

Bibliografía

1. Bouwer C, Stein DJ. Trichobezoars in trichotillomania: Case report and literature overview. *Psychosom Med.* 1998;60:658–60.
2. Hoover K, Piotrowski J, St Pierre K, Katz A, Goldstein AM. Simultaneous gastric and small intestinal trichobezoars—a hairy problem. *J Pediatr Surg.* 2006;41:1495–7.
3. Lynch KA, Feola PG, Guenther E. Gastric trichobezoar: An important cause of abdominal pain presenting to the pediatric emergency department. *Pediatr Emerg Care.* 2003;19:343–7.
4. Salaam K, Carr J, Grewal H, Sholevar E, Baron D. Untreated trichotillomania and trichophagia: Surgical emergency in a teenage girl. *Psychosomatics.* 2005;46:362–6.
5. Ben Cheikh A, Gorincour G, Dugougeat-Pilleul F, Dupuis S, Basset T, Pracros JP. Gastric trichobezoar in an adolescent presenting with anemia: Ultrasound and MRI findings. *J Radiol.* 2004;85:411–3.
6. Ripolles T, García-Aguayo J, Martínez MJ, Gil P. Gastrointestinal bezoars: Sonographic and CT characteristics. *AJR Am J Roentgenol.* 2001;177:65–9.
7. Wai CT, Lau G, Sutedia DS. Clinics in diagnostic imaging (104): Gastric trichobezoar (or hairball). *Singapore Med J.* 2005;46:359–61 quiz 362.
8. Palanivelu C, Rangarajan M, Senthilkumar R, Madankumar MV. Trichobezoars in the stomach and ileum and their laparoscopy-assisted removal: A bizarre case. *Singapore Med J.* 2007;48:e37–9.
9. Feng J, Gu W, Li M, Yuan J, Weng Y, Wei M, et al. Rare causes of gastric outlet obstruction in children. *Pediatr Surg Int.* 2005;21:635–40.

B. Jiménez Montero^{a,*} y J. Martín Sánchez^b

^aServicio de Pediatría, Hospital Infantil La Paz, Madrid, España

^bServicio de Urgencias, Hospital Infantil La Paz, Madrid, España

*Autor para correspondencia.

Correo electrónico: bjimenez.hulp@salud.madrid.org (B. Jiménez Montero).

doi:10.1016/j.anpedi.2009.03.016

Linfangiectasia intestinal primaria. Diagnóstico poco frecuente de enteropatía pierde-proteínas Primary intestinal lymphangiectasia. A rare diagnosis of protein-losing enteropathy

Sr. Editor:

La linfangiectasia intestinal (LI) es una causa inusual de enteropatía pierde-proteínas (EPP)¹ y puede ser primaria (LIP) o secundaria (LIS). La LIP, que describió Waldmann en 1961, es una linfopatía intestinal congénita caracterizada por la dilatación de los vasos linfáticos y el paso de linfa hacia la luz intestinal, con pérdida crónica de proteínas, grasa, linfocitos e inmunoglobulinas por las heces. La obstrucción linfática puede ser secundaria a origen cardíaco (postintervención de Fontan)² o debida a procesos inflamatorios intestinales^{3,4} (neoplasias abdominales o retroperitoneales, posquimioterapia o radiación, tuberculosis mesentérica, etc.). Presentamos 2 casos de LIP que se manifiestan con diferente espectro clínico y edad de inicio.

Caso 1. Niño con inicio a los 2 años con edemas generalizados, oliguria, astenia, anorexia y heces blandas. Antecedentes personales: linfedema congénito y meningitis neumocócica a los 6 meses de edad.

Peso: 16 kg (percentil [P] 97), talla: 87 cm (P50). Edemas generalizados, ascitis y linfedema de extremidades superiores. En la analítica se observa hipoproteinemia (3,7 g/l), hipoalbuminemia (2,4 g/dl), hipocalcemia y linfocitopenia. Hipocolesterolemia, hipotrigliceridemia e hipogammaglobulinemia (inmunoglobulina [Ig] G: 92 mg/dl, IgA: 24 mg/dl e IgM: 47 mg/dl). Linfocitos T (LT) CD4: 10%; LT CD8: 8% con

inversión CD4/CD8. En la orina de 24 h se descarta proteinuria. La alfa-1-antitripsina (α_1 -AT) en heces es de 5,2 mg/g (valor normal [VN]: inferior a 0,3 mg/g). El tránsito esofagogastroduodenal (TEGD) muestra pliegues mucosos de intestino delgado engrosados. La tomografía computarizada (TC) abdominal muestra edema mesentérico difuso. En la fibroendoscopia gastroduodenal (FEGD) se observa mucosa duodenal de aspecto lechoso e imágenes «en copos de nieve». La anatomía patológica (AP) muestra marcada dilatación de vasos linfáticos, patognomónica de LI. El tratamiento fue sustitutivo con seroalbúmina y gammaglobulinas, dieta hiperproteica e hipograsa (enriquecida con triglicéridos de cadena media).

Actualmente, a los 10 años el niño tiene un correcto desarrollo pondoestatural y sin infecciones graves, a pesar de que mantiene un patrón bioquímico de pérdida linfática con hipogammaglobulinemia.

Caso 2. Niña con inicio a los 6 años en forma de edema bpalpebral, deposiciones dispépticas y epigastralgia. Antecedentes: varicela a los 2 años y herpes zóster un mes antes del inicio); tía materna con tuberculosis pulmonar en el año previo. Peso: 21,2 kg (P50), talla: 116 cm (P50–75). Ojerosa, con palidez cutánea. Discreto edema bpalpebral.

En la analítica se observa hipoproteinemia (2,5 g/dl), hipoalbuminemia (1 g/dl), hipocalcemia y linfocitopenia. Hipocolesterolemia, hipotrigliceridemia e hipogammaglobulinemia (IgG: <160 mg/dl; IgA: 36 mg/dl; IgM: 51 mg/dl). LT CD4 12%, LT CD8 34% con inversión CD4/CD8. El estudio serológico dio resultado negativo, salvo para el virus de la varicela-zóster (VVZ) (IgG: 4,12 [VN<1,0]; IgM: 0,81 [VN<1.1]). En la orina se descarta proteinuria; la reacción en cadena de la polimerasa para citomegalovirus resulta negativa. La α_1 -AT en heces es de 2,48 mg/g. Coprocultivo, parásitos en heces, marcadores de celiaquía, test

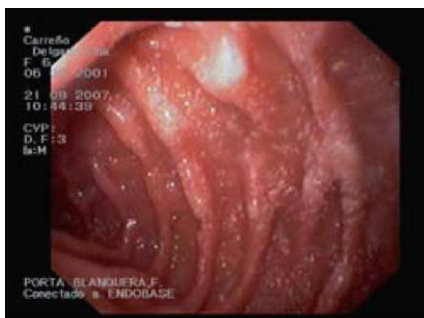


Figura 1 Fibroendoscopia gastroduodenal en caso clínico 2: imagen en «copos de nieve» característica de linfangiectasia intestinal.

radioalergosorbente a proteínas de leche de vaca, test de Mantoux y las técnicas QuantiFERON[®] y TB-Spot resultan todos negativos. La radiografía de tórax, la ecocardiografía y el TEGD fueron normales. En la TC abdominal se visualizan múltiples adenopatías retroperitoneales de pequeño tamaño. La FEGD muestra mucosa duodenal de aspecto lechoso e imágenes «en copos de nieve» (fig. 1). En la AP se observa mínima dilatación de vasos linfáticos en porción apical de una vellosidad. El tratamiento es sustitutivo y dietético, asociado a profilaxis para *Pneumocystis jirovecii*. Se deriva a la niña a un centro de tercer nivel para completar el estudio. La videocápsula endoscópica realizada a los 3 meses de iniciado el tratamiento (paciente asintomática, analítica normal y α_1 -AT en heces: 0,12 mg/g) no muestra alteración. Con la orientación diagnóstica de LIS a infección por VVZ se inicia reintroducción progresiva de dieta normal con buena tolerancia, aunque con persistencia de hipogammaglobulinemia moderada. A los pocos meses presenta empeoramiento progresivo con reaparición de los edemas palpebrales, albúmina de 1,4 g/dl, IgG de 230 mg/dl y α_1 -AT en heces de 2,05 mg/g. Una nueva FEGD con imágenes indicativas y AP revisada compatible confirman el diagnóstico de LI. Evolución satisfactoria al readministrar el tratamiento dietético, sin necesidad actual de tratamiento sustitutivo.

La EPP puede tener un origen multifactorial y plantea un diagnóstico diferencial extenso. Como muestran nuestros 2 pacientes, la LI puede presentarse con un amplio espectro clínico y requiere un alto índice de sospecha en los casos con manifestaciones más leves. Su diagnóstico es dificultoso cuando las dilataciones linfáticas no son demostrables histológicamente por ser focales. La videocápsula endoscópica ha demostrado ser útil para valorar la localización y extensión de la LI, especialmente cuando ésta afecta a tramos no accesibles a la FEGD^{5,6}.

El diagnóstico en el primer caso clínico fue sencillo; la clínica y las dilataciones linfáticas patognomónicas lo confirmaron. El segundo caso precisó una mayor serie de pruebas, debido a que las muestras histológicas se informaron como inespecíficas, a pesar de observarse mínimas dilataciones linfáticas. Inicialmente se planteó como diagnóstico más probable una LIS a infección por VVZ. Hay escasos casos publicados de varicela y EPP secundaria a la afectación del tracto gastrointestinal por VVZ⁷. Ross et al⁸ publicaron el caso de una mujer de 46 años con varicela

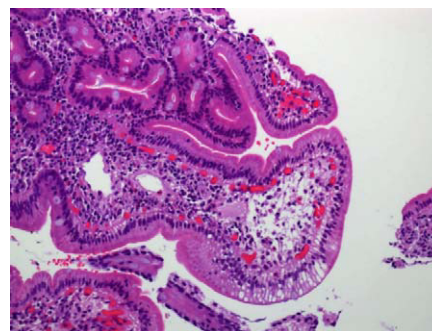


Figura 2 Anatomía patológica en caso clínico 2: dilataciones linfáticas en punta de vellosidad con enterocitos cargados de material lipídico.

grave y LIS, pero no hemos encontrado ningún caso pediátrico. Después de la segunda FEGD, ante la firme sospecha de LIP se revisa la histología, en la que se aprecian (de forma sutil) dilataciones linfáticas en la parte apical de la vellosidad y enterocitos cargados de grasa en las últimas muestras (fig. 2).

La LIP es un ejemplo típico de inmunodeficiencia secundaria. Las concentraciones de inmunoglobulinas están disminuidas pero su producción es normal; la inmunidad celular también está afectada por la linfocitopenia mantenida. A pesar de esto, en los pacientes con LIP se desarrollan infecciones graves o recurrentes con poca frecuencia^{9,10}.

Bibliografía

- Vignes S, Bellanger J. Primary intestinal lymphangiectasia (Waldmann's disease). *Orphanet J Rare Dis.* 2008;3:5.
- Camarero C, Tamariz R, García Trujillo JA, Villagrà F, Escobar H, Suárez L, et al. Enteropatía pierde-proteínas tras operación de Fontan. *An Esp Pediatr.* 2001;54:39-42.
- Rao R, Shashidhar H. Intestinal lymphangiectasia presenting as abdominal mass. *Gastrointest Endosc.* 2007;65:522-3.
- Citak C, Karadeniz C, Dalgic B, Oguz A, Poyraz A, Okur V, et al. Intestinal lymphangiectasia as a first manifestation of neuroblastoma. *Pediatr Blood Cancer.* 2006;46:105-7.
- Rivet C, Lapalus MG, Dumortier J, Le Gall C, Budin C, Bouvier R, et al. Use of capsule endoscopy in children with primary intestinal lymphangiectasia. *Gastrointest Endosc.* 2006;64:649-50.
- Chamouard P, Nehme-Schuster H, Simler JM, Finck G, Baumann R, Pasquali JL. Videocapsule endoscopy is useful for the diagnosis of intestinal lymphangiectasia. *Dig Liver Dis.* 2006;38:699-703.
- Belamarich PF, Ortiz A, Mones RL. Severe hypoproteinemia and edema in association with varicella infection. *Clin Pediatr (Phila).* 1991;30:56-8.
- Ross IN, Chesner I, Thompson RA, Parker RG, Asquith P. Cutaneous viral infection as a presentation of intestinal lymphangiectasia. *Br J Dermatol.* 1982;107:357-63.
- Molina M, Romero A, Antón S, Sarría J, Prieto G, Polanco I. Linfangiectasia intestinal primaria: evolución a largo plazo. *An Esp Pediatr.* 2001;54:33-5.
- Dierselhuis MP, Boelens JJ, Versteegh FGA, Weemaes C, Wulfraat NM. Recurrent and opportunistic infections in children with primary intestinal lymphangiectasia. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2007;44:382-5.

Z. Lobato Salinas^{a,*}, O. Segarra Cantón^b, N. Torán Fuentes^c y J. Sitjes Costas^a

^aServicio de Pediatría, Hospital Sant Joan de Déu, Althaia, Xarxa Assistencial de Manresa, Manresa, Barcelona, España

^bUnidad de Gastroenterología Pediátrica, Hospital Materno-Infantil Vall d'Hebrón, Barcelona, España

doi:10.1016/j.anpedi.2009.03.021

^cUnidad de Anatomía Patológica, Hospital Materno-Infantil Vall d'Hebrón, Barcelona, España

*Autor para correspondencia.

Correo electrónico: zulosa@gmail.com (Z. Lobato Salinas).

Psoriasis inducida por infliximab. Réplica

Psoriasis induced by infliximab. Reply

Sr. Editor:

Hemos leído con gran interés el artículo publicado en Anales de Pediatría por Ávila-Álvarez et al¹, titulado "Psoriasis secundaria a tratamiento con infliximab y adalimumab en la enfermedad de Crohn"¹. En este artículo se señala el caso presentado como el primero comunicado en edad pediátrica.

Previamente tuvimos la oportunidad de publicar (en internet en marzo de 2008 y en papel en octubre del mismo año) un caso similar de psoriasis inducida por infliximab en una niña con enfermedad de Crohn².

Creemos que, ante la creciente utilización del tratamiento biológico en pacientes pediátricos, es necesario estar alerta ante la posible aparición de nuevos efectos secundarios.

doi:10.1016/j.anpedi.2009.03.020

Bibliografía

1. Ávila Álvarez A, García-Alonso L, Solar Boga A, García-Silva J. Psoriasis secundaria al tratamiento con infliximab y adalimumab en la enfermedad de Crohn. *An Pediatr.* 2009;70:278–81.
2. Costa-Romero M, Coto-Segura P, Suarez-Saavedra S, Ramos-Polo E, Santos-Juanes J. Guttate psoriasis induced by infliximab in a child with Crohn's disease. *Inflamm Bowel Dis.* 2008;14:1462–3.

M. Costa Romero^{a,*}, P. Coto Segura^b y J. Santos-Juanes Jiménez^b

^aServicio de Pediatría, Hospital Universitario Central de Asturias, Oviedo, España

^bServicio de Dermatología II, Hospital Universitario Central de Asturias, Oviedo, España

*Autor para correspondencia.

Correo electrónico: marta_costar@yahoo.es (M. Costa Romero).

Impacto familiar de la gastroenteritis por rotavirus en menores de dos años

Gastroenteritis due to rotavirus in two year old infants: Impact on the family

Sr. Editor:

El impacto familiar que tienen las enfermedades de los niños es una cuestión cada vez más valorada junto con los aspectos económicos de éstas (gastos directos imputables a la enfermedad, costes indirectos en relación con pérdidas de horas de trabajo, búsqueda de cuidadores sustitutos, etc.). Son bienvenidos los trabajos que ayuden a obtener datos en esta área. En esta línea se enmarca el trabajo publicado recientemente en Anales de Pediatría¹.

La realización de este trabajo en 30 centros españoles en una época epidémica, que englobó 1.087 casos, hace interesantes sus conclusiones. Lamentablemente, la descripción de material y métodos no permite conocer en profundidad el diseño del estudio. En dos ocasiones se nos remite a descripciones más detalladas, tanto en el diseño como en la sintomatología (cita 9), que no es sino una comunicación a un congreso, no publicada —o al menos no

referida— en ninguna revista accesible electrónicamente. Tampoco se nos facilita el Cuestionario de impacto familiar, que habría podido constar como un anexo, al menos en la edición electrónica de Anales de Pediatría. No podemos saber si se utilizó la escala de impacto familiar a la que hacen referencia los autores en la introducción o se trató de un cuestionario estructurado, diseñado ex propro para el estudio, pero validado.

En la exposición de resultados se muestran algunos datos contradictorios: por ejemplo, cuando se analiza el Cuestionario de impacto familiar se comenta que sólo había muestra de heces disponible en el 71,9% de la muestra (!), cuando todo el análisis se realizó sobre la discriminación de la presencia de antígeno de rotavirus en heces. La exposición de resultados en la tabla 1 puede dar lugar a confusión: como el tamaño muestral es grande, pequeñas diferencias cuantitativas dan lugar a significación estadística. Sin embargo, no se realiza ninguna corrección en función de la edad, variable que puede influir en la experiencia de los padres durante la enfermedad. Señalan los autores que el grupo de lactantes con rotavirus positivo, subgrupo de 6 a 11 meses, fue 1,5 mayor que el que presentaba rotavirus negativo. La enfermedad de un lactante más pequeño puede condicionar la respuesta del cuidador y, por tanto, debería analizarse la etiología de la diarrea corregida según la edad