do segundo ano de clínica médica do Hospital do Mandaqui.

O AVC isquêmico é uma das principais causas de morbidade e mortalidade no mundo, sendo responsável por inúmeras incapacidades motoras e funcionais. A perfusão cerebral reduzida pode comprometer diversas áreas do cérebro, e as lesões nos gânglios da base estão particularmente associadas a distúrbios do movimento, incluindo tremores, coreia e distonias (WU et al., 2020).

A relação entre AVCI e desenvolvimento de distonia secundária tem sido alvo de estudos recentes. Segundo Barbosa et al. (2021), lesões nos gânglios da base, particularmente no putâmen e no globo pálido, desencadeiam disfunções no circuito córtico-estriado-talâmico, resultando em padrões motores anormais. Além disso, a reorganização neural pós-lesão pode levar a uma hiperexcitabilidade neuronal, favorecendo o desenvolvimento da DOM (TISCH et al., 2019).

As opções terapêuticas para a DOM incluem abordagens farmacológicas, como toxina botulínica tipo A e agentes dopaminérgicos, além de técnicas de reabilitação neuromuscular. No entanto, devido à raridade da condição, há uma lacuna no conhecimento sobre as estratégias mais eficazes no tratamento da DOM secundária a AVC. Estudos de caso, como o presente, são fundamentais para elucidar os mecanismos subjacentes e propor melhores condutas terapêuticas (GALLARDO et al., 2022).

5320

Este estudo tem como objetivo descrever e analisar o caso clínico de um paciente que desenvolveu DOM após um AVC lacunar nos gânglios da base, sendo o uso prévio de antipsicóticos um fator potencialmente desencadeante. A compreensão dessa interação pode contribuir para um melhor manejo da condição e para a identificação precoce de pacientes em risco.

RELATO DO CASO

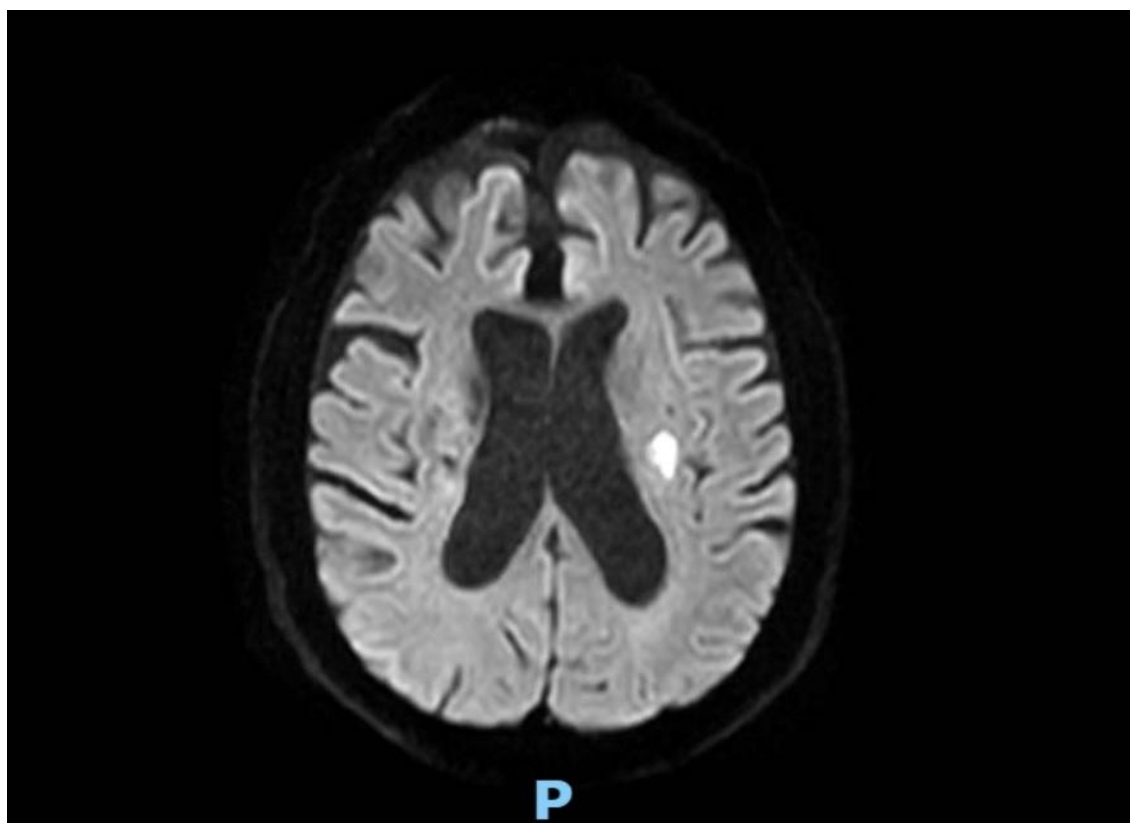
Paciente A.C.S.B.M., sexo masculino, 68 anos, deu entrada em nosso serviço em 11/07/2024, trazida pelo SAMU, com quadro súbito de apraxia oral, abertura bucal persistente e emissão apenas de sons incompreensíveis, associada a sialorreia abundante. O paciente compreendia e obedecia a comandos, comunicando-se por escrita. Não havia outros déficits neurológicos evidentes.

Segundo relato familiar, o paciente residia sozinho em pensão e não foi possível determinar com precisão o horário do início dos sintomas. Era previamente independente para atividades da vida diárias. Antecedentes pessoais incluíam hipertensão arterial sistêmica, esquizofrenia acompanhada em CAPS, hipotireoidismo e AVC isquêmico prévio (há um ano)

com ausência de sequelas motoras. Fazia uso regular de antipsicóticos (clorpromazina, olanzapina e haloperidol), além de valproato de sódio, levotiroxina, atenolol, losartana e clonazepam.

Ao exame físico na admissão: paciente em regular estado geral, hidratado $+/-4+$, corado, afebril, vigil, orientado em tempo e espaço, afásico, com distonia oromandibular e sialorreico, sem déficits motores ou sensitivos associados. Demais sistemas sem alterações relevantes.

Exames laboratoriais estavam dentro da normalidade. A tomografia computadorizada (TC) inicial não mostrou alterações agudas, mas controles subsequentes evidenciaram pequenas lacunas isquêmicas em região capsular direita. Ressonância magnética (06/08/2024) confirmou de forma mais evidente um evento vascular agudo nucleocapsular na profundidade do hemisfério cerebral direito.



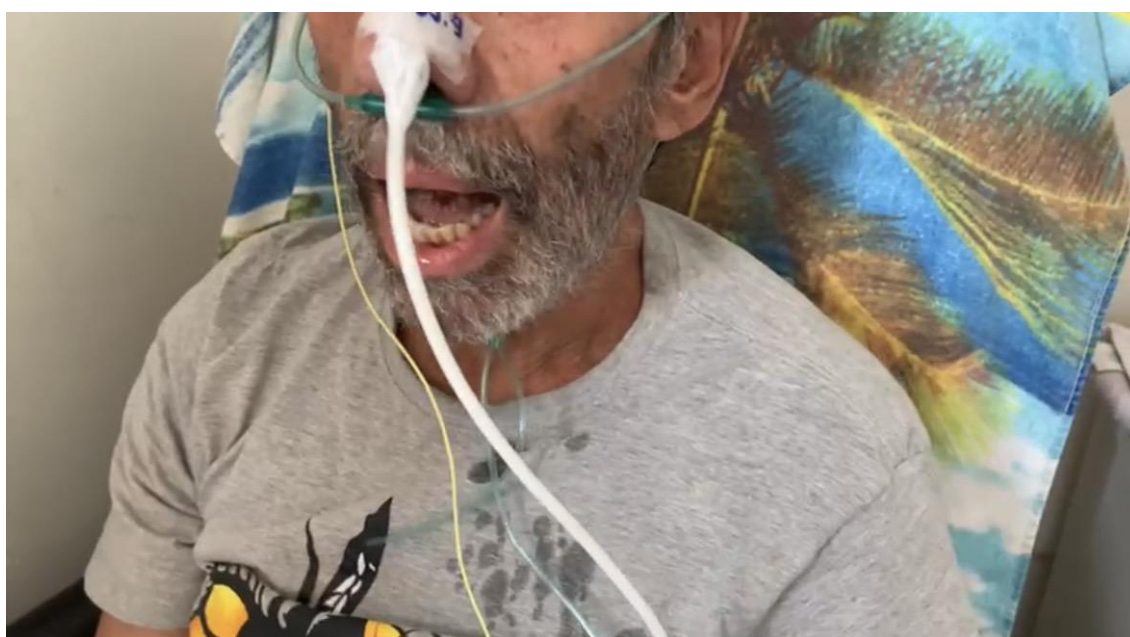
RM de crânio (difusão) 06/08/2024

Durante a internação, manteve-se incapacidade de alimentação por via oral e após avaliação da fonoaudióloga, foi contraindicado dieta vira oral, sendo necessário manter o uso de sonda nasointestinal.

A investigação etiológica (TOAST) concluiu tratar-se de AVC lacunar. Excluiu-se causa cardioembólica e aterosclerose de grandes vasos.

Considerando-se a possibilidade de distonia secundária ao uso crônico de antipsicóticos, foi realizado desmame gradual de clorpromazina, olanzapina e haloperidol, mantendo-se ácido valpróico e risperidona em pequenas doses. Houve discreta melhora, com abertura e fechamento da boca sob comando, mas persistência da distonia oromandibular em repouso.

O paciente foi acompanhado por equipe multidisciplinar, com tentativa de reabilitação motora e fonoaudiológica sem sucesso. Recebeu alta hospitalar com distonia persistente, dependente de sonda para alimentação. Evoluiu a óbito posteriormente em decorrência de complicações relacionadas à internação prolongada.



DISCUSSÃO

A distonia oromandibular (DOM) representa um distúrbio motor raro e debilitante, caracterizado por contrações involuntárias e sustentadas da musculatura orofacial, afetando de forma significativa funções vitais como fala, mastigação e deglutição (HALLETT, 2018). No caso descrito, o paciente apresentou DOM após um acidente vascular cerebral isquêmico (AVCI) em região capsular e de gânglios da base, o que corrobora achados prévios na literatura que descrevem a associação entre lesões dessas estruturas e o desenvolvimento de distúrbios do movimento (WU et al., 2020; BARBOSA et al., 2021).

Estudos demonstram que lesões envolvendo o putâmen e o globo pálido podem desorganizar o circuito córtico-estriado-talâmico, resultando em hiperexcitabilidade neuronal e expressão clínica de distonia (TISCH et al., 2019). Essa fisiopatologia foi compatível com os

achados do presente caso, em que a imagem por ressonância magnética evidenciou infarto lacunar e microangiopatia envolvendo regiões nucleocapsulares.

Outro fator relevante foi o uso crônico de antipsicóticos, conhecidos indutores de distonias secundárias (ALBANESE et al., 2019). Os neurolépticos de primeira geração, em especial, promovem bloqueio dopaminérgico estriatal, aumentando o risco de distúrbios motores (CHARLESWORTH et al., 2019). Em pacientes com lesões estruturais prévias, esse efeito pode ser potencializado, favorecendo o surgimento de manifestações como a DOM (JANKOVIC, 2021). Vale ressaltar também que uso crônico de antipsicóticos também aumentam o risco cardiovascular e consequentemente, maior risco de AVCs.

No tocante ao manejo, a literatura destaca a toxina botulínica tipo A como o tratamento de escolha para DOM, proporcionando melhora significativa dos sintomas motores e funcionais (GALLARDO et al., 2022). Entretanto, no presente caso, a ausência desses recursos no sistema público de saúde, a condição clínica do paciente e as complicações decorrentes da internação prolongada inviabilizaram a implementação dessa terapia, restando apenas medidas de suporte nutricional e reabilitação fonoaudiológica, que não obtiveram resposta satisfatória.

Casos semelhantes descritos em séries clínicas reforçam a gravidade do prognóstico da DOM pós-AVC, sobretudo quando associada a disfagia grave e dependência de via alternativa de alimentação (TORRES-RUIZ et al., 2020; MEHTA; MORRIS, 2021). A sobreposição entre lesão vascular e uso de neurolépticos crônicos sugere um efeito sinérgico na gênese do distúrbio, representando um desafio terapêutico para a equipe multiprofissional.

5323

CONCLUSÃO

O presente relato ilustra a complexidade diagnóstica e terapêutica da distonia oromandibular secundária a acidente vascular cerebral isquêmico em gânglios da base, agravada pelo uso prévio de antipsicóticos. A análise do caso reforça os achados descritos na literatura, evidenciando a relevância da interação entre lesão estrutural cerebral e fatores iatrogênicos na gênese da DOM.

Apesar da raridade, relatos como este são fundamentais para ampliar o entendimento clínico e fisiopatológico da condição, além de contribuir para o desenvolvimento de estratégias diagnósticas e terapêuticas mais eficazes. Ressalta-se a importância da identificação precoce e do manejo multidisciplinar nesses pacientes, de modo a reduzir complicações e melhorar a qualidade de vida.

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

ALBANESE, Alberto et al. The clinical features, pathophysiology and treatment of primary and secondary dystonia. *Nature Reviews Neurology*, v. 15, n. 2, p. 100-115, 2019. Disponível em: <https://doi.org/10.1038/s41582-018-0123-3>.

BARBOSA, R. S. et al. Post-stroke movement disorders: Pathophysiology and rehabilitation strategies. *Frontiers in Neurology*, v. 12, p. 1234, 2021. Disponível em: <https://doi.org/10.3389/fneur.2021.676946>.

CHARLESWORTH, Gavin et al. Dystonia: Mechanisms, models, and therapies. *Annals of Neurology*, v. 85, n. 6, p. 812-831, 2019. Disponível em: <https://doi.org/10.1002/ana.25436>.

GALLARDO, Marta et al. Botulinum toxin treatment in oromandibular dystonia: A systematic review. *Movement Disorders*, v. 37, n. 3, p. 500-511, 2022. Disponível em: <https://doi.org/10.1002/mds.28836>.

HALLETT, Mark. The dystonias: Diagnosis and treatment. *Journal of Neurology, Neurosurgery & Psychiatry*, v. 89, n. 6, p. 576-585, 2018. Disponível em: <https://doi.org/10.1136/jnnp-2017-317324>.

JANKOVIC, Joseph. Treatment of dystonia. *The Lancet Neurology*, v. 20, n. 12, p. 1030-1043, 2021. Disponível em: [https://doi.org/10.1016/S1474-4422\(21\)00308-4](https://doi.org/10.1016/S1474-4422(21)00308-4).

MEHTA, Shilpa H.; MORRIS, Jeremy. Oromandibular dystonia: Clinical features, diagnosis and management. *Practical Neurology*, v. 21, n. 3, p. 227-236, 2021. Disponível em: <https://doi.org/10.1136/practneurol-2020-002735>.

TISCH, S. et al. The basal ganglia and dystonic movements: Pathophysiology and treatment. *Neurology Research International*, v. 2019, p. 1-12, 2019. Disponível em: <https://doi.org/10.1155/2019/8472309>.

TORRES-RUIZ, Juan et al. Oromandibular dystonia secondary to structural brain lesions: Case series and literature review. *Clinical Neurology and Neurosurgery*, v. 197, p. 106101, 2020. Disponível em: <https://doi.org/10.1016/j.clineuro.2020.106101>.

WU, T. et al. Neuroimaging insights into post-stroke movement disorders. *Neuroscience & Biobehavioral Reviews*, v. 116, p. 54-63, 2020. Disponível em: <https://doi.org/10.1016/j.neubiorev.2020.06.025>.