



## Osteomielite por *Bacillus licheniformis* e *Paenibacillus alvei* em uma criança imunocompetente: relato de caso

Osteomyelitis due to *Bacillus licheniformis* and *Paenibacillus alvei* in an immunocompetent child: case report

Eliseu Moreira Chisté<sup>1</sup>, Marina Juliana Pita Sassioto Silveira de Figueiredo<sup>2</sup>, Ana Lucia Lyrio de Oliveira<sup>3</sup>

<sup>1</sup> Médico Residente em ortopedia e traumatologia do Hospital Universitário Maria Aparecida Pedrossian, Universidade Federal do Mato Grosso do Sul – HUMA/UFMS

<sup>2</sup> Chefe do setor de Ortopedia Pediátrica do Hospital Universitário Maria Aparecida Pedrossian, Universidade Federal do Mato Grosso do Sul – HUMAP/UFMS

<sup>3</sup> Infecto Pediatra do Hospital Universitário Maria Aparecida Pedrossian, Universidade Federal do Mato Grosso do Sul – HUMAP/UFMS

<http://www.seer.ufms.br/index.php/pecibes/index>

\*Autor correspondente:  
Marina Juliana Pita  
Sassioto Silveira de  
Figueiredo,  
Hospital Universitário  
Maria Aparecida  
Pedrossian,  
Universidade Federal  
do Mato Grosso do Sul  
– HUMAP/UFMS.  
E-mail do autor:  
marinaetc2001@yahoo.  
com.br

Palavras-chave:  
Osteomielite.  
Coinfecção.  
Staphylococcus.  
Bacillus. Criança.

Key-words:  
Osteomyelitis.  
Coinfection.  
Staphylococcus.  
Bacillus. Child.

### Resumo

Este estudo teve como objetivo descrever a evolução de um caso de osteomielite crônica de fêmur por coinfeção de *Staphylococcus aureus*, *Bacillus licheniformis* e *Paenibacillus alvei* em uma criança de sete anos. Trata-se de um relato de caso, de um paciente de sete anos, admitido em agosto de 2020, no serviço de urgência de Ortopedia e Traumatologia do Hospital Universitário Maria Aparecida Pedrossian. O menor foi encaminhado do interior do estado, com fratura patológica na extremidade distal do fêmur esquerdo, associada a osteomielite por *Staphylococcus aureus*. Após tratamento realizado em caráter de urgência. Houve crescimento de *Bacillus licheniformis* e *Paenibacillus alvei*. Osteomielite causada por *Bacillus* é um exemplo de uma infecção mista de tecido profundo, uma vez que o *Bacillus* pode ser um copatógeno com um organismo de patogenicidade conhecida, tal como *Staphylococcus aureus*. A identificação de um patógeno em uma abordagem é essencial para a conduta terapêutica.

### Abstract

The aim of the study was to describe the evolution of a case of chronic osteomyelitis of the femur due to coinfection of *Staphylococcus aureus*, *Bacillus licheniformis*, and *Paenibacillus alvei* in a seven-year-old child. This is a case report of a seven-year-old patient, admitted in August 2020 to the Orthopedics and Traumatology emergency service of the Maria Aparecida Pedrossian University Hospital. After emergency treatment, the child was referred from another city with a pathological fracture of the distal left femur, associated with osteomyelitis of *Staphylococcus aureus*. There was growth of *Bacillus licheniformis* and *Paenibacillus alvei*. Osteomyelitis caused by *Bacillus* is an example of mixed deep tissue infection since *Bacillus* can be a copathogen with an organism of known pathogenicities, such as *Staphylococcus aureus*. The identification of a pathogen in an approach is essential for therapeutic management.

## 1. Introdução

Espécies de *Bacillus* não *anthracis* associadas a infecções clínicas são geralmente classificadas como contaminantes ou não patogênicos. Como oportunistas, no entanto, os organismos *Bacillus* podem causar infecções sistêmicas, incluindo bacteremia, endoftalmite e pneumonia. Após revisão de literatura, não foi encontrada nenhum caso de osteomielite causado pelo *Bacillus licheniformis* (Haydushka et al., 2012), um relato de casos de infecção associada à prótese de quadril, causada por *Paenibacillus alvei* (Reboli et al., 1989), e outros quatro casos de infecções em humanos causados por este tipo de bacilo (Antonelo e Weinstein, 1989, Coudron et al., 1991; Padhi et al., 2013; Wiedermann, 1987).

Relatamos de um caso de osteomielite crônica por *Staphylococcus aureus* e coinfeção por *Bacillus licheniformis* e *Paenibacillus alvei* em uma criança de sete anos, sendo um quadro inédito, sem relatos semelhantes na literatura. O crescimento desse tipo de patógeno nas culturas osteomusculares deve ser considerado um verdadeiro patógeno em crianças com osteomielite crônica que não têm uma resposta clínica à terapia anti-estafilocócica.

## 2. Relato de caso

Paciente masculino, 7 anos, previamente saudável, foi transferido de um hospital secundário da cidade de origem ao Hospital Universitário Maria Aparecida Pedrossian para o serviço de ortopedia e traumatologia infantil (HUMAP-UFMS) para investigação, avaliação e conduta por apresentar fratura patológica em fêmur distal esquerdo, devido há osteomielite por *Staphylococcus aureus*. Esse relato de caso foi aprovado pelo comitê de ética da instituição sob o CAAE 56201522.9.0000.0021.

Como história progressa, o paciente havia sido atendido no mês de agosto de 2020, no hospital de sua cidade, por apresentar dor em joelho esquerdo associado a dor em coxa, acompanhado de febre e claudicação. Ele foi submetido a tratamento cirúrgico de drenagem articular com desbridamento e drenagem de secreção espessa com grumos, iniciado antibioticoterapia com ceftriaxona intravenosa (1g a cada 12/12 horas) empiricamente, no mesmo hospital.

Após quatro dias, por não apresentar melhora clínica e laboratorial, foi realizado novo procedimento cirúrgico com saucerização de fêmur distal com drenagem de pouca quantidade de secreção purulenta. As culturas de sangue, líquido articular e óssea obtidas por esse procedimento foi positivo para *Staphylococcus aureus* sensível à meticilina, sendo confirmado o diagnóstico de artrite séptica e osteomielite aguda do fêmur distal esquerdo.

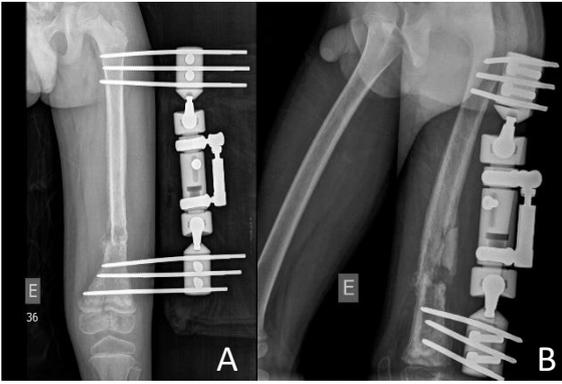
Após as culturas, foi realizada terapia associada com ceftriaxona e acrescentado oxacilina intravenosa (1g a cada 12/12 horas e 1g a cada 6/6h, respectivamente), por 2 semanas e completando o esquema por via oral, com amoxicilina com clavulanato (500/175mg de 12/12h), por mais 4 semanas. Após a interrupção da antibioticoterapia, ele voltou as suas atividades de rotina, apesar de aprestar limitação leve de amplitude de movimento residual do joelho esquerdo, mantendo realização de fisioterapia motora. Após realização de fisioterapias apresentava queixa de dor em região distal de coxa. Em outubro de 2020, dois meses após internação para tratamento da osteomielite, sofreu queda da própria altura, evoluindo com dor, aumento de volume, deformidade em coxa associada a incapacidade para deambular. Foi readmitido no mesmo hospital de sua cidade, com diagnóstico de fratura patológica, e referenciado até nosso serviço (HUMAP-MS), sendo admitido pra investigação e conduta.

O exame físico demonstrou o paciente em bom aspecto geral, afebril (temperatura de 36,7°C), pulso de 84ppm, frequência respiratória de 18irpm e pressão arterial de 100/60mmHg. Estudos complementares de laboratório revelaram os seguintes resultados conforme quadro abaixo (TABELA 1).

**Tabela 1.** Exames complementares de laboratório.

Eritrócitos	4,42milhões/mm <sup>3</sup>
Hematócrito	11,0g/dL
Leucócitos	8.030 mil/mm <sup>3</sup>
Neutrófilo	3.292,30 (41%)
Bastonete	562 (7%)
Linfócitos	3.292,30 (41%)
Plaquetas	302 mil/mm <sup>3</sup>
Alfa-1-glicoproteína ácida (Agpa)	103,70mg/dL
Proteína C Reativa (PCR)	3,75mg/L

A radiografia inicial e tomografia realizada na entrada estão representadas na (FIGURA 1). Nota-se a fratura patológica e imagens sugestivas de osteomielite crônica, com sequestro ósseo e elevação do periósteo de diáfise distal do fêmur esquerdo.



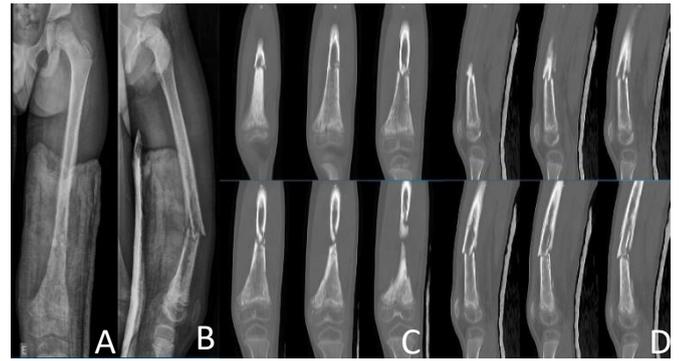
**Figura 1.** Radiografia em frente (A) e perfil (B), com fratura da diáfise distal do fêmur esquerdo; Tomografia – corte coronal (C) e sagital (D), mostrando a reação no interior do osso e com sequestro ósseo.

### 3. Resultados

Após realização de exames de laboratório, radiografias e tomografia, foi submetido a procedimento cirúrgico para realização de biópsia por punção com agulha de Jamshidi®, coletado secreção serosanguinolenta e fragmentos ósseo para pesquisa de fungos, bactérias aeróbias e anaeróbias, pesquisa de bacilos álcool ácido resistentes (BAAR) e anatomopatológico. Os resultados iniciais vieram com culturas negativas para bactérias, micobactérias e fungos, e anatomopatológico com reporte de fragmentos de tecido fibroso e lamelar ósseo com alterações reparativas e desvitalização associada, tecido fibro-muscular com processo inflamatório neutrofílico, tecido lamelar ósseo intersticial com edema e fibrose associada, descartando a possibilidade de fratura patológica por neoplasia.

Em novembro de 2020, o paciente foi submetido a tratamento cirúrgico com desbridamento extenso, e realizado fixação com um fixador externo dinâmico aplicado sobre a diáfise de seu fêmur (FIGURA 2), para estabilizar a fratura patológica. No intra-operatório, foi observado necrose óssea e muscular, tecido de granulação e drenagem de moderada quantidade de líquido serosanguinolento. Foi

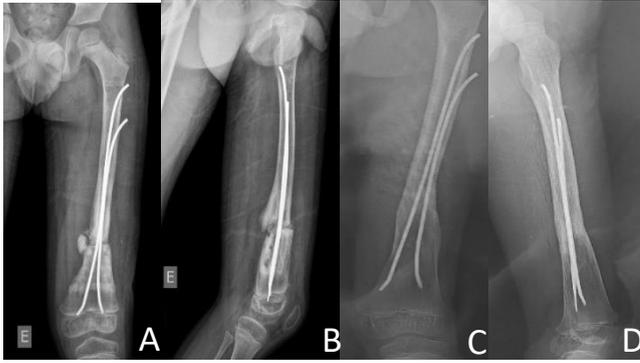
realizada a sequestrectomia. E, novamente, foi encaminhado material para nova cultura e avaliação histológica.



**Figura 2.** Radiografia AP (A) e P (B) do fêmur esquerdo, no pós-operatório imediato com fixador externo.

Após procedimento cirúrgico, iniciou antibioticoterapia intravenosa com vancomicina 500mg 6/6h, de forma empírica, mas baseado no crescimento de *Staphylococcus aureus* no histórico anterior. Em duas das amostras, houve crescimento de colônias de uma espécie de bacillus, em uma o *Bacillus licheniformis* e *Paenibacillus alvei*. Por falta de padronização hospitalar, não foi realizado o antibiograma e foi mantido o tratamento empírico, mas com troca de antibiótico para meropen, após discussão com a Infectologia Pediátrica. O novo laudo patológico mostrou tecido fibro-muscular com infiltrado inflamatório linfomononuclear, região de tecido fibromuscular com alterações reparativas e inflamatórias, fibrose intra-muscular e focos de osteomielite crônica inespecífica, presença de focos de necrose coagulativa e fibrose reacional, sem critérios de malignidade. O tratamento foi mantido por três meses, por via endovenosa.

Durante o acompanhamento, houve perda da redução inicial, com desvio em flexão, sendo então retirado o fixador externo e realizada correção com fixação com hastes intramedulares flexíveis (FIGURA 3). Neste procedimento, foram coletadas novas amostras de tecidos moles e fragmentos ósseos para culturas e anatomopatológico, com resultados negativos para todas as amostras.



**Figura 3.** Radiografias em AP (A) e perfil (B) do pós-operatório imediato e, AP (C) e perfil (D) do seguimento ambulatorial com consolidação do foco da osteotomia.

#### 4. Discussão

Os bacilos são organismos aeróbios, gram-positivos, esporulantes, e estão amplamente distribuídas no solo, no ar e na água. A espécie mais letal deste gênero é o *Bacillus anthracis*. Já os *Bacillus* não-*anthracis* não são reconhecidos como contaminantes microbiológicos, ou seja, são não patogênicos, uma vez que eles raramente causa doença invasiva em humanos (Farrar, 1963; Ihde e Armstrong, 1973; Pearson, 1970; Sliman et al., 1987; Tuazon et al., 1979). No entanto, em pacientes selecionados com histórias de abuso de drogas intravenosas, trauma, granulocitopenia, AIDS ou doença falciforme, os organismos *Bacillus* não patogênicos como *Bacillus licheniformis* e *Paenibacillus alvei* podem causar infecções oportunistas sistêmicas graves (Sliman et al., 1987):

O *Bacillus licheniformis* é um bastão aeróbio, Gram-positivo e formador de esporos, e é onipresente no meio ambiente (Haydushka et al., 2012). Eles são geralmente encontrados no solo, poeira, vegetais e água, e algumas espécies fazem parte da flora intestinal normal. É cada vez mais reconhecido como um patógeno humano que causa infecções graves em pacientes debilitados, imunocomprometidos ou traumatizados (Park et al. 2006). Foi isolado em casos de bacteremia, peritonite, intoxicação alimentar e infecções oculares (Haydushka et al., 2012).

O *Paenibacillus* é um gênero de bactérias Gram positivo, facultativo, aeróbias e formadoras de endosporos, pertencem a família *Paenibacillaceae*. O nome *paeni* foi derivado da palavra latina *paene* que significa “quase” e assim, os *Paenibacillus* são literalmente quase Bacilos. Por causa de seu genoma conservado que codifica seu rRNA 16S,

que difere do *Bacillus*, eles foram incluídos em um novo gênero chamado *Paenibacillus* que consiste em mais de 90 espécies. Muitas espécies deste gênero já foram isoladas de amostras clínicas entre as quais *Paenibacillus alvei* é o mais comum. *Paenibacillus alvei* também foi isolado em condições ameaçadoras da vida, como meningite e pneumonite (Coudron et al., 1991; Park et al., 1976).

*Paenibacillus alvei* originalmente isolado de favo de mel de abelhas e posteriormente no solo, produz citolisinas ativadas por tiol que pode ser responsável por sua virulência. Culturas mostrando isolamento de esporos Gram-positivos bacilos são geralmente considerados contaminantes, pois são onipresentes na natureza. Mas o isolamento desses bacilos em forma pura, mesmo sem doença preexistente ou condições imunocomprometidas não devem ser negligenciadas, e deve ser processado para identificação para reduzir a morbidade e mortalidade dos pacientes (Padhi et al., 2013). Há apenas um relato de caso envolvendo a parte ortopédica em uma infecção de prótese de quadril causada por *Paenibacillus alvei* descrito em 1989 (Reboli et al., 1989).

A osteomielite com Bacilo é um exemplo de uma infecção mista de tecido profundo, uma vez que o *Bacillus* pode ser um copatógeno com um organismo de patogenicidade conhecida, tal como *Staphylococcus aureus* (Farrar, 1963).

Os fatores de risco predisponentes típicos para infecções por bacilo incluem defesas de barreira do hospedeiro alteradas devido a feridas (traumático ou cirúrgico), queimaduras e cateteres de demora (hemodiálise ou derivações cerebrospinais) (Sliman et al., 1987; Tuazon et al., 1979).

Nosso paciente, com diagnóstico de osteomielite crônica devido a *S. aureus* e coinfeção com esses dois patógenos. Esta copatogenicidade de *Staphylococcus aureus* com esses *Bacillus* pode ser devido há exposição do paciente a essas cepas de bacillus com alguma porta de entrada, já que paciente rotineiramente visita a avó que reside em zona rural e está em contato com animais e solo ou a probabilidade de contaminação da ferida com o bacilo durante ou logo após as abordagens cirúrgicas realizadas anteriormente em agosto de 2020, no hospital de origem, sendo que é muito provável que a ferida tenha sido o local inicial de infecção de bacilo. É

interessante que os esporos de *Bacillus* espécies são altamente resistentes a desinfetantes de pele comuns usado no intraoperatório (Turnbull et al., 1977).

Os organismos *Bacillus* são conhecidos por serem contaminantes de feridas (Pearson, 1970); é bem provável que a ferida tenha sido a inicial local de inoculação em nosso paciente e, em seguida, por bacteremia, houve a disseminação da bactéria que causou a osteomielite.

Dados *in vitro* apoiam o uso da vancomicina e meropenem como a droga de escolha para terapia inicial para infecções por bacilo, mas existem resultados pendentes de suscetibilidade testes (Barson, 1989; Weber et al., 1988).

No nosso caso, não foi realizado antibiograma por ser de apresentação rara e não fazer parte do protocolo do laboratório de microbiologia a realização de antibiograma em caso de bactérias não protocoladas. A droga de escolha para o tratamento foi escolhida em conjunto com equipe da infectopediatria sendo trocada ajustada para o término do tratamento.

O isolamento de *Bacillus* em crianças com osteomielite crônica, particularmente aquele causado por uma espécie de *Staphylococcus*, e uma resposta clínica não favorável não deve ser descartada como contaminação quando é combinado com resultados laboratoriais de suporte e evidência clínica de infecção.

Para diferenciar fraturas patológicas com suspeitas de infecções com tumores deve-se realizar, biópsias de lesões e culturas para exames patológicos que são eficazes e essenciais.

Em resumo, a análise do material retirado de forma estéril de qualquer tecido, seja ósseo ou de partes moles, é fundamental para o tratamento com antimicrobiano correto, diminuindo custos para o Hospital e otimizando a convalescência do paciente.

## Agradecimentos

Agradeço a Deus que me deu oportunidades, força de vontade para superar todos os desafios, de conhecer pessoas

e professores com propósito de ensinar e contribuir para um melhor aprendizado. A todos que de alguma maneira colaboraram com a elaboração deste trabalho. Em especial a minha família pela paciência e dedicação, a equipe de ortopedia pediátrica que sempre que possível esteve disponível para compartilhar o seu conhecimento. Também a instituição por ter me dado a chance e todas as ferramentas que permitiram chegar a conclusão deste trabalho de maneira satisfatória.

## Declaração

Os autores declaram não haver conflitos de interesses em quaisquer processos de execução e publicação deste artigo.

Esse relato de caso foi aprovado pelo comitê de ética da instituição sob o CAAE 56201522.9.0000.0021.

## 5. Referências

- Antonello A, Weinstein GW. Successful treatment of *Bacillus* alvei endophthalmitis. *Am J Ophthalmol*. 1989;108(4):454–5.
- Barson WJ. Treatment of *Bacillus* infections [letter]. *Pediatrics* 1989;84(2):403–4.
- Coudron PE, Payne JM, Markowitz SM. Pneumonia and empyema infection associated with a *Bacillus* species that resembles *B. alvei*. *J Clin Microbiol*. 1991;29(9):1777–9.
- Farrar WE Jr. Serious infections due to "non-pathogenic" organisms of the genus *Bacillus*. *Am J Med*. 1963;34:134–41.
- Haydushka IA, Markova N, Kirina V, Atanassova M. Recurrent sepsis due to *Bacillus licheniformis*. *Atanassova MJ Glob Infect Dis*. 2012;4(1):82–3.
- Ihde DC, Armstrong D. Clinical spectrum of infection due to *Bacillus* species. *Am J Med*. 1973;55(6):839–45.
- Padhi S, Dash M, Sahu R, Panda P. Urinary Tract infection due to *Paenibacillus alvei* in a chronic kidney disease: a rare case report. *J Lab Physicians*. 2013;5(2):133–5.
- Park DJ, Yun JC, Baek JE, Jung EY, Lee DW, Kim MA, et al. Relapsing *Bacillus licheniformis* peritonitis in a continuous ambulatory peritoneal dialysis patient. *Nephrology (Carlton)*. 2006;11(1):21–2.
- Park SJ, Cong W, Lee SY. Bacterial and fungal species from cerebrospinal fluid in the past five years. *Korean J Pathol*. 1976;10:137–42.
- Pearson HE. Human infections caused by organisms of the *Bacillus* species. *Am J Clin Pathol*. 1970;53(4):506–15

Reboli AC, Bryan CS, Farrar WE. Bacteremia and infection of a Hip prosthesis caused by *Bacillus alvei*. *J Clin Microbio*. 1989;27(6):1395–6.

Sliman R, Rehm S, Shlaes DM. Serious infections caused by *Bacillus* species. *Medicine (Baltimore)*. 1987;66(3):218–23.

Tuazon CU, Murray HW, Levy C, Solny MN, Curtin JA, Sheagren IN. Serious infections from *Bacillus* species. *JAMA*. 1979;241(11):1137–40.

Turnbull PCB, French TA, Dowsett EG. Severe systemic and pyogenic infections with *Bacillus cereus*. *Br Med J*. 1977;25(1):1628–9.

Weber OJ, Saviteer SM, Rutala WA, Thomann CA. In vitro susceptibility of *Bacillus* spp. to selected antimicrobial agents. *Antimicrob Agents Chemother* 1988;32(5):642–5.

Wiedermann BL. Non-anthrax *Bacillus* infections in children. *Pediatr Infect Dis J*. 1987;6(2):218–20.