

**Introdução:** O aumento das concentrações de frutose em tecidos e líquidos biológicos é uma característica bioquímica marcante da frutosemia, cujas principais manifestações clínicas são as anormalidades neurológicas com atraso do desenvolvimento. **Objetivos:** Investigamos os efeitos *in vitro* e *in vivo* da frutose sobre a atividade da enzima acetilcolinesterase (AChE) em diferentes estruturas cerebrais de ratos ao longo do desenvolvimento. **Metodologia:** Para os experimentos *in vitro*, a frutose foi adicionada em diferentes concentrações no meio de incubação (0,1 – 5mM). Para os experimentos *in vivo*, os ratos receberam uma única injeção subcutânea de frutose (5 µmol/g) e, uma hora após, sofreram eutanásia. O grupo controle recebeu injeção de solução salina no mesmo volume (0,9 %). **Resultados:** Foi observado que a frutose provocou uma inibição da atividade da AChE *in vitro* em cortex cerebral de ratos de 30 dias de idade, mesmo em baixas concentrações (0,1 mM). Por outro lado, a atividade da AChE encontrou-se aumentada em córtex cerebral de ratos de 30 e 60 dias de idade que receberam administração de frutose. Finalmente, observou-se que a atividade da AChE não foi alterada pela administração de frutose no córtex cerebral, estriado e hipocampo de ratos de 15 dias de vida. **Conclusão:** Nossos resultados apontam um efeito duplo causado pela frutose sobre a atividade da AChE. Pode-se especular que esse efeito esteja envolvido nas disfunções neurológicas observadas em pacientes com frutosemia.

Palavras-chave: frutose, acetilcolinesterase, cérebro