

Pseudo-quisto abdominal

Marisa Sousa¹, José Augusto Costa², Ana Florinda Alves³, Manuel Salgado¹

RESUMO

Apresentamos o caso clínico de uma criança de 5 anos de idade, sexo masculino, com hidrocefalia secundária a quisto porencefálico congénito, com sistema de derivação ventrículo-peritoneal (DVP) do LCR desde os 12 meses de idade, que se complicou, 4 anos depois, de pseudo-quisto abdominal (PQA), em cuja cultura do conteúdo se desenvolveu uma *Brucella spp.*

A revisão da literatura sobre peritonite/ascite por *Brucella*, mostrou tratar-se de situações muito raras, ocorrendo mais em adultos com doença grave subjacente ou em indivíduos com catéter intra-abdominal com sistemas de DVP.

Na literatura internacional estão publicados cerca de 20 casos clínicos de ascite / peritonite por *Brucella*. Contudo não encontramos nenhuma outra descrição de infecção dum PQA por *Brucella*.

Palavras-chave: Hidrocefalia, derivação ventrículo-peritoneal, pseudo-quisto abdominal, *Brucella*

Nascer e Crescer 2007; 16(1): 17-20

INTRODUÇÃO

O desequilíbrio entre a produção e a absorção do líquido cefalo-raquídeo (LCR) é a causa da acumulação patológica de LCR no crânio responsável pela hidrocefalia, justificando a necessidade de drenagem do LCR, em especial pela derivação ventrículo-peritoneal (DVP)^(1,2).

Em geral os sistemas de DVP são constituídos por um catéter proximal, um reservatório, uma válvula que regula a pressão e o fluxo do LCR e por um cateter distal⁽¹⁾. As complicações dos sistemas de DVP podem resultar de obstrução, má função ou infecção, na sua maioria na porção proximal^(1,2). As infecções dos sistemas de derivação têm uma incidência de 5-12%^(1,2), sendo os principais agentes o *Staphylococcus epidermidis* (40% a 63%)⁽¹⁻³⁾ o *Staphylococcus aureus* (14% a 20%)⁽¹⁻³⁾ e *Propionibacterium acnes* (13%)⁽³⁾. Estas infecções proximais resultam, em geral, da disseminação dos microorganismos a partir da pele adjacente à zona de abordagem ou dos instrumentos cirúrgicos contaminados durante intervenção, manifestando-se nos primeiros 6-9 meses após a colocação da derivação, em cerca de 90% dos casos⁽¹⁻³⁾, maioritariamente nos primeiros 2 meses^(1,3).

Pelo contrário, as complicações infecciosas do catéter distal surgem, em regra, para além dos 9 meses, frequentemente vários anos depois, estando menos vezes em causa o *Staphylococcus aureus*, e associando-se, amiúde, com a formação de pseudo-quistos abdominais (PQA), reflectindo outras fontes de infecção ou uma infecção insidiosa por agentes menos virulentos^(1,3).

O PQA de LCR é constituído por uma cavidade semelhante a um quisto, mas desprovido de parede, no interior do qual o cateter, rodeado de LCR, fica "enquistado"^(2,4). Trata-se de uma das complicações mais raras da DVP, com uma incidência <1% a 4,5%⁽⁵⁾, surgindo em geral mais de 9 meses após colocação da DVP⁽³⁾, em consequência de obstrução e/ou mau funcionamento do cateter distal, maioritariamente secundário a

uma infecção local por *Staphylococcus epidermidis* ou *Propionibacterium acnes* ou microorganismos comuns da flora bacteriana abdominal ou respiratória^(2,3,5), sobretudo agentes infecciosos de menor virulência, sendo raras as infecções por *Staphylococcus aureus*^(3,5).

As infecções por *Brucella* afectam qualquer órgão e sistema^(6,7), podendo complicar-se de hepatite⁽⁶⁻¹¹⁾ e, excepcionalmente, de outras manifestações abdominais, tais como abscessos hepáticos e/ou esplênicos, colecistite, pancreatite ou colite^(10,11), e de abdómen agudo, com ou sem peritonite e/ou ascite⁽⁶⁻¹⁴⁾.

O caso seguinte testemunha estas diferentes questões.

CASO CLÍNICO

A 2 de Janeiro de 1990 foi referido, à urgência do HPC, uma criança, de 5 anos de idade, por febre com 5 dias de evolução (máximo 39.5°C), disúria há 3 dias e dor abdominal generalizada, tipo cólica, com duração de poucas horas.

Dos antecedentes pessoais havia a referir atraso do desenvolvimento psicomotor (ADPM), atrofia óptica e quisto porencefálico temporal esquerdo diagnosticado aos 9 meses (Quadro I), complicado de hidrocefalia, que justificou a colocação de sistema de DVP aos 12 meses de idade, sempre sem complicações até este episódio de doença.

Os pais e os irmãos eram saudáveis, sendo a mãe trabalhadora rural e o pai tratador de carnes em talho privado.

O exame objectivo mostrou estado geral conservado, temperatura de 38,4°C, normal funcionamento da válvula de DVP, queixoso e com defesa à palpação abdominal. A investigação laboratorial realizada não mostrou alterações (Tabela 1). A radiografia simples do

¹ Serviço de Pediatria do Hospital Pediátrico de Coimbra (HPC)

² Serviço de Neurocirurgia do Hospital Pediátrico de Coimbra

³ Serviço de Patologia Clínica do Centro Hospitalar de Coimbra

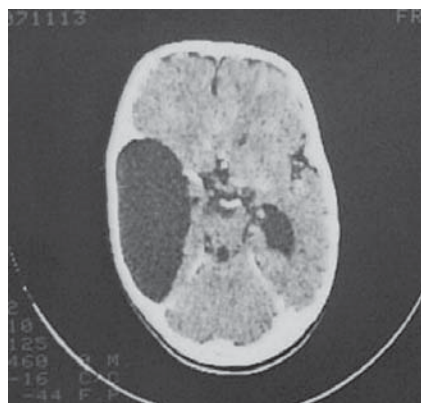


Figura 1 – TAC crânio-encefálica, 1986, evidenciando o quisto porencefálico prévio à colocação da DVP



Figura 2 – Rx toraco-abdominal D5 de doença

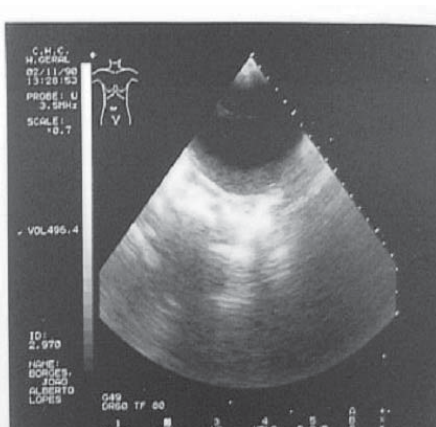
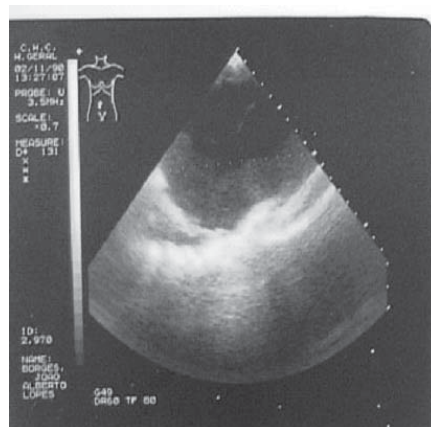


Figura 3 – Ecografia abdominal, D18, mostrando o pseudo-quisto abdominal

Quadro I – Estudo laboratorial ao D5 de doença

Hemograma	
Hemoglobina	11,4g/l
Leucócitos	9500/mm ³
Plaquetas	213000/mm ³
LCR	
Glicose	30 mg%
Proteínas	35 gr/l
Células	0
Cultura	Negativa
Sumária de urina	Normal
Urocultura	Negativa
Hemocultura	Negativa

abdômen mostrou opacidade difusa de todo o abdômen com escasso arejamento delimitado aos quadrantes esquerdos (Figura 2). Efectuou apenas terapêutica sintomática.

Ao 8º dia de doença, à febre e à dor abdominal, em cólica, associou-se uma progressiva distensão abdominal, com abdômen progressivamente mais tenso e mais doloroso, tornando-se “impossível” de palpar, mantendo, no entanto, os ruídos peristálticos e o trânsito intestinal. Nesta altura a criança adoptava uma postura antálgica, em decúbito lateral.

Perante o quadro de “ventre agudo”, foi submetido a laparotomia exploradora. Os achados operatórios mostraram “quisto septado em torno do cateter

de derivação do LCR, ocupando todo o *hemi-abdômen* direito, correspondente a cerca de 3 litros de um conteúdo claro”, que foi drenado, enviada uma amostra para cultura, e recolocado o catéter distal da DVP.

Apesar da resolução da distensão abdominal, da melhoria do estado geral e das dores abdominais, manteve febre até 13º dia de doença, com temperaturas máximas de 38,8°C axilares, tendo iniciado amoxicilina (50mg/kg/d) para provável faringite.

Ao 18º dia de doença, verificou-se reagramento das dores abdominais e surgiu de novo com febre (38,2°C axilar), disúria e distensão abdominal. A cultura do líquido do PQA, colhido ao 8º dia de doença, permanecia negativa. Realizou então ecografia abdominal que revelou: “...coleção líquida, arredondada na região do flanco direito, com um volume de ± 400 ml, de contornos regulares com ansas e auras à volta do catéter, por provável pseudo-quisto...” (Figura 3).

Ao 20º dia de doença foi realizada nova intervenção cirúrgica, com drenagem deste novo PQA e remoção do sistema de DVP e, ao 24º dia, a substituição da DVP por um sistema de derivação ventriculo-atrival (DVA). De seguida ficou assintomático em menos de 5 dias, não tendo feito medicação antibiótica dirigida.

Desde então não repetiu episódios febris prolongados, nem de dores abdominais que justificassem novos internamentos ou intervenções cirúrgicas, tendo mantido, com regularidade, as consultas de subespecialidades no HPC.

Aos 19 anos de idade, aquando da transferência para a medicina dos adultos e da realização do relatório clínico de alta, dum volumoso processo, foi “encontrada” a cultura do conteúdo do PQA, realizada em 1990, que se revelou surpreendente: “desenvolvimento de coco-bacilos Gram-negativos, identificados como *Bruccella spp.*”. Foram negadas queixas sistêmicas, abdominais ou osteoarticulares e o exame objectivo mostrou-se normal, mantendo um ADPM moderado.

Após informação e consentimento por parte da família, foram realizadas coelheitas para as reacções de Rosa de Bengala, de Wright (que se revelaram ambas

negativas) e Imunofluorescência indirecta para *Brucella*, que foi positiva, com um título de 1/80, compatível com “infecção antiga”.

DISCUSSÃO

O quisto *porencefálico* (QP) primitivo é um quisto congénito, localizado frequentemente próximo da cisura de Sylvius que, tipicamente, comunica com o espaço subaracnoideu e/ou sistema ventricular^(2,4). O QP resulta duma alteração da migração celular ou duma alteração vascular⁽¹⁵⁾ aquando do desenvolvimento cerebral e, geralmente, associa-se com outras malformações cerebrais^(2,4,15). As crianças afectadas por QP tendem a desenvolver várias complicações: atraso global do desenvolvimento psico-motor, atrofia óptica, tetraparésia espástica, epilepsia, hidrocefalia, etc.^(4,15).

A colocação de sistemas de derivação ventrículo-peritoneal é o procedimento mais frequente, eficaz e conhecido no tratamento de hidrocefalias, sendo realizado sobretudo em idades pediátricas^(1,2,4).

As complicações das derivações ocorrem com uma frequência aproximada de 26% e os factores predisponentes são a obstrução, má função do sistema ou a infecção^(1,2,4).

As diferentes complicações possíveis do cateter distal do sistema de DVP são as infecções, com peritonite / ascite, PQA, quistos, hemorragias, migração do cateter peritoneal e, inclusive, oclusão e perfuração intestinal^(1,2).

Clinicamente o PQA cursa com dor abdominal e/ou distensão, náuseas e vómitos, frequentemente sem evidência de sinais sistémicos e de má função do sistema de DVP^(1,2,3,5). O diagnóstico do PQA realiza-se habitualmente por ecografia abdominal e o tratamento requer remoção do cateter de DVP infectado e a colocação de novo sistema após cobertura antibiótica adequada à etiologia^(1,2,5).

O caso clínico por nós descrito surgiu, como é próprio das complicações tardias dos sistemas de DVP, mais de 4 anos após a colocação do sistema de DVP, secundário a uma infecção do cateter distal por um agente intra-celular atípico, por *Brucella spp.* Clinicamente

curvou com dor abdominal difusa, distensão abdominal e febre, sem disfunção da DVP como é também característico deste tipo de complicação. A pronunciada distensão abdominal foi compatível com abdómen cirúrgico agudo (“ventre agudo”) com peritonite e/ou ascite.

Apesar da febre, do início abrupto do quadro, a ausência de turvação do LCR, não evocou uma etiologia infecciosa como causa desta situação, aliás comum nos casos de PQA, pela elevada percentagem de infecções insidiosas por germens de baixa virulência^(3,5).

A boa evolução clínica, com resolução completa das queixas, após a substituição do cateter distal, sem recidivas, terá condicionado a conduta posterior deste caso clínico. A natural maior demora duma cultura por *Brucella* no LCR do PQA, associada a indevidas lacunas de comunicação, terão justificado, em 1990, que o resultado desta cultura tenha sido colocado, sem a necessária interpretação, num processo volumoso e, assim tenha permanecido desconhecida durante cerca de 14 anos.

Aquando da sua descoberta, este resultado, levantou duas hipóteses: duma contaminação ou duma real infecção. A contaminação por *Brucella* pareceu-nos altamente improvável, tanto mais que, no laboratório de bacteriologia do nosso Hospital não houve outros casos de isolamento de *Brucella* no período de Setembro 1989 a final de Março de 1990 e, a contaminação no Bloco operatório, teria sido quase impossível. Assumimos ter-se tratado duma real infecção corroborado pelas descrições bibliográficas de abdómen agudo, com ou sem peritonite e/ou ascite secundárias a infecção por *Brucella*⁽⁶⁻¹⁴⁾.

À semelhança do verificado com o nosso doente, na ascite / peritonite por brucelose abdominal, a febre é frequente^(8,10,11,12,13), embora possa faltar^(9,10,13) como sucede com outras manifestações da brucelose^(6,7).

A extrema raridade da ascite / peritonite por *Brucella*, justificam que sejam poucas as descrições sobre brucelose abdominal, complicada de peritonite e/ou ascite, e que ocorrem especialmente em doentes adultos com prévias patologias

abdominais primárias ou secundárias, como hepatite crónica, cirrose, doença maligna, insuficiência cardíaca congestiva, endocardite bacteriana ou em imunodeprimidos⁽⁶⁻¹³⁾ ou na presença de corpos estranhos intra-abdominais, seja para realização de diálise peritoneal⁽¹¹⁾, ou associada a prévia DVP^(8,10,11,14,16).

O mecanismo mais provável da infecção abdominal por *Brucella* será hematogénico^(6,7,12,13), por via linfática^(6,12) ou por migração transmural do lúmen intestinal^(6,12).

A ascite / peritonite por *Brucella* poderá associar-se a meningite (neurobrucelose) ou esta surgir alguns meses depois^(8,10,11,13,14) especialmente nos casos com DVP^(8,14,16), em especial se o sistema de DVP inicial não for removido^(1,8).

No nosso doente, após a laparotomia exploradora inicial, com esvaziamento do PQA, a sua recidiva 5 dias depois, ter-se-á devido à manutenção do cateter distal infectado, inicialmente apenas recolocado. A sua remoção, substituindo-o por um novo cateter distal derivado agora para a aurícula (com DVA) terá impedido a colonização/infecção de todo o sistema de derivação^(1,5,17) e, assim, uma possível meningite futura.

O carácter crónico e indolente de algumas infecções por *Brucella*^(6,7) associado ao seu carácter mais benigno na criança^(6,16), poderá explicar que a simples remoção dum cateter de derivação numa criança, tenha resultado na resolução da clínica e na cura completa, sem intervenção de antibióticos específicos, da infecção do LCR por *Brucella abortus*⁽¹⁷⁾.

Mas se os casos de ascite / peritonite associados a infecção por *Brucella* são muito raros⁽⁸⁻¹⁴⁾, por outro lado não encontramos nenhuma descrição de PQA infectado por *Brucella*, tratando-se este, provavelmente de um caso único.

BRUCELLA ABDOMINAL PSEUDO-CYST

ABSTRACT

We present a case of a five year-old boy with hydrocephaly secondary to a congenital porencephalic cyst, with ventricular-peritoneal shunt of cerebral-spinal fluid,

since the age of 12 months. He developed, 4 years later, an abdominal pseudo-cyst. The culture of the pseudo-cyst's content was positive for *Brucella spp.*

The review of literature shows that peritonitis / ascitis caused by *Brucella*, is rare, and takes place in serious ill adults or in individuals with intra-abdominal catheter of ventricular-peritoneal shunt.

The authors found 20 cases of peritonitis / ascitis caused by *Brucella*, in the international literature, however, we have not found any description of an abdominal pseudo-cyst infection by this bacteria.

Key-words: hydrocephaly, ventricular-peritoneal shunt, abdominal pseudo-cyst, *Brucella*

Nascer e Crescer 2007; 16(1): 17-20

BIBLIOGRAFIA

1. Duhaime A-C. Evaluation and management of shunt infections in children with hydrocephalus. *Clin Pediatr* 2006;45:705-13
2. Fried AH., Epstein MH.: Childhood Hydrocephalus: Clinical Features, Treatment, and the Slit Ventricle Syndrome; *Neurosurgical Quarterly*, Nov., 1993
3. Baird C, O'Connor D, Pittman T. Late shunt infections. *Pediatr Neurosurg* 1999;31:269-73
4. Behrman RE., Kliegman RM., Jenson HB.: in Nelson Textbook of Pediatrics, 16th Edition, 2000
5. Roitberg BZ, Tomita T, McLone DG. Abdominal cerebrospinal fluid pseudocyst: a complication of ventriculo-peritoneal shunt in children. *Pediatr Neurosurg.* 1998;29(5):267-73
6. Pappas G, Akritidis N, Bosilkovski M, Tsianos E. Brucellosis. *N Engl J Med* 2005;352:2325-36
7. Rust R S. Brucellosis. <http://www.emedicine.com/neuro/topic42.htm>. Last Updated: June 8, 2006
8. Locutura J, Lorenzo JF, Miján A, Galdós-Barroso M, Saez-Royuela F. Non-simultaneous *Brucella* peritonitis and meningitis in a patient with a ventriculoperitoneal shunt. *Eur J Clin Microbiol Infect Dis.* 1998;17(5):361-2
9. Kantarceken B, Harputluoglu MM, Bayindir Y, Bayraktar MR, Aladag M, Hilmioglu F. Spontaneous bacterial peritonitis due to *Brucella melitensis* in a cirrhotic patient. *Turk J Gastroenterol* 2005;16(1):38-40
10. Akritidis N, Pappas G: Ascites caused by brucellosis: a report of two cases. *Scand J Gastroenterol* 2001;36(1):110-2
11. Gençer S, Özer S. Spontaneous bacterial peritonitis caused by *Brucella melitensis*. *Scand J Infect Dis* 2003;35(5):341-5
12. Erbay A, Bodur H, Akinci E, Colpan A, Cevik M A. Spontaneous bacterial peritonitis due to *Brucella melitensis*. *Scand J Infect Dis* 2003;35(3):196-7
13. Alcalá L, Muñoz P, Rodríguez-Créixems M, Bañares R. *Brucella spp.* Peritonitis. *Am J Med* 1999;107:300 (letter to editor)
14. Anderson H, Mortensen A. Unrecognised neurobrucellosis giving rise to *Brucella melitensis* peritonitis via a ventriculoperitoneal shunt. *Eur J Clin Microbiol Infect Dis* 1992;11(10):953-4
15. Devi S B, Singh N B, Singh Th B, Singh M K, Singh Ksh C. Unilateral Porencephaly. *Indian Pediatrics* 2002; 39:495-7
16. Shaalan M A, Memish Z A, Mahmoud S A et al. Brucellosis in children: clinical observations in 115 cases. *Int J Infect Dis* 2002;6:182-6
17. Puri P, Harvey TW. Colonisation of ventriculoatrial shunt with *Brucella abortus*. *Br Med J* 1981;282:1754-5