

Úlceras de Lipschütz y *Campylobacter jejuni*: a propósito de dos casos

Lipschutz ulcers and *Campylobacter jejuni*: report of two cases

María Victoria Delgado-Martín,^{1*} María Estela Cano de Santayana-Domínguez,² Carlos Feito-Caldas¹

Resumen

ANTECEDENTES: Los casos de úlceras de Lipschutz son pocos. Se caracterizan por su aspecto necrótico, muy dolorosas y de rápida evolución. Afectan, sobre todo, a las adolescentes sexualmente inactivas. Si bien suelen asociarse con una primoinfección por virus de Epstein Barr u otros patógenos, en la mayoría de los casos no se aísla el agente infeccioso.

OBJETIVO: Reportar dos casos y difundir la posible asociación de las úlceras de Lipschutz con el agente infeccioso *Campylobacter jejuni*, incluso en las recidivas.

CASOS CLÍNICOS: Pacientes pediátricas de 10 y 12 años, respectivamente, en quienes en el contexto de fiebre y diarrea les aparecieron úlceras genitales dolorosas que se diagnosticaron como úlceras de Lipschutz. En el coprocultivo se aisló *Campylobacter jejuni* como patógeno concomitante. En la paciente de 12 años se trató de una recidiva de las úlceras, un año después del primer episodio que requirió hospitalización para control del dolor, con muy buena respuesta a la primera dosis de esteroides. En ambos casos la evolución fue satisfactoria con la desaparición de las lesiones en pocas semanas, sin necesidad de tratamiento antibiótico, a pesar del crecimiento bacteriano en el coprocultivo.

CONCLUSIONES: A pesar de su baja frecuencia, las úlceras de Lipschutz deben tenerse en mente en el diagnóstico diferencial de las úlceras genitales, sobre todo en pacientes que no han iniciado la vida sexual activa e investigar la coexistencia de *Campylobacter jejuni*, entre otros patógenos.

PALABRAS CLAVE: Úlceras de Lipschutz; enfermedades vulvares; dolorosas; niñas y adolescentes; virus Epstein Barr; *Campylobacter jejuni*; hospitalización; tratamiento del dolor; tratamiento con antibiótico.

Abstract

BACKGROUND: Cases of Lipschutz ulcers are rare, necrotic in appearance, very painful and rapidly progressive. They mainly affect sexually inactive adolescent girls. Although they are usually associated with a primoinfection by Epstein Barr virus or other pathogens, in most cases the infectious agent is not isolated.

OBJECTIVE: To report two cases and to disseminate the possible association of Lipschutz ulcers with the infectious agent *Campylobacter jejuni*, even in recurrences.

CLINICAL CASES: Pediatric patients aged 10 and 12 years in whom painful genital ulcers appeared in the context of fever and diarrhea and were diagnosed as Lipschutz ulcers. The stool culture isolated *Campylobacter jejuni* as a concomitant pathogen. In the 12-year-old patient there was a recurrence of ulcers, one year after the first episode that required hospitalization for pain control, with a very good response to the first dose of steroids. In both cases the evolution was satisfactory with disappearance of the lesions in a few weeks, without the need for antibiotic treatment, despite bacterial growth in the stool culture.

CONCLUSIONS: Despite their low frequency, Lipschutz ulcers should be kept in mind in the differential diagnosis of genital ulcers, especially in patients who have not become sexually active, and the coexistence of *Campylobacter jejuni*, among other pathogens, should be investigated.

KEYWORDS: Lipschutz ulcers; Vulvar diseases; Painful; Adolescent girls; Epstein Barr virus; *Campylobacter Jejuni*; Hospitalization; Pain management; Antibiotic treatment.

¹ Facultativo especialista en Pediatría y sus áreas específicas

* <http://orcid.org/0000-0003-2937-9651>

² Residente de Pediatría y sus áreas específicas.

Hospital Universitario Príncipe de Asturias, Alcalá de Henares, España.

Recibido: 1 de febrero 2021

Aceptado: 6 de septiembre 2021

Correspondencia

María Victoria Delgado-Martín
marividelgadamartin@gmail.com
<http://orcid.org/0000-0003-2937-9651>

Este artículo debe citarse como: Delgado-Martín MV, Cano de Santayana-Domínguez ME, Feito-Caldas C. Úlceras de Lipschutz y *Campylobacter jejuni*: a propósito de dos casos. Acta Pediatr Méx 2021; 42 (5): 247-50.

INTRODUCCIÓN

Los casos de úlceras de Lipschutz son pocos. Se caracterizan por su aspecto necrótico, muy dolorosas y de rápida evolución.¹ Afectan, sobre todo, a las adolescentes sexualmente inactivas. Si bien suelen asociarse con una primoinfección por virus de Epstein Barr^{2,3} u otros patógenos, en la mayoría de los casos no se aísla el agente infeccioso.⁴ El diagnóstico es de exclusión, luego de descartar: herpes genital, virus de la inmunodeficiencia humana, sífilis, enfermedad de Behçet, pioderma gangrenoso y enfermedad de Crohn.⁵ La asociación de estas úlceras con *Campylobacter jejuni*, tal como se describe en los dos casos atendidos en el servicio de Pediatría del Hospital Universitario Príncipe de Asturias, no está publicada. El objetivo de este reporte es difundir la posible asociación de las úlceras de Lipschutz con el agente infeccioso *Campylobacter jejuni*, incluso en las recidivas.

CASO 1

Paciente femenina, de 12 años, llevado a consulta por fiebre, odinofagia, astenia, vómito y lesiones genitales muy dolorosas, con supuración. Antecedentes personales y familiares sin interés, sin vida sexual activa, ni consumo de fármacos. En la exploración física se encontraron: edema y eritema en la cara interna de los labios menores e introito, con lesiones ulcerosas dolorosas, con mínima secreción serohemática. El resto de la exploración se encontró dentro de la normalidad. Estudio de laboratorio: 12,800 leucocitos, PCR 30 mg/dL, pruebas negativas de: p-ANCA, c-ANCA, ANAs y antiDNA, transglutaminasa. Estudios serológicos negativos (virus de Epstein Barr, citomegalovirus, virus de la inmunodeficiencia humana, brucela y sífilis). El cultivo del exudado faríngeo y de una de las úlceras genitales se reportó sin crecimiento de patógenos.

A las 48 horas refirió continuar con dolor, a pesar de la analgesia, sin otros síntomas. Las lesiones fueron evolucionando, con disposición

en espejo, bordes violáceos y la región central de aspecto necrótico (**Figura 1**). Estudios de laboratorio: PCR 118.9 mg/L, VSG 22 mm/primer hora y leucocitosis de 20,700 por mm³ y 17,770 neutrófilos.

La paciente se hospitalizó debido a la evolución de las lesiones y persistencia del dolor. Se trató con 800 mg al día de ciprofloxacina, 30 mg/kg al día de clindamicina por vía intravenosa (10 días) y 30 mg al día de prednisona por vía oral (3 días). Además, curaciones locales con ungüento de mupirocina, sulfato de zinc en crema, borato sódico y lidocaína al 2%. El reporte histopatológico de la biopsia cutánea de las úlceras (a los 5 días) fue de: marcado infiltrado inflamatorio mixto, inespecífico, que afectó a toda la dermis y el tejido celular subcutáneo, sin poder establecerse un diagnóstico etiológico.



Figura 1. Lesiones con disposición en espejo, bordes violáceos y región central de aspecto necrótico.



Figura 2. Lesiones ulceradas en ambos labios menores, con bordes irregulares y porción central necrótica.

co claro. A la semana de inicio del tratamiento antibiótico mostró una mejoría progresiva, con reepitelización de las lesiones, cese del dolor, normalización de las pruebas complementarias y calprotectina fecal normal.

Al año tuvo un cuadro de fiebre, diarrea y dolor genital intenso. En la exploración física se advirtieron dos lesiones ulcerosas en ambos labios menores, muy dolorosas, con bordes irregulares y porción central necrótica (**Figura 2**). Se hospitalizó para control de la evolución de las lesiones. En los estudios de laboratorio solo se encontró PCR de 78.1 mg/L y en el coprocultivo se aisló *Campylobacter jejuni*. Se dio tratamiento con 1 mg/kg de prednisona y analgesia sistémica y local. Después de la primera dosis de corticosteroide tuvo una respuesta rápida, con desaparición de los síntomas e inicio de la reepitelización de las lesiones en las primeras 24

horas; no requirió tratamiento con antibiótico. Se dio de alta con diagnóstico de recidiva de úlceras de Lipschütz asociadas con *C. jejuni*.

CASO 2

Paciente femenina, de 10 años, llevada a consulta debido a la aparición de úlceras genitales muy dolorosas que coincidieron, los días previos, con diarrea y fiebre. Antecedentes personales y familiares sin interés; sin episodios previos de úlceras genitales. Desde luego, no reportó relaciones sexuales ni síntomas concomitantes. En la exploración física se observaron, en la cara interna de ambos labios menores, lesiones de aspecto necrótico, con ligera ulceración superficial y escasos restos hemáticos en su superficie.

Ante la sospecha de úlceras de Lipschutz se tomó una muestra del exudado para cultivo que resultó sin crecimiento bacteriano. La bioquímica se reportó con perfil hepatorenal normal y valores de inmunoglobulinas, C3 y C4 normales. ANAs, ANCAs negativos. Serologías para celiaquía, VIH, toxoplasma, sífilis, virus de Epstein Barr y citomegalovirus negativas. La PCR para virus herpes simple, varicela-zoster y enterovirus negativa. La muestra de heces para búsqueda de rotavirus y adenovirus también salió negativa. En el coprocultivo se aisló *Campylobacter jejuni* resistente a ciprofloxacina y tetraciclinas. En el momento de conocerse el resultado se encontraba asintomática y con desaparición de casi la totalidad de las lesiones, por eso no se le indicó tratamiento antibiótico. La buena evolución facilitó la desaparición de las úlceras en una semana. Diagnóstico: úlceras de Lipschutz y diarrea por *Campylobacter jejuni*.

DISCUSIÓN

Las úlceras genitales se describieron por primera vez en 1913, por Lipschütz, quien detalló la aparición súbita de úlceras genitales dolorosas,

asociadas con fiebre en adolescentes sin antecedente de contacto sexual.⁶

Estas úlceras son de muy baja frecuencia, por eso en la bibliografía hay pocos casos descritos. No se dispone de grandes series publicadas debido, en parte, a su escasa prevalencia y bajo diagnóstico, tal como lo describen Luque-González y colaboradores⁴ en su revisión bibliográfica. Es necesario ampliar el conocimiento y hacer nuevas aportaciones etiológicas y de su tratamiento.

El hallazgo de patógenos asociados tampoco es frecuente.^{2,3} En los casos clínicos aquí reportados se aisló *Campylobacter jejuni* en el coprocultivo, como único patógeno concomitante. A diferencia del caso clínico publicado por Hueto Najarro y su grupo,⁷ en el que a pesar de coexistir diarrea y fiebre los días previos a la aparición de las úlceras, no se identificó el agente infeccioso; por esto se sugiere su búsqueda en cuadros semejantes a los aquí descritos.

La desaparición de las lesiones sucede sin necesidad de antibiótico.⁴ La base del tratamiento es la correcta higiene genital y el control del dolor. En ocasiones puede requerirse la aplicación de anestésicos tópicos, como la lidocaína. No existen evidencias de que los corticosteroides tópicos y orales modifiquen el curso de la enfermedad.⁶ Si bien nuestra experiencia es escasa, en los brotes graves se ha observado una respuesta rápida al tratamiento con corticosteroides.

La evolución natural de las lesiones ulcerosas suele ser hacia la desaparición en unas cuantas semanas. En la bibliografía se describen casos con evolución tórpida a sinequia vulvar.⁸ Las recidivas, aunque extraordinarias, existen tal y como aquí se describió.

CONCLUSIÓN

A pesar de su baja frecuencia, las úlceras de Lipschütz deben tenerse en mente en el diagnóstico diferencial de las úlceras genitales, sobre todo en pacientes que no han iniciado la vida sexual activa e investigar la coexistencia de *Campylobacter jejuni*, entre otros patógenos.

REFERENCIAS

1. Moise A, Nervo P, Doyen J, Kridelka F, Maquet J, Vandebossche G. Úlcera de Lipschutz, una causa rara y desconocida de ulceración genital. Hechos Vistas Vis Obgyn 2018; 10 (1): 55-57.
2. Jerdan K, Aronson I, Hernandez C, Fishman PM, Groth JV. Úlceras genitales asociadas con el virus de Epstein-Barr. Cutis 2013; 91 (6): 273-6.
3. Lorenzo CV, Robertson WS. Genital ulcerations as presenting symptom of infectious mononucleosis. J Am Board Fam Pract 2005; 18 (1): 67-8. <https://pubmed.ncbi.nlm.nih.gov/15709067/>
4. Luque-González P, Azcona-Sutil L, Vargas-Gálvez D, Carmona Domínguez E, Barroso-Tudela C, Cabezas-Palacios M. Úlcera de Lipschütz: reporte de un caso y revisión bibliográfica. Ginecol Obstet Mex 2020; 88 (9): 644-50. <https://doi.org/10.24245/gom.v88i9.4102>
5. Rosman IS, Berk DR, Bayliss SJ. Úlceras genitales agudas en niñas jóvenes no sexualmente activas: serie de casos, revisión de la literatura y recomendaciones de evaluación y manejo. Pediatr Dermatol 2012; 29: 147-53. <https://doi.org/10.1111/j.1525-1470.2011.01589.x>
6. Arellano J, Fuentes L, Moreno P, Corredoira Y. Úlcera de Lipschütz, un diagnóstico para considerar en la población pediátrica. Arch Argent Pediatr 2019; 117 (3): 305-8. doi: 10.5546/aap.2019.e305.
7. Hueto Najarro A, González García G, Breton Hernández P, Zarate Tejero I, Lanuza Arcos R, Ferrer Santos P. Úlceras genitales de Lipschütz: reporte de un caso pediátrico. Arch Argent Pediatr 2017; 115 (6): 436-39. doi: 10.5546/aap.2017.e436.
8. Díaz López L, Pavía Lafuente M, Vázquez Olaiz MC, Pascual Díez L, Arluziaga Gondat M, Puente-Campano Fernández LE. Úlcera de Lipschütz con evolución tórpida a sinequia vulvar. Acta Pediátrica Española 2016; 74 (8) e186-e188.