

Saraiva, Marcos Daniel; Santomauro Junior, Augusto Cesar; Pessoa de Barros Simis, Nathalia; Degenszajn, Jairo; In Myung Kim, Elizabeth

Síndrome de Baggio-Yoshinari: relato de caso

Autopsy and Case Reports, vol. 1, núm. 2, abril-junio, 2011, pp. 63-67

Hospital Universitário da Universidade de São Paulo

São Paulo, Brasil

Disponível em: <http://www.redalyc.org/articulo.oa?id=576060810002>

## Síndrome de Baggio-Yoshinari: relato de caso

*Baggio-Yoshinari Syndrome: case report*

Marcos Daniel Saraiva<sup>a</sup>, Augusto Cesar Santomauro Junior<sup>a</sup>, Nathalia Pessoa de Barros Simis<sup>a</sup>, Jairo Degenszajn<sup>b</sup>, Elizabeth In Myung Kim<sup>b</sup>

Saraiva MD, Santomauro Junior AC, Simis NPB, Degenszajn J, Kim EIM. Síndrome de Baggio-Yoshinari: relato de caso. Autopsy Case Rep [Internet]. 2011;1(2):63-7.

### RESUMO

A doença de Lyme é causada pela infecção por diferentes espécies do gênero *Borrelia* e transmitida por picada de carrapatos da família Ixodidae e similares sendo responsável por manifestações clínicas sistêmicas como cutâneas, articulares, cardíacas e neurológicas. Por apresentar particularidades quanto ao agente etiológico, transmissão e diagnóstico, e por não existirem no Brasil relatos conclusivos da ocorrência da Doença de Lyme com as características clínico-laboratoriais encontradas no hemisfério norte, foi optado pela mudança da nomenclatura no Brasil para Síndrome de Baggio-Yoshinari (SBY). É analisado nesse relato um caso internado no Hospital Universitário da Universidade de São Paulo que cursou exclusivamente com manifestações neurológicas da SBY (radiculite periférica, paralisia facial e comprometimento cerebelar) e ausência de manifestações cutâneas ou articulares.

**Unitermos:** Doença de Lyme; *Borrelia burgdorferi*; Radiculopatia; Paralisia facial.

### ABSTRACT

Lyme disease is caused by the infection by different species of the genus *Borrelia* and transmitted by the bite of ticks of the Ixodidae family and its similar. It is responsible for systemic clinical manifestations such as skin and joints lesions, cardiac and neurologic symptoms. Since this disease presents peculiarities concerning the etiologic agent, transmission and diagnosis, and there are no conclusive reports in Brazil about the occurrence of Lyme disease, with the same clinical and laboratory features as in the northern hemisphere, it has been chosen to change the nomenclature in Brazil for Baggio-Yoshinari Syndrome (BYS). It is analyzed in this report a case treated in the Hospital Universitário da Universidade de São Paulo who presented exclusively neurological manifestations of the BYS (radiculopathy, facial nerve palsy and cerebelar envolvement) without skin or joint manifestations.

**Keywords:** Lyme disease; *Borrelia burgdorferi*; Radiculopathy; Facial paralysis.

<sup>a</sup> Departamento de Clínica Médica do Hospital das Clínicas da Faculdade de Medicina - Universidade de São Paulo, São Paulo, SP, Brasil.

<sup>b</sup> Divisão de Clínica Médica do Hospital Universitário – Universidade de São Paulo, São Paulo, SP, Brasil.

## INTRODUÇÃO

A doença de Lyme é causada pela infecção por diferentes espécies do gênero *Borrelia*, denominadas de *Borrelia burgdorferi* sensu lato, e transmitida por picada de carrapatos da família Ixodidae e similares sendo responsável por manifestações clínicas sistêmicas como cutâneas, articulares, cardíacas e neurológicas.<sup>1</sup>

Por apresentar particularidades quanto ao agente etiológico, transmissão e diagnóstico, e por não existirem no Brasil relatos conclusivos da ocorrência da Doença de Lyme com as características clínico-laboratoriais encontradas no hemisfério norte, foi optado pela mudança da nomenclatura no Brasil para Síndrome de Baggio-Yoshinari no intuito de substituir as nomenclaturas prévias dadas para as síndromes brasileiras semelhantes à doença de Lyme.<sup>2,3,4</sup>

O seguinte relato descreve um caso compatível com a recém denominada Síndrome de Baggio-Yoshinari, diagnosticado no Hospital Universitário da Universidade de São Paulo.

## Relato de Caso

Paciente de 51 anos, masculino, procurou o Pronto Socorro do Hospital Universitário na Universidade de São Paulo com queixa de parestesia em bota e luva há 3 dias, paralisia facial periférica à esquerda e dificuldade para deambulação há 1 dia. Negava outros sintomas como febre, dispneia, emagrecimento ou processo infeccioso recente.

Apresentava como antecedentes hipertensão arterial sistêmica (HAS), gota e diabetes mellitus diagnosticados há 6 meses. Estava em uso de AAS 100mg, metformina 500 mg 2 vezes ao dia e captopril 25 mg 1 vez ao dia. Negava tabagismo, referia etilismo social. Morava em região rural na periferia da cidade de São Paulo. Realizava atividade física regularmente (caminhada 10 km por dia). Apresentava como antecedentes familiares HAS, insuficiência coronariana e acidente vascular cerebral.

Ao exame físico de entrada apresentava-se em bom estado geral, pressão arterial 197X127 mmHg, freqüência cardíaca 68 bpm, freqüência respiratória 14 irpm, saturação de oxigênio em ambiente de 96%, afebril, hidratado, anictérico, acianótico, pulsos palpáveis simetricamente em membros superiores e inferiores, sem linfonodos palpáveis, exame físico cardíaco, pulmonar e abdominal sem alterações propedêuticas.

O paciente ao exame neurológico apresentava-se: consciente, contactante, orientado, escala de Glasgow 15, força muscular grau IV em membros inferiores, diminuição dos reflexos profundos em membros inferiores, discreta alteração da sensibilidade em pés, parestesia em bota e luva, paralisia facial periférica à esquerda, sem alteração dos outros pares cranianos, marcha “ebriosa” com sinal da “dança dos tendões” em membros inferiores, sinal de Romberg negativo, ausência de nistagmo e disdiadiocinesia, índice nariz negativo. Os exames laboratoriais de sangue e liquor estão apresentados nas tabelas 1 e 2 respectivamente.

**Tabela 1 – Exames Laboratoriais da admissão - sangue**

Exame	Valor	Exame	Valor	
Uréia	mg/dl	62	Hemoglobina g/dl	17,7
Creatinina	mg/dL	1,2	Hematórito %	55
Clear creatinina	ml/min	82	Leucócitos /mm <sup>3</sup>	7900
Sódio	mEq/L	135	baston/ segm %	0/ 66
Potássio	mEq/L	4,8	Eos/ linfoc %	1/ 23
Cálcio i	mmol/L	1,27	Monoc %	10
Magnésio	mg/dL	1,9	Plaquetas /mm <sup>3</sup>	226.000
Fósforo	mg/dL	3,2	Ácido Fólico ng/mL	16
Glicemia	mg/dL	177	Vitamina B12 pg/dL	822
Proteína C Reativa		6	HIV Não reagente	

**Tabela 2 – Exames Laboratoriais da admissão - líquor**

Exame	Valor	Exame	Valor
Proteína	mg/dL	136	Células /mm <sup>3</sup>
Glicose	mg/dL	111	Hemácias /mm <sup>3</sup>
Lactato	mg/dL	22,5	Gram
Cloreto	mg/L	122	Cultura
Pandy	Positivo	VDRL	Flora bacteriana ausente Sem crescimento Negativo

Tomografia computadorizada de crânio: sem alterações. Eletrocardiograma: ritmo sinusal, dentro da normalidade. Raio-X de tórax: área cardíaca no limite superior da normalidade, campos pulmonares normais.

Com o quadro clínico apresentado, exames iniciais e o líquor apresentando dissociação proteíno-citológica, foram levantadas as hipóteses de polineuropatias inflamatórias agudas como a Síndrome de Guillain-Barré e sua variante Miller-Fischer. Pelo acometimento de nervos cranianos (VII par) e a presença de sinais periféricos neurológicos foi solicitado ainda sorologia para HIV, sífilis e *Borrelia burgdorferi* além de provas de atividade inflamatória.

No 4º dia de internação, o paciente evoluiu com piora da força muscular em membros inferiores (grau III-IV) e da ataxia, além do surgimento de retenção urinária. Devido à piora do quadro foi administrada Imunoglobulina (Endoglobulin Kiovig Imunoglobulina G) por 5 dias. Durante esse período evoluiu com melhora completa da retenção urinária, porém sem melhora expressiva dos outros sintomas neurológicos: andava ainda com dificuldade (com auxílio de andador) e mantinha parestesia em bota e luva. Realizada Ressonância Nuclear Magnética de crânio que se mostrou normal. Não houve progressão do quadro neurológico, mas referia apenas aparecimento de insônia.

A sorologia para Doença de Lyme Simile (Síndrome de Baggio-Yoshinari) resultou positiva – ELISA IgG 1/800 (VR: até 1/400), IgM negativo; Western Blotting (WB) IgG 4 bandas (VR: positivo se 4 ou mais bandas) e IgM negativo. Iniciado tratamento com Ceftriaxone 2g por 30 dias.

Após o início da medicação o paciente apresentou anemia e leucopenia, sendo substituída no 14º dia por Doxiciclina 100 mg 2 vezes ao dia por mais 2 meses. Apresentou nesse período melhora importante do quadro, passando no final da internação a andar somente com bengala, força muscular

grau IV-V em membros inferiores, porém manteve insônia, reflexos profundos dos membros inferiores diminuídos, e parestesia em bota e luva. Recebeu alta no 28º dia de internação.

No seguimento Ambulatorial, o paciente apresentou progressivamente melhora do quadro neurológico e independência funcional, porém ainda manteve os reflexos profundos dos membros inferiores diminuídos.

## DISCUSSÃO

O relato acima mostra um caso compatível com a Síndrome de Baggio-Yoshinari (SBY) recém definida como enfermidade de origem infecciosa transmitida por carrapatos dos gêneros *Amblyomma* e/ou *Rhipicephalus*, causada por espiroquetas do complexo *Borrelia burgdorferi* sensu lato de morfologia atípica e incultivável.<sup>4</sup> Apresenta quadro clínico semelhante à Doença de Lyme, exceto pela ocorrência de recidivas clínicas e desordens autoimunes.<sup>4</sup> Por apresentar particularidades quanto ao agente etiológico, transmissão e diagnóstico, e por não existirem no Brasil relatos conclusivos da ocorrência da Doença de Lyme com as características clínico-laboratoriais encontradas no hemisfério norte, foi optado pela mudança da nomenclatura no Brasil para SBY.<sup>4</sup>

O caso relatado cursou exclusivamente com manifestações neurológicas, uma vez que o paciente negou antecedentes de comprometimento cutâneo ou articular prévios. O dado epidemiológico relacionado à picada de carrapato também não foi relatado pelo paciente. É descrito que a enfermidade no Brasil é recorrente e a data do sintoma inicial nem sempre é recordado, podendo ter ocorrido meses ou décadas do episódio atual. A presença de anticorpos contra *B. burgdorferi* da classe IgG no ELISA e WB reforçam esta hipótese. Dos pacientes com manifestação neurológica é descrito que apenas 53,3% referem picada prévia por carrapato, 43,3% apresentam eritema migrans e 56,7% manifestações articulares.<sup>3</sup>

As manifestações neurológicas da SBY, inicialmente descritas por Yoshinari et al.<sup>5</sup> e atualizadas por Shinjo et al.<sup>3</sup> (pela análise temporal e prospectiva de uma casuística de 30 pacientes com sintomas neurológicos), são encontradas em 25% dos pacientes em dados brasileiros.<sup>6</sup>

Os principais sintomas neurológicos encontrados na SBY são: meningite linfomonocitária (50%), radiculite periférica (53,3%) e neurite craniana (43,3%) acometendo principalmente os nervos facial e oculomotor, podendo haver casos de encefalite e/ou encefalomielite.<sup>3,4</sup> O paciente do caso relatado apresentou como manifestações radiculite periférica e paralisia facial, porém sinais de meningite não fizeram parte de seu quadro clínico.

O paciente apresentava ainda comprometimento cerebelar sendo que a perda do equilíbrio e a marcha atáxica foram encontrados em 3,3% e 10% respectivamente por Shinjo et al.<sup>3</sup> Insônia e alterações esfincterianas presentes no paciente também são descritas na síndrome mas com menor freqüência.<sup>3</sup>

O diagnóstico da SBY é essencialmente clínico. O critério diagnóstico adotado pelo serviço de Reumatologia do Hospital das Clínicas da Faculdade de Medicina da Universidade de São Paulo (HCFMUSP) baseia-se em três parâmetros maiores, dentre eles: a) clínica pertinente (eritema migrans ou complicações sistêmicas – articular, neurológica, cardíaca ou ocular); b) sorologia positiva para *B. burgdorferi* nos padrões adotados no LIM-17 do HCFMUSP; e c) epidemiologia compatível; e em três parâmetros menores, a saber: a) episódios de recorrência; b) síndrome da fadiga crônica; e c) visualização de “Espiroquetídeos” à microscopia de campo escuro. É definido como caso positivo quando houver a presença de três critérios maiores ou de dois critérios maiores e dois critérios menores.<sup>4,6,7</sup> No caso descrito, o diagnóstico foi feito a partir da presença dos três critérios maiores.

Os dados laboratoriais devem ser interpretados com cuidado já que um aspecto importante da SBY é a dissociação clínico-laboratorial, como por exemplo, negatividade de exames que indicam atividade inflamatória aguda mesmo em vigência de processos inflamatórios como artrite, meningite ou neurite – fato também observado no caso relatado.<sup>4</sup>

Quanto à sorologia, o procedimento para demonstrar anticorpos anti-*Borrelia burgdorferi* foi modificado no LIM 17 HCFMUSP. Utiliza-se a cepa G

39/40, de origem americana (ELISA e Western Blotting) na falta de um isolado brasileiro, apresentando com isso, títulos baixos e flutuantes com riscos de encontrar falso-negativos e positivos (como sífilis, lúpus eritematoso sistêmico, artrite reumatóide, esclerodermia, infecções virais, rickettsioses agudas e neuropatias crônicas). Na fase aguda da zoonose (até 3 meses da picada do carrapato) ocorre predomínio de anticorpos da classe IgM e após, de IgG. Ainda não existem dados sobre a sensibilidade e especificidade desses testes sorológicos no Brasil. Doentes com SBY desenvolvem sorologia positiva em aproximadamente 65% dos casos enquanto em indivíduos normais a freqüência de positividade é de aproximadamente 16%.<sup>4</sup>

A alteração liquórica encontrada no caso – caracterizada pela dissociação proteíno-citológica – foi encontrada em 3 pacientes dos 18 casos estudados por Shinjo et al.<sup>3</sup> Neste estudo de Shinjo, a principal alteração liquórica encontrada é a pleocitose linfomononuclear com concentração de proteínas normal ou aumentada. A pesquisa de anticorpos anti-*B. burgdorferi* no líquido cefalorraquidiano pode ser útil quando houver suspeita de acometimento neurológico, mas apresenta as mesmas restrições do estudo sorológico e grande número de falso-positivos.<sup>4</sup>

Quanto ao tratamento, a antibioticoterapia tem como objetivo minimizar e encurtar a duração do episódio da doença sendo frequentemente não satisfatória, especialmente quando a doença progredir com episódios de recorrência.<sup>3</sup> Nos casos onde há comprometimento neurológico é recomendado o tratamento com ceftriaxone 2g/dia por 30 dias seguido de doxiciclina 100 mg duas vezes ao dia por 2 meses podendo ser associado hidroxicloroquina.<sup>3,4</sup>

## CONCLUSÃO

Devemos sempre pensar na SBY como diagnóstico diferencial frente a um paciente com manifestações neurológicas como radiculite periférica, meningismo ou neurite craniana independente de antecedentes recentes de picada por carrapato ou de manifestações cutâneas ou articulares, tendo em vista que a enfermidade no Brasil pode evoluir com longo período de latência e com recidivas clínicas.

## REFERÊNCIAS

---

1. Steere AC. Lyme disease. *N Engl J Med.* 2001;345(2):115-25.
2. Mantovani E, et al. Description of Lyme disease-like syndrome in Brazil: is it a new tick borne disease or Lyme disease variation? *Braz J Med Biol Res.* 2007;40(4):443-56.
3. Shinjo SK, et al. Manifestação neurológica na síndrome de Baggio-Yoshinari (síndrome brasileira semelhante à doença de Lyme). *Rev Bras Reumatol.* 2009;49(5):492-505.
4. Yoshinari NH, Mantovani E, Bonoldi VLN, Marangoni RG, Gauditano G. Doença de Lyme-Símile Brasileira ou Síndrome de Baggio-Yoshinari: zoonose exótica e emergente transmitida por carrapatos. *Rev Assoc Med Bras.* 2010;56(3):363-9.
5. Yoshinari NH, Barros PJ, Gauditano G, Fonseca AH. Report of 57 cases of Lyme-like disease (LLD) in Brazil. *Arthritis Rheum.* 1999;43(Suppl):188.
6. Yoshinari NH, Mantovani E. Síndrome infecto-reacional Lyme-Símile: atualidades. Goiânia: Sociedade Brasileira de Parasitologia; 2006.
7. Naka EM, et al. Pesquisa de anticorpos anti-Borrelia e anti-Babesia em soro de crianças com manifestações clínicas e epidemiologia compatíveis com a doença de Lyme-Símile no Estado de Mato Grosso do Sul. *Rev Bras Reumatol.* 2008;48(2):74-85.

**Conflito de interesse:** Não

**Submetido em:** 31 de Março de 2011

**Aceito em:** 25 de Abril de 2011

**Endereço para correspondência:**

Av. das Nações Unidas 4797 H22 – Jd. Universidade, São Paulo, SP - Brasil

Tel.: (11) 99032010

E-Mail: marcos\_dsaraiva@yahoo.com.br

---