

ISSN: 2340-3438

Edita: Sociedad Gallega de
Otorrinolaringología.

Periodicidad: continuada.

Web: www.sgorl.org/revista

Correo electrónico:

actaorlgallega@gmail.com

SGORL PCF
Sociedad Gallega de Otorrinolaringología
y Patología Cervicofacial



Acta Otorrinolaringológica Gallega

Caso Clínico

Síndrome da Boca Ardente—Caso clínico

Burning Mouth Syndrome—Case report

Rita M. Oliveira¹, Catarina Silva¹, Hugo Rocha¹, Gustavo Lopes²,
Delfim Duarte², Rosa Santos¹

¹Unidade de Saúde Familiar Lagoa

²Serviço de Otorrinolaringologia, Hospital Pedro Hispano

Recibido: 8/10/2018 Aceptado: 26/11/2018

Resumo

Introdução: As definições de Síndrome da Boca Ardente (SBA) não são consensuais, no entanto, como critério comum surge a presença de uma sensação de ardência na cavidade oral na ausência de sinais clínicos objetiváveis. Vários fatores têm sido associados, mas a sua etiologia é incerta e os tratamentos frequentemente insatisfatórios.

Caso Clínico: Mulher de 71 anos, com antecedentes de diabetes *mellitus*, perturbação de ansiedade generalizada e patologia osteoarticular degenerativa, que desenvolve quadro de disestesia oral em “ardência”, disgeusia, xerostomia e sensação de “saliva espessa”, sem sinais clínicos objetiváveis. Seguiram-se múltiplas consultas com a médica de família, dentista, otorrinolaringologista e internista, com sucessivos exames complementares sem alterações relevantes, à exceção de um processo inflamatório subagudo/crónico das glândulas salivares presente na cintigrafia e biópsia, contudo de etiologia indeterminada. Durante este processo, a utente desenvolve um quadro depressivo reativo, tendo sido medicada com amitriptilina e diazepam, além dos vários tratamentos instituídos, mas ainda assim sem melhoria dos sintomas de “boca ardente”.

Discussão: Face à ausência de um diagnóstico etiológico, o enfoque deve ser o controlo sintomático dado o impacto na qualidade de vida da utente com repercussão física, psicológica e social. Este caso é repre-

Correspondencia: Catarina Silva

Unidade de Saúde Familiar Lagoa

Correo electrónico: catarinashsilva@gmail.com

sentativo do desafio para o médico de família dos utentes com “sintomas físicos medicamente inexplicáveis”, devendo a incerteza ser gerida com base numa relação médico-doente de confiança.

Palavras chave: síndrome da boca ardente, disgeusia, sintomas medicamente inexplicados, incerteza.

Abstract

Introduction: The Burning Mouth Syndrome (BMS) definitions are not consensual, but have in common a burning sensation of the oral cavity in the absence of objective signs. Multiple factors have been associated with BMS, but its etiologic relevance is unclear, and treatments are often unsatisfactory.

Case report: 71-years old woman, with type 2 diabetes *mellitus*, generalized anxiety disorder and osteoarticular degenerative disease, reports an oral “burning” disesthesia, dysgeusia, xerostomia and sensation of “thick saliva”, without objective signs. This is followed by multiple medical appointments with her family physician, dentist, otorhinolaryngology and internal medicine, with exams that do not reveal relevant alterations, except a subacute/ chronic inflammatory process of the salivary glands in the scintigraphy and biopsy, still of undetermined etiology. During the whole process, the patient develops a reactive depression disorder, being medicated with amitriptyline and diazepam, despite other treatments, but still without resolution of her “burning mouth” symptoms.

Conclusions: Considering the absence of an etiologic diagnosis, the focus should go to its symptomatic control, having in mind the life quality impact and physical, psychological and social repercussion. This case reflects the challenge for the family physician to manage “Medically Unexplained Physical Symptoms”, whose uncertainty should be managed based on a trustfull doctor-patient relationship.

Keywords: burning mouth syndrome, dysgeusia, medically unexplained symptoms, uncertainty.

Introdução

A definição de Síndrome da Boca Ardente (SBA) não é consensual e os critérios de diagnóstico variam conforme as várias entidades. Têm, no entanto, como critério comum a presença de uma sensação persistente de ardência na cavidade oral na ausência de sinais clínicos objetiváveis ao exame físico. Esta pode ainda ser acompanhada de outros sintomas como xerostomia e disgeusia.¹⁻³

Algumas organizações restringem o conceito de SBA aos casos em que não é identificada uma etiologia, no entanto, outros autores sugerem a classificação em primária (idiopática) ou secundária quando é identificado um fator precipitante (local ou sistémico). Neste caso, o tratamento dirigido à condição subjacente resulta na melhoria ou resolução dos sintomas.^{1,4}

Vários fatores têm sido reportados como associados à SBA, mas a sua relevância do ponto de vista etiológico é incerta.^{1,2} A SBA é mais prevalente no sexo feminino, sobretudo na pós-menopausa.⁵ Surge associada a doenças autoimunes (Síndrome de Sjögren, sarcoidose), neoplásicas (síndromes paraneoplásicas),

endócrinas (diabetes e doenças tiroideias), infecciosas (infecções víricas), doença do refluxo gastroesofágico (DRGE) e défices vitamínicos, aqui ora interpretadas como causa subjacente (SBA secundária) ou como diagnóstico diferencial de SBA, conforme a definição adotada.^{1,5} Estão ainda descritos casos de SBA associados a fármacos, nomeadamente, inibidores do eixo da renina-angiotensina, assim como por fatores locais, como infeções fúngicas, uso de prótese dentária ou de outras substâncias tóxicas.^{1,3} Surge, ainda, frequentemente associada a perturbações psiquiátricas, nomeadamente, depressiva, de ansiedade, fóbica (em particular, hipocondria) e do sono.⁶

Vários tratamentos têm sido sugeridos, e de diferentes classes farmacológicas, mas os resultados do ponto de vista de controlo sintomático são, muitas vezes, insatisfatórios. Estes incluem desde psicofármacos como antidepressivos ou ansiolíticos, até estimulantes salivares. Contudo, a maior evidência científica suporta como mais eficazes o ácido alfalipóico sistémico, capsaicina e clonazepam tópicos, assim como de terapia cognitivo-comportamental.^{1,3,7}

Se, por um lado, a existência de condições comórbidas psiquiátricas prévias pode predispor ao surgimento desta condição, por outro, podem também surgir ou agravar no decurso da persistência desta sintomatologia, sendo, por isso, a sua relação como causa ou consequência incerta. Não há, contudo, dúvidas do impacto negativo destes sintomas na qualidade de vida, sendo essencial providenciar suporte psicológico, sobretudo perante o fracasso terapêutico.⁶

O objetivo deste trabalho é relatar um caso de SBA e refletir nos desafios do seu diagnóstico e tratamento para o médico de família.

Caso Clínico

Mulher de 71 anos, reformada, pertencente a uma família nuclear em fase VII do Ciclo Familiar de *Duvall*. Como problemas de saúde ativos, apresentava hipertensão arterial e diabetes *mellitus* tipo 2 controladas, perturbação de ansiedade generalizada e patologia osteoarticular degenerativa da coluna vertebral seguida em consulta de Medicina da Dor. Medicada habitualmente com candesartan 16 mg, hidroclorotiazida 12,5 mg/dia, insulina intermédia 16U + 6U/dia e analgesia em SOS. Sem hábitos tabágicos ou etílicos. Como antecedentes familiares destacava-se a morte da mãe por neoplasia maligna da orofaringe, desconhecendo o órgão de origem.

Em setembro de 2016, recorre à consulta urgente por queixas de disestesia generalizada da cavidade oral (“arde-me a boca toda”) com 1 mês de evolução. Associadamente, referia xerostomia, disgeusia com sabor persistentemente doce e sensação de saliva espessa. Destacava-se, apenas, a colocação de uma prótese dentária 2 meses antes do início dos sintomas. Negava fatores de alívio ou agravamento, assim como pirose, disfagia ou xeroftalmia. Não foram detetadas alterações ao exame objetivo, nomeadamente na cavidade oral e orofaringe, ou região cervical, incluindo adenomegalias. Foi requisitada ecografia das glândulas salivares e aconselhada a recorrer a consulta de Medicina Dentária dada relação temporal entre o início dos sintomas e a instrumentalização dentária.

Durante os meses seguintes, por manutenção dos sintomas, seguiram-se múltiplos recursos à consulta da médica de família, assim como de Medicina Dentária, com diversas intervenções propostas por ambos os

profissionais de saúde que se revelaram infrutíferas: suspensão temporária da prótese dentária, antifúngico e clorhexidina tópica. A ecografia das glândulas salivares não revelava alterações.

Após 3 meses de persistência do quadro, com repercussão no sono, iniciou sintomatologia de humor deprimido, anedonia, pelo que foi prescrito diazepam 5 mg à noite e sertralina 50 mg/ dia – esta última que acabou por suspender por intolerância. É ainda medicada com esomeprazol por suspeita de DRGE e referenciada a Otorrinolaringologia (ORL).

Em janeiro de 2017, é avaliada por ORL que, pela clínica e na ausência de alterações ao exame objetivo, adianta a hipótese de síndrome da boca ardente provável. Dada a ausência de resposta terapêutica, é suspenso o inibidor da bomba de prótons e reencaminhada para a médica de família.

Na consulta com a médica de família é, então, reinstituído tratamento antidepressivo com outra classe farmacológica, nomeadamente, amitriptilina 5 mg/dia e referenciada a consulta de Medicina Interna para estudo complementar.

Em setembro de 2017, é observada por Medicina Interna e realiza múltiplos exames complementares de diagnóstico. Analiticamente, a destacar apenas ligeiro aumento do fator reumatóide (42,1 UI/mL) e da enzima conversora da angiotensina (83,10 UI/L), com restantes parâmetros inflamatórios (velocidade de sedimentação e proteína C-reativa) e autoimunes (ANA, antiSSA, anti-dsDNA, ENA e citrulina) sem alterações. O hemograma não evidenciava anemia nem outras alterações, assim como as funções renal, hepática e tiroideia, ionograma e vitaminas. O estudo imagiológico torácico não revelou quaisquer alterações. Também a ecografia abdominal não revelou alterações de relevo. Foi medicada com pregabilina 50 mg/dia e pilocarpina 20 mg/dia, mas sem melhoria sintomática.

A continuação do estudo culminou na realização de cintigrafia das glândulas salivares, que revelou inflamação subaguda da parótida esquerda, mas sem atingimento das restantes glândulas salivares e na ausência de sinais ou sintomas de parotidite aguda. É, então, realizada biópsia das glândulas salivares (sublinguais) que evidencia um processo de linfadenite crónica sem granulomas, inespecífica, excluindo-se, no entanto, a suspeita de sarcoidose sugerida pelas alterações analíticas. Face aos achados de um processo inflamatório, introduz-se corticoterapia 0,4 mg/kg/dia durante 4 meses, mas também sem eficácia sintomática, pelo que é igualmente suspenso.

Atualmente, a doente permanece sintomática e sem um diagnóstico conclusivo, mas psicologicamente estável sob tratamento antidepressivo e ansiolítico.

Discussão

Face aos resultados do estudo complementar, procedeu-se a uma revisão da literatura científica, não tendo sido identificados casos de linfadenite crónica (diagnóstico histopatológico) que cursem clinicamente com sintomas da cavidade oral em “ardência”. A parotidite subaguda (diagnóstico cintigráfico) manifesta-se geralmente sob a forma de outros sinais e sintomas, não presentes neste caso. Além disso, seria expectável uma resposta terapêutica positiva ao tratamento anti-inflamatório com corticoterapia sistémica, o que também não se verificou. Assim, subsiste a dúvida relativamente à relevância dos achados dos exames complementares de diagnóstico na génese da sintomatologia.

Outras causas de SBA (secundária) foram também excluídas, nomeadamente, doenças autoimunes como a Síndrome de Sjögren ou sarcoidose, - quer pela ausência de critérios clínicos e/ou analíticos, quer pela ausência de achados histopatológicos concordantes. Outras doenças autoimunes são menos prováveis pela ausência de clínica e alterações laboratoriais sugestivas. As síndromes paraneoplásicas parecem menos prováveis pela exclusão das neoplasias mais prevalentes através dos exames de imagem (tórax, abdómen) e pela ausência de outros sintomas ou sinais associados, incluindo, constitucionais. Inclusivamente, a persistência dos sintomas de boca ardente por mais de 2 anos contrapõe essa hipótese. As doenças tiroideias foram excluídas e a resposta terapêutica negativa ao inibidor da bomba de prótons, assim como a ausência de sinais sugestivos pela avaliação por ORL, descartou uma DRGE.

Assim, a inflamação das glândulas salivares identificada nos meios complementares de diagnóstico permanece, apesar de tudo, idiopática.

Contudo, foram identificados, nesta doente, vários fatores associados à SBA reportados na literatura científica: trata-se de mulher em pós-menopausa, que apresenta antecedentes pessoais de uma perturbação de ansiedade e diabetes (ainda que controlada) e que se encontra medicada com um inibidor do eixo renina-angiotensina para a hipertensão arterial. Ademais, o quadro clínico surge dois meses após a colocação de uma prótese dentária – contudo não reverte com a sua suspensão. Estes fatores podem interagir entre si e perpetuar a sintomatologia, sendo difícil reconhecer quais os principais responsáveis – se não todos – e manejá-los adequadamente.

Por isso, para já, permanece o diagnóstico de SBA, ainda por esclarecer se de facto secundário a um processo inflamatório das glândulas salivares - e, neste caso, qual a sua etiologia – ou se primário, uma vez que os achados dos exames complementares de diagnóstico não parecem estar na origem da sintomatologia pelos motivos já descritos.

Em virtude da ausência de um diagnóstico etiológico concreto para o qual possa ser direcionado o tratamento, e, por isso, de uma cura definitiva, os esforços devem ser orientados para o controlo sintomático eficaz, dado o grande impacto da sintomatologia na qualidade de vida da utente e respetiva repercussão física, psicológica e social. Nesse sentido, importa controlar os vários fatores associados à SBA identificados neste caso, através de uma abordagem abrangente e multidisciplinar – Medicina Geral e Familiar, Medicina Dentária, ORL, Medicina Interna, Psicologia, Psiquiatria e Anestesiologia (dor crónica) – e continuar a monitorizá-los com um seguimento regular.

Não menos importante, é imperativo gerir a incerteza diagnóstica e as expectativas da doente relativamente à possibilidade de não se identificar uma etiologia, assim como da cronicidade dos sintomas, sustentando-se numa relação médico-doente baseada na confiança. Neste caso em particular, é ainda relevante tranquilizar a doente relativamente a um diagnóstico oncológico como génese dos seus sintomas, de acordo com os dados de que dispomos atualmente.

Este caso clínico é representativo do desafio para o médico de família na investigação, diagnóstico e tratamento dos doentes com sintomas físicos medicamente inexplicáveis (do acrónimo inglês MUPS – *Medically Unexplained Physical Symptoms*). Ainda que exista um processo inflamatório subjacente, a causa permanece incerta, assim como o tratamento ineficaz, pelo que, para todos os efeitos, os sintomas físicos sub-

jetivos da doente continuam a não ser enquadráveis num diagnóstico conclusivo pelo médico, nem eficazmente tratados. Isso gera óbvia frustração no médico de família que deve saber lidar com a incerteza diagnóstica e procurar continuar a dar resposta aos pedidos de ajuda (nas mais variadas dimensões), sem nunca desistir do doente.

Em conclusão, a SBA é um conceito que, além de não ser consensual, é ainda caracterizado por um sintoma que não se acompanha de alterações objetiváveis ao exame físico, o que traz claros desafios para o médico de família no seu diagnóstico e tratamento.

Agradecimientos: à Dr.^a Carmo Novais

Declaración de conflicto de intereses: os autores declaram não ter conflitos de interesse.

Bibliografía

- 1- Kumaresan G, Subha M. Burning Mouth Syndrome. *Int J Orofacial Biology*. 2017. 1(2): 53-58
- 2- Nasri-Heir C, Zagury J, Thomas D, Ananthan S. Burning mouth syndrome: Current concepts. *J Indian Prosthodont Soc*. 2015. 15(4): 300-307
- 3- Moghadam-Kia S. and Fazel N. A diagnostic and therapeutic approach do primary burning mouth syndrome. *Clin Dermatol*. 2017. 35(5): 453-460
- 4- Scala A, Checchi L, Montevicchi M. *et al*. Update on burning mouth syndrome: overview and patient management. *Crit Rev Oral Biol Med*. 2013. 14(4): 275-291
- 5- Coculescu E, Tovary S, Coculescu B. Epidemiological and etiological aspects of burning mouth syndrome. *J Med Life*. 2014. 7(3): 305-309
- 6- Galli F, Lodi G, Sardella A, Vegni, E. Role of psychological factors in burning mouth syndrome: A systematic review and meta-analysis. *Cephalalgia*. 2017. 37(3): 265-277
- 7- Kisely S, Forbes M, Sawyer E. *et al*. A systematic review of randomized trials for the treatment of burning mouth syndrome. *J Psychosom Res*. 2016. 86: 39-46.
- 8- Sousa J. Ups! Será que é MUPS? *Rev Port Clin Geral*. 2006. 22: 277-279.