

## Mucocele de etmoide posterior simulando neurite óptica: Relato de caso

Posterior ethmoid mucocele simulating optic neuritis: Case report

Mucocele etmoidal posterior simulando neuritis óptica: Reporte de caso

Recebido: 01/02/2022 | Revisado: 10/02/2022 | Aceito: 14/02/2022 | Publicado: 21/02/2022

### **Henrique de Paula Bedaque**

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-4674-3056>  
Universidade Federal do Rio Grande do Norte, Brasil  
E-mail: drbedaque@gmail.com

### **Ana Beatriz Seabra Santos de Araújo**

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-9868-9894>  
Universidade Federal do Rio Grande do Norte, Brasil  
E-mail: anabeatrizssa@gmail.com

### **Bárbara Cristina Vieira de Aquino**

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-1092-4226>  
Universidade Federal do Rio Grande do Norte, Brasil  
E-mail: barbaracvdeaquino@gmail.com

### **Paulo Santiago de Moraes Brito**

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-0010-7217>  
Universidade Federal do Rio Grande do Norte, Brasil  
E-mail: pauloufrn@yahoo.com.br

### **Bruno Thieme Lima**

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-2834-6508>  
Universidade Federal do Rio Grande do Norte, Brasil  
E-mail: bruno.thlima@outlook.com

### **Flávia Pelinsari Lana**

ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-6628-9682>  
Universidade Federal do Rio Grande do Norte, Brasil  
E-mail: flavia\_pl@yahoo.com.br

### **Resumo**

Mucoceles são formações císticas que podem ocorrer em variadas topografias na cavidade nasal, principalmente e na região do seio frontal e das células etmoidais, levando a uma clínica decorrente de seu efeito compressivo local e apresenta a cirurgia como a principal forma de manejo terapêutico. O objetivo deste relato de caso é descrever o quadro clínico de um jovem do sexo masculino com uma mucocele em região de células etmoidais posteriores que abriu sua clínica de sintomas simulando os achados de uma neurite óptica, levando a apresentar uma clínica de perda visual do lado direito. Após seu tratamento inicial com corticoide não apresentar resultados clínicos, o exame de imagem foi capaz de identificar a descrição radiológica clássica de uma mucocele, transformando o diagnóstico e tratamento do paciente. Como conclusão, sugere-se que o caso apresentado seja uma referência no processo de construção de hipóteses diagnósticas dentro de um pensamento em neurite óptica, levantando sempre a necessidade de pensar em mucocele, e reiteramos que o tratamento cirúrgico é o de escolha no manejo desses pacientes.

**Palavras-chave:** Mucocele; Neurite óptica; Cegueira; Terapêutica.

### **Abstract**

Mucoceles are cystic formations that can occur in different topographies in the nasal cavity, especially in the region of the frontal sinus and ethmoid cells, leading to a clinic due to its local compressive effect and presents surgery as the main form of therapeutic management. The objective of this case report is to describe the clinical picture of a young male with a mucocele in the region of posterior ethmoid cells who opened his symptom clinic simulating the findings of an optic neuritis, leading to a clinic of visual loss on the side right. After the initial treatment with corticosteroids did not show clinical results, the imaging exam was able to identify the classic radiological description of a mucocele, transforming the diagnosis and treatment of the patient. In conclusion, it is suggested that the case presented is a reference in the process of building diagnostic hypotheses within a thought in optic neuritis, always raising the need to think about mucocele, and we reiterate that the surgical treatment is the choice in the management of these patients.

**Keywords:** Mucocele; Optic neuritis; Blindness; Therapeutics.

### **Resumen**

Los mucoceles son formaciones quísticas que pueden presentarse en diferentes topografías en la cavidad nasal, especialmente en la región del seno frontal y las celdillas etmoidales, dando lugar a clínica por su efecto compresivo local y presentando a la cirugía como principal forma de manejo terapéutico. El presente reporte de caso tiene como

objetivo describir el cuadro clínico de un varón joven con un mucocele en la región de las celdillas etmoidales posteriores que abrió su clínica sintomática simulando los hallazgos de una neuritis óptica, derivando en una clínica de pérdida visual del lado derecho. Luego de que el tratamiento inicial con corticoides no arrojara resultados clínicos, el examen de imagen logró identificar la clásica descripción radiológica de un mucocele, transformando el diagnóstico y tratamiento de la paciente. En conclusión, se sugiere que el caso presentado es un referente en el proceso de construcción de hipótesis diagnósticas dentro de un pensamiento en neuritis óptica, planteando siempre la necesidad de pensar en el mucocele, y reiteramos que el tratamiento quirúrgico es de elección en el manejo de la neuritis óptica. estos pacientes.

**Palabras clave:** Mucocele; Neuritis óptica; Ceguera; Terapéutica.

## 1. Introdução

Mucoceles dos seios paranasais são formações císticas benignas com acúmulo de conteúdo mucoso que normalmente decorrem de uma obstrução do óstio do seio nasal acometido (Capra, 2012; Thompson, 2012). O seio nasal mais acometido é o frontal, com cerca de 60% dos casos de mucocele, em seguida temos o etmoidal, sendo sua forma etmoidal anterior mais frequente do que a localizada mais posteriormente (Kim, 2017; Liu et al., 2015).

Sua primeira descrição médica remonta ao ano de 1820 pelo pesquisador Langenbeck utilizando o termo “Hydatic”, porém este foi mudado para o vigente termo mucocele em 1909 pelo Rollet (Aggarwal *et al.*, 2012).

Nesse contexto, por sua raridade, ainda pouco compreendemos sobre sua fisiopatologia e fatores de risco, entretanto acredita-se que inflamação da mucosa nasal, alergias, traumas, anormalidades anatômicas e displasia fibrosa devem ter um papel no desenvolvimento dessa doença (Dzhambazov, 2018; Aggarwal *et al.*, 2012).

Apesar de serem benignos, sofrem expansão progressiva o que normalmente leva a apresentação de sintomas oftalmológicos, como proptose, limitação do movimento ocular e dor ocular (Lajmi, 2017; Roncone, 2020). Além disso, por sua localização, há relatos de acometimento de base de crânio e intracraniano (Dzhambazov, 2018; Manaka, 1998). Ademais, ainda mais raramente podemos encontrar relatos de amaurose pela compressão do nervo óptico (Simões *et al.*, 2015).

Na tomografia normalmente encontramos uma massa homogênea com expansão para tecido ósseo e que não se destaca com contraste, já na ressonância temos uma intensidade variável em T1 e hiperintensa em T2 (Capra et al., 2012). Histologicamente encontramos tecido de mucosa respiratória com áreas reativas de formação óssea, fibrose, hemorragia e tecido de granulação (Capra et al., 2012).

A marsupialização endoscópica nasossinusal para o tratamento dessa doença foi primeiramente relatada em 1989 e atualmente temos essa via como de escolha para o manejo do paciente com mucocele de seios paranasais (Vicente et al., 2004; Santos *et al.*, 2017). Objetivamos descrever um relato raro de mucocele levando a amaurose unilateral para despertar a possibilidade dessa hipótese a pacientes com clínica semelhante.

## 2. Metodologia

Trata-se de um estudo descritivo, retrospectivo, qualitativo, feito por meio da técnica de observação direta do paciente e de seus exames. Os dados foram coletados a partir da conferência com o prontuário eletrônico (Pereira et al., 2018; Bedaque & Bezerra, 2018).

Respeitando os princípios éticos de pesquisa com pacientes, preconizados pela resolução do Conselho Nacional em Saúde (CNS) de número 466/12, o paciente consentiu a divulgação de seus dados e exibição de imagens do seu caso para fins científicos por meio da assinatura de um Termo de Consentimento Livre e Esclarecido.

### 3. Relato de Caso

Paciente do sexo masculino de 19 anos, sem comorbidades conhecidas, conta história de que há cerca de 6 semanas apresentou cefaleia do tipo “aperto” em regiões occipital e retroorbitária que ao longo das 48 horas subsequentes relata ter evoluído para uma cegueira em seu olho direito, sem levar a qualquer repercussão para a visão contralateral.

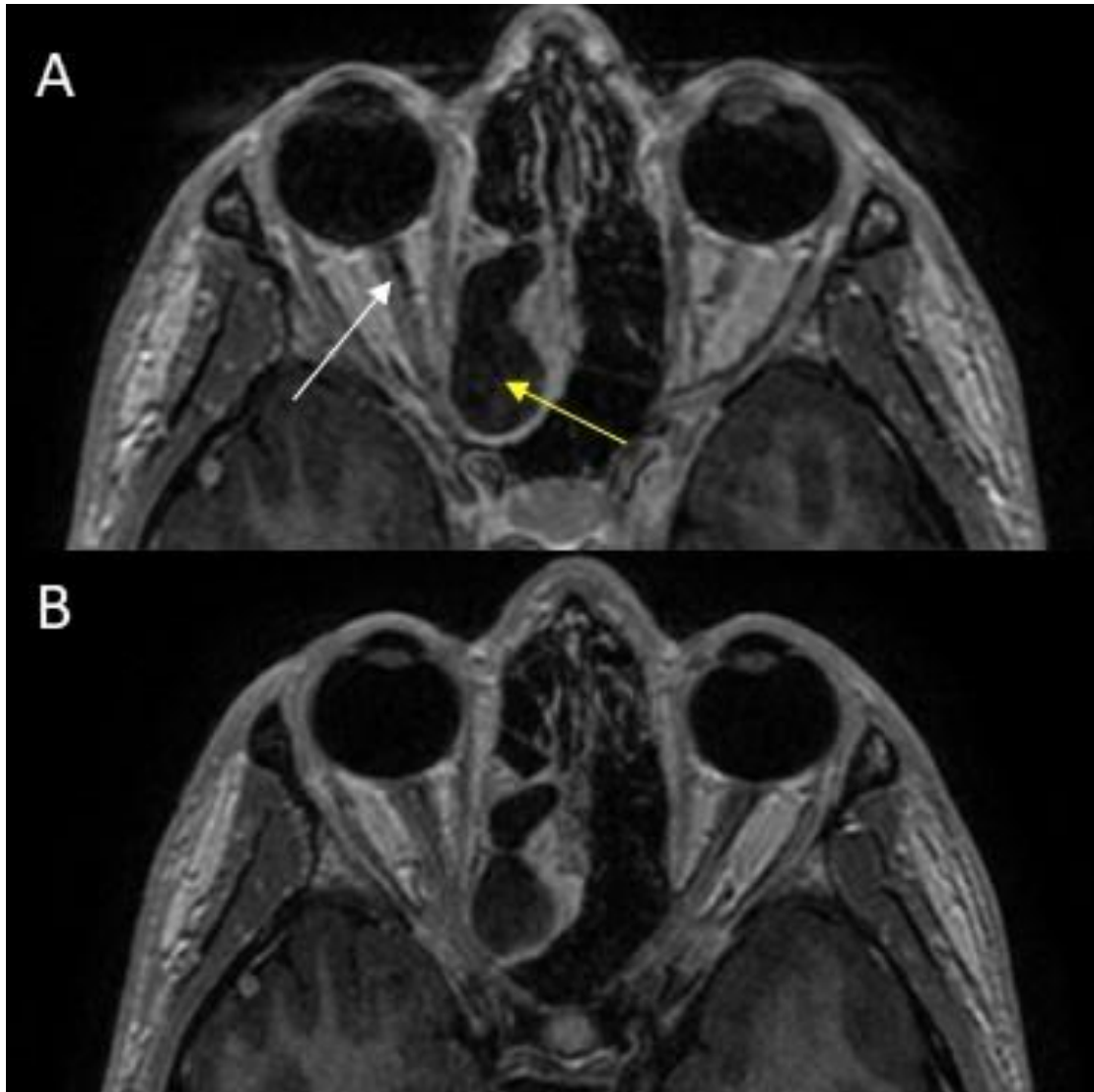
Em seus antecedentes pessoais negava qualquer tipo de trauma crânio-encefálico e não tinha sintomas nasais compatíveis para um possível diagnóstico de rinite alérgica, não alérgica ou rinossinusite crônica.

Foi inicialmente avaliado pela oftalmologia. Ao exame não apresentava alterações à ectoscopia bilateral. Havia reflexo pupilar diminuído e defeito pupilar aferente relativo (pupila de Marcus-Gunn). Na avaliação da acuidade visual do olho direito havia percepção luminosa. Sem reação de câmara anterior. Pressão intraocular de 13 mmHg no olho direito e 16 mmHg no olho esquerdo. A fundoscopia de ambos os olhos não apresentava alterações.

A hipótese de neurite óptica autoimune ou desmielinizante foi considerada a mais provável tendo em vista a prevalência por faixa etária e ausência de comorbidades conhecidas ou sintomas sistêmicos.

Dessa forma, após afastadas causas infecciosas mais comuns (radiografia de tórax normal, sorologias para toxoplasmose IgM, CMV IgM, anti-HIV e VDRL não reagentes, 6330 leucócitos em amostra de sangue periférico e líquido com 2 células e proteínas de 34,1), foi optado por iniciar imediatamente pulsoterapia com 1g de metilprednisolona por 5 dias, objetivando minimizar sequelas caso houvesse atraso na abordagem terapêutica. Não houve, entretanto, melhora clínica da acuidade visual. Ressonância Nuclear Magnética (RNM) de crânio realizada posteriormente evidenciou processo expansivo de foco etmoidal levando à compressão do nervo óptico à direita (Figura 1). O paciente evoluiu com palidez de disco óptico no olho esquerdo.

**Figura 1** - Imagem da Ressonância Nuclear Magnética.

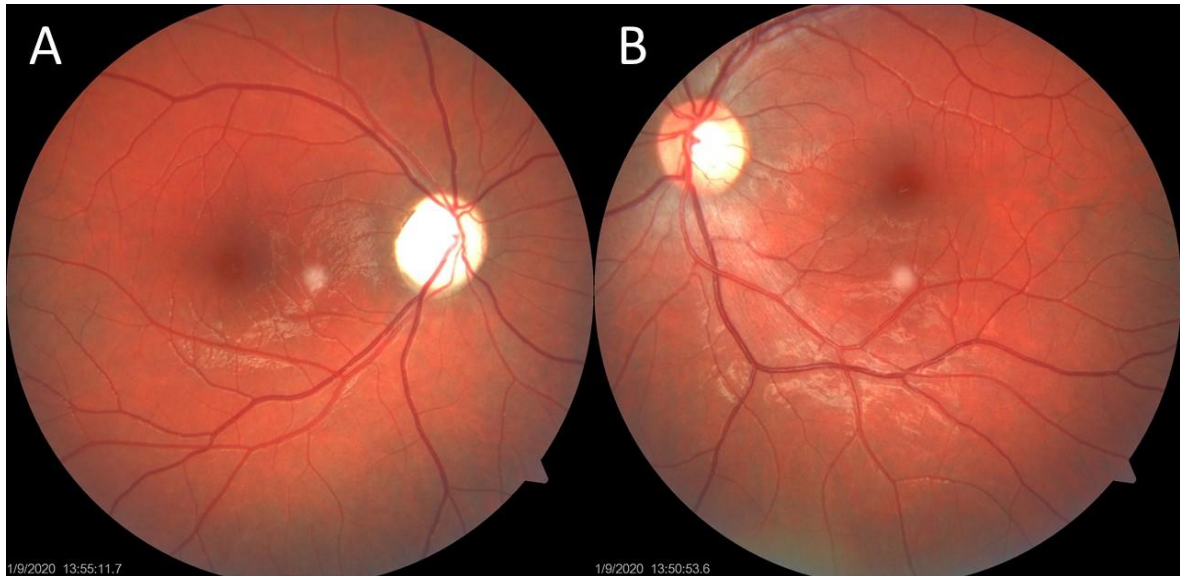


Imagens de RNM na fase T1 com contraste com uso de gadolínio. Seta branca indica o nervo óptico e a seta amarela a mucocèle em região de seios etmoidais posteriores. Fonte: Dados dos Autores.

Ademais, com a entrada da otorrinolaringologia para a equipe multidisciplinar do cuidado do paciente foi levantada a hipótese de um raro caso de mucocèle etmoidal posterior levando a uma compressão do nervo óptico a direita e causando redução da acuidade visual. Após 7 semanas do início dos sintomas, foi realizada etmoidectomia, com consequente descompressão do nervo óptico e drenagem da mucocèle. O ato cirúrgico decorreu sem intercorrências e o paciente teve alta hospitalar no dia seguinte, ficando aos cuidados da oftalmologia e otorrinolaringologia para seguimento ambulatorial.

Após o ato operatório a acuidade visual do paciente evoluiu com pouca melhora em comparação ao exame pré-operatório, apresentando-se agora como percepção de movimento de mãos. Foi realizada retinografia para documentação e melhor avaliação da retina (Figura 2).

**Figura 2** - Retinografia após ato operatório.



A imagem A representa a retinografia do olho direito e a imagem B a do olho esquerdo. Fonte: Dados dos Autores.

#### 4. Discussão

Neurite óptica é uma causa frequente de lesão de nervo óptico em crianças e adultos. Embora esteja frequentemente associada à esclerose múltipla, várias são as etiologias associadas à neurite óptica: autoimune, infecciosa, doença granulomatosa, paraneoplásica e desmielinizante (Toosy, 2014; Gise & Heidary, 2020). Dessa forma, o prognóstico e tratamento dependem da etiologia, duração, gravidade da perda visual, lesão prévia e sucesso de tratamento anterior. A abordagem ideal desses pacientes depende do reconhecimento rápido, investigação diagnóstica apropriada e instituição precoce de tratamento efetivo (Bennett, 2019; Wilhelm, 2015).

No caso descrito, as etiologias autoimunes e desmielinizantes inicialmente foram levantadas como fortes hipóteses pela maior prevalência na faixa etária dos adultos jovens, bem como a ausência de sintomas sistêmicos sugestivos de doenças neoplásicas, granulomatosas e infecciosas associadas. A rápida intervenção é fundamental para o prognóstico, o que pode explicar a persistência do déficit a despeito do tratamento cirúrgico tardio, após 7 semanas do início dos sintomas.

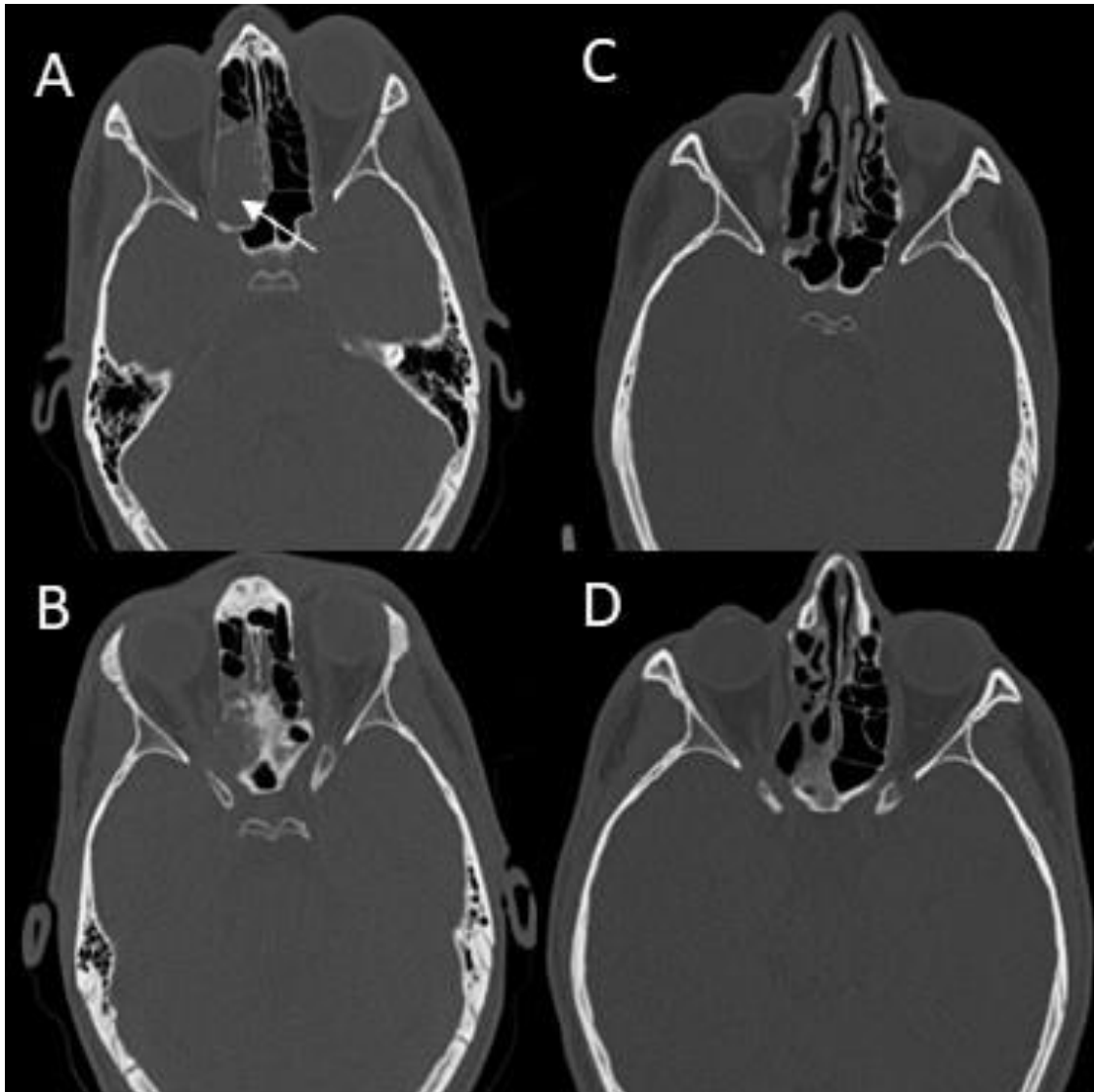
Com a realização da RNM de crânio (Figura 01) não foi evidenciada captação de contraste pelo nervo óptico ou presença de lesões hiperintensas próximas aos ventrículos que sugerissem a presença de doenças desmielinizantes, mas foi identificada a presença de uma lesão expansiva com hipossinal em T1 e sem realce com contraste por gadolínio localizada em região de seio etmoidal posterior medialmente ao caminho do nervo óptico direito e levando a sua compressão.

Os achados da RNM são compatíveis com a descrição da literatura de uma mucocele (Capra *et al.*, 2012). Além disso, apesar de raro a amaurose também já foi descrita como sendo um sintoma de mucocele etmoidal ou esfenoidal (Simões *et al.*, 2015). Somando, então, a clínica com os exames complementares foi fortalecida a hipótese de mucocele de seios etmoidais posteriores a direita e solicitada tomografia computadorizada (TC) de seios da face para avaliação pré-operatória (Figura 3).

Na TC identificamos imagem isodensa em etmóide posterior com erosão óssea nas suas margens e compressão de nervo óptico. Nessa situação, como já referenciado pela literatura, temos a indicação de procedimento cirúrgico para retirar todo o conteúdo da lesão, evitar seu crescimento para o sistema nervoso central e tentar proporcionar melhora clínica (Vicente *et al.*, 2004).



**Figura 3** - Tomografias Computadorizadas.



Imagens A e B são de tomografia realizada antes do ato cirúrgico, com a seta branca representando a mucocele etmoidal posterior. Imagens C e D são de tomografias realizadas dois meses após intervenção. Fonte: Dados dos autores.

Após o procedimento sem intercorrências seguiu-se com a realização de uma TC de controle após 2 meses (Figura 3). Foi possível notar que a descompressão do nervo óptico (com a redução da lâmina papirácea), a abertura do seio etmóide e do esfenóide ocorreram de modo satisfatório. Vemos pouca quantidade de material de densidade de tecido mole onde existia a lesão, que deve significar apenas processo inflamatório decorrente ainda do ato cirúrgico.

Entretanto, pelo tempo do início dos sintomas até a intervenção definitiva (7 semanas), o efeito compressivo sobre o nervo óptico, com redução do suprimento sanguíneo intraorbitário, por intervalo de tempo maior que 90 a 120 minutos, atuou como causa de lesões irreversíveis ao nervo, com perda importante da acuidade visual (Risheim & Sneve, 2014; Chang & Bernardino, 2004). Dessa forma, o paciente não evoluiu com melhora significativa mesmo após o procedimento cirúrgico, apresentando, no seguimento clínico, acuidade visual de movimento de mãos no olho acometido.

## 5. Considerações Finais

O relato de caso exposto acima traz um ambiente científico para reflexão sobre diagnósticos diferenciais e de como exames complementares são uma ferramenta que vem se mostrando de grande ajuda no processo diagnóstico e, por vezes, na melhor escolha de abordagem terapêutica.

Assim, trazemos em destaque a possibilidade de uma mucocèle etmoidal posterior como parte integrante do diagnóstico diferencial de perda visual. Além disso, reforçamos a importância da brevidade do processo de diagnóstico e intervenção para tentar reduzir ao máximo as sequelas ao paciente. Ademais, reforçamos que no tratamento de uma mucocèle de origem nasal a escolha pela intervenção cirúrgica é destaque e deve sempre ser considerada como a melhor forma de melhorar a clínica do paciente e de reduzir suas sequelas.

Por fim, reforçamos que há uma necessidade de pesquisas mais robustas, como série de casos, coortes e revisões como forma de congregar os vários relatos de casos sobre mucocèles nasossinusais e construir um conhecimento mais completo sobre o importante tema deste relato.

## Referências

- Aggarwal, S. K., Bhavana, K., Keshri, A., Kumar, R., & Srivastava, A. (2012). Frontal sinus mucocèle with orbital complications: Management by varied surgical approaches. *Asian journal of neurosurgery*, 7(3), 135–140. <https://doi.org/10.4103/1793-5482.103718>.
- Bedaque & Bezerra. (2018). Descomplicando MBE: Uma abordagem prática da medicina baseada em evidências. Ed. Caule de Papiro.
- Bennett, J. L. (2019). Optic Neuritis. *Continuum: lifelong learning in neurology*, 25(5), 1236–1264. <https://doi.org/doi:10.1212/CON.0000000000000768>.
- Capra, G. G., Carbone, P. N., & Mullin, D. P. (2012). Paranasal sinus mucocèle. *Head and neck pathology*, 6(3), 369–372. <https://doi.org/10.1007/s12105-012-0359-2>.
- Chang, E. L., & Bernardino, C. R. (2004). Update on orbital trauma. *Current opinion in ophthalmology*, 15(5), 411–415. <https://doi.org/10.1097/01.icu.0000137854.37950.fb>.
- Dzhambazov, K. B., Kitov, B.D., Zhelyazkov, H. B., Traykova, N. I., Kehayov, I. I., Kitova T. T., (2018). Mucocèle of the Paranasal Sinuses - Retrospective Analysis of a Series of Seven Cases. *Folia Med (Plovdiv)*. 60(1):147-153. doi:10.1515/folmed-2017-0077.
- Gise, R. A., & Heidary, G. (2020). Update on Pediatric Optic Neuritis. *Current neurology and neuroscience reports*, 20(3), 4. <https://doi.org/10.1007/s11910-020-1024-x>.
- Kim, J. S., Kim, E. J., Kwon, S. H., (2017). An ethmoid mucocèle causing diplopia: A case report. *Medicine (Baltimore)*. 96(50):e9353. doi:10.1097/MD.00000000000009353.
- Lajmi, H., Hmaied, W., Ben Jalel, W., Ben Romdhane, K., Chelly, Z., El Fekih, L., (2017). Unilateral proptosis revealing a fronto-ethmoidal mucocèle. *Tunis Med*. 95(6):449-451.
- Liu, X., Wang, X., Wen, J., Liu, C., Cai, Y., Feng, Y., & He, C. (2015). *Lin chuang er bi yan hou tou jing wai ke za zhi*. *Journal of clinical otorhinolaryngology, head, and neck surgery*, 29(21), 1850–1852.
- Manaka, H., Tokoro, K., Sakata, K., Ono, A., & Yamamoto, I. (1998). Intradural extension of mucocèle complicating frontoethmoid sinus osteoma: case report. *Surgical neurology*, 50(5), 453–456. [https://doi.org/10.1016/s0090-3019\(97\)00162-6](https://doi.org/10.1016/s0090-3019(97)00162-6).
- Pereira A. S. et al. (2018). Metodologia da pesquisa científica. UFSM.
- Risheim, H., & Sneve, M. (2014). Bleeding behind the eye. *Tidsskr Nor Lægeforen*, 134(14), 1854. <https://doi.org/10.4045/tidsskr.13.0712>.
- Roncione D. P. (2020). Frontoethmoidal mucocèle presenting with ocular manifestations. *Clinical & experimental optometry*, 103(5), 610–617. <https://doi.org/10.1111/cxo.13006>.
- Santos, P., Chihara, L. L., Alcalde, L., Masalskas, B. F., Sant'Ana, E., & Faria, P. (2017). Outcomes in Surgical Treatment of Mucocèle in Frontal Sinus. *The Journal of craniofacial surgery*, 28(7), 1702–1708.
- Simões, J. C., Nogueira-Neto, F. B., Gregório, L. L., Caparroz, F. D. A., & Kosugi, E. M. (2015). Perda visual: complicação rara de mucocèle de seio maxilar. *Brazilian Journal of Otorhinolaryngology*, 81(4), 451-453.
- Thompson L. D. (2012). Paranasal sinus mucocèle. *Ear, nose, & throat journal*, 91(7), 276–278.
- Toosy, A. T., Mason, D. F., & Miller, D. H. (2014). Optic neuritis. *The Lancet. Neurology*, 13(1), 83–99. [https://doi.org/10.1016/S1474-4422\(13\)70259-X](https://doi.org/10.1016/S1474-4422(13)70259-X).
- Vicente, A. O., Chaves, A. G., Takahashi, E. N., Akaki, F., Sampaio, A. A., & Matsuyama, C., (2004). Mucocèle frontoethmoidal: relato de casos e revisão da literatura. *Revista Brasileira de Otorrinolaringologia*, 70(6), 850-854. <https://doi.org/10.1590/S0034-72992004000600026>.
- Wilhelm, H., & Schabet, M. (2015). The Diagnosis and Treatment of Optic Neuritis. *Deutsches Arzteblatt international*, 112(37), 616–626. <https://doi.org/10.3238/arztebl.2015.0616>.