



Data de Submissão: 11/02/2024

Data de Aprovação: 16/04/2024

RELATO DE CASO

Lophomoníase pulmonar em paciente pediátrico com imunodeficiência primária: um relato de caso

Pulmonary Lophomoniasis in a pediatric patient with primary immunodeficiency: a case report

Luana de Moura Marcolim¹, Fernanda de Souza Nascimento², Naomi Sordan Borghi¹, Luiz Roberto Agea Cutolo², Matheus Westarb de Godoi², Eduardo Piacentini Filho², Ilia Reis Aragão¹, Rafael Francisco de Souza¹, Isadora Nack Borba¹

Palavras-chave:

Pediatria,
Pneumologia,
Doenças pulmonares
intersticiais,
Pneumopatias
parasitárias.

Resumo

Introdução: Protozooses são infecções raras, fortemente associadas a imunodeficiências e pneumopatias. **Objetivo:** Descrever um caso pediátrico de Lophomoníase, doença pulmonar rara causada por protozoário, enfatizando suas manifestações clínicas e a importância da sua suspeição diagnóstica e terapêutica adequada. **Relato de caso:** Paciente do sexo masculino, que iniciou com quadro de taquidispneia aos 2 meses de vida, com piora do quadro e associação de desconforto respiratório aos 6 meses de idade, evoluindo com necessidade de oxigenoterapia. Na avaliação inicial, achados na radiografia e tomografia computadorizada de tórax compatíveis com doença pulmonar difusa, com padrão intersticial bilateral. Após investigação complementar, obteve achado do protozoário *Lophomonas* spp. em lavado broncoalveolar, fechando diagnóstico de Lophomoníase pulmonar, associado à imunodeficiência primária combinada. **Discussão:** Lophomoníase pulmonar é uma doença causada pelo protozoário multiflagelado *Lophomonas* spp., um parasita endocomensal, que tem como habitat o intestino de baratas e cupins. Antibioticoterapia é o tratamento padrão. O conhecimento acerca desta doença e suas manifestações é de fundamental importância para diagnóstico e tratamento adequados, minimizando erros terapêuticos e possíveis complicações para o paciente, vistos poucos relatos na literatura de casos semelhantes, porém com aumento importante de casos nos últimos anos.

¹ Hospital Infantil Joana de Gusmão - Florianópolis - Santa Catarina - Brasil.

² Hospital Infantil Joana de Gusmão (HJUG), Departamento de Pneumologia Pediátrica - Florianópolis - Santa Catarina - Brasil.

Endereço para correspondência:

Naomi Sordan Borghi.

Hospital Infantil Joana de Gusmão. Rua Rui Barbosa, nº 152, Agronômica, Florianópolis, SC, Brasil. CEP: 88025-301. E-mail: naomiborghi@gmail.com

Keywords:
pediatrics,
Pulmonary medicine,
Lung diseases,
interstitial,
Lung diseases,
Parasitic.

Abstract

Introduction: Protozoosis are rare infections, strongly associated with immunodeficiency and lung problems. **Objective:** To describe a pediatric case of Lophomoniasis, a rare pulmonary disease caused by a protozoan, emphasizing its clinical manifestations and the importance of diagnostic suspicion and appropriate therapy. **Case report:** Male patient, initially with tachypnea at 2 months old, presenting respiratory distress and worsening of the respiratory pattern at 6 months old, requiring oxygen therapy. In the initial evaluation, chest X-ray and computed tomography revealed a diffuse lung disease, with bilateral interstitial pattern. Subsequent investigation revealed the presence of the protozoan *Lophomonas* spp. in bronchoalveolar lavage, leading to a diagnosis of Pulmonary Lophomoniasis, associated with combined primary immunodeficiency. **Discussion:** Pulmonary lophomoniasis is a disease caused by the multiflagellated protozoan *Lophomonas* spp., an endocommensal parasite that inhabits the intestines of cockroaches and termites. Antibiotic therapy is the key treatment. Knowledge of this disease and its manifestations is crucial for accurate diagnosis and appropriate treatment, minimizing therapeutic errors and potential complications for the patient. There are few reports in the literature of similar cases, but there has been a significant increase in cases in recent years.

INTRODUÇÃO

Protozooses são infecções raras, fortemente associadas a imunodeficiências e pneumopatias, com predominância em adultos do continente asiático¹⁻⁴. Ao longo dos últimos anos, o número de infecções por protozoários na população geral cresceu; tal fato pode ser explicado pelo aumento do número de indivíduos com o sistema imunológico comprometido, associado a condições de higiene precárias, principalmente em países subdesenvolvidos^{1,2}.

O *Lophomonas* spp. é um parasita endocomensal multiflagelado que habita o intestino de baratas e cupins¹. A infecção é vista com maior frequência no trato respiratório, podendo também ser encontrada em outros sistemas^{1,5}. O paciente apresenta sinais e sintomas inespecíficos como tosse, febre, desconforto respiratório, e cerca de um terço dos casos cursa com eosinofilia no hemograma^{2,5,6}. A presença de baratas ou cupins infectados nas habitações domésticas leva a um risco aumentado de inalação do protozoário e subsequente infecção pulmonar².

Antes do diagnóstico confirmado de Lophomoníase pulmonar através da broncoscopia com lavado broncoalveolar (B-LBA), pacientes são submetidos a diversos tratamentos e exames complementares⁴⁻⁶. Após confirmação diagnóstica, o tratamento é realizado com Metronidazol, com relatos de melhora dos sintomas após finalização do tratamento².

RELATO DE CASO

Paciente masculino de 7 meses de idade, natural e procedente de São José, região metropolitana de Florianópolis-SC. Nascido a termo, sem necessidade de oxigenoterapia e sem intercorrências no período neonatal. Evoluiu com taquipneia aos 2 meses de vida, sem outros sintomas associados; levado à emergência aos 6 meses de idade devido à piora do quadro, associado a desconforto respiratório. Na avaliação da emergência, paciente taquidispneico, afebril, com necessidade de oxigenoterapia devido à dessaturação. Realizado exame de imagem, com radiografia de tórax (RX) demonstrando padrão de infiltrado intersticial difuso bilateral. Ao exame físico, bom estado geral, afebril, mantendo apenas taquidispneia leve sem alterações na ausculta pulmonar.

Durante internação hospitalar, realizada investigação complementar com exames laboratoriais e de imagem, os quais evidenciaram um painel viral em swab nasal com identificação de rinovírus; hemograma demonstrou anemia com hemoglobina 10,6 e hematócrito 33; leucócitos 9.970 com eosinofilia (658 total) e proteína C reativa dentro do valor de referência. Ecocardiograma transtorácico com persistência do canal arterial mínimo sem repercussão hemodinâmica e tomografia de tórax (TC) evidenciou padrão de doença pulmonar difusa, com acometimento intersticial importante e bilateral (Figura 1). Devido ao quadro clínico e imagem sugestivas de doença pulmonar intersticial, ampliada a investigação, com detecção de alterações na imunidade celular (CD19 e CD8 < p10) e humoral (IgG e IgA < p3 e IgM > p97). Infecção por HIV foi afastada.

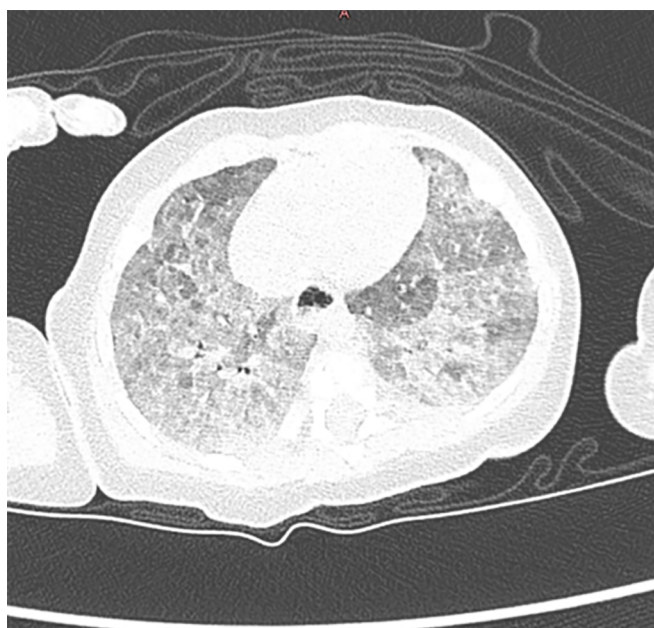


Figura 1. TC tórax. Legenda: Tomografia de tórax demonstrando padrão intersticial bilateral, com extensas áreas de atenuação em vidro fosco associado a espessamento septal liso, difusas em ambos os pulmões, configurando um padrão de "pavimentação em mosaico".

Paciente necessitou de oxigenoterapia, inicialmente com cânula nasal de alto fluxo e após mantido em cânula nasal simples, com difícil desmame. Recebeu, durante internação, Azitromicina (10mg/kg/dia) por 5 dias e Imunoglobulina Humana endovenosa conforme orientação da equipe da imunologia, com plano de infusão a cada 3 semanas, devido à suspeita inicial de imunodeficiência humoral.

Nos dias subsequentes, ampliada investigação com B-LBA, o qual teve inicialmente a identificação de protozoário, após confirmado se tratar do parasita *Lophomonas spp.* (Figura 2); bacterioscopia e cultura para germes típicos, PCR e BAAR para *Mycobacterium tuberculosis*, micológico e cultura para fungos negativos. Após discussão em equipe, iniciado metronidazol 40mg/kg/dia endovenoso, inicialmente com plano de uso por 10 dias e realização de nova TC para comparação com anterior.

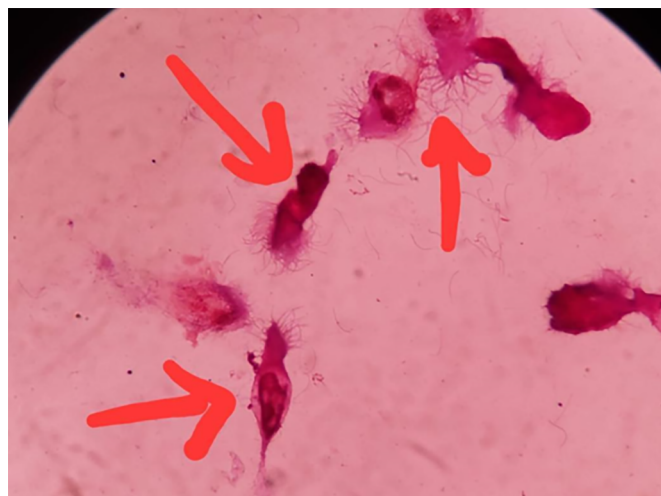


Figura 2. Imagem microscópica. Legenda: Visualização microscópica direta em lâmina de estruturas móveis de protozoários ciliados.

Paciente apresentou melhora lenta e gradual da taquidispnea ao longo dos dias em uso de metronidazol endovenoso, com desmame gradual da oxigenoterapia até tolerar ar ambiente. No 13º dia de uso do antimicrobiano, devido à melhora parcial do paciente, visto que manteve taquidispnea leve, feita nova TC de tórax, que evidenciou mesmo padrão intersticial, sendo então optado por manutenção de metronidazol por 21 dias e realização de biópsia pulmonar para ampliar investigação, a qual teve como resultado alterações no parênquima pulmonar sugerindo processo inflamatório crônico de padrão intersticial predominantemente linfocitário, com marcações imuno-histoquímicas inespecíficas, não sendo possível afastar agentes etiológicos infecciosos associados.

Durante a internação, também foi coletado sequenciamento de exoma completo, confirmando o diagnóstico de imunodeficiência primária combinada (deficiência de CD40 ligante ou Síndrome Hiper IgM ligada ao X) e excluindo outras doenças genéticas que poderiam cursar com taquidispnea e

doença pulmonar intersticial difusa em lactentes. Após o resultado, iniciou-se profilaxia com sulfametoxazol-trimetoprima e seguido acompanhamento com equipe de imunologia e pneumologia pediátrica.

DISCUSSÃO

Em revisão de literatura nos principais bancos de dados disponíveis (PubMed, SciELO, Google Scholar), observou-se escassez de artigos sobre lophomoníase pulmonar, assim como poucos relatos de casos, totalizando 35 trabalhos publicados no mundo, sete deles infantis. A maioria dos casos em adultos foram relatados na China e Irã, porém os encontrados na população pediátrica foram de outros países também: Peru, México, Afeganistão⁴⁻⁶.

Há cerca de 300 casos descritos no mundo e, segundo pesquisa realizada, 73 casos relatados em crianças. No Brasil, apenas um caso foi descrito em adulto, associado à infecção por COVID-19 e tuberculose e nenhum relatado na população pediátrica³. A maioria dos casos encontrados foram em pacientes do sexo masculino, assim como neste relato¹⁻⁸. Na literatura, enfatiza-se o parasita ser encontrado em intestino de baratas e cupins, o paciente descrito não tinha relato de tais insetos em domicílio ou ambientes frequentados por ele.

A lophomoníase pulmonar tem como quadro clínico manifestações pulmonares inespecíficas. Ding Q e Shen K (2020)¹, ao avaliarem 53 crianças infectadas, demonstraram que o principal sintoma apresentado foi tosse (74,4%), seguido de dispneia (18,9%), e quase 50% cursaram com febre. O paciente do caso supracitado teve como principal manifestação a taquidispnea e leucograma com eosinofilia, porém manteve-se durante todo o período afebril; é válido lembrar que a associação com imunodeficiência pode justificar a ausência da febre neste contexto⁷.

Na chegada à emergência, o paciente necessitou de oxigenoterapia devido à dessaturação e desconforto respiratório. Na literatura, há poucos relatos de crianças que necessitam de oxigênio suplementar nos primeiros dias de internação. No caso em questão, a clínica mais exuberante pode estar relacionada à coinfeção com outro agente, o rinovírus, e, também muito relevante, a imunodeficiência posteriormente diagnosticada.

A maior parte dos pacientes com Lophomoníase apresentam alterações em exames de imagem, tais como opacidades nodulares ou lineares espalhadas bilateralmente, podendo ser migratórias, opacidade em vidro fosco e/ou consolidações irregulares^{1,7}. No caso do paciente, o RX evidenciou padrão de infiltrado intersticial difuso bilateral e, em seguida, a TC de tórax constatou padrão de doença pulmonar difusa, com acometimento intersticial bilateral com vidro fosco e espessamento septal, sendo compatível com achados já descritos na literatura. Xue et al. (2014)⁷ analisaram o padrão radiológico de 67 TC de tórax, dos 131 casos de lophomoníase pulmonar descritos, sendo que a presença de opacidades em vidro

fosco foi o segundo achado mais frequente (32,8%). Já outro trabalho demonstrou acometimento de interstício e/ou vidro fosco em 7 das 50 crianças (14%) com infecção pulmonar por *Lophomonas* que realizaram exames de imagem¹.

Para confirmação diagnóstica da presença de protozoários no trato respiratório, as B-LBA são imprescindíveis^{1,5,9,10}. O diagnóstico é baseado na observação por microscopia direta de estruturas móveis de protozoários ciliados, assim como no caso descrito (Figura 2). Uma das limitações deste artigo baseia-se na impossibilidade de detecção metagenômica pela pequena quantidade de material do parasita para extração do DNA.

O tratamento padrão para a lophomoníase pulmonar é feito com uso de metronidazol, sendo na população pediátrica a dose de 30mg/kg/dia por 3-4 semanas, com relatos de uso inicialmente endovenoso, com posterior transição para via oral para término terapêutico a nível domiciliar^{4,7}. Neste relato, paciente fez uso de metronidazol endovenoso por 21 dias, com melhora parcial dos sintomas e desmame de oxigenoterapia até tolerância ao ar ambiente. Lactente teve alta nos dias subsequentes à suspensão do metronidazol para acompanhamento ambulatorial com equipe multiprofissional.

De acordo com os estudos analisados, imunodeficiências (sejam primárias ou não) são a comorbidade mais comum associada a essa infecção⁹. O paciente do caso relatado teve diagnóstico de uma síndrome Hiper IgM, imunodeficiência primária combinada que altera função dos linfócitos T e B, facilitando a presença de infecções oportunistas, principalmente em vias aéreas^{11,12}. É importante ressaltar que a lophomoníase pulmonar também pode ocorrer em pacientes sem comorbidades associadas³, como comprovado em estudo chinês que encontrou 49% de casos em crianças previamente híginas¹.

Há necessidade de alerta quanto à presença de infecções oportunistas por protozoários como o *Lophomonas ssp* em pacientes com infecções pulmonares sem melhora com tratamentos típicos, principalmente se há suspeita de doença imunossupressora associada e em regiões com condições de higiene e saneamento básico precários^{3,5}, devendo-se indicar precocemente a B-LBA.

A protozoose por *Lophomonas spp.* possui terapêutica direcionada, com alta eficácia e taxa de cura, sendo fundamental o diagnóstico precoce para adequado tratamento e melhora

de prognóstico. Devido à sua raridade e escassez de relatos na literatura, ressalta-se a necessidade de novos estudos para melhor entendimento do curso da doença, aumento da suspeição e aprimoramento dos métodos diagnósticos, a fim de instituir tratamento e acompanhamento precoces.

REFERÊNCIAS

1. Ding Q, Shen K. Pulmonary infection with *Lophomonas blattarum*. Indian J Pediatr. 2020;88(1):23-7.
2. Martinez-Girón R, van Woerden HC. *Lophomonas blattarum* and bronchopulmonary disease. J Med Microbiol. 2013;62(11):1641-8.
3. Nakhaei M, Fakhari M, Sharifpour A, Hezarjaribi HZ, Banimostafavi ES, Nazar E. Global Status of Emerging *Lophomonas* Infection: A Systematic Review of Reported Cases (1993-2020). Interdiscip Perspect Infect Dis. 2022;2022(3):1-9.
4. Sharifpour A, Zarrinfar H, Fakhari M, Zakariaei Z, Soleymani M, Banimostafavi ES, et al. First report of emerged pulmonary lophomoniasis in two Afghanian medical tourists. Clin Case Rep. 2022;10(3):e05607.
5. Saldaña NG, Javier FO, Larrauri FR, Trujillo DM, Montoya EV, De La Garza EA, et al. Bronchopulmonary infection by *Lophomonas blattarum* in a pediatric patient after hematopoietic progenitor cell transplantation: first report in Mexico. J Thorac Dis. 2017;9(10):899-902.
6. Araújo CP, Trindade AF, Oliveira GG, Araújo PS, Souza GL. Identificação de *Lophomonas spp* em lavado broncoalveolar de indivíduo portador de SRAG por SARS-CoV-2 associado a tuberculose pulmonar. Res Soc Dev. 2022;11(2):e46211222808.
7. Xue J, Li YL, Yu XM, Li DK, Liu MF, Qiu JF, et al. Bronchopulmonary infection of *Lophomonas blattarum*: a case and literature review. Korean J Parasitol. 2014;52(5):521-5.
8. Zepa R, Ore E, Patiño L, Espinoza YA. Hallazgo de *Lophomonas sp.* en secreciones del tracto respiratorio de niños hospitalizados con enfermedad pulmonar grave. Rev Peru Medicina Exp Salud Publica. 2010;27(4):575-7.
9. Failoc-Rojas VE, Iglesias-Osores S, Silva-Díaz H. *Lophomonas sp.* in the upper and lower respiratory tract of patients from a hospital in Lambayeque, Peru: clinical case studies. Respir Med Case Rep. 2020;31:101142.
10. Taheri A, Fakhari M, Nakhaei M, Banimostafavi ES, Masiha F, Ghaffari J, et al. First molecular approach to diagnose paediatric pulmonary lophomoniasis: a case series. Respirol Case Rep. 2022;10(5):e0943.
11. Gallarado LRS, Padilla SEE, Rosales FJE. Síndrome HIPER-IgM: experiência de 28 anos do Serviço de Imunologia 1977-2005. Instituto Nacional de Pediatría (INP). 2005.
12. Yazdani R, Fekrvand S, Shahkarami S, et al. The hyper IgM syndromes: Epidemiology, pathogenesis, clinical manifestations, diagnosis and management. Clin Immunol. 2019;198:19-30. DOI: <https://doi.org/10.1016/j.clim.2018.11.007>.