

CASO CLÍNICO/CASE REPORT

Torcicolo Adquirido em Idade Pediátrica: Uma Manifestação Clínica com um Amplo Espectro de Gravidade**Acquired Torticollis in Children: A Clinical Manifestation with a Broad Spectrum of Severity**

 Laura Correia ^{1,2},  Carolina Folques ^{1,3}, Rui Pedro Pais ⁴, José Augusto Costa ⁴,  Filipe Palavra ^{1,6,7,*}

1-Centro de Desenvolvimento da Criança - Neuropediatria, Hospital Pediátrico, Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, Coimbra, Portugal

2-Serviço de Pediatria, Centro Hospitalar do Baixo Vouga, Aveiro, Portugal

3-Serviço de Pediatria, Centro Hospitalar de Leiria, Leiria, Portugal

4-Serviço de Imagem Médica – Unidade de Neurorradiologia, Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, Coimbra, Portugal

5-Serviço de Neurocirurgia, Hospital Pediátrico, Centro Hospitalar e Universitário de Coimbra, Coimbra, Portugal

6-Laboratório de Farmacologia e Terapêutica Experimental, Instituto de Investigação Clínica e Biomédica de Coimbra (iCBR), Faculdade de Medicina, Universidade de Coimbra, Coimbra, Portugal

7-Centro Clínico Académico de Coimbra, Coimbra, Portugal

DOI: <https://doi.org/10.46531/sinapse/CC/220068/2023>

Resumo

O torcicolo adquirido, na criança, é uma manifestação clínica com amplo espectro etiológico, que inclui desde processos traumáticos, infecciosos ou inflamatórios, até entidades não-musculoesqueléticas de origem neurológica, tumoral ou até oftalmológica. Pode constituir a forma de apresentação de processos benignos e auto-limitados, assim como de quadros progressivos e potencialmente fatais, pelo que a identificação dos sinais de alarme, na colheita da história clínica e na realização do exame objetivo à criança, é obrigatória. Também é essencial para o diagnóstico diferencial a distinção entre um torcicolo intermitente (paroxístico) ou persistente no tempo, assim como a verificação da variação da sua lateralidade e da recorrência dos episódios. Apresenta-se um caso clínico ilustrativo de um torcicolo de etiologia tumoral, numa criança do género feminino, de 16 meses de idade, com um quadro clínico arrastado, com necessidade de avaliação interdisciplinar e investigação complementar, para definição de um diagnóstico e de uma estratégia terapêutica dirigida.

Abstract

Acquired torticollis in children is a clinical manifestation with a wide etiological spectrum, which ranges from traumatic, infectious or inflammatory processes, to non-musculoskeletal entities of neurological, tumoral or even ophthalmological origin. It can constitute the form of presentation of benign and self-limiting processes, as well as progressive and potentially fatal conditions, so the identification of alarm signs, in the collection of the clinical history and in the performance of the objective examination of the child, is mandatory. It is also essential for the differential diagnosis to distinguish between intermittent (paroxysmal) or persistent torticollis over time, as well as verifying the variation in its laterality and the recurrence of episodes. We present an illustrative clinical case of torticollis of tumor etiology, in a female child, aged 16 months, with a prolonged clinical picture, in need of interdisciplinary evaluation and complementary investigation, to define a diagnosis and a targeted therapeutic strategy.

Informações/Informations:

Caso Clínico, publicado em Sinapse, Volume 23, Número 1, janeiro-março 2023. Versão eletrónica em www.sinapse.pt; Case Report, published in Sinapse, Volume 23, Number 1, January-March 2023.

Electronic version in www.sinapse.pt

© Autor (es) (ou seu (s) empregador (es)) e Sinapse 2022. Reutilização permitida de acordo com CC BY-NC. Nenhuma reutilização comercial. © Author(s) (or their employer(s)) and Sinapse 2022. Re-use permitted under CC BY-NC. No commercial re-use.

Palavras-chave:

Criança;
Torcicolo/diagnóstico;
Torcicolo/etiologia;
Torcicolo/tratamento.

Keywords:

Child;
Torticollis/diagnosis;
Torticollis/etiology;
Torticollis/therapy.

***Autor Correspondente / Corresponding Author:**

Filipe Palavra
Avenida Afonso Romão,
3000-602 Coimbra, Portugal
filipepalavra@gmail.com

Recebido / Received: 2022-12-02

Aceite / Accepted: 2023-03-02

Ahead of Print: 2023-03-17

Introdução

O termo “torcicolo” é utilizado para definir, de uma forma bastante abrangente, o achado clínico de postura anormal e involuntária do pescoço.¹ Em vários casos (mas não todos) está implicado o músculo esternocleidomastoideu (ECM), cujo encurtamento ou espasmo condiciona esta postura cervical anômala.² Embora esteja classicamente envolvido no torcicolo congénito do lactente, no caso do adquirido os grupos musculares implicados e as etiologias subjacentes são mais variáveis.

Em idade pediátrica, a causa traumática é a mais frequente para o torcicolo, seguindo-se a infecciosa. Contudo, existem doenças neurológicas, neoplásicas, oftalmológicas, reumatológicas e mesmo psiquiátricas que podem cursar com esta manifestação clínica.

Caso Clínico

Apresenta-se o caso de uma criança do género feminino, de 16 meses de idade, previamente saudável, com um crescimento estatura-ponderal e um desenvolvimento psicomotor normativos para a idade, que foi referenciada ao serviço de urgência para avaliação pela Neuropediatria, por apresentar um torcicolo com cerca de um mês de evolução.

Inicialmente, foi notada pelas educadoras, na creche, uma alteração da sua postura e mobilidade, logo após o regresso de um período de isolamento, por ter contraído uma infeção pelo vírus SARS-CoV-2. Progressivamente, iniciou um quadro de anorexia, irritabilidade, alteração do padrão do sono (com despertares noturnos frequentes) e tosse, tendo sido avaliada no serviço de urgência do hospital da área de residência e medicada com um anti-histamínico. Por não haver melhoria, foi novamente avaliada pela Pediatria, já com um torcicolo evidente, tendo sido diagnosticada uma otite média aguda, motivo pelo qual iniciou tratamento com antibioterapia oral (amoxicilina e ácido clavulânico), em regime de ambulatório.

O quadro clínico continuou a agravar, persistindo o torcicolo e associando uma alteração da marcha, com quedas frequentes, anorexia e recusa alimentar importantes, o que motivou uma terceira observação no hospital da área de residência. Foi submetida a um estudo de imagem, por tomografia computadorizada (TC) crânio-encefálica, descrita como não apresentando alterações evidentes. Realizou também investigação analítica, que foi normal. Teve novamente alta da urgência, mas a manutenção das queixas motivou uma quarta observação, no contexto da qual foi feita a referência ao Hospital Pediátrico, para observação pela Neuropediatria.

À admissão, apresentava um exame clínico preocupante, identificando-se uma hipotonia axial, não se mantendo sentada sem apoio, nem fazendo carga nos membros inferiores. Era evidente um *tilt* cefálico para a direita, com contratura do músculo esternocleidomastoideu esquerdo. Apresentava uma pobreza de movimentos espontâneos, com franca irritabilidade perante a mínima manipulação, definindo-se uma tetraparésia flácida, com reflexos miotáticos mais vivos nos membros inferiores e reflexo cutâneo-plantar (RCP) equívoco bilateralmente.

Além da confirmação de uma perda ponderal de 900 g desde o início do quadro, o restante exame objetivo não apresentava mais alterações. Foi realizada investigação analítica (onde não se concretizou qualquer alteração) e solicitada uma ressonância magnética (RM) crânio-encefálica e cervical, que revelou uma volumosa lesão expansiva medular, entre a transição bulbomedular e o nível D5-D6, com 15x11 mm de maiores diâmetros transversais no plano axial (**Fig. 1**).

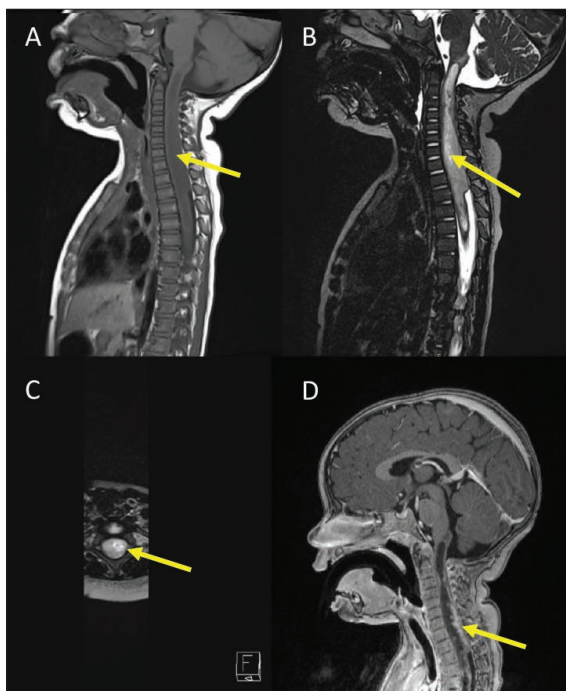


Figura 1. RM cervical, revelando a presença de uma volumosa lesão expansiva estendendo-se da transição bulbomedular ao nível D5-D6. A. Sagital T1, revelando a presença de uma área de moderado hipossinal (seta), que corresponde à lesão; B. Sagital T2, em que se identifica uma área de franco hipersinal, heterogéneo, que condiciona uma expansão da medula e do canal medular (seta) e que corresponde à lesão neoplásica. C. Axial T2/FLAIR, obtido a nível de C7, em que a área de hipersinal ocupa praticamente todo o diâmetro da medula, identificando-se áreas de heterogeneidade de sinal (seta) no âmbito da lesão neoplásica. D. Sagital T1 após administração de gadolínio endovenoso, em que se observa um realce marginal (seta) da lesão.

A criança foi posteriormente submetida a uma avaliação multidisciplinar – Neuropediatria, Neurorradiologia, Neurocirurgia e Oncologia – e admitida na Unidade de Cuidados Intensivos, por necessidade de intervenção anestesiológica, para controlo da dor. A biópsia excisional da lesão intra-axial confirmou o diagnóstico de astrocitoma de baixo grau, sendo que o estudo molecular não permitiu identificar qualquer variante no códon 600 do gene *BRAF*. Iniciou o protocolo de quimioterapia (vincristina e carboplatina), dada a impossibilidade da excisão cirúrgica. Apesar do tratamento, registou-se um incremento das dimensões da neoplasia nas primeiras semanas, motivo pelo qual se alterou o esquema terapêutico para irinotecano e bevacizumab, sob o qual se observou uma melhoria clínica e imagiológica.

Discussão

Os tumores da fossa posterior constituem cerca de 50% das neoplasias intracranianas em crianças e adolescentes,³ sendo a maioria diagnosticada entre os 3 e os 11 anos de idade.⁴ O torcicolo pode ser a apresentação inicial, segundo vários estudos já publicados.^{3,4} Os mecanismos fisiopatológicos propostos para o torcicolo como manifestação clínica de tumores da fossa posterior e medula cervical são vários: distonia cervical por lesões no tálamo, corpo estriado, mesencéfalo, cerebelo (particularmente do vérmis e núcleo fastigial) e das vias motoras descendentes^{1,3,5}; irritação e estiramento da dura-máter, invadida por ramos ascendentes dos primeiros nervos cervicais³; e compressão do nervo acessório.³

Os principais tipos envolvidos, na idade pediátrica e por ordem de prevalência, são o meduloblastoma (30%-40%), o astrocitoma pilocítico (25%-35%), o glioma do tronco cerebral (20%-25%) e o ependimoma, em 10%-15% dos casos.⁴ A sua localização específica no sistema nervoso central e outras características radiológicas são úteis no diagnóstico diferencial, sendo a biópsia lesional necessária para a confirmação do tipo histológico implicado e definição de um plano terapêutico. O atraso no diagnóstico contribui para uma deterioração neurológica progressiva e para o aumento das dimensões tumorais, o que dificulta a respetiva abordagem cirúrgica, daí resultando um pior prognóstico.

Apresentamos o caso de uma criança com um quadro clínico com um mês de evolução, com vários sinais de alarme, que provavelmente foram surgindo por progressão da doença: torcicolo persistente, défices focais no exame neurológico, regressão do desenvolvimento psicomotor (hipotonia axial, ausência de marcha autó-

noma já adquirida), perturbação do sono e apetite, repercussão ponderal, dor intensa e várias idas ao serviço de urgência. Admite-se que a existência de um período de isolamento profilático (por infeção causada por SARS-CoV-2) e um diagnóstico de otite média aguda, também uma causa de torcicolo adquirido na criança, possam ter contribuído para o tempo de evolução sintomatológica. A extensão da lesão não permitiu uma abordagem cirúrgica do tumor (terapêutica de eleição), tendo-se optado necessariamente pela quimioterapia, sendo que o primeiro esquema de tratamento proposto também não foi bem-sucedido.

Nestes casos, o prognóstico é essencialmente dependente do tipo de tumor e do grau/classificação histopatológica. Apesar da lesão extensa, este caso apresenta melhor prognóstico vital por ser um tumor de baixo grau,⁹ com uma morbidade a longo prazo variável. Ainda que não seja uma situação clínica frequente, ilustra a possibilidade de tumores da fossa posterior e medula cervical serem causa de torcicolo adquirido, na criança. Uma história clínica detalhada, um exame objetivo completo e uma discussão multidisciplinar são essenciais para minimizar o frequente atraso diagnóstico desta situação clínica.

Deste modo, destacam-se as seguintes particularidades na abordagem da criança com torcicolo adquirido²:

- 1 – Distinção entre torcicolo paroxístico versus persistente: é importante distinguir entre um torcicolo persistente no tempo e um torcicolo paroxístico, com um intervalo livre e um período assintomático entre os episódios, o que pode ser muito sugestivo de alguns diagnósticos, como sejam torcicolo paroxístico benigno (TPB) da infância, torcicolo de causa muscular, síndrome de Sandifer (postura anómala do pescoço como atitude antálgica, em resposta a episódios de refluxo gastroesofágico), torcicolo induzido por fármacos, de causas metabólicas e síndromes conversivas.
- 2 – Idade da criança: num lactente ou criança pequena (excluindo um torcicolo congénito, que pode não ser evidente logo após o nascimento), as causas mais frequentes são o TPB, a síndrome de Sandifer e o torcicolo ocular (como mecanismo compensatório de evicção de diplopia na visão binocular, de correção de defeitos de campo visual e de estabilização de nistagmo ou ambliopia); na criança em idade escolar e no adolescente, os torcicolos de causa muscular e associados a infeções respiratórias superiores

são mais prevalentes.

- 3 – Momento de manifestação: o surgimento do torcicolo ao despertar é característico do torcicolo de causa muscular, enquanto a sua correlação com o período pós-prandial se associa à síndrome de Sandifer.
- 4 – Tempo de evolução: um torcicolo de causa muscular é autolimitado, com uma duração geralmente inferior a uma semana e com melhoria com tratamento anti-inflamatório; a persistência ou recorrência dos episódios exclui, em geral, esta hipótese diagnóstica e obriga à exclusão de uma etiologia estrutural ou infecciosa subjacente²;
- 5 – Traumatismo associado.

É também essencial pesquisar sintomas associados ao torcicolo:

- 1 – Febre: sugere uma etiologia infecciosa ou inflamatória, sendo fundamental a exclusão de um foco séptico otorrinolaringológico ou osteoarticular; as infeções associadas vão desde amigdalites, otites ou adenites cervicais até doenças mais graves, como meningites, espondilodiscites, osteomielites ou abscessos retrofaríngeos.
- 2 – Cefaleia: se intensa e progressiva, com despertar noturno ou de predomínio matinal, com vômitos concomitantes, alteração do padrão de marcha, convulsões ou défices neurológicos focais, pode alertar para uma causa neurológica, como pode efetivamente ser um tumor do sistema nervoso central (SNC).
- 3 – Refluxo gastroesofágico: num pequeno lactente com refluxo e episódios de torcicolo intermitentes, a síndrome de Sandifer é a hipótese mais provável.
- 4 – História recente de infeção ou cirurgia da cabeça e pescoço: neste contexto, pode ocorrer uma subluxação da articulação atlantoaxial (síndrome de Grisel), na ausência de um traumatismo subjacente; ocorre por inflamação dos tecidos adjacentes às vértebras cervicais C1 e C2 e consequente hiperlaxidão e relaxamento do ligamento transversal interarticular⁷; apresenta-se como um torcicolo doloroso e irredutível, podendo confirmar-se o diagnóstico com recurso a exames de imagem.
- 5 – Consumo de fármacos: alguns fármacos, como a metoclopramida⁸ e alguns neurolépticos, causam reações distónicas cervicais, entre os seus efeitos adversos.

- 6 – Antecedentes pessoais da criança, fisiológicos (crescimento estatura-ponderal, desenvolvimento psicomotor) e patológicos: a síndrome de Down, a síndrome de Marfan ou doenças metabólicas (como as mucopolissacaridoses, em que há uma hiperlaxidão ligamentar que confere uma instabilidade da articulação atlanto-axial) podem cursar com torcicolo frequente; uma criança pequena com um aumento do perímetro cefálico⁶, com cruzamento ascendente na curva de percentis, deve ser considerada como tendo um sinal de alarme, mesmo para o eventual diagnóstico de uma lesão ocupante de espaço subjacente.

Por fim, há determinados antecedentes familiares de relevo, que devem também ser considerados, como seja uma história familiar de enxaqueca ou de qualquer um dos seus equivalentes em idade pediátrica. Neste caso, o TPB até constitui um deles e a história familiar de enxaqueca pode facilitar o diagnóstico. Também as doenças autoimunes e reumatológicas, se presentes na família, podem gerar pistas diagnósticas: apesar de ser rara, está descrita na literatura a apresentação inicial de uma artrite idiopática juvenil sob a forma de um torcicolo.⁹

Relativamente ao exame objetivo da criança com torcicolo, é de particular importância a avaliação da cabeça e pescoço, nomeadamente da mobilidade cervical ativa (a mobilidade passiva, se avaliada, requer cuidado pelo risco de subluxação vertebral), a do trato respiratório superior (inspeção da orofaringe, otoscopia), a palpação cervical (espessamentos musculares, adenopatias) e da coluna vertebral, o exame oftalmológico e, claro, o exame neurológico completo. Neste domínio, são achados relevantes² os défices motores ou sensitivos de carácter focal e as alterações do padrão de marcha, que podem sugerir lesões neoplásicas da fossa posterior e medula cervical. Num contexto pós-traumático, estas alterações podem sugerir uma lesão com a mesma topografia, mas resultante de um hematoma, por exemplo. A existência de pontos dolorosos na coluna vertebral pode indicar a presença de fratura, subluxação ou infeção subjacente. Estridor, disfagia, sialorreia e abaulamento do palato podem ser sugestivos da presença de um abscesso retrofaríngeo. Sinais de dificuldade respiratória e alterações da auscultação pulmonar podem apontar para um diagnóstico de pneumonia do lobo superior, que pode associar-se a cervicalgia e torcicolo. Alterações ao exame ocular, como papiledema (fundoscopia), nistagmo (associado ao *spasmus nutans*), estrabismo e anisocória podem também apontar para uma causa específica para o torcicolo.

Consoante as hipóteses diagnósticas, devem ser ponderados os exames complementares, se necessários, que podem incluir investigação analítica e imagiologia cervical (radiografia, TC e/ou RM crânio-encefálica e/ou cervical). A avaliação multidisciplinar pelas diversas especialidades – Ortopedia, Neuropediatria, Otorrinolaringologia, Oftalmologia – deve ser ponderada caso a caso.

Conclusão

O torcicolo adquirido em crianças constitui um sinal clínico que pode ter uma multiplicidade de condições subjacentes, não devendo ser encarado como um diagnóstico final. Pode representar o primeiro sinal de um tumor da fossa posterior ou da medula cervical, em qualquer idade, entre outras situações que põem em risco a vida da criança. É indispensável um exame objetivo completo, um exame de imagem se o torcicolo se associar a sintomas neurológicos de novo e uma discussão multidisciplinar, nos casos em que se identifiquem sinais de alarme. Os clínicos devem estar familiarizados com a multiplicidade de situações que podem estar subjacentes a um torcicolo numa criança e só assim se poderá minimizar a morbimortalidade associada. ■

Contributorship Statement / Declaração de Contribuição

LC: Conceptio, writing and final approval.
CF: Conceptio, writing and final approval.
RPP: Images preparation and final approval.
JAC: Critical review and final approval.
FP: Conception, critical review with intellectual contribution and final approval.

Responsabilidades Éticas

Conflitos de Interesse: Os autores declaram a inexistência de conflitos de interesse na realização do presente trabalho.

Fontes de Financiamento: Não existiram fontes externas de financiamento para a realização deste artigo.

Confidencialidade dos Dados: Os autores declaram ter seguido os protocolos da sua instituição acerca da publicação dos dados de doentes.

Consentimento: Consentimento do doente para publicação obtido.

Proveniência e Revisão por Pares: Não comissionado; revisão externa por pares.

Ethical Disclosures

Conflicts of Interest: The authors have no conflicts of interest to declare.

Financing Support: This work has not received any contribution, grant or scholarship.

Confidentiality of Data: The authors declare that they have followed the protocols of their work center on the publication of data from patients.

Patient Consent: Consent for publication was obtained.

Provenance and Peer Review: Not commissioned; externally peer reviewed.

References / Referências

1. Regala J, Martins J, Dias AI, Moreira A, Neves MC. Torcicolo adquirido na criança. *Acta Pediatr Port.* 2013;44:74-81. doi: 10.25754/pjp.2013.1242
2. Macias CG, Gan V. Acquired torticollis in children. *UptoDate.* Wolters Kluwer, 2021. [Consultado em 29 de Novembro de 2022]. Disponível em: <https://www.uptodate.com/>
3. Kumanda S, Per H, Gümü H, Tucer B, Yikilmaz A, Konta O, et al. Torticollis secondary to posterior fossa and cervical spinal cord tumors: report of five cases and literature review. *Neurosurg Rev.* 2006;29:333-8. doi: 10.1007/s10143-006-0034-8.
4. Kerleroux B, Cottier JP, Janot K, Listrat A, Sirinelli D, Morel B. Posterior fossa tumors in children: Radiological tips & tricks in the age of genomic tumor classification and advance MR technology. *J Neuroradiol.* 2020;47:46-53. doi: 10.1016/j.neurad.2019.08.002.
5. Turturk A, Kaya Ozcora G, Kacar Bayram A, Kabaklioglu M, Doganay S, Canpolat M, et al. Torticollis in children: an alert symptom not to be turned away. *Child's Nerv Syst.* 2015;31:1461-70. doi: 10.1007/s00381-015-2764-9.
6. Picariello S, Spennato P, Roth J, Shimony N, Marini A, De Martino L, et al. Posterior Fossa Tumours in the First Year of Life: A Two-Centre Retrospective Study. *Diagnostics.* 2022;12:635. doi: 10.3390/diagnostics12030635.
7. Stilwell PA, Fine D, Roberts J, Goh L. A pain in the neck: Grisel's syndrome. *Arch Dis Child.* 2019;104:610. doi: 10.1136/archdischild-2017-314536.
8. Zikidou P, Meziridou R, Alexiadou S, Mantadakis E. Acute Dystonic Reaction in a 14-Year-Old Boy after Accidental Overuse of Nasal Metoclopramide. *Case Rep Acute Med.* 2021;4:1-6. doi: 10.1159/000512655.
9. Coutinho R, Estanqueiro P, Alves C, Salgado M. Cervical arthritis as presentation of oligoarticular juvenile idiopathic arthritis. *Ann Paediatr Rheumatol.* 2017;6:5. doi: 10.5455/apr.022720171305.