

HIPOTENSÃO INTRATECAL ESPONTÂNEA: RELATO DE CASO

SPONTANEOUS INTRATHECAL HYPOTENSION: CASE REPORT

MATEUS FERREIRA DE SIQUEIRA E SILVA¹; TALITA GUILARDE TORRES¹; GUSTAVO SIQUEIRA ELMIRO¹;
GIULLIANO GARDENGHI^{1,2}

RESUMO

Introdução: A hipotensão intracraniana é uma condição caracterizada por um volume de líquido cefalorraquidiano (LCR) abaixo do normal devido ao vazamento de LCR através da membrana dural em um ou vários locais. A sintomatologia como dor de cabeça ortostática e sintomas associados a rigidez de pescoço, zumbido, fotofobia, náusea e evidência de baixa pressão de LCR ou vazamento por meio de pelo menos uma modalidade de exame de imagem.

Relato de caso: paciente masculino, 46 anos, médico, com relato de fístula líquórica espontânea durante atividade física. Evoluiu com a seguinte sintomatologia: cefaleia holocraniana pulsátil que piora ao deitar e levantar. Realizou tratamento por via oral sem sucesso, necessitando de procedimento invasivo como blood patch para melhora dos sintomas. Passado alguns dias realizou novos exames de imagem sem alterações.

Discussão: O local mais comum de vazamento de LCR é a junção cervicotorácico ou região torácica superior. Os tampões sanguíneos epidurais são frequentemente realizados para o tratamento de cefaleia pós punção dural, podendo variar entre o local prévio de vazamento de líquido ou na localização lombar.

PALAVRAS CHAVE: FÍSTULA; LÍQUIDO CEFALORRAQUIDIANO; HIPOTENSÃO INTRACRANIANA; PLACA DE SANGUE EPIDURAL.

ABSTRACT

Introduction: Intracranial hypotension is a condition characterized by a lower than normal volume of cerebrospinal fluid (CSF) due to CSF leakage across the dural membrane in one or multiple locations. Symptoms include orthostatic headache and symptoms associated with stiff neck, tinnitus, photophobia, nausea, and evidence of low CSF pressure or leakage through at least one imaging modality. Case report: male patient, 46 years old, physician, with report of spontaneous CSF leak during physical activity. It evolved with the following symptoms: pulsatile holocranial headache that worsens when lying down and getting up. He underwent oral treatment without success, requiring an invasive procedure such as a blood patch to improve symptoms. After a few days he underwent new imaging tests with no changes. Discussion: The most common site of CSF leak is the cervicothoracic junction or upper thoracic region. Epidural blood patches are frequently performed for the treatment of post-dural puncture headache, which may vary between the previous site of cerebrospinal fluid leak or the lumbar location.

KEYWORDS: FISTULA; CEREBROSPINAL FLUID; INTRACRANIAL HYPOTENSION; EPIDURAL BLOOD PLAQUE.

INTRODUÇÃO

A hipotensão intracraniana é uma condição caracterizada por um volume de líquido cefalorraquidiano (LCR) abaixo do normal devido ao vazamento de LCR através da membrana dural, em um ou vários locais. A perda de LCR resulta em deslocamento de estruturas cerebrais, causando cefaleia e outros sintomas neurológicos¹. Embora a cefaleia apresente sinais benignos, se não tratada pode levar a eventos adversos graves como acidente vascular encefálico e sequelas neurológicas^{2,3}.

A dor de cabeça com baixa pressão no LCR é quase sempre causada pelo vazamento de LCR, que pode ser

de origem iatrogênica, traumática ou espontânea. A etiologia da perda espontânea de LCR ainda não está clara e o local do vazamento pode estar em qualquer lugar ao longo da coluna vertebral, sendo que geralmente está no nível de região torácica ou cervical baixa⁴. A apresentação mais comum é dor de cabeça ortostática. Outras características podem incluir paralisia dos nervos cranianos, tontura, zumbido, fotofobia, alteração na audição ou rigidez de pescoço⁵.

Dados de grandes estudos comunitários sobre a epidemiologia da hipotensão intracraniana espontânea não estão disponíveis, mas uma estimativa da incidência anual

1. Clínica de Anestesia, Goiânia/GO, Brasil.
2. Hospital ENCORE, Aparecida de Goiânia/GO, Brasil.

ENDEREÇO

GIULLIANO GARDENGHI
CET - CLIANEST, R. T-32, 279 - St. Bueno, Goiânia - GO
E-mail: coordenacao.cientifica@ceafi.edu.br

é de 4 a 5 casos por cada 100.000 de pessoas⁶, o que equivale a cerca de metade da incidência de hemorragia subaracnóide aneurismática. Incluindo crianças e adolescentes, a hipotensão intracraniana espontânea pode afetar pacientes de qualquer idade, sobretudo mulheres com idade entre 35 e 55 anos¹⁴.

O presente estudo tem por objetivo apresentar um caso de fístula líquórica espontânea. Com base nesse relato procuramos explorar formas de diagnóstico e tratamento dessa manifestação.

RELATO DE CASO

Paciente masculino, 46 anos, morador da cidade de Goiânia/Goiás, médico, sem patologias de base, praticante de exercícios físicos regularmente (corrida e natação), sem alergias. Relata que durante alguns dias de férias no mês de dezembro de 2021 iniciou com dorsalgia na região cervical após exercício físico mais extenuante que o normal na praia, associado a cefaleia holocraniana do tipo pulsátil que piorava aos movimentos deitar/levantar, com índice de dor de 3/10. Fez uso de analgésicos simples com melhora parcial da dor. Após 4 dias, já em Goiânia, retornou ao trabalho e iniciou com quadro de diplopia, visão turva e diminuição da acuidade visual. Realizou ressonância nuclear magnética (RNM) de coluna cervical com diagnóstico de paquimeningite, representado pela figura 01 a seguir, vindo a continuar a investigação, no qual realizou punção líquórica e painel viral, todos dentro da normalidade.

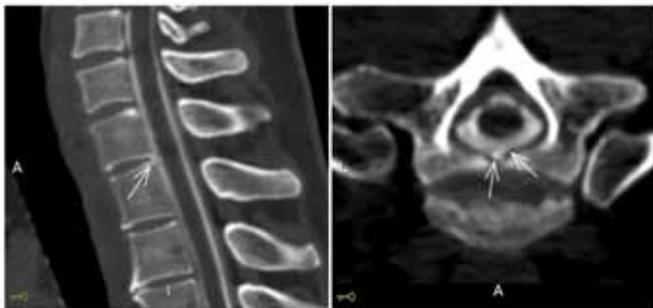


Figura 01: Mielotomografia computadorizada de colunas cervical e torácicas com extravasamento epidural do meio de contraste difundido para o espaço epidural nas aquisições mais tardias, desde C5 até T5.

Realizou outra RNM de neuroeixo com contraste, no qual veio laudado com presença de coleção na região C7-T1, sendo realizado diagnóstico de hipotensão líquórica. Realizou repouso em casa por uma semana, sem melhora dos sintomas algícos leves. Enquanto isso estava fazendo uso de prednisolona via oral por 5 dias diante da suspeita de meningite viral. Após período de repouso, retornou ao hospital de trabalho, onde um anestesiologista realizou o blood patch em região lombar L3-L4 com 20 ml, ficando mais uma semana em repouso, sem melhora. Re-

tornou novamente ao trabalho com sintomas persistentes, sendo realizado outro blood patch na região lombar L2-L3 com 20 ml. Ficou mais uma semana em repouso em casa, sem melhora.

Realizou um terceiro blood patch com localização mais alta com 15 ml, sem melhora. Decidiu procurar outros meios para continuar a investigação, aonde realizou uma mielotomografia com contraste, com laudo de extravasamento epidural do meio de contraste a partir de T1-T2, difundindo para todo o espaço epidural nas aquisições mais tardias, desde C5 até T5.

Retornou para Goiânia, foi realizado um quarto blood patch na região de C7-T1 guiado por tomografia com 10 ml e após 15 dias o paciente negava quaisquer sintomas. Após cinco meses, realizou outra RNM com laudo normal.

DISCUSSÃO

Os critérios diagnósticos para hipotensão intracranial espontânea, conforme estabelecido pela classificação internacional de distúrbios de dor de cabeça, exige presença de (1) dor de cabeça ortostática, (2) sintomas associados a ≥ 1 (rigidez de pescoço, zumbido, fotofobia, náusea) e (3) evidência de baixa pressão de LCR ou vazamento por meio de pelo menos uma modalidade (ressonância magnética cerebral detectando sinais indiretos de baixa pressão do LCR, punção lombar medindo pressão de LCR menor que 6 cmH₂O, mielografia por tomografia computadorizada ou cisternografia com radionuclídeo (RC))⁷.

O local mais comum de vazamento de LCR é a junção cervicotorácica ou região torácica superior. Isto geralmente ocorre espontaneamente ou após um trauma trivial na medula espinhal. Como resultado do vazamento de LCR, o cérebro afunda causando tração das veias pontes, das estruturas meníngeas sensíveis à dor, e dos nervos cranianos causando sintomas⁸.

Tampões sanguíneos epidurais (blood patches) são comumente feitos para dores de cabeça atribuídas ao vazamento de LCR. Seu uso é voltado para o tratamento de pacientes que apresentam cefaléia após uma lesão dural conhecida. O vazamento de LCR foi relatado já em 1955⁹. A etiologia desse vazamento é variável, sendo o motivo mais comum uma punção lombar. Em uma recente Revisão Cochrane, o blood patch foi considerado superior à manejo conservador para tratamento de pós-dural dor de cabeça por punção¹⁰. A maioria dos blood patches são, entretanto, realizados no nível lombar. O blood patch cervical é temido por vários motivos. As complicações comumente citadas incluem paralisia dos nervos cranianos¹¹, estado mental alterado^{12,13}, hematoma subdural¹⁴, convulsões¹⁵ e bradicardia transitória¹⁶. Sérios eventos adversos incluem também a compressão de raízes nervosas¹⁷, e meningite química¹⁸. No nível cervical, então, compressão da medula espinhal se torna a mais temida complicação. No entanto, nenhum estudo sistemático foi feito para elucidar a inci-

dência dessas complicações.

Existem vários relatos indicando que o blood patch lombar pode aliviar permanentemente a dor de cabeça, independentemente se o local do vazamento é identificado ou não^{19,20,21}. Porém, outros relatos demonstram que o blood patch lombar nem sempre resulta em alívio permanente^{22,23,24}. Um estudo de Diaz²⁵ sugere que o local do vazamento deve ser identificado pelo RC e tratado com blood patch direcionado aos níveis do local de vazamento do LCR. Um relatório por Kantor e Silberstein²⁶ também sugere que o blood patch cervical pode ser útil após falha no blood patch lombar, quando o local do vazamento não for identificado.

O nosso relato de caso traz como exemplo duas tentativas de EBP em nível lombar, sem sucesso do vazamento espontâneo de LCR. Posteriormente, quando localizado o local do vazamento, foi realizado o blood patch em nível de C7-T1, que evoluiu com melhora da sintomatologia.

Um relato de caso de Ferrante et al²⁷ indicou que o blood patch tratou com sucesso o vazamento espontâneo de LCR na região cervical. Este relato também mostrou a propagação do sangue da região lombar para a região cervical. Cousins et al²⁸ sugeriram que a colocação do blood patch próximo ao local do vazamento do LCR é importante. O mecanismo proposto é que o sangue injetado sela o defeito dural e interrompe o vazamento. A outra teoria é que a injeção do sangue causa um efeito de tamponamento epidural sobre o vazamento. Pareceria sensato direcionar o tratamento para o local do vazamento, para maximizar as chances de sucesso, mas não há evidências claras para apoiar o blood patch direcionado, e ensaios clínicos randomizados provavelmente não serão viáveis, considerando a baixa incidência da doença.

Na prática anestésica, o blood patch no local do vazamento é o tratamento de escolha se as medidas conservadoras falharem. Outros tratamentos têm sido sugeridos com diferentes taxas de sucesso, incluindo infusão de fluido intratecal, infusão de solução salina peridural, infusão peridural de dextrana, injeção peridural de cola de fibrina, desvio de LCR e reparo cirúrgico de vazamento²⁹. O procedimento torna-se então mais desafiador tecnicamente e de maior risco.

REFERÊNCIAS

1. Antona DL, Jaime Merchan MA, Vassiliou A, et al. Clinical presentation, investigation findings and treatment outcomes of spontaneous intracranial hypotension syndrome: a systematic review and metaanalysis. *JAMA Neurol* 2021;78:329-37. DOI:10.1001/jamaneurol.2020.4799
2. Schievink W. Stroke and death due to spontaneous intracranial hypotension. *Neurocrit Care*. 2013;18:248-251. DOI: 10.1007/s12028-012-9800-3
3. Zakaria R, Wilby M, Fletcher N. Spontaneous csf collection in the cervical spine may cause neurological deficit and intracranial. DOI: 10.2174/1874205X01307010001
4. Schievink WI, Michael LM II, Maya M, Klimo P Jr, Elijovich L. Spontaneous intracranial hypotension due to skull-base CSF leak. *Ann Neurol* 2021;90:514-6. DOI: 10.1002/ana.26175
5. Panya N, Suyin GT. High thoracic/Cervical epidural blood patch for spon-

aneous cerebrospinal fluid leak: a new challenge for anesthesiologists. *Anesth Analg* 2011;113:1476-9. DOI: 10.1213/ANE.0b013e31822e5665

6. Schievink WI, Maya M, Moser FG, Simon PA, Nuño M. Incidence of spontaneous intracranial hypotension in a community. Beverly Hills, California, 2006- 2020. *Cephalalgia* 2021 September 23. <https://doi.org/10.1177/03331024211104>
7. Headache Classification Subcommittee of the International Headache Society. The International Classification of Headache Disorders: 2nd Ed. *Cephalalgia*. 2004;24(S1):9-160.
8. Sriganesh K, JS, VB. Targeted cervical epidural blood patch for the management of refractory headache in a patient with spontaneous intracranial hypotension. *J Neurosurg Anesthesiol*. 2015 Jan;27(1):68-9. DOI: 10.1097/ANA.0000000000000059
9. Nosik W. Intracranial hypotension secondary to lumbar nerve sleeve tear. *J Am Med Assoc* 1955;157: 1110-11.
10. Boonmak P, Boonmak S. Epidural blood patching for preventing and treating post-dural puncture headache. *Cochrane Database Syst Rev* 2010; 1: CD001791.
11. Perez M, Olmos M, Garrido FJ. Facial nerve paralysis after epidural blood patch. *Reg Anesth* 1993;18: 196-8.
12. Beers RA, Cambareri JJ, Rodziewicz GS. Acute deterioration of mental status following epidural blood patch. *Anesth Analg* 1993;76:1147-9.
13. Sperry RJ, Gartrell A, Johnson JO. Epidural blood patch can cause acute neurologic deterioration. *Anesthesiology* 1995;82:303-5.
14. Tekkok IH, Carter DA, Brinker R. Spinal subdural haematoma as a complication of immediate epidural blood patch. *Can J Anaesth* 1996;43:306-9.
15. Kardash K, Morrow F, Beique F. Seizures after epidural blood patch with undiagnosed subdural hematoma. *Reg Anesth Pain Med* 2002;27:433-6.
16. Andrews PJD, Anaes FRC, Ackerman WE, et al. Transient bradycardia associated with extradural blood patch after inadvertent dural puncture in parturients. *Br J Anaesth* 1992;69:401-3.
17. Waguri N, Tomita M, Hayatsu K, Okamoto K, Shimoji K. Epidural blood patch for treatment of spontaneous intracranial hypotension. *Acta Anaesthesiol Scand* 2002;46:747-50
18. Oh J, Camann W. Severe, acute meningeal irritative reaction after epidural blood patch. *Anesth Analg* 1998;87:1139-40
19. Ferrante E, Arpino I, Citterio A. Is it a rational choice to treat with lumbar epidural bloodpatch headache caused by spontaneous cervical CSF leak? *Cephalalgia* 2006;26:1245- 6
20. Terjima K, Oi Y, Ogura A, Sakai N, Takei M, Tamaki T, Ogawa R. Blood patch therapy for spontaneous intracranial hypotension: safe performance after epidurography in an unconscious patient. *Anesth Anal* 2002;94:959-61
21. Benzon HT, Nemickas R, Molloy RE, Ahmad S, Melen O, Cohen B. Lumbar and thoracic epidural blood injections to treat spontaneous intracranial hypotension. *Anesthesiology* 1996;85:920-2
22. Berron S, Loisel B, Ducros A, Boukobza M, Tzourio C, Valade D, Bousser M-G. Early epidural blood patch in spontaneous intracranial hypotension. *Neurology* 2004;63:1950-1
23. Hannerz J, Dahlgren G, Irestedt L, Meyerson B, Ericson K. Treatment of idiopathic intracranial hypotension: cervicothoracic and lumbar blood patch and peroral steroid treatment. *Headache* 2006;46:508-11
24. Nowak DA, Takano B, Topka H. Spontaneous cerebrospinal fluid hypovolaemia: a therapeutic dilemma? *Eur J Neurol* 2006;13:1128-38
25. Diaz JH. Epidemiology and outcome of postural headache management in spontaneous intracranial hypotension. *Reg Anesth Pain Med* 2001;26:582-7
26. Kantor D, Silberstein SD. Cervical epidural blood patch for low CSF pressure headaches. *Neurology* 2005;65:1138
27. Ferrante E, Arpino I, Citterio A. Is it a rational choice to treat with lumbar epidural bloodpatch headache caused by spontaneous cervical CSF leak? *Cephalalgia* 2006;26:1245- 6
28. Cousins MJ, Brazier D, Cook R. Intracranial hypotension caused by cervical cerebrospinal fluid leak: treatment with epidural blood patch. *Anesth Anal* 2004;98:1794-7
29. Mokri B. Headaches caused by decreased intracranial pressure: diagnosis and management. *Curr Opin Neurol* 2003;16:319-26