

Abdomen agudo por angiostrongiloidiasis en niños: nueva localización geográfica

R.E. Pereira, E. Esteves, M.A. Reboucas Moreira, M. Ottaiano Neto, S. Watanabe.

Servicio de Cirugía Pediátrica y Departamento de Anatomía Patológica
Hospital de Clínicas, Facultad de Medicina, Universidad Federal de Goiás

Resumen

Los autores presentan un caso de angiostrongiloidiasis intestinal autóctona de la provincia de Pará al norte de Brasil, tratado en la provincia de Goiás, en el centro del país.

Un niño de 2 años y 11 meses presentó un cuadro de abdomen agudo obstructivo, y fue sometido a laparotomía, dónde se descubrió obstrucción del ileon proximal, causada por *Angiostrongylus costaricensis*, inicialmente considerado como linfoma; el diagnóstico de la zoonosis fue confirmado por el hallazgo microscópico de larvas en la pieza quirúrgica. Se presentan las manifestaciones clínicas y la fisiopatología de la enfermedad, analizando el ciclo evolutivo y la distribución geográfica del parásito. Probablemente se relata una nueva localización geográfica, todavía no descrita en la literatura revisada. Es posible que hubieran pasado sin diagnóstico muchos casos de "pseudo-linfoma", cuando no se buscó el parásito exhaustivamente en el estudio histopatológico. Los autores alertan sobre la posibilidad que la prevalencia de la angiostrongiloidiasis intestinal esté siendo subestimada en América del Sur.

Palabras Clave: *Angiostrongylus* - Abdomen agudo - Obstrucción intestinal - Zoonosis.

The authors report a case of intestinal angio-strongyloidiasis coming from the province of Pará to the north of Brazil and managed in the province of Goiás, in the middle of the country. A 35 months-old-male child develops an acute obstructive abdomen. At

Summary

surgery a proximal ileal obstruction caused by *Angiostrongylus Costaricensis* was initially thought to be lymphoma. The diagnosis was confirmed histologically after finding larvae in the removed specimen. We review the clinical manifestations and pathophysiology of this disease analyzing the life cycle and geographic distribution of this parasite. We believe we have a new geographic localization not previously reported in the literature. It is also possible that many cases of pseudo lymphoma seen previously without diagnosis could have missed this parasite. The authors believe the real prevalence of intestinal angio-strongyloidiasis could be higher than thought in South America.

Index Words: *Angiostrongylus* - Acute abdomen - Intestinal obstruction - Zoonosis.

Os autores apresentam um caso de angiostrongiloidiase intestinal autóctone do estado do Pará, norte do Brasil, atendido e tratado no estado de Goiás, no centro do país. Um

Resumo

menino de 2 anos e 11 meses apresentou um quadro de abdome agudo obstructivo, que foi submetido a uma laparotomia, descobrindo-se obstrução do ileo proximal causada por *Angiostrongylus costaricensis*, inicialmente considerado como linfoma. O diagnóstico desta zoonose foi confirmado pelo achado microscópico de larvas na peça cirúrgica. São apresentadas as manifestações clínicas e a fisiopatologia da doença, analisando o ciclo evolutivo e a distribuição geográfica do parasito. Este relato é, provavelmente, de

uma nova distribuição geográfica ainda não descrita na literatura revisada. É possível que muitos casos de "pseudo-linfoma" tenham passado sem diagnóstico, quando não se procurou exaustivamente o parasito no estudo histopatológico. Os autores alertam que a prevalência de angiostrongiloidiasis intestinal talvez esteja sendo subestimada na América do Sul.

Palabras clave: Angiostrongylus - Abdomen agudo - Obstrucción intestinal - Zoonose.

Introducción

En 1971 Morera y Céspedes reconocieron al Angiostrongylus costarricensis, un parásito nemátodo encontrado en roedores de América Central, como agente causal de un síndrome observado en trabajadores de Costa Rica desde 1952².

Los parásitos adultos se desarrollan en las arterias y arteriolas de la región ileocecal de ratas silvestres³; los huevos son depositados en la trama de los tejidos y las larvas se eliminan por las heces. Los huéspedes intermediarios son moluscos (babosas más comúnmente de la especie Vaginulus plebeius), que se contaminan con las heces de los roedores; las larvas se desarrollan y estas son nuevamente ingeridas por las ratas^{4,5}.

El hombre es un huésped accidental y probablemente adquiere la infección por la ingestión de frutas y vegetales contaminados por larvas dejadas por la mucosidad de babosas contaminadas por heces de las ratas. En el hombre se producen lesiones intestinales pseudotumorales o estenosantes segmentarias en la región ileocecal, que se manifiestan por abdomen agudo o dolor abdominal crónico, fiebre y eosinofilia; predomina en niños en los periodos más cálidos del año^{3,6,7}.

No hay eliminación de huevos ni vermes en las heces humanas y el diagnóstico definitivo es confirmado por la identificación del parásito, asociado a reacción granulomatosa perivascular, infiltrado y vasculitis eosinofílica en el examen histopatológico de la pieza quirúrgica^{3,7}.

Hasta 1976, la distribución geográfica de la enfermedad abarcaba a Costa Rica, Venezuela, Honduras, México y El Salvador⁸. En los últimos 20 años la incidencia está aumentando en varios países de América inclusive en Brasil⁹, donde ya encontramos relatos de 40 casos desde 1980, más frecuentemente en el estado de Río Grande del Sur¹⁰. Otros estados incluyen Santa Catarina, Paraná, Brasília, San Pablo, Minas Gerais, y Río de Janeiro^{11,12,13,14,15}.

El objetivo de este trabajo es presentar un niño con angiostrongiloidiasis ileal próxima, localización de rara incidencia. El paciente nació y fue criado en el interior del estado del Pará, región del norte de Brasil, pero tratado en Goiania (Goías), siendo por lo tanto un caso autóctono de Pará. Este foco de presentación es más próximo a los casos iniciales, entre América Central y la región Sur del Brasil y hace pensar que pueden estar ocurriendo casos no diagnosticados en toda América del Sur.

Presentación del caso

Un niño del sexo masculino de 2 años y 11 meses de edad, procedente de una fazenda en Redenção (Pará), se dirigió a Goiania en abril de 1996 para su tratamiento médico. Fue atendido en la guardia con dolor abdominal, fiebre y vómitos desde 2 días antes. Desde hace seis meses presentaba cólicos abdominales intermitentes, que duraban aproximadamente una semana, con intervalos de 10 a 15 días sin dolor. Presentaba fiebre desde el inicio, en horarios variables. Dos días antes padeció cólicos intensos en el abdomen, vómitos y falta de eliminación de heces, eliminando gases. La familia negaba otras dolencias anteriores y contacto con animales enfermos.

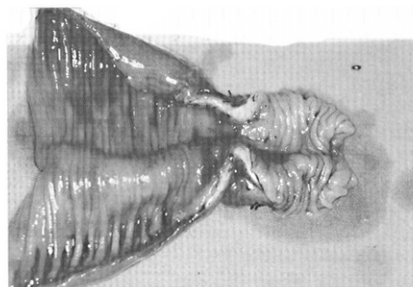


Fig.1: fotografía de la pieza quirúrgica, mostrando obstrucción entérica por lesión infiltrativa estenosante.

Al exámen físico, presentaba regular estado general, peso 11,5 kg, febril, bien nutrido e hidratado, con abdomen distendido, indoloro a la palpación, sin visceromegalias o masa maciza móvil, ruidos hidro-aéreos aumentados y adenomegalia inguinal bilateral.

Fue internado, evolucionando con vómitos fecaloides y distensión abdominal acentuada, sin señales de peritonitis. El hemograma demostró anemia (HB 10,8 g/dL), leucocitosis (13.400/dL) y eosinofilia (16%). Los exámenes bioquímicos séricos y el sedimento urinario fueron normales.

Las radiografías simples de abdomen mostraron distensión de ansas del intestino delgado, con niveles hidroaéreos, sugiriendo obstrucción entérica distal y velamiento del abdomen inferior. La ultrasonografía para búsqueda de masas (linfoma, apendicitis) no fue posible por la gran distensión de ansas.

Con un cuadro de abdomen agudo obstructivo, fue sometido a laparotomía por incisión transversa infraumbilical. Se encontró obstrucción casi total de la porción proximal del íleon por una lesión estenosante de la pared ileal, causando dilatación proximal. La lesión estaba bloqueada por el epiplón, sugiriendo lesión inflamatoria, de unos 2 cm de extensión envolviendo toda la circunferencia del ansa mostrando coloración blanco-rosada (Fig. 1); había pequeña cantidad de líquido ascítico citrino; el resto de las estructuras intracavitarias y retroperitoneales eran normales. Se realizó la resección con margen de seguridad de 5 cm de la zona enferma y anastomosis ileal término-terminal en dos planos. Evolucionó sin intercurencias siendo, dado de alta al 7º día.

El estudio histopatológico de la pieza inicialmente descartó neoplasia maligna, evidenciándose un

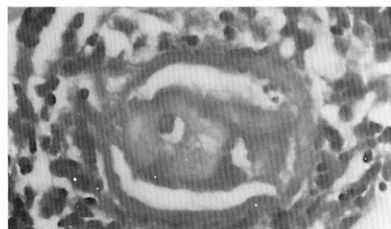


Fig.2: microfotografía de un corte de la pieza coloreado con HE, mostrando una sección transversal del parásito identificado como *A. Costaricensis*.

cuadro de hiperplasia linfoidea exuberante, como un "seudo-linfoma". Debido al aspecto inflamatorio linfocitario atípico, fue realizado un estudio inmunohistoquímico que sugirió una reacción pseudolinfomática por algún agente, como nematodos. Se procedió a la búsqueda de parásitos en decenas de nuevos cortes, encontrándose larvas características de *Angiostrongylus costaricensis* en la pieza, con márgenes quirúrgicos libres (fig.2).

El paciente fue tratado en forma ambulatoria con tiabendazol por 7 días y actualmente está asintomático luego de 2 años de la operación.

Discusión

La prevalencia de parasitosis intestinal por nematodos, en el mundo, continúa siendo alta en las regiones cuyas condiciones sanitarias son deficientes. Cerca del 80% de la población rural de las áreas subdesarrolladas está contaminada con uno o más tipos de parásitos. En los países desarrollados aún hay parasitosis, especialmente en inmigrantes o personas que retornan de viajes de áreas endémicas¹⁶. La angiostrongiloidiasis aún es poco conocida debido al descubrimiento reciente de esta zoonosis y a la rareza de la enfermedad en América Central. En Costa Rica, país donde fue descubierta, se presentan cerca de 300 casos por año⁹ y en México 20 por año⁶. En la Argentina el primer caso fue descrito en 1986¹⁷. En 1997 ya había casos descritos con obstrucción ileal en Texas y en California, en turistas que estuvieron en la región endémica. También se relatan casos de angiostrongiloidiasis en el sudeste de Asia (*Angiostrongylus siamensis*, una especie correlativa^{7,18}). Es posible como es considerado por otros autores^{10,11,19,20}, que esté subestimada su prevalencia.

En el ciclo evolutivo de la *angiostrongylus*, las ratas silvestres (*Sigmondon hispidus*, *Rattus rattus* y otros) son los huéspedes definitivos normales. En el Brasil, Graeff-Teixeira constató como huéspedes, en la región serrana de Río Grande del Sur, a las ratas *Oryzomys nigripes* y *O. Ratticeps*²¹.

Los huéspedes intermediarios son babosas que se contaminan en contacto con las heces de los roedores. En las larvas se desarrollan y son nuevamente ingeridas por las ratas, pudiendo también permanecer en la mucosidad expelida por el sistema digestivo de la babosa cuando se arrastra sobre la vegeta-

ción^{4,5,10,22}. Otros huéspedes como los perros siguen siendo investigados^{23,24,25}.

En el hombre luego de la ingestión de alimentos contaminados por las babosas o las heces de las ratas, las larvas se desarrollan en las arteriolas del tracto gastrointestinal, causando un proceso inflamatorio granulomatoso progresivo, rico en eosinófilos, más frecuentemente en la región ileocecal^{3,7,26}. En nuestro caso provocó una tumoración estenosante en el íleo proximal, a más de 1 m de la válvula ileocecal. Sólo encontramos relatos de esta localización en Costa Rica y México^{5,6}.

El cuadro clínico se caracteriza por un síndrome con dolor en la fosa iliaca o el flanco derecho, fiebre prolongada, anorexia y vómitos, leucocitosis con eosinofilia, siendo usualmente encontrada una masa en el área del apéndice^{3,6,8}. La mayoría de los niños presentan dolor abdominal recurrente, o cuadros de abdomen agudo obstructivo, perforativo o inflamatorio simulando apendicitis que son comunes^{6,7,12,13,15}. Las radiografías pueden mostrar un defecto de relleno o contornos festoneados en el área del ciego^{8,20}. Otras formas de presentación incluyen enterocolitis isquémico-congestiva, obstrucción de la arteria espermática, lesión de epiplón, hígado y linfonodos semejante a las lesiones por larva migrans, hemorragia digestiva y apendicitis aguda^{9,15}.

Pruebas serológicas contra antígenos específicos o relacionados a los angiostrongiloidiasis han demostrado capacidad de identificación de los huéspedes, principalmente en áreas endémicas^{10,27}. La utilidad clínica en nuestro medio de presentación infrecuente, aún no fue establecida.

El diagnóstico aún es sólo confirmado por el examen histopatológico de la pieza quirúrgica o biopsias. En áreas endémicas, como en Costa Rica, el diagnóstico precoz está basado en la sospecha clínica y exámenes serológicos^{10,20}. En América del Sur, el cirujano y el patólogo deben tener en mente que lesiones semejantes a linfomas en el íleo o colon ascendente pueden ser parasitarias, debiendo buscar larvas o huevos en los tejidos, como puede verse en una forma pseudo-tumoral de la esquistosomiasis intestinal, evitando la confusión con los linfomas.

Las medicaciones probadas y efectivas contra el *Angiostrongylus costaricensis* incluyen la dietilcarbazona y el tiabendazol. Mandell y colaboradores apli-

caron la asociación de mebendazol y albendazol con buenos resultados eliminando los parásitos de las ratas¹⁶. Zanini y colaboradores demostraron que la limpieza de alimentos con clorato de sodio, ácido acético y sobre todo hipoclorito, puede eliminar las larvas infestantes²⁸.

Es posible que ocurra regresión completa de las lesiones intestinales sin dejar estenosis residual luego del tratamiento clínico en casos iniciales o con dolor crónico²⁰. En los casos de abdomen agudo, hasta el momento, el tratamiento quirúrgico es lo indicado, con resección del segmento comprometido. Su complemento es la administración de antinematodios por vía oral; no se recomienda el uso de anti-helmínticos en el tratamiento de la angiostrongiloidiasis, a no ser que se constate otra parasitosis^{3,15,29}.

La angiostrongiloidiasis al comprometer el intestino delgado se manifiesta como un abdomen agudo. La enfermedad puede ocurrir en cualquier lugar de Brasil y de América del Sur; es bastante probable que se hubiera ignorado su diagnóstico en casos rotulados como "seudo-linfoma", cuando el parásito no fue buscado exhaustivamente. Creemos importante difundir el conocimiento de esta zoonosis, pues aparentemente su incidencia está aumentando a pesar de las medidas preventivas ya en práctica en las áreas endémicas^{3,9}.

Bibliografía

1. Morera P. Life history and redescription of *Angiostrongylus costaricensis*. Am J Trop Med Hyg 22: 613-621, 1973.
2. Céspedes R, Salas J, Mekbel S, et al. Granulomas entericos y linfáticos con intensa eosinofilia tisular producidos por un strongilideo (*Strongylata*). Acta Méd Costaric 10: 325-355, 1967.
3. Graeff-Teixeira C, Coura LC, Lenzi HL. Angiostrongiliasis abdominal: nova parasitose no Sul do Brasil. Rev AMRIES 35: 91-98, 1991.
4. Freile WS, Ortiz EO. Estudio preliminar de babosas como huéspedes intermediarios de *Angiostrongylus costaricensis* en Santa Ana, Manabí. Rep Médico 1: 28-36, 1991.
5. Gutierrez Y. The Nematodes: *Angiostrongylus*. In: Lea & Febiger (ed) Diagnostic Pathology of Parasitic Infections with Clinical Correlations, 1st edition, Philadelphia, p. 208-218, 1990.
6. Sanahuja FL, Cortés RL, Gonzáles G. Angiostrongilosis abdominal: aspectos clínicos, tratamiento y revisión de la literatura. Bol Méd Hosp Inf Méx 44: 4-9, 1987.

7. Wu SS, French SW, Turner JA. Eosinophilic ileitis with perforation caused by *Angiostrongylus* (*Parastongylus*) *costaricensis*: A case study and review. *Arch Pathol Lab Med* 121: 989-991, 1997.
8. Frenkel JK. *Angiostrongylus costaricensis* infections. In: Chapman HB, Daniel HC (ed) *Pathology and Extraordinary Diseases*, 1st edition, Armed Forces Institute of Pathology, Washington, p. 452-454, 1976.
9. Kaminsky RG. Situación actual de *Angiostrongylus costaricensis* y la infección en humanos y animales en las Américas. *Rev Med Hondur* 64: 139-147, 1996.
10. Graeff-Teixeira C, Coura LC, Lenzi HL. Clinical and epidemiological aspects of abdominal angiostrongyliasis in Southern Brazil. *Rev Inst Med Trop Sao Paulo* 33: 373-378, 1991.
11. Ayala MAR. *Angiostrongiloidose abdominal*: seis casos observados no Paraná e em Santa Catarina, Brasil. *Mem Inst Oswaldo Cruz* 82: 29-36, 1987.
12. Magalhães AV, Andrade GE, Koh IH, et al. Novo caso de *Angiostrongiloidose abdominal*. *Rev Inst Med Trop S Paulo* 24: 252-256, 1982.
13. Fauza DA, Maksoud FJG, El Ibrahim R. Abdome agudo na infância por angiostrongilose intestinal: relato de um caso. *Rev Assoc Méd Bras* 36: 150-152, 1990.
14. Rocha A, Moscardini SJ, Salomão EC. *Angiostrongilose abdominal*: primeiro relato de caso autóctone de Minas Gerais. *Rev Soc Bras Med Trop* 24: 265-268, 1991.
15. Zuccaro AM, Zani R, Aymoré IL. *Angiostrongilose abdominal*: relato de possível caso autóctone do Rio de Janeiro. *Arq Gastroenterol* 35: 54-61, 1998.
16. Mandell GL, Douglas Jr RG, Bennett JB. Infectious diseases and their etiologic agents: abdominal angiostrongyliasis. In: *Principles and Practice of Infectious Diseases*, 3rd edition, Churchill Livingstone Inc, p. 2160, 1990.
17. Demo OJ, Pessat OAN. *Angiostrongilose abdominal*: primer caso humano encontrado en Argentina. *Prensa Med. Argent* 73:732-738, 1986.
18. Nishimura K, Hung T. Current views on geographic distribution and modes of infection of neurohelminthic diseases. *J Neurol Sci* 145:5-14, 1997.
19. Ayala MAR, Guerra IF, Schir RA et al. *Angiostrongiloidose abdominal*: apresentação de um caso. *Mem Inst Oswaldo Cruz* 77: 189-193, 1982.
20. Nuñez R, Mirambell F. *Angiostrongilose abdominal*: un caso de conducta conservadora. *Rev Méd Hosp Nac Niños Cost Rica* 16: 109-116, 1981.
21. Graeff-Teixeira C, Pires FDA, Machado RCC, et al. Identificação de roedores silvestres como hospedeiros do *A. costaricensis* no sul do Brasil. *Rev Inst Med Trop S Paulo* 32: 147-150, 1990.
22. Graeff-Teixeira C, Thome JW, Pinto SCC et al. *Phillocaulis variegatus* - intermediate host of *Angiostrongylus costaricensis* in South Brazil. *Mem Inst Oswaldo Cruz* 84: 65-68, 1989.
23. Arroyo R, Rodrigues F, Berrocal A. *Angiostrongilose abdominal* in *canis familiaris*. *Parasitology (India)* 12:181-185, 1988.
24. Lima LC, Souza CP. Ocorrência de *Sarasinula marginata* (Mollusca Soleolifera) em Belo Horizonte, Brasil. *Rev Saúde Públ* 23: 345-346, 1989.
25. Santos FT, Pinto VM, Graeff-Teixeira C. Evidences against a significant role of *Mus musculus* as natural host for *Angiostrongylus costaricensis*. *Rev Inst Med Trop S Paulo* 38: 171-175, 1996.
26. Brenes R, Arenas W, Rodriguez U et al. Primer caso humano de angiostrongilose abdominal diagnosticado mediante el hallazgo de huevecillos infecundados del parasito. *Rev Costarricense Méd* 4 (supl 1): 53-60, 1983.
27. Chye SM, Yen CM, Chen ER. Detection of circulating antigen by monoclonal antibodies for immunodiagnosis of angiostrongyliasis. *Am J Trop Med Hyg* 56: 408-412, 1997.
28. Riani GM, Graeff-Teixeira C. *Angiostrongilose abdominal*: profilaxia pela destruição das larvas infectantes em alimentos tratados com sal, vinagre ou hipoclorito de sódio. *Rev Soc Bras Med Trop* 28: 389-392, 1995.
29. Soland J, Bolt G. Hypovolemic shock after anthelmintic treatment of canine angiostrongylosis. *J Small Anim Pract* 37:594-596, 1996.

Trabajo aceptado para su publicación en Julio de 2000.

Edward Esteves
Rua T-65, 1077, Ap 1303-B, Setor Bueno
CEP. 74230-120, Goiânia – GO
Brasil