

Distonia oromandibular psicogênica: relato de caso

Psychogenic oromandibular dystonia: case report

Felipe G. BUENO¹; Giovanni GASPERINI²; Bruno M. LIMA³

1 - Especialista em cirurgia e traumatologia bucomaxilofacial HC/UFG. Departamento de cirurgia e traumatologia bucomaxilofacial. Hospital das Clínicas / UFG.

2 - Doutor em Ciências da Saúde FM/UFG. Departamento de cirurgia e traumatologia bucomaxilofacial. Hospital das Clínicas / UFG.

3 - Especialista em cirurgia e traumatologia bucomaxilofacial. Departamento de cirurgia e traumatologia bucomaxilofacial. Centro de Reabilitação e Readaptação Dr. Henrique Santillo (CRER).

INTRODUÇÃO

Distonia é uma desordem de movimento caracterizada por contrações musculares padronizadas, direcionais e repetitivas que, muitas vezes, produzem posturas anormais e quadros dolorosos. Os movimentos distônicos podem ser classificados de acordo com a distribuição anatômica dos músculos afetados, idade, ou causa primária ou secundária¹.

A prevalência da distonia oromandibular varia, havendo relatos de 6,9 casos a cada 100.000 pessoas nos Estados Unidos, com incidência de 3,3 casos por 1.000.000². Estudos sugerem que as mulheres são mais afetadas que os homens, com idade de instalação dos sintomas de 45 a 70 anos³.

De acordo com a área afetada, a distonia pode ser classificada em focal, quando afeta apenas uma região do corpo, ou segmentar, quando duas ou mais áreas associadas são comprometidas. Nos casos multifocais, o paciente apresenta duas ou mais áreas não associadas. Quando metade do corpo, ou nos casos em que as pernas e mais uma região do corpo é afetada, são classificados como hemidistonia ou distonia generalizada, respectivamente (Tabela I)¹.

Tabela 1 - Classificação da distonia de acordo com a distribuição

Distribuição
Focal Exemplos: distonia cervical, blefaroespasma, distonia oromandibular
Segmental Exemplos: Síndrome de Meige, distonia crânio cervical
Multifocal
Hemidistonia
Generalizada

A etiologia da distonia é variada, podendo ser primária (idiopática) ou secundária. Para ser classificada como primária, é necessária a exclusão de qualquer fator que possa estar associado a esta desordem de movimento, como, por exemplo, hereditariedade, síndromes como doença de Parkinson, trauma periférico, causa medicamentosa, lesões vasculares e cerebrais, tumores cerebrais, infecções, e origem psicogênica. A desordem é classificada como secundária caso alguma destas condições

encontra-se presente. A maioria das distonias idiopáticas é classificada como focais ou segmentais iniciando na vida adulta, e apenas 10% apresentam-se como distonias generalizadas. Quando presentes apresentam-se na infância ou adolescência com os sinais clássicos de movimentos distônicos⁴.

A distonia oromandibular é uma variação focal desta desordem, assim como o blefaroespasma e a câimbra dos escritores, sendo observados movimentos involuntários e repetitivos de diferentes grupos musculares, que pode envolver lábios, língua e faringe, e ocasionar diferentes sintomas dependendo do grupo muscular afetado, podendo levar a movimentos de fechamento, abertura, protrusão e lateralidade mandibular, além de movimentos anormais de língua, assim como a combinação dos mesmos, sendo subclassificada de acordo com o padrão observado³. Quando associada ao fechamento forçado das pálpebras, blefaroespasma, o quadro passa a ser classificado como síndrome de Meige^{1,5-7}.

O diagnóstico da distonia oromandibular é puramente clínico, assim como a distinção entre os diferentes tipos. Desta forma, pode ser facilmente confundida com outras desordens, como bruxismo, luxação mandibular espontânea, espasmos hemimastigatórios ou hemifaciais, dentre outros, podendo, assim, serem tratadas de forma inadequada⁸⁻¹².

Quando estão presentes contrações distônicas em região de mandíbula, envolvendo os músculos da mastigação, o quadro pode ser facilmente confundido com diversas patologias, sendo de grande importância a intervenção do cirurgião-dentista quanto aos sinais e sintomas, para diagnóstico clínico preciso, tratamento adequado e, se necessário, encaminhamento.

Para o tratamento adequado da distonia, é de suma importância à determinação da etiologia, podendo ser classificada como psicogênica quando são observados movimentos inconsistentes e incongruentes, ou seja, movimentos distintos e sem padrões estabelecidos, o que diferencia essa condição em particular dos demais subtipos de distonia^{1,13}.

Após a definição da etiologia, o tratamento adequado pode ser aplicado, desde aplicações de toxina botulínica até tratamento de causas fisiológicas associadas ou uso de antidepressivos via oral em casos de origem psicogênica¹⁴.

O objetivo deste artigo é descrever um caso de distonia psicogênica oromandibular, de forma a relatar os principais sinais e sintomas, auxiliando assim, o cirurgião-dentista no diagnóstico

diferencial e na condução do caso.

RELATO DE CASO

Paciente R.A.S., 30 anos, compareceu ao pronto socorro do Hospital das Clínicas de Goiânia com queixa de sintomatologia dolorosa em região de face e incapacidade de fechar a boca. Durante a anamnese, o paciente negou problemas de saúde, assim como histórico prévio de episódios de distonia. Além disso, relatou uso de ansiolítico 48 horas antes da manifestação dos sintomas para tratamento de ansiedade e insônia, sem prescrição médica, sendo esta a única medicação usada previamente.

O paciente teve o primeiro atendimento realizado em uma unidade de saúde da família, sendo encaminhado à equipe de Cirurgia e Traumatologia Bucomaxilofacial pelo cirurgião-dentista da unidade, com hipóteses diagnósticas de deslocamento anterior de mandíbula e paralisia de Bell.

Ao exame clínico, notou-se espasmos involuntários e intermitentes dos músculos da mastigação, músculos cervicais e da língua. Durante os episódios, o paciente realizava movimentos forçados de abertura, fechamento, lateralidade e protrusão de mandíbula, além de giroversão da cabeça decorrente dos espasmos cervicais, não obedecendo padrões de movimentos (Figuras 1-3).

Observou-se sinais de disfagia, disfonia e dispneia durante os episódios espasmódicos, apresentando também sintomatologia dolorosa, principalmente sob espasmos de contração dos músculos cervicais e elevadores da mandíbula, havendo regressão dos sintomas principalmente sob função. Durante o sono, o paciente não apresentou sinais e sintomas decorrentes dos espasmos musculares.

O paciente foi mantido em observação, e optou-se pelo uso de medicação ansiolítica e neuroléptica de urgência: 10mg de Clobazam e 5mg de Haldol, respectivamente, já que o paciente apresentava-se extremamente ansioso e agitado, com queixa de dor aguda. Juntamente com a equipe de neurocirurgia, foi dada a hipótese diagnóstica de distonia oromandibular associada à distonia cervical, sendo acompanhado em conjunto com a equipe multiprofissional.

Após 24 horas do início dos sintomas, o paciente apresentou regressão total do quadro, relatando, em acompanhamento clínico, estresse e problemas pessoais recentes. Assim sendo, foi diagnosticada distonia oromandibular de origem psicogênica.

Foi prescrito ao paciente o uso de antidepressivos, e o mesmo encontra-se em acompanhamento ambulatorial de 1 ano, apresentando remissão completa dos sintomas.

DISCUSSÃO

A distonia oromandibular é uma condição rara¹⁵ e de difícil diagnóstico, sendo este puramente clínico. Além disto, casos de distonia raramente são encaminhados ao cirurgião bucomaxilofacial, sendo mais facilmente encontrados em serviços de neurologia, onde normalmente é realizado o tratamento e acompanhamento da desordem, tornando a experiência clínica do cirurgião limitada em relação a tal condição. No entanto, o cirurgião-dentista deve estar familiarizado com os sinais e sintomas da condição, já que pacientes portadores desta desordem provavelmente irão apresentar complicações quando forem submetidos a tratamento odontológico.



Figura 1



Figura 2



Figura 3

O caso relatado trata-se de uma distonia segmentar por comprometer tanto a região cervical quanto oromandibular, produzindo contrações que levam a posições anormais de cabeça, devido aos movimentos de lateralidade, flexão e extensão cervical, dentre outros. Das condições que afetam a região de cabeça e pescoço, a distonia cervical é a mais comum, e está constantemente associada à distonia oromandibular.

Não é incomum, nos casos de distonia oromandibular, o diagnóstico equivocado de distonias temporomandibulares, condições como deslocamento mandibular⁹, ou parafunções, como o bruxismo, o que resulta na maioria das vezes em tratamento inadequado e sem sucesso¹⁶, como no caso relatado, em que o paciente foi previamente diagnosticado, em unidade básica de saúde, com deslocamento mandibular, sendo que o reposicionamento do côndilo mandibular na fossa glenóide, realizado para o tratamento do deslocamento, é ineficaz no caso de distonia, já que a mesma se trata de uma distonia muscular e neurosensorial. Da mesma forma, o bruxismo trata-se de uma distonia motora com envolvimento orofacial e movimentos não funcionais, sendo os mesmos realizados principalmente durante o sono¹⁷, diferentemente do que foi observado no caso em questão, em que o paciente apresentou ausência total dos sintomas durante o sono, além de movimentos forçados e involuntários de abertura, quando em crise, descartando assim a hipótese de bruxismo.

A dor aguda nos músculos da mastigação, envolvendo principalmente os músculos masseter e temporal, além de dor cervical, são muito comuns tanto em quadros de disfunção temporomandibular como na distonia oromandibular, devendo ser realizado diagnóstico diferencial das duas distonias, evitando assim tratamento inadequado, como foi relatado por Viswanath e Gordon¹⁸, que em 2012, citaram dois casos de duas pacientes adultas, gênero feminino, que apresentavam distonia oromandibular e foram tratadas por dois e quatro anos como portadoras de disfunção temporomandibular, passando assim por diversos tratamentos como ajuste oclusal, exodontias, e implantes. Tal erro no diagnóstico é muito comum, principalmente nos casos de distonia focal em que os músculos da mastigação são acometidos.

Embora o paciente tenha sido encaminhado com hipótese diagnóstica de paralisia de Bell, não foram observados sinais característicos de tal condição, como acometimento hemifacial, dificuldade de fechamento da pálpebra do lado acometido, lacrimejamento, diminuição do paladar, dentre outros. Na verdade, foi possível notar sinais opostos ao da paralisia muscular, com motilidade involuntária e exacerbada dos músculos orofaciais e cervicais e acometimento bilateral da face.

O adequado tratamento de pacientes com quadros de distonia oromandibular é de fundamental importância. Neste caso, o paciente apresentava incongruência e inconsistência dos movimentos, característica principal de quadros psicogênicos, o que levava o mesmo a variar os sinais e sintomas apresentados, indo desde ampla abertura bucal, a trismo, comprometimento da função oral e dispneia devido à contração da língua, tornando necessário e fundamental o início imediato do tratamento de sua condição.

O tratamento da distonia de origem psicogênica começa assim que o paciente é informado do diagnóstico, sendo conse-

lhável que o mesmo seja discutido com o paciente, de forma que entenda a origem de sua distonia e os objetivos do tratamento escolhido. O tratamento com medicamentos sistêmicos deve ser associado ao acompanhamento psicológico e à reabilitação, que podem juntos, auxiliar no controle dos sintomas¹⁹.

Neste caso, optou-se pelo tratamento com medicação de ação sistêmica, no caso, agente antidepressivo, por se tratar de um quadro de distonia de origem psicogênica. Dos medicamentos sistêmicos mais utilizados no tratamento de distonias psicogênicas do movimento, os mais utilizados são os antidepressivos e agentes neurolepticos, sendo que nos dois casos a porcentagem de melhora total ou parcial dos sintomas é grande, com poucos casos de insucessos no tratamento^{20,21}.

Existe uma série de fármacos sistêmicos, de administração por via oral, utilizados no tratamento dos processos distônicos, incluindo anticolinérgicos, bloqueadores de dopamina, baclofeno e benzodiazepínicos, podendo ser utilizados isoladamente ou combinados, ou juntamente com o tratamento cirúrgico, ou com toxina botulínica, utilizada no tratamento de alguns pacientes¹⁴.

O tratamento com toxina botulínica é considerado como de escolha para a maioria das distonias focais²²⁻²⁵, sendo indicado principalmente nos casos de etiologia primária, ou idiopática, já que em casos de distonia psicogênica o controle da distonia normalmente é conseguido mais facilmente com uso de agentes sistêmicos, embora os mesmos possam ser utilizados em conjunto. Nestes casos, a aplicação periódica de toxina botulínica nos músculos afetados leva ao controle ou redução dos sintomas²².

A toxina botulínica age inibindo a liberação de acetilcolina na junção neuromuscular, exercendo seu efeito unicamente no sítio aplicado¹⁴, o que ocasionaria, teoricamente, menos efeitos colaterais quando comparados aos medicamentos sistêmicos também utilizados para controle da distonia. No entanto, de acordo com Kuehn²⁶, com o aumento do uso terapêutico de toxina botulínica, aumentaram os relatos de casos de complicações, como disfagia, fraqueza generalizada e dificuldade respiratória. Além disso, casos como o descrito acima apresentam comprometimento de diversos músculos isolados, o que dificultaria a aplicação, que deve ser realizada periodicamente, sendo esta outra desvantagem do tratamento em questão.

CONCLUSÃO

A distonia oromandibular apresenta diversos sinais e sintomas que se assemelham a outras condições e patologias buco-maxilofaciais, e por esse motivo o cirurgião-dentista deve conhecer as principais características desta distonia, evitando assim o erro no diagnóstico e, conseqüentemente, no tratamento. O acompanhamento do paciente deve ser multidisciplinar, envolvendo na maioria das vezes profissionais nas áreas de psicologia, medicina e odontologia, sendo que este pode ser um grande complicador no tratamento odontológico.

REFERÊNCIAS

01. Geyer HL, Bressman SB. The diagnosis of dystonia. *Lancet Neurol*. 2006; 5(9): 780-90.
02. Nutt JG, Muenter MD, Aronson A, Kurland LT, Melton LJ Jr. Epidemiology of focal and generalized dystonia in Rochester, Minnesota. *Mov Disord* 1988; 3(3): 188-94.

03. Tan EK, Jankovic J. Botulinum toxin A in patients with oromandibular dystonia: long-term follow-up. *Neurology* 1999; 53(9): 2102-7.
04. Nutt JG, Muenter MD, Aronson A, Kurland LT, Melton LJ. Epidemiology of focal and generalized dystonia in Rochester, Minnesota. *Mov Disord*. 1988; 3(3): 188-94.
05. Lee KH. Oro-mandibular dystonia. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod* 2007; 104: 491-6.
06. Marsden CD. Blepharospasm-oromandibular dystonia syndrome (Brueghel's syndrome). A variant of adult-onset torsion dystonia? *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 1976; 39(12): 1204-9.
07. Tolosa E, Marti MJ. Blepharospasm-oromandibular dystonia syndrome (Meige's syndrome): clinical aspects. *Adv Neurol*. 1988; 49: 73-84.
08. Watts MW, Tan EK, Jankovic J. Bruxism and cranial-cervical dystonia: Is there a relationship? *Cranio*. 1999; 17(3): 196-201.
09. Gray AR, Barker GR. Idiopathic blepharospasm-oromandibular dystonia syndrome (Meige's syndrome) presenting as chronic temporomandibular joint dislocation. *Br J Oral Maxillofac Surg*. 1991; 29(2): 97-9.
10. Verma RK, Gupta BK, Kochar SK, Poonia A, Kochar DK. Meige's syndrome. *J Assoc Physicians India*. 1993; 41(3):173-174.
11. Thompson PD, Obeso JA, Delgado G, Gallego J, Marsden CD. Focal dystonia of the jaw and the differential diagnosis of unilateral jaw and masticatory spasm. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*. 1986; 49(6): 651-656.
12. Wang A, Jankovic J. Hemifacial spasm: Clinical findings and treatment. *Muscle Nerve*. 1998; 21(12): 1740-1747.
13. Fahn S, Williams DT. Psychogenic dystonia. *Adv Neurol*. 1988; 50: 431-55.
14. Kartha N. Therapeutic challenges in dystonia. *Neurol Clin*. 2010; 28(4): 927-940.
15. Bakke M, Larsen M, Dalager T, Møller E. Oromandibular dystonia: functional and clinical characteristics: a report on 21 cases. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*. 2013; 115(1): e21-e26.
16. Balasubramaniam R, Ram S. Orofacial Movement Disorders. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am*. 2008; 20(2): 273-285.
17. Clark GT, Ram S. Four Oral Motor Disorders: Bruxism, Dystonia, Dyskinesia and Drug-Induced Dystonic Extrapyramidal Reactions. *Dent Clin N Am*. 2007; 51(1): 225-243.
18. Viswanath A, and Gordon SM. Two cases of oromandibular dystonia referred as temporomandibular joint disorder. *Grand Rounds*. 2012; 12: 1-5.
19. Peckham LE, Hallett M. Psychogenic Movement Disorders. *Neurol Clin*. 2009; 801-819.
20. Voon V, Lang AE. Antidepressant treatment outcomes of psychogenic movement disorder. *J Clin Psychiatry*. 2005; 66(12): 1529-34.
21. Rampello L, Raffaele R, Nicoletti G. Hysterical neurosis of the conversion type: therapeutic activity of neuroleptics with different hyperprolactinemic potency. *Neuropsychobiology*. 1996; 33(4): 186-8.
22. Albanese A, Asmus F, Bhatia KP, Elia AE, Elibol B, Filippini G, et al. EFNS guidelines on diagnosis and treatment of primary dystonias. *Eur J Neurol*. 2011; 18(1): 5-18.
23. Albanese A, Barnes MP, Bhatia KP, Fernandez-Alvarez E, Filippini G, Gasser T, et al. A systematic review on the diagnosis and treatment of primary (idiopathic) dystonia and dystonia plus syndromes: report of an EFNS/MDS-ES Task Force. *Eur J Neurol*. 2006; 13(5): 433-44.
24. Benecke R, Dressler D. Botulinum toxin treatment of axial and cervical dystonia. *Disabil Rehabil*. 2007; 29(23): 1769-77.
25. Simpson DM, Blitzer A, Brashear A, Comella C, Dubinsky R, Hallett M, et al. Assessment: botulinum neurotoxin for the treatment of movement disorders (an evidence-based review): report of the Therapeutics and Technology Assessment Subcommittee of the American Academy of Neurology. *Neurology*. 2008; 70(19): 1699-706.
26. Kuehn B. Studies, reports say botulinum toxin may have effects beyond injection site. *JAMA*. 2008; 299(19): 2261-2.

AUTOR PARA CORRESPONDÊNCIA

Dr. Felipe Guedes Bueno

Rua T-36, n. 2553, Q.113, L.05, Setor Bueno

CEP.: 74223-055

Telefone: 30860044

E-mail: dr.felipe.ctbmf@gmail.com