

CASO CLINICO

**EL FENOMENO DE "SANGRADO"
EN UNA ENFERMA CON PURPURA PSICOGENA,
ESTIGMATIZACION O CROMHIDROSIS ***

JAVIER PIZZUTO, ‡ § JORGE FERNÁNDEZ ¶
y JOSÉ GONZÁLEZ-LLAVEN §

Se presenta el caso poco común de una paciente de 21 años de edad que aparentemente sudaba sangre por varias regiones del cuerpo en situaciones de sobreestímulo emocional, no ligadas a aspectos religiosos y que por el ambiente familiar "mágico" en que vivía, su personalidad histérica, la existencia de pródromos antes del sangrado y la salida de líquido rojo a través de la piel intacta, llevaron a plantear el diagnóstico diferencial de tres entidades extraordinariamente raras e insuficientemente estudiadas, como son la púrpura psicógena, la estigmatización y la cromhidrosis.

Se pudo llegar a la conclusión de que se trató de cromhidrosis de color rojo, situación por demás rara, de la que hasta ahora se han comunicado tan sólo cuatro casos. Además, por la observación, hecha por primera vez en la li-

* Presentado en la sesión ordinaria de la Academia Nacional de Medicina, celebrada el 14 de julio de 1971.

‡ Académico numerario.

§ Hospital General, Centro Médico Nacional, I.M.S.S.

¶ Departamento de Investigación Científica, Instituto Mexicano del Seguro Social.

teratura, de que dicho sudor rojo provenía de glándulas sudoríparas ecrinas, cabe postular la existencia de dos tipos de cromhidrosis: uno por alteración de las glándulas apocrinas, que daría lugar a sudor de color negro, azul y amarillo principalmente, y otro por alteración de las glándulas ecrinas, que produciría el sudor rojo.

El estudio de las enfermedades hemorrágicas en general ha experimentado un gran desarrollo en los últimos años, ya que el descubrimiento de los nuevos factores de la coagulación y sobre todo, de los nuevos y más sensibles métodos para su estudio, ha permitido reunir los recursos necesarios para considerar que en la actualidad, cualquier padecimiento hemorrágico debe ser identificado y que en la mayoría de los casos también, éste pueda ser suficientemente caracterizado.

En 1955, con el descubrimiento de Gardner y Diamond¹ de la púrpura por autosensibilización eritrocítica, se dio un gran avance en el estudio de las púrpuras llamadas no trombocitopénicas o vasculares. En efecto, la inyección de glóbulos rojos autólogos, fue capaz de provocar, en cuatro mujeres con historia de púrpura no trombocitopénica, la aparición de eritema, edema y zonas de equimosis, todo ello precedido de dolor, de intensidad variable, localizado en el sitio de la inyección.

Posteriormente otros autores pudieron demostrar que esta púrpura por autosensibilización eritrocítica también podía ser producida por otras sustancias como el ácido desoxirribonucleico (ADN),² un fosfolípido presente en el estroma del eritrocito identificado con la fosfatidilserina,³ la hemoglobina⁴ y la proteína purificada del bacilo tuberculoso no envejecido o PPD.⁵

La aparición de estos fenómenos hemorrágicos por autosensibilización de tan diversa etiología, está caracterizada por ocurrir únicamente en mujeres habitualmente adultas, con equimosis de repetición, cuya aparición suele ir precedida, horas antes, de sensaciones diversas como prurito, piquetes o dolor, en la zona donde aparecen las equimosis. En 1962, Agle y Ratnoff⁶ hicieron notar que en tres de sus casos, este síndrome purpúrico ocurría en pacientes con antecedentes de graves trastornos emocionales, lo que los hizo sospechar entonces y confirmar seis años más tarde,⁷ que los factores emocionales pueden desempeñar un papel muy importante en el desarrollo de estos síntomas. Esto lo basaron en lo observado en 44 pacientes que mostraban esta púrpura, ya que la mayoría eran mujeres histéricas conversivas o con graves dificultades emocionales como depresión, problemas sexuales visibles, hostilidad, masoquismo o martirismo, ansiedad, histeria, labilidad emocional, conducta obsesivo-compulsiva o intentos suicidas. Anormalidades que ya habían sido observadas por otros autores y que les hicieron sospechar muchos años antes, que en ciertos fenómenos sangrantes, prevalecía una relación anormal de la función del sistema nervioso con un aumento de la permeabilidad vascular para el paso de los eritrocitos.^{8, 11} Así lo mencionó Mitchel⁸ en 1869, a propósito de cinco casos que mos-

traron sangrado cutáneo o equimosis después de presentar dolor intenso en el mismo sitio del sangrado, que él catalogó de equimosis histéricas, y donde el sangrado era habitualmente "incidental" y no "incapacitante", pero con la característica de que se le podía inducir o hacerlo desaparecer por medio de la hipnosis.

En apoyo a lo anterior, Ratnoff y Agle⁷ observaron que la aparición o intensificación de los síntomas en los 44 casos estudiados por ellos, estaba en estrecha relación con la existencia de las alteraciones emocionales mencionadas anteriormente. Estas observaciones llevaron a estos autores a proponer la denominación de púrpuras psicógenas, más que por autosensibilización, ya que los trastornos emocionales podrían ser los responsables de la producción de las lesiones, aunque a través de un mecanismo desconocido para ellos.

Vale la pena mencionar que muchas de las pacientes con púrpura psicógena, o por autosensibilización eritrocítica, habían sido consideradas durante mucho tiempo, como portadoras de un padecimiento enigmático o no determinado. La mayoría de los diagnósticos sospechados habían sido eritema nodoso, reacción alérgica, paniculitis de Weber-Christian, púrpura hiperglobulinémica, amiloidosis, síndrome de Ehler-Danlos, lupus eritematoso sistémico, vasculitis de la piel y del tejido subcutáneo de origen desconocido y otros.

Sin embargo, la corta duración y poca gravedad del proceso, que no se asocia a ningún otro padecimiento, la nula utilidad de dosis altas de corticosteroides y antihistamínicos, la ausencia de fiebre y nódulos subcutáneos, así como de necrosis grasa y atrofia subcutánea y la negati-

vidad o normalidad siempre presente en todas las pruebas de laboratorio practicadas, como coagulación, proteínas séricas, sedimentación globular, células L.E. y anticuerpos antinucleares, han descartado todos los diagnósticos previamente sospechados.

Otros grupos de alteraciones hemorrágicas aún más raras y sobre todo de mecanismo aún menos conocido, está representado por algunos casos con estigmatizaciones tanto religiosas como no religiosas, en donde también han aparecido fenómenos hemorrágicos, pero con características distintas a las señaladas previamente.¹²⁻²⁰ Es decir, aparición de sangrado cutáneo pero sin signos de inflamación, que es lo típico de la púrpura psicógena, así como la ausencia de infección o de alguna ulceración o destrucción tisular, que son las características que no deben existir en todas las heridas que hayan sido consideradas como estigmas.²⁰

Se han descrito casos con estigmas en todas las edades y en todas las situaciones de la vida, con variaciones en su número y en su localización. Las más comúnmente observadas han sido: cicatrices, dolores localizados, heridas y sangrados a través de la piel. Estos estigmas aparecen en intervalos regulares, y se han localizado en diferentes sitios, como en las manos, en los pies, en la cara anterior derecha del tórax, en zonas alrededor del corazón.

Hasta 1923, se habían descrito 300 casos de estigmatizaciones, de los cuales únicamente 41 habían sido en hombres.¹³ Diez años más tarde se informó que había un total de 321.⁶ De todos estos casos el más recordado y estudiado sin duda, es el de Teresa Neumann.^{13, 19, 21-23} Desde el punto de vista médico, Teresa Neumann ha sido con mucho, el caso más estudia-

do y comentado, aunque por desgracia, con estudios puramente descriptivos, tanto desde el punto de vista clínico como psiquiátrico. Así se cuenta con los trabajos de Ewald,²¹ de Klauder²³ y de otros investigadores que pudieron comprobar, en Teresa Neumann, la aparición sin lesión previa, de lágrimas de sangre que se coagulaban al rodar y caer por la cara, así como la observación con una lupa, de la salida de sangre de las heridas desarrolladas espontáneamente en las épocas en que le aparecían los estigmas. La aparición de este sangrado, por otra parte, únicamente ocurría en las zonas descritas y sin sugerir un defecto sistemático de la coagulación, sino más bien un fenómeno puramente local.

En relación con la estigmatización no religiosa, uno de los casos más conocidos es el de Needles,²⁴ quien en 1943 informó de un sujeto varón de 31 años de edad, en quien dicha estigmatización ocurrió durante un curso de psicoanálisis, apareciendo salida de sangre por los poros de las manos en tres ocasiones durante un periodo de cinco meses. Cada uno de estos episodios ocurría después de una situación conflictiva, producida en cada ocasión por sentimientos de culpa, por intensificación de un complejo de Edipo no descubierto o por fantasías. Lifschultz²⁴ en 1957, describió otro caso de estigmatización no religiosa en una mujer de 46 años de edad, en la que aparecían espontáneamente tres arañes sangrantes en la espalda cada vez que sabía que iba a ser visitada por su padre, desapareciendo posteriormente. Esto había aparecido inicialmente a los 13 años de edad, cuando su padre la golpeó brutalmente y la arañó en la espalda, dejándole tres grandes cicatrices.

La explicación, hasta ahora, de estos fenómenos tan complejos como son la aparición de los estigmas con o sin sangrado, no se ha podido encontrar satisfactoria, a pesar de lo extenso y voluminoso de la literatura que existe al respecto. Esta, en resumen ha pretendido concretar su explicación, según lo menciona Agle y colaboradores,⁶ a tres mecanismos: uno de orden sobrenatural, otro de origen histérico y un tercero, inexistente o ficticio, de ser producido artificialmente por el paciente.

Finalmente debe mencionarse, que dentro de los casos con sangrado cutáneo, vale la pena considerar otra variedad de extraordinaria rareza, pero mejor conocida y más ampliamente estudiada que las dos entidades anteriores.²⁵⁻²⁹ Esta es la cromhidrosis o sudor coloreado, en donde se incluye el de sangre, "bloody sweat" o sudor rojo³⁰⁻³³ que por su aspecto podría confundirse con verdadera sangre.

La cromhidrosis se conoce desde que James Yonge²⁵ en 1709 describió por primera vez en humanos, el caso de una paciente de 16 años de edad, al observar que la cara de la enferma, cambiaba súbitamente de color blanco a negro por la aparición de sudor de ese color. La aparición de este fenómeno era precedida, al igual que en la púrpura psicógena, por síntomas prodrómicos consistentes principalmente en sensación de calor en oleadas sentidas poco tiempo antes. Esta descripción de Yonge ha sido universalmente aceptada como la descripción clásica de la cromhidrosis. Hasta 1850 sólo se habían descrito ocho casos con fenómenos semejantes, pero a partir de entonces se describieron más siendo en esa época Le Roy de Mericourt³⁴⁻³⁵ en Francia, uno de sus más entusiastas investigadores y a quien

se debe el primer avance importante en el mejor conocimiento de este fenómeno. Así, en 1869 se conocían 38 casos (34 en mujeres y cuatro en hombres). Sin embargo, desde entonces a la fecha, sólo se han descrito unos cuantos más, la mayoría en forma aislada, excepto en los recientes trabajos de Shelley y Hurley,²⁹ que lograron reunir 12 casos, lo que representa la serie más grande hasta ahora conocida, y la mayor información que sobre cromhidrosis se ha publicado hasta la fecha.

La cromhidrosis aparece predominantemente en mujeres en buen estado de salud; la edad de los pacientes ha oscilado entre 15 y 57 años, con una media de 22 años. Se le observa con más frecuencia en la cara, y de ella en los párpados inferiores y rara vez en el resto del cuerpo, como tórax, abdomen y extremidades. En la mayoría de los casos la coloración ha sido negra o muy oscura, luego azul, amarilla y finalmente roja que es la más rara.

Su aparición suele ocurrir en cualquier momento, inclusive durante el sueño y en cualquier época del año, aunque con mayor frecuencia en el verano. Suele ser precedida por sensación de prurito o de calor. Los estímulos como la ira, la preocupación, la alegría, causan la secreción, al igual que la inyección de sustancias como la adrenalina. Además, tienen como características que la piel subyacente siempre es normal.

El líquido de secreción se ha informado que contiene carbón y hierro^{29, 30-42} y en algunos casos gránulos de lipofusina.²⁹ Es soluble en ácido e insoluble en agua, alcohol y éter; su aspecto varía de ser espeso y semisólido a líquido delgado y turbio. La cantidad excretada generalmente es muy pequeña y cuando se le ob-

serva a 3 660 Å en una lámpara de luz ultravioleta, exhibe fluorescencia de intensidad variable según su color.

La explicación que se había dado a este fenómeno había sido múltiple e insuficiente. En algunos casos se ha atribuido a factores externos como colorantes o a la presencia de bacterias cromógenas en la piel o en el aire. Desde 1954, con los trabajos de Shelley y Hurley,²⁹ ha quedado satisfactoriamente explicado el fenómeno de la cromhidrosis, ya que estos autores comprobaron plenamente por estudios histológicos, histoquímicos y bioquímicos de las glándulas sudoríparas y del sudor, que la cromhidrosis es debida a una función anormal de algunas glándulas apocrinas, por la secreción de un pigmento intracelular localizado en el citoplasma de sus células tubulares. Demostraron que esta anomalía consiste tan sólo en un aumento de sus células secretoras normales y sobre todo, en un aumento de sus gránulos de pigmento; es decir, que la anomalía de las glándulas apocrinas cromhidróficas es puramente cuantitativa. Demostraron también que el color producido por la secreción de esos gránulos al exterior, o sea la coloración del sudor, no se debe a la presencia de bacterias como se había supuesto, sino que desde su origen intracelular, se debe a los diferentes grados de oxidación de la lipofusina de los gránulos, que es el material principal que los integra. De esta manera, cuando el sudor contiene gránulos de lipofusina muy oxidada es de color negro y cuando es poco oxidada es de color amarillito. Colores como el verde y el azul están constituidos por gránulos de lipofusina de oxidación intermedia.

La cromhidrosis de color rojo, es sin duda la más rara, pues desde 1882 que

se describió el primer paciente hasta nuestros días solamente se han publicado cuatro casos.³⁰⁻³³

De las diversas explicaciones que se le han dado a esta variedad de sudor, que se puede confundir con sangre, las más aceptadas han sido también que se trate de un producto de las glándulas apocrinas en vista de las regiones en donde se le ha encontrado: tres casos en la axila³⁰⁻³² y el cuarto en la región perianal;³³ que dichas glándulas apocrinas fueran anormales o que la función nerviosa anormal de ellas en algunos individuos fuera la responsable de la producción del pigmento. A este respecto, Shelley y Hurley²⁹ han negado que el sudor rojo exista como tal, o por lo menos que sea producto de las glándulas apocrinas, ya que en el grupo de sus doce casos no encontraron ningún ejemplo con este color.

El motivo del presente trabajo es dar a conocer un caso de una paciente de 21 años de edad, en la que por presentar sudor de color rojo en varias partes de su cuerpo, se pensó en supuestos episodios de sangrado. Además, por aparecer a través de una piel intacta, fue menester practicar una serie de estudios para poder diferenciarlo de otras entidades muy raras también, como la púrpura psicógena y la estigmatización, máxime que tenía una personalidad histérica, vivía en un ambiente familiar de "magia" y la aparición de dichos fenómenos se veía precedida de pródromos diversos.

Caso clínico

Paciente del sexo femenino de 21 años de edad, sin antecedentes familiares ni personales de enfermedad hemorrágica, y con historia de pertenecer a una fami-

lia con características muy peculiares. El abuelo paterno había sido "medium profesional", la tía materna "vidente profesional" y la madre, estaba recibiendo tratamiento psicoterápico por probable psiconeurosis; además un primo de la paciente era muy aficionado a manipular la "ouija" que también llegó a manejar la paciente y con la que aseguraba haberse comunicado con la abuela materna, a la que había logrado ver, inclusive en forma humana.

Como antecedentes patológicos, hubo asma bronquial hasta los 12 años de edad y antecedentes de sufrir "desmayos" con los conflictos emocionales.

El padecimiento actual lo inició en abril de 1965, aparentemente al día siguiente de haber atravesado de rodillas todo el atrio de la Basílica de Guadalupe, como promesa si su padre salía bien de una intervención quirúrgica, y después de haber tenido un fuerte disgusto con él, que la obligó ese día a abandonar el hogar.

El padecimiento se caracterizó por la aparición de "sangrado" escaso y fugaz en frente, palmas y rodillas. Dicho "sangrado" no se relacionó a ningún traumatismo o lesión cutánea previos, ni tampoco al periodo menstrual o a historia de sangrado anormal como epistaxis, gingivorragias, equimosis o petequias. Habitualmente aparecía después de *stress* emocional de cualquier índole e intensidad y generalmente el sangrado era inmediatamente precedido de una sensación de calor y adormecimiento generalizado en todo el cuerpo. Únicamente le apareció en esas tres regiones mencionadas e indistintamente en una, en dos o en las tres; las más comunes fueron las rodillas, a continuación las manos y finalmente la frente.

El sangrado desaparecía rápidamente y no dejaba ninguna lesión como equimosis o petequias, ni tampoco producía ninguna molestia; excepto la sensación de "debilidad y mareo" transitorios. Hasta su ingreso al hospital había sangrado en forma aislada y en unas cuantas ocasiones: abril de 1965 y de 1966, y marzo, abril y noviembre de 1968. En todas, el sangrado fue en una sola ocasión y con duración muy breve (menos de 3 minutos), excepto en noviembre de 1968 que sangró durante 8 días y en enero de 1969, cuatro ocasiones en un solo día, que fue lo que le hizo asistir al hospital.

En la exploración física a su ingreso (31-I-69), no se encontró ninguna anomalía. Pesaba 43 Kg. (peso ideal de 50 Kg. y habitual de 47.5), talla de 1.58 m.; pulso 80/min., TA 95/70, temperatura 36.5° C., 19 respiraciones por minuto y la prueba del torniquete resultó negativa.

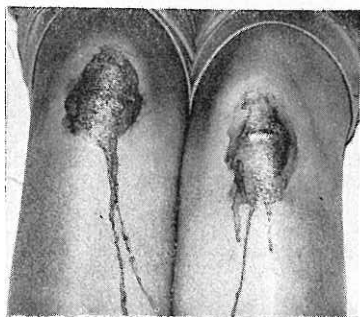
Los exámenes de laboratorio y gabinete a su ingreso fueron todos normales o negativos: la biometría hemática completa, la química sanguínea, las proteínas to-

tales, los anticuerpos antinucleares, las células L.E., los coproparasitoscópicos, la búsqueda de sangre oculta en heces, el factor reumatoide, las antiestreptolisinas, la proteína C reactiva, la electroforesis e inmuno-electroforesis de proteínas, la dosificación de gonadotropinas coriónicas, el análisis general de orina, y el V.D.R.L. Igualmente fueron normales las radiografías de cráneo y de tórax y un electroencefalograma. Las pruebas de coagulación no mostraron ninguna anomalía, tanto en su sistema plaquetario como plasmático, y la respuesta fibrinolítica a la inyección de 500 µg. de adrenalina en solución acuosa también fue normal. En vista de las características del padecimiento, se tuvo especial cuidado en la prueba de la autosensibilización eritrocítica que se utiliza para el diagnóstico de la púrpura psicógena, la que también fue normal.

Una biopsia de piel de la rodilla izquierda practicada inicialmente (febrero de 1969) fue normal y la búsqueda exhaustiva de sangre en la luz glandular y en los conductos de excreción fue negativa (fig. 1).



1. Biopsia de piel de rodilla izquierda sin anomalías, mostrando únicamente glándulas ecquinas.



2. (Arriba y centro) "Supuesto sangrado", con síntomas prodrómicos. (Abajo) Después de limpiar la piel, no se observó ninguna lesión.

En vista de la rareza del padecimiento y ante la necesidad de comprobar la autenticidad de la historia y de las características del supuesto sangrado cutáneo, la paciente fue hospitalizada el 28 de febrero de 1969. Desde su ingreso al servicio de hospitalización, el manejo de la paciente fue muy difícil y laborioso por la serie de problemas de conducta que llegó a presentar. Esto obligó a trasladarla al servicio de psiquiatría, el 3 de marzo de 1969, en donde permaneció hasta dos semanas antes de su muerte, el 7 de abril del mismo año.

Durante el tiempo que estuvo hospitalizada llegó a presentar cuatro episodios de sangrado, todos muy escasos y fugaces y todos relacionados a estados de tensión. Dos de ellos aparecieron después de estar muy "nerviosa" por la gravedad de una enferma vecina y el sangrado ocurrió sólo en las palmas. Otro, a los pocos días de estar reclusa en el servicio de psiquiatría y durante un estado que la paciente llamó "muy especial", aparentemente ligado a problemas familiares. El último, después de hacerle ver la importancia de presenciar y fotografiar el episodio hemorrágico, para comprobar su autenticidad y su mecanismo de producción. Dieciocho horas antes de este último episodio y con objeto de confirmar que la sangre provenía de la paciente, se le inyectaron sus propios eritrocitos marcados con ^{51}Cr y su plasma con 10 mC de ^{59}Fe . Este último episodio fue presenciado y cuidadosamente observado por varios médicos y enfermeras y uno de los autores, ya que hubo oportunidad de llegar a tiempo, pues la enferma avisó previamente por sentir los síntomas prodrómicos característicos minutos antes. El sangrado fue muy escaso, por ambas rodillas (ver fig. 2) de apa-

rición súbita y sin ningún olor característico; la opinión de una de las enfermeras que lo presencié desde su inicio lo asemejaba a "gotitas de rocío" pero de color rojo pálido al principio y más fuerte después, fue de muy breve duración y único, ya que luego de limpiar cuidadosamente ambas regiones, el sangrado no continuó.

Después de limpiar dicha sangre y revisar cuidadosamente ambas rodillas con una lupa, no se observó ninguna lesión cutánea antigua ni reciente que pudiera ser la causa de dicho fenómeno (fig. 2). Se volvió a revisar horas y días después y en ningún momento se llegó a observar ninguna evidencia de petequias ni ningún signo de inflamación. Igualmente, la revisión exhaustiva de otras zonas como posibles fuentes de sangrado fue negativa, inclusive a nivel de cavidades bucal, genital y anal. La radiactividad en la gasa que se usó para la limpieza de la sangre de dichas regiones fue intensamente positiva y correspondió a radiaciones gamma dadas únicamente por ^{59}Fe y no por ^{51}Cr ; además, la reacción del piramidón para búsqueda de sangre oculta resultó positiva.

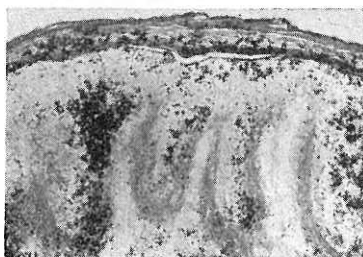
A los pocos minutos de este sangrado se tomó una muestra de sangre venosa para valorar la presencia de fibrinólisis anormal; la cuenta y aglutinación plaquetaria, el tiempo de trombina, la dosificación de fibrinógeno y la lisis de euglobulina, fueron normales o negativos.

Con objeto de aclarar la explicación a tal fenómeno, ya fuera éste por la existencia de un defecto estructural o funcional de la piel o por la presencia de comunicaciones anormales entre los vasos y las glándulas sudoríparas, se tomó otra biopsia pero de la rodilla derecha, seis

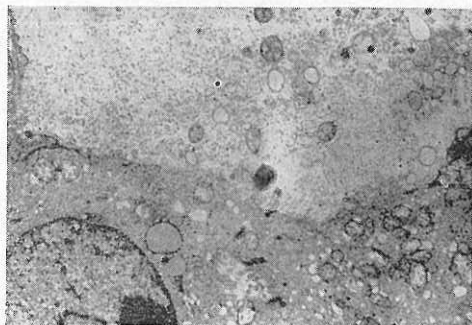
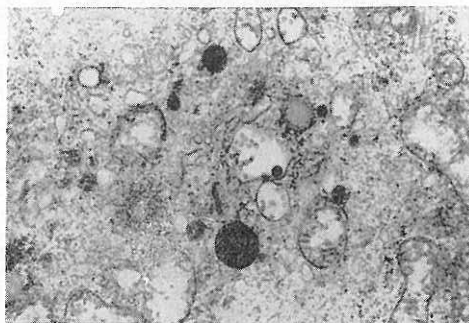
horas después del supuesto episodio de sangrado, y se incluyó en alcohol absoluto para estudio histoquímico, autorradiográfico, de microscopía óptica y electrónica y para búsqueda de hemosiderina.

Fue normal el estudio histoquímico, que incluyó las tinciones para fosfatasa ácida y alcalina, rojo oleoso, dehidrogenasa láctica, hematoxilina-eosina y adenosín-trifosfatasa. La búsqueda de hemosiderina también fue negativa y la autorradiografía mostró la presencia de abundante radiactividad distribuida en forma muy irregular tanto en la dermis como en la epidermis (fig. 3).

El estudio de microscopía óptica y electrónica se hizo en forma comparativa, analizando tanto la biopsia de la paciente, como la tomada en la misma región, a dos voluntarias, mujeres jóvenes y de complejión semejante a la de la enferma. Este estudio comparativo sirvió para poner en evidencia y con mayor claridad, las anomalías observadas en la biopsia de la paciente, sobre todo cuando se compararon las normales o testigo con la anormal o de la enferma.



3 Autorradiografía en estudio histológico de piel de rodilla derecha, que muestra abundante radiactividad distribuida en forma muy irregular, tanto en la dermis como en la epidermis.



4 Microscopia electrónica de piel de rodilla derecha, que muestra en las glándulas eccrinas (*arriba*) una gran cantidad de material secretor y (*abajo*) muy abundante el número de gránulos de pigmento presentes en el citoplasma de las células claras y oscuras.

El estudio con el microscópio óptico fue igual al de la primera biopsia (figura 1), es decir, no se observaron anomalías ni se pudo encontrar tampoco sangre en la luz glandular ni en los conductos de excreción a pesar de haberse revisado en numerosos cortes; por otra parte tampoco hubo diferencias significativas con las biopsias testigo.

En cambio, con el microscopio electrónico sí se observaron diferencias entre la paciente y las biopsias de las dos mujeres normales. Estas consistieron básicamente en la ausencia, normal en esa región, de

las glándulas sudoríparas apocrinas y en la presencia de las eccrinas pero con alteraciones cuantitativas evidenciadas por la existencia de una gran cantidad de material secretor (fig. 4), así como por lo abundante de los gránulos de pigmento de probable lipofuscina, presente en el citoplasma de las células claras y oscuras de dichas glándulas (fig. 4).

La paciente falleció en forma súbita dos semanas después de haberse dado de alta del hospital, aparentemente por la ingestión intencionada de muchos comprimidos de benzodiazepina e imipramina

y después de haber tenido una conducta agresiva y haber amenazado con suicidarse desde varios días antes. No fue posible conseguir el estudio necrópsico.

Comentario

De acuerdo al resultado de los diferentes estudios de coagulación practicados a esta enferma, se pudo fácilmente concluir que sus fenómenos de "sangrado" no fueron debidos a alteraciones de la coagulación en ninguno de sus tres principales sistemas (plasmático, plaquetario o vascular), ya que no sólo las pruebas de laboratorio fueron normales, sino que tampoco se encontraron alteraciones morfológicas ni histoquímicas en los fragmentos de tejido analizados, que fueron tomados de los sitios en donde apareció el fenómeno con más frecuencia. Además, en ningún momento llegaron a aparecer dichos fenómenos en los sitios o en la forma habitual de presentación de las llamadas discrasias sanguíneas, como serían principalmente en piel y mucosas, bajo la forma de petequias o equimosis espontáneas, o bien, como sangrado anormal después de una lesión traumática o quirúrgica.

En relación a las características de dicho fenómeno, la serie de pruebas indirectas realizadas *a posteriori* permiten hacer las siguientes consideraciones: 1) Era un fenómeno real, porque fue observado por muchas personas desde antes de iniciarse hasta su consumación, momento en que fue fotografiado y porque lo ratifican los estudios de autorradiografía, con presencia de radiactividad en el líquido de secreción. 2) No se trataba de sangre sino de sudor, porque si bien no se cuenta con los estudios directos que lo confirmaran, sí se demostró anormalidad en las

glándulas sudoríparas (ver la fig. 4), así como ausencia de hemosiderina y de glóbulos rojos en la piel, a pesar de su búsqueda exhaustiva en los diferentes cortes histológicos, mediante microscopio óptico y ultramicroscopio. Además, por lo mostrado en la autorradiografía y por el hecho de que la radiactividad encontrada en el líquido de secreción fuera por ^{59}Fe , con que se marcó el plasma, y no por ^{51}Cr , con lo que se marcaron los eritrocitos, se confirma plenamente lo anterior. Por otra parte, la positividad del piramido y el color rojo de la secreción, se pueden explicar tan sólo por la presencia de hierro. La existencia de este metal en el sudor ha sido informado por diversos autores, quienes han llegado aun a precisar que su excreción normal por esta vía puede ser de 2 a 37 μg . por ciento por día.³⁶⁻⁴² Además, los autores encontraron eliminación de ^{59}Fe por sudor en un estudio realizado en 8 pacientes con anemia aplásica, a quienes se inyectó ^{59}Fe para estudio de cinética de hierro. El sudor se colectó durante dos horas en una bolsa de polietileno del brazo de cada enfermo. Los resultados muestran de que por lo menos, en cinco de los ocho estudiados había hierro radiactivo.

A mayor abundamiento, también se ha descrito la cromhidrosis en animales como los antílopes que sudan de color azul, las gacelas negro y los hipopótamos y los canguros, de color rojo.⁴³⁻⁴⁵ Desafortunadamente, parece no contarse en estos casos con estudio histológico, que confirme de qué tipo de glándula proviene dicho sudor, sobre todo el de color rojo.

Con respecto al mecanismo de producción del sudor rojo y tomando en consideración la experiencia de los expertos en cromhidrosis, se puede suponer, que tam-

bién este caso se trate de una anomalía cuantitativa de las glándulas sudoríparas, semejante a lo observado por Shelley y Hurley²⁹ en las glándulas apocrinas, en vista de la presencia de la gran cantidad de material secretor en las glándulas sudoríparas de la enferma, estudiada así como por lo abundante de los gránulos de pigmento presentes en el citoplasma de las células claras y oscuras de dichas glándulas (fig. 4). Ahora bien, en relación al hecho de que estos mismos autores hayan negado la existencia del sudor de color rojo,^{29, 45} por no haberlo encontrado en ninguno de sus casos, y porque sólo se había descrito anteriormente en una forma muy superficial, es posible que con este caso, se pueda no sólo explicar esta supuesta discrepancia, sino también establecer definitivamente la existencia del sudor de color rojo, ya que la cromhidrosis de todos los colores, excepto la del color rojo, señala su alteración únicamente en las glándulas sudoríparas apocrinas, y en el presente caso se encontró en las glándulas ecrinas, característica hasta ahora no descrita. Por tanto es posible que este diferente origen, de apocrinas a ecrinas, explique también la diferencia en el color.

Tomando en consideración la personalidad de la paciente, el ambiente mágico en que vivía, la salida de esa supuesta sangre a través de una piel subyacente intacta, cabe mencionar someramente las dos entidades con las cuales se tuvo que diferenciar este caso, por lo menos inicialmente: la púrpura psicógena o por autosensibilización eritrocítica¹⁻¹¹ y la estigmatización.¹²⁻²⁴

En relación a la púrpura psicógena, el diagnóstico diferencial en este caso es evidente, pues aunque presentaba un cua-

dro de supuesto sangrado que era precedido por síntomas característicos que podrían apoyar este diagnóstico, la enferma no tenía antecedentes de púrpura propiamente dicha, ya que nunca llegó a presentar equimosis o petequias, ni tampoco, los supuestos fenómenos de sangrado llegaron a presentar las lesiones típicas de dolor e inflamación, que son una condición esencial de la púrpura psicógena.¹⁻¹¹ Vale la pena mencionar que uno de los casos con púrpura psicógena estudiado por Ratnoff y Agle⁷ llegó a presentar sangrado espontáneo en una pierna y a través de una piel intacta, en una extensión semejante a la de una moneda de un dólar norteamericano; sin embargo, dicha enferma también tenía historia de púrpura de repetición, con las lesiones características de la púrpura psicógena.

Finalmente, por las alteraciones psiquiátricas de la paciente (fue considerada como histerica por el servicio de psiquiatría del hospital) y por la posibilidad de existir cierto misticismo "no religioso" relacionado con el ambiente familiar de "magia" en que vivía, habría cabido la posibilidad de sangrado por estigmatización. Sin embargo, tanto por el hecho de no tratarse de sangre, como también porque los supuestos fenómenos de sangrado ocurrían después de situaciones tanto conflictivas como no conflictivas, como la del último episodio, y no durante ellos, como se ha descrito en la mayoría de los casos de estigmatización, descartan esta última posibilidad. A este respecto se pudo comprobar, por lo menos en el último episodio, que la paciente se encontraba muy contenta y probablemente satisfecha de tal acontecimiento, porque decía ella que "había demostrado que no era una simuladora".

AGRADECIMIENTOS

A los doctores Miguel Guerrero, jefe del Servicio de Histología y Biología Celular, Efraín Ruiz Barquín del Servicio de Dermatología y Alfredo Cuarón, jefe del Servicio de Medicina Nuclear del Hospital General del Centro Médico Nacional, I.M.S.S., por su valiosa cooperación en la elaboración de este trabajo.

REFERENCIAS

- Gardner, F. H., y Diamond, L. K.: *Autoerythrocyte sensitization. A form of purpura producing painful bruising following autosenesitization to red blood cells in certain women*. Blood. 10:675, 1955.
- Levin, M. B., y Pinkus, H.: *Autosensitivity to deoxyribonucleic acid (DNA): report of a case with inflammatory skin lesions controlled by chloroquine*. New Eng. J. Med. 264: 533, 1961.
- Groch, G. S.; Finch, S. C.; Rogoway, W., y Fischer, D. S.: *Studies in the pathogenesis of autoerythrocyte sensitization syndrome*. Blood. 28:19, 1966.
- Krewer, W. B.; Mengel, C. E.; Nowlin, J. B., y Nagaya, H.: *Recurrent ecchymoses and cutaneous hyperactivity to hemoglobin: a form of autoerythrocyte sensitization*. Blood. 30: 62, 1967.
- Waldorf, D. F., y Lipkin, G.: *Sensitization to erythrocytes. A distinctive syndrome*. J.A.M.A. 203:597, 1968.
- Agle, D. P., y Ratnoff, O. D.: *Purpura as a psychosomatic entity. A psychiatric study of autoerythrocyte sensitization*. Arch. Int. Med. 109:685, 1962.
- Ratnoff, O. D., y Agle, D. P.: *Psychogenic purpura: A re-evaluation of the syndrome of autoerythrocyte sensitization*. Medicine. 47: 475, 1968.
- Mitchell, S. W.: *On certain forms of neuralgia accompanied with muscular spasms and extravasations of blood, and on purpura as a neurosis*. Amer. J. Med. Sci. 58:116, 1869.
- González-Guzmán, I.: *Las endoteliosis parciales hemorrágicas*. GAC. MÉD. MÉX. 62: 143, 1931.
- Chapman, L. F.; Ramos, A. O.; Goodell, H., y Wolff, H. G.: *Evidence for kinin formation resulting from neural activity evoked by noxious stimulation*. Ann. N. Y. Acad. Sci. 104:258, 1963.
- Agle, D. P.; Ratnoff, O. D., y Wasman, M.: *Studies in autoerythrocyte sensitization. The induction of purpuric lesions by hypnotic suggestion*. Psych. Med. 29:491, 1967.
- Simon, C.: *Les stigmates cutanés des mystiques*. Bull. Méd. (Paris). 47:667, 1933.
- Klauder, J. V.: *Stigmatization*. Arch. Derm. Syphil. 37:650, 1938.
- Lifshutz, J. E.: *Hysterical stigmatization*. Amer. J. Psychiat. 114:527, 1957.
- Rantatalo, I., y Penttinen, K.: *Stigmatization. A case with herpes simplex virus in the lesion*. Ann. Paed. Fenn. 5:145, 1959.
- Borelli, V. S., y Fürst, R.: *Die Stigmatization — das extreme Beispiel einer psychogenen Dermatoze*. Praxis. 16:389, 1960.
- Miller, D.: *Is the stigma of mental illness a middle-class phenomenon?* Ment. Hyg. 51: 182, 1967.
- Abely, X.: *Stigmatization mystique*. Ann. Medico-psychol. (Paris). 121:100, 1963.
- Ferrari-Sacco, A., y Rabinov, G.: *Hildegarda di Bingen, Sibilla del Reno. Rievocazione di un singolare episodio della medicina convenzionale medioevale e suo confronto con la vicenda di Teresa Neumann*. Minerva Med. 61: 633, 1970.
- Warlomont, E.: 1875. Mencionado en 13.
- Ewald, G.: *Die Stigmatisierte von Konnersreuth*. Münch. Med. Wchnschr. 74:1981, 1927.
- Anónimo: *Therese Neumann of Konnersreuth*. JAMA. 182:862, 1962.
- Reimann, H. A.: *Therese Neumann*. Carta al Editor. JAMA. 183:975, 1963.
- Needles, W.: *Stigmata occurring in the course of psychoanalysis*. Psychoanal. Quart. 12: 23, 1943.
- Yonge, J.: *Account of an unusual blackness of the face*. Philos. Tr. Roy. Soc. London. 26: 424, 1709.
- Heidingsfeld, M. L.: *The pathology of chromidrosis*. JAMA. 39:1519, 1902.
- Shelley, W. B., y Hurley Jr., H. J.: *Localized chromidrosis. A disorder of the apocrine gland*. J. Invest. Dermat. 19:265, 1952.
- Shelley, W. B., y Hurley Jr., H. J.: *The physiology of the human axillary apocrine sweat gland*. J. Invest. Dermat. 20:285, 1953.
- Shelley, W. B., y Hurley Jr., H. J.: *Localized chromidrosis. A survey*. Arch. Dermat. Syph. 69:479, 1954.
- Babes, V.: *Über die Bakterien des rote Schweißes*. Zentralbl. Med. Wissensch. 20:146, 1882.
- Le Roy de Mericourt, H.: *Chromidrose rose*. Bull. Acad. Med. Par. 13:425, 1884.
- Pozzo, A.: *Chromidrosi rossa ascellare legata a iniezione di jodobis mutato di chinino*. Gior. Veneto di Sc. Med. 8:486, 1934.
- Samberger, F.: *Chromidrosis*. Dermatology. Wchnschr. 109:806, 1939.
- Le Roy de Mericourt, H.: *De la chromidrose, ou mieux chromocrinie (secretion de matière colorante par la peau, chez les femmes)*. Gaz. Hebd. Med. (Paris). 6:615, 1859.
- Le Roy de Mericourt, H.: *Memoire sur la chromidrose ou chromocrinie cutanée*. Ann. Ocul. Brux. 1:110, 1863.
- Coltman Jr., M. C. A., y Rowe, N. J.: *The iron content of sweat in normal adults*. Amer. J. Clin. Nut. 18:270, 1966.

37. Johnston, F. A., y Hagan, G. C.: *Perspiration as a factor influencing the iron requirement*. Fed. Proc. 8:387, 1949.
38. Mitchel, H. H., y Hamilton, T. S.: *The dermal excretion under controlled environmental conditions of nitrogen and minerals in human subjects, with particular reference to calcium and iron*. J. Biol. Chem. 178:345, 1969.
39. Stewart, W. B.; Snowman, R. T.; Yuile, C. L., y Whipple, G. H.: *Radioiron excretion by the skin and kidney of dogs*. Proc. Soc. Exper. Biol. & Med. 73:473, 1950.
40. Hussain, R., y Patwardhan, V. N.: *Iron content of thermal sweat in iron deficiency anemia*. Lancet. 1:1073, 1959.
41. Prasad, A. S.; Schulert, A. R.; Sanstead, H. H.; Miale, A., y Farid, Z.: *Zinc, iron and nitrogen content of sweat in normal and deficient subjects*. J. Lab. & Clin. Med. 62:84, 1965.
42. Apte, S. V.: *Deferoxamine and sweat iron*. Proc. Soc. Exp. Biol. & Med. 125:117, 1967.
43. Weber, M.: 1888. Mencionado en 29.
44. Weidman, F. D.: *Comentario al trabajo de Shelley y Hurley*.²⁹ Arch. Dermat. Syphilol. 69:468, 1954.
45. Shelley, W. B.: *Comentarios al trabajo de Shelley y Hurley*.²⁹ Arch. Dermat. Syphilol. 69:468, 1954.