

# Tratamiento de la balanitis xerótica obliterante en pacientes pediátricos

C. Leganés Villanueva, R. Gander, G. Royo Gomes, M. Ezzeddine Ezzeddine, M. López Paredes, M. Asensio Llorente

*Sección de Urología Pediátrica. Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Universitario Vall d'Hebron. Barcelona.*

## RESUMEN

**Objetivos.** La balanitis xerótica obliterante (BXO) es una enfermedad crónica inflamatoria de incidencia poco conocida en la población pediátrica. El objetivo de este trabajo es describir nuestra experiencia en el tratamiento de las BXO.

**Material y métodos.** Estudio retrospectivo de 419 pacientes intervenidos de circuncisión en el periodo comprendido entre enero de 2014 y enero de 2017. Analizamos variables demográficas, clínicas, anatomopatológicas, terapéuticas y complicaciones durante el seguimiento.

**Resultados.** De los 419 pacientes, 41 fueron diagnosticados de BXO (9,78%). Seis pacientes fueron excluidos por falta de seguimiento, por lo que se analizaron 35 pacientes.

La media de edad al diagnóstico fue de 8,6 años. El diagnóstico de sospecha fue clínico durante la exploración física en 17 pacientes (48,6%) y durante la intervención en 18 (51,4%), realizando la confirmación anatomopatológica en un total de 35 pacientes (100%).

Durante el seguimiento 6 pacientes (17,14%) presentaron lesiones en glande, 3 (8,57%) en uretra y 9 (25,71%) en ambas localizaciones, siendo necesaria la realización de 6 meatotomías (17,14%) y de nueva circuncisión en 5 (14,28%). El tiempo medio de recidiva fue de 32,43 meses. En 19 pacientes (54,28%) se aplicaron corticoides tópicos en pomada y en 1 paciente inmunosupresores tópicos (2,85%).

**Conclusiones.** Es necesario un seguimiento estrecho de los pacientes con diagnóstico clínico o anatomopatológico de BXO dada su elevada morbilidad. Las principales complicaciones descritas en la población pediátrica son la estenosis meatal y uretral, así como la recidiva de la fimosis si no se reseca el prepucio suficientemente.

**PALABRAS CLAVE:** Balanitis xerótica obliterante; Tratamiento; Complicaciones; Pediatría.

## TREATMENT OF BALANITIS XEROTICA OBLITERANS IN PEDIATRIC PATIENTS

### ABSTRACT

**Objectives.** Balanitis xerotica obliterans (BXO) is a chronic inflammatory disease with a little known incidence in pediatric population. The objective of this work was to describe our experience in the treatment of BXO.

**Materials and methods.** Retrospective study carried out in 419 patients undergoing circumcision surgery between January 2014 and January 2017. Demographic, clinical, therapeutic, and anatomical and pathological variables, as well as complications during follow-up, were analyzed.

**Results.** Of the 419 patients, 41 (9.78%) were diagnosed with BXO. 6 patients were excluded owing to lack of follow-up, so 35 patients were analyzed.

Mean age at diagnosis was 8.6 years. Suspicion diagnosis was clinical at physical exploration in 17 patients (48.6%), and at surgery in 18 patients (51.4%). Anatomical and pathological confirmation was performed in a total 35 patients (100%).

During follow-up, 6 patients (17.14%) had lesions in the glans, 3 (8.57%) in the urethra, and 9 (25.71%) in both. 6 meatotomies (17.14%) and 5 new circumcisions (14.28%) had to be carried out. Mean recurrence time was 32.43 months. In 19 patients (54.28%), topical corticoids – ointment – were applied, and 1 patient (2.85%) received topical immunosuppressants.

**Conclusions.** A close follow-up of patients with clinical or anatomical and pathological diagnosis of BXO is required given its high morbidity. The complications described in pediatric population include meatal and urethral stenosis, as well as recurrent phimosis, unless a sufficient amount of foreskin is resected.

**KEY WORDS:** Balanitis xerotica obliterans; Treatment; Complications; Pediatrics.

## INTRODUCCIÓN

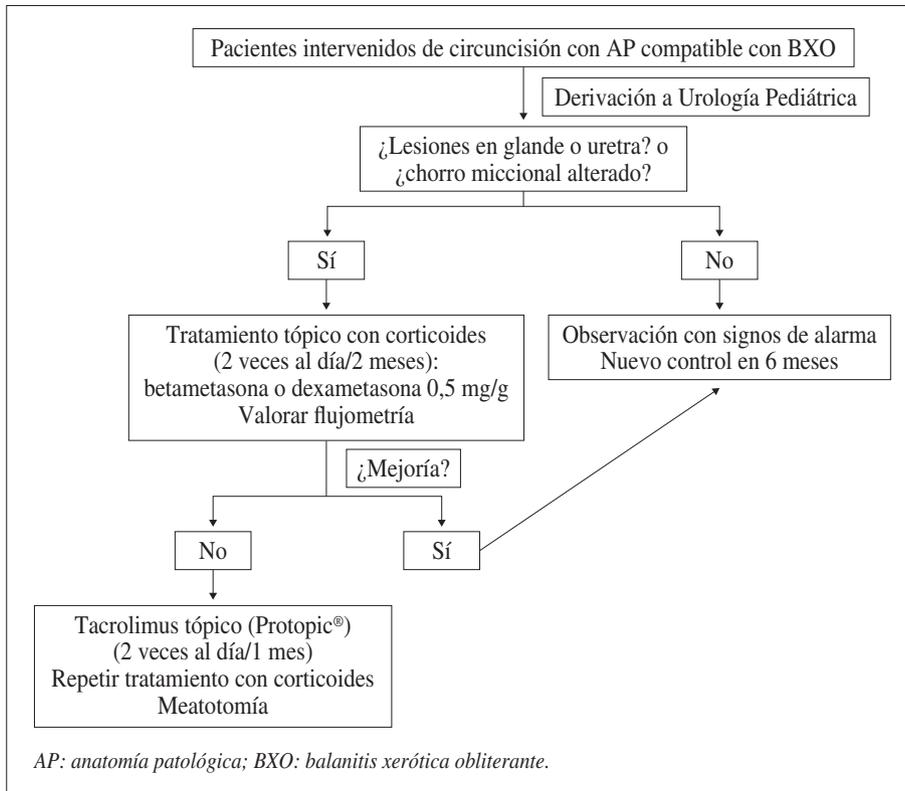
La balanitis xerótica obliterante (BXO) es una enfermedad crónica inflamatoria (variante masculina del liquen escleroso) poco frecuente en la población pediátrica. Su afectación penénea puede extenderse a prepucio, glande, meato o uretra de forma aislada o combinada. La incidencia real es incierta, ya que no existen publicaciones en las que se remitan a estudio

**Correspondencia:** Dra. Romy Gander. Servicio de Cirugía Pediátrica. Hospital Vall d'Hebron. Paseo Vall d'Hebron, 119-129. 08038 Barcelona. E-mail: rgander@vhebron.net

*Trabajo presentado en la XXVIII Reunión Nacional del Grupo de Urología Pediátrica. Sevilla, Junio de 2017.*

Recibido: Mayo 2019

Aceptado: Enero 2020



**Figura 1.** Protocolo de seguimiento de pacientes diagnosticados de BXO.

anatomopatológico todos los prepucios de las circuncisiones realizadas<sup>(1)</sup>; en niños con fimosis se estima entre un 5 y 52%, describiéndose incluso casos neonatales<sup>(2,3)</sup>. Se postula un incremento de la incidencia de la enfermedad en las últimas décadas debido principalmente a un mayor grado de sospecha clínica desde que ha aumentado el conocimiento de la enfermedad.

El diagnóstico se basa en la sospecha clínica y se confirma con el estudio histopatológico del prepucio<sup>(1,4)</sup>. Entre las complicaciones asociadas a la BXO, la más frecuente es la recidiva de la fimosis (sobre todo en caso de resecciones prepuciales incompletas) y la estenosis meatal o uretral que pueden aparecer hasta en un 47%. Se ha descrito recientemente la recidiva de la enfermedad hasta en un 40% de pacientes con hipospadias tratados con injerto de mucosa oral en dos tiempos. En la población adulta se asocia con el carcinoma escamoso del pene, siendo su incidencia alrededor de un 20%<sup>(5-7)</sup>.

El objetivo de este trabajo fue analizar nuestra experiencia en el tratamiento de pacientes pediátricos con BXO. Hemos analizado la tasa de éxito del tratamiento médico y las complicaciones relacionadas, así como el tratamiento de las mismas.

## MATERIAL Y MÉTODOS

Realizamos un estudio retrospectivo de 419 pacientes intervenidos de circuncisión en nuestro centro en el periodo comprendido entre enero de 2014 y enero de 2017.

Se analizaron datos referentes a variables demográficas, exploración física inicial y durante el seguimiento, métodos diagnósticos utilizados, tratamiento inicial, además de complicaciones durante el seguimiento y tratamiento de las mismas.

### Diagnóstico

En nuestro centro no se realiza de forma rutinaria el estudio anatomopatológico de la piel prepucial en pacientes intervenidos de fimosis, salvo en casos de sospecha clínica de BXO (ya sea de forma preoperatoria en la consulta externa o durante la intervención).

Si existe sospecha clínica de BXO, en el momento de la circuncisión se realiza la resección completa del prepucio. En caso de confirmarse la enfermedad por estudio anatomopatológico de la muestra de prepucio, se remite el paciente a consultas externas de urología pediátrica para seguimiento ambulatorio y detección precoz de complicaciones.

### Tratamiento inicial postquirúrgico

Ante la presencia de lesiones macroscópicas en glande o uretra se inicia tratamiento tópico con corticoides (betametasona o dexametasona a 0,5 mg/g cada 12 horas durante dos meses) y se valora la realización de una flujometría. En caso de que no haya mejoría pese al tratamiento tópico, se repite el ciclo o se aplica tratamiento con tacrolimus tópico (cada 12 horas al 0,03% durante un mes). En pacientes con estenosis de meato refractaria a tratamiento médico se indica la realización de una meatotomía (Fig. 1).

**Tabla I. Descripción de las lesiones macroscópicas evidenciadas en pacientes con BXO durante el seguimiento ambulatorio trimestral.**

Seguimiento ambulatorio Controles (N)	Localización			Lesiones de novo Glande
	Glande	Uretra	Ambos	
1º control (N:18)	6 (33,3%)	3 (16,7%)	9 (50%)	–
2º control (N:11)	3 (37,5%)	2 (25%)	3 (27,7%)	2 (18%)
3º control (N:9)	5 (55,6%)	2 (22,2%)	2 (22,2%)	–

*BXO: balanitis xerótica obliterante.*

### Seguimiento

En pacientes que no presentan lesiones macroscópicas se realizan controles ambulatorios cada 6 meses explicando las normas de reconsulta (principalmente aparición de lesiones macroscópicas y alteraciones miccionales).

En pacientes con lesiones macroscópicas se realizan controles ambulatorios bimensuales para valoración de la eficacia del tratamiento médico y control de aparición de complicaciones.

El estudio con flujometría se indica en aquellos pacientes con alteraciones del chorro miccional o necesidad de realizar prensa abdominal durante la micción (valorado en cada consulta). La aparición de alteraciones flujométricas (sobre todo curva en meseta) o dificultad miccional son indicaciones de meatotomía.

Todos los pacientes siguen controles en consultas externas de urología pediátrica hasta los 16 años y posteriormente se remiten a un urólogo de zona.

### RESULTADOS

En el periodo de estudio, 419 pacientes fueron intervenidos de circuncisión. De estos, 41 (9,78%) fueron diagnosticados de BXO. Seis pacientes fueron excluidos del estudio por falta de seguimiento, restando por tanto 35 pacientes (8,78%) afectados de BXO para análisis.

La edad media al diagnóstico fue de 8,6 años (rango de 4 a 14 años) y la indicación principal de intervención fue la fimosis progresiva en todos los pacientes (100%), aunque dos presentaron estenosis de meato en el momento del diagnóstico.

La incidencia de la BXO en pacientes circuncidados durante los años de estudio fue aumentando progresivamente, siendo de 8 pacientes (5,3%) en el primer año, 13 pacientes (9,15%) durante el segundo año y 14 pacientes (11,2%) durante el tercer año de estudio.

### Diagnóstico inicial

El diagnóstico de sospecha fue clínico en la exploración física preoperatoria en 17 pacientes (48,6%) e intraoperatoriamente en 18 (51,4%). En 5 pacientes se había realizado previamente una circuncisión con resección prepucial parcial, recidivando la fimosis y sospechando posteriormente la enfermedad.

### Diagnóstico de confirmación

La confirmación anatomopatológica se obtuvo en los 35 pacientes (100%), evidenciando atrofia epidérmica con infiltrado histioinflamatorio y colagenización.

### Tratamiento inicial

Se realizó circuncisión con resección de piel prepucial completa en todos los pacientes (100%), y en los 2 pacientes con estenosis meatal además se les practicó una meatotomía en el mismo acto quirúrgico (5,7%).

### Seguimiento

Se realizó seguimiento ambulatorio de todos los pacientes en consultas externas de urología pediátrica a las 3 semanas (rango 1 a 4 semanas) de intervención.

En el primer control ambulatorio, 18 pacientes (51,4%) presentaron lesiones macroscópicas peneanas: 6 lesiones en glande (17,1%), 3 uretrales (8,57%) y 9 en ambas localizaciones (25,71%).

De los pacientes con lesiones macroscópicas, inicialmente 17 pacientes (94,4%) recibieron tratamiento tópico con corticoides, un paciente (5,5%) con tacrolimus, y fue necesaria la realización de una meatotomía (5,5%). La instauración del tratamiento tópico se inició en el momento en que se confirmó la BXO en el estudio anatomopatológico.

En los controles posteriores, en 12 pacientes (66,7%) desaparecieron las lesiones macroscópicas con el tratamiento y aparecieron lesiones *de novo* en otros 2 (11,1%) (Tabla I).

En la actualidad, 9 pacientes presentan lesiones macroscópicas, de los cuales 5 reciben tratamiento tópico con corticoides (14,2%) y 4 con tacrolimus (11,4%) (Tabla II).

Del total de 35 pacientes, se objetivaron alteraciones del chorro miccional en 12 pacientes (34,3%): de forma leve en 8 pacientes (22,9%) y moderada en 4 (11,4%). Todos presentaban alteraciones macroscópicas en el meato uretral.

### Complicaciones

Cuatro pacientes (11,4%) presentaron estenosis del meato uretral durante los 9 primeros meses de seguimiento (rango de 1 a 9 meses). Todos requirieron la realización de una meatotomía.

La media de seguimiento fue de 32,4 meses (DT 4).

**Tabla II. Descripción del tratamiento realizado en pacientes con BXO durante el seguimiento ambulatorio.**

Controles ambulatorios		1°	2°	3°
Tratamiento médico	Corticoides	17 (48,5%)	5 (14,2%)	5 (14,2%)
	Tacrolimus	1 (2,85%)	3 (8,5%)	4 (11,4%)
Tratamiento quirúrgico	Meatotomía	1 (2,85%)	1 (2,85%)	2 (5,7%)

*Balanitis xerótica obliterante (BXO).*

## DISCUSIÓN

La BXO es una condición dermatológica que afecta los genitales masculinos. Fue descrita por primera vez por Stühmer y cols. en 1928 y se considera la variante masculina del liquen escleroso<sup>(8)</sup>.

En la actualidad es una de las principales causas de fimosis secundaria y progresiva en niños. La etiología es multifactorial y se han implicado factores genéticos, autoinmunes, hormonales e infecciosos<sup>(1,2)</sup>.

Se estima una incidencia del 5 al 52% según las series<sup>(3)</sup>; su verdadera incidencia está infraestimada debido a que muchos casos se curan con la circuncisión y muchas muestras prepuciales no se envían a análisis histopatológico por falta de reconocimiento de la enfermedad. En nuestra serie se ha observado un incremento de la incidencia en los últimos años (hasta un 11,2% de los pacientes circuncidados durante el último año de estudio) debido principalmente al mayor grado de sospecha clínica por parte de los cirujanos que realizan las circuncisiones desde que se ha incrementado el conocimiento de la enfermedad.

El diagnóstico se basa en la sospecha clínica, normalmente visualizando una fimosis secundaria y progresiva asociada a un aspecto xerótico del glande y prepucio. En los casos de afectación uretral puede aparecer disuria, micción con prensa abdominal y episodios de retención de orina<sup>(9,10)</sup>. El examen histológico confirma el diagnóstico y evidencia hiperqueratosis y atrofia de la capa basal de la epidermis con pérdida de las fibras elásticas y alteraciones del colágeno con infiltración inflamatoria. La correlación clínica con el estudio anatomopatológico es variable, entre un 2 a un 88%<sup>(11)</sup>, alcanzando el 100% en nuestra serie.

No existen medidas de prevención de esta patología. La terapia se enfoca en frenar la progresión de la enfermedad y la detección de complicaciones, y por este motivo el diagnóstico precoz es fundamental.

Parece que existe consenso en la literatura sobre el tratamiento de primera línea en todos los casos: la circuncisión con resección prepucial completa. No obstante, existen artículos recientes acerca del tratamiento mediante corticoterapia tópica para evitar la realización de una circuncisión, con tasas de éxito del 34,8%<sup>(12)</sup>.

Los tratamientos adyuvantes como los corticoides e inmunosupresores tópicos pueden darse antes o después de la cirugía y como tratamiento de mantenimiento. Los

corticoides son los más utilizados por su mayor eficacia descrita en la literatura respecto al tacrolimus<sup>(9)</sup>. En nuestra experiencia, la betametasona tópica (a dosis 0,5 mg/g cada 12 horas) disminuye la prevalencia de lesiones macroscópicas peneanas hasta en un 70% (12/17) respecto al 60% descrito en otras series<sup>(7)</sup>.

El empleo de fármacos inmunosupresores, como el tacrolimus tópico (0,1%), ha demostrado ser un tratamiento seguro y bien tolerado tras la circuncisión. Se ha descrito su empleo sobre todo en pacientes con lesiones macroscópicas en glande o meatales, presentando un porcentaje de recurrencia del 9%<sup>(13)</sup>. En nuestro centro el tacrolimus tópico (a dosis de 0,03% cada 12 horas) se reserva para casos de recidiva o persistencia de lesiones macroscópicas pese al empleo de un ciclo de corticoterapia tópica. Solo hemos empleado de inicio el tacrolimus en un paciente obteniendo escasos resultados, dado que en la actualidad mantiene lesiones macroscópicas en glande.

Otros tratamientos descritos comprenden la administración de hidrocortisona o la mometasona (a dosis de 0,05%), mostrando un mejor resultado con respecto a la retractabilidad de la piel prepucial y menos significativo respecto al grado de inflamación en biopsias prepuciales comparadas con placebo<sup>(14)</sup>.

También se ha empleado la triamcinolona (mediante inyección intralesional intraoperatoria al realizar una prepuccioplastia) con una tasa de éxito de hasta el 81% en algunas series publicadas<sup>(15)</sup>.

Es importante realizar un seguimiento adecuado de estos pacientes que permita un diagnóstico precoz de las complicaciones y la planificación del tratamiento más adecuado. La flujometría ha demostrado presentar una elevada sensibilidad en el diagnóstico precoz de las estenosis uretrales<sup>(16)</sup>; sin embargo, en nuestro centro no se realiza de forma rutinaria salvo alteraciones miccionales.

Como complicaciones de la BXO, la estenosis meatal y la recidiva de la fimosis son las más frecuentes. La afectación meatal y uretral en BXO puede causar problemas clínicos graves, como obstrucción urinaria<sup>(16,17)</sup>. En los casos de afectación uretral y ausencia de respuesta a tratamiento tópico puede ser necesaria la meatotomía (si la afectación es distal) e incluso la resección de toda la uretra y sustitución por otro tejido como la mucosa oral (en caso de afectación de toda la uretra)<sup>(7)</sup>. Nuestro porcentaje de meatotomías (17,1% en total) es inferior a otras series descritas en la literatura donde alcanzan el 47%<sup>(18)</sup>.

Hasta el momento no se han descrito casos de carcinoma escamoso de pene en niños con BXO, pero los datos sobre el seguimiento a largo plazo son escasos y en la actualidad el 21% de los pacientes con cáncer de pene tienen antecedentes de BXO, siendo considerada una lesión premaligna<sup>(19,20)</sup>. Por este motivo es importante realizar un seguimiento estrecho de los pacientes con BXO hasta la edad adulta.

## CONCLUSIONES

La incidencia de BXO ha aumentado en los últimos años probablemente por un mayor conocimiento de la enfermedad. La mayoría de los pacientes presentan una evolución benigna y se controlan adecuadamente con corticoides tópicos, pero hasta un 39% presentan complicaciones, siendo las más frecuentes la estenosis uretral o recidiva de la fimosis.

## BIBLIOGRAFÍA

- Calleja Aguayo E, Hernández Calvarro AE, Marhuenda Irastorza C. Balanitis xerótica obliterante, patología infradiagnosticada de relevancia clínica. *Cir Pediatr*. 2015; 28: 133-6.
- Celis S, Reed F, Murphy F. Balanitis xerotica obliterans in children and adolescents: a literature review and clinical series. *J Pediatr Urol*. 2014; 10: 34-9.
- 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.
- Bochove-Overgaauw DM, Gelders W, De Vylder AM. Routine biopsies in pediatric circumcision: (non) sense? *J Pediatr Urol*. 2009; 5: 178-80.
- Walkden V, Chia Y, Wojnarowska F. The association of squamous cell carcinoma of the vulva and lichen sclerosus: implications for management and follow up. *J Obstet Gynaecol*. 1997; 17: 551-3.
- Powell J, Robson A, Cranston D, Wojnarowska F, Turner R. High incidence of lichen sclerosus in patients with squamous cell carcinoma of the penis. *Br J Dermatol*. 2001; 145: 85-9.
- Snodgrass W, Blanquel JS, Bush NC. Recurrence after management of meatal balanitis xerotica obliterans. *J Pediatr Urol*. 2017; 13: 204.e1-e6.
- Betancourth-Alvarenga JE, Vázquez Rueda F, Siu Uribe A, Escassi Gil A, Vargas Cruz V, Sánchez Sánchez R, et al. Correlación clínica e inmunohistoquímica de la balanitis xerotica obliterans. *Cir Pediatr*. 2017; 30: 211-5.
- 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.
- Becker K. Lichen sclerosus in boys. *Dtsch Arztebl Int*. 2011; 108: 53-8.
- Mohammed A, Shegil IS, Christou D, Khan A, Barua JM. Paediatric balanitis xerotica obliterans: an 8-year experience. *Arch Ital Urol Androl*. 2012; 84: 12-6.
- Folaranmi SE, Corbett HJ, Losty PD. Does application of topical steroids for lichen sclerosus (balanitis xerotica obliterans) affect the rate of circumcision? A systematic review. *J Pediatr Surg*. 2018; 53: 2225-7.
- Ebert AK, Rösch WH, Vogt T. Safety and tolerability of adjuvant topical tacrolimus treatment in boys with lichen sclerosus: a prospective phase 2 study. *Eur Urol*. 2008; 54: 932-7.
- Vincent MV, Mackinnon E. The response of clinical balanitis xerotica obliterans to the application of topical steroid-based creams. *J Pediatr Surg*. 2005; 40: 709-12.
- 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.
- Christman M, Chen J, Holmes N. Obstructive complications of lichen sclerosus. *J Pediatr Urol*. 2009; 5: 165-9.
- Arena S, Russo T, Impellizzeri P, Parisi S, Perrone P, Romeo C. Utility of uroflowmetry during the follow-up of children affected by balanitis xerotica obliterans (BXO). *Arch Ital Urol Androl*. 2018; 90: 123-6.
- 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.
- Pietrzak P, Hadway P, Corbishley CM, Watkin NA. Is the association between balanitis xerotica obliterans and penile carcinoma underestimated? *BJU International*. 2006; 98: 74-6.
- Boer M. Balanitis xerótica obliterante: aplicación local de esteroides y antibióticos para la conservación prepucial en niños. Resultados alejados. *Rev de Cir Infantil*. 2014; 15: 6-14.