

## Síndrome de Lemierre: relato de caso

### *Lemierre syndrome: case report*

Rodrigo de Oliveira Veras<sup>1</sup>, Linda Luísa Barasuol<sup>1</sup>, Carolina Pedrassani de Lira<sup>2</sup>, Flávia Caroline Klostermann<sup>2</sup>, Lourenço Sabo Müller<sup>2</sup>, Luiz Eduardo Nercolini<sup>2</sup>, Gustavo Fabiano Nogueira<sup>2,3</sup>

#### Resumo

A síndrome de Lemierre caracteriza-se pela tromboflebite séptica da veia jugular interna, após uma orofaringite, com embolização séptica para o pulmão ou outros órgãos. Neste relato de caso, apresentamos uma paciente feminina, 37 anos de idade, com história de edema e dor em hemiface direita há três dias, associada a fadiga e dispneia progressiva há um dia. História de extração dentária do elemento 48 há três dias. No exame físico admissional, apresentava-se taquipneica, saturando 60% (em ar ambiente), com edema em ângulo da mandíbula direita, redução difusa do murmúrio vesicular e panturrilhas sem empastamento. Angiotomografia de tórax e exames laboratoriais foram compatíveis com quadro de embolia séptica, e tomografia computadorizada da cervical corroborou o diagnóstico de tromboflebite séptica da veia jugular interna. Foi tratada com antibióticos e sintomáticos. A síndrome de Lemierre afeta mais homens jovens e tem embolização para o pulmão em até 97% dos casos. Extrações dentárias raramente podem ser a etiologia dessa síndrome. A tomografia computadorizada é o método de imagem mais utilizado no diagnóstico, e o tratamento é, essencialmente, com antibióticos; portanto, a abordagem cirúrgica é raramente necessária.

**Palavras-chave:** síndrome de Lemierre; extração dentária; tromboflebite; embolia pulmonar.

#### Abstract

Lemierre syndrome is characterized by septic thrombophlebitis of the internal jugular vein, after an oropharyngeal infection, with septic embolization to the lungs or other organs. This case report describes a 37-year-old female patient who presented with edema and pain in the right hemiface with onset 3 days previously and progressive fatigue and dyspnea since the previous day. She had had tooth 48 extracted 3 days previously. Physical examination at admission found tachypnea, with 60% saturation (in room air), edema at the angle of the right mandible, diffuse reduction of vesicular murmur, and calves free from clubbing. Angiotomography of the chest and laboratory tests were compatible with septic emboli, and cervical computed tomography confirmed a diagnosis of septic thrombophlebitis of the internal jugular vein. She was managed with antibiotics and given treatment for her symptoms. Lemierre syndrome most often occurs in young men and there is embolization to the lungs in up to 97% of cases. Rarely, the etiology of this syndrome may be tooth extraction. Computed tomography is the imaging method most often used for diagnosis and treatment is basically antibiotic. Surgery is thus rarely necessary.

**Keywords:** Lemierre syndrome; tooth extraction; thrombophlebitis; pulmonary embolism.

<sup>1</sup> Faculdade Evangélica do Paraná – FEPAR, Curitiba, PR, Brasil.

<sup>2</sup> Hospital Universitário Evangélico de Curitiba – HUEC, Curitiba, PR, Brasil.

<sup>3</sup> Instituto Neurológico de Curitiba – INC, Curitiba, PR, Brasil.

Fonte de financiamento: Nenhuma.

Conflito de interesse: Os autores declararam não haver conflitos de interesse que precisam ser informados.

Submetido em: Março 03, 2018. Aceito em: Setembro 04, 2018.

O estudo foi realizado no Hospital Universitário Evangélico de Curitiba (HUEC), Curitiba, PR, Brasil.

## ■ INTRODUÇÃO

A síndrome de Lemierre (SL) se caracteriza pela tromboflebite séptica da veia jugular interna, após um quadro de orofaringite, com embolização séptica para o pulmão ou outros órgãos<sup>1-3</sup>. Extrações dentárias também podem originar essa síndrome<sup>4</sup>, porém são extremamente raras<sup>5</sup>.

Essa síndrome afeta principalmente adultos jovens<sup>6</sup> e pode ser potencialmente fatal<sup>1,2,4,7</sup>. A SL é também chamada de “doença esquecida”, pela sua raridade<sup>7</sup>, e apresenta uma incidência de cerca de 3,6 por milhão de pessoas por ano<sup>2</sup>, com uma mortalidade de cerca de 5%, quando diagnosticada<sup>5,8</sup>. O tratamento se baseia basicamente em antibioticoterapia abrangendo o patógeno envolvido e raramente necessita de abordagem cirúrgica<sup>6</sup>.

Neste relato de caso, apresentamos uma mulher que manifestou a SL, atipicamente após uma extração dentária.

## ■ RELATO DO CASO

Paciente do sexo feminino, 37 anos de idade, admitida por procura direta no serviço de pronto-atendimento hospitalar, em 01/04/2017, devido a queixa de edema e dor facial em hemiface direita há 3 dias, associado a astenia e dispneia progressiva aos moderados esforços há 1 dia. Negava episódios de febre. Previamente hígida, realizava atividades físicas diárias sem queixas, anteriormente ao quadro. Relatava história de bruxismo, o qual complicou com trauma dentário do segundo molar inferior direito há 3 dias, necessitando extração dentária, sendo esta realizada de imediato.

Ao exame físico geral, apresentava-se em regular estado geral, taquipneica com frequência respiratória de 30 incursões por minuto, saturação de oxigênio de 60% em ar ambiente e edema em hemiface direita. Na ausculta torácica, notou-se redução difusa do murmúrio vesicular, bulhas cardíacas rítmicas e normofonéticas, sem sopros. As panturrilhas estavam livres de empastamento, e os sinais de Bancroft e Homans foram ambos negativos.

Foi cogitada a hipótese de tromboembolismo pulmonar (TEP) e, por isso, requisitada angiotomografia de tórax em 01/04/17, que não evidenciou TEP. Porém, revelou opacidades nodulares esparsas pelo parênquima pulmonar bilateralmente, septos interlobulares espessados, com áreas de atenuação em vidro fosco, e derrame pleural bilateral, com componente cisural à esquerda, sugerindo o diagnóstico de embolia séptica (Figura 1). Os exames laboratoriais coletados em 02/04/17 evidenciaram leucocitose de 16.050, com predomínio de segmentados, sem bastonetose, e proteína c-reativa (PCR) elevada de 26,3 mg/L.



Figura 1. Tomografia computadorizada mostrando múltiplas opacidades pulmonares.

No dia 04/04/17, foi realizada tomografia computadorizada (TC) de face e cervical, que demonstraram a presença de densificação e aumento de partes moles em hemiface direita, além de tromboflebite das tributárias da veia jugular interna à direita (Figura 2). Assim, pela correlação clinicorradiológica, foi determinado o diagnóstico da SL.

Durante toda a evolução do quadro, a paciente permaneceu internada em regime de enfermaria e foi medicada, durante todo o período, com analgésicos, anti-inflamatórios não esteroidais e antibióticos. A analgesia foi realizada com dipirona e tramadol, regularmente durante os 5 primeiros dias. Utilizou-se, para o quadro inflamatório, cetoprofeno 100 mg, a cada 12 horas, por 10 dias e prednisona 10 mg, a cada 12 horas, por 10 dias. A antibioticoterapia empírica iniciada foi a associação entre azitromicina, clindamicina e ceftriaxona, porém, com a reorientação pelo antibiograma logo no segundo dia de internamento, manteve-se apenas clindamicina 600 mg, a cada 6 horas, por 10 dias e ceftriaxona 2 g, uma vez ao dia, por 10 dias.

Na evolução, durante os dias de internação, houve melhora dos parâmetros laboratoriais, até que no dia 09/04/17, a paciente apresentava-se com 11.330 leucócitos, sem bastonetose, e com PCR de 1,7 mg/L. A melhora das queixas álgicas foi obtida logo no primeiro dia de internação e, após as primeiras 24 horas, a paciente já não apresentava mais dispneia e a oximetria de pulso era de 95% em ar ambiente. Assim, obtendo melhora clínica e laboratorial, foi concedida alta hospitalar após 10 dias de internamento.

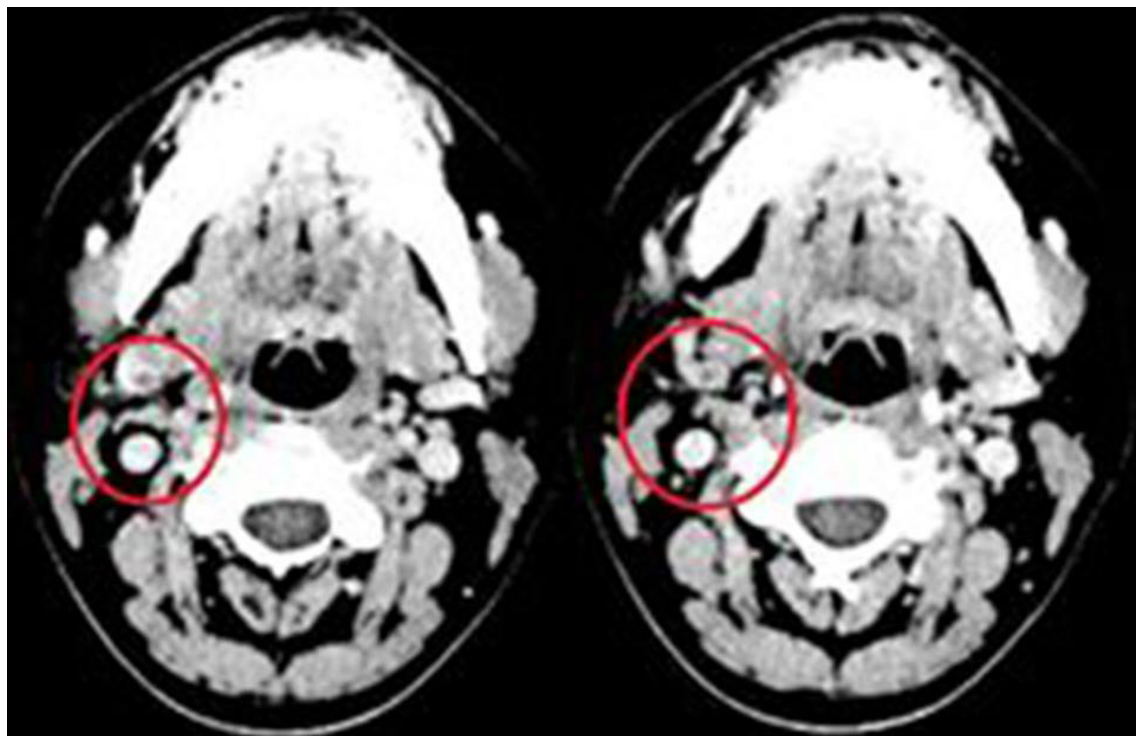


Figura 2. Cortes sequenciais de tomografia computadorizada evidenciando, no círculo vermelho, áreas de tromboflebite dos ramos da veia jugular interna à direita.

## DISCUSSÃO

André Lemierre, em 1936, descreveu o complexo da doença que combina infecções bacterianas anaeróbicas e sépticas pós-amigdalite<sup>7-10</sup>. O foco ilustrativo de Lemierre foi a septicemia pós-angina devido ao *Fusobacterium necrophorum*, descrevendo, então, a progressão da infecção supurativa peritonsilar com a tromboflebite da veia jugular interna, seguida de embolização séptica a distância, como para o pulmão<sup>11</sup>.

O principal sítio de infecção são as amígdalas palatinas (87,1% dos casos)<sup>12</sup>. Infecções odontogênicas, mastoidites, parotidite, sinusite, otite, pele ou tecido subcutâneo também podem ser o sítio primário de infecção<sup>9,12</sup>.

As manifestações clínicas incluem febre de 39 a 41 °C e calafrios depois de 4 a 5 dias do início da faringite<sup>6,7</sup>. Dor e rigidez no pescoço e linfadenopatia cervical também podem ocorrer. Edema e dor no ângulo da mandíbula ou anterior e paralelo ao músculo esternocleidomastoideo refletem o acometimento do espaço parafaríngeo (26 a 45% dos casos)<sup>6,10</sup>. Alterações respiratórias estão presentes na maioria dos casos<sup>6</sup>. A paciente apresentada atipicamente não teve febre, nem a SL precedida por quadro de faringite.

O envolvimento pulmonar nesta síndrome acontece em até 97% dos casos<sup>6,8,9</sup>, devido à propagação hematogênica da bactérias<sup>12</sup>. Pode ocorrer dor pleurítica intensa com dispneia<sup>9,11</sup>, e crepitações finas localizadas e atrito pleural podem ser auscultados. A radiografia de tórax mostra tipicamente múltiplas opacidades bilaterais e pequenos derrames pleurais<sup>9</sup>.

O diagnóstico precoce é vital para prevenir sepse e morte<sup>3,7</sup>; porém, é muitas vezes atrasado devido ao curso indolente e ao desconhecimento da síndrome<sup>7</sup>. O diagnóstico definitivo pode ser feito com TC, flebografia, ecografia simples ou *duplex scan* da região cervical<sup>6</sup>. Destes, a TC com contraste é o exame mais útil para diagnóstico<sup>6,7</sup>, demonstrando edema de partes moles e defeitos de enchimento ou o próprio trombo no interior da veia jugular interna.

O principal tratamento para SL é a terapia antimicrobiana intravenosa<sup>4</sup>, com cobertura para anaeróbios<sup>6,10,13</sup>. A resposta aos antibióticos é lenta, e o tempo médio entre o início do tratamento e a resolução da febre varia de 8 a 12 dias<sup>9,10</sup>.

A exploração cirúrgica com ligadura e excisão da veia jugular interna é raramente necessária, podendo ser indicada nos casos com embolia séptica persistente e também na drenagem cirúrgica de abscessos ou empiemas pulmonares<sup>6,9,11,14</sup>. O papel

da anticoagulação ainda é controverso, não existindo trabalhos randomizados que apoiem seu uso<sup>4,6,9,11,14</sup>.

## ■ CONCLUSÃO

Devido à potencial mortalidade da SL, é de grande importância que os médicos possam reconhecer essa síndrome precocemente, principalmente após quadros sugestivos de embolia pulmonar subsequentes a bacteremia em via aérea superior, para que consigam uma abordagem terapêutica precoce e eficaz.

## ■ REFERÊNCIAS

1. Yombi JC, Bogaert T, Tribak K, Danse E. Lemierre syndrome of the femoral vein, related to fusobacterium necrophorum abscess of vastus lateralis. *J Emerg Med*. 2016;50(4):e191-3. <http://dx.doi.org/10.1016/j.jemermed.2015.07.049>. PMID:26899519.
2. Pol H, Guerby P, Cassin LD, et al. Dangerous liaisons: pelvic variant of Lemierre syndrome by right common iliac vein thrombophlebitis after sexual intercourse. *J Low Genit Tract Dis*. 2017;21(3):e37-9. <http://dx.doi.org/10.1097/LGT.0000000000000312>. PMID:28430681.
3. Panchavati PK, Kar B, Hassoun A, Centor RM. Anaerobe Fusobacterium necrophorum tonsillitis with mild case of Lemierre's syndrome. *Anaerobe*. 2017;43:102-4. <http://dx.doi.org/10.1016/j.anaerobe.2016.12.012>. PMID:28040511.
4. Miyamoto S, Toi T, Kotani R, et al. Lemierre syndrome associated with ipsilateral recurrent laryngeal nerve palsy: a case report and review. *NMC Case Rep J*. 2016;3(3):53-7. <http://dx.doi.org/10.2176/nmccrj.cr.2015-0226>. PMID:28663998.
5. Cuddy K, Saadat N, Khatib B. Necrotizing lip infection causing septic thrombophlebitis of the neck: a rare variant of Lemierre syndrome. *J Oral Maxillofac Surg*. 2018;76(1):134-9. PMID:28651067.
6. Handa GI, Bertuzzo GS, Muller KS, et al. Síndrome de Lemierre: relato de caso. *J Vasc Bras*. 2010;9(1):82-5. <http://dx.doi.org/10.1590/S1677-54492010005000001>.
7. Alperstein A, Fertig RM, Feldman M, et al. Septic thrombophlebitis of the internal jugular vein, a case of Lemierre's syndrome. *Intractable Rare Dis Res*. 2017;6(2):137-40. <http://dx.doi.org/10.5582/irdr.2017.01021>. PMID:28580216.
8. Medina F, Tatay M, Smati M, et al. Lemierre's syndrome: an unusual presentation. *Med Mal Infect*. 2015;45(8):328-30. <http://dx.doi.org/10.1016/j.medmal.2015.05.009>. PMID:26117663.
9. Silva DR, Gazzana MB, Albaneze R, Dalcin PT, Vidart J, Gulc6 N. Embolia pulmonar séptica secundária à tromboflebite jugular: um caso de síndrome de Lemierre. *J Bras Pneumol*. 2008;34(12):1079-83. <http://dx.doi.org/10.1590/S1806-37132008001200015>. PMID:19180345.

10. Osowicki J, Kapur S, Phuong LK, Dobson S. The long shadow of Lemierre's syndrome. *J Infect*. 2017;74(Suppl Suppl 1):S47-53. [http://dx.doi.org/10.1016/S0163-4453\(17\)30191-3](http://dx.doi.org/10.1016/S0163-4453(17)30191-3). PMID:28646962.
11. Çivgin E, Toprak U, Parlak S, Özer H. Fissuration of vertebral artery mycotic aneurysm due to Lemierre syndrome. *Diagn Interv Imaging*. 2018;99(1):43-5. <http://dx.doi.org/10.1016/j.diii.2017.06.003>. PMID:28652095.
12. Giorgi AD, Fabbian F, Molino C, et al. Pulmonary embolism and internal jugular vein thrombosis as evocative clues of Lemierre's syndrome: a case report and review of the literature. *World J Clin Cases*. 2017;5(3):112-8. <http://dx.doi.org/10.12998/wjcc.v5.i3.112>. PMID:28352635.
13. Noh HJ, Freitas CA, Souza RP, Simões JC, Kosugi EM. Lemierre syndrome: a rare complication of pharyngotonsillitis. *Rev Bras Otorrinolaringol*. 2015;81(5):568-70. <http://dx.doi.org/10.1016/j.bjorl.2015.03.009>. PMID:26324201.
14. Camêlo CPR, Brandão ML, Fernandes LF, et al. Síndrome de Lemierre: relato de caso. *J Vasc Bras*. 2015;14(3):253-7. <http://dx.doi.org/10.1590/1677-5449.0002>.

### Correspondência

Rodrigo de Oliveira Veras  
Faculdade Evangélica do Paraná – FEPAR  
Rua Marechal José Bernardino Bormann, 1492 - Bigorrião  
CEP 80730-350 - Curitiba (PR), Brasil  
Tel.: (41) 3339-2312  
E-mail: rdgveras@outlook.com

### Informações sobre os autores

ROV e LLB - Estudantes de Medicina, Faculdade Evangélica do Paraná (FEPAR).  
CPL e FCK - Médicas residentes; Otorrinolaringologia, Hospital Universitário Evangélico de Curitiba (HUEC).  
LSM e LEN - Otorrinolaringologistas; Preceptores, Programa de Residência Médica em Otorrinolaringologia, Hospital Universitário Evangélico de Curitiba (HUEC).  
GFN - Otorrinolaringologista; Chefe, Serviços de Otorrinolaringologia, Hospital Universitário Evangélico de Curitiba (HUEC), Instituto Neurológico de Curitiba (INC).

### Contribuições dos autores

Concepção e desenho do estudo: ROV, GFN  
Análise e interpretação dos dados: ROV, LLB, CPL, FCK, LSM, LEN, GFN  
Coleta de dados: ROV, LLB, CPL, FCK, LSM  
Redação do artigo: ROV, LLB, CPL, FCK, LSM, LEN, GFN  
Revisão crítica do texto: CPL, FCK, LSM, LEN, GFN  
Aprovação final do artigo\*: ROV, LLB, CPL, FCK, LSM, LEN, GFN  
Análise estatística: N/A.  
Responsabilidade geral pelo estudo: GFN

\*Todos os autores leram e aprovaram a versão final submetida ao J Vasc Bras.