

# Mania de Bell - Conceptualização a Propósito de um Caso Clínico

## *Bell's Mania – Conceptualization About a Clinical Case*

Tiago Ferreira\* , Sara Dehanov\*, Marta Nascimento\*, Bruno Trancas\*, Raquel Ribeiro\*, Teresa Maia\*

### RESUMO

**Introdução:** A Mania de Bell (ou “mania delirante”) constitui um quadro clínico grave, que consiste sucintamente na sobreposição de sintomas de *delirium* e de mania. Vários autores deram contributos para a definição desta entidade nosológica, não obstante este ser um quadro clínico ainda mal compreendido, não existindo guidelines diagnósticas e terapêuticas, nem se conhecendo muito da sua etiopatogénese.

**Objectivos:** Apresentar um caso de clínico de um doente que foi admitido numa enfermaria de psiquiatria, apresentando sintomatologia compatível com Mania de Bell, sendo ainda discutida a marcha diagnóstica e terapêutica do caso e feita uma revisão da literatura.

**Métodos:** Revisão não sistemática de artigos pesquisados no PubMed.

**Resultados e Conclusões:** O estabelecimento da Mania de Bell como subtipo de episódio maníaco seria útil não apenas para uniformização do seu diagnóstico como também para formulação de recomendações terapêuticas adequadas e maior informação à comunidade científica sobre este quadro clínico.

**Palavras-Chave:** Mania de Bell; Delirium; Doença Bipolar; Catatonia.

### ABSTRACT

**Introduction:** *Bell's Mania (or “delusional mania”)* is a serious clinical condition, which consists succinctly in the overlapping of symptoms of *delirium* and mania. Several authors have contributed to the definition of this nosological entity, although this clinical condition is still poorly understood and there are no diagnostic and therapeutic guidelines, nor much is known of its etiopathogenesis.

**Aims:** We present a clinical case of a patient who was admitted to a psychiatric ward, with a presentation compatible with Bell's mania; the diagnostic and therapeutic progress of the case was discussed and a review of the literature was made.

**Methods:** Non-systematic review of articles searched for in PubMed.

**Results and Conclusions:** The establishment of Bell's mania as a subtype of manic episode would be useful not only for standardization of its diagnosis but also for the

\* Serviço de Psiquiatria, Hospital Prof. Doutor Fernando Fonseca;  tiagofilipeferreira17@hotmail.com.

Recebido / Received: 11/01/2017 • Aceite / Accepted: 25/05/2017

*formulation of appropriate therapeutic recommendations and to provide more information to the scientific community about this clinical condition.*

**Key-Words:** *Bell's Mania; Delirium; Bipolar Disorder; Catatonia.*

## INTRODUÇÃO

A Mania de Bell constitui um quadro clínico grave, que consiste sucintamente na sobreposição de sintomas de *delirium* e de mania. Trata-se de uma entidade ainda mal delineada, sem descrição diagnóstica e não contemplada em manuais como a DSM-IV-TR ou DSM-5<sup>1,2</sup>. No entanto, a ICD-10 (versão 2016) permite classificá-la (embora não a descreva) como F30.8 (Mania de Bell, integrada nos subtipos de episódio maníaco)<sup>3-5</sup>. Ainda que tenha sido considerada rara no passado, um estudo de 1999 desenvolvido por Fink et al. apontou para sintomas de *delirium* em 15-20% dos episódios maníacos agudos. No entanto, a ausência de critérios diagnósticos estabelecidos torna qualquer quantificação possivelmente subestimada<sup>6</sup>.

Em termos históricos, o reconhecimento como entidade clínica remonta a trabalhos de François-Emmanuel Fodéré (1764-1835) em 1817. Em 1832, Louis-Floretin Calmeil (1798-1895) descreveu alguns casos<sup>5</sup>. No entanto, seria apenas em 1849 que Luther Bell (1806-1862) descreveria esta condição de forma mais precisa, apresentando casos clínicos mais detalhados. Bell reportou 40 de 1700 pacientes admitidos em uma unidade hospitalar que teriam características sugestivas deste quadro - destes 75% viriam a falecer, indiciando a potencial mor-

talidade elevada associada a esta condição<sup>3,4,6</sup>. Bell descrevia a condição da seguinte forma: “(...) O doente come tão pouco, dorme tão pouco, e exercita-se com constante ansiedade e inquietude, que acaba por definhar dia após dia. A emaciação prossegue mais rapidamente que nos casos de mania ou febre ou *delirium* tremens. Após duas a três semanas, o paciente morre, com diarreia ocasionalmente nos dias prévios. Por outro lado, se a tendência for favorável, o paciente entra em convalescença neste mesmo período, e emerge num estado de absoluta recuperação, como aconteceria no *delirium* de qualquer doença aguda. (...)”<sup>7,8</sup>. Em 1921, Emil Kraepelin (1856-1926) cunharia o termo “delirious mania”, considerando-a um dos três tipos de mania, juntamente com a aguda e a delirante (“delusional”)<sup>4</sup>. Trabalhos posteriores tentariam compreender melhor esta condição. Slather e Roth (1969) descreveram-na como uma forma extrema e potencialmente fatal do episódio maníaco, em que a confusão e turvação da consciência “parecendo um *delirium*” substituíam os sintomas clássicos da mania<sup>6</sup>. Em 1980, Bond descreveu três casos de Mania de Bell, e sugeriu um conjunto de critérios diagnósticos (vide Quadro I)<sup>3,9</sup>.

### Quadro I. Critérios diagnósticos de Bond (1980)<sup>9</sup>.

#### Critérios diagnósticos de Bond para Mania de Bell

- Início agudo dos sintomas
- Presença de mania
- Características de *delirium*
  - História de mania
  - História familiar de doença bipolar
  - Resposta ao tratamento para mania

Mann (1986) descreveu a Mania de Bell como uma síndrome clínica com diversas potenciais causas, desde doenças médicas a perturbações psiquiátricas<sup>6,10</sup>. Mais recentemente, Fink e Taylor (2006) consideraram a Mania de Bell uma forma específica de catatonía<sup>11-13</sup>.

Com base nesta breve resenha histórica podemos concluir que este é um quadro clínico ainda mal compreendido, não existindo guidelines diagnósticas e terapêuticas, nem se conhecendo muito da sua etiopatogénese. Nem mesmo a sua nomenclatura escapa à controvérsia, existindo uma miríade de designações sugeridas: Mania de Bell, catatonía excitada, catatonía letal, catatonía maligna, mania delirante, *delirium* grave, *delirium* colapsante, síndrome de exaustão, mania aguda delirante, entre outras<sup>3,4,7</sup>.

Apresenta-se um caso de clínico de um homem de 30 anos que foi admitido numa enfermaria de psiquiatria, apresentando um quadro clínico compatível com Mania de Bell. É discutida a marcha diagnóstica e terapêutica do caso e feita uma revisão da literatura.

Os autores realizaram uma revisão não sistemática da literatura usando as seguintes palavras-chave: “Bell Mania”, “*delirium*”, “bipolar disease”, “catatonía”, “maniac episode”.

## CASO CLÍNICO

O paciente era um homem de 30 anos, que vivia sozinho, desempregado à data de admissão no Serviço de Urgência (SU). Não apresentava antecedentes médico-cirúrgicos de relevo, nem estaria a cumprir qualquer medicação habitual. Desconheciam-se antecedentes familiares psiquiátricos. Não se apuraram atrasos no desenvolvimento psicomotor. Com-

pletou o 9º ano de escolaridade sem reprovações e concluiu em 2016 curso de reparação e instalação de hardware. Delineou-se uma vida laboral algo instável, com trabalhos que duravam cerca de um ano, embora alegasse que os abandonava por livre vontade. Afirmava fazer consumos de canabinóides regulares (aproximadamente 10 cigarros de haxixe por dia), embora ausentes nos dez dias anteriores a recorrer ao SU, negando outros consumos tóxicos de relevo.

O primeiro contacto com a Psiquiatria ocorreu em 2008, com internamento de um dia, após viagens erráticas pelo país à procura da sua namorada, desconfiado que esta o estivesse a trair. À observação em SU, nessa data, apresentava-se desorientado, com discurso ininterrupto e sob pressão, e com privação de sono nos três dias anteriores. Teve alta com diagnóstico de perturbação da personalidade, sendo seguido em consulta até 2010, medicado com valproato de sódio e olanzapina. Segundo a mãe, em entrevistas posteriores, o doente teve uma “evolução flutuante...alturas em que estava melhor e outras pior” (sic).

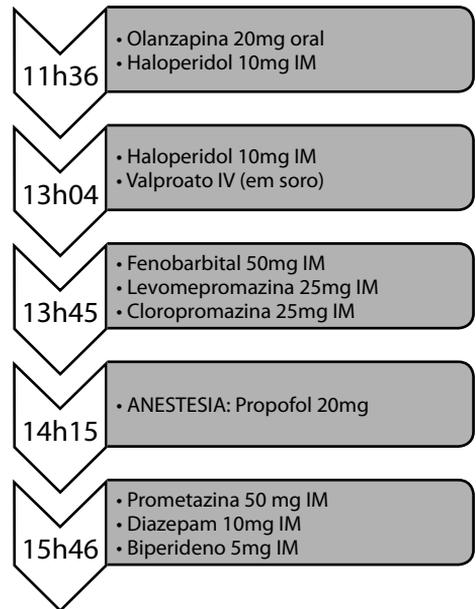
Em 2010, e aquando do falecimento da irmã, desenvolveu interesse em temas de natureza esotérica e mística, enquadrados em subculturas vigentes. Nesta altura terá havido deterioração do quadro, com maior isolamento, instalação de humor depressivo e incremento do consumo de canabinóides. Abandonou o seguimento psiquiátrico e a medicação, pelo que a informação sobre o quadro clínico até 2016 é pouco precisa.

O doente recorreu novamente ao SU em Abril de 2016; segundo a mãe, que o acompanhava, encontrava-se em jejum desde a semana ante-

rior, com insónia e agressividade dirigida aos pais (“diz ao pai que lhe arranca os olhos e come-os... revirou os olhos, colocou-se de cócoras em casa em posição de ataque” (sic)).

O doente apresentava-se com postura defensiva, querelante e hostil, com contacto distónico e evidenciando-se humor disfórico. Na avaliação do curso do pensamento apurava-se perda da tendência determinante do pensamento, com fuga de ideias, sendo evidente ideação deliróide de conteúdo megalómano e místico (“Este hospital é meu...você todos trabalham para mim... sou Deus e queria mandar nisto tudo ... não como há uma semana, tenho apenas a minha fé” (sic)). Apurou-se ainda actividade alucinatoria auditivo-verbal. Sem crítica para o estado mórbido - não concordava com necessidade de internamento e tratamento – pelo que foi internado compulsivamente.

À entrada no internamento, o doente apresentava-se por períodos obnubilado, com períodos de intensa agitação, ficando nestes suado e hipervigil, com falsos reconhecimentos, distracibilidade exuberante, discurso hiperfónico, e com ideação deliróide de grandiosidade. Apurou-se desorientação no tempo e no espaço. Sem instabilidade autonómica, com excepção de períodos de taquicardia durante a agitação; sem temperaturas superiores a 38°C. Apresentava elevado risco de auto e heteroagressividade. Foi necessária contenção física, sendo que removeu as contenções diversas vezes, e farmacológica. A agitação psicomotora só ce-deu consideravelmente após apoio da anestesiologia, com administração de propofol (vide Figura 1).



**Figura 1.** Fármacos administrados nas primeiras horas do episódio (IM – intramuscular; IV – intravenoso).

Durante o internamento assistiu-se a uma redução progressiva da agitação psicomotora (dois a três dias), efectuando-se ajuste terapêutico paralelo com redução/suspensão progressiva da medicação. Os estudos analíticos realizados (nomeadamente de consumos de estupefacientes), ECG e TAC-CE não revelavam quaisquer anomalias.

À data de alta (após doze dias), o doente encontrava-se consciente, colaborante e orientado em todas as referências, com humor eutímico, com períodos de alguma expansividade que pareciam ser congruentes com o estado pré mórbido do paciente, e amnésia para o

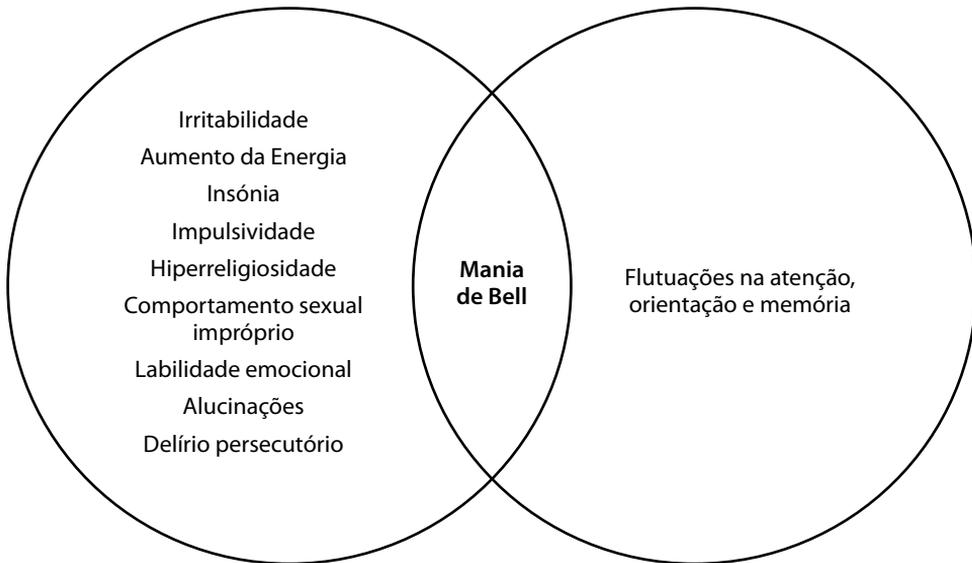
episódio ocorrido. Não se apuravam alterações da forma, curso, conteúdo e posse do pensamento, nem da sensopercepção. Apresentava *insight* para a doença mental e para a necessidade de tratamento, tendo tido alta medicado com valproato de sódio 500 mg 3id e risperidona 2 mg 3id.

Como diagnóstico de saída, apontamos para provável episódio de Mania de Bell no contexto de doença bipolar tipo I.

## DISCUSSÃO

Como referido, não existem ainda critérios específicos para o diagnóstico de Mania de

Bell. O seu início é rápido, com rápida progressão dos sintomas, e curso geralmente flutuante; o doente tem pouca ou nenhuma memória para o episódio após resolução. O quadro clínico reflecte a sobreposição de sintomatologia típica de um episódio de mania aguda e de *delirium*, com características de ambos (vide Figura2)<sup>6</sup>. Enquanto alguns autores estabelecem que o diagnóstico da entidade pressupõe exclusão de possíveis causas médicas, neurológicas ou toxicológicas, outros defendem que a patologia orgânica e consumos possam efectivamente desencadear episódios de mania de Bell.<sup>4,6</sup>



**Figura 2 .** Sintomatologia associada a Mania de Bell por sobreposição entre episódio maníaco agudo e *delirium*<sup>5</sup>.

No seu diagnóstico diferencial enquadram-se diversas entidades nosológicas (vide Quadro II). Neste contexto, torna-se fundamental a exclusão de síndrome maligno dos neurolépticos e síndrome serotoninérgica em doentes expostos a antipsicóticos e antidepressivos ISRS (inibidores selectivos da recaptação de serotonina) respectivamente<sup>6</sup>.

**Quadro II.** Diagnóstico diferencial de Mania de Bell<sup>3,4</sup>.

Diagnóstico diferencial
Infecções do Sistema Nervoso Central
Alterações metabólicas
Epilepsia
Neoplasias do Sistema Nervoso Central
Traumatismo cranioencefálico
Intoxicações
Abstinência de substâncias (benzodiazepinas, álcool, anfetaminas ...)
Síndrome maligno dos neurolépticos
Síndrome serotoninérgica
<i>Delirium</i> agitado
Demência
Episódios maníacos ou mistos
Esquizofrenia e outras psicoses agudas (sobretudo ciclóides)

As complicações são mais comuns quando, durante o episódio de Mania de Bell, se encontram presentes características de catatonia. São especialmente preocupantes os quadros

que se apresentam com instabilidade do sistema nervoso autónomo e hipertermia. Algumas potenciais complicações ameaçadoras de vida são rabdomiólise, insuficiência renal, coagulação intravascular disseminada, eventos tromboembólicos, falência multiorgânica sistémica e coma. Todos estes requerem monitorização próxima, nomeadamente numa Unidade de Cuidados Intensivos<sup>6,14</sup>.

Deve-se referir a falta de consenso quanto à distinção com excitação catatónica. Enquanto Bonner e Kent (1936) haviam proposto uma sobreposição entre catatonia e mania de Bell, sem referir elementos diferenciadores, outros autores apontaram a presença de *delirium* como indicadora de Mania de Bell, e outros sugeriram ainda que os quadros em que a catatonia fosse dominante poderiam ser considerados como excitação catatónica, ao invés de Mania de Bell<sup>12,13,15</sup>.

O tratamento pode ser esquematizado conforme dois grandes grupos:

1. Doentes com catatonia ou instabilidade autonómica, hipertermia e rigidez (forma maligna): requerem tratamento rápido e descontinuação dos antipsicóticos. A electroconvulsoterapia é o tratamento de escolha para pacientes que manifestam catatonia, qualquer que seja a etiologia. O uso de benzodiazepinas (nomeadamente lorazepam) pode conduzir a uma melhoria clínica, embora a eficácia seja inferior à da electroconvulsivoterapia<sup>1,3,10,12,13</sup>;
2. Doentes sem instabilidade autonómica, hipertermia ou rigidez (forma não maligna): estes doentes respondem usualmente aos estabilizadores de humor e antipsicóti-

cos atípicos, que demoram três a quatro semanas a atingir uma resposta clínica adequada; embora não seja de 1ª linha, o propofol é útil em casos refractários<sup>2,3,10-13</sup>.

No caso clínico apresentado, a forma manifesta corresponderia à variante não maligna, sendo que houve boa resposta à administração de antipsicóticos e estabilizadores de humor a longo prazo; no entanto, no episódio de agressividade inicial, apenas o propofol permitiu controlo da agitação psicomotora.

Por fim, de sublinhar que esta condição pode resultar em morte, pelo que deve ser tratada agressivamente, nomeadamente com recurso a electroconvulsoterapia se indicado<sup>4</sup>. No entanto, a mortalidade e morbilidade elevadas descritas em trabalhos do séc. XIX não são observadas nos dias de hoje, provavelmente graças aos avanços terapêuticos e à melhor acuidade diagnóstica da medicina actual, que minimiza o diagnóstico erróneo de quadros orgânicos (por ex. infecções do Sistema Nervoso Central) como psiquiátricos<sup>16</sup>.

A Mania de Bell é uma entidade cujo reconhecimento é relevante quando se aborda o doente agitado, nomeadamente com sinais de catatonia. O seu estabelecimento como subtipo de episódio maníaco seria útil não apenas para uniformização do seu diagnóstico – nomeadamente para fins de melhor investigação epidemiológica e clínica – como também para formulação de recomendações terapêuticas adequadas e maior informação à comunidade científica sobre este quadro clínico.

### **Conflitos de Interesse / *Conflicting Interests:***

Os autores declaram não ter nenhum conflito de interesses relativamente ao presente artigo. / *The authors have declared no competing interests exist.*

### **Fontes de Financiamento / *Funding:***

Não existiram fontes externas de financiamento para a realização deste artigo. / *The authors have declared no external funding was received for this study.*

### **Bibliografia / *References***

1. American Psychiatric Association. Diagnostic and statistical manual of mental disorders. 5th ed. Washington, DC; 2013.
2. American Psychiatric Association. Diagnostic and statistical manual of mental disorders. 4th ed. Washington, DC; 2000.
3. Lee B. Huang S. Hsu W. Chiu N. Clinical features of delirious mania : a series of five cases and a brief literature review. BMC Psychiatry; 2012; 12(1):1-9. [Available from: BMC Psychiatry]
4. Bipeta R. Khan MA. Case Report Delirious Mania : Can We Get Away with This Concept ? A Case Report and Review of the Literature. Case Rep Psychiatry. 2012; 2012:720354. [Published online 2012 Nov 2012]
5. International Statistical Classification of Diseases and Related Health Problems (ICD) [Internet]. 2016. Available from: <http://apps.who.int/classifications/icd10/browse/2016/en#/F30.8>.
6. Jacobowski NL, Hecker S, Bobo W V. Delirious Mania : Detection , Diagnosis , and Clinical management in the Acute Setting. J Psychiatry Pract. 2013;19(1):15–28.

7. Jarvie HF, Hood MC. Acute delirious Mania. *Am J Psychiatry*. 1952 Apr;108(10):758-73.
8. Kraines SH. Bell's Mania (Acute Delirium). *Am J Psychiatry*. 1934 July; 91(1): 29-40
9. Bond TC. Recognition of Acute Delirious Mania. *Arch Gen Psychiatry*. 1980 May;37(5):553-4.
10. Mann SC, Caroff SN, Bleier HR, Welz WK, Kling MA. Lethal Catatonia. *Am J Psychiatry*. 1986 Nov; 143 (11):1374-81.
11. Taylor MA, Fink M. Catatonia in Psychiatric Classification : A Home of Its Own. *Am J Psychiatry*. 2003 Jul; 160(7):1233-41.
12. Fink M. Delirious mania. *Bipolar Disord*. 1999 Sep;1(1):54-60.
13. Kimm TS, Okusaga OO, Schulz PE. Delirious Mania in Bipolar Disorder. *Prim Care Companion CNS Disord*. 2017 Mar 2; 19(2).
14. Gross AF, Smith FA, Stern TA. Dread complications of catatonia: a case discussion and review of the literature. *Prim Care Companion J Clin Psychiatry*. 2008;10(2):153-5.
15. Bonner CA, Kent GH. Overlapping symptoms in a catatonic excitement and manic excitement. *Am J Psychiatry*. 1936 May;92(6):1311-22.
16. Karmacharya R, England ML, Öngür D. Delirious mania : Clinical features and treatment response. *J Affect Disord*. 2008 Aug;109(3): 312-6.