



# Revista Científica do Iamspe

---

**SUPLEMENTO**  
**Relatos de Casos**

---

---

## **Expediente**

---

**Governador do Estado**  
Tarcísio de Freitas

**Secretário de Gestão e Governo Digital**  
Caio Mario Paes de Andrade

**Superintendente Iamspe**  
Wilson Modesto Pollara

**Chefe de Gabinete Iamspe**  
Carla Freitas Nascimento

**Diretoria Iamspe**  
HSPE - "FMO" - Katia Antunes  
Administração - Paulo Sergio Pedrão  
Decam - Antônio Jayme Paiva Ribeiro  
Cedep - Maria Angela de Souza  
Prevenir - Neusa Nakao Sato

---



## Centro de Desenvolvimento de Ensino e Pesquisa (Cedep)

**Diretora:** Maria Angela de Souza

**Editor responsável:** Umberto Gazi Lippi

**Editores associados:** Osiris de Oliveira Camponês do Brasil

Eric Pinheiro de Andrade

Marta Junqueira Reis Ferraz

Maria Angela de Souza

**Editora técnica:** Cleuza de Mello Rangel

### CORPO EDITORIAL

An Wan Ching (Cirurgia Plástica e Queimados )	Juan Carlos Montano Pedrosa (Cirurgia Plástica e Queimados)
Ana Rosa Analia Dreher (Radioterapia)	Luis Augusto Seabra Rios (Urologia)
André Tadeu Sugawara (Medicina Física)	Luiz Augusto Freire Lopes (Mastologia/HU-UFGD)
Andrei Borin (Otorrinolaringologia)	Luiz Henrique de Souza Fontes (Endoscopia)
Antonia Elvira Tonus (Psiquiatria)	Luiz Nadal (Cirurgia Geral e Oncológica)
Audrey Cristina Fiorett (Enfermagem)	Marcello Haddad Ribas (Cirurgia de Cabeça e Pescoço)
Bethânia Cavalli Swiczar (Dermatologia)	Maria Angela de Souza (Nutrologia)
Carlos N. Lehn (Cirurgia de Cabeça e Pescoço)	Maria Elisa Bertoco Andrade (Alergia e Imunologia)
Eduardo Sérgio Fonseca (UFPB)	Maria Emilia Xavier (Oftalmologia)
Cauê Ocaña Demarqui (Cirurgia de Cabeça e Pescoço)	Maria Lucia Baltazar (Psiquiatria)
Daniela Barros de Souza Meira Andrade (Cirurgia Cardíaca)	Marisa T. Patriarca (Ginecologia e Obstetrícia)
Eduardo Lima Pessoa (Radioterapia)	Marta Junqueira Reis Ferraz (Clínica Médica)
Fabiano R. Ribeiro (Ortopedia e Traumatologia)	Mary Carla Estevez Diz (Nefrologia)
Fábio Papa Taniguchi (Cirurgia Cardíaca)	Mauricio de Miranda Ventura (Geriatria)
Fátima Rodrigues Fernandes (Alergia e Imunologia)	Mauro Sergio Martins Marrocos (Nefrologia)
Flavia de S. Gehrke (Biologia Molecular/FMABC)	Paulo César Leonardi (Cirurgia Aparelho Digestivo e Oncologia)
Gizelda M. da Silva (HCOR)	Priscila Kakizaki (Dermatologia)
Heitor Pons Leite (Pediatria Clínica)	Reginaldo G. C. Lopes (Ginecologia e Obstetrícia)
Hudson Ferraz e Silva (Ginecologia e Obstetrícia)	Ricardo Vieira Botelho (Neurocirurgia)
Jaques Waisberg (Gastroclínica/FMABC)	Roberto Bernd (Clínica Médica)
João Manoel Silva Júnior (Anestesiologia)	Silvana Vertematti (Pediatria Clínica)
José Arruda Mendes Neto (Otorrinolaringologia)	Thais Guimarães (Moléstias Infecciosas )
José Garoni Gonçalves Lopes Filho (Oftalmologia)	Werlley de Almeida Januzzi (Cardiologia)
Jose Marcus Rotta (Neurocirurgia)	Xenofonte Paulo Rizzardi Mazini (UNITAU)

Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)  
Av. Ibirapuera, 981 - V. Clementino São Paulo/SP - Brasil - CEP: 04029-000  
[www.iamspe.sp.gov.br](http://www.iamspe.sp.gov.br)

Hospital do Servidor Público Estadual - Francisco Morato de Oliveira (HSPE - FMO)  
Rua Pedro de Toledo, 1800 - V. Clementino São Paulo/SP - Brasil - CEP: 04039-901

Núcleo de Pesquisa e Reciclagem Profissional - Centro de Desenvolvimento de Ensino e Pesquisa (Cedep)  
Av. Ibirapuera, 981 - 2º andar - V. Clementino São Paulo/SP - Brasil - CEP: 04029-000  
Email: [ccientifica@iamspe.sp.gov.br](mailto:ccientifica@iamspe.sp.gov.br)

Coordenação Editorial: Gestão de Comunicação Corporativa

Diagramação: Adriana Rocha

Periodicidade: quadrimestral

A responsabilidade por conceitos emitidos é exclusiva de seus autores.  
Permitida a reprodução total ou parcial desde que mencionada a fonte.

## 6 | Editorial

### Relatos de Casos

- 8 **Preservação de membro inferior com uso do retalho livre (DIEP) bilateral após ressecção de sarcoma de partes moles**  
*Preservation of lower limb with use of bilateral diep free flap (DIEP) after resection of soft tissue sarcoma*  
 Bernardo Luiz Campanário Precht, Maria Beatriz Alves dos Santos Medrado
- 14 **Diagnóstico de sarcoidose após implantação de próteses mamárias de silicone**  
*Diagnosis of sarcoidosis after implantation of silicone breast implants*  
 Priscila Teles Achanjo Neves, Rodrigo Moreira Holcman, José Antônio Cezaretti
- 20 **O uso de aripiprazol nas hiperprolactinemias induzidas por antipsicóticos**  
*The use of aripiprazole in antipsychotic-induced hyperprolactinemia*  
 Gustavo Lacerda da Silva Calestini, Renata Steiner Bettiol, Evandro de Souza Portes
- 27 **Mesotelioma maligno do peritônio sem exposição a asbesto como causa rara de ascite**  
*Malignant mesothelioma of the peritoneum without asbestos exposure as a rare cause of ascites*  
 Luiza Alencar Saldanha Queiroz, Raul Carlos Wahle, José Carlos Aguiar Bonadia, Paula Bechara Poletti
- 31 **Adenocarcinoma de bulbo duodenal tratado endoscopicamente**  
*Endoscopically treated duodenal bulb adenocarcinoma*  
 Ana Beatriz Campelo Campos, Jose Francisco de Mattos Farah
- 34 **Síndrome da pelve vazia e hérnia perineal em pós-operatório tardio de retossigmoidectomia videolaparoscópica com anastomose coloanal complicado com prolapso anastomótico**  
*Empty pelvis syndrome and perineal hernia in the late postoperative period of laparoscopic rectosigmoidectomy with coloanal anastomosis complicated by anastomotic prolapse*  
 Lucas de Araujo Horcel, Marcos Claudio Radtke
- 40 **Malacoplaquia Vesical**  
*Bladder Malakoplakia*  
 Matheus Sales Bezerra, Thiago Souto Hemerly

- 44 **Mucormicose rino-orbital-cerebral em paciente em recuperação de Covid-19**  
*Rhino-orbital-cerebral mucormycosis in patient recovering from Covid-19*  
Jan Carla Selene Guzmán, Marta Junqueira Reis Ferraz
- 49 **Angioplastia de artéria carótida interna direita associada à artéria hipoglósica persistente ipsilateral**  
*Right Internal carotid artery angioplasty associated with persistent ipsilateral hypoglossal artery*  
Natasha Pryanka de Araújo Bessa, Marcele Schettini de Almeida
- 55 **Aneurisma de artéria subclávia direita roto em paciente jovem**  
*Ruptured right subclavian artery aneurysm in a young patient*  
Patrícia Weiber Schettini Figueiredo, Christiano Pecego
- 59 **Timona com clínica atípica**  
*Timona with atypical clinic*  
Angelina Speers Hayden Gallotti, Gregório Pinheiro Soares
- 67 **PEComa do trato gastrointestinal**  
*PEComa of the gastrointestinal tract*  
Amora Maria Duarte Gomes Bringel, Luana Castro de Rezende Fiorot, Tatiana Iutaka, Eugênio Alves Vergueiro Leite
- 73 **Dor torácica aguda: a miocardite autoimune como diagnóstico diferencial**  
*Acute chest pain: autoimmune myocarditis as a differential diagnosis*  
Diego Mendes do Carmo, Soraia Rachid Youssef de Campos
- 78 **Estratégias na manipulação de ferida extensa e complexa de tórax pós necrose de múltiplos retalhos para cobertura de mastectomia higiênica**  
*Strategies for handling of extensive and complex toracic wound after multiple flap necrosis for hygienic mastectomy coverage*  
Raissa Barakatt de Figueiredo, Kim Lima Nascimento, Vinicius Nakajima An, José Antonio Cezaretti, An Wan Ching
- 83 **Chronic cough as early and main symptom in posterior fossa tumors**  
*Tosse crônica como sintoma inicial e principal em tumores de fossa posterior*  
Helber Alves Perez, José Erasmo Dal Col Lúcio, José Francisco Pereira Júnior, Clarissa Nóbrega Gambarra do Nascimento, Matheus Fernandes de Oliveira
- 90 **Hipotireoidismo como causa rara de ascite**  
*Hypothyroidism as a rare cause of ascites*  
João Pedro Rodrigues de Melo, Amyr Chicharo Chacar

**Quem é  
o autor  
do melhor  
artigo  
publicado  
em 2022?**



**Confira na  
próxima edição  
da Revista  
Científica do  
IAMSPE!**

Com muita satisfação publicamos um novo suplemento da Revista Científica do Iamspe. Desta vez a editoria escolheu por à mostra uma série de relatos de casos enviados pelos nossos colaboradores. Há os que creem que esses trabalhos não seriam os mais importantes para constar de um periódico médico. Não é, porém, a nossa opinião. Publicar, da forma adequada, cuidadosa e técnica um relato de caso traz consigo algumas vantagens: aos iniciantes é um tipo de trabalho com menos dificuldades o que lhes permite esmero na sua preparação; pode mostrar filigranas de um caso incomum ou mesmo os aspectos pouco frequentes de uma doença já conhecida; pode ser a semente de pesquisas e descobertas a surgirem a partir de um caso inicial e podem, pois ser a base para estudos originais. Embora os trabalhos originais sejam os mais desejáveis para publicação, continuaremos a estimular relatos de casos que sejam verdadeiramente interessantes e particularmente com algum viés inovador.

Os editores decidiram também escolher o melhor trabalho divulgado no ano passado (2022). Na próxima edição de Revista vamos expor o resultado. Espera-se que seja um estímulo adicional aos nossos pesquisadores, médicos assistentes e residentes, para que encaminhem seus estudos para a publicação. O esforço de todos é vital para fazer crescer o respeito pela publicação.

Umberto Gazi Lippi

## **Preservação de membro inferior com uso do retalho livre (DIEP) bilateral após ressecção de sarcoma de partes moles**

*Preservation of lower limb with use of bilateral diep free flap (DIEP) after resection of soft tissue sarcoma*

Bernardo Luiz Campanário Precht, Maria Beatriz Alves dos Santos Medrado  
Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil  
Publicação do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)

### **RESUMO**

**Introdução:** Pelo comportamento agressivo dos sarcomas de partes moles, a ressecção compartimental e até mesmo a amputação eram as principais opções terapêuticas. O objetivo atual é a ressecção com margens livres e preservação do membro. Para isso, avanços na terapia adjuvante e nas técnicas de microcirurgia otimizaram os resultados. **Método:** Descreve-se neste trabalho de forma detalhada técnica cirúrgica de reconstrução de membro inferior com retalho livre, bilateral após exérese de sarcoma realizado no Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", de São Paulo, em um paciente masculino de 39 anos. **Relato de Caso:** Paciente masculino de 39 anos com diagnóstico de sarcoma de membro inferior direito, em íntimo contato com o nervo isquiático, sem plano de clivagem, submetido a quimioterapia e radioterapia. Após 45 dias do término do tratamento neoadjuvante, foi realizada ressecção da lesão, sendo encontrado plano de clivagem com o nervo isquiático, com preservação do mesmo. Para a reconstrução do membro, foi optado pelo retalho perfurante da artéria epigástrica inferior profunda bilateral devido a necessidade de volume além da cobertura local. O paciente apresentou boa evolução no pós-operatório, com retalho bem perfundido e sem perdas, deambulando sem apoio/ajuda. **Discussão:** Tendo como base o estadiamento, localização e as condições clínicas do paciente, o cirurgião deve avaliar a possibilidade de ressecção do sarcoma com margens livres, normalmente entre 2-3cm. O uso da técnica de reconstrução de membro inferior com retalho livre tem vantagens de possibilitar o fechamento de grandes defeitos com reposição de volume local e menor morbidade gerada no sítio doador, tanto estética (incisão única), como funcional (preserva a função do reto abdominal).

**Descritores:** Sarcoma, microcirurgia, membro inferior



## ABSTRACT

**Introduction:** Due to the aggressive behavior of soft tissue sarcomas, compartmental resection and even amputation were the main therapeutic options. The current objective is resection with free margins and limb preservation. For this, advances in adjuvant therapy and microsurgical techniques have optimized the results. **Methods:** This paper describes in detail the surgical technique for reconstructing the lower limb using a free flap, bilaterally, after excision of a sarcoma performed at the Hospital do Servidor Público Estadual “Francisco Morato de Oliveira”, in São Paulo, in male patient of 39-year-old. **Case report:** A 39-year-old male patient with a diagnosis of sarcoma in the right lower limb, in close contact with the sciatic nerve, with no cleavage plane, undergoing chemotherapy and radiotherapy. 45 days after the end of the neoadjuvant treatment, resection of the lesion was performed, and a cleavage plane with the sciatic nerve was found, with preservation of the same. For limb reconstruction, the bilateral deep inferior epigastric artery perforating flap was chosen due to the need for volume beyond local coverage. Patient presented good postoperative evolution, with well perfused and lossless flap, walking without support / help. **Discussion:** Based on the patient’s staging, location and clinical conditions, the surgeon should evaluate the possibility of resection of sarcoma with free margins, usually between 2-3cm. The use of the lower limb reconstruction technique with a free flap has the advantages of allowing closure of large defects with local volume replacement and lower morbidity generated at both aesthetic (single incision) and functional (preserving rectus abdominis) donor sites.

**Keywords:** Sarcoma; microsurgery; lower Limb.

### *Correspondência:*

Bernardo Luiz Campanário Precht  
E-mail: bernardolcp@gmail.com  
Data de submissão: 06/01/2020  
Data de aceite: 09/11/2022

### *Trabalho realizado:*

Serviço de Cirurgia Geral do Hospital do Servidor Público Estadual “Francisco Morato de Oliveira”, HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil.  
Endereço: Rua Pedro de Toledo, 1800, 8º andar - Vila Clementino - CEP: 04039-901, São Paulo, SP, Brasil.

## INTRODUÇÃO

Os sarcomas são responsáveis por menos de 1% de todas as neoplasias malignas no adulto. A faixa etária preferencial de incidência situa-se acima de 50 anos e localiza-se principalmente nos membros. Por seu comportamento agressivo, tratamentos como ressecção compartimental e até mesmo amputação eram as principais opções terapêuticas. Entretanto, o objetivo atual é proceder-se à ressecção com margens livres e preservação do membro. Para isso, avanços na terapia adjuvante e nas técnicas de microcirurgia otimizaram os resultados<sup>1-5</sup>.

## MÉTODO

Descrição detalhada de técnica cirúrgica de reconstrução de membro inferior com retalho livre DIEP bilateral após exérese sarcoma realizada em paciente no Hospital do Servidor Público Estadual - Francisco Morato de Oliveira (HSPE - FMO) de São Paulo.

## RELATO DE CASO

Paciente, com 39 anos, masculino, procurou atendimento no ambulatório de Cirurgia Plástica da instituição. Apresentava queixa de abaulamento em região posterior de coxa direita há noventa dias, com crescimento acelerado da lesão, associado a dor local. Negava febre, saída de secreção, perda ponderal ou dificuldades motoras do membro acometido. Trazia consigo ressonância nuclear magnética de membro inferior direito evidenciando formação expansiva infiltrativa de permeio ao terço médio do ventre do bíceps femoral. Medida 87x56x51mm, e estava em íntimo contato com o nervo isquiático, sem plano de clivagem. Foi submetido a biópsia pela equipe de Cirurgia Oncológica que confirmou a suspeita diagnóstica de sarcoma de partes de moles. Exames de estadiamento não evidenciaram metástases a distância. Foi, então, submetido

a tratamento neoadjuvante com quimioterapia (ifosfamida + doxorrubicina), totalizando 6 ciclos, associado a radioterapia na dose de 45Gy.

Após 45 dias do término do tratamento neoadjuvante, realizou-se a ressecção da lesão de 1,4kg, com dimensão de 20x17x9cm. Foi encontrado plano de clivagem com o nervo isquiático, que permitiu a preservação do mesmo.

Para a reconstrução do membro, optou-se pelo retalho perfurante da artéria epigástrica inferior profunda (DIEP) bilateral devido à necessidade de volume além da cobertura local. Para isso, inicialmente foi realizado a mudança de decúbito ventral para dorsal.

Apesar da escolha do retalho DIEP bilateral, foram conservadas as artérias epigástricas inferiores superficiais devido a necessidade de opções de pedículos para anastomose em vasos de diferentes sítios no vasto leito receptor.

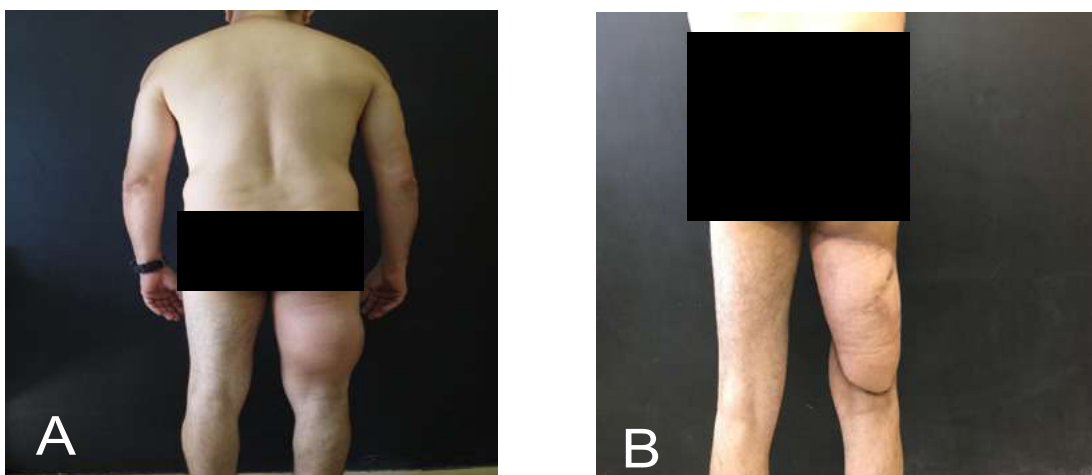
Durante a dissecação das artérias e veias epigástricas inferiores profundas, foram preservadas três perfurantes em cada lado e, com a finalidade de otimizar ainda mais a perfusão do retalho e reduzir possíveis complicações, optou-se por anastomose microcirúrgica arterial e venosa intra-retalho com as extremidades das artérias e veias epigástricas superiores profundas de cada lado entre sí. Em seguida, fixou-se a tela de polipropileno na região abdominal. Realizada a onfaloplastia e iniciada síntese do retalho abdominal pelas suas laterais. Manteve-se o retalho perfundido pelos pedículos inferiores a fim de reduzir o tempo de isquemia do mesmo. Após a ligadura dos pedículos, finalizou-se a síntese abdominal e modificado o decúbito para ventral e iniciou-se a preparação do leito receptor. Neste, foram dissecados dois pedículos perfurantes das artérias femorais profundas e superficiais, onde realizaram-se anastomoses de ambos os pedículos do DIEP bilateral (Figura 1).



**Figura 1** - Aspecto intra-operatório do DIEP bilateral após a confecção da anastomose intra-retalho.

Ao final, instalou-se drenagem com portovac 4.8 e síntese do retalho com a leito receptor através de pontos simples em subcutâneo, subdérmico e na pele com nylon 3-0. O paciente apresentou boa evolução no pós-operatório, com retalho bem perfundido e sem perdas, deambulando sem apoio/ajuda de terceiros, mantendo sensibilidade do membro inferior direito e, como única complicação. Houve coelção serosa tratada através de punção após retirada de dreno portovac.

Atualmente, o paciente encontra-se em acompanhamento ambulatorial, sem déficits motores. Realiza fisioterapia e drenagem linfática. Apresenta lesão de discreta necrose em borda de leito receptor em região medial de coxa (área irradiada previamente). Quando comparado ao pré-operatório percebe-se que o retalho DIEP foi capaz de manter qualidade local com volume e estética semelhantes (Figura 2)



**Figura 2 (A e B)**- Vista posterior do pré-operatório e pós-operatório de 150 dias.

## DISCUSSÃO

A radioterapia adjuvante pode auxiliar o cirurgião a realizar uma ressecção mais próxima da margem, e permite preservar estruturas que manterão o membro viável, sem aumentar o risco de recidiva. O desafio não acaba após a ressecção tumoral, pois o fechamento imediato do defeito é fundamental para manter a funcionalidade do membro<sup>5-6</sup>.

Nesse contexto, a microcirurgia exerce um papel fundamental. Dentre os retalhos microcirúrgicos, consagrados em grandes reconstruções, temos os do músculo grande dorsal e o fasciocutâneo de perfurantes anterolateral da coxa, porém, estes não fornecem volume suficiente para o caso específico<sup>2,4</sup>. Além destes, o retalho microcirúrgico do músculo reto abdominal transverso (TRAM) possui bom volume devido ao espesso tecido subcutâneo. A grande desvantagem de elevar a morbidade da área doadora por ressecar a musculatura da parede abdominal anterior<sup>4</sup>.

Pensando nesses critérios, optou-se pelo retalho de perfurante da artéria epigástrica inferior profunda (DIEP) que tem seu uso para as reconstruções de membros com resultados igualmente promissores. O uso do DIEP tem vantagens de possibilitar o fechamento de grandes defeitos com reposição de volume local e menor morbidade gerada no sítio doador tanto estética (incisão única) como funcional (preserva a função do reto abdominal)<sup>7-8</sup>.

Além disso, o uso do retalho bipediculado, apesar de tornar o procedimento tecnicamente mais complexo, não demonstrou aumento do número de complicações, como a incidência de hérnias no sítio doador, quando comparado ao retalho monopediculado<sup>9</sup>. As taxas de necrose parcial e completa do retalho se situam entre 1-11% e a formação de coleção serosa e hematoma na área doadora na faixa de 3,7%<sup>10</sup>. No caso relatado foi observado apenas

a primeira como única complicação do retalho, visto que a discreta necrose observada foi da pele previamente irradiada do leito receptor.

Quando o retalho é monopediculado, a área contralateral é frequentemente subperfundida, o que reduz o comprimento do retalho que pode ser utilizado com segurança. Por este motivo optou-se pelo uso do DIEP bipediculado, além da anastomose intraflap, com o objetivo de maximizar o volume de tecido subcutâneo. Essa opção deveu-se ao extenso defeito com exposição de nervo ciático e reduziu ao máximo as probabilidades de complicações pós-operatórias locais do retalho como trombose de pedículo e/ou necrose do mesmo<sup>10</sup>.

## REFERÊNCIAS

1. Fletcher CD, Bridge JA, Hogendoorn PC, Mertens F, (Ed's). World Health Organization Classification of tumours of soft tissue and bone. 4th ed. Lyon: WHO; 2013.
2. Momeni A, Kalash Z, Stark GB, Bannasch H. The use of the anterolateral thigh flap for microsurgical reconstruction of distal extremities after oncosurgical resection of soft-tissue sarcomas. *J Plast Reconstr Aesthetic Surg.* 2011;64(5):643-48.
3. Abouarab MH, Salem IL, Degheidy MM, Henn D, Hirche C, Eweida A, et al. Therapeutic options and postoperative wound complications after extremity soft tissue sarcoma resection and postoperative external beam radiotherapy. *Int Wound J.* 2018;15(1):148-58.
4. Chao AH, Mayerson JL, Chandawarkar R, Scharschmidt TJ. Surgical management of soft tissue sarcomas: extremity sarcomas. *J Surg Oncol.* 2015;111(5):540-45.
5. Schwartz A, Rebecca A, Smith A, Casey W, Ashman J, Gunderson L, et al. Risk factors for significant wound complications following wide resection of extremity soft tissue sarcomas. *Clin Orthop Relat Res.* 2013;471(11):3612-17.

6. Barwick WJ, Goldberg JA, Scully SP, Harrelson JM. Vascularized tissue transfer for closure of irradiated wounds after soft tissue sarcoma resection. *Ann Surg.* 1992;216(5):591–95.
7. Grinsell D, Saravolac V, Rozen WM, Whitaker LS. Pre-expanded bipediced deep inferior epigastric artery perforator (DIEP) flap for paediatric lower limb reconstruction. *J Plast Reconstr Aesthet Surg.* 2012;65(11):1603–05.
8. Salgarello M, Tambasco D, Farallo E. DIEP flap donor site versus elective abdominoplasty short-term complication rates: a meta- analysis. *Aesthetic Plast Surg.* 2012;36(11):363–69.
9. Ferguson PC. Surgical considerations for management of distal extremity soft tissue sarcomas. *Curr Opin Oncol.* 2005;17(4):366-69.
10. Mahajan AL, Van Waes C, D'Arpa S, Van Landuyt K, Blondeel PN, Monstrey S, Stillaert FB. Bipedicled DIEP flaps for reconstruction of limb soft tissue defects in male patients. *J Plast Reconstr Aesthet Surg.* 2016;69(7):920–27.

## Diagnóstico de sarcoidose após implantação de próteses mamárias de silicone

### *Diagnosis of sarcoidosis after implantation of silicone breast implants*

Priscila Teles Achanjo Neves, Rodrigo Moreira Holcman, José Antônio Cezaretti  
Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil  
Publicação do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)

#### RESUMO

**Introdução:** A mamoplastia de aumento é o procedimento cirúrgico estético mais realizado no país, com utilização das próteses de silicone ou com reconstruções mamárias. Os eventos adversos atrelados ao seu uso alcançaram destaque e estudos investigam a relação dos implantes mamários de silicone e o risco de doenças autoimunes. A patogênese da sarcoidose, doença autoimune granulomatosa não infecciosa, indica tendência genética adquirida para resposta imunológica quando há exposição a determinadas partículas, contribuindo para lesão orgânica multissistêmica e diversas manifestações clínicas. **Objetivo:** Relatar caso clínico de paciente submetida a mamoplastia de aumento com implante de silicone em 2008, no Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira" HSPE-FMO em São Paulo, com evolução clínica e laboratorial relacionadas à sarcoidose. **Métodos:** Descrição de um caso clínico através da análise do prontuário e seguimento ambulatorial periódico. **Relato de Caso:** Paciente do sexo feminino, 53 anos, submetida à mamoplastia de aumento com implantes de silicone via periareolar há 30 anos, com nova abordagem via sulco infra-mamário e troca das próteses há 11 anos. Evoluiu com sudorese noturna e fadiga, seguida de lesões cutâneas eritemato-acastanhadas em região cicatricial das mamas há 2 anos, papulosas indolores, não pruriginosas, e posterior acometimento da cicatriz. Exames laboratoriais, radiológicos e ECG sem alterações. Realizada biópsia cutânea em FID e mama direita indicativa de dermatite crônica granulomatosa, com pesquisa de fungos e BAAR negativas, sugestiva de sarcoidose. Foi iniciado tratamento com Metotrexato 15mg/semana há 1 ano. A Sarcoidose foi diagnosticada após 9 anos da implantação das próteses e os mesmos apontados como prováveis indutores da doença. Obteve-se boa resposta ao tratamento clínico sem intolerância, garantindo o desejo da paciente em manter os implantes. **Conclusão:** A sarcoidose, possivelmente relacionada à implantação de próteses mamárias de silicone, quando em apresentação cutânea isolada, demonstra bom prognóstico com resposta clínica satisfatória frente ao tratamento farmacológico. Apesar do histórico de segurança dos implantes mamários de silicone, a publicação de casos clínicos que sugerem associação com o surgimento de doenças autoimunes, aponta a necessidade de estudos controlados com fontes de dados de grandes populações e seguimento a longo prazo para redução das limitações científicas e, enfim, alcançar resultados consistentes de comprovação casual.

**Descritores:** Mamoplastia; implante mamário; silicone; sarcoidose.

## ABSTRACT

**Introduction:** Breast augmentation is the most common aesthetic surgical procedure in the country, with the use of silicone prostheses also in breast reconstructions. Adverse events linked to its use have reached prominence and studies have investigated the relationship between silicone breast implants and the risk of autoimmune diseases. The pathogenesis of sarcoidosis, a non-infectious granulomatous autoimmune disease, indicates an acquired genetic tendency for an immune response when there is exposure to certain particles, contributing to multisystem organic lesions and several clinical manifestations. **Objective:** To report a clinical case of a patient who underwent breast augmentation with a silicone implant in 2008, at the Hospital do Servidor Público do Estado de São Paulo (HSPE), with clinical and laboratory evolution related to sarcoidosis. **Methods:** Description of a clinical case through the analysis of medical records and periodic outpatient follow-up. **Case Report:** Female patient, 53 years old, underwent augmentation mammoplasty with silicone implants via periareolar 30 years ago, with a new approach via the infra-mammary groove and prosthesis replacement 11 years ago. She evolved with night sweats and fatigue, followed by erythematous-brownish skin lesions in the scarred region of the breasts for 2 years, popular, painless, non-pruritic, and subsequent impairment of the scar. Laboratory, radiological and ECG exams without changes. A skin biopsy was performed on FID and right breast indicative of chronic granulomatous dermatitis, with negative fungi and BAAR tests, suggestive of Sarcoidosis. Treatment with methotrexate 15mg/week was started 1 year ago. Sarcoidosis was diagnosed 9 years after the implantation of the prostheses and they were identified as probable inducers of the disease. There was a good response to clinical treatment without intolerance was obtained, guaranteeing the desire to maintain the implants. **Conclusion:** Sarcoidosis, possibly related to the implantation of silicone breast prostheses, when in isolated cutaneous presentation, demonstrates a good prognosis with a satisfactory clinical response to pharmacological treatment. Despite the safety history of silicone breast implants, the publication of clinical cases that suggests an association with the emergence of autoimmune diseases, points to the need for controlled studies with data sources from large populations and long-term follow-up to reduce scientific limitations and, finally, to achieve consistent results of casual verification.

**Keywords:** Mammoplasty; breast implant; silicone; sarcoidosis.

### *Correspondência:*

Priscila Teles Achanjo Neves  
E-mail: pri\_riri@hotmail.com  
Data de submissão: 28/01/2021  
Data de aceite: 08/11/2022

### *Trabalho realizado:*

Serviço de Cirurgia Plástica do Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil.  
Endereço: Rua Pedro de Toledo, 1800, 2º andar - Vila Clementino  
- CEP: 04039-901, São Paulo, SP, Brasil.

## INTRODUÇÃO

A mamoplastia de aumento é o procedimento cirúrgico estético mais realizado no Brasil, com destaque para a utilização das próteses de silicone, que ainda elencam entre o arsenal disponível para as reconstruções mamárias. A partir da disseminação desses dispositivos os eventos adversos atrelados ao seu uso alcançaram destaque tanto na esfera científica quanto em meio à população e suas mídias sociais. Entre tais eventos, estudos investigam a relação dos implantes mamários de silicone e o risco de doenças autoimunes, como a sarcoidose<sup>1-3</sup>.

Trata-se de doença granulomatosa não infecciosa, de etiologia desconhecida. A patogênese, entretanto, indica tendência genética adquirida para uma resposta imunológica quando há exposição a determinadas partículas, que contribuem para lesão orgânica multissistêmica e diversas manifestações clínicas. Observa-se maior incidência em adultos jovens e nos países desenvolvidos. A Suécia exibe maior taxa de incidência mundial (64/100.000 habitantes) e, no Brasil, estima-se em 10/100.000 habitantes<sup>4-7</sup>.

Após o trabalho de Hennekens et. al.<sup>8</sup>, que apontou um risco relativo para desenvolvimento de doença autoimune no grupo de mulheres com implantes mamários, tornou-se imperativo o encorajamento de pesquisas sistemáticas para avaliar a segurança das próteses. No entanto, os estudos ainda apresentam resultados inconsistentes devido às limitações e, no Brasil, as publicações são escassas. Assim, a constante revisão da literatura e descrição de casos auxilia a manutenção da discussão desta possível casualidade, e consequentemente direcionar o manejo mais adequado para o bem estar do paciente.

## OBJETIVOS

Descrever o caso clínico de uma paciente submetida à mamoplastia de aumento com implantes de silicone, no Hospital do Servidor

Público Estadual - Francisco Morato de Oliveira (HSPE - FMO), São Paulo, com evolução clínica e laboratorial relacionadas à sarcoidose e revisar os dados da literatura relacionados ao tema.

## MÉTODOS

Descrição de caso clínico realizado através da revisão de prontuário e seguimento ambulatorial periódico de uma paciente submetida à mamoplastia de aumento com implantes de silicone via sulco infra-mamário bilateral em 2008, com evolução clínica e laboratorial relacionadas à sarcoidose.

## RELATO DE CASO

Paciente ATL, sexo feminino, 53 anos, fototipo Fitzpatrick IV, submetida a mamoplastia de aumento com implantes de silicone via periareolar há 30 anos, em outro serviço. Foi submetida a nova abordagem via sulco inframamário e troca das próteses há 11 anos, pela equipe de Cirurgia Plástica do HSPE. Evoluiu com sudorese noturna e fadiga, seguida do surgimento de lesões cutâneas eritemato-acastanhadas em região cicatricial das mamas há 2 anos, papulosas, indolores, não pruriginosas nem descamativas, e posterior acometimento de cicatriz em incisão de McBurney (Figura 1).



**Figura 1** - Lesões cutâneas papulosas eritemato-acastanhadas em região cicatricial das mamas sobre a incisão de McBurney.



Exame clínico sem outras alterações, bem como os exames laboratoriais, exceto pelo aumento da enzima conversora de angiotensina (ECA) de 227mg/dl e hipercalcúria de 260mg/24h. Sorologias negativas. Exames de eletrocardiograma, ultrassonografia das mamas e radiografia de pés, mãos e tórax dentro da normalidade. Tomografia computadorizada de tórax com ausência de linfonodomegalias mediastinais e peri-hilares. Realizada biópsia cutânea de fossa ilíaca direita e mama direita indicativas de dermatite crônica granulomatosa, com pesquisa de fungos e bacilos álcool-ácido resistentes (BAAR) com Grocott e Ziehl-Neelsen negativas, resultado sugestivo de sarcoidose.

Foi iniciado o tratamento clínico com metotrexato 15mg/semana há 1 ano, alcançando progressivamente boa resposta clínica à medida em que houve resolução da sudorese, redução da fadiga e regressão do quadro cutâneo (Figura 2). Mediante os benefícios clínicos combinados à tolerância ao tratamento instituído e o desejo da paciente de manter os implantes de silicone, optou-se pela manutenção terapêutica e seguimento do caso para uma eventual necessidade de remoção cirúrgica ao indício de progressão da sarcoidose.



**Figura 2** – Regressão das lesões cutâneas em região mamária após 1 ano de tratamento clínico.

## DISCUSSÃO

O uso dos implantes de silicone foi autorizado pela Food and Drug Administration (FDA) dos Estados Unidos na década de 1960 e, desde então, houve crescimento mundial na utilização deste dispositivo nas Mamoplastias (estéticas e reconstrutivas) e na vigilância dos efeitos adversos associados<sup>9</sup>.

A partir do conhecimento da possibilidade de indução de efeitos imunológicos do silicone, considerado um material biologicamente inerte no passado, e do relato de doenças autoimunes em paciente com próteses do material, estudos investigam a existência da “doença do implante de silicone”. Fenômeno creditado à migração de partículas do silicone. Esta pode ocorrer mesmo na ausência de ruptura do revestimento externo da prótese através do “sangramento de gel”. Vale ressaltar que os mecanismos pelos quais tais implantes induzem autoimunidade são numerosos e incluem a desregulação da imunidade inata e adaptativa dos indivíduos geneticamente predispostos<sup>10-11</sup>.

Após nove anos de seguimento ambulatorial, pelo Serviço de Cirurgia Plástica, o quadro foi atribuído à sarcoidose diagnosticada pela equipe da reumatologia e os implantes de silicone apontados como prováveis indutores da doença. Durante a revisão da literatura realizada com o objetivo de nortear o manejo apropriado, principalmente, no tocante à necessidade de remoção dos implantes, observou-se a escassez de conteúdo científico de casos semelhantes, em especial no Brasil.

Assim como no caso aqui relatado, em geral, a sarcoidose acomete mais as mulheres na razão de 1,2:1 em relação aos homens e é mais comum entre os negros. Estes apresentam uma evolução mais grave e aguda da doença, com frequente envolvimento extra-torácico. Apesar do caráter multissistêmico da doença de apresentar manifestações clínicas diversas,

acomete comumente os pulmões em até 90% dos pacientes e a pele. O acometimento cutâneo varia de 20 a 35% dos casos, o que permite o diagnóstico precoce pela facilidade de realizar biópsia (exame histopatológico), sendo esta a ferramenta que sinalizou o diagnóstico da paciente em questão, uma vez que a mesma não apresentava alteração pulmonar. Outro ponto importante neste relato é que apenas um terço da sarcoidose sintomática é isolada à pele e a doença envolvendo as mamas ocorre em menos de 1% dos casos<sup>4,12-14</sup>.

Obteve-se boa resposta ao tratamento farmacológico escolhido com controle do quadro clínico, sem intolerância ou efeitos colaterais importantes. Que garantiu o desejo da paciente em evitar a remoção dos implantes. Para tanto, porém, manteve-se a medicação já em uso. Um caso semelhante de sarcoidose cutânea confinada às mamas após colocação de implante de silicone, relatado por Sun et. al.<sup>15</sup>, também apresentou estabilidade clínica apenas com tratamento farmacológico. Contudo, por receio da paciente na possível relação de casualidade, os implantes foram removidos. Já em outra paciente portadora de sarcoidose multissistêmica progressiva após mamoplastia com implantes de silicone, não houve resposta a corticoterapia e a melhora só foi observada após remoção do implante<sup>15-16</sup>.

A melhora dos sintomas em mulheres com doença relacionada a implantes de silicone, após a remoção é a principal base para estabelecer a possível causalidade<sup>10</sup>, como Boer et al.<sup>17</sup> tentaram expor. Entretanto, a determinação de causa e efeito entre um agente e uma doença é tarefa complexa, principalmente para distúrbios autoimunes de etiologia multifatorial e com baixa prevalência na população. Esta causalidade precisa ser estatisticamente significativa, apresentar relação temporal e um mecanismo plausível que explique tal associação<sup>18</sup>. Dessa maneira, alguns aspectos limitantes que enfraquecem a força de causalidade precisam ser controlados, como:

documentação médica adequada nos bancos de dados, registro dos diagnósticos corretos feitos por profissionais especializados, amostra estatisticamente significativa e homogênea, seguimento a longo prazo.

Para contornar estas barreiras, pode-se incentivar investimentos financeiro e tecnológico em estudos controlados que proporcionem o seguimento a longo prazo das pacientes submetidas a mamoplastia de aumento, por meio de fontes de dados que facilitem a análise de grandes populações para, conseqüentemente, se obter resultados mais consistentes que atestem a causalidade do evento<sup>19</sup>.

## CONCLUSÃO

A sarcoidose possivelmente relaciona-se à implantação de próteses mamárias de silicone, quando em apresentação cutânea isolada, demonstra bom prognóstico com resposta clínica satisfatória frente ao tratamento farmacológico, neste caso descrito.

Apesar do histórico de segurança dos implantes mamários de silicone, a divulgação de casos clínicos que sugerem associação com o surgimento de doenças autoimunes, como a sarcoidose, exige o desenvolvimento de estudos controlados que reduzam suas limitações para alcançar resultados consistentes.

## REFERÊNCIAS

1. International Society of Aesthetic Plastic Surgery - ISAPS. Latest International Study Shows Global Rise In Cosmetic Surgery [Internet]. 2018 [cited 2022 Nov 18]. Available from: <[https://www.isaps.org/wp-content/uploads/2018/10/2017-Global-Survey-Press-Release-Demand-for-Cosmetic-Surgery-Procedures-Around-The-World-Continues-To-Skyrocket\\_2\\_RW.pdf](https://www.isaps.org/wp-content/uploads/2018/10/2017-Global-Survey-Press-Release-Demand-for-Cosmetic-Surgery-Procedures-Around-The-World-Continues-To-Skyrocket_2_RW.pdf)>.
2. International Society of Aesthetic Plastic Surgery - ISAPS. Produces Performed in 2017

- [Internet]. 2017 [cited 2022 Nov 18]. Available from: <[https://www.isaps.org/wp-content/uploads/2019/03/ISAPS\\_2017\\_International\\_Study\\_Cosmetic\\_Procedures\\_NEW.pdf](https://www.isaps.org/wp-content/uploads/2019/03/ISAPS_2017_International_Study_Cosmetic_Procedures_NEW.pdf)>.
3. Rohrich RJ, Kaplan J, Dayan E. Silicone Implant Illness: Science versus Myth? *Plast Reconstr Surg*. 2019;144(1):98-109.
  4. English JC, Patel PJ, Greer KE. Sarcoidosis. *J Am Acad Dermatol*. 2001; 44(5):725-43.
  5. Daldon PE, Arruda LH. Granulomas não-infecciosos: sarcoidose. *An Bras Dermatol*. 2007;82(6):559-71.
  6. Nessrine A, Zahra AF, Taoufik H. Acometimento músculo-esquelético na sarcoidose. *J Bras Pneumol*. 2014;40(2):175-82.
  7. Branco SC, Luz K, Fernandes C, Cardoso J. Sarcoidose. *Rev SPDV*. 2016;74(1):25-31.
  8. Hennekens CH, Lee IM, Cook NR, Hebert PR, Karlson EW, LaMotte F, et al. Self-reported breast implants and connective-tissue diseases in female health professionals: a retrospective cohort study. *JAMA*. 1996;275(8):616-21.
  9. Chao AH, Garza R, Povoski SP. A review of the use of silicone implants in breast surgery. *Expert Rev Med Devices*. 2016;13(2):143-56.
  10. Tervaert JW, Colaris MJ, van der Hulst RR. Silicone breast implants and autoimmune rheumatic diseases: myth or reality. *Curr Opin Rheumatol*. 2017;29(4):348-54.
  11. Rohrich RJ, Kaplan J, Dayan E. Silicone Implant Illness: Science versus Myth? *Plast Reconstr Surg*. 2019;144(1):98-109.
  12. Thomas KW, Hunninghake GW. Sarcoidosis. *JAMA*. 2003; 289(24):3300-03.
  13. Nobrega BB, Meirelles GS, Szarf G, Jasinowodolinski D, Kavakama JI. Sarcoidose pulmonar: achados na tomografia computadorizada de alta resolução. *J Bras Pneumol*. 2005;31(3):254-60.
  14. Dilaveri CA, Mac Bride MB, Sandhu NP, Neal L, Ghosh K, Wahner-Roedler DL. Breast manifestations of systemic diseases. *Int J Womens Health*. 2012;4:35-43.
  15. Sun HH, Sachanandani NS, Jordan B, Myckatyn TM. Sarcoidosis of the Breasts following Silicone Implant Placement. *Plast Reconstr Surg*. 2013 ;131(6):939e-940e.
  16. Teuber SS, Howell LP, Yoshida SH, Gershwin ME. Remission of sarcoidosis following removal of silicone gel breast implants. *Int Arch Allergy Immunol*. 1994;105(4):404-7.
  17. Boer M, Colaris M, van der Hulst RR, Cohen Tervaert JW. Is explantation of silicone breast implants useful in patients with complaints? *Immunol Res*. 2017;65(1):25-36.
  18. Watad A, Rosenberg V, Tiosano S, Cohen Tervaert JW, Yavne Y, Shoenfeld Y, et al. Silicone breast implants and the risk of auto immune/ rheumatic disorders: a real-world analysis. *Int J Epidemiol*. 2018 ;47(6):1846-54.
  19. Oliveira MA, Parente RC. Estudos de Coorte e de Caso-Controle na Era da Medicina Baseada em Evidência. *Bras J Videoendosc Surg*. 2010;3(3):115-25.

## O uso de aripiprazol nas hiperprolactinemias induzidas por antipsicóticos

### *The use of aripiprazole in antipsychotic-induced hyperprolactinemia*

Gustavo Lacerda da Silva Caletini, Renata Steiner Bettiol, Evandro de Souza Portes  
Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil  
Publicação do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)

#### RESUMO

A hiperprolactinemia é a condição de elevação dos níveis séricos circulantes de prolactina principalmente induzida por fármacos. Os antipsicóticos são as medicações mais associadas a hiperprolactinemia. Uma possível ferramenta para controle dessa condição é a associação do aripiprazol, sendo este, um antipsicótico com função de agir como agonista parcial do receptor D2, capaz de diminuir os níveis de prolactina. Relata-se um caso de sucesso terapêutico com uso do aripiprazol e reversão do hipogonadismo associado à hiperprolactinemia induzida por antipsicóticos.

**Descritores:** Antipsicóticos; hiperprolactinemia; aripiprazol; hipogonadismo.

#### ABSTRACT

Hyperprolactinemia is the condition of elevation of circulating serum prolactin levels with drug-induced form being the major one. Antipsychotics are the medications most associated with hyperprolactinemia. A possible tool to control this condition is the association of Aripiprazole, which is an antipsychotic that acts as a partial D2 receptor agonist capable of decreasing prolactin levels. We report a case of therapeutic success with Aripiprazole and reversal of hypogonadism associated with hyperprolactinemia associated with antipsychotics.

**Keywords:** Antipsychotics agents; hyperprolactinemia; aripiprazole; hypogonadism.

#### Correspondência:

Gustavo Lacerda da Silva Caletini  
E-mail: gustavo.fcms@hotmail.com  
Data de submissão: 27/01/2020  
Data de aceite: 07/11/2022

#### Trabalho realizado:

Serviço de Endocrinologia do Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil.  
Endereço: Rua Pedro de Toledo, 1800, 4º andar - Vila Clementino - CEP: 04039-901, São Paulo, SP, Brasil.

## INTRODUÇÃO

A prolactina é um hormônio polipeptídico de 23 kDa (198 aminoácidos) sintetizado nas células lactotróficas da hipófise anterior. Sua secreção é pulsátil e aumenta com o sono, estresse, ingestão de alimentos, gravidez, estimulação da parede torácica, trauma <sup>1</sup>.

A principal ação biológica da prolactina é induzir e manter a lactação. No entanto, também exerce efeitos metabólicos. Participa do desenvolvimento mamário reprodutivo e estimula a resposta imune. Esses efeitos da prolactina ocorrem porque ela se liga a receptores específicos nas gônadas, células linfóides e fígado <sup>2-4</sup>.

A secreção de prolactina está sob dupla regulação por hormônios hipotalâmicos. O sinal predominante é o controle inibitório tônico da dopamina hipotalâmica, que atravessa o sistema venoso portal para atuar sobre os receptores D2 nas células lactotróficas hipofisárias. Outros fatores inibidores da prolactina incluem ácido gama amino butírico (GABA), somatostatina, acetilcolina e norepinefrina. O segundo sinal é estimulador, que é fornecido pelos peptídeos hipotalâmicos, hormônio liberador de tireotrofina (TRH), peptídeo intestinal vasoativo (VIP), fator de crescimento epidérmico (EGF) e antagonistas dos receptores de dopamina. A serotonina medeia fisiologicamente os surtos noturnos e a prolactina induzida por aleitamento aumenta e é um potente modulador da secreção de prolactina. A histamina tem um efeito predominantemente estimulador devido à inibição do sistema dopaminérgico <sup>1</sup>.

Os níveis normais de prolactina para homens e mulheres são diferentes, com in-

tervalos de 10-20 e 10-25 ng/mL, respectivamente. Hiperprolactinemia é a condição de elevação dos níveis séricos circulantes desse hormônio podendo ser fisiológica, patológica, induzida por fármacos ou idiopática. Níveis elevados de prolactina causam inibição da secreção pulsátil do hormônio liberador de gonadotrofina (GnRH). Isso modula negativamente a secreção de hormônios da hipófise responsáveis pela função gonadal <sup>1</sup>.

É um distúrbio endócrino comum do eixo hipotalâmico-hipofisário. Ocorre mais comumente em mulheres. A prevalência de hiperprolactinemia varia de 0,4% em uma população adulta não selecionada a 9-17% em mulheres com doenças reprodutivas <sup>5</sup>.

Causas fisiológicas de hiperprolactinemia incluem gestação, lactação, estimulação mamária, estresse e sono. As patológicas são prolactinomas, adenomas não funcionantes que reduzam a inibição feita pela dopamina, hipotireoidismo, crise convulsiva. As causas mais frequentes são as induzidas por drogas (antipsicóticos, inibidores seletivos da recaptação de serotonina, contraceptivos orais, dentre outros) <sup>6</sup>.

Falando especificamente de hiperprolactinemia induzida por drogas, abordar-se-á com maior ênfase o uso de antipsicóticos. Esta associação é estudada há mais de 40 anos e sabe-se que a propensão à elevação da prolactina difere entre as substâncias, com maiores taxas reservada a risperidona e haloperidol <sup>6</sup>.

Na tabela 1 apresenta-se a correlação das principais medicações com seu respectivo potencial de elevação dos níveis de prolactina e seu mecanismo.

Classe de Medicação	Frequência de elevação da prolactina	Mecanismo
<b>Antipsicóticos de primeira geração</b>		
Clorpromazina	Moderada	Bloqueio do receptor da dopamina D2 no sistema tuberoinfundibular hipotalâmico
Haloperidol	Alta	
Loxapina	Moderada	
<b>Antipsicóticos de segunda geração</b>		
Aripiprazol	Nenhum ou baixa	Bloqueio do receptor dopaminérgico D2
Clozapina	Nenhum ou baixa	
Olanzapina	Baixa	
Quetiapina	Nenhum ou baixa	
Risperidona	Alta	
Ziprasidona	Baixa	
<b>Antidepressivo tricíclico</b>		
Amitriptilina	Baixa	Não bem compreendido. Possível estimulação GABA e modulação indireta da liberação de prolactina pela serotonina
Clomipramina	Alta	
Nortriptilina	Nenhum	
<b>Inibidores seletivos da recaptção de serotonina</b>		
Citalopram	Nenhum ou baixa	Semelhante aos tricíclicos
Fluoxetina	Nenhum ou baixa	
Paroxetina	Nenhum ou baixa	
Sertralina	Nenhum ou baixa	
<b>Outros antidepressivos</b>		
Bupropiona, venlafaxina, mirtazapina, trazodona	Nenhum ou baixa	Não aplicável
<b>Anti-emético</b>		
Metoclopramida, domperidona	Alta	Bloqueio receptor dopaminérgico D2
<b>Anti-hipertensivo</b>		
Verapamil	Baixa	Não bem compreendido. Parece inibir o influxo de cálcio nos neurônios dopaminérgicos tuberoinfundibulares
Metildopa	Moderada	Diminuição da conversão de L-dopa em dopamina; supressão da síntese de dopamina.
<b>Analgésicos opiáceos</b>		
Metadona, morfina, outros	Aumento transitório por algumas horas	Potencialmente um efeito indireto da ativação do receptor de opiáceos.

**Tabela 1** - Medicações associadas a hiperprolactinemia e seus mecanismos. (Adaptada de Ajmal et. al.<sup>6</sup>)

Valores que se enquadram dentro do intervalo de altos níveis de prolactina podem trazer sintomas clinicamente significativos. Serri et al.<sup>7</sup> forneceram algumas regras de ouro sobre os níveis de prolactina e apresentações clínicas em mulheres na pré-menopausa: o excesso de prolactina marcada (>100 ng/mL) é comumente associado ao hipogonadismo e galactorréia; o excesso moderado de prolactina (51-75 ng/mL) está associado à oligomenorréia; o excesso leve de prolactina (31-50 ng/mL) está associado à diminuição da libido e infertilidade. Outras consequências incluem: obesidade, hirsutismo, diminuição da densidade mineral óssea.

O aripiprazol é o primeiro antipsicótico de segunda geração, ou atípico, que possui atividade agonista parcial no receptor D2 da dopamina e 5-HT1A da serotonina, e também atividade de antagonismo no receptor 5-HT2A da serotonina. Esta medicação, quando adicionada, além de não aumentar os níveis de prolactina, tem demonstrado redução do excesso deste hormônio ocasionado pelo uso de outros antipsicóticos. Por ter atividade parcial, ela estabiliza a neurotransmissão sem bloqueio excessivo da dopamina, podendo ser a droga de escolha em pacientes que sofrem de psicose e prolactinoma<sup>8-10</sup>.

## OBJETIVO

Alguns estudos demonstram a utilização do aripiprazol como ferramenta para normalizar a prolactina em pacientes com hiperprolactinemia induzida por antipsicóticos, sendo este o objeto de estudo.

## MÉTODOS

Relata-se um caso atendido no ambulatório de Neuroendocrinologia do Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO de São Paulo no ano de 2019 com quadro sugestivo de hiperprolactinemia induzido por antipsicóticos em que o aripiprazol foi utilizado para reduzir os níveis hormonais de prolactina.

## RELATO DE CASO

Paciente do sexo masculino, 27 anos, vinha em tratamento para síndrome do pânico e transtorno de humor esquizoide com risperidona 3mg/dia, haldol 1mg/d e topiramato 100mg/d. Um ano antes de procurar o serviço, começou a apresentar quadros de cefaleia em região frontal, caráter latejante que aumentava de intensidade à noite. Na investigação, realizou ressonância nuclear magnética (RNM) de encéfalo que identificou microadenoma hipofisário de 7x7x7mm, sem alterações das estruturas adjacentes. Paciente negava alterações de campo visual, cansaço, aumento de peso, polidipsia, redução da pilificação do corpo e não sabia informar sobre redução de libido ou dificuldades de ereção, devido ao quadro psiquiátrico. Realizou exames de rastreio, com prolactina 33mg/d (VR até 13), TSH 1,86μUI/mL (0,35-4,94), T4L 0,91ng/dL (0,7-1,48). Quando chegou na instituição para avaliação, foram solicitados novos exames, com os seguintes resultados: prolactina 47,4 ng/mL (3,46-19,4), LH 3,5mIU/mL (0,57-12,07), FSH 3,8mIU/mL (0,95-11,95), testosterona total 282 ng/dL (VR 300-1500), TSH 1,45 μUI/mL (0,35-4,94), T4L 0,8ng/dL (0,7-1,48).

Devido a elevação da prolactina poder causar a redução da testosterona, foi optado por adicionar aripiprazol 10mg/d, sem suspender nem alterar as doses das medicações das quais o paciente vinha fazendo uso e orientada a repetição dos exames em 7 e 15 dias. Os resultados da prolactina e testosterona estão anexos na tabela 2.

Período de uso do Aripiprazol 10mg	Prolactina	Testosterona
0 dia	47,4	282
7 dias	12,99	292
15 dias	8,93	542

**Tabela 2** – Resultados da Prolactina e testosterona com uso de aripiprazol 10 mg.

## DISCUSSÃO

No caso relatado, utilizou-se a dose de 10 mg de aripiprazol, obteve-se redução de 81,2% dos níveis de prolactina com 15 dias de uso da medicação e o aumento considerável da testosterona.

Outra opção de tratamento para redução de hiperprolactinemia seria com agonista dopaminérgico, a cabergolina é a mais utilizada, porém é sabido que tal opção está associada a sintomas psiquiátricos, como, por exemplo, a psicose. Para correção do hipogonadismo o uso de testosterona injetável poderia prejudicar a fertilidade do paciente ao longo dos anos, tendo ainda um risco aumentado de elevação do hematócrito com aumento do risco de eventos tromboembólicos. O uso do aripiprazol nesse paciente levou a reversão do hipogonadismo pela normalização da prolactina, sem aumentar no entanto, o risco de infertilidade e eventos tromboembólicos, o que é extremamente importante. Outro benefício em manter eugonadismo está no fato de que a deficiência de testosterona é uma das principais causas de osteoporose no sexo masculino <sup>11-13</sup>.

Artigos demonstram redução dos níveis de prolactina quando feita a associação do aripiprazol a outros antipsicóticos causadores de hiperprolactinemia, chegando esse efeito a ser conquistado em apenas 1 semana, como foi encontrado neste relato. Parece haver redução ainda maior da prolactina quando se utilizam doses maiores, de até 15 mg de aripiprazol. Foi optado pela utilização de 10 mg de aripiprazol. Por não se tratar de níveis tão elevados, talvez, uma dose de 5 mg fosse suficiente para reversão da hiperprolactinemia <sup>14-21</sup>.

Atualmente, o que se sabe é que quando este antipsicótico atípico é adicionado à terapia com a risperidona, ele se liga com maior afinidade pelo receptor D2. Além disso, por atuar como agonista parcial, quando a

dopamina estiver hipoativa (induzida pela risperidona), o aripiprazol funcionará como agonista dopaminérgico com cerca de 30% de atividade intrínseca nos receptores pós-sinápticos, restaurando a inibição tônica das células lactotróficas da hipófise anterior, diminuindo assim, os níveis séricos de prolactina <sup>15-16</sup>.

Alguns relatos de casos apresentam sucesso terapêutico com uso do aripiprazol em pacientes com prolactinoma e sintomas psicóticos com normalização de prolactina e redução do tumor <sup>22-24</sup>. Não se sabe ao certo quão eficaz seria o uso dessa medicação para esta finalidade, pois não há até o momento Ensaios Clínicos que abordam esse assunto.

Uma indagação que a realização do presente trabalho traz é se a resposta da diminuição da prolactina com a utilização do aripiprazol poderia ser utilizada para diferenciar entre uma hiperprolactinemia medicamentosa e uma secundária a tumor hipofisário produtor de prolactina, principalmente, naqueles pacientes em que a retirada da droga potencialmente associada a alteração seja contraindicada pelo risco de descompensação da doença psiquiátrica de base. Vale lembrar que a presença de incidentaloma hipofisário (achados detectados durante a investigação de sintomas aparentemente não-relacionados à lesão hipofisária) em Ressonância Nuclear Magnética pode chegar até a 10 %, a maioria clinicamente não funcionante e é fator confundidor para estabelecer etiologia <sup>25</sup>. Na literatura não foi encontrado nenhum trabalho que realizou essa comparação.

Em relação ao quadro psiquiátrico, embora este não tenha sido abordado nesta casuística, foram identificados muitos trabalhos com ausência de alteração clínica ou mesmo melhora psíquica, associada a menores efeitos colaterais quando o antipsicótico



de primeira geração era substituído ou reduzido e associado o uso de aripiprazol<sup>15</sup>. Outro achado desta medicação foi em relação a efeitos metabólicos, que pareceram melhorar quando combinado com olanzapina ou clozapina e, com menor efeito quando combinado com risperidona ou quetiapina<sup>15,26</sup>. É comum na prática clínica dos psiquiatras a utilização concomitante de mais de uma classe de antipsicóticos devendo ser considerado o uso de aripiprazol uma opção a fim de evitar efeitos deletérios da hiperprolactinemia.

Há fatores limitantes neste trabalho, e novos estudos deverão corrigir estes vieses para se obter maior evidência em suas conclusões, no futuro. Uma delas diz respeito de ter sido avaliado apenas um paciente, o segundo, relacionado ao curto tempo de seguimento, que foram de apenas 15 dias e o terceiro ponto, a presença de microadenoma hipofisário em imagens de ressonância de sela túrcica solicitada antes de avaliação especializada do endocrinologista, apesar de ser um fator de confusão quanto à etiologia, porém, pelo nível basal de prolactina associado à utilização de diversas medicações que podem causar hiperprolactinemia há maior possibilidade diagnóstica de se tratar desta etiologia.

## CONCLUSÃO

A associação do aripiprazol parece ser uma opção segura e bastante eficaz para melhora de sintomas e redução de complicações futuras decorrentes de níveis altos de prolactina. Mais estudos são necessários a fim de se estabelecer a dose a ser utilizada frente a valores diversos de prolactina.

## REFERÊNCIAS

1. Majumdar A, Mangal NS. Hyperprolactinemia. *J Hum Reprod Sci.* 2013;6(3): 168–75.
2. Benker G, Jaspers C, Häusler G, Reinwein D. Control of prolactin secretion. *Klin Wochenschr.* 1990;68(23):1157–67.
3. Halbreich U, Kinon BJ, Gilmore JA, Kahn LS. Elevated prolactin levels in patients with schizophrenia: mechanisms and related adverse effects. *Psychoneuroendocrinology.* 2003;28 Suppl 1:53–67.
4. Nilsson LA, Roepstorff C, Kiens B, Billig H, Ling C. Prolactin suppresses malonyl-CoA concentration in human adipose tissue. *Horm Metab Res.* 2009;41(10):747–51.
5. Biller BM, Luciano A, Crosignani PG, Molitch M, Olive D, Rebar R. et al. Guidelines for the diagnosis and treatment of hyperprolactinemia. *J Reprod Med.* 1999;44(Suppl 12):1075–8.
6. Ajmal A, Joffe H, Nachtigall LB. Psychotropic-induced hyperprolactinemia: a clinical review. *Psychosomatics.* 2014; 55(1):29–36.
7. Serri O, Chik CL, Ur E, Ezzat S. Diagnosis and management of hyperprolactinemia. *CMAJ.* 2003;169(6):575–81.
8. Stahl SM. Dopamine system stabilizers, aripiprazole, and the next generation of antipsychotics, part 2: illustrating their mechanism of action. *J Clin Psychiatry.* 2001;62(12):923–4.
9. Tadori Y, Miwa T, Tottori K, Burris KD, Stark A, Mori T, Kikuchi T. Aripiprazole's low intrinsic activities at human dopamine D2L and D2S receptors render it a unique antipsychotic. *Eur J Pharmacol.* 2005;515(1-3):10–9.
10. Broekhof R, Gosselink MJ, Pijl H, Giltay EJ. The effect of aripiprazole and quinagolide, a dopamine agonist, in a patient with symptomatic pituitary prolactinoma and chronic psychosis. *Gen Hosp Psychiatry.* 2012;34(2):209.e1–3
11. Ali S, Miller KK, Freudenreich O. Management of psychosis associated with a prolactinoma: case report and review of the

- literature. *Psychosomatics*. 2010; 51(5):370–76.
12. Fernández-Balsells MM, Murad MH, Lane M, Lampropulos JF, Albuquerque F, Mullan RJ, et al. Clinical review 1: adverse effects of testosterone therapy in adult men: a systematic review and meta-analysis. *J Clin Endocrinol Metab*. 2010;95(6):2560-75.
13. Orwoll ES, Klein RF. Osteoporosis in men. *Endocr Rev*. 1995;16(1):87–116.
14. Ranjbar F, Sadeghi-Bazargani H, Niari Khams P, Arfaie A, Salari A, Farahbakhsh M. Adjunctive treatment with aripiprazole for risperidone-induced hyperprolactinemia. *Neuropsychiatr Dis Treat*. 2015;11:549-55.
15. Chen JX, Su YA, Bian QT, Wei LH, Zhang RZ, Liu YH, et al. Adjunctive aripiprazole in the treatment of risperidone-induced hyperprolactinemia: a randomized, double-blind, placebo-controlled, dose-response study. *Psychoneuroendocrinology*. 2015;58:130-40.
16. Zhao J, Song X, Ai X, Gu X, Huang G, Li X, Pang L, et al. Adjunctive Aripiprazole Treatment for Risperidone-Induced Hyperprolactinemia: An 8-Week Randomized, Open-Label, Comparative Clinical Trial. *PLoS One*. 2015;10(10):e0139717.
17. Raghuthaman G, Venkateswaran R, Krishnadas R. Adjunctive aripiprazole in risperidone-induced hyperprolactinaemia: double-blind, randomised, placebo-controlled trial. *BJPsych Open*. 2015;1(2):172-177.
18. Qiao Y, Yang F, Li C, Guo Q, Wen H, Zhu S, et al. Add-on effects of a low-dose aripiprazole in resolving hyperprolactinemia induced by risperidone or paliperidone. *Psychiatry Res*. 2016;237:83-9.
19. Yoon HW, Lee JS, Park SJ, Lee SK, Choi WJ, Kim TY, et al. Comparing the Effectiveness and Safety of the Addition of and Switching to Aripiprazole for Resolving Antipsychotic-Induced Hyperprolactinemia: A Multicenter, Open-Label, Prospective Study. *Clin Neuropharmacol*. 2016;39(6):288-94.
20. Fujioi J, Iwamoto K, Banno M, Kikuchi T, Aleksic B, Ozaki N. Effect of Adjunctive Aripiprazole on Sexual Dysfunction in Schizophrenia: A Preliminary Open-Label Study. *Pharmacopsychiatry*. 2017;50(2):74-78.
21. Jiang XJ, Wu FX, Zhang JP, Shi L, Hu JQ, Zhu HZ, et al. Effects of Risperidone and Aripiprazole on Serum Levels of Prolactin, Testosterone and Estradiol in Female Patients with Schizophrenia. *Drug Res (Stuttg)*. 2018;68(7):410-14.
22. Bakker IC, Schubart CD, Zelissen PM. Successful treatment of a prolactinoma with the antipsychotic drug aripiprazole. *Endocrinol Diabetes Metab Case Rep*. 2016;2016:160028.
23. Sheldrick AJ, Gründer G. Aripiprazole reduces serum prolactin in a woman with prolactinoma and acute psychosis. *Pharmacopsychiatry*. 2008;41(4):160.
24. Freeman B, Levy W, Gorman JM. Successful monotherapy treatment with aripiprazole in a patient with schizophrenia and prolactinoma. *J Psychiatr Pract*. 2007;13(2):120-4.
25. Hall WA, Luciano MG, Doppman JL, Patronas NJ, Oldfield EH. Pituitary magnetic resonance imaging in normal human volunteers: occult adenomas in the general population. *Ann Intern Med*. 1994;120(10):817-20.
26. Kane JM, Correll CU, Goff DC, Kirkpatrick B, Marder SR, Vester-Blokland, et al. A multicenter, randomized, double-blind, placebo-controlled, 16-week study of adjunctive aripiprazole for schizophrenia or schizoaffective disorder inadequately treated with quetiapine or risperidone monotherapy. *J Clin Psychiatry*. 2009;70(10):1348-57.

## Mesotelioma maligno do peritônio sem exposição a asbesto como causa rara de ascite

### *Malignant mesothelioma of the peritoneum without asbestos exposure as a rare cause of ascites*

Luiza Alencar Saldanha Queiroz, Raul Carlos Wahle, José Carlos Aguiar Bonadia, Paula Bechara Poletti  
Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil  
Publicação do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)

#### RESUMO

**Introdução:** O mesotelioma peritoneal maligno é uma neoplasia rara oriunda das células do tecido seroso que revestem o peritônio e apresenta uma alta letalidade quando descoberto em estágios avançados. A origem do tumor no peritônio ocorre em cerca de 20% do total de casos de mesoteliomas. A forma mais comum surge no tórax com comprometimento da pleura e está frequentemente associado à história de exposição ao asbesto. Os sintomas mais comuns são: dor abdominal, aumento do volume abdominal, perda de peso não intencional e ascite. Muitos pacientes têm diagnóstico tardio devido aos sintomas iniciais inespecíficos e à difícil caracterização do envolvimento peritoneal por imagem convencional nos estágios iniciais da doença e a detecção precoce ainda representa um grande desafio. **Relato de Caso:** Paciente de 75 anos, masculino, trabalhador rural aposentado sem exposição prévia a asbesto. Há cerca de 6 meses passou a apresentar aumento do volume abdominal, edema em membros inferiores, hiporexia e fadiga. Foi internado para investigação diagnóstica e submetido inicialmente a paracentese diagnóstica com retirada de líquido ascítico espesso e com padrão gelatinoso que impossibilitou a análise bioquímica do material coletado. Em exame de ressonância magnética de abdome observou-se presença de espessamento peritoneal difuso com moderada ascite. Foi submetido a laparoscopia exploradora com biópsias peritoneais que estabeleceram a presença de mesotelioma peritoneal maligno. Diante do estágio avançado do tumor e prognóstico reservado, a paciente e a família optaram por alta hospitalar e seguimento conjunto com equipe médica de cuidados paliativos. **Conclusão:** O presente caso ilustra a importância de termos uma alta suspeita de mesotelioma peritoneal maligno, especialmente em pacientes com quadro de ascite de início recente e imagem abdominal que mostre espessamento do peritônio, mesmo na ausência de exposição prévia ao asbesto.

**Descritores:** Peritoneal mesotelioma; asbestos; ascite; diagnóstico.

## ABSTRACT

**Introduction:** Malignant peritoneal mesothelioma is a rare neoplasm originating from serous tissue cells that line the peritoneum and has a high lethality when discovered in advanced stages. The origin of the tumor in the peritoneum occurs in about 20% of all mesothelioma cases. The most common form appears in the chest with involvement of the pleura and is often associated with a history of exposure to asbestos. The most common symptoms are: abdominal pain, increased abdominal volume, unintentional weight loss and ascites. Many patients have a late diagnosis due to nonspecific initial symptoms and the difficult characterization of peritoneal involvement by conventional imaging in the early stages of the disease, and early detection still represents a major challenge. **Case Report:** 75-year-old male patient, retired rural worker with no prior exposure to asbestos. About 6 months ago, he began to present an increase in abdominal volume, edema in the lower limbs, hyporexia and fatigue. He was hospitalized for diagnostic investigation and initially underwent diagnostic paracentesis with removal of thick ascitic fluid with a gelatinous pattern that made biochemical analysis of the material collected impossible. Abdominal magnetic resonance imaging revealed the presence of diffuse peritoneal thickening with moderate ascites. He underwent exploratory laparoscopy with peritoneal biopsies that established the presence of malignant peritoneal mesothelioma. Given the advanced stage of the tumor and poor prognosis, the patient and her family opted for hospital discharge and follow-up with the palliative care medical team. **Conclusion:** The present case illustrates the importance of having a high suspicion of malignant peritoneal mesothelioma, especially in patients with recent onset of ascites and abdominal image showing peritoneum thickening, even in the absence of previous exposure to asbestos.

**Keywords:** Mesothelioma peritoneal; asbestos; ascites; diagnosis.

### *Correspondência:*

Luiza Alencar Saldanha Queiroz  
E-mail: luisaasq@hotmail.com  
Data de submissão: 04/03/2021  
Data de aceite: 19/10/2022

### *Trabalho realizado:*

Serviço de Gastroenterologia do Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil.  
Endereço: Rua Pedro de Toledo, 1800, 15º andar - Vila Clementino - CEP: 04039-901, São Paulo, SP, Brasil.

## INTRODUÇÃO

O mesotelioma peritoneal maligno (MPM) é uma neoplasia rara e letal que se origina das células mesoteliais do peritônio. Apresenta uma incidência, nos Estados Unidos da América (EUA), de 500 a 700 casos novos/ano<sup>1-3</sup>. A forma de apresentação da doença é diversa e inespecífica, acometendo principalmente indivíduos em torno da 5ª e 6ª a década de vida, com maior predomínio em homens<sup>4-5</sup>. Apesar dos avanços nas modalidades terapêuticas, o MPM apresenta uma alta letalidade e recente estudo populacional realizado na Finlândia no período de 2000 a 2012, identificou 90 casos de MPM e observou média de sobrevida após diagnóstico de 12,5 meses e a mediana, de 4,0 meses<sup>3</sup>.

Alguns fatores de risco têm sido relacionados ao aparecimento do mesotelioma, especialmente a exposição a minérios como asbestos. Cerca de 80% dos casos de mesotelioma pleural podem estar associados a tal fator. Já no MPM, cerca de 30 a 50% podem estar associados à exposição progressiva de asbesto<sup>2,5-6</sup>.

Os sintomas mais frequentemente descritos são distensão abdominal e dor abdominal difusa que ocorre em cerca de 50% dos pacientes por conta, na maioria das vezes, da presença de ascite<sup>1-3</sup>. A principal forma de investigação quanto à possibilidade de MPM é através de exames de imagem, principalmente tomografia computadorizada de abdomen contrastada. Entretanto não existem achados patognomônicos do MPM nos métodos de imagem. Usualmente métodos mais invasivos como laparoscopia exploradora com biopsias do omento e peritônio e posterior análise imunohistoquímica podem ser decisivos para confirmar tal diagnóstico. O tempo médio para estabelecimento do diagnóstico após início dos sintomas varia de 4 a 6 meses e a detecção precoce do mesotelioma peritoneal maligno ainda representa um grande desafio<sup>7</sup>.

## RELATO DE CASO

Paciente V.T., 75 anos, masculino, trabalhador rural aposentado sem exposição prévia a asbesto. Passou a apresentar há cerca de 6 meses aumento do volume abdominal, edema em membros inferiores, hiporexia e fadiga. Paciente foi internado para investigação diagnóstica e submetido inicialmente a paracentese diagnóstica com retirada de líquido ascítico espesso e com padrão gelatinoso que impossibilitou a análise bioquímica do material coletado. Em exame de ressonância magnética com contraste de abdome visualizou-se presença de espessamento peritoneal difuso com moderada ascite. Exames laboratoriais evidenciaram apenas presença de hipotireoidismo que foi prontamente tratado.

O paciente foi submetido a laparoscopia exploradora com biópsias do peritônio tendo sido identificado durante procedimento cirúrgico, presença de espessamento nodular generalizado do peritônio visceral contendo inúmeros implantes tumorais na parede abdominal (Figura 1). Após estudo imunohistoquímico das biópsias realizadas caracterizou-se MPM. Diante do estágio avançado do tumor e prognóstico reservado, o paciente e a família optaram por alta hospitalar e seguimento conjunto com equipe médica de cuidados paliativos.



**Figura 1:** Visualização direta do peritônio visceral durante laparotomia exploradora com inúmeros implantes tumorais (setas).

## DISCUSSÃO

O mesotelioma peritoneal maligno é uma neoplasia rara e com elevada letalidade oriunda das células do tecido seroso que revestem o peritônio<sup>1-3</sup>.

Devido à sua raridade, ainda não existem ensaios clínicos randomizados que avaliem as melhores estratégias de tratamento do MPM. Têm sido propostas diferentes modalidades de abordagem, tais como quimioterapia sistêmica, imunoterapia e cirurgia de citorredução. Apesar dos avanços na quimioterapia e imunoterapia, a ressecção cirúrgica é a opção que costuma trazer melhor sobrevida. Mas pacientes não são candidatos à ressecção cirúrgica devido ao estágio avançado da doença no momento do diagnóstico como no caso relatado<sup>7-9</sup>.

Os desafios para estabelecer um diagnóstico precoce de MPM começam pela presença de sintomas inespecíficos como dor abdominal difusa e aumento do volume abdominal no início do quadro. Além disso, deve-se lembrar a identificação de fatores de risco bem reconhecidos como exposição pregressa ao asbesto que está presente em cerca de 1/3 dos casos de MPM<sup>5-6,8</sup>. Diante de pacientes com achados radiológicos inespecíficos de espessamento peritoneal, tal diagnóstico deve fazer parte do diagnóstico diferencial<sup>10</sup>.

## CONCLUSÃO

O presente caso ilustra a importância de se ter suspeição de mesotelioma peritoneal maligno diante de pacientes que apresentem quadro de ascite de início recente e com achados inespecíficos de espessamento e/ou nodularidade peritoneal nos métodos de imagem mesmo na ausência de exposição pregressa ao asbesto.

## REFERÊNCIAS

1. Broeckx G, Pauwels P. Malignant peritoneal mesothelioma: a review. *Transl Lung Cancer Res.* 2018;7(5):537-42.
2. Greenbaum A, Alexander HR. Peritoneal mesothelioma. *Transl Lung Cancer Res.* 2020;9(Suppl 1):S120-S132.
3. Salo SA, Ilonen I, Laaksonen S, Myllärniemi M, Salo JA, Rantanen T. Epidemiology of malignant peritoneal mesothelioma: a population-based study. *Cancer Epidemiol.* 2017;51:81-6.
4. Li CY, Alexander Jr HR. Peritoneal metastases from malignant mesothelioma. *Surg Oncol Clin N Am.* 2018;27(3):539-49.
5. Uhlenhopp DJ, Saliates A, Gaduputi V, Sunkara T. An unpleasant surprise: abdominal presentation of malignant mesothelioma. *J Investig Med High Impact Case Rep.* 2020;8:2324709620950121.
6. Abbas H, Rodriguez JC, Tariq H, Niazi M, Alemam A, Nayudu SK. Malignant peritoneal mesothelioma without asbestos exposure. *Gastroenterol Res.* 2019;12(1):48-51.
7. Enomoto LM, Shen P, Levine EA, Votanopoulos KI. Cytoreductive surgery with hyperthermic intraperitoneal chemotherapy for peritoneal mesothelioma: patient selection and special considerations. *Cancer Manag Res.* 2019;11:4231-41.
8. Ibrahim AM, Al-Akchar M, Obaidi Z, Al-Johany H. Malignant peritoneal mesothelioma: A rare cause of ascites. *J Investig Med High Impact Case Rep.* 2018; 6:2324709618807506.
9. Verma V, Sleightholm RL, Rusthoven CG, Koshy M, Sher DJ, Grover S, Simone CB. Malignant peritoneal mesothelioma: national practice patterns, outcomes, and predictors of survival. *Ann Surg Oncol.* 2018;25(7):2018-26.
10. Sousa SM, Pereira F, Duarte M, Marques M, Vázquez D, Marques C. Malignant peritoneal mesothelioma as a rare cause of dyspeptic complaints and ascites: a diagnostic challenge. *GE Port J Gastroenterol.* 2020;27(3):197-202.

## Adenocarcinoma de bulbo duodenal tratado endoscopicamente

### *Endoscopically treated duodenal bulb adenocarcinoma*

Ana Beatriz Campelo Campos, Jose Francisco de Mattos Farah  
Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil  
Publicação do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)

#### RESUMO

O câncer de intestino delgado é uma neoplasia rara, com apresentação insidiosa. O tratamento por cirurgia aberta convencional tem grande morbidade. Este relato de caso refere-se a uma paciente jovem com diagnóstico de adenocarcinoma de bulbo duodenal tratado com ressecção endoscópica curativa, apesar dos riscos de complicações associadas a essa terapêutica, mesmo em mãos experientes. O procedimento associa-se a melhor qualidade de vida e menor morbidade. Há estudos recentes que não evidenciam recidiva de doença durante seguimento ambulatorial após ressecção completa com margens.

**Descritores:** Neoplasias duodenais; ressecção endoscópica; recidiva.

#### ABSTRACT

Small bowel cancer is a rare neoplasm with an insidious presentation. Treatment by conventional open surgery has high morbidity. This case report refers to a young patient diagnosed with adenocarcinoma of the duodenal bulb treated with curative endoscopic resection, despite the risks of complications associated with this therapy, even in experienced hands. The procedure is associated with better quality of life and lower morbidity. There are recent studies that do not show disease recurrence during outpatient follow-up after complete resection with margins.

**Keywords:** Duodenal neoplasms; endoscopic resection; recurrence.

#### *Correspondência:*

Ana Beatriz Campelo Campos  
E-mail: anabiac@yahoo.com.br  
Data de submissão: 09/01/2020  
Data de aceite: 19/10/2022

#### *Trabalho realizado:*

Serviço de Cirurgia Geral do Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP.  
Endereço: Rua Pedro de Toledo, 1800, 8º andar - Vila Clementino - CEP: 04039-901, São Paulo, SP, Brasil.

## INTRODUÇÃO

O câncer do intestino delgado é neoplasia rara, responsável por menos de 5% das doenças malignas do trato gastrointestinal (TGI). O adenocarcinoma de duodeno é uma das mais raras formas de apresentação, e é encontrado em menos de 0,5% das neoplasias malignas, destas, somente 18-23% localizam-se no bulbo duodenal<sup>1-3</sup>.

A ressecção endoscópica (RE) é amplamente reconhecida no tratamento do câncer gástrico precoce, com expansão de suas indicações para o câncer de esôfago e colorretal. Apesar da dificuldade técnica para lesões localizadas no duodeno, tendo em vista a espessura da parede duodenal e o risco de perfurações e sangramentos, atualmente a ressecção de mucosa e submucosa por endoscopia digestiva alta (EDA) de tumores duodenais configura-se como boa alternativa terapêutica, porém os relatos são raros.<sup>4</sup>

## RELATO DE CASO

Paciente do sexo feminino, com idade de 34 anos, deu entrada no pronto-socorro do Hospital do Servidor Público Estadual – “Francisco Morato de Oliveira”, HSPE – FMO de São Paulo em dezembro de 2018 com quadro de hematêmese, sendo submetida a EDA que evidenciou extensa lesão polipóide com base de implantação em parede antero-superior do duodeno, semi-pediculada, larga, com a parte cefálica medindo 3,3x3,0x3,0 cm<sup>3</sup> de tamanho, friável ao toque instrumental e com oclusão de quase toda luz da flexura bulboduodenal. Realizou-se profilaxia hemostática com adrenalina e soro fisiológico 0,9% (1:20.000 e 15ml) na base. Em seguida, clipagem da base pediculada e polipectomia com alça diatérmica, sem intercorrências.

O exame anatomopatológico da peça revelou tratar-se de adenocarcinoma bem diferenciado, intramucoso, com pedículo contendo áreas de displasia epitelial moderada

e embolização vascular não detectada. Foram realizadas tomografias computadorizadas de tórax e abdome que não revelaram alterações de relevância oncológica.

Em fevereiro de 2019, a paciente foi submetida a nova endoscopia digestiva alta de controle que evidenciou retração cicatricial em parede anterior do bulbo e cujo exame anatomopatológico revelou fragmentos de duodeno com leve infiltrado inflamatório linfoplasmocitário no córion. Devido à história familiar positiva de neoplasia do trato gastrointestinal (TGI) e aparecimento precoce da doença, complementou-se a investigação com colonoscopia, mamografia e ultrassonografia de abdome e pelve que não demonstraram alterações de significado oncológico. Realizada EDA de controle em setembro que manteve a mesma característica. Após um ano de seguimento não havia sinais de recidiva ou metástase.

## DISCUSSÃO

A ressecção endoscópica da submucosa (RES) é amplamente realizada em centros especializados do Japão para lesões superficiais do esôfago, estômago e cólon. Apesar de possibilitar uma proporção maior de ressecções em bloco e avaliações histológicas mais precisas, o procedimento está associado a maior risco de perfuração. Em contrapartida, a ressecção endoscópica da mucosa (REM), constitui-se um procedimento mais seguro e apesar de resultar em menor proporção de ressecções em bloco, atualmente é reconhecida como o procedimento padrão para o tratamento endoscópico de tumores duodenais não-ampulares<sup>4-6</sup>.

Estudo publicado em 2015 por Nonaka et. al.<sup>7</sup>, no qual acompanharam, por mais de um ano 76 de 113 pacientes submetidos a RE de tumores duodenais. Resultou em uma taxa de sobrevida específica pela doença de 100%. Além disso, não houve recidivas, durante o seguimento, que variou de 12 a 163 meses.



Em contrapartida, 2 pacientes submetidos a ressecção endoscópica da submucosa necessitaram de cirurgia devido a perfuração durante o procedimento. Os resultados sugeriram que a ressecção endoscópica duodenal é um procedimento terapêutico difícil, porém viável, apresentando um excelente prognóstico.

## CONCLUSÃO

O tratamento radical por endoscopia é uma alternativa a ressecções cirúrgicas radicais e deve ser realizado por endoscopistas altamente qualificados devido à sua dificuldade técnica e maior incidência de complicações.

## REFERÊNCIAS

1. Siegel RL, Miller KD, Jemal A. Cancer statistics, 2017. *CA Cancer J Clin.* 2017; 67(1):7–30.
2. Kim MJ, Choi SB, Han HJ, Park PJ, Kim WB, Song TJ, et al. Clinicopathological analysis and survival outcome of duodenal adenocarcinoma. *Kaohsiung J Med Sci.* 2014;30(5):254-09.
3. Liu Y, Shen Z, Yu C, Li Y. Uncurable duodenal bulb ulcer-may be duodenal bulb cancer. *Turk J Gastroenterol* 2014;25 Suppl 1:297-8.
4. Matsumoto S, Miyatani H, Yoshida Y. Endoscopic submucosal dissection for duodenal tumors: a single-center experience. *Endoscopy.* 2013;45(2): 136-37.
5. Inoue T, Uedo N, Yamashina T, Yamamoto S, Hanaoka N, Takeuchi Y, et al. Delayed perforation: a hazardous complication of endoscopic resection for non-ampullary duodenal neoplasm. *Dig Endosc.* 2014;26(2):220–27.
6. Maruoka D, Arai M, Kishimoto T, Matsumura T, Inoue M, Nakagawa T, et al. Clinical outcomes of endoscopic resection for nonampullary duodenal high-grade dysplasia and intramucosal carcinoma. *Endoscopy.* 2013;45(2):138–41.
7. Nonaka S, Oda I, Tada K, Mori G, Sato Y, Abe S, et al. Clinical outcome of endoscopic resection for nonampullary duodenal tumors. *Endoscopy.* 2015;47(2):129–35.

## Síndrome da pelve vazia e hérnia perineal em pós-operatório tardio de retossigmoidectomia videolaparoscópica com anastomose coloanal complicado com prolapso anastomótico

*Empty pelvis syndrome and perineal hernia in the late postoperative period of laparoscopic rectosigmoidectomy with coloanal anastomosis complicated by anastomotic prolapse*

Lucas de Araujo Horcel, Marcos Claudio Radtke

Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil

Publicação do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)

### RESUMO

**Introdução:** Hérnias perineais são definidas como a protrusão de estruturas intra ou extraperitoneais através de um defeito no diafragma pélvico. Estima-se que a incidência das hérnias perineais venha a crescer nos próximos anos devido ao maior número de casos de pacientes submetidos a tratamentos curativos para neoplasias malignas do reto e uso de radioterapia associada. **Relato do Caso:** Paciente de 77 anos do sexo feminino com antecedente de quimio e radioterapia neoadjuvantes e retossigmoidectomia videolaparoscópica com anastomose coloanal término-terminal por adenocarcinoma de reto baixo. Evoluiu com prolapso retal importante, sendo necessária a confecção de colostomia terminal e fechamento perineal. Após quatro anos da primeira abordagem cirúrgica, desenvolveu hérnia perineal, com exame físico e exames de imagem que confirmaram a hipótese diagnóstica. Foi realizada abordagem laparotômica com redução do conteúdo herniário e fixação de tela dupla face. Alta no segundo dia de pós-operatório. **Conclusão:** Hérnias perineais são complicações raras pós abordagens colorretais oncológicas. Estudos com níveis de evidência superiores e maiores tempos de seguimento dos pacientes submetidos a cirurgias são necessários para determinar quais as melhores abordagens para tratá-los a fim de evitar recorrências e complicações futuras.

**Descritores:** Hérnia interna; reto; adenocarcinoma; cirurgias; ileostomia; quimiorradioterapia; tomografia computadorizada.

### ABSTRACT

**Introduction:** Perineal hernias are defined as the protrusion of intra or extraperitoneal structures through a defect in the pelvic diaphragm. It is estimated that the incidence of perineal hernias will grow in the coming years due to the greater number of cases of patients undergoing curative treatments for malignant neoplasms of the rectum and the use of associated radiotherapy. **Case Report:** A 77-year-old female patient with a history of neoadjuvant chemo and radiotherapy and videolaparoscopic rectosigmoidectomy with end-to-end coloanal anastomosis due to a low rectum adenocarcinoma. The patient evolved with significant rectal prolapse, requiring a terminal colostomy and perineal closure. Four years after the first surgical approach, she developed a perineal hernia, with physical examination and imaging tests confirming the diagnostic hypothesis. A laparotomy was performed with reduction of hernial content and dual-side mesh fixation, and the patient was discharged on the second postoperative day. **Conclusion:** Perineal hernias are rare complications after colorectal oncological procedures. Studies with stronger levels of evidence and longer follow-up times for patients undergoing surgery are needed to determine the best approaches to treat them in order to avoid recurrences and future complications.

**Keywords:** Internal Hernia; rectum; adenocarcinoma; surgery; ileostomy, chemoradiotherapy; computed tomography.

#### Correspondência:

Lucas de Araujo Horcel  
E-mail: lucashorcel@uol.com.br  
Data de submissão: 29/03/2022  
Data de aceite: 07/11/2022

#### Trabalho realizado:

Serviço de Gastrocirurgia do Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP.  
Endereço: Rua Pedro de Toledo, 1800, 14º andar - Vila Clementino - CEP: 04039-901, São Paulo, SP, Brasil.

## INTRODUÇÃO

Hérnias perineais são definidas como a protrusão de estruturas intra ou extraperitoneais através de um defeito no diafragma pélvico. Quando o defeito é congênito, classifica-se a hérnia como primária, e se adquirido, como em pós-operatórios de cirurgias pélvicas intra-abdominais, denomina-se secundária. Procedimentos pélvicos mais relacionados com a incidência de hérnias perineais são as cirurgias de reto e próstata. Anatomicamente, as hérnias perineais podem ser classificadas em anteriores e posteriores, usando como referência o músculo transverso superficial perineal<sup>1-2</sup>.

Em pós-operatórios de cirurgias colorretais oncológicas como amputação abdominoperineal e sua variante com excisão dos músculos supraelevadores, a ELAPE, a incidência de hérnias perineais chega a aproximadamente 1% em pacientes sintomáticos e 7% em assintomáticos<sup>3</sup>. Estima-se que a incidência das hérnias perineais venha a crescer nos próximos anos devido ao maior número de casos de pacientes submetidos a tratamentos curativos para neoplasias malignas do reto e uso de radioterapia associada<sup>4-5</sup>. Essas herniações são decorrentes da síndrome da pelve vazia, isto é, do vazio deixado após cirurgias colorretais, urológicas e ginecológicas, o qual permite acúmulo de líquidos e alças entéricas, favorecendo deiscência perineal e fístulas enterocutâneas<sup>6</sup>.

Apesar de mostrar-se uma complicação incomum, existem relatos de casos e outros estudos na literatura vigente com descrições de diversas técnicas cirúrgicas, desde abdominais laparotômicas e laparoscópicas, abordagens perineais, retalhos de fechamento, uso de telas biológicas ou dupla face e até mesmo o preenchimento do oco pélvico com próteses de silicone<sup>6-8</sup>.

Por ser uma complicação rara e na maioria das vezes, assintomática, há poucos relatos de caso que documentam essa doença, o que justifica a realização deste relato de caso.

## CASO CLÍNICO

Paciente selecionada com 77 anos de idade, do sexo feminino. Antecedentes pessoais incluem hipertensão arterial, diabetes e passado de tabagismo cessado há 30 anos. Antecedentes cirúrgicos com histerectomia por mioma uterino.

Realizava seguimento com equipe de coloproctologia de hospital terciário devido a adenocarcinoma moderadamente diferenciado do reto baixo. Tratada com neoadjuvância com o xaliplatina e radioterapia, resultou em downstage em 8 semanas de cT3N0M0 para cT1N0M0. Submetida a retossigmoidectomia videolaparoscópica com anastomose coloanal término terminal manual e confecção de ileostomia de proteção dois meses após quimiorradioterapia. Sete meses após a cirurgia, referiu dor em região perineal e incontinência fecal. Exame proctológico mostrou prolapso retal importante. Optado por confecção de colostomia terminal em flanco esquerdo, fechamento da ileostomia de proteção e amputação do ânus com fechamento perineal em dezembro de 2017.

Dois anos após, evoluiu com abaulamento da região da colostomia, e foi avaliada e diagnosticada com volumosa hérnia paracolostômica, abordada cirurgicamente com herniorrafia paracolostômica com colocação de tela. Após quatro anos da primeira cirurgia, a paciente retornou em consulta ambulatorial, com seguimento oncológico adequado, porém referindo dores em região perineal, principalmente ao sentar e deambular.

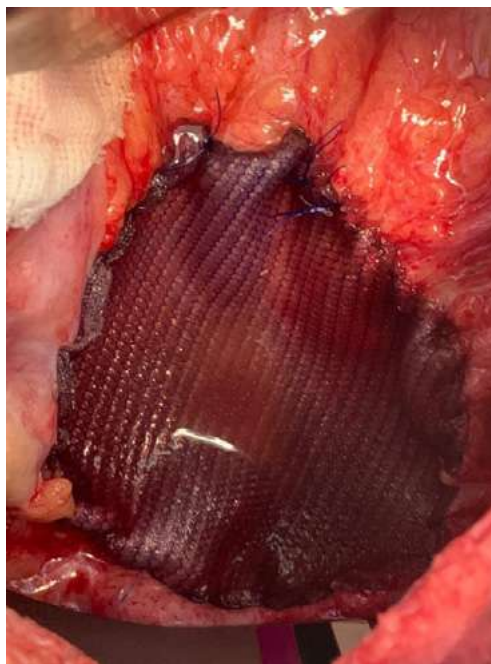
Seu exame físico exibia abaulamento volumoso da região perineal posterior, sem acometimento da região vaginal, com conteúdo de alças intestinais palpáveis com peristaltismo visível, concomitante a erosão da pele adjacente. Exame de ressonância magnética da pelve revelou herniação de conteúdo adiposo e alças intestinais em oco pélvico, posterior ao músculo superficial transversal do períneo, o que configurou hérnia perineal posterior. Tomografia computadorizada detectou a mesma alteração.



**Figura 1** - Tomografia computadorizada confirmando achado de hérnia perineal. Observa-se protrusão de alças entéricas que passam a ocupar o oco pélvico.

No intraoperatório não foram necessárias lises de aderências para mobilização das alças entéricas. As dimensões da pelve foram aferidas com régua plástica estéril, com diâmetro anteroposterior de 8 cm e laterolateral de 7 cm.

Realizada correção laparotômica abdominal da hérnia perineal com redução do conteúdo herniado e fixação de tela dupla face nas reflexões peritoneais circunferencialmente na altura do promontório (figura 2).



**Figura 2** - Fixação de tela dupla face.

A paciente recebeu alta hospitalar no 2º dia de pós-operatório após adequado controle algico e boa aceitação de dieta.

Em seguimento ambulatorial, em 4 meses de pós operatório, não houve sinais de recidiva da hérnia e paciente obteve melhora da qualidade de vida com alívio sintomático e prevenção de complicações.

## DISCUSSÃO

O caso relatado retrata paciente do sexo feminino com múltiplos fatores de risco para desenvolvimento da síndrome da pelve vazia e hérnia perineal, dentre eles: cirurgia colorretal, neoplasia maligna, histerectomia prévia e tratamento radioterápico adjuvante<sup>9-11</sup>.

Quanto ao tempo de desenvolvimento da herniação, o objeto de pesquisa estudado não mostrou concordância com a literatura, visto que a complicação foi documentada após mais de três anos (41 meses) após fechamento do períneo, enquanto a base de dados vigente mostra que o tempo mais frequentemente documentado é dentro dos dois primeiros anos após cirurgia, principalmente nos dez primeiros meses<sup>5,12</sup>.

Não há um melhor método comprovado para o diagnóstico da doença. O exame físico que demonstra abaulamento e até mesmo a sensação de peristalse de alças intestinais por uma área enfraquecida do períneo, muitas vezes não é corroborado por exames de imagem, visto que a hérnia pode ser reduzida facilmente quando o paciente está em posição supina.

O paciente com hérnia perineal pequena e assintomática deve avaliar o desejo de procedimento cirúrgico, visto que podem ocorrer complicações cirúrgicas. Já em pacientes com hérnias volumosas concomitante a erosões de pele e risco de formação de fístu-

las enterocutâneas, o procedimento deve ser estimulado para ser realizado a fim de reduzir maiores complicações.

Existem diversas formas de correção de hérnias perineais, desde cirurgias exclusivamente perineais ou abdominais até combinações entre as duas. O objeto de pesquisa deste relato de caso foi submetido a abordagem abdominal exclusiva, visto que a hérnia era de grandes dimensões e abordagem abdominal relaciona-se com menor percentagem de recorrência<sup>3</sup>.

Acredita-se que a abordagem perineal tenha uma apresentação de estruturas mais limitada durante o intraoperatório e, por conta disso, a fixação de tela e a realização de retalhos musculares tornam-se mais difíceis. Entretanto, a cirurgia perineal ainda é a mais utilizada, provavelmente por ser mais segura para o paciente, com menores chances de íleo paralítico no pós-operatório e recuperação mais rápida<sup>13-14</sup>.

Segundo revisão sistemática de Balla et al.<sup>15</sup>, a via laparoscópica tem substituído a via laparotômica nos últimos anos. No caso descrito, foi optada pela via laparotômica devido à possibilidade de dificuldade ao acesso da cavidade, visto múltiplas cirurgias abdominais prévias.

A fim de evitar o desenvolvimento da síndrome da pelve vazia, estudos recentes propõem abordagem conjunta da ressecção oncológica com o fechamento do oco pélvico com retalho ou tela, apresentando bons resultados. Os indivíduos submetidos a fechamento com tela apresentaram menor desenvolvimento de hérnia perineal quando comparados ao retalho<sup>16-20</sup>.

Dentre as limitações do presente estudo está o número de um único paciente devido à raridade da complicação descrita.

Outra limitação que deve ser ressaltada é a ausência de seguimento a longo prazo do objeto de pesquisa descrito neste relato, a qual não permitiu avaliar a recorrência da hérnia.

## REFERÊNCIAS

1. Stamatiou D, Skandalakis JE, Skandalakis LJ, Mirilas P. Perineal hernia: surgical anatomy, embryology, and technique of repair. *Am Surg.* 2010;76(5):474-9.
2. Berendzen J, Copas Jr P. Recurrent perineal hernia repair: a novel approach. *Hernia.* 2013;17(1):141-44.
3. Bertrand K, Lefevre JH, Creavin B, Luong M, Debove C, Voron T, et al. The management of perineal hernia following abdomino-perineal excision for cancer. *Hernia.* 2020;24(2):279-86.
4. Martijnse IS, Holman F, Nieuwenhuijzen GA, Rutten HJ, Nienhuijs SW. Perineal hernia repair after abdominoperineal rectal excision. *Dis Colon Rectum* 2012;55(1):90-95.
5. Sayers AE, Patel RK, Hunter IA. Perineal hernia formation following extralevator abdominoperineal excision. *Colorectal Dis.* 2015;17(4):351-55.
6. Johnson YL, West MA, Gould LE, Drami I, Behrenbruch C, Burns EM, et al. Empty pelvis syndrome: a systematic review of reconstruction techniques and their associated complications. *Colorectal Dis.* 2022;24(1):16-26.
7. Peña ME, Sadava EE, Perfumo MM, Piatti J, Bun ME, Rotholtz NA. Primary Perineal Hernia: Laparoscopic Repair. *Dis Colon Rectum.* 2020;63(4):563.
8. Morales-Cruz M, Oliveira-Cunha M, Chaudhri S. Perineal hernia repair after abdominoperineal rectal excision with prosthetic mesh-a single surgeon experience. *Colorectal Dis.* 2021;23(6):1569-72.
9. Bullard KM, Trudel JL, Baxter NN, Rothenberger DA. Primary perineal wound closure after preoperative radiotherapy and abdominoperineal resection has a high incidence of wound failure. *Dis Colon Rectum.* 2005;48(3):438-43.
10. Stone HB, Coleman CN, Anscher MS, McBride WH. Effects of radiation on normal tissue: consequences and mechanisms. *Lancet Oncol.* 2003;4(9):529-36.
11. Artioukh DY, Smith RA, Gokul K. Risk factors for impaired healing of the perineal wound after abdominoperineal resection of rectum for carcinoma. *Colorectal Dis.* 2007;9(4):362-67.
12. Aboian E, Winter DC, Metcalf DR, Wolff BG. Perineal hernia after proctectomy: prevalence, risks, and management. *Dis Colon Rectum.* 2006;49(10):1564-68.
13. So JB, Palmer MT, Shellito PC. Postoperative perineal hernia. *Dis Colon Rectum.* 1997;40(8):954-57.
14. Mjoli M, Sloothaak DA, Buskens CJ, Bemelman WA, Tanis PJ. Perineal hernia repair after abdominoperineal resection: a pooled analysis. *Colorectal Dis.* 2012;14(7):e400-e406.
15. Balla A, Batista Rodríguez G, Buonomo N, Martinez C, Hernández P, Bollo J, Targarona EM. Perineal hernia repair after abdominoperineal excision or extralevator abdominoperineal excision: a systematic review of the literature. *Tech Coloproctol.* 2017;21(5):329-36.

16. Musters GD, Klaver CE, Bosker RJ, Burger JW, van Duijvendijk P, van Etten B, et al. Biological mesh closure of the pelvic floor after extralevator abdominoperineal resection for rectal cancer: a multicenter randomized controlled trial (the BIOPEX-study). *Ann Surg.* 2017;265(6):1074-81.
17. Jensen KK, Rashid L, Pilsgaard B, Møller P, Wille-Jørgensen P. Pelvic floor reconstruction with a biological mesh after extralevator abdominoperineal excision leads to few perineal hernias and acceptable wound complication rates with minor movement limitations: single-centre experience including clinical examination and interview. *Colorectal Dis.* 2014;16(3):192-97.
18. Ge W, Jiang SS, Qi W, Chen H, Zheng LM, Chen G. Extralevator abdominoperineal excision for rectal cancer with biological mesh for pelvic floor reconstruction. *Oncotarget.* 2017;8(5):8818-24.
19. Christensen HK, Nerstrøm P, Tei T, Laurberg S. Perineal repair after extralevator abdominoperineal excision for low rectal cancer. *Dis Colon Rectum.* 2011;54(6):711-17.
20. Foster JD, Pathak S, Smart NJ, Branagan G, Longman RJ, Thomas MG, Francis N. Reconstruction of the perineum following extralevator abdominoperineal excision for carcinoma of the lower rectum: a systematic review. *Colorectal Dis.* 2012;14(9):1052-59.

## Malacoplaquia Vesical

### *Bladder Malakoplakia*

Matheus Sales Bezerra, Thiago Souto Hemerly  
Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil  
Publicação do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)

#### RESUMO

A malacoplaquia é uma doença inflamatória crônica rara já retratada em quase todos os órgãos do corpo. O comprometimento vesical está associado a sintomas irritativos urinários e hematúria. Pode cursar com febre, diarreia e emagrecimento, além de insuficiência renal se houver obstrução ureteral por infiltrado vesical. O diagnóstico é difícil apenas com o quadro clínico. Há necessidade da histopatologia e da imunohistoquímica do material coletado por ressecção transuretral de bexiga. Relata-se o caso de paciente de 43 anos, tabagista (8 maços/ano), com histórico de infecções repetidas do trato urinário, que procurou atendimento no pronto socorro do Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira" de São Paulo, com quadro de insuficiência renal. À ultrassonografia evidenciava-se imagem ovalada de aspecto polipóide intravesical junto ao óstio ureteral direito com cerca de 1,5cm x 1,4cm. A paciente foi submetida à cistoscopia, que visualizou múltiplas lesões de aproximadamente 5mm, seguida de ressecção transuretral de bexiga e o material foi enviado para estudo histopatológico, confirmando presença de malacoplaquia vesical.

**Descritores:** Malacoplaquia vesical; insuficiência renal; infecção urinária de repetição

#### ABSTRACT

Malakoplakia is a rare chronic inflammatory disease already seen in almost all organs of the body. Bladder involvement is associated with urinary irritative symptoms and hematuria. It can course with fever, diarrhea and weight loss, in addition to renal failure if there is ureteral obstruction due to bladder infiltration. Diagnosis is difficult with the clinical picture alone. There is a need for histopathology and immunohistochemistry of the material collected by transurethral resection of the bladder. We report the case of a 43-year-old patient, smoker (8 packs/year), with a history of repeated urinary tract infections, who sought care at the emergency room of the Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira" of São Paulo, with a picture of renal insufficiency. Ultrasonography showed an intravesical oval polypoid image next to the right ureteral ostium measuring approximately 1.5cm x 1.4cm. The patient underwent cystoscopy, which visualized multiple lesions of approximately 5 mm, followed by transurethral resection of the bladder and the material was sent for histopathological study, confirming the presence of bladder malacoplakia.

**Keywords:** Bladder malakoplakia; renal insufficiency; recurrent urinary tract infection

#### Correspondência:

Matheus Sales Bezerra  
E-mail: matheusalesb@hotmail.com  
Data de submissão: 27/01/2020  
Data de aceite: 19/10/2022

#### Trabalho realizado:

Serviço de Cirurgia Geral do Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP.  
Endereço: Rua Pedro de Toledo, 1800 - 8º andar - Vila Clementino - CEP: 04039-901, São Paulo, SP, Brasil.



## INTRODUÇÃO

A malacoplaquia é uma doença inflamatória crônica incomum que foi descrita pela primeira vez em 1902 por Michaelis e Gutman e um ano após nomeada por von Hansemann<sup>1-2-3</sup>. A doença já foi descrita em quase todos os órgãos do corpo, porém tem o trato geniturinário como o local mais comumente afetado, principalmente a bexiga<sup>4-5</sup>. A etiopatogenia não está totalmente esclarecida, porém consiste em uma infiltração maciça por células inflamatórias (macrófagos e histiócitos), secundárias a patógenos bacterianos (*E.coli*), com inclusões intracitoplasmáticas características (corpos de Michaelis-Gutmann, que são patognomônicos)<sup>6-7-8-9-10</sup>. Ela é mais comum em mulheres (4:1) na quinta e sexta décadas de vida e em imunocomprometidos<sup>11-12-13</sup>. Geralmente, o acometimento vesical está associado a sintomas irritativos urinários e hematúria micro ou macroscópica, podendo também cursar com febre, diarreia, emagrecimento. O quadro ureteral está associado a obstrução secundária que, se for bilateral, pode desencadear um quadro de insuficiência renal<sup>15</sup>. A cultura de urina é positiva para bacilos gram-negativos em cerca de 90% dos casos, sendo a *E. coli* a cepa mais comum<sup>8-16</sup>.

O diagnóstico torna-se difícil apenas com o quadro clínico. Há necessidade de análise histopatológica e imunohistoquímica do material coletado, obtida por cistoscopia associada a ressecção transureteral (RTU) nos quadros vesicais<sup>17-18</sup>. O tratamento consiste em períodos prolongados de uso de quinolonas com excelente resposta. É aconselhável a suspensão de imunossupressores se em tratamento com tais. A cirurgia de ressecção das lesões pode ser necessária com o progresso da doença, apesar do tratamento antibacteriano, porém não é o tratamento de primeira linha<sup>14-15</sup>.

## CASO CLÍNICO

Paciente do sexo feminino, 43 anos, tabagista (8 maços ano), com histórico de ITU de repetição e sem uso de medicamentos de forma crônica, procurou atendimento no pronto socorro do Hospital do Servidor Público Estadual “Francisco Morato de Oliveira”, HSPE-FMO de São Paulo, com queixa de edema de membros inferiores, náuseas, vômitos e diarreia sem produtos patológicos há cinco dias. Negava dor abdominal, febre ou hematúria macroscópica. Solicitada ultrassonografia de rins e vias urinárias que evidenciou parede vesical difusamente espessada e trabeculada com imagem ovalada de aspecto polipóide intravesical junto ao óstio ureteral direito com cerca de 1,5cm x 1,4cm, além de rim direito com dimensões reduzidas e com dilatação pielocalicinal direita moderada. Exames laboratoriais à admissão apresentavam proteína C-reativa (PCR) de 3.50 (valor de referência <0.5), associado à leucometria de 10300 sem desvio. Creatinina de 5,0mg/dl; Ureia de 146mg/dl. Paciente foi submetida a cistoscopia, que visualizou múltiplas lesões de aproximadamente 5mm. Seguiu-se a ressecção transuretral de bexiga (RTU-BX), com material enviado para estudo histopatológico, com o resultado de neoplasia maligna indiferenciada. O diagnóstico de malacoplaquia foi confirmado após exame imunohistoquímico, com presença de malacoplaquia vesical e positividade para CD10, CD68, Vimentina e Ki67 (MIB-1). Durante a RTU-BX foi realizada passagem de cateter duplo jota a direita.

No seguimento ambulatorial, realizou-se cintilografia renal e o achado foi de exclusão renal direita. A paciente manteve-se assintomática desde a alta hospitalar e com função renal pré-dialítica após uso de ciprofloxacino por 6 meses, visto cultura de

urina da internação positiva para E.coli. Lesões vesicais encontram-se estáveis de acordo com

cistoscopia de controle e sem hidronefrose ao ultrassom, após retirada de cateter duplo jota.

## CONCLUSÃO

A malacoplaquia vesical é uma patologia rara, granulomatosa e muitas vezes autolimitada, porém de fácil indução ao diagnóstico errôneo de uma condição maligna, devido à sua apresentação macroscópica como nodular, ulcerada ou pseudotumoral<sup>19-20-21-22</sup>.

Em uma revisão de 34 casos de malacoplaquia por McClure, o exame macroscópico/cistoscópico mostrou placas redondas e planas em 50% dos casos, lesões nodulares ou polipóides em 26%, lesões papilares em 6%, massas calcificadas necróticas em 6%, massas semelhantes a tumores em 6% e mucosa hemorrágica em 6% deles. As placas levemente elevadas são encontradas na submucosa abaixo de um urotélio intacto no estágio inicial da doença e se tornam ulceradas, com eritema periférico e edema, em fases posteriores se não tratadas ou se o tratamento for ineficaz.<sup>23</sup>

O tratamento com ressecção transuretral das lesões, com diagnóstico histopatológico e imunohistoquímico, e terapia antibiótica prolongada resultam em bom prognóstico ao paciente. A cirurgia é aplicada nas situações em que a terapêutica conservadora é ineficaz. No caso de malacoplaquia vesical indica-se a ressecção endoscópica de grandes massas o mais cedo possível, permitindo a eliminação de possíveis focos sépticos e favorecendo dessa forma o tratamento médico<sup>24-25</sup>. No caso apresentado, as lesões polipóides encontradas e elevadas sem ulceração, demonstram, segundo a literatura, um estágio inicial da doença, porém com repercussão sistêmica através da obstrução do sistema coletor pela lesão, sendo tratada cirurgicamente no estágio inicial em associação com o terapia antibiótica.

## REREFÊNCIAS

1. Risti-Petrovi A, et al. Malakoplakia mimics urinary bladder cancer: A case report. *Vojnosanit Pregl* 2013; 70(6): 606–608.
2. Von Hansemann D. Uber Malakoplakie der Harnblase. *Virchows Arch* 1903;173:302-8.
3. Michaelis L, Gutmann C. Über Einschlüsse in Blasentumoren. *Z Klin Med* 1902;47:208.
4. Chen YC, Kuo HC. Malakoplakia of ipsilateral kidney, ureter and bladder. *Tzu Chi Med J* 2010; 22(2): 1035.
5. Schwartz DA, Ogden PO, Blumberg HM, Honig E. Pulmonary malakoplakia in a patient with the acquired immunodeficiency syndrome. *Arch Pathol Lab Med* 1990; 114(12): 126771.
6. Schaeffer A., Schaeffer E., Malakoplakia, infections of the urinary tract In J. Wein, editor. *Campbell-Walsh Urology*, 10th Edition, 2012.
7. Stanton MJ and Maxted W: Malakoplakia: a study of the literature and current concepts of pathogenesis, diagnosis and treatment. *J Urol* 125: 139-146, 1981
8. van Crevel R, Curfs J, van der Ven AJ, Assmann K, Meis JF, van der Meer JW. Functional and morphological monocyte abnormalities in a patient with malakoplakia. *Am J Med* 1998;105:74-7
9. Lou TY, Teplitz C. Malakoplakia: Pathogenesis and ultra structural morphogenesis: A problem

of defective macrophage (phagolysosomal) response. *Hum Pathol* 1974;5:191-207

10. Maruyama K, Asai J, Ii M, Thorne T, Losordo DW, D'Amore PA. Decreased macrophage number and activation lead to reduced lymphatic vessel formation and contribute to impaired diabetic wound healing. *Am J Pathol* 2007;170:1178-91.

11. Baniel J, Shmueli D, Shapira Z, Sandbank Y, Servadio C. Malacoplakia presenting as a pseudotumor of the bladder in cadaveric renal transplantation. *J Urol* 1986;137:281—2

12. Yousef GM, Naghibi B, Hamodat MM. Malakoplakia outside the urinary tract. *Arch Pathol Lab Med* 2007; 131: 297-300.

13. P. Sarkis et al. Malakoplakia involving kidney, both ureters and bladder: A case report and review of the literature. *Progrès en Urologie*. Volume 22, Issue 15, November 2012, Pages 970-973.

14. Debré B, Leleu C. La Malakoplakie. *Ann Urol* 1984;18:6-12.

15. David Martinho, Lurdes Correia, Carla Soares, et al. Bladder malakoplakia: case report and literature review. | *Acta Urológica – Junho de 2012 – 2*: 59–63

16. Long JP, Althausen AF. Malakoplakia: A 25 year experience with a review of the literature. *J Urol* 1989;141:1328-31.

17. Vélez A, Ángel A, Uribe C, et al. Malacoplakia renal, duodenal y retroperitoneal. Presentación de un caso. *Medicina U.P.B. Medellín* 2001;20(1):43-8.

18. Jeffrey PB, Chandrasoma P, Greaves T. Fine needle aspiration cytology of malacoplakia of the thyroid. A case report. *Acta Cytol* 1996;40(5):970-4.

19. Shaktawat SS, Sissons MC. Malakoplakia of the appendix, an uncommon entity at an unusual site: a case report. *J Med Case Reports* 2008; 2:18

20. Patnayak R, Reddy MK, Subramanian S, Jena A, Ravisankar G, Dandu RS. An unusual case of bilateral hydroureteronephrosis caused by ureterovesical malakoplakia in a young male: a case report and review of the literature. *Cases J* 2009; 2: 7527.

21. Velásquez-López JG, Vélez-Hoyos A, Uribe-Arcila JF. Malakoplakia in urology: a report of six cases and review of the literature. *Actas Urol Esp* 2006; 30(6):6108. (Spanish)

22. Singh K, Chatterjee T. A case of gallbladder mass: Malakoplakia (The tumor mimicker). *Indian J Pathol Microbiol* 2017;60N122-4.

23. McClure J. Malakoplakia. *J Pathol* 1983;140:275-330.

24. Pozo Mengual B, Burgos Revilla FJ, Briones Mardones G, Linares Quevedo A, Garcia-Cosío Piquerras M. Malacoplakia vesical con afectación ganglionar y curso agresivo. *Actas Urol Esp* 2003;27(2):159-63.

25. Dohle G, Zwartendijk J, Van Krieken JH. Urogenital malacoplakia treated with fluoroquinolones. *J Urol* 1993;150:1518-20.

## Mucormicose rino-orbital-cerebral em paciente em recuperação de Covid-19

### *Rhino-orbital-cerebral mucormycosis in patient recovering from Covid-19*

Jancarla Selene Guzmán, Marta Junqueira Reis Ferraz  
Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil  
Publicação do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)

#### RESUMO

A mucormicose é uma infecção fúngica observada em hospedeiros gravemente imunocomprometidos e, no cenário atual da pandemia do coronavírus SARS-CoV-2, tem sido descrita em pacientes em recuperação desse quadro viral. Entre diabéticos em recuperação pós-COVID-19, a mucormicose rino-orbital-cerebral é a apresentação clínica mais comum. A doença tem alta morbimortalidade decorrente da rápida progressão e do diagnóstico em geral tardio, o que ressalta a importância da suspeição deste quadro clínico. No presente trabalho, relata-se o caso clínico de paciente do sexo masculino, diabético, atendido no serviço de pronto-socorro no primeiro semestre de 2021.

**Descritores:** Mucormicose, COVID-19, imunocomprometido, diabetes mellitus.

#### RESUMEN

La mucormicosis es una infección fúngica observada en huéspedes gravemente inmunocomprometidos y, en el actual escenario de pandemia por coronavirus SARS-CoV-2 fue descrita en pacientes en recuperación de éste cuadro viral. Entre diabéticos en recuperación pós COVID-19, la mucormicosis rino-orbital-cerebral es la presentación clínica más común. Esta enfermedad tiene alta morbi-mortalidad resultante de la rápida progresión y del diagnóstico en general tardío, lo que resalta la importancia de la sospecha del cuadro clínico. En el presente trabajo, relatamos el caso de un paciente de sexo masculino, diabético, atendido en el servicio de emergencias en el primer semestre de 2021.

**Descriptorios:** Mucormicosis, COVID-19, inmunocomprometido, diabetes mellitus.

#### Correspondência:

Jancarla Selene Guzmán  
E-mail: janky\_fisik@hotmail.com  
Data de submissão: 10/01/2022  
Data de aceite: 16/12/2022

#### Trabalho realizado:

Serviço de Clínica Médica do Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP.  
Endereço: Rua Pedro de Toledo, 1800, 11º andar - Vila Clementino - CEP: 04039-901, São Paulo, SP, Brasil.

## INTRODUÇÃO

A mucormicose é uma infecção fúngica grave e potencialmente fatal que ocorre principalmente em pacientes imunocomprometidos e diabéticos. É causada por fungos filamentosos da ordem *Mucorales* e é decorrente da inalação de esporos, ingestão de alimentos contaminados ou inoculação de material contaminado em pele ou feridas <sup>1</sup>.

Em países desenvolvidos, a mucormicose ocorre sobretudo em hospedeiros imunocomprometidos. Em contraste, nos países em desenvolvimento, a maioria dos casos ocorre em pessoas com diabetes mellitus mal controlado ou em indivíduos imunocompetentes após trauma. Além disso, no cenário atual da pandemia pelo novo coronavírus (COVID-19), são descritos casos em pacientes em recuperação deste quadro viral. Vale ressaltar que a doença era bastante esporádica antes da pandemia atual <sup>3</sup>.

Isto posto, este relato de caso tem como objetivo reforçar a importância da suspeição de mucormicose rino-orbital-cerebral no diagnóstico diferencial de infecções periorbitárias em pacientes diabéticos em recuperação de COVID-19. Para o presente relato do caso foram utilizados dados do prontuário.

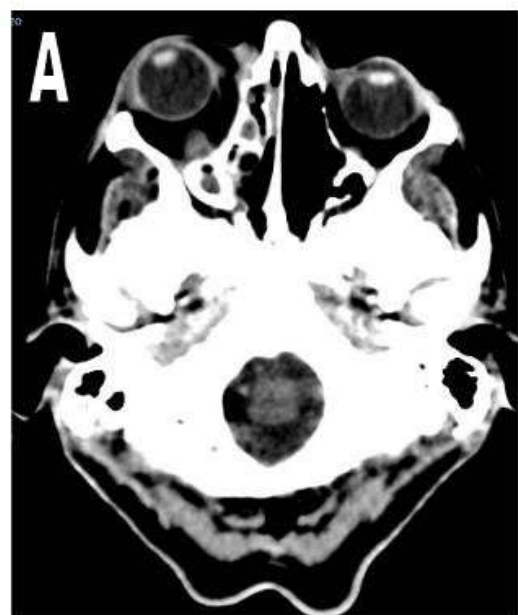
## RELATO DE CASO

Paciente masculino, branco, 73 anos, com antecedentes pessoais de hiperplasia prostática benigna, hipertensão arterial sistêmica e glaucoma. Deu entrada no Setor de Oftalmologia do Pronto Socorro do Hospital do Servidor Público Estadual “Francisco Morato de Oliveira”, HSPE – FMO, em São Paulo, no dia 13/04/21. Relatava quadro clínico de COVID-19 há 20 dias, sem a necessidade de internação hospitalar, com uso de azitromicina e prednisona por 5 dias na ocasião. Informou

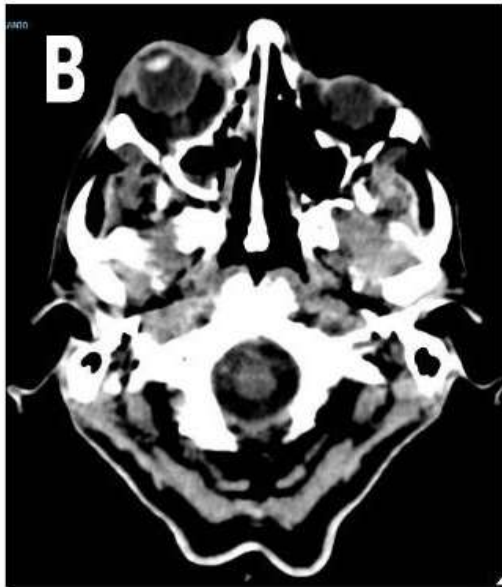
ter procurado oftalmologista em outro serviço no dia anterior com queixa de dor, edema e hiperemia na região orbital e malar direita, sem alterações da acuidade visual ou da movimentação ocular, de início recente. Foi medicado com moxifloxacino oftalmológico. Ao ser atendido, o paciente referiu que o edema na região malar direita tinha cinco dias de evolução e o acometimento palpebral três dias. Naquele momento o paciente negou outros sintomas.

Durante o exame físico especializado, paciente apresentava edema palpebral à direita com ptose, midríase paralítica com paralisia à dextroversão e quemose com secreção mucopurulenta.

Foi solicitada tomografia computadorizada de crânio, que evidenciou discreto aumento de partes moles na região periorbitária à direita, secreção nos seios etmoidal e maxilar direitos, com espessamento mucoso nos seios frontais (Figura 1). Foi feito diagnóstico de celulite e sinusite, o paciente foi liberado para domicílio com prescrição de ciprofloxacino e clindamicina por via oral e orientado a retornar no caso de má evolução clínica.



**Figura 1 (A):** Tomografia computadorizada de crânio - Aumento de partes moles na região periorbitária à direita;



**Figura 1 (B):** Tomografia computadorizada de crânio - Secreção nos seios maxilar e frontal à direita.

O paciente retornou ao mesmo serviço após dois dias com piora do edema, acometendo naquele momento também a pálpebra superior esquerda e região nasal esquerda, secreção purulenta no olho direito, desvio de rima labial à direita e pico febril de 38 graus. Foi internado com diagnóstico de celulite de face, sinusite e paralisia facial periférica (Figura 2). À internação foi diagnosticado diabetes mellitus.



**Figura 2 (A):** Placa enegrecida em palato duro à direita.



**Figura 2 (B):** Edema ocular e malar à direita.

No segundo dia de internação hospitalar o paciente encontrava-se letárgico e desorientado no tempo e espaço, com edema, hiperemia e calor em hemiface direita, proptose e ausência de movimentação ocular em olho direito, orofaringe com presença de placa necrótica de bordas definidas ocupando toda a região do palato duro à direita. Rinoscopia mostrou conglomerados enegrecidos de tamanho médio em fossa nasal direita. Foi avaliado em conjunto com as equipes de Otorrinolaringologia e Neurologia, e foi feita a hipótese diagnóstica de Mucormicose rino-orbital-cerebral (ROCM). Realizada biópsia da lesão necrótica e iniciada anfotericina B lipossomal endovenosa. Foi solicitada a ressonância nuclear magnética de crânio e discutida eventual abordagem cirúrgica, porém o paciente evoluiu com quadro grave de cetoacidose diabética e sepse, com pouca resposta clínica às medidas instauradas e veio a falecer no quarto dia de internação.

A cultura de fragmento de biópsia evidenciou *Rhizopus sp*; hemoculturas negativas.

## DISCUSSÃO

A mucormicose é uma doença angioinvasiva que pode levar a trombose e infarto tecidual. A mortalidade deste quadro é alta, varia de 30 a 50% e atinge 90% quando na forma disseminada<sup>1</sup>. Com base na localização anatômica, a mucormicose pode ser classificada em seis formas: mucormicose rino-orbital-cerebral (ROCM), pulmonar, cutânea, gastrointestinal, disseminada e mucormicose de locais incomuns.

O caso clínico descrito apresentou ROCM, que é a forma mais comumente observada em pacientes com cetoacidose diabética ou diabetes mellitus não controlado que estão no período de recuperação de COVID-19<sup>2</sup>. A literatura atual relata que 88% dos pacientes com ROCM

na Índia eram diabéticos <sup>3</sup> e que nos Estados Unidos da América 83% dos pacientes também tinham diabetes mellitus <sup>4</sup>. Além disso, cabe mencionar o histórico de transplante de órgão sólido, corticoterapia, doença renal crônica e o uso de drogas intravenosas como fatores de risco descritos para casos de ROCM. Por fim, a espécie *Rhizopus* esteve implicada em 85% dos casos de ROCM descritos.

O quadro clínico de ROCM caracteriza-se por infarto e necrose dos tecidos do hospedeiro e pela localização anatômica, como acompanhado no caso estudado. Sintomas não oftálmicos incluem febre, cefaleia, edema, dor na face, parestesia e paralisia facial, secreção nasal com progressão para descarga necrótica, ulceração nasal, escara palatina, destruição óssea e estado mental alterado. Sinais e sintomas oftálmicos incluem dor ocular, diminuição da visão, oftalmoplegia, proptose, quemose, ptose, celulite orbitária e necrose. O quadro pode evoluir com comprometimento cerebral, seja por contiguidade ou ocasionalmente por via hematogênica.

Os antecedentes médicos são parâmetros importantes que devem ser sempre avaliados no atendimento no pronto-socorro. Como ilustra o presente relato de caso, foram encontrados fatores de risco e comorbidades importantes para a ocorrência do quadro infeccioso grave de mucormicose rino-orbital-cerebral, como estar no período pós-COVID recente, ter usado corticoide e antibioticoterapia para o quadro viral prévio e o diagnóstico de diabetes à internação.

Tais fatores foram especificamente mencionados na Nota Técnica 04/2021 do Ministério de Saúde <sup>2</sup>, que a mucormicose acomete principalmente pacientes diabéticos (particularmente os descompensados) e os imunodeprimidos pelo uso de corticoides, como o caso clínico relatado. Este fato é reforçado por estudos multicêntricos da Índia <sup>4</sup> que

evidenciaram aumento do número de casos de mucormicose entre pacientes no período pós-COVID-19, mais comumente diabéticos não controlados e com relato de uso excessivo de corticosteroides.

Portanto, deve-se ter em mente o diagnóstico de mucormicose em qualquer doente imunodeprimido, principalmente com cetoacidose diabética, com sintomas de rinosinusite sem melhora com tratamento antibiótico convencional.

O diagnóstico de mucormicose é baseado na cultura e detecção direta do agente causador em material biológico (biópsia, lavado broncoalveolar, sangue, soro, plasma, urina).

Os exames de imagem são importantes para delimitação da área acometida pela infecção e para avaliar a suspeita de invasão ao sistema nervoso central com mais acurácia e precisão. A tomografia computadorizada de crânio realizada evidenciou aumento de partes moles na região periorbitária à direita e secreção nos seios etmoidal e maxilar direito. Como houve suspeita de trombose associada, também foi solicitada ressonância nuclear magnética, mas não houve tempo hábil para a sua realização em decorrência da rápida deterioração clínica. Além disso, por determinar a localização e a extensão do acometimento, os exames de imagem são de grande ajuda para programação da abordagem cirúrgica.

Pela gravidade do caso, o tratamento deve ser iniciado assim que houver suspeita de mucormicose, independente do local anatômico. Consiste em tratamento antifúngico imediato e debridamento cirúrgico, além do controle da doença de base. O tratamento padrão é com a formulação lipídica de anfotericina B (LFAB) e, como alternativa em pacientes refratários ou intolerantes, os novos triazóis: posaconazol (POSA) e isavuconazol (ISAV). O debridamento cirúrgico com adequada mar-

gem de segurança tem como principal objetivo remover o máximo de tecido desvitalizado possível além de estabelecer adequada drenagem sinusal. O tratamento da ROCM e suas complicações é de grande importância, devido à extensão da infecção e à elevada mortalidade decorrente delas.

## CONCLUSÃO

O contexto de paciente diabético mal controlado, uso de corticoterapia e período pós COVID-19 constitui uma tríade predisponente desafiadora para o diagnóstico clínico apropriado e oportuno da mucormicose. O reconhecimento dos fatores de risco para infecção fúngica e dos sinais da doença facilitam o diagnóstico precoce. Este quadro deve ser suspeitado em todos os pacientes com COVID-19 no diagnóstico diferencial de feridas necrosadas com resposta insatisfatória a antimicrobianos.

O reconhecimento clínico das lesões infecciosas é relevante para identificar precocemente a mucormicose rino-orbital-cerebral devido à sua rápida progressão e elevada mortalidade. Além disso, os tratamentos oportunos medicamentoso e cirúrgico impactam diretamente na sua morbimortalidade.

Por fim, infelizmente, a sobrecarga do sistema de saúde no período da atual pandemia comprometeu o adequado acompanhamento dos pacientes e de suas doenças de base, propiciando as condições predisponentes para o aumento da incidência de mucormicose associada à COVID-19.

## REFERÊNCIAS

1. Bhatt K, Agolli A., Patel MH, Garimella R., Devi M., García E, et al. Coinfecções de alta mortalidade em pacientes com COVID-19: mucormicose e outras infecções fúngicas. *Descobertas (Craiova)* [Internet]. 2021 [citado em 17 de dezembro de 2021]; 9 (1): e126. Disponível em: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/34036149/>
2. NOTA TÉCNICA GVIMS / GGTES / ANVISA N o 04/2021 - INFECÇÕES FÚNGICAS [Internet]. Gov.br. [citado o 17 de dezembro de 2021]. Disponível em: <https://www.gov.br/anvisa/pt-br/centraisdeconteudo/publicacoes/servicosdesaude/notas-tecnicas/nota-tecnica-04-2021-infeccoes-fungicas-e-covid19.pdf/view>
3. Honavar SG. CodeMucor: Diretrizes para o Diagnóstico, Estadiamento e Tratamento da Mucormicose Rino-orbitocerebral, no Ambiente de COVID-19. *Indian J Ophthalmol* [Internet]. 2021 [citado o 17 de dezembro de 2021]; 69 (6): 1361–5. Disponível em: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/34011699/>
4. Sarkar S, Gokhale T, Choudhury SS, Deb AK. COVID-19 and orbital mucormycosis. *Indian J Ophthalmol* [Internet]. 2021 [citado o 17 de dezembro de 2021]; 69(4):1002–4. Disponível em: <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/33727483/>.



## Angioplastia de artéria carótida interna direita associada à artéria hipoglóssica persistente ipsilateral

### *Right Internal carotid artery angioplasty associated with persistent ipsilateral hypoglossal artery*

Natasha Pryanka de Araújo Bessa, Marcele Schettini de Almeida  
Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil  
Publicação do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)

#### RESUMO

A circulação embrionária consiste em uma rede de anastomose rudimentares carótido-vertebrobasilar composta pelas artérias hipoglóssica, trigeminal, óptica e proatlantal, que regridem quando o embrião atinge cerca de 5-6mm. A persistência da artéria hipoglóssica primitiva é uma rara anomalia vascular geralmente assintomática. Entretanto pode estar associada a infarto multiterritorial. O objetivo deste trabalho foi relatar o caso de uma paciente de 75 anos, portadora de múltiplas comorbidades, evoluindo com episódios de síncope recorrentes e eventos isquêmicos em território de circulação anterior e posterior, associados a estenose crítica de artéria carótida interna direita acompanhada da persistência da artéria hipoglóssica primitiva.

**Descritores:** Hipertensão; diabetes mellitus tipo 2; AVC isquêmico; hipoplasia; angioplastia; tomografia computadorizada; angiografia cerebral.

#### ABSTRACT

The embryonic circulation consists of a rudimentary carotid-vertebrobasilar anastomosis network composed of the hypoglossal, trigeminal, optical and proatlantal arteries, which regress when the embryo reaches around 5-6mm. Persistence of the primitive hypoglossal artery is a rare vascular anomaly, usually asymptomatic. However, it may be associated with multiterritorial infarction. This paper aims to report the case of a 75-year-old patient with multiple comorbidities, with subsequent episodes of syncope and ischemic events in the territory of anterior and posterior circulation, associated with critical stenosis of the Right Internal Carotid Artery accompanied by the persistence of Primitive Hypoglossic Artery.

**Keywords:** Hypertension; diabetes mellitus type 2; ischemic stroke; hypoplasia; angioplasty; tomography computed; cerebral angiography.

#### Correspondência:

Natasha Pryanka de Araújo Bessa  
E-mail: natashabessa@gmail.com  
Data de submissão: 20/01/2021  
Data de aceite: 11/12/2022

#### Trabalho realizado:

Serviço de Neurologia do Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil.  
Endereço: Rua Pedro de Toledo, 1800, 8º andar - Vila Clementino - CEP: 04039-901, São Paulo, SP, Brasil.

## INTRODUÇÃO

A artéria hipoglóssica primitiva (AHP) faz parte de conexões segmentares transitórias entre a artéria carótida primitiva e a circulação do romboencéfalo e tende a regredir à medida que as artérias comunicantes posteriores se desenvolvem. A persistência da artéria hipoglóssica é a segunda anastomose carótido basilar mais comum, com prevalência estimada entre 0,03 e 0,09%<sup>1</sup>.

Neste caso, o vaso anômalo normalmente origina-se da artéria carótida interna cervical ao nível de C1-C3, e raramente da artéria carótida externa. Apresenta caminho pouco tortuoso, atravessa o canal do hipoglossos ao invés do forame magno, para juntar-se ao sistema vertebrobasilar<sup>1</sup>. Esta anomalia geralmente está associada a hipoplasia ou aplasia de artérias vertebrais e comunicante posterior, tornando a AHP principal responsável pelo suprimento sanguíneo do território vertebro basilar<sup>1-2</sup>.

Apesar de constituir um achado incidental na maior parte dos casos descritos até o momento, são relatados raros casos na literatura de AHP associada a infartos em território de circulação anterior e posterior. Logo, ressalta-se a anomalia como uma potencial via emboligênica do coração e artéria carótida interna (ACI) proximal<sup>1</sup>.

## OBJETIVO

Este trabalho tem por objetivo relatar um caso de artéria hipoglóssica primitiva em paciente do sexo feminino, de 75 anos, que apresenta estenose crítica de artéria carótida interna direita e que evoluiu com infarto embólico multiterritorial crônico e evento sincopal recorrente.

## CASO CLÍNICO

Paciente do sexo feminino, 75 anos, foi admitida no departamento de Clínica Médica do Hospital do Servidor Público Estadual

“Francisco Morato de Oliveira” HSPE-FMO de São Paulo, após ser encontrada desacordada pelo esposo, em sua própria residência. Segundo relato de familiares, a paciente possuía histórico de episódios de perda de consciência recorrentes e apresentava hipertensão arterial sistêmica, diabetes mellitus tipo 2, história prévia de AVCI nos territórios de artéria cerebral média (ACM) direita e da artéria cerebral posterior ipsilateral ocorridos em 2015, secundários à estenose crítica no bulbo carotídeo direito, proximal à bifurcação entre artéria carótida interna direita (ACID) e artéria hipoglóssica primitiva (AHP), já diagnosticada anteriormente. No momento fazia uso de ácido acetilsalicílico 100mg/dia e clopidogrel 75mg/dia. História familiar sem relato de alterações relevantes.

Realizou eletrocardiograma sem evidências de fibrilação arterial, assim como ecocardiograma transtorácico, que evidenciou apenas aumento discreto de átrio esquerdo (AE 42 mm). Após exclusão de causas cardiológicas, a paciente foi avaliada e posteriormente, transferida para o departamento de Neurologia Clínica.

À admissão apresentava hemiparesia à esquerda incompleta proporcionada com força muscular grau IV. Realizou ressonância nuclear magnética de crânio que evidenciou sequelas de eventos isquêmicos nas regiões temporo-occipital e transição frontoparietal à direita. A angioressonância magnética de crânio e pescoço revelou irregularidades parietais ateromatosas do bulbo carotídeo direito, com estenose estimada maior que 70%, assim como irregularidades parietais ateromatosas do bulbo carotídeo esquerdo, com estenose estimada entre 50-69%. Observou-se ainda hipoplasia de artéria vertebral direita.

Optou-se pela realização de angioplastia percutânea com colocação de stent. O procedimento foi realizado sob anestesia geral, através de punção femoral à direita, com posicionamento de introdutor femoral 6F nessa artéria. Foi realizada cateterização

seletiva da artéria carótida comum direita (ACCD) com cateter diagnóstico 5F e foi achada placa ateromatosa excêntrica irregular com suboclusão de aproximadamente 99% no bulbo carotídeo, proximal à bifurcação entre as artérias carótida interna e hipoglossal, que estendia-se até a ACCD, além de múltiplas irregularidades parietais nas artérias intracranianas estudadas.

Em regime de heparinização plena (heparina 10.000 UI em bolus), foi realizada a troca do cateter diagnóstico 5F por bainha introdutora 6F de 90cm, posicionada proximal à bifurcação carotídea direita. Seguiu-se a passagem de filtro de proteção cerebral Spider FX 5,0 e microguia Avigo 0,014 até o segmento petroso da artéria carótida interna direita (ACID) com passagem de microcateter balão de pré-dilatação 2,5x2,0, o que reduziu o grau de estenose crítica local. Prosseguiu-se com a passagem de *stent* carotídeo autoexpansivo Protege 7x40mm, através do sistema de rápida troca sobre o guia. O *stent* foi liberado cobrindo toda extensão estenótica de segmento bulbar direito, estendendo-se da artéria carótida comum proximal ao *stent* liberado. Seguiu-se com a passagem de segundo *stent* carotídeo autoexpansível Wall *stent* 9x40mm através de sistema de rápida troca sobre o guia, o qual foi liberado teloscopado com cobertura de toda placa da ACCD.

As séries angiográficas de controle evidenciaram *stents* carotídeos pérvios e adequadamente locados, com discreta estenose residual, sem comprometimento hemodinâmico.

O controle angiográfico final demonstrou *stents* abertos e locados nos segmentos cervical e bulbar da ACID e ACCD, sem complicações tromboembólicas imediatas e com tempos circulatórios satisfatórios, tanto em território carotídeo direito, quanto no sistema vertebrobasilar. Foi preservada a origem da artéria hipoglossica primitiva.

Com auxílio de guia hidrofilico 0,035, foi retirada bainha 6F 90cm e posicionado introdutor 7F, mantido até decaimento espontâneo de heparina endovenosa. Paciente admitida em UTI, após despertar de plano anestésico, sem deficiências neurológicas focais, hemodinamicamente estável. Durante seguimento após procedimento, a paciente evoluiu sem intercorrências e recebeu alta hospitalar 4 dias após o procedimento. A orientação de seguimento ambulatorial foi feita com indicação de uso de clopidogrel 75mg/dia, ácido acetilsalicílico 100mg/dia e atorvastatina 80mg/dia. Na figura 1-A, visualiza-se a tomografia computadorizada de crânio e na figura 1-B, a angioressonância em fase arterial, evidenciando artéria hipoglossica persistente penetrando a fossa posterior através do canal (setas). Já na figura 2, observa-se a angioressonância de vasos cervicais mostrando estenose severa de ACID (seta) e caso anômalo (ponta da seta), associado à hipoplasia de artérias vertebrais. Na figura 3, tem-se: A - Controle inicial: angiografia cerebral evidenciou estenose severa de ACID (seta). B - Passagem de *stent* carotídeo. Identificadas ACID e AHP pelas setas e C - Controle angiográfico final evidenciando *stent* bem locado e com fluxo sanguíneo satisfatório após o procedimento.

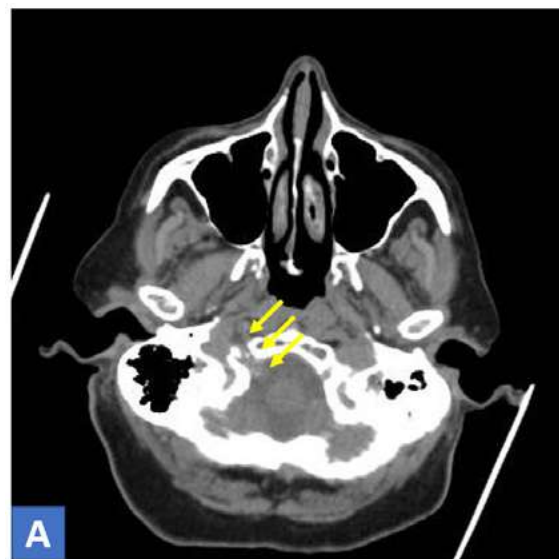
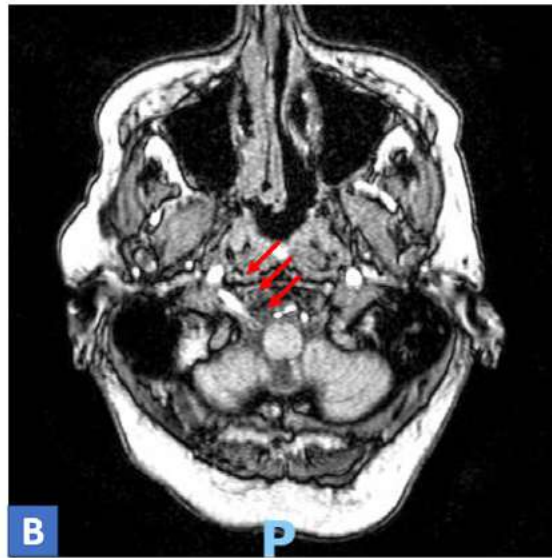


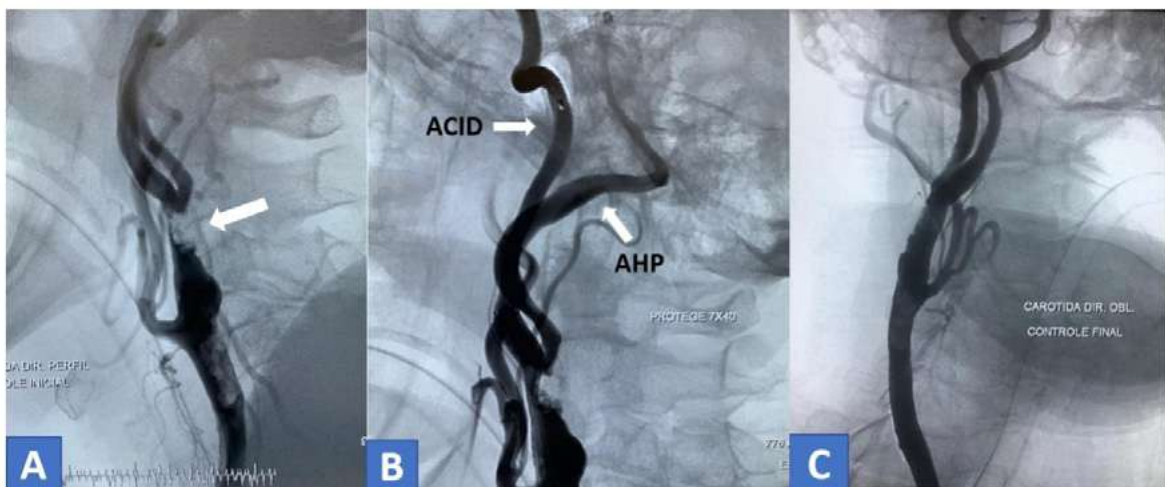
Figura 1 (A) - Tomografia computadorizada de crânio e Angioressonância em fase arterial



**Figura 1 (B)** - Tomografia computadorizada de crânio evidenciando artéria hipoglôssica persistente penetrando a fossa posterior através no canal hipoglosso (setas)



**Figura 2** - Angioressonância de vasos cervicais mostrando estenose severa de ACID (seta) e vaso anômalo (ponta da seta), associado a hipoplasia de artérias vertebrais



**Figura 3** - Controle inicial: angiografia cerebral evidenciou estenose severa de ACID (seta). B. Passagem de stent carotídeo. Identificadas ACID e AHP pelas setas. C. Controle angiográfico final evidenciando stent bem locado e com fluxo sanguíneo satisfatório após o procedimento.

## DISCUSSÃO

A AHP é a segunda anastomose primitiva carótido-vertebrobasilar mais comum, logo após a persistência de artéria trigeminal. Tal variação anatômica já foi descrita em associação com diversas anomalias, tais como aneurisma cerebral, mal formação arteriovenosa, doença de Moyamoya e infartos multiterritoriais<sup>1</sup>. Em geral constitui um achado incidental em pacientes assintomáticos<sup>3</sup>. Pode ainda, mais raramente, estar relacionada a neuralgia glossofaríngea ou paralisia de nervo hipoglosso<sup>1</sup>.

Os critérios anatômicos que definem o diagnóstico de AHP são os seguintes<sup>3</sup>: 1) surge como um ramo significativo da artéria carótida interna (ACI) entre os níveis de C1-C3; 2) Apresenta um curso tortuoso com penetração na fossa posterior através do canal do hipoglosso, ao invés do forame magno; 3) a artéria basilar apresenta enchimento apenas após a anastomose; e 4) as artérias comunicantes posteriores geralmente não são evidenciadas angiograficamente. O caso descrito acima preenche tais critérios.

Conforme descrito na literatura, casos de AHP associados a infartos em território vertebrobasilar podem ser mais incidentes do que se pensava, uma vez que pacientes com anastomose vertebrobasilar patentes, tendem a ter artérias vertebrais hipoplásicas ou aplásicas, tornando a AHP principal fonte de irrigação para fossa posterior. Sendo assim, uma estenose de ACI pode causar isquemia do sistema vertebrobasilar<sup>3</sup>.

Os achados em exames de imagem descritos que indicam infartos simultâneos em território de circulação anterior e posterior, podem ser atribuídos ao fenômeno embólico da placa aterosclerótica carotídea ipsilateral, assim como a queixa clínica de perda de consciência súbita recorrente pode ser explicada pelo fornecimento de

sangue insuficiente em decorrência de estenose importante de artérias carótidas bilateralmente, porém mais significativa à direita (ipsilateral à AHP)<sup>4</sup>.

A presença de AHP é um desafio terapêutico no que diz respeito à doença aterosclerótica carotídea. Considerando a possibilidade de uma endarterectomia carotídea, o clampeamento momentâneo da ACI representa a interrupção de suprimento sanguíneo para circulação anterior e posterior simultaneamente. Neste caso optou-se pela realização de angioplastia com colocação de *stent*. Em decorrência da extensão da placa aterosclerótica e do risco de embolia distal, foi necessário implantar dois dispositivos para cobertura total do segmento estenótico na artéria carótida comum direita, com preservação da origem da artéria hipoglossica primitiva.

## CONCLUSÃO

A artéria hipoglossica primitiva apesar de rara, é uma anomalia vascular sabidamente associada a infartos em território anterior e posterior, e deve ser lembrada como diagnóstico diferencial em pacientes que cursem com esses achados. Em conclusão, a piora de uma estenose crítica da artéria carótida interna cervical sintomática em pacientes com uma artéria hipoglossica persistente ipsilateral pode cursar com um desfecho catastrófico em decorrência da insuficiência hemodinâmica derivada de uma circulação posterior subdesenvolvida. A endarterectomia carotídea ou angioplastia com colocação de *stent* são opções de tratamento nestes pacientes.

## REFERÊNCIAS

1. Jin X, Sun L, Feng Z, Li X, Zhang H, Meng K, et al. Persistent Hypoglossal Artery as a Potential Risk Factor for Simultaneous Carotid and Vertebrobasilar Infarcts. *Front Neurol.* 2018;9:837.

2. Pyun HW, Lee DH, Kwon SU, Lee JH, Choi CG, Kim SJ, Suh DC. Internal carotid artery stenosis with ipsilateral persistent hypoglossal artery presenting as a multiterritorial embolic infarction: a case report. *Acta Radiol.* 2007;48(1):116–18.
3. Kanazawa R, Ishihara S, Okawara M, Ishihara H, Kohyama S, Yamane F. A successful treatment with carotid arterial stenting for symptomatic internal carotid artery severe stenosis with ipsilateral persistent primitive hypoglossal artery: case report and review of the literature. *Minim Invasive Neurosurg.* 2008;51(5):298–302.
4. Srinivas MR, Vedaraju KS, Manjappa BH, Nagaraj BR. Persistent Primitive Hypoglossal Artery (PPHA) - A Rare Anomaly with Literature Review. *J Clin Diagn Res.* 2016;10(1):TD13–TD14.

## Aneurisma de artéria subclávia direita roto em paciente jovem

### *Ruptured right subclavian artery aneurysm in a young patient*

Patrícia Weiber Schettini Figueiredo, Christiano Pecego  
Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil  
Publicação do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)

#### RESUMO

Os aneurismas da artéria subclávia são raros (< 1% dos aneurisma periféricos). As causas mais comuns são aterosclerose, infecção, doença do colágeno, trauma e a síndrome do desfiladeiro cervicotorácico. Embora raro, pode apresentar complicações graves como rotura, trombose e embolia. A rotura apresenta-se em 9% dos casos e, devido à raridade, ainda está pouco documentada. O tratamento estabelecido é a cirurgia convencional. Relata-se aqui um caso de aneurisma de artéria subclávia direita roto em uma paciente com síndrome do desfiladeiro cervicotorácico, tratado com cirurgia convencional após falha no tratamento endovascular.

**Palavras chave:** Aneurisma de artéria subclávia; artéria subclávia; síndrome do desfiladeiro cervicotorácico

#### ABSTRACT

Subclavian artery aneurysms are rare (< 1% of peripheral aneurysms). The most common causes are atherosclerosis, infection, collagen disease, trauma, and cervicothoracic outlet syndrome. Although rare, it can present serious complications such as rupture, thrombosis and embolism. Rupture occurs in 9% of cases and, still due to rarity, it is poorly documented. The most planned treatment is conventional surgery. We report here a case of ruptured right subclavian artery aneurysm in a patient with cervico-thoracic outlet syndrome treated with conventional surgery after failure of endovascular treatment.

**Keywords:** Subclavian artery aneurysm; Right subclavian artery ruptured; Cervico-thoracic outlet syndrome

#### Correspondência:

Patrícia Weiber Schettini Figueiredo  
E-mail: pwschettini@hotmail.com  
Data de submissão: 28/03/2022  
Data de aceite: 20/10/2022

#### Trabalho realizado:

Serviço de Cirurgia Vascular do Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil.  
Endereço: Rua Pedro de Toledo, 1800, 14º andar - Vila Clementino - CEP: 04039-901, São Paulo, SP, Brasil.

## INTRODUÇÃO

Os aneurismas da artéria subclávia (AAScl) são raros (< 1%)<sup>1</sup>, mesmo assim, pode apresentar complicações graves como rotura, trombose e embolia. A rotura representa 9% destes e, devido à raridade, ainda esta pouco documentada<sup>2,3</sup>. As causas mais comuns são aterosclerose, infecção, doença do colágeno, trauma e a síndrome do desfiladeiro cervicotorácico (SDCT)<sup>5,6</sup>. A terapia convencional envolve a exclusão do aneurisma. O caso apresentado é de uma paciente diagnosticada com um AAScl roto na qual foi realizado tratamento convencional após falha da correção endovascular.

## RELATO DE CASO

Paciente sexo feminino, com 20 anos de idade. Há 7 meses dormiu por longo período sobre o membro superior direito (MSD) em hiperextensão evoluindo com o quadro de dor supraclavicular direita, parestesia em MSD e rouquidão. Foi realizada angiotomografia computadorizada (Figura 1) com AAScl à direita (diâmetro máximo de 9,3cm e colo proximal 1,2cm). O Conjunto deslocava estruturas mediastinais para a esquerda e prega vocal direita com padrão de paralisia. Havia obstrução distal ao aneurisma, na artéria subclávia direita (ASclD).



**Figura 1** - AngioTomografia de tórax em reconstrução 3D. Nota-se ausência de contraste na artéria subclávia após o aneurisma.

Foi realizado tratamento endovascular. A angiografia após cateterização da origem da artéria subclávia direita mostrava não comunicação do aneurisma com a artéria axilar direita (Figura 2). Falha na progressão do fio-guia na transição subclávio-axilar. Optado por exclusão do aneurisma/ASclD através do uso de *stent* revestido 9x40mm em origem da artéria carótida comum direita (ACCD) + troncobraquiocefálico (TBC). Em controle angiotomográfico, foi evidenciada a embolização do *stent* revestido para a bifurcação aórtica.



**Figura 2** - Angiografia após cateterização da origem da Artéria subclávia direita mostrando não comunicação do aneurisma com a artéria axilar direita.

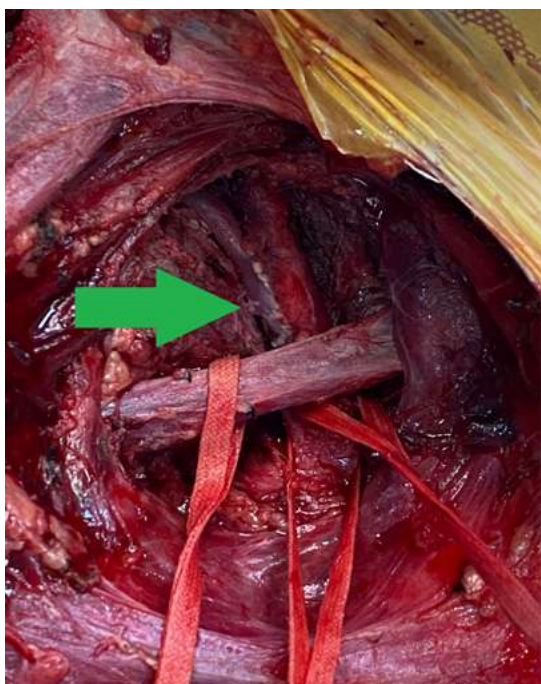
Optou-se então pelo tratamento convencional. Este foi iniciado com esternotomia mediana com reparo do TBC, ASclD na origem e ACCD. Prosseguiu-se com incisão transversal supraclavicular com escalenectomia anterior (Figura 3), ressecada bandeletas e isolado a ASclD. Achado intraoperatório de aneurisma verdadeiro da ASclD, roto, com degeneração de sua parede. Por fim, incisão infraclavicular direita com reparo da artéria axilar direita. Interposto enxerto com veia safena magna direita e anastomose proximal terminolateral no TBC na origem da ASclD (Figura 4). Houve dificuldade na realização do túnel costoclavicular devido a grande fibrose local com necessidade



de reforço da dilatação. Realizada anastomose distal em artéria axilar direita (Figura 5). No pós-operatório imediato, a paciente apresentava pulso palpável para todo MSD e sem sintomas neurológicos. Recebeu alta hospitalar com ácido acetilsalicílico 100 mg/dia.



**Figura 3** - Incisão supraclavicular evidenciando a escalenectomia anterior



**Figura 4** - Acesso realizado por estenotomia mediana para dissecação do TBC. Seta verde sinalizando a anastomose proximal, ao nível da origem da ASCL direita



**Figura 5** - Acesso infraclavicular direito. Seta verde sinalizando a anastomose distal término lateral da VSM-artéria axilar direita.

## DISCUSSÃO

Neste caso, a hiperextensão do braço pode ter levado a compressão do aneurisma por uma bandeleta causando a sua rotura. A correção por técnica endovascular já é descrita, todavia, apresenta dificuldade especialmente do dispositivo compatível à desproporção de diâmetro proximal/distal.<sup>4</sup> Após falha do tratamento endovascular, foi prudente a realização de cirurgia convencional.

O tratamento clássico consiste na interposição de enxerto através da abordagem supraclavicular simples ou transtorácica combinada<sup>7-8</sup>. Devido colo proximal pequeno e grande tamanho do AAScl foi optado pela associação de acessos para se ter o controle proximal, realizar a escalenectomia e esvaziamento do aneurisma.

## CONCLUSÃO

O aneurisma de artéria subclávia sempre deve ser tratado devido às suas complicações como rotura, trombose, embolia ou sintomas neuro-vasculares. Quando roto deve ser tratado o mais precocemente possível.

O aneurisma da artéria subclávia associado à síndrome do desfiladeiro cervicotorácico deve ser tratado em associação à escalenectomia anterior com ressecção de bandeletas e traves fibrosas para evitar que na cicatrização existam complicações de compressão do feixe neurovascular.

O tratamento convencional ainda é preferível por apresentar bons resultados quando a cirurgia é bem planejada, além da ausência de endopróteses que comportem a desproporção de diâmetros da artéria e necessidade de colo adequado.

## REFERÊNCIAS

1. Lawrence PF, Gazak C, Bhirangi L, et al. The epidemiology of surgically repaired aneurysms in the United States. *J Vasc Surg.* 1999;30:632-40.
2. Vierhout BP, Zeebregts C, van den Dungen JJ, Reijnen MM. Changing profiles of diagnostic and treatment options in subclavian artery aneurysms. *Eur J Vasc Endovasc Surg.* 2010;40:27-34.
3. Kim SS, Jeong MH, Kim JE, Yim YR, Park HJ, Lee SH, Rhew SH, Jeong YW, Kim JH, Cho JG, Park JC. Successful treatment of a ruptured subclavian artery aneurysm presenting as hemoptysis with a covered stent. *Chonnam Med J.* 2014 Aug;50(2):70-3. doi: 10.4068/cmj.2014.50.2.70. Epub 2014 Aug 20. PMID: 25229020; PMCID: PMC4161765.
4. Domínguez González JM, Álvarez García B, Lebrun JM, Docampo MM. Combined surgery for the treatment of bilateral subclavian artery aneurysm in Marfan syndrome *J Vasc Surg.* 2007;45:180-2.
5. Lakhkar BN, Lakhkar BB, Ghosh MK, Shenoy PD, Patil LID. Congenital subclavian artery aneurysm. *Indian Pediatr.* 1992;29:1165-8.
6. Kasirajan K, Matteson B, Marek JM, Langsfeld M. Covered stents for true subclavian aneurysms in patients with degenerative connective tissue disorders. *J Endovasc Ther.* 2003;10:647-52.
7. Hilfiker PR, Razavi MK, Kee ST, Sze DY, Semba CP, Dake MD. Stent-graft therapy for subclavian artery aneurysms and fistulas: single-center mid-term results. *J Vasc Interv Radiol.* 2000;11:578-84.
8. May J, White G, Waugh R, Yu W, Harris J. Transluminal placement of a prosthetic graft-stent device for treatment of subclavian artery aneurysm. *J Vasc Surg.* 1993;18:1056-9.

## Timona com clínica atípica

### *Timona with atypical clinic*

Angelina Speers Hayden Gallotti, Gregório Pinheiro Soares  
Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil  
Publicação do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)

#### RESUMO

**Introdução:** Os timomas são considerados tumores raros, sem prevalência entre gêneros. A incidência aumenta com a idade e são raros em menores de 20 anos. Apresentam crescimento lento, com a maioria assintomática. A ressecção cirúrgica completa é a principal terapêutica para os timomas, porém a radioterapia e quimioterapia podem aumentar a longevidade e melhorar prognóstico em casos nos quais não é indicada a ressecção cirúrgica. **Objetivo:** Relatar quadro de timoma de apresentação e progressão atípica, além de demonstrar o tratamento proposto. **Relato de Caso:** Mulher de 24 anos há menos de 5 meses desenvolveu massa mediastinal de 10 cm. Em resultado de biópsia de mediastino foi diagnosticado timoma. Foi descartada abordagem cirúrgica por acometimento de grandes vasos. Inicialmente realizada corticoterapia e radioterapia para tratamento de Síndrome da Veia Cava, com posterior realização de 6 ciclos de quimioterapia com combinação de cisplatina, doxorrubicina, ciclofosfamida e prednisona. Em imagens de controle apresentou importante redução da massa mediastinal após término de quimioterapia, com pequena captação em PET-CT localizada em mediastino anterior. Reavaliada novamente, optou-se por abordagem cirúrgica de lesão, porém durante o procedimento, a massa mostrou-se irressecável. Paciente então foi submetida a radioterapia para término de tratamento adjuvante. Durante tratamento quimioterápico, desenvolveu quadro de tamponamento cardíaco, derrame pleural e tromboembolismo pulmonar. Houve necessidade de diminuição da dose de quimioterápicos por mielotoxicidade. **Conclusão:** O diagnóstico e condução de tumores em região mediastinal é sempre desafiador e requer, além do rápido reconhecimento, o envolvimento multi-disciplinar (radiologia, oncologia clínica, radio-oncologia, cirurgia torácica e patologia) para o manejo mais adequado.

**Descritores:** Timoma; síndrome de veia cava, quimioterapia

## ABSTRACT

**Introduction:** Thymomas are considered rare tumors, with no prevalence between genders and their incidence increases with adulthood and is very rare in children under 20 years of age. It has a slow growth, with the majority being asymptomatic. Complete surgical resection is the main therapy for thymomas, however radiotherapy and chemotherapy can increase longevity and prognosis in cases where surgical resection is not indicated. **Objective:** To report a picture of atypical thymoma and progression, in addition to demonstrating the proposed treatment for the condition. **Case Report:** A 24-year-old female, less than 5 months old, develops a 10 cm mediastinal mass and makes the diagnosis by opening a picture of Superior Vena Cava Syndrome. As a result of mediastinal biopsy, thymoma is diagnosed and evaluated by thoracic surgery that excludes a surgical approach due to involvement of large vessels. Initially performed Corticotherapy and Radiotherapy for the treatment of Vena Cava Syndrome, with subsequent completion of 6 cycles of chemotherapy with CAPP [combination of Cisplatin, Doxorubicin, Cyclophosphamide and Prednisone]. In control images, there was an important reduction in the mediastinal mass after the end of chemotherapy, with a small uptake in PET-CT in the anterior mediastinum. It was reassessed again by the Thoracic Surgery team, which opted for a surgical approach to the lesion, but during the procedure the mass was shown to be unresectable. Patient then undergoing radiotherapy to complete adjuvant treatment. During chemotherapy treatment, he developed a picture of Cardiac Tamponade, Pleural Effusion and Pulmonary Thromboembolism, in addition to the need to reduce the dose of chemotherapy due to myelotoxicity. **Conclusion:** The diagnosis and management of tumors in the mediastinal region is always challenging and requires, in addition to rapid recognition, a multidisciplinary involvement (radiology, clinical oncology, radiooncology, thoracic surgery and pathology) for the most adequate management.

**Keywords:** Thymoma, vena cava syndrome, chemotherapy.

### *Correspondência:*

Angelina Speers Hayden Gallotti  
E-mail: [angelinagallotti@gmail.com](mailto:angelinagallotti@gmail.com)  
Data de submissão: 07/01/2022  
Data de aceite: 08/12/2022

### *Trabalho realizado:*

Serviço de Clínica Médica do Hospital do Servidor Público Estadual  
"Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil.  
Endereço: Rua Pedro de Toledo, 1800, 11º andar - Vila Clementino -  
CEP: 04039-901, São Paulo, SP, Brasil.

## INTRODUÇÃO

O timo é um órgão linfático situado na parte ântero-superior da cavidade torácica, que tem como limites anatômicos, superiormente, a traquéia, a veia jugular interna e a artéria carótida comum, e lateralmente os pulmões. É constituído por três partes principais: a medula que é a parte mais interna, o córtex que envolve a medula e a cápsula, o revestimento externo do timo. Sua importância no sistema imune é principalmente no período fetal e na infância, quando é responsável pela produção e maturação dos linfócitos T<sup>1</sup>. O timo diminui de tamanho ao longo da vida, até que na idade adulta é gradualmente substituído por tecido adiposo, o que provoca a diminuição da produção de linfócitos T.

Os timomas são considerados tumores raros, sem prevalência entre gêneros. Sua incidência aumenta com a idade adulta, com pico aos 50–60 anos<sup>2</sup> e muito raro em menores de 20 anos de idade. É a neoplasia primária mais comum do mediastino anterior, mas representa menos de 1% das neoplasias no adulto<sup>3,4</sup>

A maioria é assintomática, com crescimento lento e a maioria tem diagnóstico incidental em exames de imagem. Aproximadamente 40% dos sintomáticos apresentam *miastenia gravis*, a síndrome paraneoplásica mais associada a essa neoplasia. Outras doenças que podem estar associadas ao timoma são representadas pela aplasia pura das células vermelhas (PRCA) e a hipogamaglobulinemia.<sup>5</sup>

Os principais diagnósticos diferenciais de timoma são representados pelos linfomas e tumores germinativos.

Atualmente, o estadiamento mais utilizado é o de Masaoka, pós-cirúrgico, em 4 estágios. O Estágio I não é invasivo. O Estágio II é dividido em: IIA no qual o tumor desenvolve-se no interior da cápsula, e em IIB onde se desenvolve além da cápsula interna e acomete

tecidos adiposos próximos. Pode atingir o mediastino. O Estágio III, o timoma invade os tecidos vizinhos ou órgãos da parte inferior do pescoço ou superior do tórax, inclusive o pericárdio, pulmões ou os principais vasos sanguíneos, representados pela veia cava superior e aorta. Já o Estágio IV, é dividido em IVA, onde o timoma se disseminou por toda a pleura e/ou pericárdio, e o Estágio IVB quando há disseminação para outros órgãos distantes. Os locais mais comuns de disseminação são os ossos, fígado e pulmões.

A ressecção cirúrgica completa é a principal terapêutica para os timomas, e é o fator preditivo mais importante de sobrevivência em longo prazo. Contudo, a radioterapia e quimioterapia apresentam bons resultados, com aumento da longevidade e melhoria do prognóstico em casos nos quais não seja indicado a ressecção cirúrgica.

Aqui reporta-se o caso de uma paciente jovem que, durante a pandemia de COVID-19, desenvolveu sinais e sintomas de síndrome de veia cava superior decorrente de um timoma.

## OBJETIVO

Objetiva-se, relatar quadro de timoma de apresentação e progressão atípica, além de demonstrar o tratamento proposto.

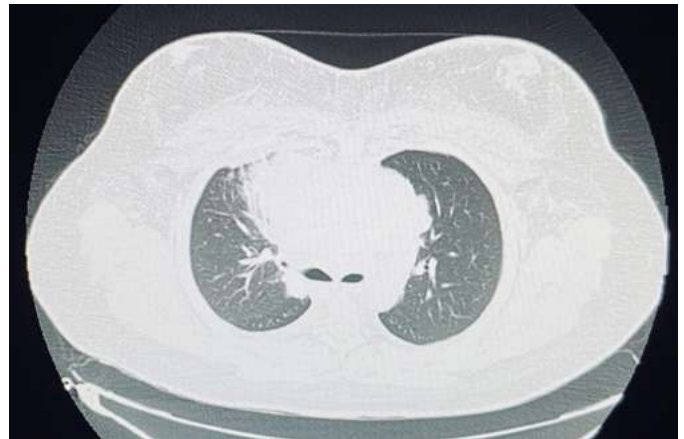
## RELATO DE CASO

Paciente do sexo feminino, 24 anos, solteira, estudante, sem filhos e procedente de São Paulo. Sem comorbidades prévias. A história de paciente começou em 06 de junho de 2020, onde após ter tido contato com pessoa infectada por COVID-19, começou a apresentar sintomas representados por tosse, febre não-aférida, diarreia, odinofagia e dor torácica. Evoluiu com nove dias de sintomas com dispneia e episódio de dessaturação com 89% em ar ambiente,

com a necessidade de internação hospitalar por quadro de COVID-19, mostrava menos de 50% de acometimento em tomografia de tórax. Permaneceu internada por 6 dias, em leito comum e recebeu alta médica sem intercorrências. Na internação, realizou angiotomografia de tórax, que descartou a presença de tromboembolismo pulmonar, mas pondo a mostra timo proeminente com atenuação homogênea e contornos bocelados. A paciente não apresentava clínica associada e não foi realizado seguimento clínico sobre a alteração encontrada. Desde então, não apresentou seguimento clínico no serviço. Retornou através do Pronto Socorro (PS) do mesmo hospital no dia 27 de Setembro de 2020 com dor precordial irradiada para membro superior esquerdo (MSE) e sensação de sufocamento iniciado há 1 semana. Nesse atendimento, realizou-se ultrassonografia de membro inferior esquerdo e de carótidas, sem evidências de alterações. Realizada investigação sobre síndrome coronariana aguda, que foi descartada, paciente recebeu alta, com encaminhamento para Cardiologista após 3 dias. Em consulta ambulatorial, foi descartada causa cardíaca para o caso. Retornou mais duas vezes ao PS, com a presença de erupção cutânea associada à dor de forte intensidade em região cervical.

Realizou tomografia computadorizada de região cervical que evidenciou a presença de focos gasosos em topografia do forame vertebral à direita nos níveis de vértebras cervicais de C2 à C6. Permaneceu por 10 dias assintomática, em casa. Apresentando piora da dispneia associada a edema de face com pletora facial, dor precordial e nódulo cervical endurecido e dificuldade de deglutição. Procurando o PS no dia 01 de novembro de 2020 após 5 dias da piora dos sintomas. Realizou tomografia computadorizada de tórax e ultrassonografia de região cervical. Nesta, evidenciou-se à presença de múltiplos

linfonodos atípicos em região cervical, com formato globoso, hipoecogênicos, de contornos regulares, medindo até 1,8 x 0,8 cm à direita e até 1,5 x 1,1 cm à esquerda. Em tomografia computadorizada de tórax (Figura 1) evidenciou-se a presença de tecido heterogêneo em mediastino com projeção para o hilo pulmonar direito e lobo superior pulmonar direito, com medidas de cercade 8,2 x 10,7 cm, associado à presença de linfonodomegalias mediastinais, de até 1.9 cm.



**Figura 1** - Imagem de tomografia computadorizada de tórax

O laudo de exame sugeria a presença de doença linfoproliferativa, porém paciente recebeu alta do PS com a suspeita de lúpus eritematoso sistêmico e sem novas investigações sobre o caso, apesar da mesma permanecer sintomática. Retornou ao PS após 2 dias, por piora da dispneia. Em atendimento foi evidenciado a presença de pletora facial acompanhado de edema de face, circulação colateral em face anterior do tórax e edema importante em membro superior direito (MSD). Paciente não apresentava a presença de Sintomas B. Ao exame físico, percebia-se massa palpável em região cervical, doloroso a palpação e de consistência endurecida de aproximadamente 5 cm. Revistos exames de imagem realizados anteriormente e suspeitado de síndrome de veia cava superior. Realizado angiotomografia computadorizada de tórax que evidenciou volumosa massa mediastinal,

envolvendo os segmentos ascendentes e transversos da aorta torácica, sem estenose luminal dos mesmos. A referida massa envolvia o tronco da artéria pulmonar e as artérias pulmonares direita e esquerda, notadamente à direita, com discreta redução do calibre desta última. Realizada a internação da paciente com a avaliação de urgência para realização de biópsia transparietal de mediastino. Fez-se a introdução de corticoterapia com dexametasona para tratamento de síndrome de veia cava. Em tomografia de crânio e abdômen não apresentava evidência de doença. Na biópsia de mediastino realizada no dia 05 de novembro de 2021 evidenciou-se a presença de timoma inclassificável em amostra de 1,6 x 0,1 x 0,1 cm, com imunohistoquímica positiva para CD4, CD 79A, CD 3, CD 20, AE1/AE3 e CD8 (Tabela 1).

**Tabela 1** - Biópsia de mediastino - Imunohistoquímica (05/11/2020)

Biópsia de mediastino - Imunohistoquímica		
PAX-5	POSITIVO	
CD4	POSITIVO	100% DAS CÉLULAS
CD 79A	POSITIVO	20% DAS CÉLULAS
CD 30	NEGATIVO	
CD3	POSITIVO	80% DAS CÉLULAS
CD 20	POSITIVO	20% DAS CÉLULAS
CD 15	NEGATIVO	
CD 10	NEGATIVO	
AE1/AE3	POSITIVO	ÁREAS FOCAIS
CD8	POSITIVO	80% DAS CÉLULAS

Em 06 de novembro, por conta da síndrome de veia cava, a paciente iniciou sessões de radioterapia em fase única com 3DCRT em 5 sessões com 9GY em 3 frações ( 3GY) em mediastino, com término em 10 de novembro de 2020. Evoluiu com melhora sintomática. Após o resultado de biópsia foi iniciada uma linha de quimioterapia com CAPP [combinação de cisplatina, doxorrubicina, ciclofosfamida e prednisona] a cada 21 dias, com primeiro ciclo iniciado em 12 de novembro de 2020. Inicialmente a paciente pesava 97 kg, com altura de 1.63 e IMC de 39. Foi realizado, no total, 6 ciclos (Tabela 2), com a necessidade de diminuição de dose no 6º ciclo devido à mielotoxicidade. O último ciclo foi realizado em 10 de março de 2021. Desde o início da quimioterapia, fez uso de filgrastin (fator de crescimento de colônia de granulócitos), granulokine®, 300mcg/dia subcutâneo com a primeira dose aplicada no dia da quimioterapia no total de 5 dias de aplicação em dias seguidos.

**Tabela 2** - Primeira linha de quimioterapia - CAPP

Ciclos	Datas	Cisplatina D1/D3	Doxorrubici na D1/D3	Ciclofosfami da D1/D1	Prednisona D1/D5
1 ciclo	12/11/2020	60mg	40mg	1000mg	100
2 ciclo	03/12/202	60mg	40mg	1000mg	100
3 ciclo	29/12/2020	60mg	40mg	1000mg	100
4 ciclo	21/01/2021	60mg	40mg	1000mg	100
5 ciclo	11/02/2021	60mg	40mg	1000mg	100
6 ciclo	10/03/2021	45mg	25mg	900mg	20mg

Durante o tratamento quimioterápico, evoluiu com a presença de Derrame Pericárdico associado a Derrame Pleural à direita em Dezembro de 2020, com a necessidade de realização de drenagem de pericárdio de pleural em 01 de dezembro de 2020.

Também durante a realização do 6º ciclo de quimioterapia, evoluiu durante internação com dor em membro inferior esquerdo associada à dor local. Realizado Doppler ultrassonografia de membro inferior à esquerda, evidenciou-se a presença de trombose venosa profunda em membro. A angiotomografia de tórax com presença de tromboembolismo pulmonar, foi optado por tratamento com rivaroxaben (Xarelto®) continuamente.

Além disso, em virtude da necessidade de uso de corticoide em dose alta, evoluiu com síndrome de cushing, com a necessidade de progressiva retirada de corticóide. Durante o tratamento, em imagem tomográfica de controle, apresentou redução significativa das dimensões do processo expansivo infiltrativo ao nível do timo (Figura 2), com a veia cava permanecendo obliterada parcialmente. Em tomografia computadorizada de crânio e abdômen observou-se ausência de doença. Evidenciou-se também melhora em derrame pleural e pericárdico. As imagens da tomografia por emissão de pósitrons (PET-CT) realizada em fevereiro de 2021, foram avaliadas e classificada de acordo com o *standard uptake value* máximo (SUVmax) - parâmetro semiquantitativo utilizado para avaliar imagens oncológicas em PET e PET/CT. Evidenciou-se pequena captação em mediastino anterior, adjacente à aorta medindo 5,1 x 1,3 cm com SUVmax de 3,9, além de captação em linfonodos mediastinais na cadeia para-aortica, medindo até 0,9 cm com SUVmax: 3,9. Em exame apresentava para correlação SUVmax hepático de 4,6 e pool mediastinal de 2,9.



**Figura 2** – Tomografia Computadorizada de tórax após tratamento

Reavaliada novamente, foi proposta a ressecção do timoma. Em maio de 2021 foi submetida a Pleuroscopia à direita pela equipe, porém durante procedimento cirúrgico apresentava presença de aderências pleuropulmonares em região mediastinal invadindo a região pericárdica, com a impossibilidade de identificação de veia cava superior e veia azigo. Com isso, não realizou-se a ressecção de massa maligna remanescente. Por isso, optou-se por encaminhá-la novamente para complementação de dose de radioterapia em virtude de presença de doença residual macroscópica, e foi submetida em Junho de 2021 a novas sessões.

No momento, a paciente permanece em acompanhamento clínico aos cuidados da Oncologia. Realizaram-se novas imagens tomográficas em outubro de 2021, sem demonstração de progressão da doença neoplásica.

## DISCUSSÃO

O desenvolvimento da neoplasia do presente caso clínico ocorreu de forma acentuada. Em menos de 5 meses apresentou massa de 10 cm em região de mediastino com resultado de biópsia que demonstrou a presença de timoma e com a paciente abrindo quadro clínico através de síndrome da veia cava superior. Essa evolução de doença é incomum quando comparada aos casos de timoma.



Essa neoplasia é mais frequente em pessoas acima de 50 anos e costuma ter evolução mais lenta. Com isso, a principal hipótese inicial corroborava para neoplasia linfoproliferativa. Essa pode tornar claro, quadro com sintomas característicos de compressão de grandes vasos, e pode levar à síndrome da veia cava em maior incidência quando comparado ao timoma, além de maior presença de derrame pericárdico e pleural. Além disso, a questão da idade da paciente e o acentuado crescimento da massa em pouco tempo representou um quadro atípico da presença de timoma. Timoma e Linfoma são difíceis de distinguir entre si, em virtude de apresentarem padrões semelhantes de necrose e invasão pulmonar<sup>5,6</sup>, além da baixa incidência dessas neoplasias em região de mediastino. Com isso, a paciente permanece em acompanhamento clínico com equipe da Oncologia e em caso de nova progressão da doença, será avaliado viabilidade de nova realização de biópsia de lesão.

Com relação ao tratamento, a paciente foi inicialmente avaliada e como a massa de 10 cm acometia grandes vasos, como a aorta torácica e artéria pulmonar direita à qual levava à estenose local, foi descartada abordagem cirúrgica com ressecção completa de lesão. Ademais, é parte fundamental da propedêutica inicial de tumor em mediastino a definição histológica através de amostra de biópsia, seja cirúrgica ou guiada por método de imagem, uma vez que a ressecção tumoral não faz parte da estratégia terapêutica de todas as neoplasias que podem surgir nessa região, como é o caso das doenças linfoproliferativas. Inicialmente foram realizadas 5 sessões de radioterapia por conta de evolução para síndrome da veia cava e iniciado posteriormente, após resultado de biópsia, quimioterapia com CAPP. Realizou-se, no total, 6 ciclos e houve diminuição importante de massa mediastinal, com PET-SCAN que demonstrou pouca atividade de

doença. Estudos demonstram bons resultados com esse esquema de quimioterapia, com aumento da sobrevida. Além disso, estudo fase 2 com uso de quimioterapia de indução com CAPP para otimizar a ressecabilidade cirúrgica do timoma seguida de radioterapia e quimioterapia posterior<sup>7</sup> demonstrou bons resultados, apesar do número reduzido de pacientes avaliados. São necessários novos estudos prospectivos multi-institucionais para verificar ou definir o melhor tratamento para essa população. No caso da paciente do presente relato, inicialmente não apresentava proposta cirúrgica, porém como apresentou diminuição significativa de massa, a equipe cirúrgica decidiu abordar em Maio/2021, mas, não conseguindo realizar a ressecção por conta de aderência que impossibilitava a visualização de vasos importantes durante procedimento cirúrgico. Foi optado por não retirar o tumor e paciente foi submetida posteriormente a radioterapia para otimizar controle local da doença.

## CONCLUSÃO

Em virtude da relativa raridade dessa neoplasia, o tratamento mais adequado ainda está para ser estabelecido. A discussão multidisciplinar é de suma importância para a condução de pacientes com tumores tímicos.

## REFERÊNCIAS

1. Moore KL, Persaud TVN. The branchial or pharyngeal apparatus. In: Moore KL, Persaud TVN, eds. The developing human. Clinically oriented embryology. 5th ed. Philadelphia, PA: WB Saunders, 1993:193–200.
2. J Thorac Oncol. 2014 Jul;9(7): 1018-1022. doi: 10.1097/JTO.0000000000000215.
3. Shikada Y, Katsura M, Takenaka T, et al. A case of middle mediastinal thymoma. Gen Thorac Cardiovasc Surg. 2012;60:664–7.

4. Juanpere S, Cañete N, Ortuño P, et al. A diagnostic approach to the mediastinal masses. *Insights Imaging*. 2013;4:29–52.
5. Maria Teresa Magalhães Godinho; Tumores do mediastino - 7 volume
6. *AJR Am J Roentgenol*. 2015 Oct; 205(4): 774-9. Doi: 10.2214/AJR.15.14442
7. *Lung Cancer*. 2004 Jun;44(3):369-79. doi: 10.1016/j.lungcan.2003.12.010

## PEComa do trato gastrointestinal

### *PEComa of the gastrointestinal tract*

Amora Maria Duarte Gomes Bringel, Luana Castro de Rezende Fiorot, Tatiana Iutaka, Eugênio Alves Vergueiro Leite  
Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil  
Publicação do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)

#### RESUMO

Os PEComas são definidos como neoplasias mesenquimais compostas por células epitelioides perivasculares distintas nos aspectos histológicos e imuno-histoquímicos. O grupo dos PEComas inclui o angiomiolipoma renal, linfangioleiomiomatose, tumor de células claras do pulmão e uma variedade de tumores viscerais, intra-abdominais e de tecidos moles e ósseo. A grande maioria dos PEComas apresentam imunorreatividade para marcadores melanocíticos e de músculo liso. Há aparente predileção por órgãos viscerais, retroperitoneais e abdominopélvicos, especialmente do trato gastrointestinal e útero. Os PEComas do trato gastrointestinal acometem mais frequentemente indivíduos na 4ª e 5ª décadas de vida, com predominância no sexo feminino. A apresentação clínica varia conforme o órgão envolvido, o tamanho e o volume do tumor ou pode apresentar-se assintomático. Os exames de imagem direcionam a investigação, mas não são suficientemente sensíveis para permitir o diagnóstico de PEComa, cuja apresentação é inespecífica. A maioria dos PEComas são benignos e tratáveis com ressecção cirúrgica. No entanto, uma minoria apresenta comportamento agressivo, com recorrência local e/ou metástases a distância. A conduta terapêutica ainda não está bem estabelecida, mas tem como base a ressecção cirúrgica. A quimioterapia deve ser considerada nos casos malignos. Este trabalho buscou relatar um caso de PEComa no trato gastrointestinal, além da revisão de literatura desta patologia, que apesar de ainda escassas informações, é de suma importância para melhor caracterização do potencial de malignidade através dos recursos de imagem e patologia.

**Descritores:** PEComa; Imuno-histoquímica; trato gastrointestinal

#### ABSTRACT

PEComas are defined as mesenchymal neoplasms composed of distinct perivascular epithelioid cells in histological and immunohistochemical aspects. The group of PEComas includes renal angiomyolipoma, lymphangioleiomyomatosis, clear cell lung tumor and a variety of visceral, intra-abdominal and soft tissue and bone tumors. Most PEComas have immunoreactivity to melanocytic and smooth muscle markers. There is an apparent predilection for visceral, retroperitoneal and abdominopelvic organs, especially of the gastrointestinal tract and uterus. Gastrointestinal tract PEComas most commonly affect individuals in the 4th and 5th decades of life, predominantly in females. The clinical presentation varies according to the organ involved, the size and volume of the tumor may be asymptomatic. Imaging studies direct the investigation, but are not sensitive enough to allow the diagnosis of PEComa, whose presentation is nonspecific. Most PEComas are benign and treatable with surgical resection; however, a minority show aggressive behavior, with local recurrence and/or distant metastases. The therapeutic approach is not yet well established, but is based on surgical resection. Chemotherapy should be considered in malignant cases. This paper aimed to report a case of PEComa in the gastrointestinal tract, as well as a literature review of this pathology, which, although still scarce information, is of utmost importance to better characterize the potential of malignancy through imaging and pathology resources.

**Keywords:** PEComa; immunohistochemistry; gastrointestinal tract

#### Correspondência:

Amora Maria Duarte Gomes Bringel  
E-mail: amora.duarte@hotmail.com  
Data de submissão: 24/01/2020  
Data de aceite: 19/12/2022

#### Trabalho realizado:

Serviço de Radiologia e Diagnóstico por Imagem do Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil.  
Endereço: Rua Pedro de Toledo, 1800, 1º andar - Vila Clementino - CEP: 04039-901, São Paulo, SP, Brasil.

## OBJETIVO

Apresentação de um caso clínico de PEComa do trato gastrointestinal, com o intuito de enfatizar o papel da avaliação complementar radiológica no diagnóstico desta afecção.

## MÉTODOS

O caso foi coletado do arquivo digital de imagens do Departamento de Radiologia e Diagnóstico por Imagem do Hospital do Servidor Público Estadual “Francisco Morato de Oliveira” HSPE- FMO de São Paulo. Foram também coletados dados clínicos e história constantes no prontuário médico. Posteriormente, realizou-se uma pesquisa bibliográfica em bancos de dados médicos especializados, com vistas a encontrar artigos de revisão bem como relatos de casos semelhantes.

## RELATO DE CASO

### História clínica

Paciente de 76 anos, sexo masculino, branco, policial aposentado, procurou atendimento no pronto-socorro do Iamspe por apresentar quadro de dor abdominal com evolução há dois dias.

A dor localizava-se na fossa ilíaca direita, com característica em pontada, notando-se aumento progressivo da intensidade. Era acompanhada de náuseas, hiporexia e calafrios durante a madrugada. O paciente relatava melhora do quadro em decúbito lateral direito e piora com a movimentação. Há dois meses, apresentava hábito intestinal constipado com evacuação presente e fezes ressecadas em pequena quantidade, no momento. Negava alteração da diurese, vômitos e perda de peso. Referia realização de colonoscopia prévia há mais de 10 anos com normalidade do exame.

**Medicações em uso:** Amiodarona 100mg pela manhã; Levotiroxina 125mcg/dia; Losartana 50 mg/dia; Metformina 850 mg (1 vez ao dia); Marevan 2,5 mg/dia e Finasterida 5mg/dia.

### Antecedentes pessoais:

- Comorbidades: Hipertensão arterial, diabetes mellitus não insulino dependente, trombocitopenia imune (PTI) crônica, hipotireoidismo, insuficiência cardíaca congestiva (ICC), insuficiência mitral, fibrilação atrial revertido em 2005 em anticoagulação, hiperplasia prostática benigna (HPB).
- Alergias: tilatil, capoten, atenolol, sirdalud, adalat retard.
- Antecedentes cirúrgicos: varicocele, varizes de membros inferiores há 40 anos, amidalectomia.
- Hábitos: nega tabagismo.

### Antecedentes familiares:

- Pai: sarcoma na perna.

### Exame físico:

- Regular estado geral, orientado no tempo e no espaço, hipocorado, hidratado, acianótico. Ausculta pulmonar: murmúrios vesiculares presentes, sem ruídos adventícios. Ausculta cardíaca: bulhas cardíacas rítmicas, normofonéticas, 2 tempos, sem sopros. Abdome: globoso, ruídos hidroaéreos presentes, doloroso à palpação superficial e profunda na fossa ilíaca direita, descompressão brusca negativa. Membros inferiores sem edema e sem empastamento de panturrilhas.

- Dados vitais: SaO<sub>2</sub>: 96% ar ambiente, PA: 127x89 mmHg, FR: 20 irpm, FC: 92 bpm, temperatura axilar: 36,4°C, dextro: 120 mg/dL.

Durante a admissão hospitalar, foram solicitados exames laboratoriais, cujos resultados não mostravam alterações significativas.

### Exames laboratoriais

- Eritrograma: Eritrócitos: 4,08, hemoglobina: 9,9, hematócrito: 29,9 / VCM: 73,2 / HCM: 24,2 / CHCM: 33,1 / RDW: 20,2

Obs.: anisocitose + + / microcitose +

- Leucograma: leucócitos: 24,1 mil/mm<sup>3</sup> (metamielócitos 0% / bastonetes 6% / segmentados 56% / eosinófilos 1% / basófilos 1% / linfócitos 7% / monócitos 29% / plasmócitos 0%)
- Plaquetas: 110.000/mm<sup>3</sup>
- TP: 27,8 s / RNI: 2,3
- TTPA: 51 s
- Amilase: 50 U/L
- Bilirrubina total: 0,94 mg/dL (bilirrubina direta: 0,33mg/dL / bilirrubina indireta: 0,61mg/dL); TGO: 23 U/L; TGP: 15 U/L; GGT: 46 U/L; fosfatase alcalina: 95 U/L; CKMB massa: 0,8 ng/mL; troponina I: 0,006 ng/mL; glicose: 123 mg/dL; sódio: 129 mEq/L; potássio: 4,7 mEq/L; ureia: 43 mg/dL; creatinina: 1,4 mg/dL; PCR: 21,19 mg/Dl

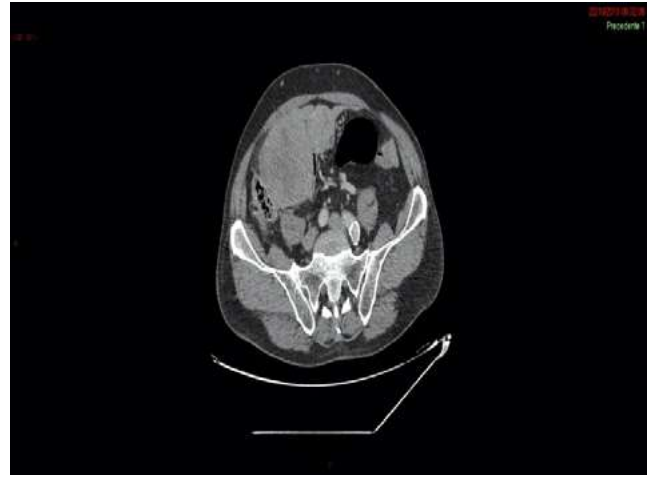
### Exames de imagem

Ainda na admissão, solicitou-se ultrassonografia de abdome total, que evidenciou lesão hipoecóica lobulada, localizada na fossa ilíaca/flanco direito, em possível continuidade com alças colônicas, e medidas de 12,2 x 8,7 x 6,9 cm.

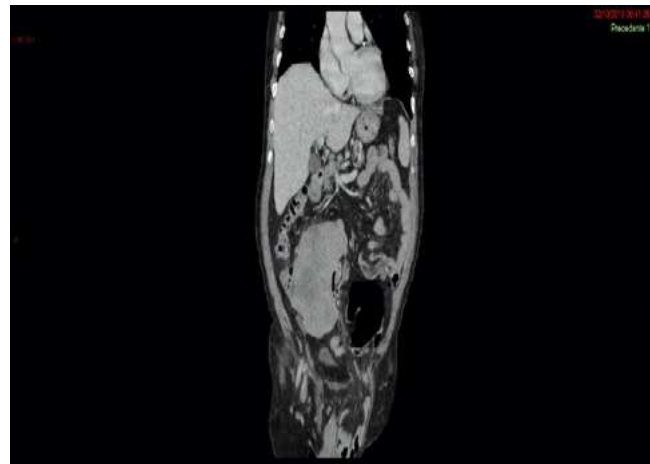
Um dia após, foi realizada tomografia computadorizada do abdome total com contraste, cujos achados de maior relevância seguem nas imagens a seguir (Figuras 1 a 4).



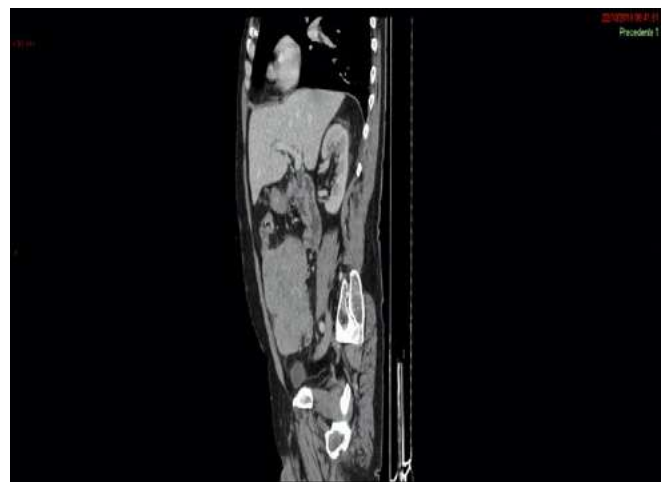
**Figura 1** - Corte axial de TC de abdome em janela de partes moles, evidenciando volumosa lesão expansiva sólida com áreas de necrose central no mesentério



**Figura 2** - Corte axial de TC de abdome em janela de partes moles, evidenciando volumosa lesão expansiva que não infiltra alças intestinais



**Figura 3** - Corte coronal de TC de abdome em janela de partes moles, o qual demonstra que a lesão encontra-se na fossa ilíaca direita



**Figura 4** - Corte sagital de TC de abdome em janela de partes moles, o qual demonstra que a lesão apresenta-se com realce e áreas de necrose central

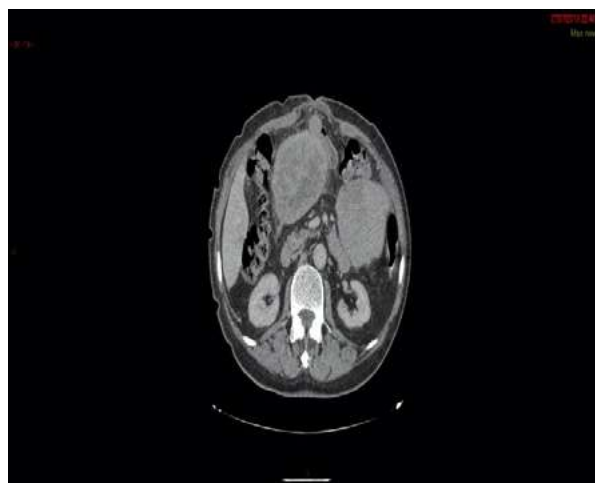
## Conduta e evolução

Nove dias após a TC de abdome, o paciente foi submetido à laparotomia exploradora, com colectomia segmentar à esquerda e anastomose colorretal latero-lateral em dois planos.

O estudo histopatológico e imuno-histoquímico da peça cirúrgica indicou o diagnóstico de sarcoma pleomórfico de alto grau.

Estudo imuno-histoquímico: MX Vimentina: positivo nas áreas de neoplasia; MX AML (actina de músculo liso): negativo; MX Desmina: positivo focalmente; MX Caldesmon: negativo; RX OS-600: negativo; MX CD 34: negativo; MX CD 117: negativo, MX HMB-45: negativo

Nos exames de imagem de controle, o paciente apresentou recidiva tumoral, evidenciado por múltiplas lesões sólidas expansivas heterogêneas intracavitárias, em meio às alças intestinais, como ilustrado a seguir (Figura 5).



**Figura 5** - Corte axial de tomografia computadorizada de abdome 1 ano após a ressecção cirúrgica, evidencia recidiva tumoral. Notam-se múltiplas lesões sólidas expansivas heterogêneas intracavitárias, em meio às alças delgadas, as maiores no flanco esquerdo medindo 9,0 x 8,0 cm e no mesogástrio à direita medindo 8,0 x 6,0 cm

Solicitou-se, então, a revisão das lâminas. O estudo histológico revisado evidenciou padrão morfológico epitelióide hiper celular com células pleomórficas exibindo amplo citoplasma eosinofílico com granulações eosinofílicas grosseiras; atipias celulares intensas representadas por cariomegalia com macronúcleos; índice de 3 mitoses em 50 campos de grande aumento.

O estudo imuno-histoquímico revisado identificou a expressão de marcadores melânicos e miogênicos (AML, desmina, HMB 4 e Melan-A), presentes em tumores com histogênese em células epitelióides perivasculares.

Estudo imuno-histoquímico: AE1/AE3: negativo (controle interno positivo); AML (actina de músculo liso), 1A4: positivo em algumas células; CD 117 (c-kit): negativo (controle interno positivo); CD 34: negativo (controle interno positivo); Desmina: positivo em algumas células; DOG1: negativo; HMB 45: positivo em raras células; INI-1: positivo fraco (ausência de perda de expressão); Melan-A: positivo em algumas células; Miogenina: negativo; Myo D1: negativo; Proteína S-100: negativo (controle interno positivo); TFE3: negativo.

Foram identificados fatores preditivos de evolução desfavorável, especialmente localização profunda, grande dimensão tumoral, atipias acentuadas e atividade mitótica aumentada no tumor.

A partir do conjunto dos achados histopatológicos e imuno-histoquímicos, chegou-se ao diagnóstico de PEComa maligno do tubo digestivo.

Optou-se por conduta paliativa ao paciente, por se tratar de um quadro com recidiva tumoral e presença de fatores preditivos histológicos de alto potencial para metástase e recidiva, e baixa resposta à quimioterapia e à radioterapia.

## DISCUSSÃO

Os tumores de células epitelioides perivasculares (PEComas) são neoplasias mesenquimais raras, com morfologia e características imuno-histoquímicas distintas, caracterizados por sua localização perivascular. Têm morfologia de células epitelioides ou ocasionalmente fusiformes e geralmente expressam marcadores melanocíticos e de músculo liso<sup>1,5</sup>.

Incluem-se neste grupo de tumores, o angiomiolipoma renal, linfangioleiomiomatose, tumor de células claras do pulmão e tumores semelhantes que ocorrem no retroperitônio, rim, útero, pâncreas e em uma variedade de outros locais viscerais e partes moles<sup>2</sup>. Os PEComas renais incluem vários subtipos histológicos de angiomiolipomas, relacionados ao complexo da esclerose tuberosa e apresentam alterações genéticas características<sup>5</sup>. Diferentemente dos outros sítios de PEComas, não há relato de caso no trato gastrointestinal em pacientes com esclerose tuberosa até este momento<sup>3</sup>.

Os PEComas do trato gastrointestinal (TGI) representam uma proporção de cerca de 20% a 25% dos PEComas em sítios viscerais e de tecidos moles. O TGI é o segundo mais frequente, atrás somente do trato ginecológico, sendo o local mais frequentemente envolvido o cólon, seguido pelo mesentério e estômago<sup>3</sup>.

Geralmente ocorrem na meia idade e são frequentemente benignos e curáveis com a ressecção cirúrgica. No entanto, alguns PEComas mostram comportamento agressivo, com recorrência local ou metástases à distância. Esses PEComas malignos carecem de

terapia curativa, uma vez que se disseminam e são geralmente fatais<sup>5</sup>.

Apresentam sinais clínicos inespecíficos, que dependem dos diferentes órgãos envolvidos, o tamanho da neoplasia e o volume do tumor. As principais apresentações clínicas incluem dor abdominal (mais frequente), melenas, sangramento retal, obstrução, perda de peso, anemia e alguns até assintomáticos.

A ultrassonografia pode representar uma massa heterogênea com intensa vascularização ao estudo Doppler. Ao exame de tomografia computadorizada, a maioria se manifesta como uma massa bem delimitada com densidade homogênea, predominantemente isodensa à musculatura paravertebral, com realce heterogêneo ou homogêneo ao meio de contraste<sup>3,5</sup>.

Geralmente, na ressonância magnética (RM), as lesões são de hipointensas a isointensas nas sequências ponderadas em T1 e heterogeneamente hiperintensas nas imagens ponderadas em T2. No entanto, os exames de imagem não são suficientemente sensíveis para permitir o diagnóstico de PEComas, devido às suas características inespecíficas à imagem. Não existe uma distinção clara entre as contrapartes benignas e malignas, mas as modalidades acima mencionadas podem ajudar a detectar a invasão linfovascular e as lesões metastáticas<sup>3</sup>.

A imuno-histoquímica é uma ferramenta útil para a identificação, devido a imunoreatividade característica para marcadores melanocíticos como o HMB-45 e melan-A e de músculo liso, como a actina e desmina, sendo o HMB-45 o mais sensível<sup>3</sup>.

Critérios histológicos para malignidade não foram completamente definidos, mas na avaliação dos preditores de prognóstico, foi proposta a correlação do crescimento infiltrativo, alto índice mitótico e grau de celularidade, presença de necrose, localização e o tamanho do tumor com a recorrência local e metástases<sup>4,6</sup>.

A estratégia de manejo mais apropriada ainda não foi definida, mas a ressecção cirúrgica é a preferência, sendo a quimioterapia ou imunoterapia consideradas nos casos com características de malignidade. Esse padrão de tratamento ainda é de evidência insuficiente para prever sobrevida, atribuído à raridade da incidência desta patologia e aos diferentes métodos cirúrgicos e esquemas de quimioterapia utilizados<sup>3</sup>.

## CONCLUSÃO

Até recentemente, muitos PEComas foram diagnosticados como vários outros sarcomas: leiomiossarcoma, tumor estromal gastrointestinal (GIST), sarcoma pleomórfico não classificado ou rabiomiossarcoma. Com o aumento da conscientização sobre essa categoria de tumor, o diagnóstico tem sido feito com mais frequência. Considerando a crescente identificação de PEComas e o comportamento agressivo dos subtipos malignos, é de suma importância para o radiologista conhecer as características de imagem e o padrão metastático desses tumores raros. Pela raridade dessa neoplasia tão distinta, as informações na literatura sobre a epidemiologia, apresentação clínica e radiológica, manipulação ideal e prognóstico ainda são incertos, especialmente nos malignos. Portanto, é necessário aventar a hipótese diagnóstica e que o estudo seja complementado com a imuno-histoquímica para conduta adequada do caso.

## REFERÊNCIAS

1. Perivascular epithelioid cell neoplasms: pathology and pathogenesis. Folpe AL, Kwiatkowski DJ. *Hum Pathol*. 2010 Jan;41(1):1-15
2. PEComa: what do we know so far?. Hornick JL and Fletcher CD. *Histopathology*, 2006 Jan;48(1):75-82.
3. A systematic review: perivascular epithelioid cell tumor of gastrointestinal tract. Chen Z, Han S, Wu J, Xiong M, Huang Y, Chen J, Yuan Y, Peng J, Song W. *Medicine (Baltimore)*, 2016 Jul;95(28): e3890.
4. PEComa of the gastrointestinal tract: clinicopathologic study of 35 cases with evaluation of prognostic parameters. Doyle LA, Hornick JL, Fletcher CD. *Am J Surg Pathol*. 2013 Dec;37(12):1769-82.
5. Imaging Features of Primary and Metastatic Malignant Perivascular Epithelioid Cell Tumors. Sree HT, Atul BS, Jonathan H, Jyothi PJ, Jason LH, Andrew J W, and Nikhil HR. *American Journal of Roentgenology* 2014 202:2, 252-258
6. Primary perivascular epithelioid cell tumor in the rectum: a case report and review of the literature. Im S, Yoo C, Jung JH, et al. *Pathol Res Pract* 2013;209:244–8.



## Dor torácica aguda: a miocardite autoimune como diagnóstico diferencial

### *Acute chest pain: autoimmune myocarditis as a differential diagnosis*

Diego Mendes do Carmo, Soraia Rachid Youssef de Campos  
Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil  
Publicação do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)

#### RESUMO

Pacientes portadores de doenças autoimunes podem, por diversos mecanismos, desenvolver dor torácica, seja pela doença arterial coronariana devido à aterosclerose avançada, ou pela doença miocárdica induzida pela inflamação crônica. A miocardite que se cronifica pode evoluir para a cardiomiopatia dilatada, que, por sua vez, leva o paciente não diagnosticado e não tratado à insuficiência cardíaca sintomática. Faz-se necessária maior discussão de tal acometimento, dada a mudança de prognóstico com reconhecimento e tratamento direcionado precoce.

**Palavras-chave:** Doenças autoimunes; artrite reumatoide; miocardite; cardiomiopatia dilatada.

#### ABSTRACT

Patients with autoimmune diseases can, through different mechanisms, develop chest pain, either due to coronary artery disease due to advanced atherosclerosis, or due to myocardial disease induced by chronic inflammation. Chronic myocarditis can progress to dilated cardiomyopathy, which, in turn, leads the undiagnosed and treated patient to symptomatic heart failure. Further discussion of such involvement is necessary, given the change in prognosis with early recognition and targeted treatment.

**Keywords:** Autoimmune diseases; rheumatoid arthritis; myocarditis; dilated cardiomyopathy.

#### *Correspondência:*

Diego Mendes do Carmo  
E-mail: diegomendes\_@live.com  
Data de submissão: 19/05/2022  
Data de aceite: 18/02/2022

#### *Trabalho realizado:*

Serviço de Clínica Médica do Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil.  
Endereço: Rua Pedro de Toledo, 1800, 11º andar - Vila Clementino - CEP: 04039-901, São Paulo, SP, Brasil.

## INTRODUÇÃO

A artrite reumatóide é uma poliartrite simétrica, inflamatória, de etiologia não conhecida, cujo estado inflamatório, quando não tratado ou mal controlado, leva a um aumento do risco cardiovascular<sup>1,2</sup>. A autoimunidade, que representa a perda da capacidade de reconhecimento de autoantígenos por células B, T e dendríticas, leva à produção anormal de autoanticorpos, que ligados aos antígenos formam imunocomplexos. Estes, causarão lesão em órgãos-alvo suscetíveis, como o coração, que terá distúrbios elétricos, perda ou disfunção de cardiomiócitos e insuficiência cardíaca<sup>3</sup>.

De acordo com a classificação atual de cardiomiopatias da Organização Mundial de Saúde, “miocardite é uma doença inflamatória do miocárdio e é diagnosticada pela biópsia endomiocárdica, com uso de critérios imunológicos, histológicos e imunohistoquímicos estabelecidos; pode ser idiopática, infecciosa ou autoimune, e curar-se ou levar a cardiomiopatia dilatada”<sup>4</sup>. Temporalmente pode ser classificada em aguda, quando os sintomas de insuficiência cardíaca se desenvolvem em três meses ou menos, ou crônica, quando persiste por mais tempo, sendo a cardiomiopatia dilatada a provável evolução da miocardite<sup>4,5</sup>.

## RELATO DE CASO

Paciente do sexo feminino, 57 anos, foi internada com queixa de dor torácica típica (precordial com irradiação para pescoço, de forte intensidade, desencadeada por esforço físico, com melhora ao uso de nitrato), sem outros sintomas associados. Ao exame físico, apresentava-se normotensa, frequência cardíaca de 60 batimentos por minuto, ausculta cardíaca e pulmonar sem alterações, sem sinovites. Paciente portadora de artrite reumatóide há mais de 20 anos (cumprindo critérios do Colégio Americano de Reumatologia de 2010, fator reumatoide

positivo, cistos e erosões em radiografia de mãos e pés); síndrome de Sjögren secundária; crioglobulinemia secundária a hepatite C tratada; hipertensão essencial; sem história pessoal ou familiar de doença coronariana. Medicamentos de uso contínuo: metotrexato 15mg/semana; prednisona 5mg; ácido fólico 5mg; ácido acetilsalicílico 100mg; losartana 50mg; hidroclorotiazida 25mg, diariamente. Nos exames complementares, a troponina era negativa. Velocidade de hemossedimentação de 39mm/h, proteína C reativa de 11,2mg/dL, função renal e hepática sem alterações. O eletrocardiograma apresentava ritmo sinusal, sem alterações sugestivas de isquemia.

Iniciada a investigação de forma não-invasiva, foi realizada cintilografia miocárdica com estresse farmacológico, que revelou hipoperfusão miocárdica transitória de grande extensão nas paredes anterior, apical, inferior e porção médio-basal do septo, e de moderada extensão na parede lateral. Dessa forma, a paciente foi encaminhada para coronariografia, que não revelou lesões obstrutivas. Dada sua história de doença imunomediada, prosseguiu-se a investigação com ressonância nuclear magnética cardíaca, cujo resultado mostrou discreto realce tardio de padrão não-isquêmico no segmento ínfero-basal do ventrículo esquerdo, o que sugeriu miocardite.

A paciente evoluiu com queixa associada de artralgia inflamatória ao longo do dia. Deste modo, optou-se pela troca de imunossupressor - azatioprina 100mg/dia e aumento temporário da dose de corticóide oral e houve melhora temporária da dor. Após alguns meses foi necessária reinternação por agudização importante das queixas. Realizou-se nova estratificação não invasiva utilizando ecocardiograma com estresse farmacológico, sem sinais de isquemia, e nova ressonância cardíaca, com ausência de inflamação. Devido à persistência da dor a equipe optou, então, pelo aumento da dose de azatioprina para 200mg/dia e iniciou o uso de colchicina 0,5mg,

para manejo de possível pericardite associada. Tal conduta resultou na melhora significativa do quadro e alta hospitalar.

## DISCUSSÃO

A miocardite aguda resolve-se em 50% dos casos e parcialmente em 25%, enquanto o restante tem piora aguda que evolui para o óbito ou cardiomiopatia dilatada em fases terminais<sup>4</sup>. Em relação a etiologia, infecções virais assumem a principal causa na América do Norte e Europa, sendo ainda possível identificar material genético viral por meio de técnicas moleculares em pacientes crônicos. Nas doenças autoimunes, a miocardite pode representar manifestação única ou ser apenas um entre outros sistemas, como no lúpus eritematoso sistêmico<sup>5</sup>. Pela falta de conteúdo literário mais atual sobre o acometimento cardíaco nestas doenças, elas são muitas vezes subdiagnosticadas e subtratadas<sup>3</sup>.

A manifestação clínica da miocardite pode ser ampla e inespecífica, incluindo diversos sintomas como dispneia inexplicada; palpitações; dor torácica; síncope; insuficiência cardíaca congestiva aguda ou crônica; morte súbita abortada; e choque cardiogênico fulminante<sup>3,5</sup>. O diagnóstico diferencial deverá ser feito incluindo história clínica adequada, eletrocardiograma, exames laboratoriais e de imagem. Como as doenças autoimunes estão associadas a doença aterosclerótica avançada e, assim incluem a doença arterial coronariana (causa de insuficiência cardíaca), é importante que seja feita a exclusão desta hipótese, por métodos invasivos ou não-invasivos<sup>3</sup>. Em pacientes portadores de artrite reumatoide, outras condições podem aumentar o risco de insuficiência cardíaca, como a própria terapia medicamentosa (glicocorticoides, anti-inflamatórios não esteroidais, e antimaláricos), e a amiloidose. Tipicamente a presença de miocardite está relacionada a doença articular ativa ou outras manifestações extra-articulares<sup>6</sup>.

Os marcadores laboratoriais, como troponina e NT-pró-BNP, podem se alterar, entretanto, sem ser específicos. Da mesma forma que marcadores de doenças autoimunes podem fazer parte da avaliação diagnóstica, mas sem evidência de que sejam de fato relacionados à presença da miocardite<sup>4</sup>. O eletrocardiograma pode apresentar quaisquer alterações inespecíficas, incluindo bradi e taquiarritmias. Ainda assim, algumas alterações chamam mais atenção: a presença difusa de supradesnívelamento do segmento ST mais côncavo, sem alterações de paredes correspondentes; infradesnívelamento do segmento PR (mais associado a pericardite); ausência de ondas Q (sugestivas de isquemia miocárdica)<sup>4</sup>.

Os exames de imagem constituem auxílio essencial ao diagnóstico. Inicialmente um ecocardiograma pode demonstrar sinais de disfunção miocárdica, por vezes subclínica, além de alterações valvares e pericardite, dado que todas as estruturas cardíacas podem ser acometidas na artrite reumatoide. A ressonância nuclear magnética é um exame que consegue fornecer dados complementares mais sugestivos de inflamação, apesar de não conseguir diferenciar a causa viral da doenças autoimune. Corroborando a hipótese de miocardite, indica com mais precisão a biópsia endomiocárdica. O padrão de realce por gadolínio na ressonância cardíaca é caracteristicamente tardio, subepicárdico e mesomiocárdico, e parece ter correlação com atividade de doença na artrite reumatoide e esclerose sistêmica<sup>3, 4</sup>.

Cumprе salientar que, como no caso clínico atual, por vezes é preciso descartar a doença arterial coronariana. De forma invasiva a coronariografia pode ser necessária. Como métodos auxiliares não-invasivos, a tomografia computadorizada pode demonstrar maior prevalência de calcificação aórtica e coronária, e a angiotomografia de coronárias

pode ser uma opção de diagnóstico de doença arterial coronariana em pacientes de baixo e intermediário risco cardiovascular. A tomografia por emissão de pósitrons e perfusão miocárdica por radionuclídeos com fluxo alterado tem forte predição para doença arterial coronariana.<sup>3</sup>

A biópsia endomiocárdica é o padrão-ouro de diagnóstico. Assume uma maior importância nos casos em que os primeiros métodos, invasivos ou não, sugerem doença miocárdica não-isquêmica, principalmente naqueles em que o resultado histopatológico poderá mudar a conduta (como na sarcoidose e na miocardite de células gigantes)<sup>3, 5</sup>. Entre 3 e 30% dos pacientes com cardiomiopatia, na artrite reumatoide, tem miocardite focal linfocítica, necrotizante difusa ou granulomatosa. Os granulomas têm predileção pelo ventrículo esquerdo e são morfológicamente idênticos aos nódulos subcutâneos<sup>3</sup>.

Há evidências de que, com o melhor tratamento da inflamação sistêmica da artrite reumatoide, o risco cardiovascular geral tenha diminuído desde os anos 80. Apesar do tratamento imunossupressor já estabelecido para a doença, o acometimento de órgãos-alvo, como na miocardite, demanda uma atenção especial, no intuito de deixar a doença em seu menor nível de atividade. Altas doses de metilprednisolona (500 a 1000mg/dia por três dias ou 80mg diariamente) podem ter benefício como terapia inicial<sup>6</sup>. A imunoglobulina deve ser considerada tanto na forma viral quanto autoimune. Estudos clínicos randomizados mostram benefício, principalmente em miocardite e miocardiopatia dilatada definida como autoimune, no uso da combinação de azatioprina, corticoides e ciclosporina A<sup>4,7</sup>. A imunossupressão pode progredir com drogas imunobiológicas, como os agentes antifator de necrose tumoral alfa (infliximabe, adalimumabe e etanercept), sendo possível demonstrar por exame de ressonância

magnética cardíaca a redução da inflamação miocárdica com seu uso, apesar de mais estudos serem necessários<sup>7</sup>.

A insuficiência cardíaca sintomática poderá ser tratada com inibidores da enzima conversora de angiotensina, bloqueadores do receptor de angiotensina II, betabloqueadores e diuréticos, e não se sabe se há um momento em que tais medicamentos poderiam ser suspensos conforme a recuperação de função ventricular. O transplante cardíaco, apesar de evitado em fases mais agudas, poderá ser considerado em casos de falência da terapia medicamentosa otimizada e mecânica (dispositivo de assistência ventricular).<sup>4</sup>

## CONCLUSÃO

O caso clínico relatado demonstra que pacientes portadores de doenças imunomediadas requerem uma atenção especial no diagnóstico da dor torácica. Expostos à inflamação crônica, possuem maior risco cardiovascular associado ou não à aterosclerose. Ressalte-se que a melhora da inflamação miocárdica, demonstrada pela ressonância, após aumento do imunossupressor, sugere um quadro de causa autoimune. Uma rotina diagnóstica deve envolver uma boa história clínica e demais exames subsidiários, invasivos ou não, que se fizerem necessários. Por vezes subdiagnosticada, a miocardite autoimune deve ser encarada como uma manifestação particular da atividade da doença inflamatória, que, se tratada adequadamente, trará benefícios imediatos e futuros aos pacientes.

## REFERÊNCIAS

1. Venables PJW, Baker JF (2020). Diagnosis and differential diagnosis of rheumatoid arthritis. In Paul L Romain (Ed), UpToDate.
2. Gabriel SE. Heart disease and rheumatoid arthritis: understanding the risks. *Ann Rheum Dis.* 2010;69 Suppl 1:i61.

3. Caforio ALP, Adler Y, Agostini C, et al. Diagnosis and management of myocardial involvement in systemic immune-mediated diseases: a position statement of the European Society of Cardiology Working Group on Myocardial and Pericardial Disease. *European Heart Journal*. 2017; 38; 2649-2662.
4. Caforio ALP, Marcolongo R, Jahns R, et al. Immune-mediated and autoimmune myocarditis: clinical presentation, diagnosis and management. *Heart Fail Rev*. 2013; 18; 715-732.
5. Cooper LT (2019). Clinical manifestations and diagnosis of myocarditis in adults. In Yeon SB (Ed), *UpToDate*.
6. Liao KP, Yu PB (2020). Overview of heart disease in rheumatoid arthritis. In Romain PL (Ed), *UpToDate*.
7. Ntusi NAB, Francis JM, Sever E, et al. Anti-TNF modulation reduces myocardial inflammation and improves cardiovascular function in systemic rheumatic diseases. *Int J Cardiol*. 2018;270:253. Epub 2018 Jun 25.

## Estratégias na manipulação de ferida extensa e complexa de tórax pós necrose de múltiplos retalhos para cobertura de mastectomia higiênica

*Strategies for handling of extensive and complex toracic wound after multiple flap necrosis for hygienic mastectomy coverage*

Raissa Barakatt de Figueiredo, Kim Lima Nascimento, Vinicius Nakajima An, José Antonio Cezaretti, An Wan Ching  
Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil  
Publicação do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)

### RESUMO

**Introdução:** Diversos fatores influenciam na evolução pós-operatória de cirurgias reconstrutivas, tais como idade avançada, tabagismo, obesidade, hipertensão, diabetes mellitus<sup>3-6</sup>. Por outro lado, a técnica cirúrgica e a experiência da equipe são fatores essenciais para um resultado positivo<sup>1-3-6</sup>. Na presença de necrose da área submetida a reconstrução, diversas abordagens são possíveis, desde técnicas conservadoras até cirúrgicas, a depender da avaliação individualizada de cada caso. **Objetivo:** Relatar o manejo de caso de necrose extensa de retalho após mastectomia radical higiênica realizada no Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira" de São Paulo. **Conclusão:** O correto planejamento de qualquer cirurgia reconstrutora é essencial para um bom resultado, a fim de evitar desfechos negativos que coloquem em risco a cirurgia e a vida do paciente.

**Palavras-chave:** Mastectomia, necrose de retalho, reconstrução de mama, reconstrução de parede torácica

### ABSTRACT

**Introduction:** A variety of factors may influence, in the post op reconstructive surgeries, such as, the greater age, tabagism, obesity, hypertension, and Diabetes Mellitus. On the other hand, the surgery technique and the expertise of the staff, are the key factors for a good prognosis. In the presence of necrosis on the reconstructive site, many methods are available for an approach, from conservative management to invasive measures, such as surgery, depending on the case. **Objective:** report the management of an extensive skin flap necrosis, post radical hygienic mastectomy, performed at the Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira" de São Paulo. **Conclusion:** The right plan of approach, of any reconstructive surgery is the key for a good prognosis, preventing negative outcomes, for the surgery and life of the patient.

**Keyword:** Mastectomy, flap necrosis, breast reconstruction, toracic wall reconstruction

#### Correspondência:

Raissa Barakatt de Figueiredo  
E-mail: raissa\_barakatt@hotmail.com  
Data de submissão: 20/01/2021  
Data de aceite: 18/12/2022

#### Trabalho realizado:

Serviço de Cirurgia Plástica do Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil.  
Endereço: Rua Pedro de Toledo, 1800, 2º andar - Vila Clementino - CEP: 04039-901, São Paulo, SP, Brasil.

## INTRODUÇÃO

A necrose de retalho é uma complicação temida na evolução pós-operatória de qualquer reconstrução. A sua incidência varia de 1.5% a 41% a depender de inúmeros fatores desde comorbidades à técnica cirúrgica<sup>1,2-6</sup>. Idade avançada, tabagismo, obesidade, hipertensão, diabetes, entre outras afecções descompensadas, influenciam negativamente na cicatrização do retalho, assim como a presença de cicatriz ou radioterapia prévia<sup>3-6</sup>. Idealmente é indicado compensar as doenças antes do procedimento cirúrgico. Caso não haja tempo hábil para esse preparo, deve-se considerar a reconstrução em um segundo momento<sup>5</sup>. Aspectos técnicos devem ser estudados individualmente para um resultado satisfatório, principalmente o tipo de incisão, o volume e extensão da ressecção da mastectomia, o plano de dissecação e a espessura do retalho, a eventualidade de implante de expensor ou prótese e seus respectivos volumes, e a tensão no fechamento da pele<sup>1,3,5,6</sup>.

A dificuldade da cicatrização pode acarretar longos períodos de manipulação da ferida, necessidade de reoperação, atrasos na terapia adjuvante, risco de infecção, perda de próteses, prejuízo estético e psicológico. Pode levar, muitas vezes ao isolamento social e incremento nos custos totais<sup>3,5,6</sup>. A necrose pode ser identificada nas primeiras 24 horas com uma área de equimose em torno da incisão, que evolui para escara<sup>4</sup>. O acometimento pode ser classificado pelo “*SKIN score*” quanto à profundidade de A a D (sem acometimento até comprometimento total da espessura da pele), e quanto à superfície de 1 a 4 (sem acometimento, 1-10%, 11-30%, e maior que 30% da superfície da mama). Essa classificação auxilia no seguimento e decisão terapêutica entre conservador e reabordagem cirúrgica<sup>2,5</sup>.

O tratamento não operatório é baseado em cuidados intensivos com a ferida para cicatrização por segunda intenção, cujo resultado estético é superior ao enxerto

e evita nova exposição a procedimento cirúrgico. São necessárias avaliações e trocas de curativos com diferentes tecnologias e ação antimicrobiana, como alginato de prata, para manter o meio úmido, limpo e com menor proliferação bacteriana. A escarectomia de pequenas áreas pode ser realizada em nível ambulatorial, quando há nítida separação do tecido necrótico do vivo no entorno, permitindo o desenvolvimento de tecido de granulação da base da ferida, contração e reepitelização. Longos períodos podem ser necessários para essa abordagem, e terapias adicionais como curativo sob pressão negativa podem facilitar esse processo e permitir melhores resultados em menor tempo. A oxigenioterapia hiperbárica também tem mostrado resultados a serem avaliados<sup>4-6</sup>.

A abordagem cirúrgica é indicada aos pacientes que não apresentam evolução favorável de tratamento clínico, ou apresentam necrose extensa acima de 30% da superfície mamária<sup>3,4</sup>. É indicado o desbridamento cirúrgico e, a depender do caso, é optado entre cicatrização por segunda intenção, ressutura primária, cobertura com enxerto, ou confecção de novo retalho<sup>5</sup>.

## OBJETIVO

O objetivo do trabalho é relatar a conduta notratamento de um caso de ferida complexa após necrose extensa de múltiplos retalhos de cobertura de uma mastectomia radical higiênica e agrupar conceitos pesquisados e revisados na literatura atual.

## RELATO DE CASO

Paciente de 77 anos, diagnóstico de adenocarcinoma lobular de mama direita há 3 anos. Paciente optou inicialmente por não realizar o tratamento. Procurou o Serviço de Mastologia do Hospital do Servidor Público Estadual “Francisco Morato de Oliveira” HSPE

- FMO de São Paulo, devido à piora da lesão com aspecto abscedado (figura 1) associado a sangramento, odor fétido e perda ponderal de 10kg nos últimos 3 meses. Portadora de diabetes mellitus (DM) tipo II, Hipertensão Arterial Sistêmica (HAS), obesidade grau II, desnutrição e tabagismo ativo. Paciente foi internada para compensação clínica e submetida à mastectomia higiênica à direita pela equipe da mastologia. Realizou-se cobertura com diversos retalhos para fechamento do defeito retalho VRAM do reto abdominal, retalho abdominal direito, retalho de deslizamento da mama esquerda e retalho grande dorsal à direita.

A paciente permaneceu em recuperação na unidade de terapia intensiva (UTI) por 7 dias, inicialmente com intubação orotraqueal e drogas vasoativas. Recebeu alta para a enfermaria da mastologia, e teve acompanhamento de equipe de curativos e infectologia para auxiliar o manejo de área de epidermólise e exsudato dos retalhos com aspecto necrótico. Optou-se por tratamento conservador com uso de curativos específicos e antibioticoterapia.

No 27º dia pós-operatório, a equipe da Cirurgia Plástica foi acionada para avaliar a necrose extensa em região de parede torácica direita (figura 2). A paciente apresentava-se séptica, desnutrida e sarcopênica, sem forças para deambular, albumina sérica muito baixa com valor de 0,6g/dL (apesar de ser considerada uma proteína de fase aguda com perda do parâmetro em pacientes sépticos), e extremamentedepressiva. O resultado doexame anatomopatológico da lesão confirmava um adenocarcinoma lobularde mama com estadiamento pT4B pNx com margens profundas comprometidas.

Após a devida correção de hidratação, antibioticoterapia, nutrição, reposição de proteínas, oligoelementos, vitaminas e acompanhamento psicológico, foi planejado o início

de tratamento cirúrgico com desbridamento extenso de tecido necrótico e terapia com pressão negativa por 3 ciclos (figura 3). Após 15 dias do desbridamento de necrose e terapia a vácuo, com o leito da ferida limpa e com tecido de granulação adequado, procedeu-se à cobertura com enxertia de pele parcial em MESH e fechamento primário do defeito abdominal com pontos subtotais (figura 4).

A paciente evoluiu com melhora clínica significativa, revertendo o quadro infeccioso, nutricional e psicológico, recebendo alta hospitalar após 10 dias, sem outras intercorrências. Seguiu em acompanhamento ambulatorial com trocas de curativos e evoluiu com cicatrização completa do defeito da parede toracoabdominal (figura 5) e melhora expressiva da qualidade de vida.

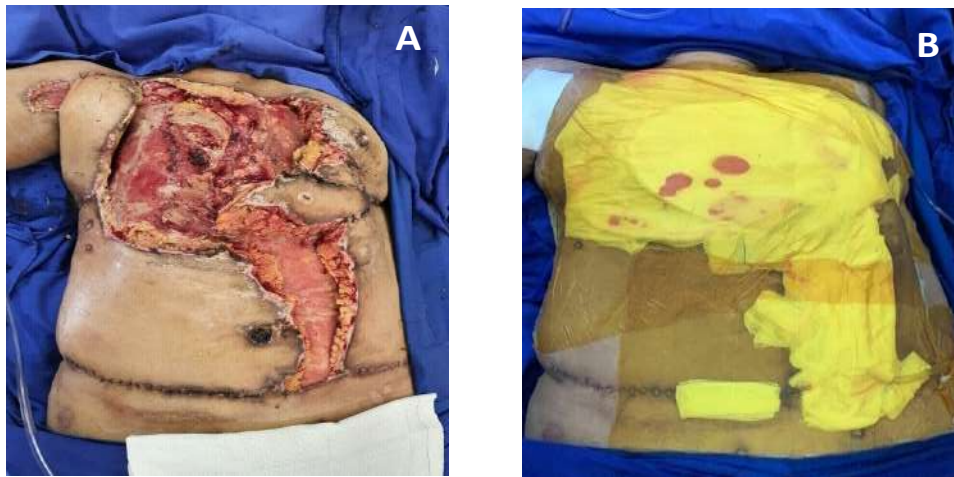


**Figura 1** - Adenocarcinoma de mama direita abscedado



**Figura 2** - Necrose extensa de parede torácica e abdominal após cirurgia reconstitutiva de mama direita.





**Figura 3** – (A) Desbridamento de escara necrótica em parede torácica anterior direita e abdominal, desbridamento do leito da ferida, reavivamento dos bordos, fechamento primário em área de deiscência em região axilar direita. (B) Confeção de curativo a vácuo adaptado.



**Figura 4** –(A) Aspecto da ferida após 15 dias de terapia por pressão negativa adaptada. (B) Aspecto do pós-operatório imediato da reconstrução por enxertia de pele parcial com técnica MESH e fechamento primário do defeito abdominal com pontos captanados subtotais.



**Figura 5** - Aspecto da reconstrução da parede toracoabdominal (A) 5 dias. (B) 10 dias. (C) 2 meses. (D) 4 meses.

## DISCUSSÃO

Este caso corrobora com a literatura quanto ao conceito de que comorbidades descompensadas influenciam negativamente a viabilidade e a cicatrização do retalho, como idade avançada, tabagismo, obesidade, hipertensão, diabetes, todos presentes na paciente do relato apresentado<sup>3-6</sup>. Outro ponto importante a ser considerado é o aspecto técnico, incluindo

o tipo de incisão, o volume da mastectomia, o plano de dissecação, a espessura do retalho e a tensão no fechamento da pele<sup>1,3,5,6</sup>.

A abordagem adotada diante da necrose do retalho depende das condições gerais do paciente e da extensão do acometimento. Inicialmente, a equipe da mastologia, optou por tratamento conservador devido à aparente pequena área de necrose inicial, com realização de trocas de curativos com diferentes tecnologias e ação antimicrobiana, em conformidade com a literatura<sup>4-6</sup>. As medidas não tiveram sucesso e houve piora gradativa do quadro. A extensão da necrose atingiu mais de 30% da parede torácica, que caracterizava uma necrose extensa<sup>2,5</sup>, cuja abordagem cirúrgica está indicada

por diversas literaturas<sup>3,4</sup>. A equipe de cirurgia plástica foi acionada e optou por compensação clínica com uso de antibióticos, terapia nutricional, e desbridamento de área de necrose. A terapia com pressão negativa facilitou a manipulação pela equipe médica para a melhora do leito da ferida com maior conforto para a paciente<sup>4-6</sup>. A área cruenta foi coberta com enxerto de pele parcial expandida em malha 1/3 apenas para melhor índice de integração (*Mesh graft*). Complementarmente, foi associada a sutura primária reforçada e curativo a pressão negativa, pois os retalhos pediculados já haviam sido utilizados na primeira reconstrução que evoluíram com necrose, e o fechamento por segunda intenção levaria maior tempo para cicatrização<sup>5</sup>.

## CONCLUSÃO

Deve-se primeiramente planejar e programar qualquer reconstrução, principalmente em pessoas fora das condições ideais, como por exemplo, pacientes infectados, anêmicos, desnutridos e com comorbidades descompensadas. Este relato demonstra exatamente o que a literatura mostra como fatores de risco para necrose de retalho em qualquer que seja a reconstrução. O manejo instituído pelo Serviço de Cirurgia Plástica foi determinante para

a rápida recuperação e desospitalização. Conceitos como o desbridamento agressivo, adequado aporte nutricional, intervenção rápida e atuação de equipe multidisciplinar atuante são imprescindíveis. Vale a pena reforçar a terapia com pressão negativa como ponto auxiliar no conforto dos pacientes e equipes médicas no tratamento de áreas e feridas cruentas e complexas, seja para preparo do leito e para integração de enxertos ou cicatrização de retalhos.

## REFERÊNCIAS

1. Khavanin N, et al. Intraoperative Perfusion Assessment in Mastectomy Skin Flaps: How Close are We to Preventing Complications? *J Reconstr Microsurg*. 2019; 35 (7):471-478.
2. Lemaine V, et al. Introducing the SKIN Score: A Validated Scoring System to Assess Severity of Mastectomy Skin Flap Necrosis. *Ann Surg Oncol*. 2015; 22 (9):2925-32.
3. Matsen C, et al. Skin Flap Necrosis After Mastectomy With Reconstruction: A Prospective Study. *Ann Surg Oncol*. 2016; 23 (1):257-264.
4. Patel, K et al. Management of Massive Mastectomy Skin Flap Necrosis Following Autologous Breast Reconstruction. *Annals of Plastic Surgery*. 2012; 69 (2):139-144.
5. Robertson, S et al. Mastectomy skin flap necrosis: challenges and solutions. *Breast Cancer (Dove Med Press)*. 2017;13 (9);141-152.
6. Sue, G et al. Management of Mastectomy Skin Necrosis in Implant Based Breast Reconstruction. *Ann Plast Surg*. 2017; 78, (5 suppl 4):S208-S2.

## Chronic cough as early and main symptom in posterior fossa tumors

### *Tosse crônica como sintoma inicial e principal em tumores de fossa posterior*

Helber Alves Perez<sup>1,2</sup>, José Erasmo Dal Col Lúcio<sup>1,2</sup>, José Francisco Pereira Júnior<sup>1,2</sup>, Clarissa Nóbrega Gambarra do Nascimento<sup>1,2</sup>,  
Matheus Fernandes de Oliveira<sup>1,2,3</sup>

1- DFV Neuro - São Paulo - Brazil

2- Hospital Alemão Oswaldo Cruz - São Paulo-Brazil

3- Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil

#### ABSTRACT

**Introduction:** Coughing lasting more than 3 weeks is generally considered chronic and it is self-reported by more than 10% of adults in the community. There are many causes of chronic cough. Nevertheless, intracranial causes for direct cough reflex stimulation are pretty rare and/or underreported. **Results and Discussion:** We report two similar cases of middle aged subjects presenting with chronic cough demanding surgical resection for benign tumor of posterior fossa and resolution of cough after surgery. Cough as the only symptom is a pretty rare finding and may suggest a lesion specifically attached near cough reflex control center at the level of ponto medullary junction. We highlight the need of considering neuroimage investigation at an early stage of chronic cough investigation.

**Keywords:** chronic cough, intracranial neoplasm, hemangioblastoma, subependymoma, neurosurgery.

#### RESUMO

**Introdução:** A tosse com duração de mais de três semanas é geralmente considerada crônica e é autorrelatada por mais de 10% dos adultos. Existem muitas causas para a tosse crônica. No entanto, as causas intracranianas para a estimulação do reflexo direto da tosse são muito raras e / ou subnotificadas. **Resultados e discussão:** Relatam-se dois casos semelhantes de indivíduos de meia-idade apresentando tosse crônica exigindo ressecção cirúrgica para tumor benigno de fossa posterior com resolução do sintoma após a cirurgia. A tosse como único sintoma é um achado bastante raro e pode sugerir uma lesão especificamente inserida perto do centro de controle do reflexo da tosse no nível da junção bulbomedular. Destaca-se a necessidade de considerar a investigação de neuroimagem em um estágio inicial da investigação de tosse crônica.

**Descritores:** tosse crônica, tumores cerebrais, hemangioblastoma, subependimoma, neurocirurgia.

#### Correspondência:

Matheus Fernandes de Oliveira  
E-mail: mafernoliv@yahoo.com.br  
Data de submissão: 10/08/2022  
Data de aceite: 23/01/2023

#### Trabalho realizado:

-DFV Neuro - São Paulo - Brazil  
-Hospital Alemão Oswaldo Cruz - São Paulo-Brazil  
-Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil

## INTRODUCTION

Coughing can be evoked in animals and in human subjects by inhalation of particulates, acids, irritant gases, cigarette smoke, nicotine, capsaicin, bradykinin, prostanoids, hypo- and hypertonic solutions, and by mechanical probing of the tracheal, laryngeal and large bronchial mucosa<sup>1-5</sup>. Coughing lasting more than 3 weeks is generally considered chronic and it is self-reported by more than 10% of adults in the community<sup>5-15</sup>.

There are many causes of chronic cough, including postnasal drainage, asthma, and/or gastroesophageal disease. However, other causes such as laryngopharyngeal reflux, vocal cord dysfunction, occult sinusitis, pertussis infection and angiotensin-converting enzyme inhibitor should be considered. Nevertheless, intracranial causes for direct cough reflex stimulation are pretty rare and/or underreported<sup>16-23</sup>.

In this paper we describe two similar cases of chronic cough in young adults undergoing surgery for posterior fossa tumor resection.

## CASE DESCRIPTIONS

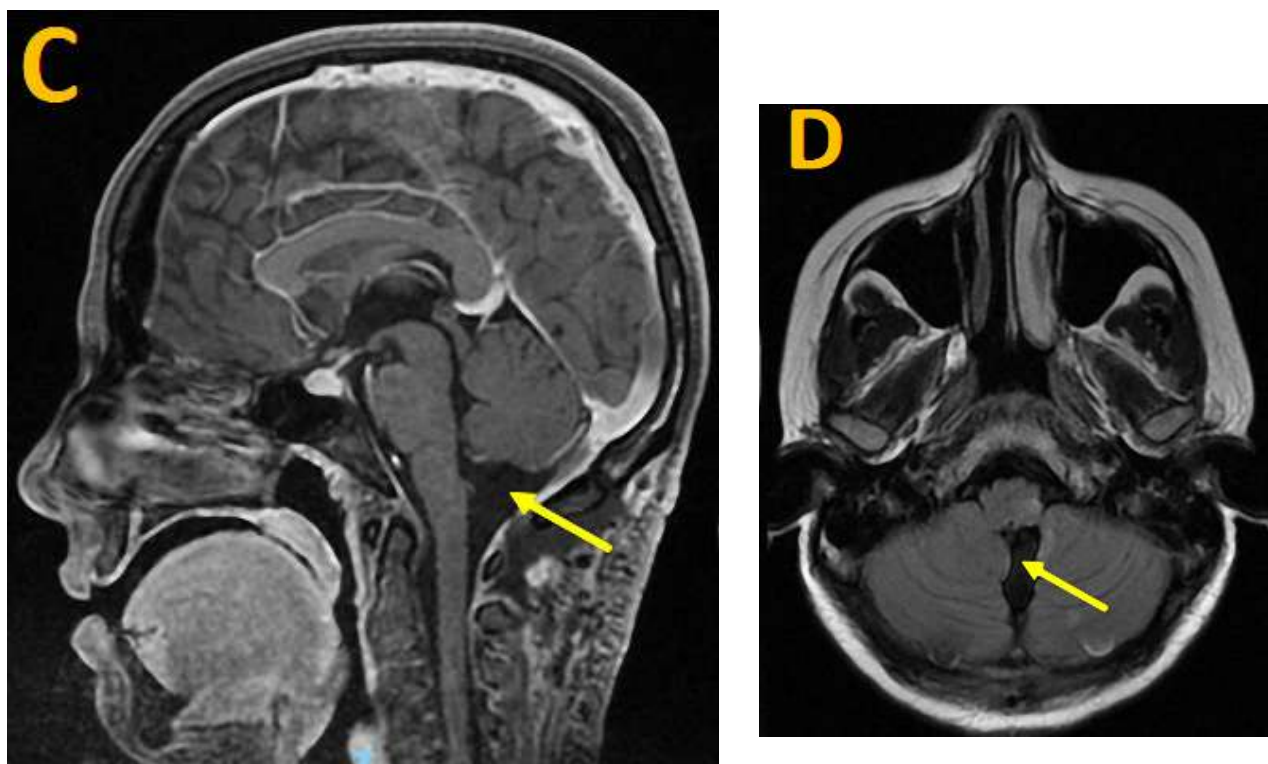
### CASE 1

A 31 year-old Caucasian woman presented with progressive cough, especially at night. No other symptoms and no previous relevant medical history. She denied allergy, smoking and remarkable family medical reports. She searched for several physician specialties for 4 months, among clinicians, pneumologists and otorhinolaryngologists. All clinical diagnostic work-out was uneventful. After 4 months she started bilateral occipital headache simultaneously to the coughs and she undertook a brain magnetic resonance (MR) to investigate headache. One week after performing MR she started axial ataxia (imbalance) and vertical gaze palsy (Parinaud syndrome).

She searched hospital neurosurgical support with a MR displaying a large cystic posterior fossa tumor displacing fourth ventricle in contact with low brainstem (Figure 1). There was no hydrocephalus. She was submitted to neurosurgical resection of tumor and improved immediately from the cough. She was discharged with transient sobbing. After one month she was asymptomatic. Post-operative MR revealed complete resection of tumor and decompression of lower brainstem (Figure 1). Histopathological report of tumor confirmed a hemangioblastoma, which is a benign and slow-growing tumor usually found in posterior fossa.



**Figure 1** - MR of subject in CASE 1 displaying a large cystic posterior fossa tumor displacing fourth ventricle in contact with low brainstem. In A and B, pre operative sagittal and axial images.



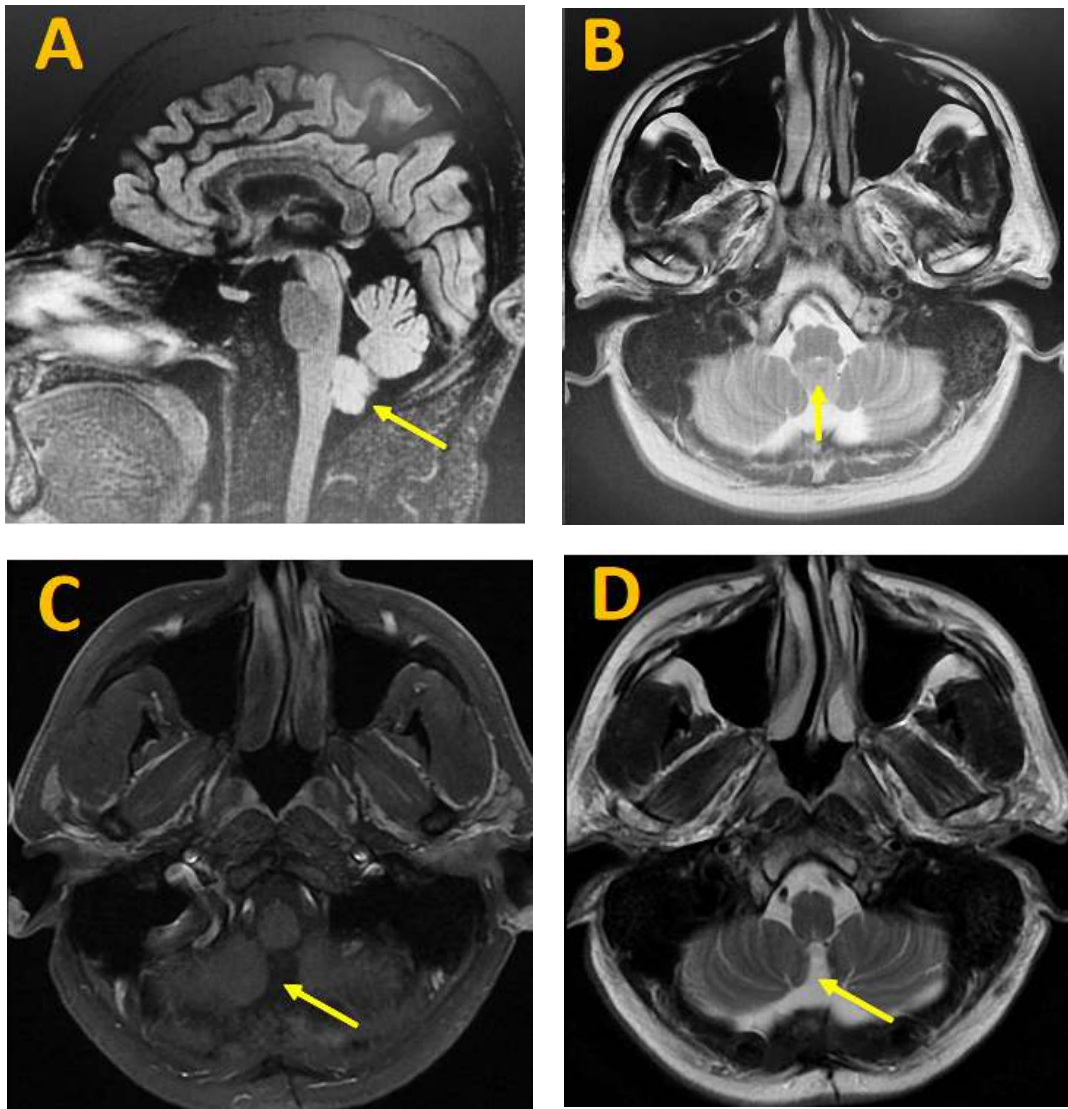
**Figure 1** - MR of subject in CASE 1 displaying a large cystic posterior fossa tumor displacing fourth ventricle in contact with low brainstem. In C and D, post operative images revealing complete resection of tumor.

## CASE 2

A 44 year-old Caucasian man searched neurosurgical outpatient evaluation reporting mild headache for 1 year and a persistent cough for 1 year. No other symptoms and no previous relevant medical history. He denied allergy, smoking and remarkable family medical reports.

He had been evaluated by several other specialties for 1 year and was lastly under pneumologic scrutiny and treatment. He had already done investigation for gastroesophageal reflux disease, cough hypersensitivity syndrome, infections and pulmonary interstitial diseases. He had performed pulmonary functional tests, digestive endoscopy, bronchoscopy, chest X-rays, chest computed tomography (CT), laboratorial investigations for infections, allergy and asthma. Lately he had used oral antibiotics (azithromycin) for 14 days to rule out atypical pneumonia.

All investigations failed to clarify cough cause. After one year of examinations and persistent cough he performed MR to evaluate an intermittent and mild holocranian headache. He searched neurosurgical support with a MR displaying a large solid posterior fossa tumor occupying lower exit of fourth ventricle and in contact with low brainstem (Figure 2). He was submitted to neurosurgical resection of tumor and improved immediately from the coughs. He was discharged in the fifth postoperative day asymptotically. Post-operative MR revealed complete resection of tumor and decompression of lower brainstem (Figure 2). Histopathological report of tumor confirmed a subependimoma, which is a benign and slow-growing tumor usually found in posterior fossa.



**Figure 2** - MR of subject in CASE 1 displaying a large solid posterior fossa tumor displacing fourth ventricle in contact with low brainstem. In A and B, pre operative sagittal and axial images. In C and D, post operative images revealing complete resection of tumor,

## DISCUSSION

Cough reflex is a complex defense mechanism protecting lungs from aspiration and also facilitating clearance of secretions, noxious substances, and foreign bodies from the airways. It has peripheral and central nervous steps and controls<sup>1-10</sup>.

Two distinct vagal sensory pathways monitor the airways for cough evoking stimuli<sup>10-15</sup>. Nodose sensory neurons are specialized to detect mechanical stimuli whereas jugular neurons respond to a wide variety of chemical mediators. Sensory inputs from non-pulmonary sources, including the nose, ear and esophagus can facilitate or inhibit cough evoked from the airways. In the brainstem, nodose and jugular sensory inputs terminate in different processing nuclei which contribute to distinct brainstem and brain cough sensory circuits that presumably encode different aspects of airway sensation. Cough can additionally be induced, facilitated or inhibited by descending pathways that provide volitional control over coughing<sup>1-10</sup>.

Main central ascendant and descendent cough control lies in paratrigeminal nuclei and especially in pontomedullary respiratory network<sup>1-15</sup>. Thus any irritative or compressive lesion located near brainstem could provoke cough together with other typical symptoms, including motor deficits, dysarthria, sensitive deficits, consciousness, coordination and cranial nerve palsies.

Cough of any duration is the most common presenting symptom in the primary care setting. Coughing lasting more than three weeks is generally considered chronic and it is self-reported by more than 10% of adults in the community. Causes for chronic cough are many, including use of angiotensin-converting enzyme inhibitors, Upper Airway Cough Syndrome, Gastroesophageal Reflux Disease (GERD) and Cough Hypersensitivity Syndrome. Many other uncommon causes may be found with further investigations<sup>16-19</sup>.

Complementary investigations include chest X-ray, chest computed tomography, computed tomography of the sinuses, pulmonary function testing, testing for GERD, laryngoscopy, twenty-four-hour esophageal pH monitoring. Other tests for the evaluation of chronic cough include allergy testing, pro-brain natriuretic peptide levels and echocardiogram for congestive heart failure, polysomnography for sleep apnea<sup>16-19</sup>.

Although not novel, the association of cough and brain tumor is hardly ever reported<sup>19-23</sup>. Greenblatt<sup>23</sup> had already published a paper discussing the theme in 1961 and Spallone et al<sup>19</sup> reported on a subependymoma of septum pellucidum presenting with cough and exertional headache in 2016<sup>19</sup>. No other cases were retrieved.

We reported two similar cases of middle aged subjects presenting with chronic cough demanding surgical resection for benign tumor of posterior fossa. Cough as the only symptom is a pretty rare finding and may suggest a lesion specifically attached near cough reflex control center at the level of pontomedullary junction. The pattern of slow growing of such tumors explains the chronic symptomatology without causing other neurological symptoms.

In one case patient had a hemangioblastoma, which is a benign tumor highly vascularized usually demanding surgical treatment. In the other case the tumor was a subependymoma, a benign tumor usually occurring attached to the walls of cerebral ventricles and slow-growing pattern. In both cases, brain tumor diagnosis was performed months and even years after initial symptom presentation and after several medical evaluations. At the time of diagnosis both presented associated symptoms (headache and ataxia). Additionally, in both cases cough symptoms ceased immediately after surgical treatment and neurosurgical procedures were uneventful.

Malignant tumors with aggressive behaviour and fast growing may also provoke cough but also other remarked neurological symptoms and thus cough report may be underestimated or not taken into account. Probably, in current practice, malignant tumors may be attending to neurological or neurosurgical evaluation due to more specific neurological symptoms, while patients with mild symptoms such as chronic cough may be attending to clinicians, pneumologists and other specialties which generally do not include neuroimage work-out in their investigation portfolio.

We highlight the need of considering neuroimage investigation at an early stage of chronic cough investigation. Although seemingly rare, central origin of cough should be ruled out as soon as possible, avoiding unnecessary further examinations, preventing chronic cough complications and allowing early diagnosis and management of potentially harmful central nervous system tumors.

## REFERENCES

1. Achilleos A. Evidence-based Evaluation and Management of Chronic Cough. *Med Clin N Am* 100 (2016) 1033–1045.
2. Irwin RS, Madison JM. The diagnosis and treatment of cough. *N Engl J Med* 2000; 343: 1715-21.
3. Chung KF, Pavord ID. Prevalence, pathogenesis, and causes of chronic cough. *Lancet* 2008; 371: 1364-74.
4. Poulouse V, Tiew PY, How CH. Approaching chronic cough. *Singapore Med J* 2016; 57(2): 60-63.
5. French CL, Irwin RS, Curley FJ, Krikorian CJ. Impact of chronic cough on quality of life. *Arch Intern Med* 1998; 158:1657-61.
6. Ng LP, Goh PS. Incidence of discontinuation of angiotensin-converting enzyme inhibitors due to cough, in a primary healthcare centre in Singapore. *Singapore Med J* 2014; 55:146-9.
7. Ryttilä P, Ghaly L, Varghese S, et al; Airway Inflammation Study Group. Treatment with inhaled steroids in patients with symptoms suggestive of asthma but with normal lung function. *Eur Respir J* 2008; 32:989-96.
8. Ribeiro M, Pereira CA, Nery LE, Beppu OS, Silva CO. High-dose inhaled beclomethasone treatment in patients with chronic cough: a randomized placebo-controlled study. *Ann Allergy Asthma Immunol* 2007; 99:61-8.
9. Poulouse V, Bin Mohd I. Prolonged cough presenting with diagnostic difficulty: a study of aetiological and clinical outcomes. *Singapore Med J* 2011; 52:267-70.
10. Gibson P, Wang G, McGarvey L, et al. Treatment of Unexplained Chronic Cough: CHEST Guideline and Expert Panel Report. *Chest* 2015 Oct 1. chest.15-1496.
11. McGovern AE, et al. A neuroanatomical framework for the central modulation of respiratory sensory processing and cough by the periaqueductal grey, *J. Thorac. Dis.* 9 (10) (2017) 4098–4107.
12. Mazzone SB, Chung KF, McGarvey L. The heterogeneity of chronic cough: a case for endotypes of cough hypersensitivity. *Lancet Respir Med.* 6 (8) (2018) 636–646.
13. Mazzone SB, Udem BJ. Vagal afferent innervation of the airways in health and disease. *Physiol. Rev.* 96 (3) (2016) 975–1024.
14. Driessen AK et al. Reflex regulation of breathing by the paratrigeminal nucleus via multiple bulbar circuits. *Brain Struct. Funct.* 223 (9) (2018) 4005–4022.
15. Chou YL, Mori N, Canning BJ. Opposing effects of bronchopulmonary C-fiber subtypes on cough in guinea pigs, *Am. J. Physiol. Regul. Integr. Comp. Physiol.* 314 (3) (2018) R489–r498.
16. Mazzone SB et al. Investigation of the neural control of cough and cough suppression in humans using functional brain imaging, *J. Neurosci.* 31 (8) (2011) 2948–2958.
17. Taylor RJ et al. Laryngeal Manifestations of Cranial Nerve IX/X Compression at the Brainstem. *Laryngoscope*, 2018.



18. Ando A et al. Neural correlates of cough hypersensitivity in humans: evidence for central sensitisation and dysfunctional inhibitory control. *Thorax* 71 (4) (2016) 323–329.
19. Spallone A, Visocchi M, Di Capua M, Belvisi D. Subependymoma of septum pellucidum presenting with cough and exertional headache: a case report of spontaneous regression after incomplete surgical removal. *Neurosurg Sci.* 2016 Jun;60(2):283-4.
20. Nguyen HS, Doan N, Gelsomino N, Shabani S. Intracranial Subependymoma: A SEER Analysis 2004-2013. *World Neurosurg.* 2017 May;101:599-605.
21. Varma A, Giraldi D, Mills S, Brodbelt AR, Jenkinson MD. Surgical management and long-term outcome of intracranial subependymoma. *Acta Neurochir (Wien).* 2018 Sep;160(9):1793-1799.
22. Kuharic M, Jankovic D, Splavski B, Boop FA, Arnautovic KI. Hemangioblastomas of the Posterior Cranial Fossa in Adults: Demographics, Clinical, Morphologic, Pathologic, Surgical Features, and Outcomes. A Systematic Review. *World Neurosurg.* 2018 Feb;110:e1049-e1062.
23. Greenblatt J. Cough as a symptom of a brain tumor. *Conn Med.* 1961 Apr;25:239-40.

## Hipotireoidismo como causa rara de ascite

### *Hypothyroidism as a rare cause of ascites*

João Pedro Rodrigues de Melo, Amyr Chicharo Chacar  
Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil  
Publicação do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual (Iamspe)

#### RESUMO

É raro que o hipotireoidismo se apresente clinicamente com ascite (<4%) como apresentação clínica principal. Por isso, nesses casos, o diagnóstico costuma ser tardio. Uma vez diagnosticada, a ascite mixedematosa melhora rapidamente com a introdução do tratamento adequado com hormônios tireoideanos. Esse artigo contempla o caso de uma paciente do sexo feminino na qual foi diagnosticada ascite secundária a hipotireoidismo não controlado e discussão sobre o assunto, pautada na literatura médica.

**Descritores:** ascite; hipotireoidismo; mixedema.

#### ABSTRACT

Ascites as the presenting feature of hypothyroidism is uncommon, hence diagnosis is often delayed. Once it is diagnosed, treatment of hypothyroidism leads to quick clinical improvement in ascites. This article report a case of a female patient who presented with ascites secondary to severe hypothyroidism and discuss characteristics of the ascitic fluid in myxedema ascites on the basis of literature review.

**Keywords:** ascites; hypothyroidism; myxedema.

#### Correspondência:

João Pedro Rodrigues de Melo  
E-mail: joao.pedrox@hotmail.com  
Data de submissão: 24/01/2020  
Data de aceite: 01/12/2022

#### Trabalho realizado:

Serviço de Clínica Médica do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil.  
Endereço: Rua Pedro de Toledo, 1800, 11º andar - Vila Clementino  
- CEP: 04039-901, São Paulo, SP, Brasil.

## INTRODUÇÃO

O hipotireoidismo é uma condição clínica comum com um espectro amplo de apresentação sintomática. Sabe-se que, quando severo, pode levar a derrames cavitários como ascite e derrames pleural e pericárdico <sup>1-5</sup>.

A ascite causada pelo hipotireoidismo é rara (1 a 5% dos casos dessa afecção). A apresentação do hipotireoidismo apenas com ascite também não é comum e por isso, quando ocorre, o diagnóstico pode ser tardio. A ascite nesses pacientes é rapidamente resolvida ao tratar o hipotireoidismo de base <sup>4-6</sup>.

Neste artigo será apresentado o caso de uma mulher de 72 anos, cirrótica, mas que mostrou quadro de ascite secundária ao hipotireoidismo importante e será discutido o assunto frente à revisão da literatura.

## RELATO DE CASO

Mulher de 72 anos, foi admitida no Serviço com queixa de dispneia, dor torácica e edema de membros inferiores. Ao exame admissional apresentava dessaturação, edema de membros inferiores, ascite de moderado volume. Não apresentava turgência jugular, presença de ritmo de galope ou outros comemorativos compatíveis com insuficiência cardíaca descompensada. Frente ao quadro paciente submeteu-se a angiotomografia de tórax que mostrou trombo distal na artéria pulmonar esquerda. Iniciou anticoagulação plena com enoxaparina. Aos exames laboratoriais admissionais apresentava Hb 8,2 g/dL, VCM 75 fL, leucócitos 3.130, plaquetas 136.000, troponina 0,006 ng/L, INR 1,2, albumina 2,7 g/dL.

A paciente era portadora de cirrose por NASH CHILD A5 e nunca apresentou complicações associadas à doença. Também repõe hormônios tireoidianos há 23 anos após ter sido submetida a uma tireoidectomia

total curativa para um câncer de tireoide não especificado. Desde a cirurgia a paciente fazia uso de 200 mcg de levotiroxina por dia, porém passou em serviço externo, 30 dias antes da admissão, onde a dose foi reduzida para 100 mcg por dia.

Frente ao primeiro episódio de ascite, foi realizada paracentese diagnóstica. Observou-se líquido de aspecto gelatinoso e a análise do mesmo resultou gradiente soro-ascite (GASA) de 1,2 g/dL, proteínas totais 2,5 g/dL, pH >7,5, amilase 36 g/dL e lipase 27 g/dL. Além disso, foram coletados novos exames séricos mostrando TSH 7 UI/ml e T4 livre de 0,73 ng/dL.

Frente ao quadro de hipotireoidismo, alto nível de proteína no líquido ascítico e ausência de complicações da cirrose prévia, a equipe optou por retornar a dose usual de levotiroxina para a paciente (200 mcg por dia) e não iniciar diureticoterapia. Após três semanas do início das medidas, a paciente apresentava-se sem ascite, TSH 5,32 UI/ml e T4 livre 0,99 ng/dL confirmando assim a causa mixedematosa da ascite.

## DISCUSSÃO

A hipotireoidismo é uma causa rara de ascite. Vista apenas em 1-5% dos casos dessa afecção <sup>7</sup>. A fisiopatologia da ascite mixedematosa ainda não é completamente compreendida. Dentre as hipóteses, há indícios de que baixos níveis de hormônios tireoidianos circulantes levam ao aumento da permeabilidade capilar, o que resulta em extravasamento de plasma e proteínas para o compartimento extravascular <sup>1,3,6,8</sup>. Isso justificaria os níveis altos de proteína no líquido ascítico desses pacientes (>2,5 g/dL). Outra teoria envolve o efeito higroscópico do acúmulo de ácido hialurônico na pele, que leva ao edema. O ácido hialurônico é encontrado em pequena quantidade em pacientes com hipotireoidismo e não pode ser considerado

completamente responsável por causar ascite nesses pacientes, mas essa substância pode formar complexos de ácido hialurônico – albumina, o que prejudica a drenagem linfática e contribui para derrames cavitários<sup>4-5</sup>. Outra hipótese inclui a diminuição da depuração de água devido ao excesso de hormônio antidiurético nesses pacientes<sup>2,9</sup>.

A análise do líquido ascítico é ponto chave para que se estabeleça um diagnóstico. A característica mais marcante da análise do líquido é o elevado nível de proteínas, o que ajuda a diferenciar da hipertensão portal. Pode-se apresentar com aspecto gelatinoso e o GASA pode variar entre alto ou baixo. O gradiente soro-ascite, quando alto (>1,1 g/dL) sugere que o líquido ascítico é secundário à hipertensão portal com 97% de acurácia. Já quando esse valor encontra-se abaixo de 1,1 g/dL, indica que a ascite não tem origem na hipertensão portal<sup>3,9-10</sup>. No caso relatado a paciente apresentava líquido gelatinoso, alto nível de proteínas (2,5 g/dL) e GASA alto (1,2 g/dL).

Primeiramente a ascite mixedematosa foi descrita por Kocher em 1883 e o primeiro relato de caso foi descrito em 1950 por Paddock. Desde então, diversos casos foram publicados e as características comuns a eles são: predominância no sexo feminino, alto nível de proteína no líquido ascítico (>2,5 g/gL), hipercolesterolemia, diagnóstico de hipotireoidismo de longa data e, o mais importante, resolução completa da ascite com a reposição de hormônios tireoideanos<sup>4-5,8,11</sup>.

Uma revisão de literatura analisou 53 casos de ascite mixedematosa e mostrou que a análise do líquido consistentemente mostra níveis elevados de proteína (> 2,5 g / dL) com média de 3,9 g/dL e níveis baixos<sup>2, 4,5</sup> ou elevados de GASA com média de 1,5 g/dL e variação entre 0,8 e 2,3 g/dL<sup>1,3,11</sup>.

O hipotireoidismo mal controlado também pode trazer algumas alterações laboratoriais que podem ajudar no seu diagnóstico, como anemia macrocítica e níveis elevados de colesterol e creatinofosfoquinase. Pacientes com hipotireoidismo autoimune podem ter de forma concomitante deficiência de vitamina B12 devido à anemia perniciosa associada. A medula óssea pode encontrar-se suprimida por deficiência de eritropoetina, que seria outra possível causa de anemia nesses pacientes<sup>12</sup>.

## CONCLUSÃO

O hipotireoidismo não controlado é uma causa reversível e rara de ascite. Como demonstrado no caso apresentado, deve-se atentar para esta doença não controlada nos casos de ascite e líquido com alto teor protéico. Isso também demonstra que dosagem de TSH e T4 livre devem ser acrescentadas na investigação de causas de ascite. Médicos em geral também devem atentar às alterações laboratoriais causadas por essa comorbidade, como anemia macrocítica, elevados níveis de creatinofosfoquinase e alterações no perfil lipídico, para incluírem o hipotireoidismo como diagnóstico diferencial quando essas alterações mostrarem-se presentes.

## REFERÊNCIAS

1. Philips CA, Sinha U, Chattopadhyay P, Mukhopadhyay P, Haldar S. Isolated ascites in hypothyroidism: medical and ethical issues. *J Indian Med Assoc.* 2010;108(8):523–24.
2. Kabir A, Islam S, Bose A. A male person of 55 years with hypothyroidism, ascites and heart failure. *Mymensingh Med J.* 2015;24(2):416–19.
3. Kimura R, Imaeda K, Mizuno T, Wakami K, Yamada K, Okayama N, et al. Severe ascites

- with hypothyroidism and elevated CA125 concentration: a case report. *Endocr J*. 2007;54(5):751–55.
4. Ji JS, Chae HS, Cho YS, Kim HK, Kim SS, Kim CW, et al. Myxedema ascites: case report and literature review. *J Korean Med Sci*. 2006;21(4):761–64.
  5. Khalil RB, Rassi PE, Chammas N, Obeid J, Ghabach M, Sakr C, et al. Myxedema ascites with high CA- 125: case and a review of literature. *World J Hepatol*. 2013;5(2):86–89.
  6. Malik R, Hodgson H. The relationship between the thyroid gland and the liver. *QJM*. 2002;95(9):559–69.
  7. Watanakunakorn C, Hodges RE, Evans TC. Myxedema; a study of 400 cases. *Arch Intern Med*. 1965;116:183-90.
  8. Ipadeola A, Nkwocha GC, Adeleye JO. Subclinical hypothyroidism unmasked by preeclampsia and ascites. *Indian J Endocrinol Metab*. 2013;17(Suppl 1):S173–S175.
  9. Subramanian V, Yaturu S. Symptomatic ascites in a patient with hypothyroidism of short duration. *Am J Med Sci*. 2007;333(1):48-52.
  10. Stinkens K, Vermeyen E, De Hondt G. A rare cause of ascites: myxoedema ascites. *Acta Clín Belg*. 2013;68(5):384-85.
  11. Subramanian V, Yaturu S. Symptomatic ascites in a patient with hypothyroidism of short duration. *Am J Med Sci*. 2007;333(1):48–52.
  12. Marzuillo P, Grandone A, Perrotta S, Ruggiero L, Capristo C, Luongo C, et al. Very early onset of autoimmune thyroiditis in a toddler with severe hypothyroidism presentation: a case report. *Ital J Pediatr*. 2016;42(1):61.

## **ORIENTAÇÃO AOS AUTORES**

A Revista Científica do Iamspe é uma publicação oficial do Instituto de Assistência Médica ao Servidor Público Estadual - Hospital do Servidor Público Estadual "Francisco Morato de Oliveira", HSPE-FMO, São Paulo, SP, Brasil, **ISSN 2316-817 X**.

Com periodicidade quadrimestral, é aberta à publicação de artigos científicos referentes à saúde, qualquer que seja sua origem, desde que atenda as orientações das exigências técnicas para submissão de artigos.

Após aprovação do Comitê de Ética em Pesquisa da instituição, os artigos serão encaminhados para análise e avaliação dos revisores. Os comentários serão devolvidos para que os autores possam utilizar as opiniões ali emitidas, se assim julgarem necessário.

Concluídas as correções sugeridas, o trabalho definitivo deverá ser reencaminhado ao e-mail da revista. Ao ser aprovado pelos editores e revisores, o artigo seguirá para diagramação.

A editoria se outorga o direito de fazer pequenas correções de idioma ou de digitação, sem qualquer mudança de sentido do escrito.

### **SEÇÕES**

Compõem a Revista Científica do Iamspe as seguintes seções: editorial, opinião do especialista, artigo original, revisão da literatura, relato de caso, relato de caso + revisão da literatura, aprendendo com a imagem.

#### **1. EDITORIAL**

Página de comunicação dos editores com os leitores.

Até 1 (uma) lauda

#### **2. OPINIÃO DO ESPECIALISTA**

Texto que aborde um tema de interesse relacionado ao exercício profissional do público-alvo, escrito por um autor escolhido pela editoria.

Até (2) duas laudas

#### **3. ARTIGO ORIGINAL**

Apresentação de pesquisas originais, não publicadas anteriormente e devem conter os seguintes itens:

- Título (português e inglês);
- Resumo estruturado (português e inglês);
- Palavras-chaves (português e inglês) baseadas no DeCS da Bireme;
- Introdução;
- Objetivos;
- Metodologia;
- Resultados;
- Discussão;
- Conclusões;
- Referências (Metodologia Vancouver);
- Até 3000 palavras e 30 referências.

#### **4. REVISÃO DA LITERATURA**

Representa a síntese de múltiplos estudos publicados e possibilita conclusões gerais sobre o tema (sugere-se utilizar a tecnologia das revisões sistemáticas e finalizar, se possível, por uma metanálise).

Até c.3000 palavras e 50 referências.

O título, resumo, palavras-chaves e referências bibliográficas deverão ter o mesmo formato descrito anteriormente.

## 5. RELATO DE CASO

Apresentação de casos clínicos com interesse especial para o profissional com os devidos comentários fundamentados na literatura especializada.

Até 2 (duas) laudas e até c.1000 palavras e 10 referências.

O título, resumo, palavras-chaves e referências bibliográficas deverão ter o mesmo formato descrito anteriormente.

## 6. RELATO DE CASO + REVISÃO DA LITERATURA

Apresentação de casos clínicos com interesse especial para o profissional. Devem vir acompanhados de análise da literatura especializada recente.

Até c.3000 palavras e 30 referências.

O título, resumo, palavras-chaves e referências bibliográficas deverão ter o mesmo formato descrito anteriormente.

## 7. APRENDENDO COM A IMAGEM

Análise de imagens (radiológicas, ultrassonográficas, histopatológicas, etc.) de casos clínicos com interesse especial para o profissional.

Até (2) duas laudas.

## EXIGÊNCIAS TÉCNICAS PARA SUBMISSÃO DE ARTIGOS

- Aprovação do Comitê de Ética em Pesquisa com Seres Humanos ou Animais da Instituição em que o trabalho foi realizado, indicando o número do CAAE; (<http://plataformabrasil.saude.gov.br/login.jsf>)
- Termo de Consentimento Livre e Esclarecido (TCLE), quando referente à artigos de pesquisa envolvendo seres humanos (inclusive para relatos de casos);
- Termo de Consentimento e de Exclusividade para publicação na Revista Científica do Iamspe;
- Texto redigidos em português. Eventualmente, e de acordo com a Chefia Editorial, poderão ser publicados em inglês ou espanhol;
- Artigo em formato Word (arquivo .doc ou .docx), texto digitado em espaço duplo, fonte Times New Roman, tamanho 12, margem 2,5 cm de cada lado, destacando cada seção do artigo.
- **TABELAS (MÁXIMO 4):** Devem ter título e cabeçalho para suas colunas. A numeração das tabelas deve ser sequencial, em algarismos arábicos, na ordem que foram citadas no texto. No rodapé da tabela, deve constar legenda para abreviações e citados os testes estatísticos utilizados.
- **FIGURAS (IMAGENS, GRÁFICOS, FOTOGRAFIAS E ILUSTRAÇÕES):** Máximo 2, devem ser citadas no texto e a numeração deve ser sequencial, em algarismos arábicos. Se as figuras já tiverem sido anteriormente publicadas, deverão vir acompanhadas na legenda da ilustração, da fonte original de publicação.
- **REFERÊNCIAS:** Metodologia Vancouver: Devem ser numeradas consecutivamente, e precisam constar no texto na mesma ordem em que foram citadas identificadas com números arábicos sobrepostos. Para todas as referências, citar o máximo de três autores. Acima disso, citar os três primeiros, seguidos da expressão et al., Exemplos do estilo Vancouver estão disponíveis no site da *National Library of Medicine (NLM)* em *Citing Medicine*: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK7256/>.
- **SIGLAS:** No texto devem vir precedidas de seu significado. Não devem constar no resumo ou na conclusão, onde as expressões devem ser grafados por extenso.

Obs. O número maior de tabelas ou figuras dependerá de avaliação da editoria.



**GOVERNO DO ESTADO DE SÃO PAULO**