

SÍNDROME DA BOCA ARDENTE

BURNING MOUTH SYNDROME

Autores:

José Diogo Silva¹, Ana Marta Pinto¹

RESUMO

Introdução: A síndrome da boca ardente é uma entidade clínica crónica, idiopática, pouco compreendida, manifestando-se por dor, ardor, parestesia, disestesia ao nível da cavidade oral e xerostomia, com impacto significativo na qualidade de vida dos doentes. É uma patologia comum, geralmente observada em mulheres na peri e pós-menopausa, afetando homens com uma menor frequência. O diagnóstico é clínico e de exclusão de potenciais causas orgânicas que justifiquem a sintomatologia do doente. A associação com algumas patologias psiquiátricas, como a depressão e a ansiedade tem sido observada.

Descrição do caso: Homem, 71 anos de idade, raça caucasiana, reformado, com antecedentes de insónia intermédia e perturbação de ansiedade generalizada iniciou quadro de ardor ao nível da cavidade oral, disgeusia, xerostomia e sensação de corpo estranho ao nível da orofaringe em junho de 2010, associado a pirose. Foi excluída patologia do foro gastrointestinal em consulta de Gastroenterologia e a terapêutica com inibidores da bomba de prótons, entretanto instituída, não conferiu alívio sintomático. O doente permaneceu com períodos intermitentes de queixas referidas ao nível da cavidade oral, essencialmente em períodos de agudização da patologia ansiosa. Foi medicado com loflazepato de etilo 2 mg em esquema *pro re nata* e cloxazolam 2 mg, um comprimido ao deitar, com diminuição da frequência e intensidade da sintomatologia ansiosa e oral. Em abril de 2017, na sequência de problemas familiares, ocorreu agravamento das queixas orofaríngeas e tornou-se mandatária a observação em consulta de Otorrinolaringologia. Foi realizado o diagnóstico de síndrome da boca ardente e iniciado tratamento com amitriptilina 10 mg, um comprimido ao deitar, com controlo das queixas do doente.

Comentário: A pertinência deste caso clínico foca-se na complexa abordagem da síndrome da boca ardente, no difícil diagnóstico, tratamento, na cronicidade da sintomatologia quando não tratada e no claro impacto na qualidade de vida do doente.

Palavras-chave: síndrome da boca ardente; fisiopatologia; diagnóstico; tratamento

ABSTRACT

Introduction: Burning mouth syndrome is a chronic, idiopathic, poorly understood clinical disease, manifested by pain, burning sensation, paraesthesia, dysaesthesia in the oral cavity and xerostomia, with a significant impact on patients' quality of life. It is a common pathology, usually seen in peri and post-menopause women, affecting men less frequently. Its diagnosis is clinical and excludes potential organic causes that could justify the patient's symptoms. The association with some psychiatric diseases, such as depression and anxiety, has been observed.

Case description: Male, 71 years old, Caucasian, retired, with a history of generalized anxiety disorder and intermediate insomnia, started with mouth burning sensation, dysgeusia, xerostomia and foreign body sensation in the oropharynx in June 2010, associated with heartburn. Gastrointestinal pathology was excluded in Gastroenterology consultation, and therapy with proton pump inhibitors, meanwhile instituted, didn't confer symptomatic relief. The patient remained with intermittent periods of symptoms related to the oral cavity, essentially in periods of exacerbation of the anxious pathology. He was medicated with 2 mg of ethyl loflazepate in *pro re nata* scheme and 2 mg of cloxazolam (a pill at bedtime), with a decrease in the frequency and intensity of anxious and oral symptoms. In April 2017, due to family issues, there was an exacerbation of oropharyngeal symptoms and the evaluation in an Otorhinolaryngology consultation became mandatory. The diagnosis of burning mouth syndrome was made and treatment was started with 10 mg of amitriptyline (a pill at bedtime), with control of patient's symptoms.

Comment: The relevance of this clinical case focuses on the complex management of the burning mouth syndrome, the difficult diagnosis and treatment, the chronicity of symptoms

Keywords: burning mouth syndrome; pathophysiology; diagnosis; treatment

1. Médico(a) Interno(a) de Formação Específica em Medicina Geral e Familiar, USF Terras de Souza, ACeS Tâmega II - Vale do Sousa Sul

INTRODUÇÃO

A síndrome da boca ardente é uma condição clínica crónica que cursa com dor, ardor, parestesia, disestesia ao nível da cavidade oral e xerostomia, de natureza muitas vezes idiopática e cuja fisiopatologia ainda não é bem compreendida. É uma patologia comum, geralmente observada em mulheres na peri e pós-menopausa, afetando homens com uma menor frequência. Estima-se que a sua prevalência ronde os 4% e existe uma forte associação com o avançar da idade. Os sintomas surgem numa mucosa oral muitas vezes saudável e sem que exista uma causa evidente que os justifiquem. O início da sintomatologia é geralmente abrupto, contudo existem situações clínicas de instalação insidiosa ao longo do tempo.¹⁻³

A inespecificidade de alguma da sintomatologia apresentada pelos doentes reforça a importância de uma história clínica cuidada para se concretizar o diagnóstico. A sensação de ardor ao nível da mucosa oral é, de facto, a mais reportada, mas esta entidade clínica pode apresentar-se com múltipla sintomatologia desde prurido, parestesias, disestesia ao nível da mucosa oral e língua até disgeusia e xerostomia. As manifestações clínicas podem ainda estender-se às gengivas, lábios e orofaringe. A grande maioria dos doentes apresenta a tríade de dor ou parestesia na mucosa oral, disgeusia e xerostomia, mas podem surgir outros sintomas como cefaleia, sede, dor na articulação temporomandibular e nos músculos masseter, do pescoço e ombro.^{1, 4-6}

A presença dos sintomas ao longo do dia, a sua intensidade e duração variáveis permitem classificar a síndrome da boca ardente em três sub-tipos:

- O tipo 1 tendencialmente não apresenta sintomatologia matinal, existindo agravamento progressivo das queixas ao longo do dia e surgindo, por vezes, associado a doenças sistémicas como a diabetes *mellitus* e algumas deficiências nutricionais;

- O tipo 2 surge, geralmente, associado a patologia psiquiátrica como as perturbações da ansiedade, com sintomas relativamente constantes ao longo do dia, mas sem sintomas noturnos;

- O tipo 3 apresenta um padrão distinto, onde a sintomatologia é, muitas vezes, intermitente no que respeita à sua intensidade, cursando até com períodos assintomáticos que alternam com períodos de manifestações mais exuberantes. Associa-se por vezes a reações alérgicas.^{1, 7}

A síndrome da boca ardente pode ainda ser classificada em primária/idiopática quando não é possível identificar uma etiologia plausível ou em secundária

se tal se concretizar. As causas secundárias mais frequentemente identificadas dizem respeito a défices nutricionais (vitamina B, zinco, ferro, ácido fólico e tiamina), efeitos laterais de alguns fármacos, infeções da cavidade oral, patologia endócrina (diabetes *mellitus*; hipo e hipertiroidismo), síndrome para-neoplásico, intolerâncias alimentares e alergias, agentes irritantes da mucosa oral, refluxo gastroesofágico, disfunção das glândulas salivares e utilização de próteses dentárias.²⁻⁵

A etiologia desconhecida desta síndrome e o envolvimento de múltiplos fatores desencadeantes tornam difícil a sua compreensão, diagnóstico e tratamento.⁸

O caso clínico que se descreve demonstra a diversidade de sintomatologia associada a esta patologia, muitas vezes confundidora, a dificuldade diagnóstica a ela inerente e o forte papel dos fatores psicológicos e sociais. A necessidade de um diagnóstico correto e a instituição de tratamento precoce são fundamentais. Aumentar o conhecimento da comunidade médica sobre a mesma são a motivação deste caso clínico.

DESCRIÇÃO DO CASO

Doente do sexo masculino, com 71 anos de idade, raça caucasiana, reformado, vive com a esposa, um neto e uma neta. Apresenta classificação social de *Griffar IV* e antecedentes de excesso de peso, patologia degenerativa da coluna lombar, hipertensão arterial, insónia intermédia e perturbação de ansiedade generalizada. Iniciou quadro de agravamento da sintomatologia ansiosa em 2009, após prisão do seu filho mais novo e, em junho de 2010, assume a guarda dos seus netos. Após alteração da estrutura familiar surgem queixas de ardor ao nível da cavidade oral a que se associa disgeusia, xerostomia, pirose e sensação de corpo estranho ao nível da orofaringe de instalação progressiva. Sem alterações ao nível do exame objetivo da orofaringe. Foi medicado com 20 mg de esomeprazol, um comprimido em jejum, durante seis meses, por provável doença de refluxo gastroesofágico, sem melhoria da sintomatologia. A manutenção das queixas do doente motivou o recurso a múltiplas consultas ao nível dos Cuidados de Saúde Primários (CSP). Para esclarecimento etiológico realizou endoscopia digestiva alta que se revelou normal. Dada a manutenção e persistência da clínica, com sintomatologia variável e confundidora, onde o doente alternava queixas da cavidade oral com queixas dispépticas, em 2012 foi referenciado

para consulta externa de Gastroenterologia no hospital da sua área de residência em outubro desse mesmo ano. No âmbito dessa consulta realizou novo estudo endoscópico (sem alterações) e foi-lhe aumentada a dose de esomeprazol para 40 mg/dia. Após exclusão de patologia do foro gastroenterológico teve alta da consulta.

O doente permaneceu com períodos intermitentes de queixas referidas ao nível da cavidade oral, essencialmente em períodos de agudização da patologia ansiosa. Foi excluída patologia orgânica e foi medicado com loflazepato de etilo 2 mg em esquema *pro re nata* e cloxazolam 2 mg, um comprimido ao deitar, pela sua médica de família, com diminuição da frequência e intensidade das crises ansiosas e da sintomatologia oral. Em abril de 2017, na sequência de problemas familiares, ocorre agravamento das queixas orais. Pela persistência das mesmas, apesar da terapêutica ansiolítica instituída, o doente foi orientado para consulta externa de Otorrinolaringologia, tendo sido realizado o diagnóstico de síndrome da boca ardente e iniciado tratamento com amitriptilina 10 mg, um comprimido ao deitar, com controlo temporário das queixas orais crónicas do doente. No seguimento de problemas familiares e comportamento disruptivo dos netos, parte integrante do agregado familiar, ocorreu novo agravamento clínico em maio de 2018, com recurso frequente a consultas na Unidade de Saúde Familiar. A situação familiar foi sinalizada à Assistente Social do Agrupamento de Centros de Saúde (ACeS) e à Comissão de Proteção de Crianças e Jovens, o que culminou na institucionalização da sua neta por substituição. O doente iniciou sertralina 50 mg (um comprimido de manhã) e foi referenciado para consulta de Psicologia do ACeS. O seu neto foi referenciado para consulta de Pedopsiquiatria e Psicologia em 2019, com melhoria comportamental e do seu relacionamento com os avós. O doente mantém a terapêutica farmacológica e apoio psicológico, com controlo da sintomatologia.

Uma análise retrospectiva de todo o desenvolvimento da sintomatologia do doente ao longo do tempo, do seu ambiente familiar e dos acontecimentos de vida permite compreender a evolução clínica, o envolvimento de múltiplos fatores biopsicossociais e o sofrimento do doente.

COMENTÁRIO

A síndrome da boca ardente é uma condição clínica crónica, de difícil diagnóstico e tratamento, com claro impacto na qualidade de vida dos doentes e ainda não totalmente compreendida.

A etiologia desconhecida desta síndrome perpetuou o desenvolvimento de diversas teorias sobre os aspetos fisiopatológicos desta entidade. Patologia infecciosa (*Enterobacterias, Candida e Helicobacter pylori*) pode preceder o início da sintomatologia oral. Variações hormonais, especialmente dos níveis de estrogénio, parecem poder ter um papel importante, sendo que o aumento da incidência na peri-menopausa corrobora esta hipótese. Fatores neurológicos, em particular a neuropatia, foram documentados nestes doentes. Alguns estudos, apontam os fatores imunológicos, em particular os níveis salivares de imunoglobulina A e alguns agentes alergénicos como tendo um papel etiológico. Foram identificados alguns doentes com síndrome da boca ardente despoletado pela utilização de agentes irritantes da mucosa oral, onde uma lesão física pode originar e perpetuar um processo inflamatório crónico mesmo após a remoção da exposição ao agente causal.^{9,10} Foi ainda encontrada associação entre a utilização de algumas classes farmacológicas (antagonistas dos recetores da angiotensina II, antirretrovirais, anticonvulsivantes e hormonas tiroideias sintéticas) e o desenvolvimento de sintomas.¹¹

Existem inúmeros fatores que podem contribuir para o início e manutenção da sintomatologia da cavidade oral, mas isoladamente não são suficientes para essa concretização. A teoria multifatorial, com sinergismos de estímulos diversos, parece ser a mais robusta, onde a conjugação do biopsicossocial permite compreender a evolução clínica. Aqui, os fatores psíquicos têm um grande impacto, podem exacerbar os sintomas e são aqueles mais bem documentados. A associação com as perturbações do humor, síndromes depressivas e perturbação de ansiedade generalizada é evidente.⁷ No caso clínico apresentado é notória a contribuição de diferentes fatores, em particular o papel da componente psicológica e social.

A existência de discrepância entre a intensidade da sintomatologia apresentada e a ausência de alterações ao nível da mucosa oral dificulta o diagnóstico, sendo este clínico e apenas estabelecido após exclusão de potenciais causas orgânicas. Os diferentes sintomas apresentados pelo doente, a intermitência e oscilação de intensidade das queixas dificultaram e atrasaram a identificação da doença. A associação com algumas patologias psiquiátricas frequentes como a depressão e ansiedade devem fazer pensar nesta entidade. O exame objetivo da mucosa oral revela-se quase sempre normal, contudo podem existir fenómenos compatíveis com glossite de diferentes etiologias e língua geográfica. Um exame objetivo

normal deve fazer pensar em sintomatologia secundária a patologia sistêmica como anemia, diabetes *mellitus*, défices de ácido fólico, ferro, vitamina B12 e zinco. Para exclusão de patologia sistêmica o estudo dos seguintes parâmetros analíticos deve ser equacionado: hemoleucograma com plaquetas, velocidade de sedimentação, ionograma, ferro, ferritina, saturação da transferrina, capacidade de fixação do ferro, ácido fólico, vitamina B12, glicemia em jejum e estradiol (na mulher). Na suspeita de outras causas secundárias pode ser útil a realização de testes cutâneos para despiste de alergias, o estudo da função das glândulas salivares, o exame cultural de fungos para isolamento de algumas espécies de *Candida* que podem colonizar a mucosa oral ou o estudo de outras patologias sistêmicas.^{1,12,13}

O tratamento da síndrome da boca ardente tem como objetivo melhorar a sintomatologia referida pelo doente e otimizar o seu estado emocional. Por se tratar de uma patologia crónica e com sucesso terapêutico muito variável, importa numa fase inicial informar adequadamente o doente e gerir expectativas quanto ao tratamento. É importante uma abordagem multidisciplinar, cooperativa e mutuamente complementar, onde diferentes estratégias terapêuticas podem e devem ser implementadas precocemente.

O atraso diagnóstico e consequente atraso terapêutico acarreta a perpetuação de um ciclo vicioso de sintomatologia, por vezes agudizada não só por fatores biológicos, mas também por fatores psicossociais e familiares.

O tratamento inclui o alívio sintomático e, quando necessários, a correção de défices vitamínicos, controlo de patologia sistêmica e tratamento psicofarmacológico. Numa fase inicial este passa por educar o doente quanto à natureza da doença, otimizar a higiene oral e evitar a xerostomia e a dor ao nível da mucosa oral com hidratação frequente, evicção de alimentos salgados, açucarados, de álcool e tabaco e com recurso à utilização de sucralfato, ácido alfa-lipóico e capsaicina. A terapêutica farmacológica com fármacos benzodiazepínicos como o clonazepam, antidepressivos tricíclicos como a amitriptilina, antipsicóticos como a quetiapina e anticonvulsivantes como a gabapentina e pregabalina revelaram-se eficazes no controlo da patologia psiquiátrica associada a esta síndrome, com melhoria da sintomatologia oral e da qualidade de vida. Algumas terapêuticas adjuvantes como a acupuntura e a terapia cognitivo-comportamental revelaram-se benéficas em alguns doentes, especialmente se existir um componente

psicológico importante. Sem tratamento a remissão da doença é rara.^{1-3,5,8,13,14}

No caso clínico exposto o controlo da patologia ansiosa com recurso a fármacos ansiolíticos e antidepressivos revelou-se fundamental na diminuição do sofrimento do doente, assim como o apoio psicológico e a resolução da situação familiar e social. De realçar que até ao estabelecimento do diagnóstico e respetivo tratamento houve recurso a múltiplas consultas ao nível dos CSP, com sintomatologia recorrente, achados negativos em todos os meios complementares de diagnóstico solicitados e o insucesso terapêutico numa fase inicial, o que obrigou a referência para os cuidados de saúde secundários. Tornou-se evidente que para uma melhor compreensão desta entidade clínica e do caso clínico exposto foi fundamental uma abordagem holística. O investimento no conhecimento do agregado familiar, da sua disfunção evidente e disrupção iminente, facilitou a abordagem terapêutica e permitiu controlar a sintomatologia do doente através do controlo da patologia psiquiátrica de base e resolução dos problemas familiares.

A ausência de um conhecimento profundo sobre esta síndrome torna clara a necessidade de investigações futuras e sua divulgação pela comunidade médica e científica.

Uma reflexão sobre o papel do médico de família na orientação do caso apresentado evidencia a importância de uma avaliação familiar e social em todas as situações onde persista sintomatologia inespecífica e sobre utilização dos cuidados de saúde, procurando uma compreensão global de todos os fatores que contribuem para o estado de saúde ou doença dos seus utentes, e assim otimizando continuamente a gestão da sua saúde.



REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS:

- 1- Coculescu C, Radu A, Coculescu B. Burning mouth syndrome: a review on diagnosis and treatment. *J Med Life*. 2014; 7(4):512-5.
- 2- Verenzuela C, Davis M, Bruce A, Torgerson R. Burning Mouth Syndrome: results of screening tests for vitamin and mineral deficiencies, thyroid hormone, and glucose levels - experience at Mayo Clinic over a decade. *Int J Dermat*. 2017; 56(9):952-6.
- 3- Torgerson R. Burning Mouth Syndrome. *Dermatol Ther*. 2010; 23(3):291-8.
- 4- Evans R, Drage L. Burning Mouth Syndrome. *Headache*. 2005; 45(8):1079-81.
- 5- Torgerson R, Davis M, Bruce A, Farmer S, Rogers R. Contact allergy in oral disease. *J Am Acad Dermatol*. 2007; 57(2):315-21.
- 6- Kim Y, Yoo T, Han P, Liu Y, Inman JC. A pragmatic evidence-based clinical management algorithm for burning mouth syndrome. *J Clin Exp Dent*. 2018; 10(4):321-6.
- 7- Bookout GP, Short RE. Burning Mouth Syndrome. *StatPearls*. 2019
- 8- Hakeem A, Fitzpatrick SG, Bhattacharyya I. Clinical characterization and treatment outcome of patients with burning mouth syndrome. *Gen Dent*. 2018; 66(3):41-7.
- 9- Alnazzawi A. Effect of Fixed Metallic Oral Appliances on Oral Health. *J Int Soc Prev Community Dent*. 2018; 8(2):93-8.
- 10- Shinoda M, Noma N. Pathophysiology and treatment of orofacial pain.

Clin Calcium. 2017; 27(10):1375-82.

11- Acharya S, Hägglin C, Jontell M, Wenneberg B, Ekström J, Cårlen A. Saliva on the oral mucosa and whole saliva in women diagnosed with burning mouth syndrome. *Oral Dis*. 2018; 24(8):1468-76.

12- Steele J. The practical evaluation and management of patients with symptoms of a sore burning mouth. *Clin Dermatol*. 2016; 34(4):449-57.

13- Ho C, Khan S, Garza I. Overview of craniofacial pain. UpToDate. 2020 [consultado em setembro 2020]. Disponível em https://www.uptodate.com/contents/overview-of-craniofacial-pain?search=burning%20mouth%20syndrome&source=search_result&selectedTitle=1-18&usage_type=default&display_rank=1

14- Souza I, Mármora B, Rados P. Treatment modalities for burning mouth syndrome: a systematic review. *Clin Oral Invest*. 2018; 22(5):1893-905.

CONFLITOS DE INTERESSE:

Os autores declaram não existir qualquer conflito de interesse no âmbito do estudo desenvolvido.

CORRESPONDÊNCIA:

José Diogo Ribeiro Pereira da Silva
jose.diogo.silva777@hotmail.com

RECEBIDO: 03 de julho de 2020 | ACEITE: 13 de outubro de 2020