

# Primary auriculotemporal neuralgia. Case report

## Neuralgia do auriculotemporal primária. Relato de caso

Maurício Kosminsky<sup>1</sup>, Michele Gomes do Nascimento<sup>1</sup>

DOI 10.5935/1806-0013.20150064

### ABSTRACT

**BACKGROUND AND OBJECTIVES:** Auriculotemporal neuralgia is an uncommon condition. Symptoms are brief severe pain attacks, especially in the temporal region. Although many cranial neuralgias are related to nervous compression, they may be present without identifiable etiologic factors. This study aimed at describing a case of primary auriculotemporal neuralgia and respective therapeutic approach.

**CASE REPORT:** Male patient, 72 years old, presented for assistance reporting severe pain in left temporal region, described as shock and of very short duration. After clinical evaluation and imaging exams, no significant changes were detected. Patient has satisfactorily responded to carbamazepine.

**CONCLUSION:** This case shows that auriculotemporal neuralgia has clinical presentation similar to other neuralgias. Diagnosis is primarily obtained by pain characteristics evaluation and exclusion of possible secondary causes.

**Keywords:** Auriculotemporal nerve, Auriculotemporal neuralgia, Neuropathic pain.

### RESUMO

**JUSTIFICATIVA E OBJETIVOS:** A neuralgia do auriculotemporal é uma condição rara. Os sintomas consistem em ataques de dor intensa, de curta duração, sobretudo na região temporal. Embora muitos casos de neuralgias cranianas sejam relacionados à compressão nervosa, podem ocorrer sem fatores etiológicos identificáveis. O objetivo deste estudo foi descrever um caso de neuralgia auriculotemporal primária e respectiva conduta terapêutica.

**RELATO DO CASO:** Paciente do gênero masculino, 72 anos, compareceu para atendimento relatando dor intensa em região temporal esquerda, descrita como choque, de curtíssima duração. Após avaliação clínica e exames de imagens, não foram detectadas alterações significativas. O paciente respondeu de forma satisfatória à carbamazepina.

**CONCLUSÃO:** O caso descrito mostra que a auriculotemporal possui apresentação clínica semelhante àquela de outras neuralgias. O diagnóstico é obtido principalmente pela análise das características da dor e exclusão de possíveis causas secundárias.

**Descritores:** Dor neuropática, Nervo auriculotemporal, Neuralgia do auriculotemporal.

### INTRODUÇÃO

A dor neuropática resulta de uma lesão primária ou disfunção do sistema nervoso, desencadeada por trauma local ou doenças sistêmicas e afeta estruturas nervosas periféricas ou centrais. Considerando o sintoma, a dor neuropática orofacial pode ser classificada em duas categorias: episódica e contínua. As dores neuropáticas episódicas são caracterizadas por paroxismos de dores descritas como choque elétrico ou pontadas, assim como ocorre na neuralgia trigeminal (NT)<sup>1</sup>. Os paroxismos de dor são geralmente seguidos de períodos de remissão, conhecidos como refratários. Podem ser classificadas em primárias (clássicas) ou secundárias (sintomáticas) e a distinção entre ambas é importante para diagnóstico e tratamento apropriados. Enquanto a grande maioria apresenta-se com dor de curta duração, intensa e paroxística, dor contínua pode estar presente<sup>2,3</sup>. As neuralgias mais comuns incluem: trigeminal, pós-herpética, glossofaríngea e occipital. As menos frequentes são a neuralgia supraorbital e do nervo intermédio. Estas desordens podem acontecer subjacentes a doenças neurológicas infecciosas e/ou inflamatórias, além de outras cefaleias primárias<sup>3</sup>.

O nervo auriculotemporal (n.AT) é um ramo sensorial que se forma a partir do tronco posterior do nervo mandibular. Devido ao seu trajeto, tem grande risco de compressão e irritação. Suas raízes nervosas formam um tronco curto, que fornece vários ramos e inerva: articulação temporomandibular (ATM), região temporal, pavilhão auricular e meato acústico externo. Conduz fibras simpáticas para o couro cabeludo e fibras parassimpáticas para a glândula parótida<sup>4</sup>. A relação anatômica entre o n.AT e os músculos mastigatórios, ATM e vasos circundantes na região da fossa infra temporal criam condições favoráveis para síndromes compressivas<sup>5,6</sup>.

A neuralgia do auriculotemporal (NAT) é uma condição rara. Em um centro terciário, a frequência relatada foi de apenas 0,4%<sup>7</sup>. Parece ser mais prevalente em pessoas de meia-idade, do gênero feminino. Os sintomas consistem em ataques de dor lancinante, sobretudo na região temporal. São descritas também dores nas regiões de ATM, de parótida e auricular, com irradiação para a região temporal, que podem ser aliviadas por bloqueio anestésico do nervo auriculotemporal<sup>8,9</sup>. Apesar de não possuir classificação própria, foi sugerida a denominação de neuralgias epicranianas, incluindo as de outros ramos periféricos<sup>10,11</sup>, como os nervos supraorbital, supratroclear, nasal, occipital maior e occipital menor<sup>12</sup>.

1. Universidade de Pernambuco, Recife, PE, Brasil.

Apresentado em 16 de julho de 2015.

Aceito para publicação em 23 de outubro de 2015.

Conflito de interesses: não há – Fontes de fomento: não há.

#### Endereço para correspondência:

Michele Gomes do Nascimento  
R. Artur Coutinho, 143 - Santo Amaro  
50100-280 Recife, PE, Brasil.  
E-mail: michelepmpc@yahoo.com.br

Embora muitos casos de neuralgias cranianas sejam primários, outros fatores etiológicos podem estar envolvidos. Casos refratários ou com parestesia podem indicar a presença de lesões expansivas. Apesar de os mecanismos dessa condição não estarem completamente esclarecidos, relatos de odontalgia não odontogênica<sup>7</sup>, dores faciais refratárias<sup>8</sup>, assim como NAT secundária a cisto sinovial em côndilo mandibular<sup>13</sup> são descritos na literatura.

O objetivo deste estudo foi apresentar um caso de NAT onde não foram encontrados fatores secundários subjacentes, tendo respondido favoravelmente à administração de baixa dose de carbamazepina.

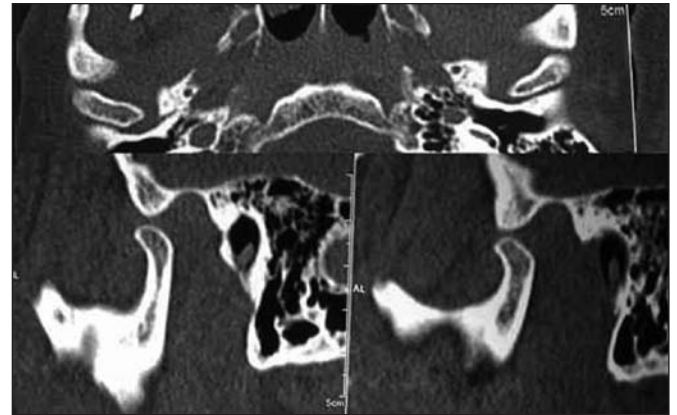
## RELATO DO CASO

Paciente do gênero masculino, 72 anos, compareceu para atendimento relatando dor em região temporal esquerda, intensa, descrita como choque. A primeira crise ocorreu há 5 anos, com remissão espontânea. Há 2 meses a dor reapareceu, apresentando curtíssima duração, com vários episódios em intervalo de 1 a 2 minutos. Esses episódios se repetiam três a quatro vezes ao dia e não despertavam o paciente durante o sono. Durante o exame físico, não foi detectada região de gatilho para a dor. O paciente é diabético controlado e refere ter realizado prostatectomia por câncer. Imagem de ressonância magnética do crânio sem alteração. Solicitou-se radiografia panorâmica dos maxilares e tomografia computadorizada das articulações temporomandibulares, ambas sem alterações significativas (Figuras 1, 2 e 3).

A hipótese diagnóstica foi NAT. Prescreveu-se carbamazepina (200mg) durante os dois primeiros dias, prosseguindo com 400mg durante os 15 dias seguintes. Na primeira semana de uso do fármaco, o paciente foi reavaliado e relatou diminuição na frequência dos choques (2 a 3 por dia), aos quais se referiu como “triscadas”. Na semana subsequente, o paciente referiu remissão dos sintomas. Manteve-se, então, dose de manutenção de 200mg e, após 4 meses, houve controle total dos sintomas.



**Figura 1.** Radiografia panorâmica vista aproximada do lado esquerdo. Não foram observadas alterações significativas.



**Figura 2.** Tomografia computadorizada da articulação temporomandibular (boca aberta)

Não foi observada a presença de lesões expansivas nas articulações temporomandibulares.



**Figura 3.** Ultrassonografia de região temporal esquerda

## DISCUSSÃO

Devido a sua raridade, o *International Classification of Headache Disorders* (ICHD-II) não apresenta uma categoria específica para NAT, sendo classificada como “neuralgia de outros ramos terminais”. Os critérios diagnósticos são: 1. Dor na distribuição de um ramo periférico do nervo trigeminal, exceto nervos nasociliar e supraorbital; 2. Sensibilidade sobre o nervo afetado; 3. A dor é eliminada por bloqueio anestésico ou ablação do nervo<sup>11</sup>. Na nova classificação da ICHD-III, entretanto, essa categoria não foi incluída<sup>10</sup>. O diagnóstico diferencial da NAT deve ser feito para descartar outras desordens incluindo disfunção temporomandibular, odontalgia, hemicrania contínua, otite, neuralgia trigeminal, arterite temporal, dor miofascial e dor facial atípica<sup>2,7</sup>. O diagnóstico do paciente em questão foi obtido, primariamente, por meio das características da dor como localização, qualidade, intensidade, frequência e duração. Os exames de imagem (radiografia panorâmica; tomografia das ATM e ultrassonografia da região temporal) foram solicitados a fim de excluir possíveis causas secundárias da doença. A palpação dos músculos mastigatórios não mostrou alterações relevantes. Por se tratar de dor bem localizada em região temporal, sem padrões de irradiação, em choque, considerou-se como diagnóstico inicial um quadro de NAT.

No período compreendido entre os anos de 2004 e 2005, um total de 1500 pacientes foi avaliado em um centro terciário de controle da dor. Foram documentados 6 casos de NAT. Todos os pacientes eram do gênero feminino com idades entre 23 e 65 anos. O intervalo de início dos sintomas ao diagnóstico variou de 1 mês a 20 anos. A

dor era de intensidade moderada a intensa, localizada ao redor da orelha, que irradiava para a região de côndilo e temporal em todos os pacientes. A dor era contínua em 5 casos e associada com exacerbações tipo facada em três. Em um paciente havia gatilho em região pré-auricular. Um paciente relatou esse sintoma desencadeado por estímulo gustativo, causando limitações na alimentação. A dor era unilateral, não comprometendo o lado oposto. Para todos os pacientes, a dor era desencadeada ou piorada pressionando a região pré-auricular ou levemente acima<sup>2</sup>. Neste caso, o paciente referiu início dos sintomas há 2 meses, apresentava episódios de dores intensas, espontâneas, de curta duração, que se repetiam em intervalos de poucos minutos.

O tronco do n.AT possui uma íntima relação anatômica com a cabeça da mandíbula e região de cápsula da ATM, o que pode contribuir para distúrbios sensoriais nessa localização. Em vários casos estudados, o nervo estava em contato direto com o aspecto medial da cápsula ou do colo da cabeça da mandíbula. Não foram observadas nos estudos correspondências anatômicas entre os lados direito e esquerdo, então apenas um dos lados pode ser afetado. O n.AT também pode estar em contato direto com o músculo pterigoideo lateral<sup>14</sup>. Os achados apoiam a hipótese de que a relação anatômica entre o n.AT e a cabeça da mandíbula, fossa articular e músculo pterigoideo lateral pode estar associada à compressão e irritação deste, contribuindo para dores neuropáticas nas suas regiões inervadas<sup>15</sup>.

Para investigar o mecanismo de compressão do n.AT, Komarnitki et al.<sup>5</sup> realizaram estudo da fossa infratemporal em 16 espécimes e encontraram que o número de raízes do n.AT variou entre 1 e 5. Observaram que, nas variações onde o n.AT possuía 4 e 5 raízes, havia complexas conexões. Em cinco casos, as raízes mais inferiores do n.AT iniciavam no nervo alveolar inferior, ao invés de no nervo mandibular. Os achados desse estudo apontam dois principais fatores que podem estar envolvidos na compressão do nervo aurículo-temporal em seu trajeto dentro da fossa infratemporal. O primeiro é a variação anatômica; enquanto o segundo é a presença de disfunção dos músculos mastigatórios, em especial o músculo pterigoideo lateral. Segundo os autores, mesmo pequenas mudanças estruturais ou funcionais podem levar ao aparecimento de síndromes dolorosas. De fato, o paciente descrito queixava-se de dor em choque, unilateral, em região temporal. Entretanto, não foram observados gatilhos relacionados às demandas funcionais da mandíbula no caso descrito. O tratamento farmacológico permanece como primeira linha para o controle de muitas neuralgias. Este pode ser obtido por meio da associação entre analgésicos clássicos e fármacos anticonvulsivantes ou antidepressivos. Em pacientes com neuralgia trigeminal clássica, a carbamazepina é considerada a abordagem farmacológica de primeira escolha. Entretanto, vários inconvenientes estão associados à sua utilização. Dentre eles, eritema cutâneo, efeito negativo na densidade óssea, alterações hepáticas e interações farmacológicas. A oxycarbamazepina pode ser utilizada em pacientes não responsivos à carbamazepina. Fármacos de segunda linha são: baclofeno, lamotrigina, pregabalina e gabapentina<sup>16</sup>.

Bloqueios anestésicos, cirurgias e outros procedimentos podem ser necessários em casos refratários<sup>3</sup>. A literatura preconiza que o bloqueio anestésico do n.AT é diagnóstico e terapêutico. É realizado com solução à base de lidocaína a 2%, 0,5mL sem vasoconstritor e dexametasona (2,5 mg/0,5mL), sendo descritos relatos de sucesso

no controle dos sintomas<sup>2,7,8</sup>. O bloqueio anestésico proporciona alívio imediato da dor em pacientes com vários tipos de cefaleias. Além disso, seu efeito analgésico tem duração maior do que a anestesia em si, de forma que os pacientes apresentam alívio da dor por várias semanas ou meses. Esse efeito prolongado da anestesia após bloqueio periférico pode estar relacionado a um efeito na modulação central da dor. Os bloqueios anestésicos têm sua indicação em algumas cefaleias primárias, cefaleias secundárias e neuralgias cranianas. É necessária cautela em certas populações de pacientes, incluindo gestantes, idosos, alérgicos às substâncias utilizadas, história de episódios vasovagais anteriores e uso de anticoagulantes. Os bloqueios anestésicos periféricos descritos abrangem injeções nos nervos occipital maior, menor, supratroclear, supraorbital e auriculotemporal<sup>17</sup>. As complicações relatadas incluem dor, sangramento, infecção e injeção intravascular<sup>3</sup>.

Para investigar eficácia analgésica e tolerabilidade ao tratamento farmacológico, foram selecionados 200 pacientes com neuralgia trigeminal (NT) clássica. Em 100 indivíduos, foi iniciado o uso de carbamazepina (CBZ) e, nos 100 restantes, oxycarbamazepina (OXC). A resposta à CBZ ocorreu em 98%, com dose média de 600 mg (200–1200), sendo de 94% a resposta à OXC, com dose média de 1200 mg (600–1800). Em um período de aproximadamente 8,6 meses, 27% dos que responderam à CBZ apresentaram efeitos adversos importantes, sendo necessária a suspensão da droga ou redução a níveis insatisfatórios. Após 13 meses, o mesmo ocorreu em 18% dos respondentes à OXC. Entre os pacientes com boa resposta inicial, apenas 3 indivíduos que fizeram uso de CBZ e 2 de OXC desenvolveram resistência tardia. Durante o curso da doença, os paroxismos pioraram em intensidade em 3% dos pacientes e a duração destes aumentou em 2%. Não foram observadas, no período de 7 anos, manifestações clínicas de déficit sensorial em nenhum paciente. Com base em evidências disponíveis, a CBZ ou OXC são consideradas como primeira opção terapêutica<sup>18,19</sup>.

Em estudo retrospectivo recente com 72 pacientes portadores de NT clássica, a CBZ foi altamente efetiva em 60,8% dos casos em longo prazo, utilizando-se dose de manutenção. Outros fármacos foram empregados em casos mais refratários, incluindo gabapentina, que aliviou os sintomas por uma média de 13 meses. O bloqueio alcoólico do nervo foi realizado em 30% dos pacientes que deixaram de responder à combinação de CBZ e gabapentina, apresentando controle adicional da dor com duração média de 18 meses. Vinte e três por cento dos pacientes necessitaram de neurectomia periférica<sup>20</sup>.

Considerando-se o caso em questão, no qual não havia fatores etiológicos secundários subjacentes, optou-se pela CBZ como primeira opção terapêutica. Além disso, apesar de a literatura afirmar que o bloqueio anestésico pode ser considerado uma decisão clínica inicial, fatores como características da dor, idade do paciente e a possibilidade de resposta a uma terapia conservadora foram analisados.

## CONCLUSÃO

O caso descrito mostra que a NAT possui apresentação clínica semelhante àquela de outras neuralgias. O diagnóstico dessa rara condição é obtido principalmente pela análise das características da dor e exclusão de possíveis causas secundárias.

## REFERÊNCIAS

1. Benoliel R, Eliav E. Neuropathic orofacial pain. *Oral Maxillofac Surg Clin North Am.* 2008;20(2):237-54.
2. Speciali JG, Gonçalves DA. Auriculotemporal neuralgia. *Curr Pain Headache Rep.* 2005;9(4):277-80.
3. Gadiant PM, Smith JH. The neuralgias: diagnosis and management. *Curr Neurol Neurosci Rep.* 2014;14(7):459.
4. Janis JE, Hatef DA, Ducic I, Ahmad J, Wong C, Hoxworth RE, et al. Anatomy of the auriculotemporal nerve: variations in its relationship to the superficial temporal artery and implications for the treatment of migraine headaches. *Plast Reconstr Surg.* 2010;125(5):1422-8.
5. Komarmitki I, Andrzejczak-Sobocińska A, Tomczyk J, Deszczyńska K, Cizek B. Clinical anatomy of the auriculotemporal nerve in the area of the infratemporal fossa. *Folia Morphol.* 2012;71(3):187-93.
6. Dias GJ, Koh JM, Cornwall J. The origin of the auriculotemporal nerve and its relationship to the middle meningeal artery. *Anat Sci Int.* 2015;90(4):216-21.
7. Murayama RA, Stuginski-Barbosa J, Moraes NP, Speciali JG. Toothache referred from auriculotemporal neuralgia: case report. *Int Endod J.* 2009;42(9):845-51.
8. Stuginski-Barbosa J, Murayama RA, Conti PC, Speciali JG. Refractory facial pain attributed to auriculotemporal neuralgia. *J Headache Pain.* 2012;13(5):415-7.
9. Levin M. Nerve Blocks in the treatment of headache. *Neurotherapeutics.* 2010;7(2):197-203.
10. The International Classification of Headache Disorders, 3<sup>rd</sup> ed. (beta version). *Cephalalgia.* 2013;33(9):629-808.
11. Olesen J, Marie-Germaine B. The International Classification of Headache Disorders 2<sup>nd</sup> ed. *ICHD-II. Headache.* 2004;48(5):691-3.
12. Pareja JA, Pareja J, Yangüela J. Nummular headache, trochleitis, supraorbital neuralgia, and other epicranial headaches and neuralgias: the epicranias. *J Headache Pain.* 2003;4(3):125-31.
13. Ansari H, Robertson CE, Lane JJ, Viozzi CF, Garza I. Auriculotemporal neuralgia secondary to TMJ synovial cyst: A rare presentation of a rare entity. *Headache.* 2013;53(10):1662-5.
14. Shimokawa T, Akita K, Sato T, Ru F, Yi SQ, Tanaka S. Penetration of muscles by branches of the mandibular nerve: a possible cause of neuropathy. *Clin Anat.* 2004;17(1):2-5.
15. Schmidt BL, Pogrel MA, Necoechea M, Kearns G. The distribution of the auriculotemporal nerve around the temporomandibular joint. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod.* 1998;86(2):165-8.
16. Lemos L, Fontes R, Flores S, Oliveira P, Almeida A. Effectiveness of the association between carbamazepine and peripheral analgesic block with ropivacaine for the treatment of trigeminal neuralgia. *J Pain Res.* 2010;3:201-12.
17. Blumenfeld A, Ashkenazi A, Napchan U, Bender SD, Klein BC, Berliner R, et al. Expert consensus recommendations for the performance of peripheral nerve blocks for headaches—a narrative review. *Headache.* 2013;53(3):437-46.
18. Di Stefano G, La Cesa S, Truini A, Cruccu G. Natural history and outcome of 200 outpatients with classical trigeminal neuralgia treated with carbamazepine or oxcarbazepine in a tertiary centre for neuropathic pain. *J Headache Pain.* 2014;15(1):34.
19. Cruccu G, Truini A. Refractory trigeminal neuralgia: non-surgical treatment options. *CNS Drugs.* 2013;27(2):91-6.
20. Yadav S, Mittal HC, Sachdeva A, Verma A, Dhupar V, Dhupar A. A retrospective study of 72 cases diagnosed with idiopathic trigeminal neuralgia in Indian populace. *J Clin Exp Dent.* 2015;7(1):e40-4.