



REVISTA BRASILEIRA DE REUMATOLOGIA

www.reumatologia.com.br



Relato de caso

Piomiosite no lúpus eritematoso sistêmico juvenil



Gabriela Blay^a, Mariana P.L. Ferriani^b, Izabel M. Buscatti^a, Camila M.P. França^a,
Lucia M.A. Campos^a e Clovis A. Silva^{a,c,*}

^a Unidade de Reumatologia Pediátrica, Departamento de Pediatria, Faculdade de Medicina da Universidade São Paulo, São Paulo, SP, Brasil

^b Unidade de Alergia e Imunologia Pediátrica, Departamento de Pediatria, Faculdade de Medicina da Universidade São Paulo, São Paulo, SP, Brasil

^c Divisão de Reumatologia, Faculdade de Medicina da Universidade São Paulo, São Paulo, SP, Brasil

INFORMAÇÕES SOBRE O ARTIGO

Histórico do artigo:

Recebido em 16 de dezembro de 2013

Aceito em 7 de abril de 2014

On-line em 15 de agosto de 2014

Palavras-chave:

Piomiosite

Lúpus eritematoso sistêmico juvenil

Infecção

R E S U M O

A piomiosite é uma infecção piogênica da musculatura esquelética, decorrente da disseminação hematogênica e geralmente acompanhada de formação de abscesso localizado. Esta infecção da musculatura é raramente descrita em adultos com lúpus eritematoso sistêmico (LES) e, até onde se sabe, ainda não o foi em pacientes com LES juvenil (LESJ). De nossos 289 pacientes com LESJ, uma apresentou piomiosite. Diagnosticada com LESJ aos 10 anos de idade e após seis anos de tratamento com prednisona, azatioprina e hidroxicroquina, a paciente foi hospitalizada em razão de um histórico de 30 dias de dor insidiosa na coxa esquerda, sem relato algum de trauma aparente ou febre. O exame físico mostrou músculos sensíveis e com endurecimento lenhoso. Os exames laboratoriais revelaram anemia, aumento de reagentes de fase aguda e enzimas musculares normais. A tomografia computadorizada da coxa esquerda mostrou coleção no terço médio do vasto intermédio, sugerindo estágio purulento de piomiosite. Iniciou-se tratamento com antibiótico de largo espectro, que levou à resolução clínica completa. Em suma, descreveu-se o primeiro caso de piomiosite em pacientes com LESJ encontrado neste serviço. Este relato reforça que a presença de dor muscular localizada em pacientes imunocomprometidos, ainda que sem aumento de enzimas musculares, deve sugerir o diagnóstico de piomiosite. Recomenda-se tratamento imediato com antibióticos.

© 2013 Elsevier Editora Ltda. Todos os direitos reservados.

Pyomyositis in childhood-systemic lupus erythematosus

A B S T R A C T

Pyomyositis is a pyogenic infection of skeletal muscle that arises from hematogenous spread and usually presents with localized abscess. This muscle infection has been rarely reported in adult-onset systemic lupus erythematosus (SLE) and, to our knowledge, has not been diagnosed in pediatric lupus population. Among our childhood-onset SLE (C-SLE) population, including 289 patients, one presented pyomyositis. This patient was diagnosed

Keywords:

Pyomyositis

Childhood-systemic lupus

erythematosus

Infection

* Autor para correspondência.

E-mail: clovisaasilva@gmail.com (C.A. Silva).

<http://dx.doi.org/10.1016/j.rbr.2014.04.005>

0482-5004/© 2013 Elsevier Editora Ltda. Todos os direitos reservados.

with C-SLE at the age of 10 years-old. After six years, while being treated with prednisone, azathioprine and hydroxychloroquine, she was hospitalized due to a 30-day history of insidious pain in the left thigh and no apparent trauma or fever were reported. Her physical examination showed muscle tenderness and woody induration. Laboratory tests revealed anemia, increased acute phase reactants and normal muscle enzymes. Computer tomography of the left thigh showed collection on the middle third of the *vastus intermedius*, suggesting purulent stage of pyomyositis. Treatment with broad-spectrum antibiotic was initiated, leading to a complete clinical resolution. In conclusion, we described the first case of pyomyositis during childhood in pediatric lupus population. This report reinforces that the presence of localized muscle pain in immunocompromised patients, even without elevation of muscle enzymes, should raise the suspicion of pyomyositis. A prompt antibiotic therapy is strongly recommended.

© 2013 Elsevier Editora Ltda. All rights reserved.

Introdução

A piomiosite é uma infecção piogênica da musculatura esquelética, decorrente da disseminação hematogênica e geralmente acompanhada de formação de abscesso localizado.¹ Esta miopatia infecciosa está associada a condições que levam à imunossupressão, especialmente a infecção pelo vírus da imunodeficiência humana (HIV), o diabetes mellitus, a malignidade, os fármacos imunossupressores e as doenças reumáticas.¹⁻⁷

As infecções são uma das principais causas de morbidade e mortalidade em pacientes com lúpus eritematoso sistêmico (LES) e lúpus eritematoso sistêmico juvenil (LESJ),^{8,9} podendo envolver a musculatura esquelética. A piomiosite é raramente relatada em adultos com LES,³⁻⁷ e, até onde se sabe, ainda não foi diagnosticada em pacientes com LESJ.

Revisaram-se dados coletados de janeiro de 1983 a julho de 2013. Dos 5.593 pacientes atendidos na Unidade de Reumatologia Pediátrica do Instituto da Criança da Faculdade de Medicina da Universidade de São Paulo, foram identificados 289 (5,1%) pacientes com LESJ que preencheram os critérios diagnósticos do American College of Rheumatology (ACR).¹⁰ Uma paciente (0,34%), descrita neste estudo, apresentou episódio de piomiosite após o diagnóstico de LESJ.

Relato de caso

A paciente de 10 anos, do sexo feminino, foi diagnosticada com LESJ com base no quadro clínico de rash cutâneo discoide, pericardite, psicose, linfopenia, trombocitopenia, proteinúria, anticorpos antinucleares (FAN) 1/1280 (padrão nuclear homogêneo) e presença de anti-DNA de dupla hélice (anti-dsDNA), preenchendo os critérios de diagnóstico do ACR para LES.¹¹ Naquele momento, o escore SLE Disease Activity Index 2000 (SLEDAI-2K) era de 28, com base nos seguintes achados: psicose, proteinúria, cilindros celulares, alopecia, pleurite, pericardite, baixos níveis de C3 e C4, presença de anti-dsDNA, febre e trombocitopenia. A paciente foi tratada com prednisona (2,0 mg/kg/dia), progressivamente reduzida para 2,5 mg/dia, hidroxicloroquina 5,0 mg/kg/dia) e azatioprina (2,0 mg/kg/dia). Aos 16 anos de

idade, a paciente foi hospitalizada neste serviço com um histórico de 30 dias de dor insidiosa na região medial da coxa esquerda, sem queixa de câibras, trauma aparente nem febre. O exame físico mostrou músculos sensíveis e com endurecimento lenhoso. A paciente não apresentava eritema cutâneo nem calor local. Naquele momento, estava sendo utilizado tratamento com prednisona (0,95 mg/kg/dia), azatioprina (2,25 mg/kg/dia) e hidroxicloroquina (5,0 mg/kg/dia) em razão da alopecia severa, rash cutâneo discoide, fotossensibilidade e úlceras orais. Os exames laboratoriais revelaram hemoglobina 9,3 mg/L, hematócrito 29%, leucócito 8.700 mm³ (neutrófilos 71%, linfócitos 20% e monócitos 8%), plaquetas 202.000 mm³, proteína c-reativa (PCR) 46,9 mg/L (valor de referência < 5 mg/L), velocidade de hemossedimentação (VHS) de 54 mm/1 h (faixa normal 0-20 mm/h), proteinúria 0,12 g/24 h, ureia 41 mg/dL (faixa normal 15-45 mg/dL) e creatinina 0,36 mg/dL (faixa normal 0,6-0,9 mg/dL), C3 75 mg/dL (faixa normal 90-180 mg/dL) e C4 9,9 mg/dL (faixa normal 10-40 mg/dL). Os exames de enzimas musculares realizados evidenciaram: aspartato aminotransferase 31 U/L (faixa normal 10-34 U/L), alanina aminotransferase 34 U/L (faixa normal 10-44 U/L), creatina quinase 64 U/L (faixa normal 24-204 U/L). O anti-dsDNA foi positivo e o SLEDAI-2K foi 4. A tomografia computadorizada da coxa esquerda evidenciou coleção no terço médio do vasto intermédio medindo cerca de 5,0 × 3,0 × 2,0 cm, sugerindo estágio purulento de piomiosite. A paciente foi submetida a punção guiada por ultrassom; porém, não foi obtido líquido. A hemocultura não identificou qualquer organismo. Foi administrado tratamento com antibióticos intravenosos, como cefepima (150 mg/kg/dia) e clindamicina (40 mg/kg/dia) por um período de sete dias. A paciente foi posteriormente liberada com clindamicina por via oral (40 mg/kg/dia) por mais sete dias, resultando em resolução completa do quadro clínico.

Discussão

Nos últimos 30 anos, não houve relato de piomiosite nos pacientes com LESJ acompanhados neste Hospital Universitário terciário. A presença de dores musculares localizadas com endurecimento em um paciente com imunossupressão sugere este diagnóstico.

Esta miopatia infecciosa foi descrita pela primeira vez em 1885 por Scribba,¹² e é uma infecção piogênica rara do tecido muscular. Na infância, as regiões mais afetadas são as coxas e quadris.^{2,13} Esta miopatia geralmente é causada pelo *Staphylococcus aureus*, *Streptococcus sp* e *Escherichia coli*.^{2,7} No entanto, em mais de dois terços dos casos, o agente etiológico não é identificado em hemoculturas,¹⁴ como ocorreu com a paciente estudada.

A piomiosite apresenta três estágios clínicos: invasivo (sintomas insidiosos e inespecíficos); purulento (formação de abscessos profundos e sinais inflamatórios); e avançado (febre alta, dor intensa, oscilação muscular e, ocasionalmente, choque séptico).^{2,7} Até 90% dos pacientes são diagnosticados no estágio purulento,¹⁵ semelhantemente ao que ocorreu neste estudo.

A manifestação clínica e os exames laboratoriais são inespecíficos na piomiosite. Os leucócitos podem estar elevados em 50 a 60% dos casos; os reagentes de fase aguda geralmente estão elevados¹⁵, enquanto as enzimas musculares normalmente têm apresentação normal,² conforme observado neste caso. Logo, exames de imagem iniciais são cruciais para o diagnóstico de piomiosite. Pode-se utilizar radiografias para descartar lesões ósseas. A ultrassonografia é uma ferramenta acessível, rápida e de baixo custo, mas não sensível o bastante, principalmente no início da infecção.¹⁴ É importante ressaltar que a tomografia computadorizada e a ressonância magnética confirmam o diagnóstico, podendo ainda revelar aumento muscular, extensão do abscesso, derrames articulares e coleções líquidas.¹⁵

Esta doença pode também ocorrer em pacientes saudáveis após um trauma mecânico local,^{13,15} podendo estar associada à parasitose e à desnutrição, também conhecida como piomiosite tropical. A manifestação atípica e inespecífica da piomiosite pode atrasar o diagnóstico e o tratamento em doenças imunossupressoras e/ou crônicas, como a infecção pelo HIV, a infecção pelo HTLV,⁷ a leucemia,¹³⁻¹⁵ o diabetes,¹³⁻¹⁵ a esclerodermia¹³ e a dermatomiosite.¹⁵ Até onde se sabe, foram descritos apenas cinco casos de piomiosite em pacientes adultos com LES³⁻⁷ e apenas um de LESJ com manifestação de quadro de piomiosite aos 32 anos de idade.⁴ Portanto, este estudo apresenta o primeiro caso de piomiosite em pacientes com LESJ.

O diagnóstico diferencial de piomiosite afetando a coxa inclui hematoma, osteomielite, artrite séptica, trombose venosa profunda, celulite e tumores malignos.^{2,15}

O tratamento depende do estágio da doença. Quando em estágio purulento ou mais avançado, antibióticos de amplo espectro por via intravenosa são o tratamento de primeira linha. Além disso, pode ser necessária a drenagem percutânea ou a incisão cirúrgica em pacientes refratários a antibióticos.² Nossa paciente apresentou recuperação completa após tratamento conservador.

Em suma, descrevemos o primeiro caso de piomiosite em pacientes com LESJ. Este relato reforça que a presença de dor muscular localizada em pacientes imunocomprometidos, ainda que sem aumento de enzimas musculares, deve sugerir o diagnóstico de piomiosite. Recomenda-se tratamento imediato com antibióticos.

Financiamento

Este estudo foi financiado pela Fundação de Amparo à Pesquisa do Estado de São Paulo (FAPESP – bolsas 2008/58238-4 para CAS e 2011/12471-2 para CAS), pelo Conselho Nacional do Desenvolvimento Científico e Tecnológico (CNPQ – bolsa 302724/2011-7 para CAS), pela Federico Foundation para CAS e pelo Núcleo de Apoio à Pesquisa “Saúde da Criança e do Adolescente” da USP (NAP-CriAd).

Conflitos de interesse

Os autores declaram não haver conflitos de interesse.

REFERÊNCIAS

- Lopez FA, Lartchenko S. Skin and soft tissue infections. *Infect Dis Clin North Am*. 2006;20:759-72.
- Mitsionis GI, Manoudis GN, Lykissas MG, Sionti I, Moutsis E, Georgoulis AD, et al. Pyomyositis in children: early diagnosis and treatment. *J Pediatr Surg*. 2009;44:2173-8.
- Dede H, Ozdocan H, Dumankar A, Aktuglu Y, Tabak F, Yazic H. Tropical pyomyositis in a temperate climate. *Br J Rheumatol*. 1993;32:435-6.
- Claudepierre P, Saint-Marcoux B, Allain J, Montazel JL, Larget-Piet B, Chevalier X. Clinical images: value of magnetic resonance imaging in extensive pyomyositis. *Arthritis Rheum*. 1996;39:1760.
- Ravindran V, Duke O. Non-tropical pyomyositis in a patient with systemic lupus erythematosus. *Lupus*. 2009;18:379-80.
- El Baaj M, Tabache F, Modden K, Hassikou H, Safi S, Khalid R, et al. Pyomyositis: an infectious complication in systemic lupus erythematosus. *Rev Med Interne*. 2010;31:e4-6.
- Souza HC, Carvalho BN, Morais MG, Monteiro GZ, Emori FT, Latorre LC. Tropical pyomyositis in a patient with systemic lupus erythematosus and HTLV 1/2 infection. *Rev Bras Reumatol*. 2011;51:97-103.
- Faco MM, Leone C, Campos LM, Febrônio MV, Marques HH, Silva CA. Risk factors associated with the death of patients hospitalized for juvenile systemic lupus erythematosus. *Braz J Med Biol Res*. 2007;40:993-1002.
- Silva MF, Ribeiro AS, Fiorot FJ, Aikawa NE, Lotito AP, Campos LM, et al. Invasive aspergillosis: a severe infection in juvenile systemic lupus erythematosus patients. *Lupus*. 2012;21:1011-6.
- Hochberg MC. Updating the American College of Rheumatology revised criteria for the classification of systemic lupus erythematosus. *Arthritis Rheum*. 1997;40:1725.
- Gladman DD, Ibañez D, Urowitz MB. Systemic lupus erythematosus disease activity index 2000. *J Rheumatol*. 2002;29:288-91.
- Scriba J. Beitrag zur aetiologie der myositis acute. *Dtsch Z Chir*. 1885;22:497-502.
- Nikolopoulos DD, Apostolopoulos A, Polyzois I, Liarokapis S, Michos I. Obturator internus pyomyositis in a young adult: a case report and review of the literature. *Cases J*. 2009;2:8588.
- Moran GG, Duran CG, Albiñana J. Imaging on pelvic pyomyositis in children related to pathogenesis. *J Child Orthop*. 2009;3:479-84.
- Drosos G. Pyomyositis. A literature review. *Acta Orthop Belg*. 2005;71:9-16.