

CISTICERCOSE INTRADURAL-EXTRAMEDULAR CEREBRAL E ESPINHAL: RELATO DE CASO E REVISÃO DA LITERATURA*

Luiz Antonio Rossi¹, Adalberto Sestari², Modesto Cerioni Jr.³

Resumo Relato de um caso raro de apresentação de infestação por cisticercose do espaço subaracnóide cerebral e intra-raquiano nas regiões cervical e torácica em mulher de 59 anos de idade, com náuseas, sinais de ataxia cerebelar e perda gradual da sensibilidade nas pernas. O diagnóstico foi feito por meio de imagens por ressonância magnética do cérebro e da coluna cervico-torácica, que evidenciaram a presença de cistos nos espaços subaracnóides. O exame do líquido cefalorraquiano revelou teste imunológico ELISA positivo e elevado nível de proteína (420 mg/dl), indicativo de atividade da doença. Os parasitos foram removidos cirurgicamente pela necessidade de descompressão da medula espinhal torácica. Breve comentário sobre a patogênese da forma cística da cisticercose espinhal intradural-extramedular, aspectos das imagens de ressonância magnética e tratamento foram feitos com base nos achados de revisão da literatura.

Unitermos: Cisticercose; Cérebro; Coluna; Ressonância magnética.

Abstract *Intradural-extramedullary spinal cysticercosis with brain involvement: a case report and literature review. Report on a rare case of infestation by cysticercosis involving the cerebral subarachnoid space and the epidural space in the cervical and thoracic regions of a 59-year old female patient who presented nausea, signs of cerebellar ataxia and gradual loss of the sensibility in both legs. The diagnosis was based on magnetic resonance imaging of brain and cervical-thoracic spine demonstrating the presence of cysts in the subarachnoid spaces. An enzyme-linked immunosorbent assay (ELISA) performed on cerebrospinal fluid resulted positive and demonstrated a protein level of 420 mg/dl indicating the disease activity. Parasites were surgically removed for the necessity of thoracic spinal cord decompression. Based on findings of literature review, brief comments were made on the pathogenesis of the intradural-extramedullary spinal cysticercosis cystic form, magnetic resonance imaging findings and treatment.*

Keywords: Cysticercosis; Brain; Spine; Magnetic resonance imaging.

INTRODUÇÃO

Cisticercose humana é a doença parasitária causada pelo estágio larval da *Taenia solium* (cisticercos) que mais comumente afeta o sistema nervoso central, especialmente em países em que a infra-estrutura sanitária é deficiente, particularmente na América Latina, África e Ásia e ainda com relativa frequência em Portugal, Espanha e países do leste europeu, e endêmica nos países desenvolvidos com alta taxa de imigração de áreas endêmicas⁽¹⁻³⁾.

O verme adulto se desenvolve em humanos após a ingestão de carne de porco

infectada, mal cozida, contendo a larva encistada. A cisticercose humana é adquirida pela via oral-fecal após contato com membro da família ou da comunidade com o verme adulto, assim como por auto-infestação em paciente com verme adulto intestinal. Uma vez ingerido o ovo e rompida a “casca”, a larva se desenvolve e procura alojamento em tecidos moles, primariamente no cérebro, na medula espinhal, nos músculos cardíaco/extra-ocular/esquelético, no globo ocular, no tecido gorduroso e na pele⁽¹⁻³⁾.

A cisticercose cerebral e espinhal medular intraparenquimatosa é causada por cistos e/ou nódulos inflamatórios granulomatosos, enquanto a cisticercose localizada nas regiões fora do parênquima, como no interior dos espaços liquorícos periencefálicos (incluindo o sub-aracnóide da região dos sulcos corticais e cisternas encefálicas), ventrículos cerebrais e espaço intradural-extramedular da coluna vertebral, é tipicamente cística.

Este é um relato de caso dos aspectos clínico-radiológico-patológicos da cisticer-

cose intradural-extramedular cerebral e espinhal na forma cística, com breve revisão da literatura.

RELATO DO CASO

Mulher de 59 anos de idade, branca, foi admitida para avaliação com quadro de náuseas, ataxia cerebelar, perda gradual da sensibilidade nas pernas, distúrbios do ato miccional e de evacuação. Ao exame físico geral e neurológico foram caracterizados reflexos diminuídos nas extremidades baixas e hiperestesia no dermatomo T6.

A ressonância magnética (RM) revelou lesões císticas nos espaços sub-aracnóides do cérebro, coluna espinhal cervical e torácica com sinais de compressão na medula espinhal torácica (Figuras 1 e 2).

Os exames laboratoriais do líquido cefalorraquiano (LCR) coletado por punção lombar revelaram taxa elevada de proteína (420 mg/dl) e a pesquisa de anticorpo para cisticercos, teste ELISA, foi positivo.

Devido ao efeito compressivo dos cistos sobre a medula espinhal torácica, foi

* Trabalho realizado no Hospital do Servidor Público Estadual “Francisco Morato de Oliveira”, São Paulo, SP.

1. Professor Assistente da Disciplina Princípios de Radiologia do Centro de Ciências Médicas e Biológicas da Pontifícia Universidade Católica de São Paulo.

2. Professor Assistente da Universidade da Cidade de São Paulo, Neurorradiologista do Hospital do Servidor Público Estadual “Francisco Morato de Oliveira”.

3. Neurocirurgião do Hospital do Servidor Público Estadual “Francisco Morato de Oliveira”.

Endereço para correspondência: Prof. Dr. Luiz Antonio Rossi. Rua Cornélio Pires, 284, Condomínio Campos de Santo Antonio. Itu, SP, 13.305-500. E-mail: luizrossimd@uol.com.br

Recebido para publicação em 24/6/2004. Aceito, após revisão, em 15/12/2004.

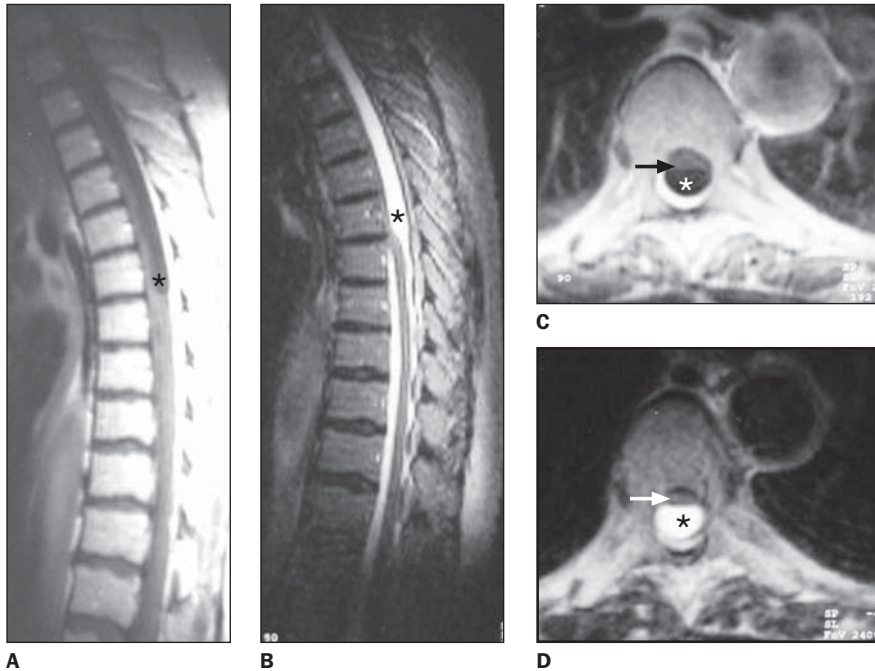


Figura 1. Imagens de RM da coluna dorsal. **A:** Plano sagital, seqüência ponderada em T1 mostra os cistos aglomerados (asterisco), correspondendo à área com hipossinal. **B:** Plano sagital, seqüência ponderada em T2 mostra os cistos aglomerados (asterisco), com hipersinal, comprimindo a medula espinal dorsal. **C:** Plano axial, seqüência ponderada em T1 mostra cistos aglomerados (asterisco), com hipossinal, comprimindo a medula espinal dorsal (seta). **D:** Plano axial, seqüência ponderada em T2 mostra os cistos aglomerados (asterisco), com hipersinal, comprimindo a medula espinal dorsal (seta).

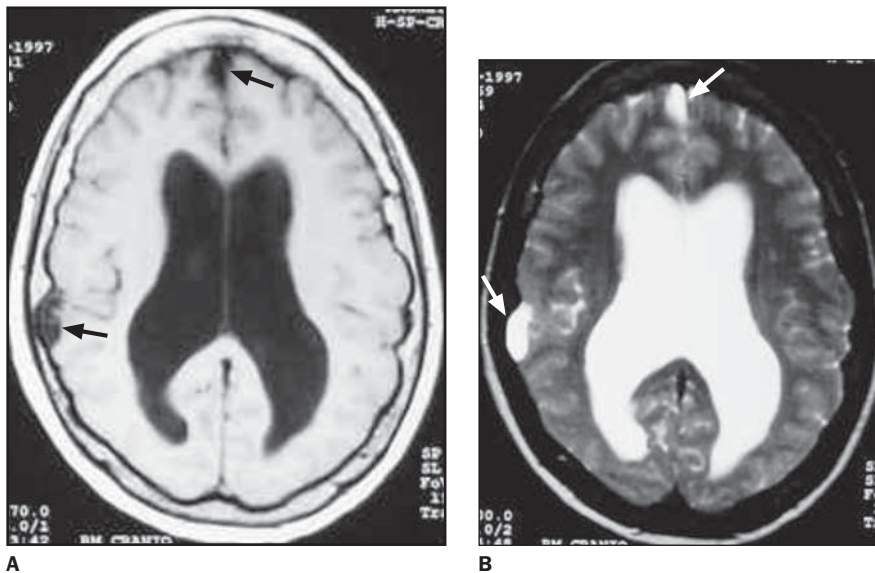


Figura 2. Imagens de RM do cérebro nos planos axiais. **A:** Seqüência ponderada em T1 mostra os cistos (setas) no espaço sub-aracnóideo das regiões parietal e frontal direita, com hipossinal. **B:** Seqüência ponderada em T2, no mesmo nível, mostra os cistos (setas) com hipersinal.

indicado tratamento cirúrgico, o qual evidenciou várias lesões císticas nos espaços sub-aracnóideos logo após a incisão na dura-máter, sendo estas removidas uma a uma (Figura 3).

DISCUSSÃO

O primeiro caso de vesículas no corpo caloso foi descrito por Paranoli em 1550. Parcelso correlacionou a coexistência de

vesículas cerebrais e crises convulsivas em 1650, enquanto Ridi e Malpighi caracterizaram essas lesões de natureza parasitária em 1686. A primeira referência de cisticercose intra-raquiana é atribuída a Rokitsky em 1856⁽⁴⁾.

A forma intra-raquiana da neurocisticercose é bastante rara, sendo a apresentação intradural-extramedular a mais freqüente e a intramedular, menos freqüente. Entre 205 enfermos internados no Serviço de Neurologia do Hospital Vera Cruz de Campinas, SP, no período de 1961 a 1987, somente 18 (9,0%) tiveram diagnóstico definitivo de neurocisticercose, e apenas três (1,4%) apresentaram infestação espinal intradural-extramedular pela cisticercose⁽⁵⁾.

Na literatura há um excelente trabalho de revisão que analisou 95 casos publicados de cisticercose espinal, desde 1865, dos quais 61 (66,0%) tinham localização intradural-extramedular e 33 (34,0%), localização intramedular⁽⁴⁾. Muitos trabalhos dessa revisão e outros mais recentes^(1,3,6) mostraram, como no presente caso, o envolvimento simultâneo dos espaços líquidos intradural-extramedular espinal em diferentes segmentos e cerebral (Quadro 1).

A forma de disseminação da larva do cisticerco para o espaço intradural-extramedular espinal tem sido explicada pelo grande armazenamento de sangue oriundo dos plexos venosos intra-raquianos epidurais sem válvulas, com veias de paredes finas, o que pode conduzir o sangue em qualquer direção, variando com as alterações de pressões intra-abdominal e intratorácica. Dois casos de disseminação primária da larva do cisticerco para o espaço intradural-extramedular espinal sem envolvimento cerebral confirmado cirurgicamente corrobora a hipótese do fluxo retrógrado dessas larvas através das veias dos plexos venosos epidurais acima descrito, diferentemente do que postula de La Riva, a migração dos parasitas do espaço subaracnóideo cerebral para o espinal no sentido descendente⁽⁷⁾.

O termo cisticercose racemosa (*cysticercus racemosus*) tem sido utilizado por vários autores e é dado a desenvolvimento de grandes vesículas translúcidas, com grandes caudas, multilobulada ou ramificada, sem escólex, no interior dos espaços subaracnóideos^(1,3,5,6,8).

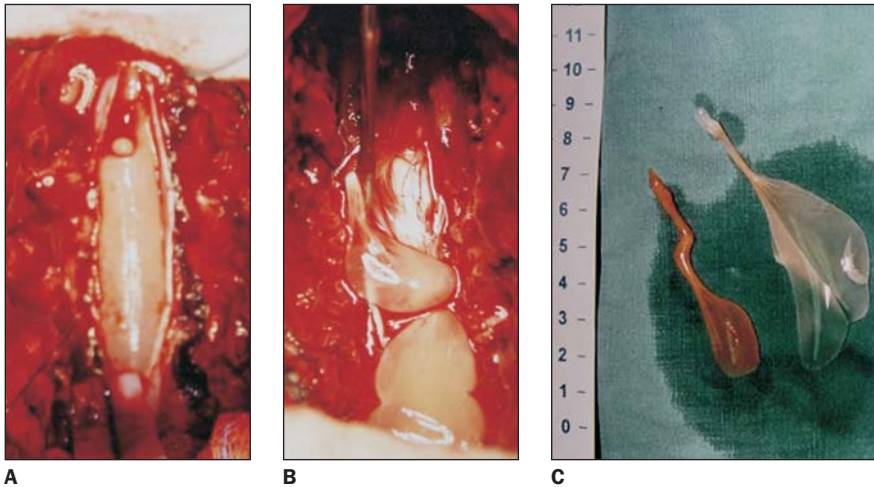


Figura 3. A: Aspecto cirúrgico após a incisão na dura-máter da região dorsal expondo os cistos cisticercóticos que se encontram aglomerados. **B:** Seqüência da cirurgia mostrando remoção individual dos cistos. **C:** Aspecto macroscópico de dois cistos removidos.

A cisticercose intra-raquiiana intradural-extramedular pode ser assintomática ou apresentar poucos sintomas por períodos prolongados. Os sintomas podem variar, dependendo do segmento da coluna vertebral (cervical, dorsal, lombar ou sacral) em que os cistos se alojam^(1-3,6). Quando o cisto está localizado no segmento cérvico-torácico da coluna, os sintomas são mais evidentes e geralmente ocasionam síndrome da compressão medular, como visto neste caso: perda gradual da sensibilidade nas pernas, hiperestesia no dermatomo correspondente e alterações fisiológicas de micção e evacuação. Já no segmento lombosacro comumente o quadro clínico se apresenta como radiculopatia localizada, podendo ser confundida com discopatia^(1-3,6).

Quadro 1. Cisticercose espinhal intradural-extramedular: casos publicados.

Autor	Ano	País	Idade	Sexo	Cérebro*	Diagnóstico	Localização
Westphal	1865	?	?	?	?	?	Cauda equina
Richter	1891	?	?	?	+	Necropsia	C4/T10
Minor	1899	?	?	?	+	Necropsia	Torácica
Hartman	1902	Alemanha	?	?	?	Punção lombar	?
Wollenberg	1905	?	?	?	+	Necropsia	Cervical/lombar
		?	?	?	+	Necropsia	Tóraco-lombar
Sterz	1910	Alemanha	?	?	?	Punção lombar	?
Vasilii	1921	Itália	?	?	?	?	?
Redalie	1921	França	?	?	?	?	Cervico-torácica
Castex	1926	Argentina	25 anos	F	+	Punção lombar	?
Verga	1926	Itália	?	?	+	Necropsia	?
Morawieka	1927	?	?	?	+	Punção lombar	Cauda equina
Bertrand	1945	França	?	?	?	?	Lombar
Loyo	1955	México	?	?	?	?	Cauda equina
Pennybaker	1956	?	?	?	+	Cirurgia	Cervical
Fracassi	1956	Argentina	49 anos	M	+	Punção lombar	?
De la Riva	1957	Espanha	?	?	+	Necropsia	Lombar
		?	?	?	+	Punção lombar	Lombar
Rocca	1959	Peru	(15 casos)			?	Cervical (13), torácica (1), lombar (1)
Cabieses	1959	Peru	12 anos	M	-	Cirurgia	T3
Cruz	1961	Brasil	42 anos	M	-	Cirurgia	T11/L2 e L2 L3
Calzado	1960	México	?	?	?	?	Torácica
			26 anos	M	-	Cirurgia	T6/T9
Canelas	1963	Brasil	32 anos	F	+	Cirurgia	T11/L2
			42 anos	M	+	Cirurgia	T12/L2
			27 anos	M	+	Cirurgia	T5/T9
Staimle	1964	México	57 anos	M	-	Cirurgia	Cauda equina
Absalon	1965	México	45 anos	M	-	Cirurgia	T8/T9
			35 anos	M	-	Cirurgia	C5/C7
			63 anos	M	-	Cirurgia	C2/C4
			40 anos	M	+	Cirurgia	L1/L2
Alanis	1967	México	57 anos	F	?	?	L4/L5
Trelles	1968	Peru	56 anos	M	+	Necropsia	C4
			46 anos	M	+	Necropsia	C4
			58 anos	F	+	Necropsia	Cauda equina
Castano	1969	Colômbia	34 anos	F	-	Cirurgia	Cauda equina
Parker	1988	França	35 anos	M	+	Cirurgia	L5/S2
			46 anos	F	-	Cirurgia	L5/S1
Bandres	1992	EUA	34 anos	M	-	Punção lombar	C2/S1
Leite	1997	Brasil, EUA, Colômbia	(9 casos)			Punção lombar, cirurgia	Cérvico-torácica (4), cérvico-tóraco-lombar (4), cervical (2), tóraco-lombar (1), lombar (1)
Çiftçi	1999	EUA	30 anos	F	+	Punção lombar	C2/C4

* Coexistência de cistos nos espaços líquóricos cerebrais e espinhais.

A mielotomografia computadorizada foi, antes do advento da RM, o método de imagem utilizado para a investigação de lesões que produziam sintomas de compressão medular e/ou radicular, apesar de seu caráter invasivo. Este procedimento mostrava lesões hipodensas arredondadas intra-raquianas margeadas pelo contraste iodado introduzido por via intratecal^(2,5,6).

Atualmente, o método de imagem de escolha para o diagnóstico da cisticercose intradural extramedular é a RM, a qual demonstra com precisão as lesões císticas nos espaços liquóricos sub-aracnóides das regiões periencefálicas ou espinhais e, principalmente, porque se constitui em procedimento não invasivo^(1,3,8,9).

As imagens de RM mostram a localização exata e os contornos desses cistos, os quais se apresentam com intensidade de sinal semelhante ao LCR, hipossinal na seqüência ponderada em T1 e hipersinal na seqüência ponderada em T2^(1,3,8,9), idênticas às evidenciadas nos exames do paciente deste relato.

Entretanto, essas características podem ser diferentes quando os cistos sofrem alterações inflamatórias, tornando as imagens hiperintensas quer na seqüência ponderada em T1, quer na seqüência ponderada em T2, devido ao conteúdo protéico elevado⁽³⁾. Após a infusão endovenosa do meio de contraste paramagnético, o cisto e a meninge ao redor da medula adjacente podem sofrer realce (aracnoidite)^(1-3,8), o que não ocorreu neste relato de caso.

Um espectro de diagnóstico diferencial deve ser considerado quando se detectam lesões de características císticas intra-ra-

quianas em imagens por RM: lesões congênitas (cistos aracnóides simples ou complexos, cistos dermóides), cistos de outra etiologia parasitária (cisto hidático), tuberculose, sarcoidose ou neoplasia metastática subaracnóidea^(1,3).

O teste sorológico ELISA positivo e taxas elevadas de proteínas no LCR podem auxiliar no diagnóstico, indicar a atividade da doença e servir como seguimento e controle do tratamento medicamentoso⁽⁶⁾. No caso ora relatado, os exames laboratoriais do LCR revelam-se com nível de proteína elevado (420 mg/dl) e teste sorológico ELISA positivo.

O tratamento geralmente é conservador, apresentando bons resultados com a administração de drogas cisticidas como o praziquantel ou o albendazol por via oral, revelando melhor eficácia de tratamento com este último^(8,9). Nos casos em que se detectam sinais de compressão medular e/ou radicular, a indicação de cirurgia se torna necessária, como ocorreu no paciente deste relato. O aspecto interessante da cirurgia descompressiva deste caso foi a documentação fotográfica da remoção cirúrgica cuidada e individual dos cistos, o que possibilitou a correlação radiológico-cirúrgico-patológica.

A cisticercose é um grave problema de saúde pública mundial, incluindo os países desenvolvidos, devido à alta taxa de imigração de áreas endêmicas. A gravidade da doença é determinada quando os cisticercos na forma cística envolvem os espaços sub-aracnóides, produzindo sintomas medulares quando no segmento cervicotorácico e radiculares quando no segmento

lombo-sacro, necessitando de cirurgia devido ao freqüente insucesso no tratamento clínico conservador. O diagnóstico pode ser concluído pela combinação dos achados: história epidemiológica, sinais clínicos e sintomas clássicos, exames de imagem por RM, exames laboratoriais e testes sorológicos do LCR.

REFERÊNCIAS

1. Leite CC, Jinkins JR, Escobar BE, *et al.* MR imaging of intramedullary and intradural-extramedullary spinal cysticercosis. *AJR Am J Roentgenol* 1997;169:1713-1717.
2. Bandres JC, White AC Jr, Samo T, Murphy EC, Harris RL. Extraparenchymal neurocysticercosis: report of five cases and review of management. *Clin Infect Dis* 1992;15:799-811.
3. Çiftçi E, Diaz-Marchan PJ, Hayman LA. Intradural-extramedullary spinal cysticercosis: MR imaging findings. *Comput Med Imaging Graph* 1999;23:161-164.
4. Gallani NR, Zambelli HJ, Roth-Vargas AA, Limoli Junior C. Spinal cord cysticercosis: report of 2 cases, review of the literature, and comments on its pathogeny. *Arq Neuropsiquiatr* 1992;50:343-350.
5. Rossitti SL, Roth-Vargas AA, Moreira AR, Sperlescu A, Araújo JF, Balbo RJ. Pure spinal leptomeningeal cysticercosis. *Arq Neuropsiquiatr* 1990;48:366-370.
6. Parker F, Hladky JP, Breton JO, Mignard C, Laporte JP, Bousquet C. Cysticercose racemeuse de la queue de cheval et arachnoidite kystique. *Neurochirurgie* 1988;34:280-285.
7. Sperlescu A, Balbo RJ, Rossitti SL. Brief comments on the pathogenesis of spinal cysticercosis. *Arq Neuropsiquiatr* 1989;47:105-109.
8. Martinez HR, Rangel-Guerra R, Arredondo-Estrada JH, Marfil A, Onofre J. Medical and surgical treatment in neurocysticercosis: a magnetic resonance study of 161 cases. *J Neurol Sci* 1995;130:25-34.
9. Corral I, Quereda C, Moreno A, *et al.* Intramedullary cysticercosis cured with drug treatment. A case report. *Spine* 1996;21:2284-2287.