

Relato de Caso

Síndrome de Lemierre Devido a Infecção por *Staphylococcus aureus* e Apresentando Celulite Periorbital e Paralisia Bilateral do Nervo Abducente

Lara Linhares Pierre ¹, Ana Camille Feijão Cisne ¹, Lucas Linhares Pierre ¹, Paulo de Tarso Ponte Pierre-Filho ^{2,*}

¹ Faculdade de Medicina Uninta, Sobral, Ceará, Brasil.

² Departamento de Oftalmologia, Hospital Regional Norte, Sobral, Ceará, Brasil.

* Correspondência: paulopierre@hotmail.com.

Citação: Pierre LL, Cisne ACF, Pierre LL, Pierre-Filho PTP. Síndrome de Lemierre Devido a Infecção por *Staphylococcus aureus* e Apresentando Celulite Periorbital e Paralisia Bilateral do Nervo Abducente. Brazilian Journal of Case Reports. 2025 Jan-Dec;05(1):bjcr59.

<https://doi.org/10.52600/2763-583X.bjcr.2025.5.1.bjcr59>

Recebido: 3 Dezembro 2024

Aceito: 17 Janeiro 2025

Publicado: 18 Janeiro 2025

Resumo: A síndrome de Lemierre é uma condição incomum e potencialmente fatal, caracterizada por infecção na cabeça ou no pescoço, trombose/tromboflebite da veia jugular interna e embolização séptica para órgãos distantes. Este relato de caso descreve um paciente masculino de 56 anos que realizou a drenagem caseira de uma espinha, resultando em celulite periorbital com progressão para trombose da veia jugular interna e embolia séptica. O exame oftalmológico revelou paralisia bilateral do nervo abducente. A hemocultura foi positiva para *Staphylococcus aureus*. O manejo incluiu o uso de antibióticos de amplo espectro e anticoagulação, com resposta satisfatória ao tratamento. A síndrome de Lemierre deve ser suspeitada em pacientes com bacteremia e imagens radiológicas de embolia pulmonar ou trombose/tromboflebite da veia jugular interna, mesmo na ausência de sinais e sintomas de infecção orofaríngea. Além disso, patógenos incomuns devem ser considerados com base na suspeita da fonte primária de infecção.

Palavras-chave: Síndrome de Lemierre; Paralisia do Nervo Abducente; *Staphylococcus aureus*; Trombose; Embolia Séptica.



Copyright: This work is licensed under a Creative Commons Attribution 4.0 International License (CC BY 4.0).

1. Introdução

A síndrome de Lemierre (LS) é uma condição com risco de vida, classicamente definida por tromboflebite da veia jugular interna, bacteremia e embolia séptica, manifestando-se como complicação de uma infecção bacteriana na região da cabeça e pescoço – tipicamente, uma faringotonsilite ou abscesso. No entanto, formas incomuns do distúrbio têm sido raramente relatadas. Casos atípicos de LS envolvendo tromboflebite séptica da veia facial, veia jugular externa e veia oftálmica superior também foram descritos [1]. A bactéria mais frequentemente envolvida é a anaeróbia obrigatória gram-negativa *Fusobacterium necrophorum*, mas outros microrganismos, como *Streptococcus viridans*, *Staphylococcus aureus*, *Haemophilus influenzae* e *Klebsiella pneumoniae*, têm sido raramente associados.

Descrita pela primeira vez por André Lemierre em 1936 e publicada na Lancet, a LS é rara, com uma incidência relatada de cerca de 0,8 a 1,5 casos por milhão de pessoas por ano em todo o mundo, ocorrendo mais frequentemente em crianças e jovens adultos previamente saudáveis [2,3]. É uma condição que pode apresentar alta morbidade e mortalidade. Se não tratada, a LS resulta em uma taxa de mortalidade de 90%. Mesmo com antibióticos e terapia apropriados, a mortalidade varia entre 2% e 5%. Em apenas cerca de 1% dos casos, infecções orbitais foram identificadas como desencadeadoras da LS [4].

Desde o advento dos antibióticos na década de 1940, o número de casos descritos de LS caiu significativamente; no entanto, um aumento na frequência a partir da década de 1970 levou à conclusão de que pode ser uma doença reemergente. A causa desse aumento permanece incerta, mas melhorias nas técnicas de imagem para diagnóstico e o aumento da resistência, prescrição excessiva e alterações nas prescrições de antibióticos para faringotonsilite podem ser hipóteses para essa observação. Recentemente, casos de LS sem infecção orofaríngea também foram relatados [3-6], principalmente associados à celulite periorbital. Os sinais oculares e neuro-oftalmológicos são incomuns na LS [7]. A celulite periorbital é frequentemente uma infecção localizada; no entanto, raramente pode levar a consequências graves, incluindo perda de visão e embolia séptica, se não tratada. Material infectado pode penetrar na corrente sanguínea e disseminar-se para locais distantes, resultando em infecção de outros órgãos, incluindo pulmões, articulações, baço, rins, cérebro, fígado e coração, levando a complicações graves.

Descrevemos uma grave complicação em um paciente que, durante sua rotina, espremeu uma espinha, resultando em celulite periorbital, com progressão para embolia séptica e paralisia bilateral do nervo abducente. Este caso destaca a importância de detectar sinais precoces de infecção para diagnóstico e tratamento rápidos.

2. Relato de Caso

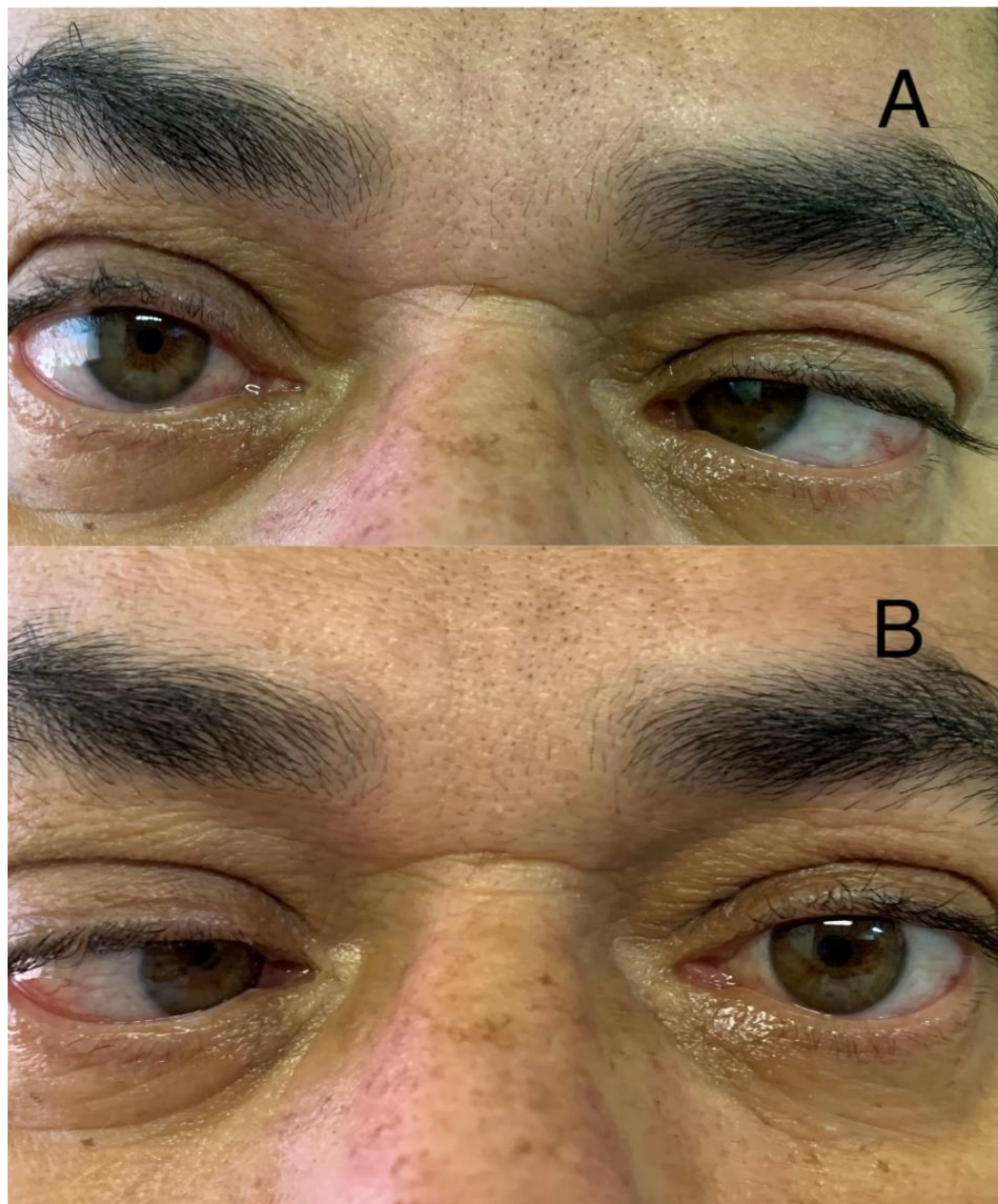
Um homem previamente saudável de 56 anos chegou ao departamento de emergência após apresentar febre, astenia, náusea, dispneia progressiva, dor ao abrir a boca, cefaleia e visão dupla. Ele também relatava dor nos joelhos há 3 dias. O paciente negava histórico prévio de trauma, consumo de tabaco, álcool ou drogas. Ele apresentava há 12 dias piora progressiva de eritema e edema no rosto, que começou após espremer uma espinha no nariz. Cinco dias antes da hospitalização, ele consultou um clínico geral, que diagnosticou celulite periorbital e recomendou tratamento com cefalexina oral 500 mg quatro vezes ao dia e ibuprofeno 200 mg três vezes ao dia por 7 dias; no entanto, os sintomas pioraram.

Na admissão, os sinais vitais mostravam pressão arterial de 121x81 mmHg, temperatura de 38,4°C, frequência cardíaca de 86 bpm e SpO₂ de 92% (ar ambiente). A orofaringe era normal, sem evidência de abscesso parafaríngeo. O exame abdominal não revelou modularidades ou hepatoesplenomegalia. Dados laboratoriais mostraram hemoglobina de 14,1 g/dL (11,5-16,4 g/dL), leucocitose com contagem de leucócitos de 22,1 x 10⁶ células/L (4-10,5 x 10⁶ células/L), neutrófilos de 86% (50-70%), plaquetas de 340 K/μL (140-450 K/μL), tempo de protrombina de 14s (11-13,5s), tempo de tromboplastina parcial ativada de 34,8s (25-35s) e INR de 1,22 (<1,1).

Os marcadores inflamatórios estavam elevados: velocidade de hemossedimentação (VHS) de 136 mm/h e proteína C reativa de 114 mg/L (<10 mg/L). Urocultura foi negativa. Testes para HIV e sorologias para hepatites virais foram realizados devido à natureza atípica da infecção, mas foram negativos. A punção lombar foi normal, e a cultura do líquido cefalorraquidiano não revelou microrganismos.

No exame oftalmológico, o paciente apresentava estrabismo evidente devido à paralisia bilateral do reto lateral (Figura 1). As pupilas eram isocóricas e reativas à luz, sem defeitos pupilares aferentes. A acuidade visual era de 1,0 em ambos os olhos com correção. O exame fundoscópico não revelou sinais de edema do disco óptico bilateralmente. Uma radiografia de tórax mostrou infiltrados bilaterais e densidades nodulares (Figura 2). A tomografia computadorizada (TC) de tórax sem contraste revelou nódulos sólidos nos pulmões, alguns formando cavidades de tamanhos variados; a maior mediu 2,3 cm, consistente com embolia séptica pulmonar (Figura 3). O ecocardiograma descartou vegetações ou trombose em válvulas cardíacas. A ressonância magnética (RM) com angiografia do cérebro confirmou redução de fluxo na veia jugular interna direita, estendendo-se ao seio sigmoide ipsilateral, sugerindo trombose parcial (Figura 4).

Figura 1. O paciente apresentou sinais clínicos de paralisia bilateral do nervo abducente. Como resultado, havia limitação da abdução do olho direito no olhar lateral direito (A) e do olho esquerdo no olhar lateral esquerdo (B).



No segundo dia após a admissão, *Staphylococcus aureus* foi isolado na hemocultura periférica. Foi considerado o diagnóstico de síndrome de Lemierre. O paciente foi inicialmente tratado com antibióticos intravenosos vancomicina (500 mg a cada 6 horas), cefepime (1 g a cada 12 horas) e heparina (5.000 UI/dia), que posteriormente foram ajustados para meropenem (1 g a cada 8 horas), vancomicina (500 mg a cada 12 horas) e enoxaparina subcutânea 60 mg/dia. O tratamento continuou por quatro semanas. Durante esse período, o paciente tornou-se afebril e hemodinamicamente estável, mas a diplopia persistiu.

Os resultados dos exames laboratoriais retornaram a níveis normais, e as hemoculturas estavam estéreis. Imagens repetidas naquele momento mostraram uma redução significativa do processo da doença, e o paciente recebeu alta para casa com clindamicina e

levofloxacino por via oral por duas semanas, além de aspirina oral por seis meses. O paciente foi agendado para consultas médicas ambulatoriais mensais. Patches de oclusão alternados foram utilizados para aliviar os sintomas de diplopia.

Figura 2. Radiografia de tórax anteroposterior mostrando múltiplos infiltrados pulmonares bilaterais, particularmente nas zonas inferiores, consistente com embolia séptica.

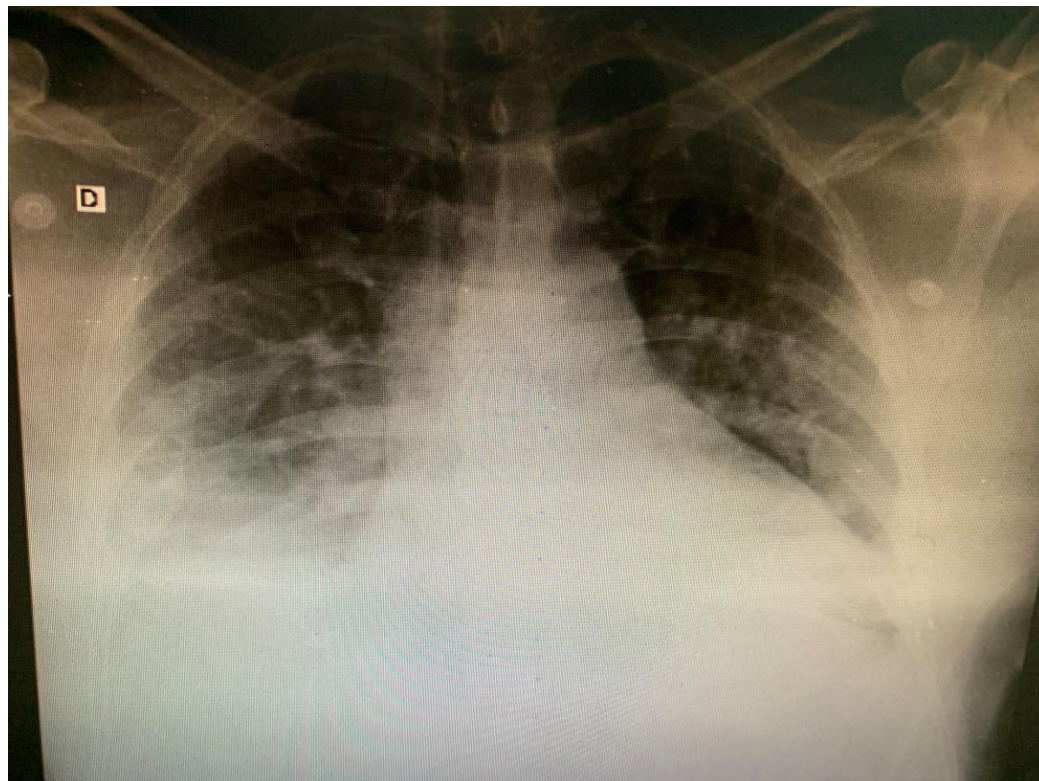
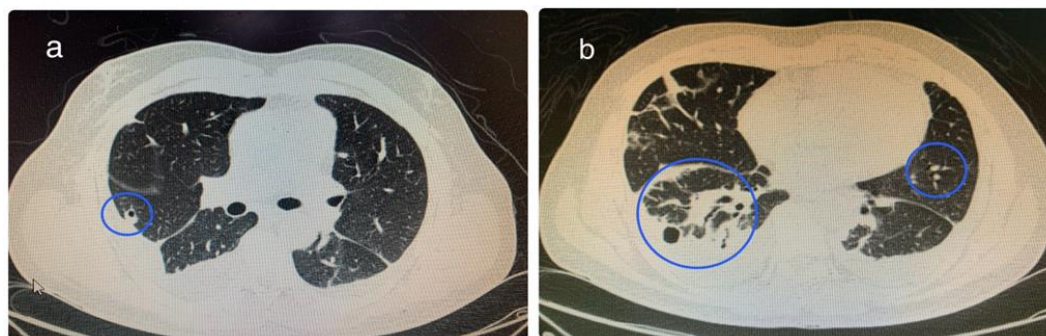


Figura 3. Radiografia de tórax anteroposterior mostrando múltiplos infiltrados pulmonares bilaterais, particularmente nas zonas inferiores, consistente com embolia séptica.



Após seis semanas e com melhora mínima da diplopia e da paralisia do nervo abducente, ele foi tratado com aplicação de Botox® (Allergan, Irvine, CA) nos músculos retos mediais de ambos os olhos (2,5 U - 0,05 ml) sob anestesia tópica. Isso melhorou o alinhamento ocular no olhar primário. A paralisia do nervo abducente recuperou-se gradualmente e, quatro meses depois, o paciente apresentava movimentos oculares normais, sem déficits neurológicos ou achados anormais no exame físico.

Figura 4. Imagem de angio-RM da cabeça e pescoço mostrando defeito de preenchimento na veia jugular interna direita, sugerindo trombose (seta). Além disso, pode-se observar redução do fluxo nos seios sigmoide e transversos direitos devido à trombose.



3. Discussão

Os sintomas oculares na síndrome de Lemierre (LS) são raramente documentados e podem ocorrer com características incomuns. Neste caso, o paciente inicialmente apresentou sinais e sintomas típicos de celulite periorbital, incluindo inchaço, vermelhidão e dor periorbital após a drenagem de uma espinha no interior do nariz. A acuidade visual permaneceu intacta. Ele atende aos critérios diagnósticos de LS, que incluem hemoculturas positivas para *Staphylococcus aureus*, evidência de trombose da veia jugular interna (VJI)

em exames de imagem e infecção metastática nos pulmões. Assim como no nosso caso, Newman et al. descreveram um caso de LS originado de celulite pré-septal causada por *Staphylococcus aureus*, sem evidência de faringite precedente [5]. Além disso, nosso paciente apresentou paralisia bilateral do nervo abducente e diplopia. Elhakeen et al. também relataram um caso atípico de celulite orbital secundária a uma infecção facial por *Staphylococcus aureus* após herpes zoster, com trombose parcial das veias facial e oftálmica superior [10].

O sexto nervo craniano é o mais frequentemente acometido entre os nervos motores oculares em adultos. As principais causas de paralisia bilateral do nervo abducente incluem trauma, tumores e lesões vasculares, como aneurismas, acidentes cerebrovasculares e malformações arteriovenosas [8]. Tromboses de veias e seios cerebrais apresentam sintomas e sinais variáveis. A diplopia é o sintoma mais comum em pacientes com paralisia do nervo abducente, como observado em nosso caso. O mecanismo exato da paralisia bilateral do nervo abducente do paciente não é claro. A proximidade do seio cavernoso aos nervos cranianos III, IV, V e VI é de grande importância. Ele provavelmente tinha trombose da VJI do lado direito, que pode ter se estendido para o seio cavernoso direito.

Krezipointner et al. analisaram dados de 27 (3,8%) pacientes com complicações oftalmológicas em uma coorte de 712 pacientes com LS. A trombose da VJI foi encontrada em 21 (78%) e movimentos oculares prejudicados ou paralisia nervosa em 6 (21%) pacientes com complicações oftalmológicas [7]. Recentemente, Vu et al. relataram um caso de tromboflebite séptica resultando em paralisia bilateral do nervo abducente e meningite [11]. Uma revisão da literatura realizada por Kupalli et al. em 2012 mostrou que pacientes com meningite geralmente apresentam desfechos ruins ou déficits neurológicos não resolvidos [12].

O *Staphylococcus aureus* é um cocobacilo gram-positivo oportunista, parte da flora normal da pele, tecidos moles e passagens nasais. É a principal causa de infecções de pele e tecidos moles, além de abscessos sépticos, e emergiu como causa de LS nos últimos anos [3,5,6]. Infecções de tecidos moles em áreas ao redor do nariz e lábio superior (zona de perigo da face) podem ser graves devido à presença de canais venosos sem válvulas [13]. Portanto, furúnculos nesta zona não devem ser traumatizados ou submetidos a pequenas incisões. A infecção provavelmente se espalhou através de pequenas veias faciais e orbitais para os seios durais, levando, por fim, à trombose da VJI, septicemia e embolização séptica resultante. Chanin et al. revisaram 11 casos de LS associados a *Staphylococcus aureus* publicados entre 1965 e 2010. Todos os casos foram publicados após 2002, e todos relataram disseminação metastática para os pulmões; poucos envolveram o sistema nervoso central [14].

O tempo de diagnóstico é um fator prognóstico muito importante. Algumas das anormalidades laboratoriais mais frequentes incluem leucocitose, insuficiência renal leve a grave, marcadores inflamatórios elevados, como proteína C reativa e VHS, trombocitopenia e evidências de coagulação intravascular disseminada. Estas são características conhecidas da fase aguda e da sepse [15]. Diferenciar entre celulite simples e embolia séptica no início da infecção pode ser uma tarefa difícil. A demonstração da infecção é crucial para o diagnóstico correto. Quando a doença é suspeita, exames de imagem devem ser realizados o mais rápido possível para confirmar lesões trombóticas e a presença de abscessos metastáticos em órgãos distantes, enquanto se aguarda os resultados das hemoculturas.

A LS continua sendo uma doença grave mesmo neste milênio. O tratamento é primariamente baseado no manejo médico com fluidos e terapia antimicrobiana. Apesar dos avanços no diagnóstico e tratamento, a mortalidade da LS permanece alta. Antibióticos de amplo espectro não devem ser atrasados, e a duração média do tratamento é de 3-6 semanas para garantir a completa penetração do coágulo fibrinoso e do abscesso [16,17]. A utilidade da terapia anticoagulante na LS é bastante controversa, com incertezas sobre indicações, escolha do agente, dosagem e duração. Devido à raridade dessa síndrome, não existem estudos controlados para validar essa prática. Estudos retrospectivos mostraram

que a anticoagulação pode reduzir eventos tromboembólicos sépticos, mas meta-análises recentes não encontraram relação estatisticamente significativa entre anticoagulação e mortalidade ou recanalização de vasos [20]. Em nosso caso, devido ao comprometimento respiratório súbito, suspeita de trombo na VJI e ausência de potenciais riscos, optou-se pela terapia anticoagulante.

4. Conclusão

As manifestações oftalmológicas da síndrome de Lemierre (LS) podem apresentar sintomas atípicos, como diplopia e estrabismo, caso os nervos cranianos sejam afetados. Este caso ilustra a paralisia bilateral do nervo abducente, uma apresentação incomum da LS, e destaca a importância de considerar patógenos pouco usuais como a etiologia com base na suspeita da fonte primária de infecção. A infecção inicial suspeita foi celulite periorbital mediada por *Staphylococcus aureus*.

Nosso paciente era um homem de meia-idade, imunocompetente, sem doenças predisponentes subjacentes, que respondeu bem ao tratamento intravenoso. O diagnóstico precoce e preciso, por meio da combinação de sintomas clínicos, marcadores inflamatórios, achados de imagem e hemoculturas, pode facilitar o tratamento agressivo e contribuir para um desfecho favorável dessa doença rara, que pode exigir uma abordagem multidisciplinar no cuidado do paciente. Portanto, a LS deve ser suspeitada em pacientes com sinais de sepse e paralisia de nervos cranianos. Pesquisas futuras e ensaios randomizados são necessários para desenvolver diretrizes consensuais para o diagnóstico e tratamento da síndrome de Lemierre.

Financiamento: Nenhum.

Aprovação em Comitê de Ética em Pesquisa: Declaramos que o paciente aprovou o estudo ao assinar um termo de consentimento informado, e o estudo seguiu as diretrizes éticas estabelecidas pela Declaração de Helsinque.

Agradecimentos: Nenhum.

Conflitos de Interesse: Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

Referência

1. Risoud M, Mortuaire G, Chevalier D, Rysman B. Atypical Lemierre syndrome. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis*. 2016 Apr;133(2):123-4. doi: 10.1016/j.anorl.2015.12.001.
2. Dasari SP, Jha P. A Systematic Review of Lemierre's Syndrome With a Focus on Ophthalmologic Complications. *Cureus* 2020;12(7):e9326. doi: 10.7759/cureus.9326.
3. Salami A, Assouan C, Garba I, Konan E. An unusual cause of Lemierre Syndrome. *J Stomatol Oral Maxillofac Surg*. 2019;120(4):358-360. doi: 10.1016/j.jormas.2019.02.009.
4. Branson SV, McClintic E, Yeatts RP. Septic cavernous sinus thrombosis associated with orbital cellulitis: a report of 6 cases and review of literature. *Ophthal Plast Reconstr Surg* 2019;35:272-80.3. doi: 10.1097/IOP.0000000000001231.
5. Newman N, Bantikassegn A, West TG, Peacock JE Jr. An Unusual Etiology of Lemierre-Like Syndrome: Preseptal Cellulitis due to Methicillin-Resistant *Staphylococcus aureus*. *Open Forum Infect Dis* 2022;9(5):ofac143. doi: 10.1093/ofid/ofac143.
6. Kadhiravan T, Piramanayagam P, Banga A, Gupta R, Sharma SK. Lemierre's syndrome due to community-acquired methicillin-resistant *Staphylococcus aureus* infection and presenting with orbital cellulitis: a case report. *J Med Case Rep* 2008;2:374. doi: 10.1186/1752-1947-2-374.
7. Kreuzpointner R, Valerio L, Corsi G, Zane F, Sacco C, Holm K, Righini C, Pecci A, Zweifel S, Barco S. Ophthalmic complications of Lemierre syndrome. *Acta Ophthalmol* 2022;100(1):e314-e320. doi: 10.1111/aos.14871.
8. Durkin SR, Tennekoon S, Kleinschmidt A, Casson RJ, Selva D, Crompton JL. Bilateral sixth nerve palsy. *Ophthalmology* 2006;113(11):2108-9. doi: 10.1016/j.ophtha.2006.06.026.
9. Karkos PD, Asrani S, Karkos CD, Leong SC, Theochari EG, Alexopoulou TD, Assimakopoulos AD. Lemierre's syndrome: A systematic review. *Laryngoscope*. 2009;119(8):1552-9. doi: 10.1002/lary.20542.
10. Elhakeem IA, Al Shokri SD, Elzouki AY, Danjuma MI. An Unusual Case of Modified Lemierre's Syndrome Caused by *Staphylococcus aureus* Cellulitis. *Am J Case Rep* 2020;21:e916575. doi: 10.12659/AJCR.916575.
11. Vu VN, Savino PJ, Robbins SL. Bilateral abducens nerve palsy due to septic thrombophlebitis. *Am J Ophthalmol Case Rep* 2019;16:100566.

12. Kuppalli K, Livorsi D, Talati NJ, Osborn M. Lemierre's syndrome due to *Fusobacterium necrophorum*. *Lancet Infect Dis* 2012;12(10): 808-15. doi: 10.1016/S1473-3099(12)70089-0.
13. Maes U. Infections of the dangerous areas of the face: their pathology and treatment. *Ann Surg* 1937;106(1):1-10. doi: 10.1097/00000658-193707000-00002.
14. Chanin JM, Marcos LA, Thompson BM, Yusen RD, Dunne WM Jr, Warren DK, Santos CA. Methicillin-resistant *Staphylococcus aureus* USA300 clone as a cause of Lemierre's syndrome. *J Clin Microbiol.* 2011;49(5):2063-6. doi: 10.1128/JCM.02507-10.
15. Fumagalli RM, Gloor E, Kaufmann PA, Frehner M, Voci D, Konstantinides SV, Kucher N, Nicoletti TF, Pecci A, Valerio L, Barco S. Common laboratory tests and their correlation with the clinical presentation and prognosis of Lemierre syndrome. *Anaerobe* 2023;83:102773. doi: 10.1016/j.anaerobe.2023.102773
16. Hadjinicolaou AV, Philippou Y. Lemierre's syndrome: a neglected disease with classical features. *Case Rep Med* 2015;2015:846715. doi: 10.1155/2015/846715
17. Lee WE, Jean SS, Chen FL, Hsieh SM, Hsueh PR. Lemierre's syndrome: A forgotten and re-emerging infection. *Journal of Microbiology, Immunology and Infection* 2020;53(4):513-7. doi: 10.1016/j.jmii.2020.03.027.
18. Adedeji A, Chukwura O, Obafemi T, McNulty SB, Reinert JP. Anticoagulation Strategies in the Management of Lemierre Syndrome: A Systematic Review of the Literature. *Ann Pharmacother* 2021;55(5):658-65. doi: 10.1177/1060028020957620.
19. Valerio L, Zane F, Sacco C, Granziera S, Nicoletti T, Russo M, et al. Patients with Lemierre syndrome have a high risk of new thromboembolic complications, clinical sequelae and death: an analysis of 712 cases. *J Intern Med* 2021;289(3):325-39. doi: 10.1111/joim.13114.
20. Gore MR. Lemierre Syndrome: A Meta-analysis. *Int Arch Otorhinolaryngol* 2020;24(3):379-385. doi: 10.1055/s-0039-3402433.
21. Adedeji A, Chukwura O, Obafemi T, McNulty SB, Reinert JP. Anticoagulation Strategies in the Management of Lemierre Syndrome: A Systematic Review of the Literature. *Ann Pharmacother.* 2021 May;55(5):658-665. doi: 10.1177/1060028020957620.