

# Balanitis xerótica obliterante, patología infradiagnosticada de relevancia clínica

E. Calleja Aguayo, A.E. Hernández Calvarro, C. Marhuenda Irastorza

Servicio de Cirugía Pediátrica. Unidad de Urología. Hospital Universitario Son Espases. Palma de Mallorca.

## RESUMEN

**Objetivos.** La balanitis xerótica obliterante (BXO) es una enfermedad crónica inflamatoria, variante del liquen escleroso, que afecta a los genitales masculinos. Presentamos nuestra incidencia de BXO y una revisión de la literatura.

**Material y métodos.** Estudio retrospectivo descriptivo de pacientes operados de circuncisión entre abril de 2013 y abril 2014 por fimosis persistente a los 4 años, clínica miccional o con la erección. Se enviaron muestras para estudio patológico de aquéllos con sospecha clínica de BXO.

**Resultados.** Se circuncidaron 339 pacientes. La edad media de intervención fue 6,5 años (Mediana 5 y Moda 4). Once casos (3,9%) fueron diagnosticados de BXO, con una edad media de 8,2 años (6-12 años). Se enviaron 16 muestras (5,7%) para análisis anatomopatológico (AP) por sospecha clínica de BXO, 9 presentaban fimosis cicatricial (2 con estenosis del meato uretral), 1 balanitis, 2 fimosis con prepucio o glande descamativo, 1 retención urinaria aguda por balanitis y 1 reestenosis prepucial. En 10 casos se confirmó liquen escleroatrófico, 2 inflamaciones crónicas, 1 patrón liquenoide y otro normal. Tres pacientes precisaron, además, meatotomía. Los pacientes con BXO fueron tratados con corticoides tópicos postcircuncisión en 10 casos.

**Conclusiones.** Nuestra incidencia es baja en relación a la literatura (10-40% según las series) ya que no remitimos a estudio AP el prepucio de forma rutinaria. La sospecha clínica subestima la incidencia real de BXO hasta en 49% según algunos autores. La circuncisión es curativa en la mayoría de los casos con BXO. La BXO además de producir estenosis del meato y alteraciones uretrales, está relacionado con una alta incidencia de carcinoma de pene.

**PALABRAS CLAVE:** Balanitis xerótica obliterans; Niños.

**Correspondencia:** Dra. Elena Calleja Aguayo. Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Son Espases. Carretera de Valldemossa, 79. 07210 Palma de Mallorca. E-mail: dracalleja@gmail.com

Presentado en el 54 Congreso de la Sociedad Española de Cirugía Pediátrica celebrado el 27 y 28 de Mayo de 2015 en Alicante

Recibido: Mayo 2015

Aceptado: Abril 2016

## BALANITIS XEROTICA OBLITERANS, UNDERDIAGNOSED PATHOLOGY OF CLINICAL RELEVANCE

### ABSTRACT

**Objectives.** Balanitis xerótica obliterans (BXO) is a chronic inflammatory disease, a genital form of Lichen Sclerosus in males.

**Material and methods.** This retrospective and descriptive analysis was carried out by review of the medical records of boys who underwent circumcision from April 2013 to April 2014. The study group consisted of boys that were circumcised due to persistent phimosis at 4 years of age, urinary symptoms or painful erection. The histopathological examination was performed only in patients with clinical suspicion of BXO.

**Results.** 339 patients were circumcised. The mean age of surgery was 6.5 years (Median 5, Mode 4). BXO was confirmed in eleven boys (3.9%) out of 16 biopsies (5.7%), with a mean age of 8.2 years (6-12). Of all the biopsies that were analysed for clinical BXO, 9 had scarring phimosis (2 meatal stenosis), 2 had balanitis and 1 had acute urinary retention, 2 presented descamative foreskin or glands, and 1 had recurrent phimosis. The histopathological examination revealed lichen sclerosus in 10 patients. Meatotomy was performed in 3 boys, one of them in during the follow-up period. 10 patients with BXO were treated with topical corticosteroid cream after circumcision.

**Conclusions.** Our incidence is low in compared to literature (10-40%) as we did not refer the foreskin routinely to histopathological analysis. The clinical suspicion underestimates the incidence of BXO up to 49%. The circumcision is curative in most cases with BXO. The BXO may produce meatostenosis and urethral abnormalities, and it is associated with a high incidence of penile carcinoma of the penis.

**KEY WORDS:** Balanitis xerótica obliterans; Children.

## INTRODUCCIÓN

La balanitis xerótica obliterante (BXO) es una enfermedad crónica inflamatoria de causa desconocida que puede afectar al prepucio, glande, meato o uretra. Es la variante masculina del Liquen escleroso. Su nombre deriva de tres componentes de la enfermedad, balanitis –inflamación crónica del glande–, xerótica –aspecto anormalmente seco de la lesión–, obliterante –asociación ocasional a endoarteritis<sup>(1)</sup>. La verdadera incidencia es incierta. En niños con fimosis se estima una incidencia entre 9 y 50% según las series<sup>(2-4)</sup>.

El diagnóstico se basa en la sospecha clínica, fimosis secundaria, aspecto xerótico del glande y el prepucio, disuria y episodios de retención urinaria. Su diagnóstico se confirma con el estudio histopatológico del prepucio o glande que revela hiperqueratosis y atrofia de la capa basal de la epidermis con pérdida de las fibras elásticas y alteraciones del colágeno con infiltración inflamatoria.

El tratamiento clásico es la cirugía, desde la circuncisión hasta operaciones más complejas de la uretra. En los últimos años se apoya en el uso de tratamientos tópicos coadyuvantes antes o después de la cirugía o como tratamiento conservador.

## MATERIAL Y MÉTODOS

Se ha realizado un estudio retrospectivo descriptivo de todos los pacientes operados, en nuestro centro, de circuncisión entre abril de 2013 y abril de 2014. Las indicaciones médicas han sido fimosis persistente en niños mayores de 4 años, problemas con la erección, balanitis, disuria, “balooning”, parafimosis y prepucio redundante en pacientes intervenidos de hipospadias. El estudio histológico solo se realizó en aquellos pacientes con sospecha clínica de BXO.

La técnica para la circuncisión fue la resección de piel y mucosa necesaria para corregir el defecto prepucial. Todas se realizaron bajo anestesia general.

Se han analizado datos clínicos, edad, indicación médica, tipo de tratamiento, cirugía y/o tratamiento tópico, estudio anatomopatológico (AP) y complicaciones.

## RESULTADOS

Se han registrado 339 pacientes. La edad media de intervención fue 6,5 años (Mediana 5 y Moda 4). La indicación médica más frecuente fue la fimosis con 277 casos (82,3%), en ella se engloba el anillo prepucial estrecho, fimosis cicatricial y fimosis asociada a clínica miccional. Entre la clínica miccional destaca la balanitis 3,8%, “balooning” 2,4%, disuria 1,5%. Un caso debutó con retención urinaria aguda e infección de orina. Se operaron también 7 casos con historia de parafimosis previa, 48 pacientes con problemas de erección por frenillo corto y 7 pacientes con hipospadias.

Se realizaron 279 circuncisiones (82,3%) con resección de piel y mucosa, 16 plastias prepuciales tipo Duhamel (4,7%) y 44 plastias de alargamiento de frenillo (13%). Además se llevaron a cabo en el mismo acto quirúrgico 2 meatotomías (0,9%) por estenosis de meato concomitante, 3 plastias prepuciales por pene enterrado y 1 uretroplastia por megameato.

De las 279 circuncisiones realizadas, once casos (3,9%) fueron diagnosticados de BXO con confirmación AP en 10. La edad media fue de 8,2 años (6-12 años). En 5 pacientes con BXO se observó afectación glandar y/o del meato. Tres pacientes diagnosticados de BXO precisaron, además, mea-

totomía. Uno de ellos se intervino de meatotomía durante el seguimiento asociando resección completa del prepucio residual. Los pacientes con BXO fueron tratados con corticoides tópicos postcircuncisión en 10 casos.

Se enviaron 16 muestras (5,7%) para análisis anatomopatológico (AP) por sospecha clínica de BXO, 9 presentaban fimosis cicatricial (2 con estenosis del meato), 1 balanitis, 2 fimosis con prepucio o glande descamativo, 1 reestenosis prepucial, 1 caso con retención urinaria aguda por balanitis y otros 2 casos de fimosis aislada, una secundaria.

En 10 casos se confirmó el análisis AP para liquen escleroatrófico (BXO), 4 inflamaciones crónicas, 1 patrón liquenoide y otro normal.

El paciente que debutó con retención urinaria aguda por balanitis desarrolló una pielonefritis febril con afectación renal en el estudio de medicina nuclear y precisó de nueva cirugía por estenosis de meato. El estudio AP no fue concluyente para liquen escleroatrófico ya que recibió tratamiento tópico con corticoides previo a la cirugía.

Durante el seguimiento de un año, un paciente desarrolló una estenosis de meato que precisó cirugía y se asoció resección de prepucio residual, los demás evolucionaron satisfactoriamente con tratamiento tópico con corticoides (clobetasol 0,05%). En un paciente con BXO se perdió el seguimiento.

## DISCUSIÓN

La incidencia real de la BXO es incierta ya que no existen estudios concluyentes donde se remitan a estudio anatomopatológico (AP) todos los prepucios de las circuncisiones realizadas. Se estima una incidencia del 35%<sup>(4)</sup> calculada a partir de una revisión de varios artículos donde se envía el prepucio a análisis, pero esta incidencia puede variar entre 5-52% según las series. Se ha visto un aumento de esta incidencia entre los artículos más recientes, seguramente debido al envío de más muestras a estudio AP por parte del cirujano que sospecha la enfermedad más precozmente<sup>(1,4,5)</sup>. En nuestra serie, la incidencia de BXO fue de 3,9% entre todas las circuncisiones operadas pero de 68,7% entre las muestras enviadas a AP con sospecha clínica de BXO.

Los síntomas clínicos encontrados en nuestro estudio son los descritos por la literatura, fimosis cicatricial con afectación del prepucio, glande o meato con apariencia descamativa. Los síntomas clásicos de la BXO es una fimosis progresiva con aspecto blanquecino del glande, fimosis secundaria en niños mayores, disuria y “balooning” del prepucio con la micción<sup>(2,4,6)</sup>. En nuestra serie, todos los pacientes diagnosticados de BXO eran mayores de 6 años con una media de 8,2 años y padecían de fimosis cicatricial y afectación glandar y/o meatal. Gargollo y col. concluyen que la fimosis secundaria en niños en edad escolar es altamente sugestiva de BXO y que los pacientes con afectación del meato tienden a un curso de la enfermedad más severo que aquellos con solo afectación prepucial<sup>(6)</sup>. También se han realizado

estudios que correlacionan la confirmación histológica de BXO y sospecha clínica siendo ésta bastante bajo, llegando únicamente al 53%<sup>(4,5)</sup>.

El diagnóstico de confirmación se realiza mediante análisis AP donde se observa hiperqueratosis con atrofia de la epidermis y degeneración vacuolar de la capa basal. Las alteraciones del colágeno se pueden observar en las fases más avanzadas con una infiltración crónica celular. El diagnóstico diferencial incluye inflamación no específica, liquen plano, esclerodermia localizada, leucoplasia o vitíligo<sup>(7)</sup>.

El tratamiento recomendado es la circuncisión completa, pero también se han descrito otros tratamientos alternativos o coadyuvantes con corticoides e inmunosupresores como el tracolimus.

En la mayoría de trabajos publicados, la circuncisión es el tratamiento de primera línea. La circuncisión completa es curativa en un 96% de los casos según Depasquale<sup>(8)</sup>. Existen estudios que hacen referencia a la circuncisión parcial con conservación de prepucio y demuestran hasta un 50% de recurrencias pero sin apoyo de ningún tratamiento coadyuvante<sup>(4)</sup>. En nuestra serie, hemos encontrado un 2,4% de reestenosis prepuciales entre los pacientes circuncidados y entre aquellos que se realizó plastia prepucial, de los cuales solo un paciente fue diagnosticado de BXO.

El uso de corticoides han sido descritos antes, durante y después de la cirugía. Pugliese y col. proponen un algoritmo para el manejo del liquen escleroso en pacientes adultos tras una revisión extensa de la literatura<sup>(1)</sup>. Cuando existe una sospecha clínica de BXO donde el prepucio esta intacto y no existe estenosis meatal, inician el tratamiento con corticoides tópicos (clobetasol 0,05%) y si existe empeoramiento o no mejoría se decide tratamiento quirúrgico, que se basa principalmente en la circuncisión asociando técnicas más agresivas según la afectación. En las recurrencias tras la circuncisión o afectación residual tras la misma, se aplica clobetasol 0,05% durante 2-3 meses con disminución gradual del mismo.

Wilkinson y col. describen una técnica quirúrgica mediante prepucioplastia e infiltración intralesional de triancinolona con un éxito del 81% aunque también describen un 13% de recidivas de BXO y un 20% de reintervenciones, entre circuncisiones completas y meatotomías<sup>(9)</sup>. En estos casos es difícil valorar verdaderamente el éxito del tratamiento ya que si solo se usa corticoide para el tratamiento de BXO, no podremos obtener una confirmación histológica del prepucio para BXO.

En la revisión de Fistarol y col., el clobetasol dipropionato 0,05% es el corticoide de elección como primera línea de tratamiento, y se aplica durante 2 a 16 semanas mejorando la clínica, pero con una recidiva cercana al 30% que requieren circuncisión<sup>(10)</sup>. En los niños con fimosis, el tratamiento con corticoide resulta en mejoría de la clínica pero es inefectivo en los casos severos con cicatrices.

Los inmunosupresores como el tracolimus o pimecrolimus se usan con mayor frecuencia en el manejo de la afectación genital por liquen escleroso en las mujeres, teniendo en cuenta que puede haber un aumento en el riesgo de malignidad<sup>(10)</sup>.

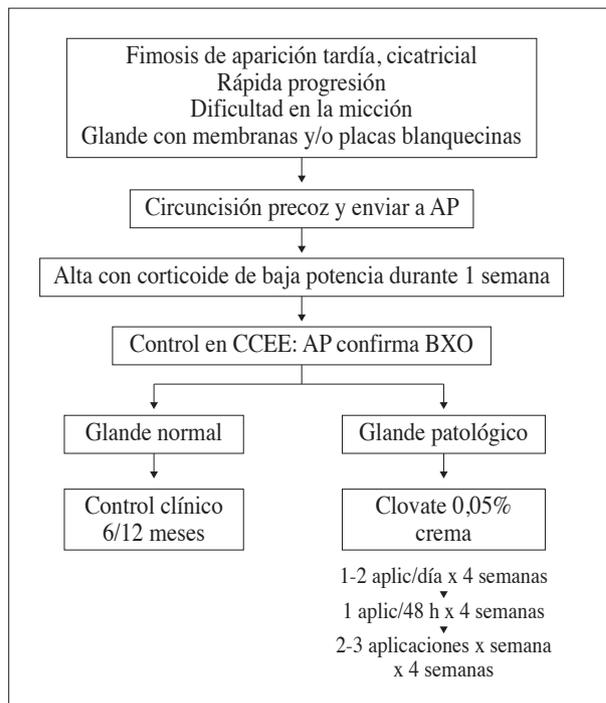


Figura 1. Protocolo para pacientes con sospecha de BXO.

La complicación más frecuente de la BXO es la estenosis de meato y/o estenosis uretral con una incidencia entre 4 y 47%<sup>(4)</sup>. En nuestra serie, hemos recogido 3 casos de estenosis de meato (27%) con necesidad de cirugía. Esta patología también se ha relacionado en series de adultos con el carcinoma de pene, con un riesgo de malignidad del 9,3%<sup>(10)</sup>. En la población pediátrica no se han descrito casos de malignidad.

La afectación meatal y/o uretral puede llevar a problemas clínicos más serios como la obstrucción urinaria con riesgo de fallo renal. En nuestra serie, un paciente diagnosticado de BXO, debutó con una retención urinaria aguda por balanitis con clínica obstructiva y una afectación de la función renal en el estudio de medicina nuclear por una pielonefritis aguda, que precisó ingreso hospitalario con antibioterapia intravenosa y tratamiento quirúrgico de la fimosis cicatricial.

Tras la revisión de la literatura, en nuestro servicio llevamos a cabo una circuncisión con resección de piel y mucosa en los casos con fimosis. Solo se envían a análisis AP los casos sugestivos clínicamente de BXO. Una vez hecha la confirmación histológica para BXO, se administra clobetasol 0,05% durante 3 meses con una pauta descendente (Fig. 1).

En conclusión, nosotros enviamos a estudio AP solo aquellos con sospecha clínica de BXO y/o afectación del glande o meato, presuponiendo la cura definitiva con la circuncisión de aquellos con afectación únicamente prepucial. Además recomendamos el uso de corticoides tópicos tras la circuncisión en aquellos pacientes con confirmación histológica de BXO.

## BIBLIOGRAFÍA

1. Pugliese JM1, Morey AF, Peterson AC. Lichen sclerosus: review of the literature and current recommendations for management. *J Urol.* 2007; 178: 2268-76.
2. Kiss A, Király L, Kutasy B, Merksz M. High incidence of balanitis xerotica obliterans in boys with phimosis: prospective 10-year study. *Pediatr Dermatol.* 2005; 22: 305-8.
3. Bochove-Overgaauw DM, Gelders W, De Vylder AM. Routine biopsies in pediatric circumcision: (non) sense? *J Pediatr Urol.* 2009; 5: 178-80.
4. Celis S, Reed F, Murphy F, Adams S, Gillick J, Abdelhafeez AH, et al. Balanitis xerotica obliterans in children and adolescents: a literature review and clinical series. *J Pediatr Urol.* 2014; 10: 34-9.
5. Naji H, Jawad E, Ahmed HA, Mustafa R. Histopathological examination of the prepuce after circumcision: Is it a waste of resources? *Afr J Paediatr Surg.* 2013; 10: 164-6.
6. Gargollo PC, Kozakewich HP, Bauer SB, Borer JG, Peters CA, Retik AB, et al. Balanitis xerotica obliterans in boys. *J Urol.* 2005; 174: 1409-12.
7. Jayakumar S, Antao B, Bevington O, Furness P, Ninan GK. Balanitis xerotica obliterans in children and its incidence under the age of 5 years. *J Pediatr Urol.* 2012; 8: 272-5.
8. Depasquale I, Park AJ, Bracka A. The treatment of balanitis xerotica obliterans. *BJU Internat.* 2000; 86: 459-65
9. Wilkinson DJ, Lansdale N, Everitt LH, Marven SS, Walker J, Shawis RN, et al.. Foreskin preputioplasty and intralesional triamcinolone: a valid alternative to circumcision for balanitis xerotica obliterans. *J Pediatr Surg.* 2012; 47: 756-9.
10. Fistarol SK, Itin PH. Diagnosis and treatment of lichen sclerosus: an update. *Am J Clin Dermatol.* 2013; 14: 27-47.