

# AUTISMO INFANTIL, TRANSTORNO BIPOLAR E RETARDO MENTAL EM PORTADOR DE SÍNDROME DA RUBÉOLA CONGÊNITA

## Relato de caso

Francisco Baptista Assumpção Jr<sup>1</sup>, Evelyn Kuczynski<sup>2</sup>

**RESUMO** - Descrevemos o caso de paciente masculino, autista, portador de síndrome da rubéola congênita, em cuja evolução foi diagnosticado transtorno bipolar, discutindo as possíveis implicações terapêuticas e diagnósticas.

**PALAVRAS-CHAVE:** autismo infantil, síndrome da rubéola congênita, transtorno bipolar do humor.

### **Autism, bipolar disorder and mental retardation in a male adolescent with congenital rubella: case report**

**ABSTRACT-** We describe an autistic male adolescent with congenital rubella who has developed bipolar disorder, discussing possible diagnostic and therapeutic implications.

**KEY WORDS:** infantile autism, congenital rubella, bipolar disorder.

Em 1943, Kanner descreveu sob a denominação de “distúrbio autístico do contato afetivo” um quadro caracterizado por autismo extremo, obsessividade, estereotípias e ecolalia<sup>1</sup>. Este conjunto de sinais e sintomas foi por ele avaliado como doença relacionada a fenômenos da linha esquizofrênica. Em trabalho de 1956, descreve o quadro como uma “psicose”, relatando que todos os exames clínicos e laboratoriais haviam sido incapazes de fornecer dados consistentes quanto à etiologia, diferenciando-o dos quadros deficitários sensoriais, como a afasia congênita e os quadros ligados às oligofrenias, novamente se utilizando do termo “...uma verdadeira psicose”<sup>2</sup>. As primeiras alterações nessa concepção surgem a partir de Ritvo<sup>3</sup>, que relacionou o autismo a um déficit cognitivo, considerando-o não uma psicose mas um transtorno do desenvolvimento, opondo-se frontalmente à visão trazida por Ajuriaguerra<sup>4</sup>, em seu clássico tratado. Dessa maneira, a relação autismo - deficiência mental passa a ser cada vez mais

considerada, levando-nos a uma situação desarmônica entre as classificações francesa, americana e a da Organização Mundial de Saúde. Assim sendo, se as duas últimas<sup>5,6</sup> enquadram o autismo dentro da categoria “transtornos abrangentes do desenvolvimento”, enfatizando a relação autismo-cognição, de acordo com os trabalhos de Baron Cohen<sup>7,8</sup>, a primeira<sup>9</sup> nos remete ao conceito de “defeito de organização ou desorganização da personalidade”<sup>10</sup>, caracterizando o conceito de “psicose” em sua expressão tradicional.

Outros autores, como Burack<sup>11</sup>, reforçam a idéia do déficit cognitivo, frisando que o autismo tem sido, nos últimos anos, enfocado sob ótica desenvolvimentista, sendo relacionado à deficiência mental, uma vez que cerca de 70 a 80% dos autistas o são. Entretanto, pela penetração e abrangência dos conceitos, somos obrigados a nos remeter ao autismo a partir de sua constelação comportamental, para que possa ser explorado minuciosamente e para que pos-

---

Serviço de Psiquiatria da Infância e da Adolescência do Instituto de Psiquiatria do Hospital das Clínicas da Faculdade de Medicina da Universidade de São Paulo (SEPIA-IPq-HC-FMUSP), São Paulo SP, Brasil: <sup>1</sup>Livre-Docente em Psiquiatria pela FMUSP, Doutor em Psicologia Clínica pela Pontifícia Universidade Católica - São Paulo (PUC-SP), Diretor Técnico do SEPIA-IPq-HC-FMUSP; <sup>2</sup>Pediatra, Psiquiatra da Infância e Adolescência, Doutoranda em Psiquiatria pela FMUSP, Médica Assistente do SEPIA-IPq-HC-FMUSP.

Recebido 23 Novembro 2000, recebido na forma final 23 Outubro 2001. Aceito 6 Novembro 2001.

Dr. Francisco B. Assumpção Jr. - Instituto de Psiquiatria HC/FMUSP - R. Dr. Ovídio Pires de Campos, s/nº - 05403-900 São Paulo SP - Brasil. FAX: (11) 3085 0228.

sam ser estabelecidas conexões causais dentro das possibilidades atuais. Cabe lembrar que mesmo a escola francesa, com sua tradição psicodinâmica, prefere atualmente ver o autismo vinculado à questão cognitiva<sup>12</sup>. Lebovici<sup>13</sup>, com toda a sua tradição psicanalítica, é textual quando diz que "...para os clínicos, é uma síndrome relativamente precisa. A referência histórica a Kanner faz da síndrome autística uma maneira mais ou menos específica de estar no mundo e aí formar relações atípicas...", caracterizando a ambigüidade e a diferença das duas abordagens, e mesmo da avaliação diversa, que permite enquadrar crianças diferentes em um mesmo quadro nosográfico, consistindo no "...emprestar ao conceito de psicose um caráter vago". Ainda em seu livro, Leboyer<sup>13</sup> é incisivo quando diz que "...a confrontação das observações clínicas e dos dados obtidos através da análise dos processos cognitivos e emocionais permite considerar a descrição de um modelo cognitivo anormal sustentando a patologia dos autistas".

São raros na atualidade os autores que, por mais diversas que sejam as concepções, não considerem o autismo dentro de uma abordagem cognitiva. Tais fatos são exaustivamente citados por Gillberg<sup>14</sup>, quando escreve que "...é altamente improvável que existam casos de autismo não orgânico...", acrescentando que "...o autismo é uma disfunção orgânica - e não um problema dos pais - isso não é matéria para discussão. O novo modo de ver o autismo é biológico." Altera-se o conceito de autismo (que passa a ser considerado um transtorno de desenvolvimento ao invés de uma psicose), alteram-se também não somente a prevalência, como os quadros médicos associados, a terapêutica e as possíveis comorbidades. Dentre essas, podem ser descritas outras doenças psiquiátricas, inclusive a citada doença afetiva unipolar e bipolar enquanto quadro clínico passível de ser encontrado associado ao autismo, por diferentes autores<sup>15</sup>. Este estudo tem o intuito de descrever uma comorbidade importante e rara em paciente diagnosticado previamente como autismo.

## CASO

Paciente masculino, branco, com 14 anos de idade, natural e procedente da Grande São Paulo. Primogênito, com irmão de 12 anos sadio, apresenta antecedente de mãe portadora de hipertensão e hipercolesterolemia, e tio materno alcoolista. Mãe contraiu rubéola (confirmada por sorologia à época) no quarto mês de gestação, neces-

sitando de cinco internações devido a risco de abortamento. Parto por cesárea a termo, devido a bolsa rota prolongada e distócia funcional. Permaneceu internado por 15 dias devido a sepse neonatal, pielonefrite, distúrbio hidro-eletrolítico, íleo infeccioso, gastroenterocolite aguda, anemia, hipoproteinemia grave e baixo peso ao nascer. Apresentou quatro episódios de pneumonia no primeiro ano de vida, com tratamento domiciliar. Contraiu caxumba aos 9 meses e meningite viral com um ano de idade. Dos três dias de vida aos 3 anos, desenvolveu crises convulsivas parciais motoras, com frequência semestral, sendo medicado com Carbamazepina e Valproato até há 8 anos. Quadro bronquítico nos primeiros dois anos de vida. Necessitou herniorrafia inguinal unilateral aos 5 anos. É acompanhado desde os 5 anos com o diagnóstico de encefalopatia crônica não evolutiva por rubéola congênita, apresentando imagem cerebral normal à tomografia de crânio e retinopatia em "sal e pimenta" à fundoscopia, sendo esta última característica do quadro.

Aceitou mamadeira com dificuldade no início da infância; porém, atualmente, não apresenta qualquer restrição na dieta. Desenvolveu regressão da marcha após os 14 meses, reiniciando-a aos 20 meses; controle esfinteriano desde os 3 anos de idade. Passou a se vestir sem auxílio com 10 anos de idade. Vinha em uso de Periciazina 20 mg/dia (prescrito em seguimento externo) até a admissão em nosso serviço. Frequentou escola especial dos 4 aos 13 anos, sem aprendizado acadêmico. Passa o dia correndo e pulando, apresentando interesses restritos. Auxilia em algumas tarefas domésticas, porém não o fazia quando da admissão no serviço. Não aceita o toque ou afago, esquivando-se. Apresenta estereotípias gestuais, risos imotivados e balanceio de mãos ("flapping").

Há um ano da admissão, aproximadamente, ocorreu piora do desempenho, não mais se interessando pela escola e, conseqüentemente, sendo dispensado. Família refere episódios similares anteriores, de menor duração, com piora no desempenho e risos imotivados, prolongados e repetidos. A avaliação clínica e neurológica (à sua admissão, em abril de 1998) não detectou condição clínica que explicasse a piora de desempenho. Sua avaliação ao *Vineland Adaptive Behavior Scale*<sup>16</sup> correspondia a uma idade mental de 4 a 8 meses (Quociente Social de 35). Em junho de 1998, apresentou crises de risos imotivados e agitação psicomotora que duravam até cerca de 40 minutos. Foi aventada a hipótese de transtorno afetivo bipolar em autismo associado à síndrome da rubéola congênita, sendo introduzida litioterapia e reduzida gradualmente a dose do neuroléptico. Em julho de 1998, cinco dias após a redução da dose de periciazina, evoluiu logorreico, insone, com piora da agitação psicomotora e agravamento dos risos imotivados.

Em fins de agosto de 1998, passou-se a observar apatia, choro freqüente, recusa alimentar, insônia terminal,

hipopragmatismo e heteroagressividade, necessitando internação para alimentação por sonda. À admissão na enfermaria, apresentava-se cabisbaixo, apático, indiferente ao que se passava ao seu redor, com latência de resposta e pensamento empobrecido frente à sua habitual produção verbal, além de ecolalia, estereotípias gestuais ("flapping"), balanceio de tronco e humor depressivo, com lentificação psicomotora. Apresentava reconhecimento olfativo e auto-mutilação (com calosidades em mãos, como conseqüência). Após três semanas de internação e restituição da alimentação por via oral, recebeu alta da enfermaria, com litemia de 0,9 mEq/L. Em regime ambulatorial, desenvolveu *diabetes insipidus* secundário ao uso de lítio, sendo este substituído por carbamazepina, que o mantém relativamente estável desde então.

## DISCUSSÃO

Conforme revisão de Lainhart<sup>17</sup> sobre 17 casos de autismo associado à doença afetiva, deve-se considerar a dificuldade no estabelecimento diagnóstico devido ao prejuízo na comunicação oral e através da expressão facial<sup>18</sup>, referente aos próprios estados mentais dos pacientes em questão. No caso por nós descrito, o diagnóstico inicial de autismo poderia ser estabelecido através dos seguintes critérios<sup>5</sup>: prejuízo em comportamentos não verbais (contato visual direto, expressão facial, posturas corporais e gestos que regulam a interação social); fracasso em desenvolver relacionamento com seus pares, expresso pelo isolamento; falta de tentativa espontânea de compartilhar prazer; falta de reciprocidade social ou emocional; prejuízo em iniciar ou manter conversação; linguagem estereotipada e repetitiva; falta de jogos ou brincadeiras de imitação social; preocupação com padrões estereotipados; maneirismos motores; atraso ou funcionamento anormal em pelo menos uma das 3 áreas, com início antes dos 3 anos de idade: interação social; linguagem; jogos imaginativos ou simbólicos. Da mesma forma, o diagnóstico de doença afetiva foi estabelecido em função do último episódio descrito ter sido de caráter depressivo, com um episódio maníaco anterior. Esse episódio depressivo caracterizou-se por humor deprimido a maior parte do dia, apatia, diminuição do apetite (teve que ser submetido a dieta por sonda), insônia e agitação. O episódio maníaco foi caracterizado por período distinto de humor considerado anormal, com características de irritabilidade, diminuição de sono, desinteresse, agitação e logorréia.

Lainhart<sup>17</sup> aponta maior freqüência desses quadros afetivos associados em mulheres com nível intelectual variando entre as sem deficiência mental até as portadoras de deficiência mental profunda. Entretanto, essa associação é mais observada nos pacientes com retardo mental<sup>17,19-22</sup>. A sintomatologia observada e que orientou o diagnóstico desses autores foi também a de agitação, auto-agressividade e destrutividade, com alguns casos apresentando bruscas alterações de humor e aumento na freqüência dos comportamentos repetitivos. A ocorrência das duas patologias simultaneamente poderia ser devida a distúrbios no metabolismo do triptofano, que provocariam os quadros autísticos e também estariam relacionados à doença maníaco-depressiva<sup>22</sup>.

As fases foram primeiramente observadas na infância (como o paciente acima descrito, cujas primeiras alterações surgiram ao redor dos dez anos), embora em 4 casos tenham ocorrido primeiramente na adolescência, com padrão sazonal (fato não observado em nosso paciente, o qual teve uma ciclagem relativamente rápida, passando de quadro de eiação para depressão). Esse padrão, de características mistas, foi raro no levantamento citado<sup>17</sup>, reforçando a necessidade de sua descrição.

Assim, os critérios elicitados para o diagnóstico da doença bipolar em crianças autistas tiveram que considerar a dificuldade da detecção do transtorno de humor propriamente dito, em função do prejuízo cognitivo, linguístico e comportamental. Pelo contrário, os padrões de atividade, comportamentos e interesse prévios à ocorrência da fase devem ser considerados. Podemos observar aumento ou diminuição da atividade, agitação ou agressividade, bem como da ecolalia e dos movimentos estereotipados. Uma vez realizado o diagnóstico, a resposta terapêutica é relativamente boa, respondendo a várias drogas estabilizadoras de humor, embora requeiram muitas vezes a combinação de diferentes drogas, conforme até aqui exposto.

O esquema terapêutico utilizado pela maioria dos autores<sup>17,23</sup> inclui neurolépticos associados a lítio ou carbamazepina, embora sugira-se a utilização de valproato no tratamento de pessoas portadoras de retardo mental e doença bipolar.

## REFERÊNCIAS

1. Kanner L. Autistic disturbances of affective contact. *Nerv Child* 1943; 2:217-250.

2. Kanner L. Early infantile autism, 1943-1955. *J Orthopsychiatry* 1956; 26:55-65.
3. Ritvo ER, Ornitz EM. *Autism: diagnosis, current research and management*. New York: Spectrum, 1976.
4. Ajuriaguerra J. *Manual de psiquiatria infantil*. São Paulo: Masson, 1982.
5. American Psychiatric Association (APA). *Diagnostic and statistical manual of mental disorders*. 4. Ed. (DSM IV). Washington, DC: APA, 1995.
6. World Health Organization (WHO). *Classificação das doenças mentais da CID 10*. Porto Alegre: Artes Médicas, 1993.
7. Baron-Cohen S. Social and pragmatic deficits in autism: cognitive or affective? *J Autism Develop Disord* 1988;18:379-401.
8. Baron-Cohen S. The development of a theory of mind in autism: deviance or delay? *Psychiat Clin N Am* 1991;14:33-52.
9. Misés R. Classification française des troubles mentaux de l'enfant e de l'adolescent. *Neuropsychiat Enf* 1990;38:523-539.
10. Houzel D. Reflexões sobre a definição e a nosografia das psicoses. In Mazet P, Lebovici S (eds). *Autismo e psicose na criança*. Porto Alegre: Artes Médicas, 1991.
11. Burack JA. Debate and argument: clarifying developmental issues in the study of autism. *J Child Psychol Psychiatry* 1992;33:617-621.
12. Lellord G, Sauvage D. *L'autisme de l'enfant*. Paris: Masson, 1991.
13. Lebovici S, Duché DJ. Os conceitos de autismo e psicose na criança. In Mazet P, Lebovici S (eds). *Autismo e psicose na criança*. Porto Alegre: Artes Médicas, 1991:11-19.
14. Gillberg C. Infantile autism: diagnosis and treatment. *Acta Psychiatr Scand* 1990;81:209-215.
15. Tsai LY. Comorbid psychiatric disorders of autistic disorder. *J Autism Dev Dis* 1996;26:159-163.
16. Sparrow SS, Balla DA, Cicchetti DV. *Vineland Adaptive Behavior Scales*. Circle Press, MN: American Guidance Service, 1984.
17. Lainhart JE, Folstein SE. Affective disorders in people with autism: a review of published cases. *J Aut Develop Dis* 1994;24:587-602.
18. Assumpção Jr FB, Kuczynski E, Sprovieri MH, Farinha V. Reconhecimento facial e autismo. *Arq Neuropsiquiatr* 1999;57:944-949.
19. Kerbeshian J, Burd L. Case study: comorbidity among Tourette's syndrome, autistic disorder, and bipolar disorder. *J Am Acad Child Adolesc Psychiatry* 1996;35:681-685.
20. Kerbeshian J, Burd L, Randall T, Martsolf J, Jalal S. Autism, profound mental retardation and atypical bipolar disorder in a 33-year-old female with a deletion of 15q12. *J Ment Defic Res* 1990;34:205-210.
21. De Long GR, Dwyer JT. Correlation of family history with specific autistic subgroups: Asperger's syndrome and bipolar affective disease. *J Autism Dev Disord* 1988;18:593-600.
22. Akuffo E, McSweeney DA, Gajwani AK. Multiple pathology in a mentally handicapped individual. *Br J Psychiatr* 1986;149:377-378.
23. Kerbeshian J, Burd L, Fisher W. Lithium carbonate in the treatment of two patients with infantile autism and atypical bipolar symptomatology. *J Clin Psychopharmacol* 1987;7:401-405.