

MIOPATIA PSEUDO-HIPERTRÓFICA POR CISTICERCOSE

REGISTRO DE CASO

*MARIA INES DE VILHENA LANA-PEIXOTO **

*MARCO AURELIO LANA-PEIXOTO ***

*GILBERTO BELISARIO CAMPOS ****

A cisticercose usualmente apresenta-se ao neurologista sob a forma de epilepsia^{4,6,7,11} ou de hidrocefalia obstrutiva intermitente^{2,3,5,10}. O propósito deste trabalho é chamar atenção para outra forma sob a qual a cisticercose pode ser encontrada, ou seja, uma miopatia pseudo-hipertrófica. Esta manifestação da cisticercose é rara havendo apenas doze casos relatados na literatura, onze deles provenientes da Índia^{8,9,12,13,14,15,16,17,18} e um do Brasil¹. O nosso caso difere de todos os outros já descritos pela localização da pseudohipertrofia muscular e pelas características eletromiográficas.

OBSERVAÇÃO

A.M.J., 25 anos, sexo feminino, procurou o Hospital das Clínicas de Belo Horizonte em maio de 1977 com queixa de dificuldade para deambular desde 1967. A partir de 1972 passou a notar aumento progressivo de volume da perna esquerda. Relatava piora nos últimos anos quando passou a apresentar dores, cãimbras e contrações involuntárias no membro inferior esquerdo. Não havia história de convulsões nem de patologia semelhante na família. O exame físico revelou aumento de volume das pernas principalmente a esquerda (Fig. 1), fraqueza dos membros inferiores especialmente dos músculos iliopsoas, gastrocnêmio e tibial anterior à esquerda; miotonia à percussão do gastrocnêmio e impossibilidade de andar apoiada no calcanhar esquerdo. Nódulos subcutâneos não foram palpados. O restante do exame neurológico estava normal. As radiografias dos membros inferiores, coluna cervical, torácica e lombo-sacra não revelaram anormalidades. Calcificações musculares não foram encontradas. O hemograma e a dosagem de glicose, uréia e creatinina foram normais. A creatinofosfoquinase (CPK) foi 400 U; aldolase, 9,2 U/ml; transaminase glutâmico-oxalo-acética (SGOT), 70 U e glutâmico-pirúvica (SGPT) 40 U. O eletrocardiograma foi normal. A eletromiografia dos membros inferiores mostrou aumento da atividade de inserção da agulha e potenciais de unidades motoras gigantes de 8-9 MV e 12-15mseg com padrão de interferência completo. Atividade espontânea não foi observada. As velocidades de condução dos nervos periféricos foram normais. O exame microscópico da biópsia dos

Departamento de Neurologia da Faculdade de Medicina da Universidade Federal de Minas Gerais; * Professor Assistente; ** Professor Adjunto; *** Professor Titular.

Fig. 1 — Caso A.M.J.: pseudo-hipertrofia das pernas principalmente à esquerda.

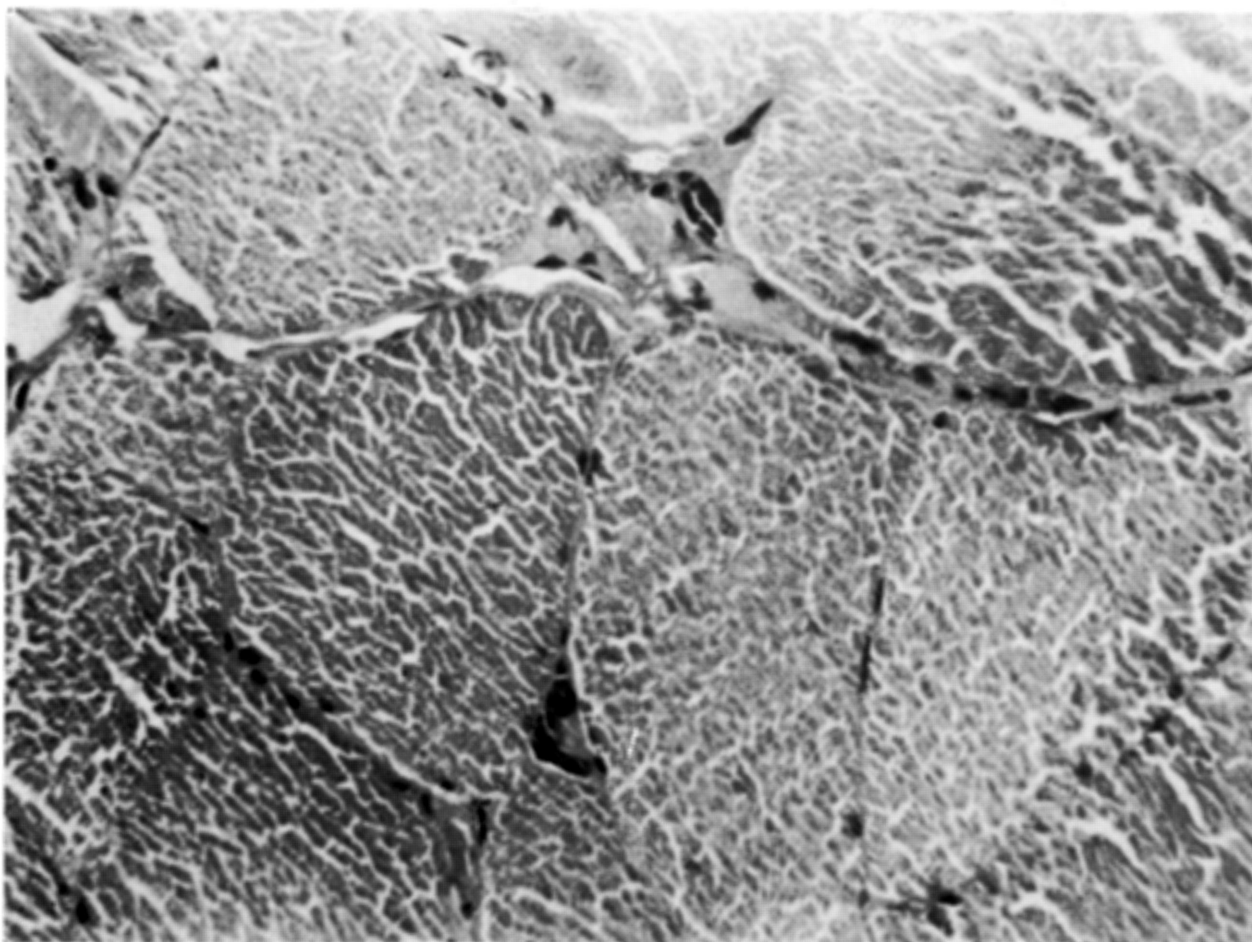


Fig. 2 — Caso A.M.J.: hipertrofia de fibras musculares junto a fibras atróficas e infiltrado inflamatório representado por linfócitos (HE; 100 x).

gastrocnêmios direito e esquerdo revelou acentuada hipertrofia das fibras musculares em meio a algumas fibras atroficas; degeneração de fibras e necrose com infiltrado inflamatório representado por linfócitos. Havia discreta fibrose intersticial (Fig. 2). Um cisticerco foi encontrado no material de biópsia (Fig. 3).



Fig. 3 — Caso A.M.J.: Cisticerco encontrado na biópsia muscular (HE; 100 x).

COMENTARIOS

No primeiro relato feito por Priest¹⁵, em 1926, a pseudo-hipertrofia muscular por cisticercose restringia-se à cintura escapular. Os músculos acometidos encontravam-se dolorosos e fracos e ao exame microscópico mostravam-se invadidos por inúmeros cisticercos. McRobert¹³ relatou o caso de um paciente admitido ao hospital devido a alteração de sua aparência física, que passou a ser a de halterofilista. A palpação dos ombros e coxas revelou presença de nódulos subcutâneos que à biópsia provaram ser cisticercos. McGill¹²

descreveu dois casos com história de aumento progressivo e indolor da musculatura. No primeiro caso a fraqueza era proeminente, o que é raro nesta síndrome. No segundo, a pseudo-hipertrofia surgiu um ano após doença febril aguda com acentuada mialgia. Nos casos de Sing e Jolly¹⁸ e Prakash e Kumar¹⁴ ambos os pacientes apresentavam aumento simétrico da cintura escapular e pélvica assim como nódulos subcutâneos. Em 1968, Jacob e Mathew⁸ descreveram um paciente cuja característica marcante era uma considerável pseudo-hipertrofia do pescoço (40 cm de diâmetro). Armburst-Figueiredo e col.¹ relataram o caso de uma paciente que no período de 8 meses desenvolveu fraqueza muscular generalizada além de aumento progressivo de volume dos músculos da cintura pélvica e escapular. Nódulos subcutâneos não foram palpados mas biópsia do bíceps mostrou presença de cisticerco junto a infiltrado inflamatório. Nos dois pacientes descritos por Jolly e Pallis⁹ havia acometimento isolado da cintura pélvica enquanto nos casos de Rao e col.¹⁶ e Sawhney e cols.¹⁷ tanto a cintura pélvica como a escapular estavam envolvidas. A eletromiografia neste último caso revelou unidades motoras pequenas, com padrão de interferência completo, e as velocidades de condução nervosa foram normais.

A análise dos achados encontrados em nossa paciente e nos descritos anteriormente por outros autores (Tabela 1) mostra que a idade variou de 10 a 35 anos com mediana de 25 anos. Dos 13 pacientes descritos 9 (69,2%) eram do sexo masculino e 4 (30,8%), do sexo feminino. Sete pacientes (53,8%) apresentavam também história de epilepsia. Dor muscular foi sintoma encontrado em cerca de metade dos casos (53,0%), enquanto fraqueza muscular estava presente em mais de um terço (38,5%). Nódulos subcutâneos foram palpados em 76,9% dos pacientes. Miotonia é rara havendo sido descrita anteriormente em apenas um caso. Dos 10 relatos em que os reflexos tendinosos profundos foram especificados, em 60% estavam normoativos, em 10% hiperativos e em 30%, hipoativos.

Somente no caso descrito por Priest¹⁵ houve acometimento restrito da cintura escapular, enquanto envolvimento isolado da cintura pélvica ocorreu em outros dois casos^{9,16}. Nos demais pacientes havia envolvimento tanto da cintura escapular quanto da pélvica. Na nossa paciente a pseudo-hipertrofia estava restrita às pernas, envolvendo principalmente a esquerda não havendo envolvimento das cinturas escapular e pélvica. Calcificação muscular foi encontrada em apenas um caso¹⁴. Os achados eletromiográficos em nosso caso diferem dos descritos por Sawhney e cols.¹⁷ pelo tamanho e duração das unidades motoras. A biópsia muscular mostrou presença de cisticerco em todos os pacientes, geralmente junto a infiltrado inflamatório representado por linfócitos e eosinófilos. Somente no presente relato e nos casos descritos por Rao e cols.¹⁶ e Sawhney e cols.¹⁷ alterações na estrutura das fibras musculares foi observada.

A patogênese desta condição é discutida. Parece pouco provável que a presença de numerosos cistos seja responsável pela aparente hipertrofia muscular⁸. A pseudo-hipertrofia poderia representar forma de reação à desintegração das larvas¹¹ ou ser devida a comprometimento da circulação sanguínea

AUTOR	Idade	Sexo	Dor	Fraqueza	Miotonia	Pseudohiper- trofia	Nódulos subcutâneos	Epilepsia	Calcificação muscular	Biópsia Muscular		
										Cisticercos	Infla- mação	Alteração de fibras
Priest (1926)	24	M	+	+	NR	ce	+	+	-	+	+	-
McRobert (1944)	25	M	-	-	NR	ce, cp	+	-	-	+	+	-
McGill (1947)	25	M	-	-	NR	ce, cp	+	+	-	+	+	-
Singh e Jolly (1957)	20	M	-	-	NR	ce, cp	+	-	-	+	+	-
Singh e Jolly (1957)	22	F	+	-	-	ce, cp	+	+	-	+	+	-
Prakash e Kumar (1965)	14	M	+	-	-	ce, cp	+	+	+	+	+	-
Jacob e Mathew (1968)	30	M	+	+	-	ce, cp	+	+	-	+	+	-
Armburst-Figueiredo (1970)	35	F	+	+	+	ce, cp	-	-	-	+	+	-
Jolly e Pallis (1971)	25	M	-	-	-	cp	-	+	-	+	+	-
Rao e col. (1972)	25	M	-	-	-	cp	+	-	-	+	+	-
Rao e col. (1972)	10	M	-	-	-	ce, cp	+	-	-	+	+	+
Sawchney e col. (1976)	24	F	+	+	-	ce, cp	+	+	-	+	+	+
Lana-Peixoto e col.	25	F	+	+	+	pernas	-	-	-	+	+	+

Tabela 1 — Casos de miopatia pseudohipertrófica por cisticercose. Legenda: NR, não relatado; ce, cintura escapular; cp, cintura pélvica.

intramuscular pelo grande número de cisticercos¹⁷. A cisticercose deve ser considerada no diagnóstico diferencial em todo paciente com miopatia pseudo-hipertrófica. Ela difere clinicamente da distrofia muscular pseudo-hipertrófica pela idade de início, presença de dor discreta, ausência de história familiar e de fraqueza muscular acentuada. Na triquinose o início é agudo e embora haja dor muscular existe edema generalizado e febre. Ela deve ainda ser diferenciada da glicogenose do tipo I (doença de Pompe), na forma juvenil, pela ausência de história familiar. Ao contrário da miotonia congênita não há espasmos musculares nem história familiar positiva. Hipotireoidismo e amiloidose podem ser afastados por testes laboratoriais. O diagnóstico não apresenta dificuldades quando nódulos subcutâneos são visíveis ou palpados. Entretanto o diagnóstico de certeza só pode ser estabelecido mediante biópsia muscular revelando presença de cisticerco.

RESUMO

O caso de uma paciente com aumento de volume das pernas, dor discreta e dificuldade para deambular é descrito. A eletromiografia mostrou potenciais de unidades motoras gigantes com padrão de interferência completo. A biópsia dos gastrocnêmios direito e esquerdo revelou presença de um cisticerco além de hipertrofia das fibras musculares e infiltrado inflamatório. A revisão da literatura demonstra que apenas 12 casos de miopatia pseudo-hipertrófica causada por cisticercos foram relatados e que a incidência é duas vezes maior no sexo masculino do que no feminino. Em cerca de metade dos casos há história de epilepsia. Dor e fraqueza muscular discretas são frequentes. Em geral a pseudo-hipertrofia ocorre nas cinturas escapular e pélvica simultaneamente. Miotonia é achado raro e nódulos subcutâneos estão presentes na maioria dos pacientes. Nosso paciente difere dos outros relatados na literatura por apresentar pseudo-hipertrofia restrita às pernas, principalmente à esquerda, com eletromiografia revelando potenciais de unidades motoras gigantes. A patogênese desta condição é discutida e o diagnóstico diferencial deve ser feito com distrofia muscular pseudo-hipertrófica, triquinose, miotonia congênita, hipotireoidismo, amiloidose e a forma juvenil da glicogenose do tipo I (doença de Pompe).

SUMMARY

Pseudohypertrophic myopathy due to cysticercosis: a case report.

A 25 years old woman was admitted with a history of apparent hypertrophy of the calves, specially on the left, slight pain in the legs and difficulty in walking. Electromyography showed giant motor unit potentials with complete interference pattern. Biopsy of both gastrocnemii was performed revealing a cysticercus among inflammatory infiltrate and changes of the muscle fibers. Review of the literature disclosed 12 other reported cases. The age ranged from 10 to 35 years with a median of 25 years. Pseudohypertrophic myopathy due to cysticercosis has been found twice more common in males than in

females. History of epilepsy and muscle pain occurs in about one half of the cases and muscle weakness in about one third of them. Usually there is simultaneous involvement of the upper and lower limb girdles. Miotonia is rare but subcutaneous nodules are frequently found. Our case is unique in the literature in which the pseudohypertrophy was confined to the legs and electromyography showed giant motor unit potentials. The pathogenesis of this condition is discussed and attention is called to the differential diagnosis with other pseudohypertrophic muscular conditions such as pseudohypertrophic muscular dystrophy, miotonia congenita, trichinosis, hypothyroidism, amyloidosis and glycosidosis of type I (Pompe's disease) in its juvenile form.

REFERÊNCIAS

1. ARMBURST-FIGUEIREDO, J.; SPECIALI, J.G. & LISON, M.P. — Forma miopática da cisticercose. *Arq. Neuro-Psiquiat.* (São Paulo) 28:386, 1970.
2. BICKERSTAFF, E.R. — Cerebral cysticercosis: common but unfamiliar manifestations. *Brit. med. J.* 1:1055, 1955.
3. BICKERSTAFF, E.R.; SMALL, J.M. & WOOLF, A.L. — Cysticercosis of the posterior fossa. *Brain* 79:622, 1956.
4. BROTTTO, W. — Aspectos neurológicos da cisticercose. *Arq. Neuro-Psiquiat.* (São Paulo) 5:258, 1947.
5. CANELAS, H.M. — Neurocisticercose: incidência, diagnóstico e formas clínicas. *Arq. Neuro-Psiquiat.* (São Paulo) 20:1, 1962.
6. DIXON, H.B.F. & HARGREAVES, W.H. — Cysticercosis: a further ten years clinical study covering 284 cases. *Quart. J. Med.* 13:107, 1944.
7. DIXON, H.B.F. & LIPSCOMB, F.M. — Cysticercosis: an analysis and follow up of 450 cases. *Med. Res. Counc. Spec. Rep. Ser.* (London) 299:1, 1961.
8. JACOB, J.C. & MATHEW, N.T. — Pseudohypertrophic myopathy in cysticercosis. *Neurology* 18:767, 1968.
9. JOLLY, S.S. & PALLIS, C. — Muscular pseudohypertrophy due to cysticercosis. *J. neurol. Sci.* 12:155, 1971.
10. KUPER, S.; MENDELOW, H. & PROCTOR, N.S.F. — Internal hydrocephalus caused by parasitic cysts. *Brain* 81:235, 1958.
11. MACARTHUR, W.P. — Cysticercosis as seen in British Army with special reference to production of epilepsy. *Trans. r. Soc. trop. Med. Hyg.* 27:345, 1934.
12. MCGILL, R.G. — Cysticercosis resembling a myopathy. *Indian J. med. Sci.* 1:109, 1947.
13. McROBERT, G.R. — Somatic taeniasis (*solium* cysticercosis). *Indian med. Gaz.* 79:399, 1944.
14. PRAKASH, C. & KUMAR, A. — Cysticercosis with taeniasis in a vegetarian. *J. trop. Med. Hyg.* 68:100, 1965.
15. PRIEST, R. — A case of extensive somatic dissemination of *cysticercus cellulosae* in man. *Brit. med. J.* 2:471, 1926.
16. RAO, C.M.; SATTAR, S.A.; GOPA, P.S.; REDDY, C.C.M. & SADASIVUDU, B. — Cysticercosis resembling myopathy. *Indian J. med. Sci.* 26:841, 1972.
17. SAWCHNEY, B.B.; CHOPRA, J.S.; BANERJI, A.K. & WAHI, P.L. — Pseudohypertrophic myopathy in cysticercosis. *Neurology* 26:270, 1976.
18. SINGH, A. & JOLLY, S.S. — Cysticercosis: case report. *Indian J. Med. Sci.* 11:98, 1957.