

Torcicolo espasmódico: revisão de literatura e atualização*

ALEX FRANCO DE CARVALHO¹, ERIKA M. KALIL PESSOA DE BARROS²,
REGINALDO PERILO OLIVEIRA³, TARCÍSIO ELOY PESSOA DE BARROS FILHO⁴

RESUMO

O torcicolo espasmódico (TE) é definido como uma forma focal de distonia em que contrações da musculatura do pescoço causam movimentos ou posturas anormais da cabeça^(1,10,17). O diagnóstico desta patologia é muito dificultado pelo fato de ela ser pouco conhecida, sendo comuns consultas a diversos profissionais antes de o diagnóstico ser estabelecido⁽²¹⁾. As manifestações clínicas da doença interferem consideravelmente na vida social e profissional dos pacientes, levando-os a buscar incansavelmente uma forma de tratamento. Até pouco tempo atrás os resultados da terapia eram desapontadores. O tratamento farmacológico trazia resultados questionáveis e as modalidades de tratamento cirúrgico até então utilizadas levavam a alguma melhora, porém à custa de seqüelas importantes⁽¹¹⁾. Recentemente, a utilização da toxina botulínica nas formas focais de distonia tem-se mostrado um método valioso, eficaz e não invasivo no tratamento dessas patologias^(2,3,5). O objetivo deste artigo é chamar a atenção do meio médico para essa doença que atualmente conta com modalidade terapêutica segura e eficaz.

SUMMARY

Spasmodic torticollis: literature review and update

Spasmodic torticollis is defined as a focal form of dystonia in which neck muscle contractions cause abnormal movements of positioning of the head. Diagnosis of the pathology

is made more difficult because it is not well known and a common finding in many different cases before diagnosis is established. Clinical manifestations of the disease considerably interfere with patients' social and professional lives, and lead them to seek a form of treatment. Unfortunately, therapy results have been disappointing until recently. Drug treatment produced questionable results and surgical modalities used led to some improvement but with significant sequelae. Recently, the use of botulinic toxin in focal forms of dystonia have shown to be a valuable, effective, and non-invasive method in the treatment of these pathologies. The purpose of this article is to draw physician's attention to this disease that now has a safe and effective therapeutic modality.

INTRODUÇÃO

No início do século acreditava-se que o TE seria uma forma de histeria. Essa teoria era apoiada pelo fato de os sintomas sofrerem flutuação em sua intensidade e guardarem alguma relação com o estado emocional do paciente. Estudos posteriores indicavam uma natureza orgânica para a doença, embora não conseguissem prová-la de maneira irrefutável. Acredita-se que o surgimento do TE se deva a perturbação do sistema extrapiramidal causada por alteração nos gânglios basais. Essa teoria é apoiada pela observação de TE sintomático em pacientes acometidos de encefalite letárgica (condição que afeta os núcleos da base) e nos em uso crônico de neurolépticos e levodopa^(10,17). Há ainda casos esporádicos de TE relatados em pacientes com esclerose múltipla, doença vascular cerebral, intoxicação por monóxido de carbono, sífilis, etc.⁽¹⁴⁾. Essa hipótese é ainda consubstanciada pela melhora apresentada por muitos pacientes submetidos à talamotomia estereotáxica⁽¹⁰⁾. Embora a teoria do comprometimento dos gânglios da base seja atraente, a maioria dos pacientes não apresenta qualquer alteração orgânica consis-

* Trab. realiz. no Grupo de Col. Cerv. do Inst. de Ortop. e Traumatol. do Hosp. das Clín. da Fac. Med. da Univ. de São Paulo.

1. Médico Residente.
2. Médica Pós-Graduada.
3. Médico Assistente.
4. Professor Livre-Docente.

tente em dados obtidos de autópsias e de estudos de imagem, sendo portanto rotulados de “idiopáticos”⁽¹³⁾.

Mesmo sendo a teoria do acometimento dos gânglios da base a mais aceita, há autores que atribuem ao sistema nervoso periférico a causa do TE. Schröder *et al.*⁽²⁰⁾, ao investigar por microscopia óptica e eletrônica os ramos dorsais dos nervos cervicais C5-6 e nervo acessório, encontraram evidência de compressão nervosa periférica em número significativo de seus pacientes com TE; entretanto, não conseguiram determinar se essas alterações seriam causa ou consequência da doença. Uma teoria relativamente recente utiliza a premissa de que o TE seria causado por compressão vascular dos nervos espinhais acessórios. Apóiam essa teoria relatos de bons resultados terapêuticos obtidos pela descompressão microvascular desses nervos^(14,19).

Em resumo, a fisiopatologia do TE permanece pouco conhecida. Presume-se que a maioria dos casos se deva a um distúrbio bioquímico na atividade dos gânglios da base, levando a déficit funcional em certas vias inibitórias que se projetam sobre o tronco cerebral e medula espinhal, resultando em atividade aumentada dos músculos cervicais⁽¹⁵⁾.

SINTOMATOLOGIA

A média de idade dos pacientes quando do início da sintomatologia é em torno dos 40 anos de idade, encontrando-se casos da segunda à sétima década de vida. Essa média de idade é constante em todas as grandes séries de estudo sobre a patologia^(17,21). Não há, entretanto, concordância em relação à proporção de acometimento entre os sexos. Rondot *et al.*⁽¹⁷⁾, em uma revisão de 220 pacientes, observaram predominância do sexo feminino em relação ao masculino (1:1,6).

Aparentemente, há predisposição hereditária devido à incidência relativamente alta de distúrbios relacionados em familiares de pacientes com TE. Dos indivíduos acometidos, 25 a 40% relatam a existência de familiares com distúrbios neurológicos, sendo mais frequentes o tremor essencial e o próprio TE⁽²¹⁾.

A doença tem início insidioso e os sintomas podem ser descritos como contrações involuntárias e anormais dos músculos do pescoço, resultando em movimentos ou posturas anormais da cabeça. O queixo pode estar virado para um lado ou para o outro (laterocolo direito ou esquerdo), para frente (antecolo) ou para trás (retocolo). Embora os músculos mais afetados sejam o esternocleidomastóideo e o trapézio, estudos eletroneuromiográficos também demonstram atividade anormal nos músculos cervicais posteriores (eleva-

dor da escápula, escalenos, esplênio da cabeça e esplênio do pescoço). A deformidade postural do paciente correlaciona-se com a localização dos músculos distônicos^(1,17,21).

Rondot *et al.*⁽¹⁷⁾ estudaram o modo de início da doença em 220 pacientes. Em 11% o início foi súbito e em 83%, progressivo. Quanto à gravidade, no mesmo estudo, propuseram classificação em cinco estágios, a saber: grau 1 – movimentos laterais intermitentes com amplitude de movimentos normais no pescoço; grau 2 – movimentos laterais intermitentes interrompidos por desvios tônicos de curta duração que permitem movimentos voluntários; grau 3 – desvio tônico do pescoço que pode ser corrigido momentaneamente por movimentos voluntários; grau 4 – desvio tônico permanente que não pode ser corrigido por movimentos voluntários, porém pode ser diminuído por movimento voluntário em sentido contrário; grau 5 – desvio permanente não influenciado por movimentos voluntários. Notaram que a maioria dos pacientes (59%) se apresentava no grau 3 por ocasião da primeira consulta, sendo que 2%, 22%, 12% e 10% se apresentavam nos graus 1, 2, 4 e 5, respectivamente. Muitos pacientes (61%) nessa série relataram algum acontecimento importante em suas vidas que citam como responsáveis pelo início da doença. Esses acontecimentos, de acordo com sua frequência, são: incidentes familiares (separações, conflitos com filhos, mortes, nascimentos), problemas médicos (gravidez, cirurgias), dificuldades profissionais (perda do emprego, transferência, preocupação financeira), acidente de auto com trauma craniano, doenças febris, etc.

Na maioria dos pacientes o quadro é progressivo e tende a estabilizar-se em período médio de cinco anos. Remissões completas podem ocorrer especialmente nos dois primeiros anos após o início dos sintomas, porém em geral são temporárias. Há mudança no padrão dos sinais e sintomas com a evolução da doença. Especialmente nos estágios mais tardios, maior número de pacientes queixa-se de dor e dificuldade na realização de várias atividades motoras. As queixas dolorosas ocorrem principalmente no pescoço e nos membros superiores. Embora não se saiba exatamente a causa da dor nesses pacientes, acredita-se que se deva ao espasmo muscular e à osteoartrose cervical^(10,17,21). Aparentemente, há aceleração da degeneração da coluna cervical, podendo cursar raramente com instabilidade e invaginação basilar⁽¹⁸⁾. A postura anormal do pescoco interfere com atividades motoras como escrever, sentar, caminhar, etc. A gravidade dos espasmos musculares é flutuante, sendo influenciada por vários fatores. O relaxamento tende a diminuir as contrações, enquanto o estresse e esforços tendem a agravá-las. Quando

o paciente está dormindo ou deitado, o TE pode cessar por completo, especialmente nos estágios iniciais da doença. Muitas vezes o torcicolo pode ser aliviado com a colocação de um dedo na mandíbula. O impacto psicossocial é enorme. A maioria dos pacientes refere algum grau de incapacidade durante o trabalho e restrição variável na participação em atividades sociais. Foi encontrada nesses pacientes alta incidência de ansiedade, de doenças psicossomáticas (asma, úlcera péptica, retocolite, cefaléias, etc.) e de depressão. Provavelmente, esses distúrbios não são a causa, porém a consequência de patologia incapacitante^(17,21).

Até 40% dos pacientes com TE apresentavam sintomas extrapiramidais antes do início da doença. Os diagnósticos mais encontrados são tremor postural, câimbras do escrivão, blefarespasmos e doença de Parkinson^(17,21).

Embora seja comum aumento da gravidade dos sinais e sintomas com a evolução da doença, sua localização tende a permanecer restrita à musculatura cervical, raramente alastrando-se para comprometer outros músculos. Deve ser diferenciado das distonias generalizadas, que podem iniciar-se clinicamente com espasmos da musculatura cervical, porém com a evolução da doença haverá acometimento de outros grupos musculares. A mais freqüente é a distonia de torção idiopática primária, antes conhecida como distonia muscular deformante. Frequentemente, é herdada como característica autossômica dominante e as manifestações geralmente começam nas duas primeiras décadas de vida. Portanto, manifestações sugestivas de torcicolo espasmódico nessa faixa etária apresentam alta probabilidade de evoluir para distonia generalizada^(1,10).

O diagnóstico é dificultado pelo pouco conhecimento da patologia no meio médico. Segundo Van Herwarden *et al.*⁽²¹⁾, 40% dos pacientes levam mais de um ano até que se chegue ao diagnóstico correto. Os especialistas mais consultados foram clínicos gerais, neurologistas, ortopedistas e psiquiatras. Em 67% dos casos o TE é diagnosticado por neurologistas.

O diagnóstico é eminentemente clínico. A eletroneuromiografia, embora não seja essencial para o diagnóstico, evidenciará padrões de contrações sustentadas involuntárias nos músculos afetados^(1,16,17).

TRATAMENTO

O TE é patologia classicamente difícil de tratar⁽¹⁰⁾. O tratamento farmacológico e as medidas fisioterápicas são consideradas pouco efetivas^(1,21). O tratamento cirúrgico traz me-

lhores resultados que o medicamentoso, porém não é totalmente satisfatório⁽¹²⁾. A partir da década de 80, a introdução da toxina botulínica na terapêutica alterou significativamente o prognóstico e evolução desses pacientes, sendo atualmente o tratamento de escolha para essa patologia^(2,5). O tratamento cirúrgico fica reservado para os poucos pacientes que apresentarem resposta insatisfatória à injeção da toxina⁽⁷⁾.

As drogas mais utilizadas no tratamento do TE são os anticolinérgicos (*Triexifenidil*) e os benzodiazepínicos. Menos comumente, são utilizados os neurolépticos e os antidepressivos. Os anticolinérgicos parecem ser as drogas mais efetivas. Vários autores relatam que aproximadamente 40% dos pacientes apresentam melhora em graus variáveis, enquanto outros referem efeitos desprezíveis. Efeitos colaterais significativos ocorrem em até 50% dos pacientes em uso dessas medicações. As outras drogas citadas são menos efetivas que os anticolinérgicos e apresentam efeitos colaterais mais importantes^(1,3,10,11,17,21).

As medidas fisioterápicas consistem em técnicas de estiramento passivo da musculatura afetada seguido de exercícios ativos da musculatura cervical sob a supervisão de fisioterapeuta. Os resultados não são consistentes e apenas uma minoria dos pacientes acaba se beneficiando com essa forma de tratamento. As medidas fisioterápicas são muito utilizadas como adjuvantes do tratamento cirúrgico e da aplicação da toxina botulínica. Outras formas de tratamento relatadas são a hipnoterapia, técnicas de *feedback*, acupuntura, tração cervical e manipulação^(1,7,17,21).

Em relação ao tratamento operatório, as tenmiotomias representam o procedimento cirúrgico mais antigo usado no tratamento do TE, podendo atualmente ser indicadas em casos especiais⁽¹¹⁾. Pode-se citar ainda a rizotomia das raízes cervicais mais altas associada à secção do nervo espinhal acessório. Esse procedimento, porém, produzia denervação excessiva e indiscriminada dos músculos cervicais, levando a paralisias extensas e não justificadas da musculatura cervical. Os efeitos colaterais incluíam fraqueza no pescoço, disfagia e desvio lateral da escápula provocando instabilidade do ombro. Embora houvesse melhora na postura, os resultados não eram satisfatórios^(11,12). Na década de 60, a talamotomia estereotáxica foi muito utilizada. Embora o tremor distônico fosse abolido em número importante de pacientes, a lesão talâmica bilateral resultava em alta incidência de disfagia e disartria, que eram inaceitáveis para a maioria dos pacientes, levando ao abandono progressivo desse procedimento^(10,11).

Outra abordagem no tratamento cirúrgico do TE é a denervação periférica seletiva, cujo objetivo seria a denervação de todos os músculos envolvidos nos movimentos involuntários do TE, preservando a inervação dos outros músculos, especialmente dos antagonistas aos movimentos anormais, com a finalidade de preservar os movimentos normais do pescoço. Na prática, os músculos que geralmente necessitam ser denervados são o esternocleidomastóideo, a musculatura cervical posterior (com exceção dos músculos paraespinhais profundos) e, ocasionalmente, o trapézio. Clinicamente, os desvios posturais mais prevalentes são o torcicolo rotacional (laterocolo), no qual é necessária a denervação do esternocleidomastóideo e musculatura cervical posterior em lados opostos e o desvio lateral em que é feita a denervação desses músculos no mesmo lado.

A técnica cirúrgica consiste na secção dos ramos do nervo acessório responsáveis pela inervação do esternocleidomastóideo, seguida da secção dos ramos dorsais das raízes C1-6. Durante o ato cirúrgico é utilizado estimulador elétrico para a correta identificação dos nervos a serem seccionados. No pós-operatório os pacientes são mobilizados precocemente e entram em programa de fisioterapia para treinamento dos músculos antagonistas e melhora do arco de movimento. Geralmente, são necessárias no mínimo seis semanas de fisioterapia para restaurar os movimentos normais do pescoço, porém o alívio dos espasmos musculares e movimentos anormais é evidente imediatamente após a cirurgia. Entretanto, o resultado final só é conseguido, em geral, após seis meses da operação.

A principal seqüela da cirurgia é uma perda sensitiva no território de inervação do nervo occipital maior (esse nervo se origina do ramo posterior de C2 que é seccionado no procedimento), porém geralmente não é notada pelo paciente. Outras complicações são a neuralgia occipital e a secção inadvertida dos ramos do nervo acessório que inervam o músculo trapézio, levando a instabilidade. A persistência de movimentos anormais com intensidade importante após a cirurgia ocorre em cerca de 10% dos pacientes. Na maioria dos casos se deve a inervação residual feita por ramos colaterais não seccionados, porém mais raramente pode ser causada por reinervação parcial dos músculos. Os resultados obtidos com a cirurgia tendem a manter-se com o passar dos anos e têm-se mostrado satisfatórios em 70 a 80% dos casos. A denervação periférica seletiva é o procedimento cirúrgico atualmente mais utilizado no tratamento do TE e está indicada para os pacientes que não responderam satisfatoriamente às injeções de toxina botulínica^(4,7,9,11).

A partir da década de 80 surgiram relatos de nova cirurgia para o tratamento do TE: a liberação microvascular dos nervos espinhais acessórios. A cirurgia baseia-se na premissa de que a compressão microvascular desses nervos seria a causa do TE. A técnica operatória envolve craniotomia e laminectomia de C1-3 e, utilizando-se do microscópio cirúrgico, procede-se à liberação dos vasos sanguíneos que estão comprimindo os nervos espinhais e as raízes C1-3. O nervo espinhal acessório geralmente está comprimido pela artéria vertebral e/ou artéria cerebelar póstero-inferior, enquanto as raízes de C1-3 estão em geral comprimidas pelas artérias radiculares. Não se realizam secções nervosas. Embora haja relatos de bons resultados, esse procedimento não tem ampla aceitação entre os cirurgiões que tratam TE^(14,19).

A injeção muscular da toxina botulínica é método mais recente utilizado no tratamento do TE^(2,3,5,10). A neurotoxina inibe a liberação de acetilcolina na junção neuromuscular, produzindo denervação funcional do músculo de caráter temporário^(10,16). O uso clínico da toxina botulínica começou em meados da década de 80, quando Scott a utilizou com êxito no tratamento do blefarospasmo⁽²⁾. A partir desse relato pioneiro, seu uso estendeu-se ao tratamento de outras distonias localizadas, como o espasmo hemifacial, a distonia espasmódica e o TE⁽²⁾. Os bons resultados obtidos no tratamento do blefarospasmo foram reproduzidas no tratamento do TE por vários autores^(3,5,10). A técnica consiste em minucioso exame clínico para identificar os músculos afetados pela distonia, seguido da injeção percutânea dos músculos acometidos com doses variáveis da toxina. Os músculos injetados mais freqüentemente são o esternocleidomastóideo, os escalenos, o elevador da escápula, o esplênio da cabeça e o trapézio. Alguns autores preferem injetar o músculo em um único ponto, enquanto outros relatam melhores resultados com a injeção do músculo em múltiplos pontos^(2,3,6). Outra possibilidade é a injeção da toxina guiada por eletroneuromiografia, que é citada por certos autores como mais efetiva do que a injeção da toxina guiada apenas por exame clínico⁽⁸⁾. As injeções da toxina são complementadas por sessões de fisioterapia com a finalidade de fortalecimento muscular e melhora do arco de movimento do pescoço.

Em relação aos resultados obtidos, os diversos trabalhos citam melhora substancial da dor, deformidade, espasmos involuntários e arco de movimento em cerca de 80% dos casos, porém cerca de 90% dos pacientes acabam beneficiando-se com o tratamento^(3,5,10). As complicações não são infreqüentes e ocorrem em 40 a 80% dos pacientes tratados com

o método. São incômodas para o paciente, porém nunca permanentes, cessando no período de duas a cinco semanas. A mais importante é a disfagia, que ocorre em cerca de 40% dos pacientes, assumindo graus variáveis de gravidade. Ela ocorre mais freqüentemente quando o esternocleidomastóideo é injetado e quando se usam doses mais elevadas da toxina. Os outros efeitos indesejáveis são menos freqüentes e incluem boca seca, distonia e fraqueza muscular no pescoço^(3,5,10). A duração média da resposta à toxina botulínica é de cerca de três-cinco meses, quando ocorre a reinervação funcional dos músculos. A maioria dos pacientes continua a beneficiar-se de injeções repetidas da toxina, enquanto peque-

na parte desenvolve resistência, provavelmente causada pelo desenvolvimento de anticorpos neutralizantes contra ela^(3,5,10).

Concluindo, o TE é uma patologia infreqüente, em geral subdiagnosticada, causada por contraturas da musculatura do pescoço associadas a movimentos e posturas anormais da cabeça, que se deve a anormalidade funcional do sistema nervoso central⁽¹⁰⁾. A injeção intramuscular da toxina botulínica é o tratamento atual de escolha para essa patologia, devido à reprodutibilidade de seus resultados e à pouca gravidade de seus efeitos colaterais^(3,5). Caso ocorra falha ou perda da resposta a ela, indica-se a cirurgia de denervação periférica seletiva⁽⁷⁾.

REFERÊNCIAS

- Adams, R.D. & Victor, M.: "Tremor, myoclonus, spasms and tics", in *Principles of neurology*, New York, McGraw-Hill, 1993. Cap. 6, p. 93-97.
- Albanese, A., Colosimo, C., Carretta, D. et al: Botulinum toxin as a treatment for blepharospasm, spasmodic torticollis and hemifacial spasm. *Eur Neurol* 32: 112-117, 1992.
- Anderson, T.J., Rivest, J., Stell, R. et al: Botulinum toxin treatment of spasmodic torticollis. *J R Soc Med* 85: 524-529, 1992.
- Bertrand, C.M.: Selective peripheral denervation for spasmodic torticollis: surgical techniques, results and observation in 260 cases. *Surg Neurol* 40: 96-103, 1993.
- Borodic, G.E., Mills, L. & Joseph, M.: Botulinum A toxin for the treatment of adult-onset spasmodic torticollis. *Plast Reconstr Surg* 87: 285-289, 1991.
- Borodic, G.E., Pearce, L.B., Smith, K. et al: Botulinum A toxin for spasmodic torticollis: multiple vs. single injection point per muscle. *Head Neck* 14: 33-37, 1992.
- Braun, V. & Richter, H.P.: Selective peripheral denervation for the treatment of spasmodic torticollis. *Neurosurgery* 35: 58-62, 1994.
- Comella, C.L., Buchman, A.S., Tanner, C.M. et al: Botulinum toxic injection for spasmodic torticollis: increased magnitude of benefit with electromyographic assistance. *Neurology* 42: 878-882, 1992.
- Davis, D.H., Ahlskog, J.E., Litchy, W.J. et al: Selective peripheral denervation for torticollis: preliminary results. *Mayo Clin Proc* 66: 365-371, 1991.
- Dick, J.P.R.: Spasmodic torticollis. *J R Soc Med* 85: 517-518, 1992.
- Duvoisin, R.C.: Spasmodic torticollis: the role of surgical denervation. *Mayo Clin Proc* 66: 433-435, 1991.
- Friedman, A.H., Nashold, B.S., Sharp, R. et al: Treatment of spasmodic torticollis with intradural selective rhizotomies. *J Neurosurg* 78: 46-53, 1993.
- Hanko, J., Hindfeld, B., Matilainen, T. et al: CT-scanning and magnetic resonance imaging in idiopathic spasmodic torticollis. *Acta Neurol Scand* 86: 267-270, 1992.
- Jho, H.D. & Jannetta, P.J.: Microvascular decompression for spasmodic torticollis. *Acta Neurochir (Wien)* 134: 21-26, 1995.
- Keiser, J.: Spasmodic torticollis occurring during alcohol withdrawal. *Neurology* 43: 623-624, 1993.
- Marin, C., Martí, M.J., Tolosa, E. et al: Modification of muscle activity after Botox injections in spasmodic torticollis. *Ann Neurol* 32: 411-412, 1992.
- Rondot, P., Marchand, M.P. & Dellatolas, G.: Spasmodic torticollis – review of 220 patients. *Can J Neurol Sci* 18: 143-151, 1991.
- Ryken, T. & Menezes, A.H.: Nonrheumatoid cranial settling. *Spine* 18: 2525-2527, 1993.
- Saito, S., Moller, A.R., Jannetta, P.J. et al: Abnormal response from the sternocleidomastoid muscle in patients with spasmodic torticollis: observations during microvascular decompression operations. *Acta Neurochir (Wien)* 124: 92-98, 1993.
- Schroder, J.M., Huffmann, B., Braun, V. et al: Spasmodic torticollis: severe compression neuropathy in rami dorsales of cervical nerves C1-6. *Acta Neuropathol (Berl)* 84: 416-424, 1992.
- Van Herwaarden, G.M.F.M., Anten, H.W.M., Hoogduin, C.A.L. et al: Idiopathic spasmodic torticollis: a survey of the clinical syndromes and patients' experiences. *Clin Neurol Neurosurg* 96: 222-225, 1994.