

Figure 1. Cortical activation during motor tasks in the patient. Only the cortex is represented, and the peak of activation in the coordinates were as follows: **A:** left hand, $x = 38$ mm, $y = -22$ mm, $z = 65$ mm; **B:** left elbow, $x = 42$ mm, $y = -26$ mm, $z = 65$ mm; **C:** right elbow, $x = -33$ mm, $y = -18$ mm, $z = 70$ mm. (R, right hemisphere; L, left hemisphere).

In the case reported here, fMRI was effective in identifying the cortical activations. The comparison between the patient and the healthy volunteer showed that the areas of cortical activation were quite similar, as were the activation peaks. The detectable reactivation of the cortical area in the patient during flexion of the injured elbow corresponded to the arm area in the motor homunculus of the volunteer⁽²⁻⁸⁾. The cortical activations in this case were similar to those reported in previous studies that applied extraplexus nerve transfer techniques, the areas of activation mainly being located in the contralateral cortex⁽²⁻⁸⁾.

This study has some limitations. We presented the patient data only in comparison with those of a single control participant, rather than with a group of control, and both data sets were acquired at only one time point. In addition, the patient did not undergo a pre-operative fMRI scan.

REFERENCES

1. Oberlin C, Béal D, Leechavengvongs S, et al. Nerve transfer to biceps muscle using a part of ulnar nerve for C5-C6 avulsion of the brachial plexus: anatomical study and report of four cases. *J Hand Surg Am.* 1994;19:232-7.
2. Malessy MJ, van der Kamp W, Thomeer RT, et al. Cortical excitability of the biceps muscle after intercostal-to-musculocutaneous nerve transfer. *Neurosurgery.* 1998;42:787-95.
3. Iwase Y, Mashiko T, Ochiai N, et al. Postoperative changes on functional

mapping of the motor cortex in patients with brachial plexus injury: comparative study of magnetoencephalography and functional magnetic resonance imaging. *J Orthop Sci.* 2001;6:397-402.

4. Malessy MJ, Bakker D, Dekker AJ, et al. Functional magnetic resonance imaging and control over the biceps muscle after intercostal-musculocutaneous nerve transfer. *J Neurosurg.* 2003;98:261-8.
5. Beaulieu JY, Blustajn J, Teboul F, et al. Cerebral plasticity in crossed C7 grafts of the brachial plexus: an fMRI study. *Microsurgery.* 2006;26:303-10.
6. Sokki AM, Bhat DI, Devi BI. Cortical reorganization following neurotization: a diffusion tensor imaging and functional magnetic resonance imaging study. *Neurosurgery.* 2012;70:1305-11.
7. Hua XY, Liu B, Qiu YQ, et al. Long-term ongoing cortical remodeling after contralateral C-7 nerve transfer. *J Neurosurg.* 2013;118:725-9.
8. Dimou S, Biggs M, Tonkin M, et al. Motor cortex neuroplasticity following brachial plexus transfer. *Front Hum Neurosci.* 2013;7:500.

Ana Caroline Siquara de Sousa¹, José Fernando Guedes-Corrêa¹

1. Hospital Universitário Gaffrêe e Guinle – Universidade Federal do Estado do Rio de Janeiro (Unirio), Rio de Janeiro, RJ, Brazil. Mailing address: Dr. José Fernando Guedes-Corrêa. Hospital Universitário Gaffrêe e Guinle – Departamento de Neurocirurgia. Rua Mariz e Barros, 775, Tijuca. Rio de Janeiro, RJ, Brazil, 20270-004. E-mail: neuroguedes@yahoo.com.br.

<http://dx.doi.org/10.1590/0100-3984.2015.0082>

Síndrome de Hughes-Stovin: uma causa incomum de aneurismas das artérias pulmonares

Hughes-Stovin syndrome: an unusual cause of pulmonary artery aneurysms

Sr. Editor,

Homem, 43 anos, com queixas de tosse persistente e febre há dois meses, quadros recorrentes de tromboflebite superficial e trombose venosa dos membros inferiores, sem evidência de úlceras orais ou genitais. Exames complementares: hemocultura negativa, ausência de achados para trombofilias e neoplasias, sorologias negativas, discreta anemia normocítica e normocrômica associada a elevação da proteína C reativa e da velocidade de hemossedimentação. Tomografia computadorizada de tórax com contraste mostrou aneurismas em ramos das artérias pulmonares (Figura 1). O diagnóstico final foi síndrome de Hughes-Stovin.

Doenças vasculares no tórax têm sido motivo de recentes publicações na literatura radiológica nacional⁽¹⁻⁶⁾. A síndrome de

Hughes-Stovin é uma condição rara, caracterizada pela associação de múltiplos aneurismas da artéria pulmonar e trombose venosa periférica, afetando preferencialmente homens (80-90%) entre a segunda e quarta décadas de vida⁽⁷⁻¹¹⁾. As lesões frequentemente acometem tanto artérias como veias (68% dos casos), porém, comprometimentos arterial ou venoso isolados são relatados, com frequências de 7% e 25%, respectivamente^(9,11).

A apresentação típica da síndrome de Hughes-Stovin envolve três fases: no primeiro estágio aparecem sinais e sintomas de tromboflebite; um segundo estágio consiste na formação e aumento dos aneurismas de artérias pulmonares; o terceiro estágio é caracterizado pela ruptura aneurismática com hemoptise maciça, progredindo para morte^(7-9,11). A formação dos aneurismas pulmonares tem sido atribuída ao enfraquecimento da parede dos vasos por processo inflamatório. Embolismo séptico e angiodisplasia de artérias brônquicas são outras hipóteses formuladas para explicar tais alterações^(8,9,11). Os aneurismas podem ser únicos ou múltiplos, unilaterais ou bilaterais, e ainda acometer outras localiza-

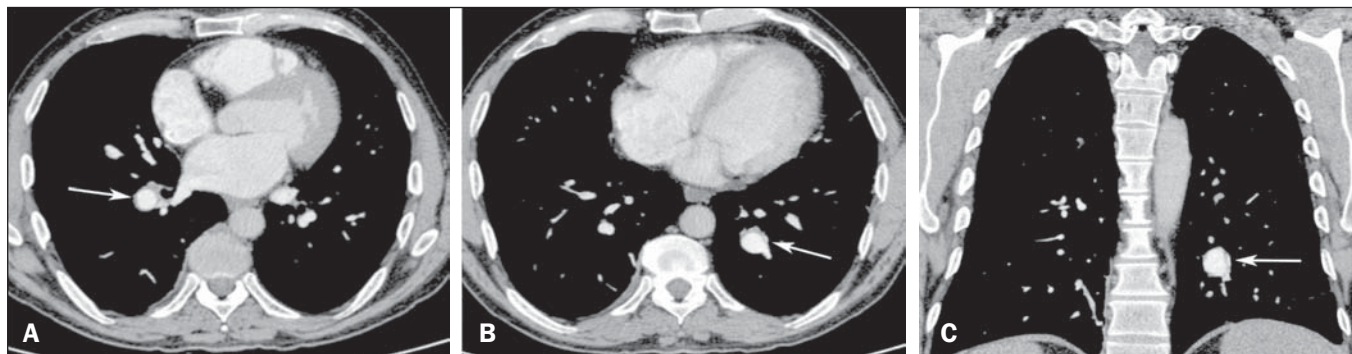


Figura 1. Tomografia computadorizada contrastada do tórax com cortes axiais (A,B) e coronal (C) mostrando aneurismas em ramos das artérias pulmonares (setas).

ções (artérias ilíaca, femoral, poplítea, carótida e hepática), porém com menor risco de ruptura⁽⁹⁻¹¹⁾.

Alguns autores consideram a síndrome de Hughes-Stovin como uma forma incompleta da doença de Behçet, pela semelhança entre os achados clínicos, radiológicos e anatomopatológicos⁽⁷⁻¹¹⁾. Por isso, a doença de Behçet torna-se o principal diagnóstico diferencial, afetando comumente jovens do sexo masculino⁽¹¹⁾. Para diagnóstico de doença de Behçet é necessária a presença de ulcerações orais recorrentes por pelo menos três vezes num período de 12 meses (critério maior e obrigatório), além de pelo menos dois outros critérios menores, não necessariamente de forma simultânea, como ulceração genital recorrente, lesões oculares e/ou cutâneas e teste de patergia positivo⁽¹²⁾, os quais não foram encontrados em nosso paciente. Outras causas de aneurismas da artéria pulmonar são trauma, infecções, hipertensão pulmonar e síndrome de Marfan⁽⁸⁻¹¹⁾.

Não existe tratamento padronizado para síndrome de Hughes-Stovin, optando-se na maioria dos casos por terapia imunossupressora, envolvendo combinação de glicocorticoides e ciclofosfamida, com potencial para estabilizar os aneurismas ou até mesmo promover regressão em alguns casos⁽¹¹⁾. O uso de anticoagulantes é controverso, pelo risco de hemoptise fatal, permitido somente em casos selecionados e desde que administrado conjuntamente com terapia imunossupressora⁽⁷⁻¹¹⁾. Outros tratamentos possíveis são ressecção cirúrgica ou embolização arterial, empregados na maioria dos casos em que ocorreu hemoptise maciça⁽¹¹⁾.

REFERÊNCIAS

1. Batista MN, Barreto MM, Cavaguti RF, et al. Pulmonary artery sarcoma mimicking chronic pulmonary thromboembolism. *Radiol Bras.* 2015;48:333-4.

2. Yamanari MGI, Mansur MCD, Kay FU, et al. Bullet embolism of pulmonary artery: a case report. *Radiol Bras.* 2014;47:128-30.
 3. Pessanha LB, Melo AMF, Braga FS, et al. Acute post-tonsillectomy negative pressure pulmonary edema. *Radiol Bras.* 2015;48:197-8.
 4. Francisco FAF, Rodrigues RS, Barreto MM, et al. Can chest high-resolution computed tomography findings diagnose pulmonary alveolar microlithiasis? *Radiol Bras.* 2015;48:205-10.
 5. Koenigkam Santos M. Diagnosis of pulmonary alveolar microlithiasis [Editorial]. *Radiol Bras.* 2015;48(5):ix-x.
 6. Fernandes GL, Teixeira AA, Antón AGS, et al. Churg-Strauss syndrome: a case report. *Radiol Bras.* 2014;47:259-61.
 7. Cruz VA, Muniz YA, Silva Torres PPT, et al. Síndrome de Hughes-Stovin. *Rev Bras Reumatol.* 2009;49:747-52.
 8. Chung MP, Yi CA, Lee HY, et al. Imaging of pulmonary vasculitis. *Radiology.* 2010;255:322-41.
 9. El Aoud S, Frikha F, Snoussi M, et al. Moderate hemoptysis caused by Hughes-Stovin syndrome. *Clin Pract.* 2014;4:647.
 10. Silva R, Escobar A, Vega R, et al. Síndrome Hughes-Stovin: caso clínico. *Rev Med Chile.* 2013;141:922-6.
 11. Khalid U, Saleem T. Hughes-Stovin syndrome. *Orphanet J Rare Dis.* 2011;6:15.
 12. Belczak SQ, Aun R, Valentim L, et al. Tratamento endovascular de aneurismas da aorta em pacientes com doença de Behçet: relato de dois casos. *J Vasc Bras.* 2010;9:89-94.

Bruno Niemeyer de Freitas Ribeiro¹, Renato Niemeyer Ribeiro¹, Gláucia Zanetti², Edson Marchiori²

1. Instituto Estadual do Cérebro Paulo Niemeyer, Rio de Janeiro, RJ, Brasil. 2. Universidade Federal do Rio de Janeiro (UFRJ), Rio de Janeiro, RJ, Brasil. Endereço para correspondência: Dr. Edson Marchiori. Rua Thomaz Cameron, 438, Valparaíso. Petrópolis, RJ, Brasil, 25685-120. E-mail: edmarchiori@gmail.com.

<http://dx.doi.org/10.1590/0100-3984.2015.0048>

Diagnóstico diferencial de meningocele sacral anterior durante a avaliação de coleções pélvicas pós-histerectomia

Differential diagnosis of anterior sacral meningocele during the evaluation of post-hysterectomy pelvic collections

Sr. Editor,

Mulher de 34 anos de idade, submetida a histerectomia parcial via abdominal, que evoluiu com dor e febre no pós-operatório. A radiografia convencional da pelve mostrou curvatura unilateral do sacro (Figura 1A). A tomografia computadorizada (TC), realizada no segundo dia de pós-operatório, identificou coleção localizada, densa, na cavidade pélvica, com pequenas bolhas de ar de permeio, e uma formação de aspecto cístico de conteúdo líquido hipodenso de localização pré-sacral, comunicando-se com o canal vertebral, deslocando o reto para a direita (Figura 1B). Foi feito o

diagnóstico de meningocele sacral anterior (MSA) e alertada a equipe cirúrgica da sua coexistência com as coleções pélvicas pós-cirúrgicas. Realizou-se nova intervenção para drenagem das coleções, com o cuidado de não seccionar a saculação proveniente da MSA, que era visível e palpável. Foi realizada ressonância magnética (RM) para controle pós-drenagem cirúrgica e melhor caracterização da malformação (Figura 1C).

Várias condições relacionadas a anomalias do desenvolvimento do sistema nervoso central têm sido observadas e relatadas no Brasil⁽¹⁻³⁾. A MSA é uma forma rara de disrafismo espinhal, caracterizada pela herniação do saco meningeal para o espaço pré-sacral^(4,5). Representa cerca de 5% das massas retrorretais, sendo mais prevalentes em mulheres⁽⁶⁾.

Essa lesão pode ocorrer de forma isolada ou associada a outras anormalidades congênicas, como anomalias urogenitais,