



Por un niño sano
en un mundo mejor

Archivos Argentinos de Pediatría

Publicación oficial de la Sociedad Argentina de Pediatría

ISSN 0325-0075

Editorial

Dónde nacer o cómo nacer

N. Rossato

Comentario

Equilibrios vitales

M. de Asúa

Artículos originales

Prevalencia de personas sordas que cuentan con un intérprete profesional de Lengua de Señas Argentina en la consulta médica de sus hijos

A. M. Cutri, et al.

Características posoperatorias de la faringoplastia combinada con amigdalectomía en comparación con la amigdalectomía en niños con síndrome obstructivo de apnea del sueño

Y. Shu, et al.

Prevalencia del bajo peso al nacer en un escenario de depresión económica en Argentina

J. Ratowiecki, et al.

Prevalencia de hipertensión enmascarada en niños con factores de riesgo para el desarrollo de hipertensión arterial

A. Iturzaeta, et al.

Ventilación no invasiva posextubación en cuidados intensivos pediátricos: estudio multicéntrico

J. P. Bonora, et al.

Prevalencia de hipertensión arterial en escolares de Córdoba, Argentina, y su relación con el nivel socioeconómico

A. González Calbano, et al.

Artículos especiales

Descripción del consumo de nutrientes según el nivel de procesamiento industrial de los alimentos.

Encuesta Nacional de Nutrición y Salud - 2005

I. Drake, et al.

Aplicación del arte a la investigación científica: fundamentos de un método original para su utilización

C. G. Musso, et al.

Talla, peso e índice de masa corporal en niños y niñas wichi de Formosa, Argentina

M. P. Alfonso-Durruty, et al.

Crear o no crear: ¿esa es la cuestión?

M. S. Ciruzzi

Actualización

Síndrome de Beckwith-Wiedemann. Aspectos clínicos y etiopatogénicos de una entidad ejemplo de impronta genómica

F. Cammarata-Scalisi, et al.

Presentación de casos clínicos

Evaluación gastrointestinal en los pacientes con fiebre mediterránea familiar con dolor abdominal crónico y tratados con colchicina: serie de casos

S. Akman, et al.

Importancia de la anamnesis exhaustiva ante una ginecomastia unilateral inexplicada en un niño

C. Pérez-García, et al.

Coinfección por astrovirus y *Neisseria meningitidis* serogrupo B en una niña

A. García-Salido, et al.

Tratamiento satisfactorio con fluconazol de la candidemia relacionada con el catéter por *Candida haemulonii*: informe sobre dos pacientes neonatales

Fang-Qin Xia, et al.

Síndrome diencefálico en un niño con desnutrición crónica e hiperactividad

F. Palmieri, et al.

Síndrome de Sweet en una niña preescolar

R. P. Pereira-Ospina, et al.

Estenosis de la arteria renal unilateral de diagnóstico neonatal

S. M. Barbed Ferrández, et al.

Osteomielitis crónica multifocal recurrente: caso clínico pediátrico

C. G. Battagliotti, et al.

Escorbuto secundario a una dieta restrictiva en un niño con diagnóstico de trastorno del espectro autista. Reporte de un caso

M. J. Saavedra, et al.

Glomerulopatías combinadas: comunicación de 2 casos pediátricos

D. Di Pinto, et al.

¿Cuál es su diagnóstico?

Liquen aureus

V. Fernández Cabo, et al.

Presentación del nuevo caso clínico

Artículos seleccionados

Resúmenes y comentarios

Archivos hace 75 años

Anatomía patológica de encefalitis epidémica observada en la ciudad de Córdoba

A. Ferraris

Cartas al editor

Miembro de la
Asociación Latinoamericana de Pediatría (ALAPE)
y de la **Asociación Internacional de Pediatría (IPA)**

COMISIÓN DIRECTIVA

Presidente

Dra. Stella Maris Gil

Vicepresidente 1°

Dr. Omar Leonardo Tabacco

Vicepresidente 2°

Dra. María Eugenia Cobas

Secretario General

Dr. Rodolfo Pablo Moreno

Tesorero

Dr. Miguel Javier Indart De Arza

Pro-Tesorero

Dr. Gastón Pablo Pérez

*Secretaria de
Educación Continua*

Dra. Lucrecia Georgina Arpi

*Secretario de
Actas y Reglamentos*

Dr. Alejandro Eugenio Pace

*Secretaria de Medios y
Relaciones Comunitarias*

Dra. Rosa Inés Pappolla

*Secretario de
Relaciones Institucionales*

Dr. Carlos Gustavo Wahren

*Secretaria de Subcomisiones,
Comités y Grupos de Trabajo*

Dra. Verónica Sabrina Giubergia

*Secretaria de
Regiones, Filiales y Delegaciones*

Dra. Laura Beatriz Moreno

Vocal 1°

Dra. Fabiana Gabriela Molina

Vocal 2°

Dr. Juan Bautista Dartiguelongue

Vocal 3°

Dra. María Ernestina Reig

Coordinación Técnica

Dra. Alicia Nora Luis

**Director del Consejo de
Publicaciones y Biblioteca:**

Dr. José M. Ceriani Cernadas

Editor

Dr. José M. Ceriani Cernadas

Editora Asociada

Dra. Norma E. Rossato

Editores Asistentes

Dra. Verónica Aguerre

Dra. Adriana Aguilar

Dr. Pablo Durán

Dr. Fernando Ferrero

Dra. Hebe González Pena

Dr. Conrado Llapur

Dra. Paula Otero

Dra. Susana Rodríguez

Dra. María Elina Serra

Comité Editorial

Dr. Ernesto Alda (Hospital Privado del Sur, Bahía Blanca, Buenos Aires)

Dra. Elena Cisaruk de Lanzotti (Instituto del Niño, Rosario, Santa Fe)

Dr. Mario A. del Barco (Hospital Público Materno Infantil, Salta)

Dr. Horacio Federico González (Hospital de Niños "Sor María Ludovica", La Plata, Buenos Aires)

Dr. Jorge Murno (Departamento de Pediatría. Facultad de Medicina. Universidad de Buenos Aires)

Dr. Héctor Pedicino (Hospital Italiano, Córdoba)

Comité Editorial Internacional

Dr. Fernando Álvarez (Canadá)

Dr. Raúl Bustos (Uruguay)

Dr. Dioclécio Campos Júnior (Brasil)

Dr. José A. Castro-Rodríguez (Chile)

Dr. Horacio S. Falciglia (EE. UU.)

Dr. Pablo Justich (España)

Dra. Susan Niermeyer (EE. UU.)

Dr. Víctor Penchaszadeh (EE. UU.)

Dr. Alberto Roseto (Francia)

Dr. Máximo Vento (España)

Consejo Asesor

Dr. Enrique Abeyá Gilardón

Dr. Ramón Exeni

Dr. Horacio Repetto

Dr. Carlos Wahren

Secretaría: Cecilia Marcos y Analía Lorena Cerracchio

Corrección de estilo: Jezabel Proverbio

**Integrante de la Red SciELO y del Núcleo Básico de Revistas Científicas Argentinas.
Indizada en Medline, en Index Medicus Latinoamericano versión Lilacs - CD,
en Science Citation Index Expanded (SCIE) y en Active Embase Journals.**

Reglamento de Publicaciones: <http://www.sap.org.ar/archivos>

Publicación bimestral.

Versión electrónica: <http://www.sap.org.ar/archivos>

Tirada de esta edición: 10 000 ejemplares.

Inscripción Registro de la Propiedad Intelectual: N° 682.782. Registro Nacional de Instituciones: N° 0159.

Inscripción Personas Jurídicas: NC 4029 - Resolución N° 240/63. Inscripción Derecho de Autor N° 869.918.

Los trabajos y opiniones que se publican en *Archivos* son de exclusiva responsabilidad de los autores. Todos los derechos reservados. Los contenidos de los avisos de publicidad son responsabilidad exclusiva del anunciante.

Esta publicación no puede ser reproducida o transmitida en ninguna forma y por ningún medio electrónico, mecánico, de fotocopia, grabación u otros, sin autorización previa escrita de la *Sociedad Argentina de Pediatría*.

Secretaría: Av. Coronel Díaz 1971/75 (C1425) Buenos Aires (Argentina).

Telefax: (0054-11) 4821-8612/2318 • E-mail: publicaciones@sap.org.ar • Internet: <http://www.sap.org.ar>

Suscripciones: Anual individual (socios): \$ 500. Instituciones: \$ 1500.

Para exterior: Países limítrofes: USD 70; resto de América Latina: USD 80; otros países: USD 100 (franqueo incluido).

Forma de pago:

- Giro postal o bancario a nombre de: **Sociedad Argentina de Pediatría no a la orden.**
- Débito automático por tarjeta de crédito.
- Pago *on line* en: <http://www.sap.org.ar>

Editorial

- 306 **Dónde nacer o cómo nacer**
Norma Rossato

Comentario

- 308 **Equilibrios vitales**
Miguel de Asúa

Artículos originales

- 310 **Prevalencia de personas sordas que cuentan con un intérprete profesional de Lengua de Señas Argentina en la consulta médica de sus hijos**
Adrián M. Cutri, Fernando A. Torres, Claudio C. Riquelme, Norma B. Cabrera, Ricardo R. Sandoval, Silvia M. Vesconi, Sandra Di Lalla y Lorena Cordi
- 316 **Características posoperatorias de la faringoplastia combinada con amigdalectomía en comparación con la amigdalectomía en niños con síndrome obstructivo de apnea del sueño**
Yan Shu, Hong-Bing Yao, Da-Zhi Yang y Bing Wang
- 322 **Prevalencia del bajo peso al nacer en un escenario de depresión económica en Argentina**
Julia Ratowiecki, Fernando A. Poletta, Lucas G. Giménez, Juan A. Gili, Mariela S. Pawluk y Jorge S. López Camelo
- 328 **Prevalencia de hipertensión enmascarada en niños con factores de riesgo para el desarrollo de hipertensión arterial**
Adriana Iturzaeta, Luis Pompozzi, Claudia Casas Rey, Irma Passarelli y Fernando Torres
- 333 **Ventilación no invasiva posectubación en cuidados intensivos pediátricos: estudio multicéntrico**
Juan P. Bonora, Judith Frydman, Alejandra Retta y Andrea Canepari
- 340 **Prevalencia de hipertensión arterial en escolares de Córdoba, Argentina, y su relación con el nivel socioeconómico**
Agustín González Calbano, Manuel Álvarez Moyano, Verónica Mamondi y Silvina Berra

Artículos especiales

- 345 **Descripción del consumo de nutrientes según el nivel de procesamiento industrial de los alimentos. Encuesta Nacional de Nutrición y Salud - 2005**
Ignacio Drake, Enrique Abeyá Gilardon, Guadalupe Mangialavori y Ana Biglieri
- 353 **Aplicación del arte a la investigación científica: fundamentos de un método original para su utilización**
Carlos G. Musso, Débora Dricas y Henry González-Torres
- 359 **Talla, peso e índice de masa corporal en niños y niñas wichí de Formosa, Argentina**
Marta P. Alfonso-Durruty y Claudia R. Valeggia
- 365 **Crear o no crear: ¿esa es la cuestión?**
María S. Ciruzzi

Actualización

- 368 **Síndrome de Beckwith-Wiedemann. Aspectos clínicos y etiopatogénicos de una entidad ejemplo de impronta genómica**
Francisco Cammarata-Scalisi, Andrea Avenaño, Frances Stock, Michele Callea, Angela Sparago y Andrea Riccio

Presentación de casos clínicos

- e649 **Evaluación gastrointestinal en los pacientes con fiebre mediterránea familiar con dolor abdominal crónico y tratados con colchicina: serie de casos**
Sezin Akman, Selcuk Yazici y Can Ozturk
- e655 **Importancia de la anamnesis exhaustiva ante una ginecomastia unilateral inexplicada en un niño**
Cristina Pérez-García, Ana B. Ariza Jiménez, Laura Camacho Lozano y Carmen de la Cámara Moraño
- e659 **Coinfección por astrovirus y *Neisseria meningitidis* serogrupo B en una niña**
Alberto García-Salido, Aranzazu García-Brunet, Isabel Pérez-Sebastián, Elena Blanco-Iglesias, José L. Unzueta-Roch y Ana Serrano-González
- e663 **Tratamiento satisfactorio con fluconazol de la candidemia relacionada con el catéter por *Candida haemulonii*: informe sobre dos pacientes neonatales**
Fang-Qin Xia, Chu-Yuan Ye, Wei-Wei Xie, Neha-Devi Poonit y Yong-Hai, Zhou
- e667 **Síndrome diencefálico en un niño con desnutrición crónica e hiperactividad**
Florencia Palmieri, Ignacio Núñez, María V. Falcón, Nicolás Fortini Cabarcos, Ariel Cheistwer, Lorena Mirón y Emilio Martínez Iriart
- e671 **Síndrome de Sweet en una niña preescolar**
Rocío P. Pereira-Ospina, Briam D. Beltrán-Hernández, José M. Suescún-Vargas y Javier Y. Pinzón-Salamanca
- e675 **Estenosis de la arteria renal unilateral de diagnóstico neonatal**
Sara M. Barbed Ferrández, Inés Martínez Redondo, Itziar Serrano Viñuales, Cristina Fernández Espuelas, Yolanda Romero Salas y Cristina Gutiérrez Alonso
- e679 **Osteomielitis crónica multifocal recurrente: caso clínico pediátrico**
Cristina G. Battagliotti, Daniela Rispolo Klubek y Luis Nobile
- e684 **Escorbuto secundario a una dieta restrictiva en un niño con diagnóstico de trastorno del espectro autista. Reporte de un caso**
Melina J. Saavedra, Julieta Aziz y Nicolás Cacchiarelli San Román
- e688 **Glomerulopatías combinadas: comunicación de 2 casos pediátricos**
Diana Di Pinto, Ziomara Balbarrey y Marta Adragna

¿Cuál es su diagnóstico?

- 374 **Liquen aureus**
Verónica Fernández Cabo, Olalla Figueroa-Silva, Sandra Mateo y Benigno Monteagudo

- 376 **Presentación del nuevo caso clínico**

Artículos seleccionados

- e692 **Resúmenes y comentarios**

Archivos hace 75 años

- e696 **Anatomía patológica de encefalitis epidémica observada en la ciudad de Córdoba**
Alfredo Ferraris

Cartas al editor

- e714

Editorial (full text in e-version)

- 306 **Where to be born or how to be born**
Norma Rossato

Comment (full text in e-version)

- 308 **A vital balance**
Miguel de Asúa

Original articles (full text in e-version)

- 310 **Prevalence of deaf people who have a professional Argentine Sign Language interpreter during their children's medical consultations**
Adrián M. Cutri, Fernando A. Torres, Claudio C. Riquelme, Norma B. Cabrera, Ricardo R. Sandoval, Silvia M. Vesconi, Sandra Di Lalla and Lorena Cordi
- 316 **Postoperative characteristics of combined pharyngoplasty and tonsillectomy versus tonsillectomy in children with obstructive sleep apnea syndrome**
Yan Shu, Hong-Bing Yao, Da-Zhi Yang and Bing Wang
- 322 **Prevalence of low birth weight in a scenario of economic depression in Argentina**
Julia Ratowiecki, Fernando A. Poletta, Lucas G. Giménez, Juan A. Gili, Mariela S. Pawluk and Jorge S. López Camelo
- 328 **Prevalence of masked hypertension among children with risk factors for arterial hypertension**
Adriana Iturzaeta, Luis Pompozzi, Claudia Casas Rey, Irma Passarelli and Fernando Torres
- 333 **Post-extubation non-invasive ventilation in the pediatric intensive care unit: a multicenter study**
Juan P. Bonora, Judith Frydman, Alejandra Retta and Andrea Canepari
- 340 **Prevalence of high blood pressure among schoolchildren from Córdoba, Argentina, and its relation to socioeconomic status**
Agustín González Calbano, Manuel Álvarez Moyano, Verónica Mamondi and Silvina Berra

Special articles (full text in e-version)

- 345 **Description of nutrient consumption based on the level of industrial food processing. National Survey on Nutrition and Health of 2005**
Ignacio Drake, Enrique Abeyá Gilardon, Guadalupe Mangialavori and Ana Biglieri
- 353 **Applying art to scientific research: Reasons for using an original method**
Carlos G. Musso, Débora Dricas and Henry González-Torres
- 359 **Height, weight and body mass index of Wichí children from Formosa, Argentina**
Marta P. Alfonso-Durruty and Claudia R. Valeggia
- 365 **To believe or not to believe: Is that the question?**
María S. Ciruzzi

Review (full text in e-version)

- 368 **Beckwith-Wiedemann syndrome. Clinical and etiopathogenic aspects of a model genomic imprinting entity**
Francisco Cammarata-Scalisi, Andrea Avendaño, Frances Stock, Michele Callea, Angela Sparago and Andrea Riccio

Case reports

- e649 **Gastrointestinal evaluation in colchicine-treated familial Mediterranean fever patients with chronic abdominal pain: Cases series** (full text in e-version)
Sezin Akman, Selcuk Yazici and Can Ozturk
- e655 **Importance of the exhaustive anamnesis to an unexplained unilateral gynecomastia in a child**
Cristina Pérez-García, Ana B. Ariza Jiménez, Laura Camacho Lozano and Carmen de la Cámara Moraño
- e659 **Coinfection by astrovirus and *Neisseria B meningitidis* in a girl**
Alberto García-Salido, Aranzazu García-Brunet, Isabel Pérez-Sebastiána, Elena Blanco-Iglesias, José L. Unzueta-Roch and Ana Serrano-González
- e663 **Successful fluconazole treatment of catheter-related candidemia caused by *Candida haemulonii*: report of 2 neonatal cases** (full text in e-version)
Fang-Qin Xia, Chu-Yuan Ye, Wei-Wei Xie, Neha-Devi Poonit and Yong-Hai, Zhou
- e667 **Diencephalic syndrome in a child with chronic malnutrition and hyperactivity**
Florencia Palmieri, Ignacio Núñez, María V. Falcón, Nicolás Fortini Cabarcos, Ariel Cheistwer, Lorena Mirón and Emilio Martínez Iriart
- e671 **Sweet syndrome in a 5-year-old girl**
Rocío P. Pereira-Ospina, Briam D. Beltrán-Hernández, José M. Suescún-Vargas and Javier Y. Pinzón-Salamanca
- e675 **Neonatal diagnosis of unilateral renal artery stenosis**
Sara M. Barbed Ferrández, Inés Martínez Redondo, Itziar Serrano Viñuales, Cristina Fernández Espuelas, Yolanda Romero Salas and Cristina Gutiérrez Alonso
- e679 **Chronic recurrent multifocal osteomyelitis: pediatric clinical case**
Cristina G. Battagliotti, Daniela Rispolo Klubek and Luis Nobile
- e684 **Scurvy due to restrictive diet in a child with autism spectrum disorder. Case report** (full text in e-version)
Melina J. Saavedra, Julieta Aziz and Nicolás Cacchiarelli San Román
- e688 **Combined glomerulopathies: two pediatric cases**
Diana Di Pinto, Ziomara Balbarrey and Marta Adragna

What is your diagnosis?

- 374 **Lichen aurus**
Verónica Fernández Cabo, Olalla Figueroa-Silva, Sandra Mateo and Benigno Monteagudo
- 376 **New clinical presentation**

Selected papers from current literature

- e692 **Abstracts and commentaries**

Archivos 75 years ago

- e696 **Pathological anatomy of epidemic encephalitis observed in the City of Córdoba**
Alfredo Ferraris

Letters

- e714

Dónde nacer o cómo nacer

Where to be born or how to be born

Un niño puede nacer en múltiples escenarios, elegidos o forzados por las circunstancias. En cada momento histórico siempre hubo opciones que se consideraron mejores y nacimientos que no accedieron a ellas.

La matrona figura en el Antiguo Testamento y en los papiros egipcios. En la antigua Grecia su rol era el control del embarazo, trabajo de parto y parto. En el Imperio Romano, aparece el médico obstetra; Sorano de Efeso, considerado el padre de la Obstetricia escribió un tratado dedicado a las comadronas, con aspectos teórico-prácticos sobre la atención de la madre y el niño. La atención difería: matronas prestigiosas para las clases pudientes y mujeres experimentadas para las de menos recursos.¹

La habilitación para ejercer el oficio surge primero en el Senado Romano y luego en el Real Tribunal del Protomedicato en España. A fines del siglo 19 ya existe la enseñanza y el título de matrona, y en el siglo 20, las escuelas profesionales. Actualmente la universidad otorga el título de Especialista en Enfermería Obstétrico-Ginecológica (Matrona).

En esta evolución, primero empírica, luego técnica y finalmente profesional, las parteras, comadronas, matronas u obstétricas trabajaron en el ámbito domiciliario.¹

En el siglo 20, con el desarrollo de la profesión médica y del sistema hospitalario, el nacimiento se trasladó a las instituciones.

El parto institucional tuvo por objetivo disminuir la morbimortalidad materna y neonatal. La posibilidad de atender la emergencia podía evitar un daño grave e incluso la muerte. Eso se logró pero se cometió el error de considerar el nacimiento como una enfermedad y a la embarazada y al recién nacido como pacientes. El equipo médico asumió el protagonismo que antes tenía la familia. Aislamiento, intervenciones e interferencias alteraron las prioridades y los roles ante un nacimiento normal.

¿Entonces? Hay que desandar el camino equivocado y construir un modelo que contemple el acompañamiento adecuado, el protagonismo de la familia y los recursos para resolver la emergencia. Se podría analizar en forma separada y luego en su conjunto los factores que intervienen.

El sistema de salud puede ser en redes o desarticulado, público, de seguro médico o privado, de diversa complejidad. Los niños nacen en todos estos escenarios. El primer escalón es el control del embarazo. Lo importante es que se haga y se determine el nivel de complejidad. Un embarazo de riesgo debería terminar en la institución que cuente con lo necesario para su atención. Un sistema regionalizado permitiría optimizar los recursos y

acceder a la consulta y derivación oportuna.

El recurso humano es clave. En cualquier nivel de complejidad, la modalidad de atención tendría que ser la de una maternidad segura y centrada en la familia con enfoque multicultural. Esta síntesis ofrece la posibilidad institucional de resolver la emergencia dentro del respeto a la familia y su cultura.

La sociedad quizás es la parte más compleja. Hay experiencias propias o compartidas, mitos y verdades, prejuicios, información y desinformación, fortalezas y vulnerabilidades. ¿Cómo hacer para que lo que ocurre se analice objetivamente, para no sacar conclusiones distorsionadas sobre las instituciones, los profesionales de la salud, lo mejor para la madre y el niño por nacer?

Los medios de comunicación y los profesionales de la salud tienen una gran responsabilidad. Las redes sociales todo lo invaden sin ningún filtro. Así como facilitan el acceso a la información, también pueden hacer mucho daño. Probablemente la educación y el diálogo personal sean los únicos medios para poner un poco de luz en esta confusión.

Muchas familias eligen el parto domiciliario por experiencias previas negativas o para tener un parto natural, en la privacidad del hogar. Pero, ¿están informados sobre los aspectos positivos y negativos de esta elección?

En Argentina en 2016 nacieron 2293 niños en sus hogares.² Probablemente el motivo fue diferente en los 270 casos de la Ciudad Autónoma de Buenos Aires, en los 329 de Chaco o en los 184 de Formosa, la provincia con mortalidad materna más alta del país. Igual que en la civilización grecorromana, algunos habrán sido atendidos por una mujer de la familia, otros por profesionales capacitados, pero todos con pocas probabilidades de atención inmediata en la emergencia.

Dice una nota periodística³ que el parto en el hogar surge como una alternativa ante la violencia obstétrica. Una alternativa mejor es el parto respetado con el que ya hay muchos profesionales e instituciones comprometidas.

En EE.UU. el aumento de los partos no institucionales preocupa. Hubo menos intervenciones obstétricas pero mayor mortalidad neonatal (1,26 % vs. 0,32 % del parto institucional).⁴

En Holanda, el sistema de salud establece que el embarazo, parto y puerperio normal sean atendidos por matronas, en el hogar o en clínicas de matronas. El embarazo de alto riesgo es atendido por ginecólogos, al igual que las derivaciones y traslados de urgencia indicados por las matronas. El tiempo de traslado en ambulancia desde la casa a la institución no supera los 15 minutos.

En un artículo se lee: *Muchas madres que quieren dar a luz en casa no pueden por no cumplir uno de los requisitos, casi siempre de salud pero también otros como la cercanía a un hospital o que la entrada de su casa debe estar en la misma planta que el salón, para permitir el paso de una camilla en caso de emergencia.*⁵

La clave está en la determinación del nivel de riesgo, la asistencia por profesionales capacitados, la integración con el centro de mayor complejidad y el traslado inmediato en caso de emergencia.

Argentina está lejos de esta posibilidad en la mayoría de las ciudades. Se publica el nacimiento en el hogar de un bebé cuyos dos hermanos nacieron por cesárea. La familia puede desconocer el riesgo, pero ¿ningún profesional habló con ellos sobre esto?

Si no está presente alguien capacitado en reanimación cardiopulmonar neonatal, lo que ocurre durante 10 minutos de hipoxia grave puede ser irreversible. Para un niño con asfixia perinatal, no alcanza el traslado urgente al centro de salud.

Cuando los equipos profesionales no están integrados a una institución o no avisan que van a hacer un parto y que pueden necesitar un traslado urgente, la institución recibe pasivamente el problema y debe resolverlo hasta donde se puede.

En las grandes ciudades no se garantiza un traslado de emergencia sin dificultades. Congestión de vehículos, regular respeto a las leyes de tránsito, calles deterioradas, manifestaciones, hacen imprevisible el tiempo. Tal vez no sea así en ciudades con una dimensión más humana.

En cuanto a los derechos del niño, cuando alguien decide que nazca en el hogar debe asumir su responsabilidad parental.

La Convención Internacional sobre los Derechos del Niño y la Niña dice en el artículo 18: ... *Incumbirá a los padres... la responsabilidad primordial de la crianza y el desarrollo del niño. Su preocupación fundamental será el interés superior del niño*”.

El Código Civil y Comercial de la Nación Argentina establece entre los *principios generales que rigen la responsabilidad parental a) el interés superior del niño*...

El interés superior del niño se define como los cuidados que a la luz del conocimiento actual, aseguran su óptimo crecimiento y desarrollo. La reanimación cardiopulmonar, básica o avanzada si es necesario, es un cuidado que no debería faltar a ningún recién nacido. La administración de vitamina K, la vacunación contra la hepatitis B y la tuberculosis, son estándares de cuidado en nuestro país.

Cuando las familias se niegan a estas prácticas u otras menos cuestionables como examinar al niño para comprobar su normalidad o detectar anomalías, no prima el interés superior del niño sino las preferencias, creencias y prejuicios.

Una visión de conjunto

Para que el parto respetado sea una realidad

se necesita el compromiso empieza por los profesionales e instituciones porque este modelo de atención implica más horas y mayor disponibilidad.

El diálogo debiera empezar durante el embarazo. Una familia no debería aparecer por primera vez en una institución el día del nacimiento con un escrito donde dictamina qué quiere y qué no como si enfrentara a potenciales enemigos. Eso genera malestar y actitudes defensivas hacia los responsables de su cuidado durante la internación. Tampoco le sirve a los profesionales que aunque piensen lo mismo sobre cómo debe ser el parto, se ven rechazados en cada paso que dan para cumplir con sus responsabilidades.

La entrevista prenatal puede allanar este camino. Si no hay coincidencias es mejor que el parto ocurra en otra institución. Si las hay, se aclaran dudas sobre el momento e importancia de cada procedimiento. El día del parto habrá un ambiente de respeto y colaboración, donde familia y profesionales se integren como equipo de salud.

En una ciudad ideal que cuente con una institución con terapia intensiva materna y neonatal, ambulancia de alta complejidad disponible, caminos buenos, equipos profesionales capacitados y dispuestos a ir al domicilio, un embarazo de bajo riesgo y cercanía al centro de salud, se podría considerar que lo mejor es nacer en el hogar, con la seguridad del cuidado profesional, privacidad y contención familiar.

Si no se reúnen estos requisitos, la mejor opción es una maternidad segura y centrada en la familia. ■

Dra. Norma Rossato

Sanatorio de la Trinidad Palermo

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.306>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.306>

Cómo citar: Rossato N. Dónde nacer o cómo nacer. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):306-307.

REFERENCIAS

- Hernández Garre JM. Historia de las matronas. Evolución de la ciencia y el arte de la partería. Murcia, España: Universidad Católica de San Antonio; 2012. Págs.235.
- Dirección de Estadísticas e Información en Salud. Ministerio de Salud de la Nación. Anuario 2016. [Consulta: 16 de julio de 2018]. Disponible en: <http://www.deis.msal.gov.ar/wp-content/uploads/2016/09/Estadisticasvitalas2016.pdf>
- Esses JM. Parir en casa: la experiencia de un padre. *Diario La Nación*. 22 de febrero de 2018. [Consulta: 16 de julio de 2018]. Disponible en: <https://www.lanacion.com.ar/2109107-parto-domiciliario-la-experiencia-de-un-padre>
- Grunebaum A, Chervenak FA. Out-of-hospital births in the United States 2009-2014. *J Perinat Med*. 2016; 44(7):845-9.
- Mahiques A. Holanda cuestiona el parto en casa. *Gaceta Holandesa*. [Consulta: 16 de julio de 2018]. Disponible en: <https://www.gacetaholandesa.com/parto-en-casa>

Where to be born or how to be born

A child may be born in a variety of settings, either chosen or forced by circumstances. In every historical period, there have always been options that were considered better than others and births taking place without access to them.

Midwives were mentioned in the Old Testament and Egyptian papyri. In Ancient Greece, midwives were responsible for controls during pregnancy, labor, and childbirth. Obstetricians emerged during the Roman Empire; Soranus of Ephesus, who is considered the father of obstetrics, wrote a treatise on midwifery that included theoretical and practical features on mother and child care. Health care delivery was unequal: respected midwives worked for the wealthiest families while experienced women managed those with less resources.¹

The suitability to pursue the professional activity was first regulated by the Roman Senate and then by the Royal Board of Protomedici of Spain. Towards the end of the 19th century, there was already a midwifery career and degree in place and, in the 20th century, there were professional schools. At present, universities grant the degree of Specialist Nurse in Obstetrics-Gynecology (Midwife).

In the context of such advance –which was first empirical, then technical, and finally professional–midwives, obstetric nurses or accoucheuses worked in homes.¹

In the 20th century, with the advancements made in the medical profession and hospital practice, childbirth was moved to facilities.

The purpose of a facility-based childbirth was to reduce maternal and neonatal morbidity and mortality. The possibility of addressing emergencies helped to prevent serious damage, and even death. The goal was achieved but childbirth was wrongly considered a disease and pregnant women and newborn infants were mistakenly seen as patients. The medical team took the leading role that had been previously assigned to the family. Isolation, interventions, and meddling have altered priorities and roles in the setting of a normal childbirth.

So? It is necessary to retrace the steps taken in the wrong way and build a model that includes adequate support, family relevance, and the necessary resources to address an emergency. The factors involved may be analyzed separately and as a whole.

The health care system may provide different levels of care, function as a network or as a non-articulated system, and be funded publicly, privately or through health insurance plans. Children are born in all these different scenarios. The first step is antenatal care. It is important to have antenatal care and to establish the potential for complications. A risky pregnancy should be referred to a facility

that offers everything necessary to manage it. A regionalized system would allow optimizing resources and accessing a timely consultation and referral.

Human resources are a key factor. At any level of care, the approach should focus on a safe, family-centered maternity center with a multicultural approach. Such arrangement offers the institutional possibility to address any emergency, always respecting the family and their culture.

Society is probably the more complex party. Experiences may be shared or individual and involve myths and truths, prejudices, information and misinformation, strengths and weaknesses. How could we analyze the situation in an objective manner, without making distorted conclusions about facilities, health care providers, and what is best for the mother and the child?

The media and health care providers have a great responsibility. Social networks have pervaded everything, without any filters. They provide easy access to information, but they may also cause extensive damage. Education and a personal discussion are probably the only ways to shed light on this confusion.

Many families choose a home childbirth because of a negative past experience or because they want a natural birth in the privacy of their home. But do these families know the positive and negative aspects of their choice?

In Argentina, 2293 babies were born at home in 2016.² Most likely, the reason for this was different in the case of the 270 births occurred in the Autonomous City of Buenos Aires compared to the 329 cases of Chaco or the 184 cases of Formosa, the province with the highest maternal mortality rate in Argentina. As in the Greco-Roman civilization, some of these births may have been assisted by a woman of the family, others by trained providers, but all had few chances of addressing an emergency immediately.

According to a news story,³ *home childbirth emerged as an alternative to obstetric violence*. A better alternative is that of humanized childbirth, which many committed facilities and health care providers now offer.

The rise in non-facility based births occurring in the USA is alarming. The number of obstetric interventions has reduced but neonatal mortality has increased (1.26‰ versus 0.32‰ for facility-based childbirths).⁴

In the Netherlands, the health care system has established that pregnancy, labor, childbirth, and postpartum should be assisted by midwives, either at home or in midwives clinics. Gynecologists control high-risk pregnancies as well as women

who are referred by midwives or who have an emergency. The ambulance ride from the house to the hospital should not be more than 15 minutes.

An article states the following: *"Many women who want to give birth at home cannot do it because they do not meet one of the requirements, most of them are related to health, but also because the house is not close enough to the hospital or because the delivery room is not at street level, so that the stretcher could go through in the case of an emergency."*⁵

The key is establishing the level of risk, getting assistance from trained health care providers, associating with a facility with a higher level of care, and ensuring immediate ambulance transport in case of an emergency.

In most cities of Argentina, this is far from feasible. An article was published on the case of a baby born at home, whose two siblings had been born by C-section. This family may have been unaware of the risks, but hasn't a health care provider discussed these with them?

If a person trained on neonatal cardiopulmonary resuscitation is not present, 10 minutes of severe hypoxia may result in irreversible consequences. For a newborn with perinatal asphyxia, urgent transfer to the health center is not enough.

If the medical team does not work as part of an institution or fails to report about a home childbirth or that emergency care may be required, the hospital may deal with the situation in a passive manner and only to a certain extent. A smooth emergency transport cannot be warranted in big cities. A traffic jam, poor respect for traffic laws, potholed streets, and protests make the ambulance ride duration unpredictable. This may not occur in cities with a more human dimension.

In relation to children's rights, when people decide to have a home childbirth, they should assume their parental responsibility.

Article 18 of the Convention on the Rights of the Child states that *"both parents share the primary responsibility for their child's growth and development. Their main concern is the best interest of their child."*

The Argentine National Civil and Commercial Code establishes that the *main principles of parental responsibility include: a) the best interest of a child...*

This is defined as care that, in light of current knowledge, ensures a child's optimal growth and development. Basic—or advanced, if necessary—cardiopulmonary resuscitation should be available for every newborn infant. Vitamin K administration and hepatitis B and tuberculosis immunizations are standards of care in Argentina.

If the family refuses these practices or other less questionable ones, such as examining the baby to check for normal signs or anomalies, what prevails is not the best interest of a child but the family's preferences, beliefs, and prejudices.

An overview

For humanized childbirth to become a reality, we first need health care providers and facilities to become involved because this model of care calls for more hours of work and a greater availability.

Discussions should start during pregnancy. A family should not show up at a hospital for the first time on the day of delivery with a written document stating what they want and do not want as if they were facing potential enemies. This causes unrest and defensive attitudes towards those responsible for care during hospitalization. And this is no good for providers either, who, even if they feel the same way about how childbirth should be, feel rejected during every step they take to fulfill their responsibilities.

An antenatal interview can pave the way. If there is disagreement, it would probably be best if the birth took place in a different facility. If there is agreement, doubts regarding the time and importance of each procedure will be cleared. On the day of delivery, the environment will be one of respect and collaboration, with the family and health care providers acting as a health team.

In an ideal city, where a hospital has maternal and neonatal intensive care units, a tertiary care ambulance service, good roads, trained teams willing to go to the house, and in the case of a low-risk pregnancy at a location near the hospital, home childbirth may be considered the best option, with safe care provided by a professional, privacy and family support.

As long as these criteria are not met, the best option is a safe, family-centered maternity center. ■

Norma Rossato, M.D.

Sanatorio de la Trinidad Palermo

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.306>

To cite: Rossato N. Where to be born or how to be born. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):306-307.

REFERENCES

- Hernández Garre JM. Historia de las matronas. Evolución de la ciencia y el arte de la partería. Universidad Católica de San Antonio, Murcia, España. Junio 2012. Page 235.
- Dirección de Estadísticas e Información en Salud. Ministerio de Salud de la Nación. Anuario 2016. [Accessed on: July 16th, 2018]. Available at: <http://190.210.218.32:301/ChangePassword.aspx?token=ge5UTDFHTKcMw9qYDYPPeCUu2gKDKcUKW50C5iGTJ%2bcQRlMxt3e1xCjv7k3qEDaQzjzEHbyNL%2bO2Q1H3k6iAw%3d%3d>
- Esses JM. Parir en casa: la experiencia de un padre. *Diario La Nación*. 22 de febrero de 2018. [Accessed on: July 16th, 2018]. Available at: <https://www.lanacion.com.ar/2109107-parto-domiciliario-la-experiencia-de-un-padre>
- Grunebaum A, Chervenak FA. Out-of-hospital births in the United States 2009-2014. *J Perinat Med*. 2016 Oct 1;44(7):845-849.
- Mahiques A. Holanda cuestiona el parto en casa. *Gaceta Holandesa*. [Accessed on: July 16th, 2018]. Available at: <https://www.gacetaholandesa.com/parto-en-casa>

Equilibrios vitales

A vital balance

El artículo comentado¹ es un balance –valga el juego de palabras– respecto de la repercusión que tuvo uno anterior del primero de sus autores.² El tema se inscribe dentro de la creciente literatura sobre *burnout* en medicina y otros trabajos sobre la auto-percepción de los médicos de las condiciones de su práctica. Desde el artículo de medición de *burnout* de Christina Maslach a comienzos de la década de los ochenta –para sugerir un límite temporal– el tema creció exponencialmente, en cierta medida, a tenor de una realidad cada vez más estresante para los profesionales de la salud.³ Es fácil encontrar un acceso actualizado y confiable a la creciente literatura sobre este círculo de cuestiones.^{4,6}

El editorial que se comenta –tanto como el trabajo original de Schwingschackl y los que se publicaron como reacción a éste– tienen un tono auto-referencial característico, exigido por la naturaleza del tema. Básicamente, Schwingschackl y Anand sostienen que la noción de “equilibrio entre trabajo y vida” no es útil, porque plantea una disyuntiva falsa. Sin embargo, reconocen que tal concepto está muy presente como preocupación de los colegas. Como los autores, considero este tema de enorme importancia. Pero el tipo de planteo formulado abre a interrogantes que llevan a perspectivas amplias de saludable discusión y opinión profesional.

Lo primero que habría que decir es que estas cuestiones son, digamos, “*sociedad-dependientes*” en alto grado. Ciertamente, las condiciones de trabajo y de vida privada de la costa oeste de Estados Unidos parecen difícilmente comparables con las que pueden verificarse en los grandes centros urbanos de la Argentina. Un mundo globalizado y altamente interconectado puede llevar a una *ilusión de homogeneidad* que es sólo eso, un espejismo, porque las realidades cotidianas, de trabajo y personales (*work* y *life*) son diferentes. Esto no quiere decir que no haya muchas cosas en común, por ejemplo, la creciente conciencia sobre las crisis vitales y la agudización de condiciones cada vez más complejas (algunos dirían “inhumanas”) del ejercicio profesional. Lo que es diferente es el contenido de esas crisis, cuáles son sus significados y cómo se puede responder a ellas. *Burn out* puede ser un fenómeno común, pero no es lo mismo estar “quemado” por la presión institucional y las

demandas de alta competitividad en el modelo de carrera hospitalaria y de investigación clínica que podría darse en Los Angeles, a tener que hacer tres guardias por semana en condiciones de riesgo físico, sin demasiado futuro y en un contexto social crónicamente inestable. Ni qué decir que la manera de concebir proyectos de vida, en muchos casos de familia, son también muy diferentes en ambos hemisferios, en tanto estas auto-imágenes de futuro crecen en el espesor de valores culturales (espero no se tome a mal si aclaro que afirmo esto sobre la base de la experiencia personal).

En el horizonte, se perfilan dos temas intimidantes por demasiados vastos; me voy a refugiar en mi exceso de edad para hacerlo. El primero es cómo la medicina generada en Estados Unidos a partir de la segunda post-guerra se volvió un modelo hegemónico o, desde el otro lado, como las tradiciones médicas locales ensayaron (o no) articularse con este modelo. Esto quizás no sea tan relevante en cuestiones clínicas o de investigación básica o clínica o de la práctica clínica, pero lo es en todos aquellos aspectos que hacen a *la esencia social* de la medicina. Esta es la segunda cuestión: en los años sesenta, la “*medicina social*” era un enfoque más; quien en la segunda década del siglo XXI no entienda que *la medicina es, ante todo, un hecho social* (aunque no sólo eso, claro) está muy desorientado. La vida de una pediatra en la ciudad de Buenos Aires no es la vida de una médica en Stanford. ¿Pueden extrapolarse las conclusiones? Tiendo a ser más bien escéptico. Porque se estaría pasando por alto hasta qué punto el ejercicio profesional depende de estructuras económicas, sociales y, por supuesto, profesionales particulares de cada comunidad.

Las nociones de “vida” y “trabajo” usadas por los autores del artículo, ¿son homologables a sus análogos locales? Se trata de la misma “vida”, del mismo “trabajo”. ¿No es más bien que, como los mismos autores señalan, estos conceptos son en realidad “constructos” que manejamos para tratar de entendérnoslas con nuestra actividad y, en tanto tales, están edificadas con los materiales del mundo inmediatamente circundante en que nos toca vivir? Y si nos asomamos a análisis conceptuales más finos, uno podría preguntarse: ¿el “trabajo” acaso no es “vida”? ¿En qué se funda

este dualismo “vida-trabajo”, del que se parte, para luego negarlo? Una cosa son las charlas informales, donde se habla de estas cosas entre melancolías y café quemado, y otra los análisis que resultan en artículos publicados en *journals*. ¿Se puede transitar de una dimensión a la otra sin solución de continuidad? ¿No entramos más bien en el mundo de la auto-percepción de valores y situaciones con alto contenido subjetivo? Es por lo menos tema de debate hasta qué punto este tipo de cuestión es susceptible de tratamiento estadístico –una de las virtudes del editorial comentado es que, en ese respecto, se queda de este lado del cerco.

En fin, como los autores señalan, quizás lo más interesante sea *la discusión misma*, no los términos en que ésta está planteada –que a mi juicio son materia de deliberación por las razones señaladas. Porque la cuestión existe: ¿qué es la vida de un pediatra hoy en día, la *vida trabajada* y la *vida vivida*, aquí? (y sí, admito que el dualismo “vida-trabajo” me genera sospechas) ¿Qué posibilidades de florecimiento o planificación personal existen en las distintas formas de ser pediatra o ejercer la pediatría en la Argentina? Más aún y desde un lenguaje que en tanto tal, está preñado de pre-conceptos: ¿es lo mismo decir “ser pediatra” que decir “ejercer la pediatría”? Todo esto merece ser discutido, y quizás de manera formal. Demás está

decir que la experiencia aportada por la literatura internacional es muy valiosa. Pero no habría que perder de vista que estas cuestiones, que cada vez se nos presentan como más agudas, tienen la milenaria edad de la profesión médica –y, de hecho, de la humanidad.

Dr. Miguel de Asúa
CONICET-UNSAM

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.308>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.308>

Cómo citar: De Asúa M. Equilibrios vitales. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):308-309.

REFERENCIAS

- Schwingshackl A, Anand KJS. Editorial: Work–Life Balance: Essential or Ephemeral? *Front Pediatr* 2017; 5:108.
- Schwingshackl A. The Fallacy of Chasing after Work-Life Balance. *Front Pediatr* 2014; 2:26.
- Maslach C, Jackson SE. The measurement of experienced burnout. *J Organ Behav* 1981; 2(2):99-113.
- Mahan JD. Burnout in Pediatric Residents and Physicians: A Call to Action. *Pediatrics* 2017; 139(3):e20164233.
- Baer TE, Feraco AM, Tuysuzoglu Sagalowsky S, et al. Pediatric Resident Burnout and Attitudes Toward Patients. *Pediatrics* 2017; 139(3):e20162163.
- West CP, Dyrbye LN, Erwin PJ, et al. Interventions to prevent and reduce physician burnout: a systematic review and meta-analysis. *Lancet* 2016; 388(10057):2272-81.

Artículos seleccionados

Los siguientes resúmenes y comentarios de trabajos seleccionados se encuentran disponibles en la versión electrónica de este número.

PEDIATRICS 2018; 141(5):e20173674

Validación externa de la regla de predicción clínica del PediBIRN para trauma cefálico abusivo

(Pfeiffer H, et al. *External validation of the PediBIRN clinical prediction rule for abusive head trauma*)

Comentario: Dr. Juan Pablo Mouesca. Unidad de Violencia Familiar. Hospital General de Niños Dr. Pedro de Elizalde, Buenos Aires.

PEDIATRICS May 2018, Volume 141 / Issue 5

Resultados neuroconductuales a 11 años después de la administración de cafeína en neonatos para la apnea de la prematuridad (Mürner-Lavanchy IM, et al. *Neurobehavioral outcomes 11 years after neonatal caffeine therapy for apnea of prematurity, for the caffeine for apnea of prematurity (CAP) Trial Group*)

Comentario: Dr. José M. Ceriani Cernadas. Hospital Italiano de Buenos Aires. Sociedad Argentina de Pediatría.

PEDIATRICS 2018 Apr;141(4)

Lesiones por “hoverboard” y patineta en pediatría (Bandzar S, et al. *Pediatric hoverboard and skate board injuries*)

Comentario: Dra. Ingrid Waisman. Comité de Prevención de Lesiones de la Sociedad Argentina de Pediatría.

A vital balance

The article commented here, authored by Schwingshackl and Anand,¹ is a balance –if you will forgive the pun– regarding the impact of a previous article by the first of the authors.² The topic is in line with the growing bibliography about burnout in medicine and about other studies on physicians' self-perceived conditions of medical practice. Since Christina Maslach's pioneer article on the measurement of burnout in the early 1980s, the topic grew exponentially, perhaps as a result of an increasingly stressful daily routine for health care providers.³ It is not difficult to have reliable and updated access to the growing bibliography on this range of issues.^{4,6}

The editorial commented here, together with the original article by Schwingshackl and those published in response to it, have a typical, self-referential style, as required by the nature of this subject matter. Basically, Schwingshackl and Anand state that the notion of "work-life balance" is not particularly useful because it raises a false dilemma. However, they admit that the concept itself is pretty much a growing concern among colleagues. Like the authors, I consider this matter to be of enormous importance. But the kind of issue being put forward by them seems to call for some discussion.

The first thing to be said is that these matters are highly dependent on particular social and cultural values. Certainly, the working and living conditions of doctors living in the West Coast of the United States are hardly comparable to those that may be observed in the major urban centers of Argentina. A global, highly-interconnected world may lead to an "illusion of homogeneity", a mirage that tends to hide the radical differences between daily working and living realities. This does not mean that there is nothing in common between these worlds: one example is the growing awareness of life crises and the worsening of the increasingly complex (or "inhuman", as some might say) conditions of medical practice. The difference seems to lie in the components of such crises, their meanings, and how people may react to them. The burnout phenomenon may be common both to American and Argentinian pediatricians, but it is not the same to be "burned out" by the characteristic institutional pressure and high competitiveness demands involved by a medical career based in Los Angeles than having to be on duty three times

per week risking physical attacks from patients and living in a chronically unstable social context, such as is not unfrequently the case in Buenos Aires. Needless to say that the way to conceive life projects, which at times involves starting a family, is also very different from one hemisphere to the other; at the same time, it is evident that images of career development and personal achievement are value-laden cultural products.

Two broad and thereby intimidating topics are taking shape on the horizon—I dare to tackle them sheltered by that kind of impunity conferred by older age. Firstly, for us Latin Americans (and this applies specifically to Argentina), the kind of medicine developed in the United States after World War II became an hegemonic model; local medical traditions attempted with more or less success to become organized upon this model. This is particularly relevant when we touch upon those aspects that make up the *social essence* of medicine: it is here where dissonances begin to be heard. In the second place, in the 1970s, "social medicine" was just one more approach among others in the vast field of medical practice; now, in the 21st century, there are few colleagues who would deny that medicine is, above all, a *social occurrence* (although not *just* that, of course). The life of a pediatrician in Buenos Aires is very different from that of a physician in Stanford. Can conclusions be extrapolated? I tend to be rather skeptical. Because we would be overlooking the extent to which medical practice depends on the economic, social, and –of course– specific professional structures of each community.

May the concepts of "work" and "life" used by the American authors be considered equivalent to their local counterparts in Argentina? After all, are we not talking about the same "life" and "work"? Schwingshackl and Anand have aptly pointed out that these concepts should actually be considered "constructs" which we use to come to terms with our profession. If such is the case, it is evident that they are built out of the conceptual and emotional materials of the world which immediately surrounds us—the society and the culture in which we live and work. And if we delve into a more refined conceptual analysis, we might ask ourselves: Is not our "work" also a part of our "life"? What are exactly the grounds of the "work-life" duality? Is it possible to trace a neat divide between these notions? One thing

are the late night melancholy chats over burnt coffee, in which we can indulge in loose talk about “life”, “work”, and the like and a different thing are the analyses that result in articles published in journals. Can we freely move from one dimension to another? With the use of such kind of notions, are we not entering the world of self-perception, the realm of highly-subjective values and situations? It is at least a matter of discussion up to what extent these topics should be subjected to statistical analysis; one of the advantages of the editorial commented here is that, in this respect, it stays on this side of the fence.

In short, as pointed out by the authors, the most interesting part of this issue may be the *discussion itself*. Because the matter is real: What is the life of a pediatrician like, his/her life as a doctor and his/her personal life, in this or that particular setting? What opportunities for personal planning or development are implicated in the different ways of being a pediatrician or practicing pediatrics in Argentina? Moreover, based on a language that, as such, is fraught with preconceptions: Is it the same to say “being a pediatrician” as it is to say “practicing pediatrics”? All this deserves to be discussed, and perhaps, formally. Of course, the experience

described in the international bibliography is extremely valuable. But we should not overlook the fact that these matters, which are increasingly more and more complex, are as old as the medical profession –and, indeed, as humanity.

Miguel de Asúa, M.D., Ph.D
CONICET-UNSAM

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.308>

To cite: de Asúa M. A vital balance. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):308-309.

REFERENCES

1. Schwingshackl A, Anand KJS. Editorial: Work–Life Balance: Essential or Ephemeral? *Front Pediatr* 2017; 5:108.
2. Schwingshackl A. The Fallacy of Chasing after Work-Life Balance. *Front Pediatr* 2014; 2:26.
3. Maslach C, Jackson SE. The measurement of experienced burnout. *J Organ Behav* 1981; 2(2):99-113.
4. Mahan JD. Burnout in Pediatric Residents and Physicians: A Call to Action. *Pediatrics* 2017; 139(3):e20164233.
5. Baer TE, Feraco AM, Tuysuzoglu Sagalowsky S, et al. Pediatric Resident Burnout and Attitudes Toward Patients. *Pediatrics* 2017; 139(3):e20162163.
6. West CP, Dyrbye LN, Erwin PJ, et al. Interventions to prevent and reduce physician burnout: a systematic review and meta-analysis. *Lancet* 2016; 388(10057):2272-81.

Prevalencia de personas sordas que cuentan con un intérprete profesional de Lengua de Señas Argentina en la consulta médica de sus hijos

Prevalence of deaf people who have a professional Argentine Sign Language interpreter during their children's medical consultations

Dr. Adrián M. Cutri^a, Dr. Fernando A. Torres^a, Prof. Claudio C. Riquelme^b, Prof. Norma B. Cabrera^b, Prof. Ricardo R. Sandoval^b, Prof. Silvia M. Vesconi^c, Dra. Sandra Di Lalla^a y Dra. Lorena Cordi^a

RESUMEN

Introducción. En Argentina, la discapacidad auditiva representa 18% de las discapacidades. La Lengua de Señas Argentina (LSA) es el sistema de comunicación de elección en personas sordas (PS). La incorrecta comunicación con el médico impide una adecuada asistencia.

Las PS precisan a un intérprete profesional de LSA (IPLSA) durante la atención médica de sus hijos.

La Ley Nacional 26378 establece ofrecer IPLSA para facilitar el acceso a instalaciones públicas. Sin embargo, la mayoría de las PS no cuentan con intérprete ni conocen este derecho.

Objetivos. Describir la prevalencia de PS que cuentan con IPLSA en la consulta médica de sus hijos y que conocen su derecho a tener acceso gratuito a un IPLSA.

Material y método. Estudio descriptivo, transversal, con encuesta estructurada autoadministrada. Se incluyeron PS que supieran LSA, con hijos entre 1 mes y 18 años. Variables de resultado: contar con IPLSA y conocer el derecho a tenerlo. Tamaño de muestra calculado: 220. Muestreo por conveniencia en la Ciudad de Buenos Aires y la provincia del Chaco. Se calculó prevalencia e intervalo de confianza del 95% (IC95%). Estudio aprobado y registrado.

Resultados. Se analizaron 222 encuestas. Edad: 34,9 ± 10,1 años. El 15,3% (IC95%: 11,1-20,6) contaron con un IPLSA en alguna consulta de sus hijos. El 48,6% (IC95%: 42,1-55,1) conocía su derecho a contar con uno.

Conclusión. La prevalencia de PS que han contado con un IPLSA en la consulta médica de sus hijos fue baja. Casi la mitad conocía su derecho de contar con un IPLSA.

Palabras clave: derecho a la salud, sordera, prevalencia, lenguaje de signos.

- Hospital General de Niños "Pedro de Elizalde", Ciudad Autónoma de Buenos Aires.
- Escuela de Educación Especial N.º 11 "Prof. Alberto Elazar", Resistencia, Chaco.
- Escuela de Educación Especial N.º 7 "Julia Ofelia Cubilla", Resistencia, Chaco.

Correspondencia:
Dr. Adrián M. Cutri:
adriancutri@gmail.com

Financiamiento:
Trabajo realizado con una Beca de la Sociedad Argentina de Pediatría, año 2016.

Conflicto de intereses:
Ninguno que declarar.

Recibido: 19-12-2017
Aceptado: 26-2-2018

Cómo citar: Cutri AM, Torres FA, Riquelme CC, et al. Prevalencia de personas sordas que cuentan con un intérprete profesional de Lengua de Señas Argentina en la consulta médica de sus hijos. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):310-315.

INTRODUCCIÓN

Según la Organización Mundial de la Salud (OMS), cerca del 10% de la población mundial presenta una discapacidad permanente.¹ En Argentina, en la Resolución 1209/2010, Programa Nacional de Detección Temprana y Atención de la Hipoacusia (Ministerio de Salud Pública), se estableció que la discapacidad auditiva correspondía al 18% de las discapacidades y se distribuía en "dificultad auditiva" (86,6%) y "sordera" (13,4%).²

Si bien el grado de pérdida auditiva no predice la modalidad comunicativa, muchas personas sordas y/o hipoacúsicas (PS) emplean la Lengua de Señas Argentina (LSA) como sistema preferido de comunicación.³

Existen dos factores que condicionan una comunicación poco eficaz con las PS: el desconocimiento de la LSA y la falta de intérpretes idóneos. La lectura labial, pese a la creencia popular, es una habilidad difícil de dominar. Además, el nivel medio de comprensión lectora y de expresión escrita de las PS al acabar su escolarización es inferior al de los normooyentes, lo que también dificulta la comunicación, incluso en forma escrita.³

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.310>
Texto completo en inglés:
<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.310>

Las dificultades de comunicación entre PS y profesionales de la salud comprometen una adecuada asistencia sanitaria y condicionan errores de diagnóstico y tratamiento.³ Las PS no entienden las indicaciones ni el propósito de los estudios complementarios solicitados.⁴ Esto crea frustración y las lleva a evitar la atención médica. Por estos motivos, precisan contar con un intérprete profesional de LSA (IPLSA) para lograr una comunicación eficaz durante la atención.⁵

En Argentina, la Ley 26378 (Convención sobre los Derechos de las Personas con Discapacidad - CDPD) reconoce la importancia del acceso a la salud para que las personas con discapacidad puedan gozar plenamente de sus derechos. El artículo 9 establece ofrecer en forma gratuita y sin otros trámites adicionales, un IPLSA para facilitar el acceso a instituciones públicas, y el artículo 21, la posibilidad de aceptar la utilización de ese medio de comunicación en sus relaciones oficiales.⁶

La inclusión del servicio de interpretación de LSA en salud es uno de los derechos más demandados por estas personas, ya que logra satisfacer su plena participación.⁷ Remover las barreras de participación es uno de los objetivos que propone el modelo social sobre la discapacidad que adopta la CDPD. Este modelo considera que la discapacidad no es un problema de la persona y sus características, sino el resultado del encuentro entre esas características y la forma en que fue diseñada la sociedad.⁸

La Convención sobre los Derechos del Niño (Ley 23849), en su artículo 5, reconoce los derechos y los deberes de los padres de impartirles dirección y orientación apropiada a sus hijos para que ejerzan sus derechos. Además, en su artículo 18, destaca las obligaciones del Estado de prestar asistencia apropiada a los padres para el desempeño de sus funciones en lo que respecta a la crianza del niño y a velar por la creación de servicios para su cuidado.⁹

En este sentido, la ausencia de un servicio de IPLSA implica una vulneración a los derechos, no solo de las PS, sino también de sus hijos.

Se cree que la mayoría de las PS en nuestro país no cuentan con un IPLSA en el lugar de consulta médica de sus hijos. Estimar la prevalencia de PS que cuentan con un IPLSA, y que conocen su derecho a tenerlo, sería de utilidad para determinar el estado actual de situación y diseñar estrategias destinadas a la protección de sus derechos.

OBJETIVOS

- Describir la prevalencia de PS que cuentan con un IPLSA al momento de la consulta médica de sus hijos en la Ciudad Autónoma de Buenos Aires (CABA) y en la provincia del Chaco.
- Describir la prevalencia de PS que conocen su derecho de tener acceso gratuito a un IPLSA.

MATERIAL Y MÉTODO

Diseño

Estudio descriptivo, de corte transversal, sobre encuesta estructurada y autoadministrada.

Lugar y fecha

CABA y provincia del Chaco, entre el 1/6/2016 y el 30/4/2017.

Criterios de inclusión

Padre o madre sordo o hipoacúsico, que manejaba la LSA, con, al menos, un hijo en edad pediátrica (de 1 mes a 18 años de edad), que vivía en la CABA o en la provincia del Chaco y que dio su consentimiento para participar de la encuesta.

Criterios de exclusión

PS con otra discapacidad que le impidiera contestar la encuesta; haber participado previamente de la encuesta.

Variables en estudio

- Contar con un IPLSA en la consulta de su hijo.
- Conocer sobre el derecho a tener un IPLSA.

Variables sociodemográficas de control

- Lugar de residencia.
- Edad del padre/madre que contestaba la encuesta.
- Nivel de educación formal.
- Cantidad de hijos.
- Método de comunicación preferido.
- Si utilizaba recursos tecnológicos para mejorar la audición.
- Si participaba de alguna asociación de sordos.
- Lugar habitual de consulta médica de sus hijos.
- Si había una persona que oficiara de intérprete en la consulta médica de sus hijos.
- Quién era la persona que oficiaba de intérprete durante la consulta médica de sus hijos.
- Si prefería la presencia de un IPLSA.

Análisis estadístico

Se realizó la descripción de la población estudiada. Se utilizó porcentaje para variables categóricas con su intervalo de confianza del 95%

(IC95%) y, para variables numéricas, media con desvío estándar.

Para el cálculo de prevalencia, se utilizó el número absoluto de sujetos con el evento buscado (contar con IPLSA/ conocer sus derechos) sobre el número total de observaciones multiplicado por 100 (con IC95%).

Si bien no formaba parte de los objetivos, se estudió si existían factores asociados para contar con un IPLSA y/o conocer su derecho. Se utilizó la prueba de chi cuadrado con cálculo de razón de productos cruzados (*odds ratio*, OR), prueba de t para muestras independientes (variables categóricas o continuas, respectivamente) y análisis de regresión logística binaria. Se consideró significativo un valor de $p < 0,05$. Para el análisis, se utilizó IBM SPSS 20.0.

Tamaño de muestra

Según observaciones previas, la prevalencia de un IPLSA en algunos países podría ser de hasta 1 por cada 10 PS.¹⁰ Teniendo en cuenta este valor, se calculó el tamaño de muestra suficiente para estimar una prevalencia de $10 \pm 5\%$ de PS que contaban con un IPLSA en la consulta médica de sus hijos, usando un nivel de confianza del 95%, sumado a un 10% por pérdida de datos o encuestas incompletas, por lo que se precisaron 220 encuestas (Stat Calc, Epi Info 7.1.3.10 CDC).

La elección de las localidades para realizar el estudio de la CABA y de la provincia del Chaco fue por conveniencia y se aplicó a todas las PS que cumplieran con los criterios de inclusión.

Aspectos éticos

Se dio cumplimiento a lo establecido en la Ley de Protección de Datos Personales (N.º 25326) y se garantizó el anonimato de los sujetos. La encuesta contó con un encabezado en que se solicitaba el consentimiento para su participación.

Se obtuvo la aprobación de los Comités de Ética en Investigación y Docencia e Investigación del Hospital General de Niños "Pedro de Elizalde" (CABA) y del Hospital Pediátrico "Avelino Castellán" (Chaco). Se inscribió en el Registro de Investigaciones Médicas en Salud de CABA, N.º CSI 144/16.

Procedimientos

Se utilizó una encuesta cerrada, estructurada y autoadministrada. Debido a que este era un tema escasamente investigado, no se contaba con una encuesta validada. Esta fue confeccionada para los objetivos del trabajo. Como la comprensión de

la lengua escrita no era igual para PS que oyentes, una PS adaptó la encuesta y se reestructuraron las preguntas para que una PS las pudiera comprender y responder correctamente (véase *Anexo* en formato electrónico).

A partir de un listado que incluía asociaciones de sordos y/o que trabajaran con PS y escuelas de educación especial, se eligieron por conveniencia (no probabilístico) 12 de la CABA y 8 del Chaco, incluidos los hospitales intervinientes.

En cada uno de los lugares elegidos, se invitó a participar a todas las PS que cumplieran con los criterios de inclusión.

Las encuestas podían ser completadas en el lugar donde eran invitados (asociaciones, escuelas u hospitales) o bien llevadas al domicilio para ser completadas y luego devueltas.

Si bien la encuesta fue autoadministrada, las PS podían contar con ayuda en caso de presentar dificultades en la comprensión.

Se evaluó la fiabilidad del instrumento mediante una prueba piloto con 20 PS. Luego de analizar los resultados, se realizaron mínimas modificaciones, y quedó la encuesta definitiva.

Se contactaron PS que cumplieran los criterios de inclusión, a través de asociaciones de sordos, hospitales pediátricos, escuelas de educación especial, docentes y referentes sordos tanto en la CABA como en el Chaco.

Definiciones operativas

- **PS**
Persona con pérdida parcial o total de la audición, en la que, aun con amplificación, la señal auditiva era distorsionada e incompleta. No oía conversaciones a volumen normal.^{11,12} También se las reconoció como personas pertenecientes a una minoría lingüística, comunitaria y cultural.¹³
- **Referente sordo**
PS, usuario permanente de la LSA, con título secundario, que ejercía dentro del establecimiento educativo la función de preservar la cultura de la comunidad sorda y perfeccionar el uso de su lengua.¹⁴ Junto con el docente oyente, generaba un espacio de aprendizaje mutuo y lo asesoraba.¹⁵
- **IPLSA**
Persona con habilidades para interpretar la LSA al español y el español a la LSA, con conocimiento sobre las características socioculturales de las comunidades destinatarias del trabajo de interpretación, del Código de Ética que regulaba su accionar y

dominio del perfil profesional. Debía tener un título para la especialidad de IPLSA.¹⁶

En la provincia del Chaco, se aceptaba el título para la especialidad o el equivalente en capacitación, con título base de nivel superior en LSA y acreditar como mínimo 250 horas de cursos de interpretación de LSA, reconocidos oficialmente.¹⁶

RESULTADOS

Fueron contactadas 11 asociaciones, 7 escuelas y 2 hospitales, hasta alcanzar el tamaño muestral requerido. No aceptaron participar 26 PS. Se realizaron 235 encuestas; 13 (5,5%) fueron eliminadas por estar incompletas, por lo que se analizaron 222 encuestas. De estas, 53,6% (IC95%: 47,1-60,1) pertenecían a la CABA, y 46,4% (IC95%: 39,9-52,9), al Chaco. En la *Tabla 1*, se observan las características demográficas.

El 77,5% tenían solamente hijos oyentes; 13,5%, solo sordos, y 8,6%, sordos y oyentes.

El 75,7% prefería comunicarse en LSA; a 17,1% le era indistinto, y 7,2%, en lengua oral.

El 74,3% no utilizaba audífonos ni implante coclear; 23% utilizaba audífonos, y 2,7% tenía, al menos, un implante coclear.

El 56,8% estaba afiliado a una asociación de sordos.

El 38,7% consultaba a servicios de salud públicos y privados; 37,4%, solo a públicos, y 23,9%, solo a privados.

Respecto del acompañante que oficiaba de intérprete en el momento de la consulta, 40,1% de los padres sordos, a veces, contaban con uno; 33,3% nunca contaban con un acompañante, y 26,6%, siempre.

De las personas que siempre o a veces eran acompañadas por alguien que oficiaba de intérprete (n = 148), 76,6% era un familiar; 5,4%, un amigo; 1,4%, un vecino.

En cuanto a contar con un IPLSA en la consulta médica de sus hijos, el 84,7% (IC95%: 79,4-88,8) nunca lo tuvo; el 15,3% (IC95%: 11,1-20,6) contó alguna vez con uno; no hubo ningún encuestado que contara con un IPLSA en todas las consultas. De los que alguna vez contaron con un IPLSA (n= 34), 23 fueron acompañados por un IPLSA como favor; 9 lo contrataron de manera particular, y a 2 se los pagó la obra social o una asociación de sordos.

El 48,6% (IC95%: 42,1-55,1) conocía su derecho a contar con un IPLSA en la consulta médica de sus hijos; no lo conocía el 51,4% (IC95%: 44,8-57,8).

El 95,5% quería contar siempre con un IPLSA en la consulta médica de sus hijos; 2,7% prefería no contar nunca con un IPLSA, y 1,8% prefería contar con uno en algunas ocasiones.

Se observó una asociación entre mayor edad de los padres con el conocimiento del derecho de contar con un IPLSA en la consulta médica de sus hijos, media de 37,45 ± 10,46 años vs. 32,5 ± 9,1 (p < 0,01).

El lugar de residencia se asoció a conocer el derecho: 77 de 199 de los que vivían en la CABA conocían su derecho vs. 31 de 103 de los que vivían en el Chaco (OR 4,3; IC95%: 2,4-

TABLA 1. Datos demográficos de los padres sordos encuestados en ambas provincias. N= 222

Género	
Femenino	138 (62,2%)
Masculino	84 (37,8%)
Edad (promedio ± desvío estándar)	34,9 ± 10,1
Estudios cursados	
- Primario incompleto	9 (4,1%)
- Primario completo	46 (20,7%)
- Secundario incompleto	52 (23,4%)
- Secundario completo	84 (37,8%)
- Terciario	26 (11,7%)
- Universitario	5 (2,3%)

TABLA 2. Factores que se asocian a conocer el derecho a contar con un intérprete profesional de Lengua de Señas Argentina

	Conocer el derecho		OR (IC95%)	p
	Sí	No		
Edad (promedio ± desvío estándar)	37,4 ± 10,4	32,5 ± 9,1		0,01*
Residencia (CABA ^a /Chaco)	77/31	42/72	4,3 (2,4-7,5)	< 0,001**
Hijos (sordo/oyente o ambos)	22/86	9/105	2,9 (1,2-6,8)	< 0,01**
Estudios (sec. inc./sec. comp. ^b o más)	44/64	63/51	1,8 (1,1-3,1)	0,04**
Pertenecer a una asociación (sí/no)	79/29	47/67	3,8 (2,2-6,8)	< 0,001**

* Prueba de ^t para muestras independientes.

** Prueba de chi cuadrado.

^a Ciudad Autónoma de Buenos Aires.

^b Secundario incompleto/secundario completo.

OR: *odds ratio*; IC: intervalo de confianza.

7,5; $p < 0,001$). El resto de los factores asociados a conocer el derecho a contar con un IPLSA se presentan en la *Tabla 2*.

Se realizó una regresión logística binaria, que incluyó el lugar de residencia, edad y pertenencia a una asociación de sordos, donde se observó que vivir en la CABA y pertenecer a una asociación eran predictores independientes para conocer el derecho a contar con un IPLSA en la consulta médica (*Tabla 3*).

Además, no estar equipado con tecnología que mejorara la audición se relacionaba con preferir contar siempre con un IPLSA (161 de 165 sin equipamiento vs. 51 de 57 equipados con implante coclear o audífonos; OR 4,7; IC95%: 1,3-17,4; $p = 0,03$).

DISCUSIÓN

En nuestro estudio, la prevalencia de PS que contaron con un IPLSA en la consulta médica de sus hijos fue de 15,3%. Algo menos de la mitad conocían su derecho a contar con uno.

Si bien existían pocos datos, varios autores coincidieron en la escasa presencia de IPLSA en los servicios de salud.⁴⁻¹⁷

La prevalencia de PS que conocían el derecho a contar con un IPLSA durante la consulta médica de sus hijos fue menor de la mitad de los encuestados. Estuvo asociado en forma independiente a vivir en la CABA y pertenecer a una asociación de sordos. Esto podría deberse a diferencias en el acceso a la información; la CABA contaba con mayor número de asociaciones de sordos, que, al reunir gente con un mismo fin, constituían un foro propicio para la transmisión de dicha información.

Se observó que la mayoría de las PS eran acompañadas a la consulta por una persona oyente, que intentaba officiar como intérprete; en las 2/3 partes, esta persona era un familiar. Las PS tenían la necesidad de asistir a la consulta acompañadas, generalmente, por los abuelos

del niño.¹² En otros casos, eran los mismos niños los que actuaban como intérpretes, sin tener en cuenta que eran pequeños para tomar esta responsabilidad.¹² A veces, los familiares oyentes no permitían que la PS participara activamente en la consulta.⁴ Veinberg y col. afirmaron que era importante considerar que eran los padres quienes tenían el derecho de conocer la situación de sus hijos. Además, estas situaciones interferían en la confidencialidad.⁷

Casi la totalidad de PS respondieron el deseo de contar con un IPLSA, incluso aquellos equipados con audífonos o implantes.

Se observó que más de la mitad de los padres sordos utilizaban la salud pública. Esto justificaría implementar medidas para asegurar el derecho de accesibilidad a la información sobre la salud de sus hijos, similares a las aplicadas en otros países.¹

Nuestro trabajo presenta potenciales debilidades. La elección de la muestra fue por conveniencia, a partir de la invitación de centros, escuelas o asociaciones que nucleaban a PS. Sin embargo, en cada lugar, se invitó a participar a todas las PS, sin hacer distinciones ni elecciones específicas de los participantes. Con el objeto de aumentar la representatividad de la muestra, se eligieron dos poblaciones distintas en cuanto a ubicación, demografía y posibilidades de acceso al servicio, como la CABA y el Chaco.

Además, no se contó con una encuesta validada para nuestra población. Para esto, se realizó una encuesta sencilla, primero en forma abierta y luego en forma cerrada y estructurada, corregida y adaptada para que fuera comprendida por PS, y se contó con la colaboración de una PS idónea en este aspecto.

Dada la escasa oferta de carreras de estudios para IPLSA, quizás, la cantidad de intérpretes no sea suficiente para cubrir las necesidades de las PS; esto excede los objetivos del trabajo. El acceso a la información en salud de esta población es aún muy limitado. Se considera que se deben realizar

Tabla 3. Regresión logística binaria: factores predictores para conocer el derecho a contar con un intérprete profesional de Lengua de Señas Argentina

	Exp. (B) ^a	IC95% para exp. (B) ^a	p
Residencia (CABA ^b /Chaco)	2,69	1,4-5,0	0,002
Edad de los padres	0,97	0,9-1,0	0,072
Pertenecer a una asociación (sí/no)	1,29	1,2-4,4	0,005

La variable de resultado fue conocer el derecho a contar con un IPLSA (sí/no).

^a Exponente beta.

^b Ciudad Autónoma de Buenos Aires.

IC: intervalo de confianza.

trabajos que den cuenta de la situación actual para aplicar acciones que garanticen su accesibilidad.¹⁸

Aceptar el modelo social de discapacidad representa un gran desafío para la comunidad médica. En el marco de la CDPD, no es suficiente sumar medidas legislativas; la clave está en la capacidad de los sectores sociales para llevar a la práctica la esencia de estas medidas.¹⁸

CONCLUSIONES

En nuestro estudio, la prevalencia de PS que contaron con un IPLSA en la consulta médica de sus hijos fue del 15,3%.

El 48,6% conocían su derecho a contar con un IPLSA en la consulta médica.

El lugar de residencia y el pertenecer a una asociación para PS se comportaron como predictores independientes para conocer el derecho a contar con un IPLSA en la consulta médica de sus hijos. ■

Agradecimientos

Los autores quieren agradecer a la Sra. Adriana Sicilia, madre sorda que compartió sus experiencias vividas en salud e inspiró el inicio de este proyecto. Y a la Asociación de Sordomudos de Ayuda Mutua (ASAM), a la Asociación de Artes y Señas (ADAS) y a la Confederación Argentina de Sordos (CAS) por su colaboración para la aplicación de la encuesta. A Verónica Gatto Bellora por la revisión y corrección del manuscrito.

REFERENCIAS

1. Organización Mundial de la Salud. Informe Mundial sobre la discapacidad. Malta: OMS; 2011. [Acceso: 2 de marzo de 2016]. Disponible en http://www.who.int/disabilities/world_report/2011/summary_es.pdf.
2. Organización Mundial de la Salud. Sordera y pérdida de la audición. 2015. [Acceso: 2 de marzo de 2016]. Disponible en: <http://www.who.int/mediacentre/factsheets/fs300/es/>.
3. García García A, Zaragoza L, De Castro M, et al. Salud mental y personas sordas. *Autonomía Personal* 2011; (5):44-7.
4. Cardoso A, Rodrigues C, Bachion M. Perception of persons with severe or profound deafness. *Rev Lat Am Enfermagem* 2006; 14(4):553-60.
5. Sheppard K. Deaf adults and health care: Giving voice to their stories. *J Am Assoc Nurse Pract* 2013; 26(9):504-10.
6. Argentina. Ministerio de Justicia y Derechos humanos. LEY 26378. 2008. Apruébese la Convención sobre los Derechos de las Personas con Discapacidad y su protocolo facultativo, aprobados mediante resolución de la Asamblea General de las Naciones Unidas del 13 de diciembre de 2006. InfoLEG. Buenos Aires, Argentina, 21 de mayo de 2008. [Acceso: 2 de marzo de 2016]. Disponible en <http://servicios.infoleg.gob.ar/infolegInternet/anexos/140000-144999/141317/norma.htm>.
7. Veinberg S, Sinigaglia A. Herramientas para la comunicación. En Veinberg S. *Atención pediátrica de los niños sordos, hipoacúsicos, ciegos y con baja visión: una mirada desde los derechos del niño*. Buenos Aires: Fundasap; 2006. P:45-51.
8. Cobeñas P, Fernández C, Galeazzi M, et al. Educación inclusiva y de calidad, un derecho de todos. Buenos Aires: COPIDIS-Grupo Art. 24 por la Educación Inclusiva; 2017. [Acceso: 5 de febrero de 2017]. Disponible en: http://www.grupoart24.org/downloads/publicaciones/manual_educacion_inclusiva.pdf.
9. Argentina. Ley 23849. Convención sobre los Derechos del Niño. Buenos Aires, 27 de septiembre de 1990. [Acceso: 8 de febrero de 2017]. Disponible en: <https://www.unicef.org/argentina/spanish/7.-Convencionsobrelsderechos.pdf>.
10. Fundación CNSE. Acércate a la Comunidad Sorda. [Acceso: 6 de marzo de 2016]. Disponible en: http://www.fundacioncnse.org/lectura/acercate_comunidad_sorda/acercate_comunidad_sorda_2.htm#punto5.
11. Argentina.gob.ar beta. Ministerio de Salud. Hipoacusia. [Acceso: 6 de marzo de 2018]. Disponible en: <https://www.argentina.gob.ar/salud/glosario/hipoacusia>.
12. Veinberg S, Bonnet S. El cuidado de la salud de los niños, niñas y adolescentes sordos. Guía de recursos para profesionales de la salud. Buenos Aires: Canales; 2012.
13. Mariani M. Detección temprana de la hipoacusia y la sordera. En Veinberg S. *Atención pediátrica de los niños sordos, hipoacúsicos, ciegos y con baja visión: una mirada desde los derechos del niño*. Buenos Aires: Fundasap; 2006. P.25.
14. Argentina. Ley 5397. Lengua de señas. Boletín Oficial, Chaco, Argentina, 4 de julio de 2005.
15. Agrelo JJ, Álvarez A, Carracedo L, et al. Trayectorias educativas integrales y configuraciones de apoyo para niños, jóvenes y adultos sordos, hipoacúsicos y para niños oyentes con trastornos del lenguaje. Buenos Aires: COPIDIS; 2011. [Acceso: 28 de febrero de 2018]. Disponible en: www.buenosaires.gob.ar/sites/gcaba/files/trayectorias_educativas_integrales.pdf.
16. Ley N° 6562. Anexo a la resolución N.º 1768, que modifica el artículo n.º 2 de la Ley 6003. *Boletín oficial de la Provincia del Chaco*. Resistencia, 8 de septiembre de 2010; 57(9109):1. [Acceso: 6 de marzo de 2018]. Disponible en <http://educacion.chaco.gov.ar/app/boletin/page/56>.
17. Estrada Aranda B. La vulneración de los derechos humanos de las personas sordas en México. México: Cultura Sorda; 2008. [Acceso: 9 de noviembre de 2016]. Disponible en: <http://www.cultura-sorda.org/la-vulneracion-de-los-derechos-humanos-de-las-personas-sordas-en-mexico/>.
18. Muñoz-Bael I, Ruiz-Cantero MT, Álvarez-Dardet C, et al. Comunidades sordas: ¿pacientes o ciudadanas? *Gac Sanit* 2011; 25(1):72-8.

ANEXO

ENCUESTA PARA SABER SI HAY INTÉRPRETES PROFESIONALES DE LENGUA DE SEÑAS ARGENTINA EN LA CONSULTA MÉDICA DE SUS HIJOS

Esta es una encuesta anónima para personas sordas (sordas e hipoacúsicas) que saben Lengua de Señas Argentina. **NO ESCRIBA SU NOMBRE.**

Queremos saber si las personas sordas tienen un intérprete profesional de Lengua de Señas Argentina en la consulta médica de sus hijos. También si saben que tienen derecho a tener un intérprete profesional.

Su respuesta nos ayudará a dar mejor atención médica a las personas sordas.

Completar esta encuesta tardará 15 minutos. Si no entiende, puede pedir ayuda a otra persona.

Si no quiere completar la encuesta, no hay problema. Si la completa, acepta participar de la encuesta.

Si tiene dudas, puede consultar al mail adriancutri@gmail.com.

Muchas gracias por ayudar.

1. ¿En qué provincia vive?

.....

2. Sexo (marque con una x):

Femenino.

Masculino.

3. Edad: años.

4. Cantidad de hijos:

Sordos:

Oyentes:

5. ¿Cuál es su nivel de educación? (Marque con una x).

Primario incompleto.

Primario completo.

Secundario incompleto.

Secundario completo.

Terciario incompleto.

Terciario completo.

Universitario incompleto.

Universitario completo.

6. En la consulta médica de sus hijos, ¿usted cómo prefiere comunicarse con el médico? (Marque con una x).

Lengua oral.

Lengua de Señas (LSA).

Es lo mismo.

7. ¿Usted utiliza lo siguiente? (Marque con una x).

Audífonos.

Implante coclear.

No utiliza nada.

8. ¿Usted participa de alguna asociación de personas sordas? (Marque con una x).

Sí.

No.

9. Cuando va a la consulta médica de su hijo, ¿dónde lo lleva? (Marque con una x).

Hospital público.

Consultorio o sanatorio privado.

Cualquiera de los dos.

10. En la consulta médica de sus hijos, ¿hay alguien que interprete en LSA lo que dice el médico?

(Marque con una x).

Siempre.

A veces.

Nunca.

11. ¿Quién le explica lo que dice el médico? (Marque con una x).

Nadie.

Un amigo.

Un vecino.

Un familiar.

Una persona conocida.

Un intérprete profesional de lengua de señas.

12. Si tiene un intérprete profesional de LSA, ¿cómo logró tenerlo? (Marque con una x).

Está en el hospital o consultorio.

Lo contrató usted.

Lo pidió a la obra social.

Lo conoce y lo acompaña como favor.

Nunca tuvo un intérprete profesional.

13. ¿Usted sabe que las personas sordas tienen derecho a tener siempre un intérprete profesional de LSA en la consulta médica? (Marque con una x).

Sí.

No.

14. ¿Usted quiere tener un intérprete profesional de LSA en la consulta médica de su hijo?

(Marque con una x).

Siempre.

A veces.

Nunca/no lo necesito.

Prevalence of deaf people who have a professional Argentine Sign Language interpreter during their children's medical consultations

Adrián M. Cutri, M.D.,^a Fernando A. Torres, M.D.,^a Prof. Claudio C. Riquelme^b, Prof. Norma B. Cabrera,^b Prof. Ricardo R. Sandoval,^b Prof. Silvia M. Vesconi,^c Sandra Di Lalla, M.D.^a and Lorena Cordi, M.D.^a

ABSTRACT

Introduction. In Argentina, hearing disability accounts for 18% of disabilities. Argentine Sign Language (ASL) is the communication system of choice used by deaf people (DP). An incorrect communication with physicians hampers the adequate provision of health care.

DP require a professional ASL interpreter (PASLI) in the context of health care provided to their children.

National Act no. 26378 stipulates the provision of a PASLI to facilitate access to public facilities. However, most DP neither have an interpreter nor know this right.

Objectives. To describe the prevalence of DP who have a PASLI present during their children's medical consultations and who know their right to access one at no charge.

Material and method. Approved and registered, descriptive, cross-sectional study with a structured, self-administered survey. Participants: DP who knew ASL and had children aged 1 month to 18 years old. Outcome variables: to have a PASLI and to know the right to have one. Estimated sample size: 220. Convenience sampling selected from the Autonomous City of Buenos Aires and the province of Chaco. The prevalence and 95% confidence interval (95% CI) were estimated.

Results. Two hundred and twenty-two surveys were analyzed. Age: 34.9 ± 10.1 years old. Among all participants, 15.3% (95% CI: 11.1-20.6) sometimes had a PASLI during their children's medical consultations. Also, 48.6% (95% CI: 42.1-55.1) knew their right to have one.

Conclusion. The prevalence of DP who had a PASLI present during their children's medical consultations was low. Less than a half knew their right to have one.

Key words: right to health, deafness, prevalence, sign language.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.310>

To cite: Cutri AM, Torres FA, Riquelme CC, et al. Prevalence of deaf people who have a professional Argentine Sign Language interpreter during their children's medical consultations. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):310-315.

- Hospital General de Niños "Pedro de Elizalde," City of Buenos Aires.
- Special Education School No. 11 "Prof. Alberto Elazar," Resistencia, Chaco.
- Special Education School No. 7 "Julia Ofelia Cubilla," Resistencia, Chaco. Argentina.

E-mail address:

Adrián M. Cutri, M.D.: adriancutri@gmail.com

Funding:

This study was conducted in the framework of a scholarship granted by the Argentine Society of Pediatrics (Sociedad Argentina de Pediatría) in 2016.

Conflict of interest:

None.

Received: 12-19-2017

Accepted: 2-26-2018

INTRODUCTION

According to the World Health Organization (WHO), approximately 10% of the global population has a permanent disability.¹ In Argentina, by means of Resolution no. 1209/2010, National Program of Early Detection and Treatment of Hearing Impairment (Ministry of Public Health), it was established that hearing disability accounted for 18% of disabilities, grouped into "hearing loss" (86.6%) and "deafness" (13.4%).²

Although the extent of hearing loss does not predict the mode of communication, Argentine Sign Language (ASL) is the preferred communication system by many people who are deaf (DP) and/or hard of hearing.³

Two factors determine a poorly effective communication with DP: ignorance of ASL and a lack of suitable interpreters. Lip-reading, in spite of popular belief, is difficult to master. In addition, DP's mean level of reading comprehension and writing skills once they complete their education is lower than that of hearing people, which also hinders communication, even when written.³

Communication difficulties between DP and health care providers jeopardize an adequate health care provision and result in diagnosis and management errors.³ DP do not understand indications or the purpose of ancillary studies.⁴ This generates frustration and dissuades them from seeking care. For these reasons, DP require a professional ASL interpreter (PASLI) to achieve an effective communication during medical consultations.⁵

In Argentina, Act no. 26378 approved the Convention on the Rights of Persons with Disabilities (CRPD) and recognized the importance of access to health care so that people with disabilities are able to fully enjoy their rights. Article 9 stipulates the provision of a PASLI at no cost and without further formalities to facilitate the access of DP to public facilities, whereas Article 21 establishes the possibility of agreeing to use this mean of communication in their official interactions.⁶

The inclusion of ASL interpreting in health care is one of the most claimed rights by these people, because it helps them to fully participate.⁷ Removing participation barriers is one of the objectives proposed by the social model adopted by the CRPD regarding disability. This model considers that disability is not the problem of a person and his/her characteristics but the result of the meeting between such characteristics and the way a society is designed.⁸

Article 5 of the Convention on the Rights of the Child (Act no. 23849) recognized the rights and duties of parents to provide appropriate direction and guidance to their children in the exercise of their rights. In addition, Article 18 underlines the State's obligations to render appropriate assistance to parents in the performance of their child-rearing responsibilities and to safeguard the development of child-care services.⁹

In this regard, the absence of a professional ASL interpreting service implies the infringement of both DP's and their children's rights.

It is believed that most DP in Argentina do not have a PASLI present during their children's medical consultations. The estimation of the prevalence of DP who have a PASLI and know their right to have one would be useful to determine the current state of affairs and design strategies aimed at protecting their rights.

OBJECTIVES

- To describe the prevalence of DP who have a PASLI present at the time of their children's medical consultations in the Autonomous City of Buenos Aires (CABA) and the province of Chaco.
- To describe the prevalence of DP who know their right to access a PASLI at no cost.

MATERIAL AND METHOD

Design

Descriptive, cross-sectional study with a structured, self-administered survey.

Place and date

The City of Buenos Aires and the province of Chaco, between June 1st, 2016 and April 30th, 2017.

Inclusion criteria

Deaf or hard of hearing parent who knew ASL and had, at least, one child in the pediatric age range (1 month to 18 years old), was living in the City of Buenos Aires or in the province of Chaco, and gave his/her consent to take the survey.

Exclusion criteria

DP with other disability that prevented them from completing the survey; having taken the survey before.

Study outcome measures

- Having a PASLI during their children's medical consultations.
- Knowing their right to have a PASLI.

Sociodemographic outcome measures of control

- Place of residence.
- Age of the parent completing the survey.
- Level of formal education.
- Number of children.
- Preferred method of communication.
- Use of technological resources to improve hearing.
- Being a member of an association for deaf people.
- Usual place where their children receive health care.
- The presence of a person who acted as an interpreter during their children's medical consultations.
- The relationship with the person who acted as an interpreter during their children's medical consultations.
- Whether they preferred or not the presence of a PASLI.

Statistical analysis

The studied population was described. Percentages were used for categorical outcome measures with their respective 95% confidence interval (95% CI) and mean and standard deviation, for numerical outcome measures.

To estimate the prevalence, the absolute number of subjects with the event (having a PASLI/ knowing their right) divided by the total number of observations and multiplied by 100 (95% CI).

Although it was not part of the objectives, the presence of factors associated with having a PASLI and/or knowing the right to have one was studied. A χ^2 test together with the odds ratio (OR), a t test for independent samples (categorical or continuous outcome, respectively), and a binary logistic regression analysis were used. A value of $p < 0.05$ was considered significant. The IBM SPSS 20.0 software was used for the analysis.

Sample size

Based on previous observations, the prevalence of a PASLI in some countries may be up to 1 per every 10 DP.¹⁰ Considering this value, the sample size was calculated to estimate a prevalence of $10 \pm 5\%$ of DP who had a PASLI during their children's medical consultations, using a 95% confidence interval plus 10% for data loss or incomplete surveys, so 220 surveys were required (Stat Calc, Epi Info 7.1.3.10 CDC).

The CABA and the province of Chaco were selected by convenience and the survey was administered to all DP who met the inclusion criteria.

Ethical aspects

The study complied with the provisions of the Protection of Personal Information Act (no. 25326) and participants' anonymity was maintained. The survey included a header that requested participants' consent.

The approval of the Research Ethics Committee and the Teaching and Research Committee of Hospital General de Niños "Pedro de Elizalde" (Buenos Aires) and Hospital Pediátrico "Avelino Castelán" (Chaco) was obtained. The study was registered in the Health Medical Research Registry of CABA under no. CSI 144/16.

Procedures

A closed, structured, and self-administered survey was used. Since this topic has been scarcely studied, there was no duly validated survey available. This survey was developed for the purpose of this study. Given that written language comprehension was different between deaf and hearing people, a deaf person adapted the survey and the questions were re-structured so that DP could understand and answer them correctly (*Annex*).

Based on a list of associations for deaf people and/or organizations who worked with DP and special education schools, 12 sites from

the CABA and 8 sites from Chaco, including the participating hospitals, were selected by convenience (non-probability sampling).

At each selected site, all DP who met the inclusion criteria were invited to participate.

Surveys could be completed at the site where they were invited to participate (associations, schools or hospitals) or could be taken home and then completed and returned.

Although the survey was self-administered, DP could have someone else help them if they had trouble understanding it.

The instrument's reliability was pilot-tested in 20 DP. After analyzing results, minimal changes were introduced and the definite survey was obtained.

DP who met inclusion criteria were contacted through associations for deaf people, children's hospitals, special education schools, teachers, and deaf role models from the CABA and Chaco.

Operational definitions:

- **Deaf people**
Any person with partial or total hearing loss who, even with amplification, perceived a distorted or incomplete auditory signal; also, not hearing conversations at a normal volume.^{11,12}
These people were also recognized as belonging to a linguistic and cultural minority community.¹³
- **Deaf role model**
A deaf person who used ASL at all times, had completed secondary education, and had the role of maintaining the deaf culture and the improvement of ASL in the educational establishment.¹⁴ Together with the hearing teacher, this person was responsible for developing a mutual learning environment and giving advice.¹⁵
- **PASLI**
Any person with interpreting skills from ASL into Spanish and from Spanish into ASL, who knew the sociocultural characteristics of the target communities and the code of ethics regulating his/her work, and mastered professional skills. He/she was also asked to have a degree to practice ASL interpreting.¹⁶
In the province of Chaco, a degree to practice ASL interpreting or equivalent training upon obtaining a higher-level degree in ASL with certification of at least 250 hours of ASL official interpreting workshops were accepted.¹⁶

RESULTS

Eleven associations, seven schools, and two hospitals were contacted until reaching the required sample size. A total of 26 DP refused to participate. Two hundred and thirty five surveys were completed; 13 (5.5%) were excluded because they were incomplete, so a total of 222 surveys were analyzed. Of these participants, 53.6% (95% CI: 47.1-60.1) lived in the CABA and 46.4% (95% CI: 39.9-52.9), in Chaco. *Table 1* describes the demographic characteristics of participants.

Of them, 77.5% had hearing children only; 13.5%, deaf children only; and 8.6%, both deaf and hearing children.

Also, 75.7% preferred to use ASL to communicate; 7.2%, oral language; and to 17.1% of participants, it made no difference.

Besides, 74.3% did not use hearing aids or a cochlear implant; 23% used hearing aids; and 2.7% had at least one cochlear implant.

In addition, 56.8% were members of an association for deaf people.

Regarding health care services, 38.7% sought care in both public and private facilities; 37.4%, only attended public facilities and 23.9%, only private ones.

In relation to having someone act as an interpreter during medical consultations, 40.1% of deaf parents sometimes had an interpreter; 33.3%, never had one; and 26.6%, always did.

Among those who were always or sometimes accompanied by someone who acted as an interpreter (n= 148), in 76.6% of cases it was a relative; in 5.4%, a friend; and in 1.4%, a neighbor.

In relation to having a PASLI present during their children's medical consultations, 84.7% (95% CI: 79.4-88.8) never had one and 15.3% (95% CI: 11.1-20.6) had one sometimes; but none of surveyed participants had a PASLI at all consultations. Among those who sometimes

had a PASLI (n= 34), 23 were accompanied by a PASLI as a favor; 9 hired one specifically; and 2 had a PASLI paid by their health insurance or an association for deaf people.

Moreover, 48.6% (95% CI: 42.1-55.1) knew their right to have a PASLI during their children's medical consultations; while 51.4% (95% CI: 44.8-57.8) were not aware of this right.

Also, 95.5% wished to always have a PASLI during their children's medical consultation; 2.7% preferred to never have one; and 1.8% preferred to have one sometimes.

An association was observed between parents' older age and knowing the right to have a PASLI during their children's medical consultation; parents' mean age was 37.45 ± 10.46 years versus 32.5 ± 9.1 ($p < 0.01$).

The place of residence was associated with knowing the right: 77 out of 199 participants living in the CABA knew their rights compared to 31 out of 103 participants living in Chaco (OR: 4.3, 95% CI: 2.4-7.5 ($p < 0.001$)). The other factors associated with knowing the right to have a PASLI are described in *Table 2*.

A binary logistic regression was done, including place of residence, age, and being a member of an association for deaf people. It showed that living in the CABA and being a member of an association were independent predictors of knowing the right to have a PASLI during medical consultations (*Table 3*).

In addition, not having hearing devices was related to preferring to always have a PASLI (161 out of 165 who did not have hearing device compared to 51 out of 57 who had a cochlear implant or hearing aids; OR: 4.7, 95% CI: 1.3-17.4, $p = 0.03$).

DISCUSSION

In our study, the prevalence of DP who had a PASLI present during their children's medical

TABLE 1. Demographic data of deaf parents surveyed in both districts. N= 222

Sex	
Female	138 (62.2%)
Male	84 (37.8%)
Age (average \pm standard deviation)	34.9 \pm 10.1
Level of education	
Incomplete primary education	9 (4.1%)
Complete primary education	46 (20.7%)
Incomplete secondary education	52 (23.4%)
Complete secondary education	84 (37.8%)
Tertiary education	26 (11.7%)
University education	5 (2.3%)

consultations was 15.3%. Less than a half knew they had a right to have one.

Although few data were available, several authors agreed on the little presence of a PASLI in health care services.^{4,17}

The prevalence of DP who knew their right to have a PASLI during their children's medical consultations was less than a half of all surveyed participants. It was independently associated with living in the CABA and being a member of an association for deaf people. This may be due to differences in the access to information; there were more associations for deaf people in the CABA, where people gathered for the same purpose, turning them into the appropriate settings for information dissemination.

It was noted that most DP attended medical consultations with a hearing person, who attempted to act as an interpreter; two-thirds of the times, such person was a relative. In general, DP needed to attend the medical consultation with their children's grandparents.¹² In other cases, children themselves acted as interpreters, without considering that they were actually too young to take on such responsibility.¹² Sometimes, hearing relatives did not allow the deaf person to become actively involved in the consultation.⁴ Veinberg et al. pointed out the importance of

taking into account that the parents had the right to know about their children's situation. In addition, these circumstances interfered with confidentiality.⁷

Almost all DP stated their desire to have a PASLI, even those who had hearing aids or implants.

It was observed that more than a half of deaf parents attended only public health care facilities. This would warrant the implementation of measures to ensure the right to access information on their children's health, similar to those implemented in other countries.¹

Our study has potential weaknesses. The sample was selected by convenience, through the invitation of centers, schools or associations that bring DP together. However, all DP were invited to participate by each site, without specifically selecting participants. To increase the sample representativeness, two distinct populations in terms of location, demographics, and possibilities of access to health care were selected: the CABA and the province of Chaco.

In addition, there was no validated survey available for this population. Therefore, a simple survey was developed; initially it had an open structure; then it was turned into a closed, structured survey that was corrected and adapted

TABLE 2. Factors associated with knowing the right to have a professional Argentine Sign Language interpreter

	Knowing the right		RR (95% CI)	p
	Yes	No		
Age (average \pm standard deviation)	37.4 \pm 10.4	32.5 \pm 9.1		0.01*
Place of residence (CABA ^a /Chaco)	77/31	42/72	4.3 (2.4-7.5)	< 0.001**
Children (deaf/hearing or both)	22/86	9/105	2.9 (1.2-6.8)	< 0.01**
Education (inc. sec. ed./comp. sec. ed. ^b or higher)	44/64	63/51	1.8 (1.1-3.1)	0.04**
Being a member of an association (yes/no)	79/29	47/67	3.8 (2.2-6.8)	< 0.001**

* T test for independent samples.

** χ^2 test.

^a Autonomous City of Buenos Aires.

^b Incomplete secondary education/complete secondary education.

OR: odds ratio; CI: confidence interval.

TABLE 3. Binary logistic regression: Predictors of knowing the right to have a professional Argentine Sign Language interpreter

	Exp. (B) ^a	95% CI for exp. (B) ^a	p
Place of residence (CABA ^b /Chaco)	2.69	1.4-5.0	0.002
Parents' age	0.97	0.9-1.0	0.072
Being a member of an association (yes/no)	1.29	1.2-4.4	0.005

The outcome variable was knowing the right to have a PASLI (yes/no).

^a Beta exponent.

^b Autonomous City of Buenos Aires.

CI: confidence interval.

for the comprehension of DP with the help of a suitable deaf person.

Given the scarce offer of careers to become a PASLI, the number of available interpreters is probably not enough to cover the needs of DP; this is beyond the objectives of this study. This population's access to health care information is still very limited. Future studies should describe the current situation so that actions may be implemented to warrant accessibility.¹⁸

Accepting the social model of disability is a major challenge for the medical community. In the setting of the CRPD, it is not enough to implement new regulatory measures; the key is in the ability of social sectors to put the essence of these measures into practice.¹⁸

CONCLUSIONS

In our study, the prevalence of DP who had a PASLI present during their children's medical consultations was 15.3%.

Besides, 48.6% knew their right to have a PASLI during medical consultations.

The place of residence and being a member of an association for deaf people acted as independent predictors of knowing the right to have a PASLI during their children's medical consultation. ■

Acknowledgments

The authors would like to thank Ms. Adriana Sicilia, a deaf mother who shared her experience in the health care setting and inspired the project. Also, to the Asociación de Sordomudos de Ayuda Mutua (Association for Mutual Assistance of Deaf People, ASAM), Asociación de Artes y Señas (Association for Arts and Signs, ADAS), and Confederación Argentina de Sordos (Argentine Confederation for Deaf People, CAS) for their help administering the survey. And to Verónica Gatto Bellora for reviewing and correcting the manuscript.

REFERENCES

1. Organización Mundial de la Salud. Informe Mundial sobre la discapacidad. Malta: OMS; 2011. [Accessed on: March 2nd, 2016]. Available at: http://www.who.int/disabilities/world_report/2011/summary_es.pdf.
2. Organización Mundial de la Salud. Sordera y pérdida de la audición. 2015. [Accessed on: March 2nd, 2016]. Available at: <http://www.who.int/mediacentre/factsheets/fs300/es/>.
3. García García A, Zaragoza L, De Castro M, et al. Salud mental y personas sordas. *Autonomía Personal* 2011; (5):44-7.
4. Cardoso A, Rodrigues C, Bachion M. Perception of persons with severe or profound deafness. *Rev Lat Am Enfermagem* 2006; 14(4):553-60.
5. Sheppard K. Deaf adults and health care: Giving voice to their stories. *J Am Assoc Nurse Pract* 2013; 26(9):504-10.
6. Argentina. Ministerio de Justicia y Derechos humanos. LEY 26378. 2008. Apruébese la Convención sobre los Derechos de las Personas con Discapacidad y su protocolo facultativo, aprobados mediante resolución de la Asamblea General de las Naciones Unidas del 13 de diciembre de 2006. InfoLEG. Buenos Aires, Argentina, 21 de mayo de 2008. [Accessed on: March 2nd, 2016]. Available at: <http://servicios.infoleg.gob.ar/infolegInternet/anexos/140000-144999/141317/norma.htm>.
7. Veinberg S, Sinigaglia A. Herramientas para la comunicación. In Veinberg S. Atención pediátrica de los niños sordos, hipoacúsicos, ciegos y con baja visión: una mirada desde los derechos del niño. Buenos Aires: *Fundasap*; 2006. Pages 45-51.
8. Cobeñas P, Fernández C, Galeazzi M, et al. Educación inclusiva y de calidad, un derecho de todos. Buenos Aires: COPIDIS-Grupo Art. 24 por la Educación Inclusiva; 2017. [Accessed on: February 5th, 2017]. Available at: http://www.grupoart24.org/downloads/publicaciones/manual_educacion_inclusiva.pdf.
9. Argentina. Ley 23849. Convención sobre los Derechos del Niño. Buenos Aires, 27 de septiembre de 1990. [Accessed on: February 8th, 2017]. Available at: <https://www.unicef.org/argentina/spanish/7.-Convencionsobrelsderechos.pdf>.
10. Fundación CNSE. Acércate a la Comunidad Sorda. [Accessed on: March 6th, 2016]. Available at: http://www.fundacioncnse.org/lectura/acercate_comunidad_sorda/acercate_comunidad_sorda_2.htm#punto5.
11. Argentina.gob.ar beta. Ministerio de Salud. Hipoacusia. [Accessed on: March 6th, 2018]. Available at: <https://www.argentina.gob.ar/salud/glosario/hipoacusia>.
12. Veinberg S, Bonnet S. El cuidado de la salud de los niños, niñas y adolescentes sordos. Guía de recursos para profesionales de la salud. Buenos Aires: *Canales*; 2012.
13. Mariani M. Detección temprana de la hipoacusia y la sordera. In Veinberg S. Atención pediátrica de los niños sordos, hipoacúsicos, ciegos y con baja visión: una mirada desde los derechos del niño. Buenos Aires: *Fundasap*; 2006. P.25.
14. Argentina. Ley 5397. Lengua de señas. Boletín Oficial, Chaco, Argentina, 4 de julio de 2005.
15. Agrelo JJ, Álvarez A, Carracedo L, et al. Trayectorias educativas integrales y configuraciones de apoyo para niños, jóvenes y adultos sordos, hipoacúsicos y para niños oyentes con trastornos del lenguaje. Buenos Aires: COPIDIS; 2011. [Accessed on: February 28th, 2018]. Available at: www.buenosaires.gob.ar/sites/gcaba/files/trayectorias_educativas_integrales.pdf.
16. Ley N° 6562. Anexo a la resolución N.° 1768, que modifica el artículo n.° 2 de la Ley 6003. Boletín oficial de la Provincia del Chaco. Resistencia, 8 de septiembre de 2010; 57(9109):1. [Accessed on: March 6th, 2018]. Available at: <http://educacion.chaco.gov.ar/app/boletin/page/56>.
17. Estrada Aranda B. La vulneración de los derechos humanos de las personas sordas en México. México: Cultura Sorda; 2008. [Accessed on: November 9th, 2016]. Available at: <http://www.cultura-sorda.org/la-vulneracion-de-los-derechos-humanos-de-las-personas-sordas-en-mexico/>.
18. Muñoz-Bael I, Ruiz-Cantero MT, Álvarez-Dardet C, et al. Comunidades sordas: ¿pacientes o ciudadanas? *Gac Sanit* 2011; 25(1):72-8.

Annex.

Survey on the presence of professional argentine sign language interpreters during medical consultations

This is an anonymous survey for deaf people (both deaf and hard of hearing) who know Argentine Sign Language. DO NOT WRITE YOUR NAME.

We would like to know if deaf people have access to a professional Argentine Sign Language interpreter during their children's medical consultations Also, if they know they have a right to have a professional interpreter.

Your answer will help us to provide better health care to deaf people.

Completing this survey will take you 15 minutes. If you do not understand any question, you may ask someone else to help you.

If you do not want to complete the survey, that is OK. If you complete it, you are agreeing to participate in the survey.

If you have any doubt, please write to adriancutri@gmail.com.

Thank you for your help.

1. What province do you live in?

.....

2. Sex (mark with an "X"):

Female.

Male.

3. Age: years old.

4. Number of children:

Deaf:

Hearing:

5. What is your level of education? (Mark with an "X").

Incomplete primary education.

Complete primary education.

Incomplete secondary education.

Complete secondary education.

Incomplete tertiary education.

Complete tertiary education.

Incomplete university education.

Complete university education.

6. During your children's medical consultations, how do you prefer to communicate with the physician? (Mark with an "X").

Orally.

Sign language (ASL).

It makes no difference.

7. Do you use any of the following? (Mark with an "X").

Hearing aids.

Cochlear implant.

None.

8. Are you a member of any association for deaf people? (Mark with an "X").

- Yes.
- No.

9. Where do you take your child to seek medical care? (Mark with an "X").

- Public hospital.
- Private clinic or office.
- Either.

10. During your children's medical consultations, is there someone interpreting what the physician says into ASL?

(Mark with an "X").

- Always.
- Sometimes.
- Never.

11. Who explains what the physician is saying? (Mark with an "X").

- No one.
- A friend.
- A neighbor.
- A relative.
- An acquaintance.
- A professional sign language interpreter.

12. If you have a professional ASL interpreter, how did you come to contact him/her? (Mark with an "X").

- He/she is at the hospital or physician's office.
- You hired him/her.
- You requested him/her to your health insurance.
- You know him/her and he/she does it as a favor.
- You never had a professional ASL interpreter.

13. Did you know deaf people have a right to always have a professional ASL interpreter during medical consultations? (Mark with an "X").

- Yes.
- No.

14. Would you like to have a professional ASL interpreter during your child's medical consultations? (Mark with an "X").

- Always.
- Sometimes.
- Never/I do not need one.

Características posoperatorias de la faringoplastia combinada con amigdalectomía en comparación con la amigdalectomía en niños con síndrome obstructivo de apnea del sueño

Postoperative characteristics of combined pharyngoplasty and tonsillectomy versus tonsillectomy in children with obstructive sleep apnea syndrome

Dra. Yan Shu^a, Dr. Hong-Bing Yao^a, Dr. Da-Zhi Yang^a y Dr. Bing Wang^a

RESUMEN

Objetivo. Identificar las ventajas posoperatorias de la amigdalectomía en conjunto con la faringoplastia en comparación con la amigdalectomía sola en niños con apnea obstructiva del sueño.

Métodos. En un estudio prospectivo observacional, los pacientes que cumplían con los criterios del estudio fueron asignados aleatoriamente a dos grupos: el grupo de amigdalectomía y faringoplastia, y el grupo de solo amigdalectomía. En ambos grupos, también se practicó adenoidectomía a los pacientes con vegetaciones. Se compararon los procesos de cicatrización en la herida faríngea y las proporciones hemorrágicas. Además, se evaluó la función velofaríngea posoperatoria.

Resultados. La faringoplastia junto con la amigdalectomía se practicó en 328 niños con apnea obstructiva del sueño debido a hipertrofia amigdalina, y la amigdalectomía sola, en 275 niños. Estas cohortes no mostraban diferencias demográficas significativas. Por otro lado, se encontró que la pérdida de sangre fue significativamente menor en el grupo que recibió amigdalectomía y faringoplastia ($p < 0,01$), y el proceso de cicatrización fue notablemente más breve. La función velofaríngea posoperatoria no resultó afectada.

Conclusiones. En comparación con la amigdalectomía, la amigdalectomía junto con la faringoplastia redujeron la duración del proceso de cicatrización y la pérdida de sangre; no obstante, las complicaciones posoperatorias no aumentaron. En nuestra opinión, la combinación de faringoplastia y amigdalectomía reúne un gran potencial en el tratamiento de los niños con apnea obstructiva del sueño.

Palabras clave: Faringoplastia, amigdalectomía, niño, apnea obstructiva del sueño.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.316>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.316>

a. Departamento de Otorrinolaringología, Hospital Pediátrico de la Universidad Médica de Chongqing, China.

Correspondencia:
Dr. Bing Wang:
bingwangdoc@163.com

Financiamiento:
Este estudio contó con el respaldo del Departamento Municipal de Salud de Chongqing, China (N.º: 20120116).

Conflicto de intereses:
Ninguno que declarar.

Recibido: 22-7-2017.
Aceptado: 19-3-2018.

Cómo citar: Shu Y, Yao HB, Yang DZ, Wang B. Características posoperatorias de la faringoplastia combinada con amigdalectomía en comparación con la amigdalectomía en niños con síndrome obstructivo de apnea del sueño Arch Argent Pediatr 2018;116(5):316-321.

INTRODUCCIÓN

El síndrome de apnea obstructiva del sueño es un trastorno frecuente y con alta prevalencia en los pacientes pediátricos, y afecta al 2%-3% de los niños.¹ La incidencia máxima se encontró en los niños de preescolar, dado que esa es la edad en que la hipertrofia amigdalina y las adenoides se observan con mayor frecuencia.² Si no se la trata, la apnea obstructiva del sueño puede derivar en una morbilidad grave y afectar los sistemas cognitivo, neuroconductual y cardiovascular.^{3,4} En los niños, la apnea obstructiva del sueño se debe principalmente a la hipertrofia adenoamigdalina;⁵ por lo tanto, la amigdalectomía con o sin adenoidectomía es, en la actualidad, el tratamiento habitual para los niños con apnea obstructiva del sueño.⁶ El procedimiento habitual para la adenoamigdalectomía incluye la extracción de las amígdalas palatinas y las vegetaciones adenoides.

Aunque la amigdalectomía es uno de los procedimientos otorrinolaringológicos más utilizados, es posible que surjan algunas complicaciones, como hemorragia posoperatoria, dolor, disminución de la ingesta oral, compromiso respiratorio posobstructivo,

insuficiencia velofaríngea y trauma psicológico.^{7,8} Con el objeto de reducir estas complicaciones, se han ido generando diversas técnicas, incluida la ablación de las amígdalas por radiofrecuencia,⁹ la amigdalectomía mediante electrodissección bipolar¹⁰ y la amigdalectomía con láser.¹¹ Sin embargo, no hay pruebas contundentes que respalden el uso de la faringoplastia en niños con apnea obstructiva del sueño. El término "faringoplastia" hace referencia al cierre de la herida amigdalina mediante la sutura de los pilares anterior y posterior después de la amigdalectomía. Durante mucho tiempo, la necesidad y el riesgo de suturar la herida amigdalina tras la amigdalectomía han generado controversias.

El objetivo de este estudio fue comparar los resultados de la amigdalectomía en conjunto con faringoplastia con los resultados de la amigdalectomía sola en niños con apnea obstructiva del sueño.

MATERIALES Y MÉTODOS

Población

La población de nuestro estudio estuvo formada por pacientes pediátricos evaluados y que tuvieran una amigdalectomía programada, con o sin adenoidectomía, para tratar su apnea obstructiva del sueño en el Hospital Pediátrico de la Universidad Médica de Chongqing entre septiembre de 2008 y junio de 2010. Excluimos a los pacientes que solo se someterían a una adenoidectomía y observamos la excisión exclusiva de las amígdalas o la amigdalectomía con adenoidectomía. Las indicaciones para todos los pacientes incluían la presencia de apnea obstructiva del sueño y/o hipertrofia adenoide. El diagnóstico de apnea obstructiva del sueño se fundamentó en los antecedentes proporcionados por el cuidador (ronquido, respiración por la boca, apneas referidas por los convivientes, enuresis, hipersomnolencia diurna o sueño inquieto), el examen físico y los resultados del análisis de datos polisomnográficos. Elegimos pacientes con un índice de apnea/hipopnea (IAH) >5, establecido por polisomnografía, y todos los grados de amígdalas (I-IV).¹² Los criterios de exclusión fueron comorbilidades importantes o antecedentes importantes de amigdalitis recurrente/crónica, además de antecedentes de trastorno hemorrágico. También excluimos los casos de obstrucción nasal crónica y otras causas de obstrucción de las vías respiratorias. Este estudio fue aprobado por el Comité de

Ética local. Los padres/tutores legales de los niños participantes firmaron un consentimiento informado. Los niños se dividieron según una tabla de números aleatorios en dos grupos de tratamiento: el grupo que se sometió a faringoplastia y amigdalectomía, y el grupo que solo recibió amigdalectomía.

En el laboratorio de trastornos del sueño, se les realizó una PSG nocturna, que se analizó mediante técnicas estándar. El índice de apnea/hipopnea (IAH) obstructiva se definió como la cantidad de apneas e hipoapneas por hora de todo el período de sueño. El tamaño de las vegetaciones se determinó por medio de una radiografía lateral del cuello. El cociente adenoide/nasofaringe (A/N) se define como el cociente entre el grosor máximo de la adenoide y la distancia a lo largo de una línea que se extiende desde el borde posterior-superior del paladar duro hasta la sincondrosis esfeno-occipital en la base del cráneo.¹³ En nuestro estudio, se sometió a adenoidectomía a los pacientes con un A/N > 0,65.

Algunos de los datos recogidos fueron edad y sexo del paciente, diagnóstico preoperatorio, resultados de la polisomnografía (PSG), clasificación de la inteligibilidad del habla y la insuficiencia velofaríngea, y cualquier complicación posoperatoria.

Técnicas quirúrgicas

Los niños de ambos grupos recibieron anestesia general y se les colocó intubación endotraqueal. Durante la cirugía, estuvieron en la posición supina habitual. Se les abrió la boca con un abre bocas de Boyle-Davis, y el paladar blando se retrajo con dos catéteres pediátricos de 9 mm.

En el grupo de faringoplastia y amigdalectomía, tras identificar el plano de disección pericapsular, se realizó, con el máximo cuidado, la disección pericapsular desde el polo superior hacia el inferior de las amígdalas. Luego, las amígdalas se disecaron hacia el polo inferior con un disector romo. Las amígdalas se extirparon desde la fosa amigdalina con un lazo de alambre y luego, para lograr la hemostasia, la fosa se taponó con un hisopo empapado en solución salina normal. Por supuesto, cuando fue necesario, se utilizaron suturas absorbibles y pinzas bipolares para garantizar la hemostasia. Los pilares anterior y posterior, y la organización de la fosa se suturaron con una sutura de catgut crómico 4-0 simple, para asegurar la hemostasia y cerrar la fosa amigdalina. La sutura no se quitó después de la operación.

En el grupo que solo recibió amigdalectomía, se realizaron la extirpación quirúrgica del propio tejido amigdalino y el procedimiento primario de hemostasia, lo que es similar al procedimiento descrito anteriormente. Luego, se procuró la hemostasia de la fosa amigdalina mediante pinza de coagulación bipolar. Una vez completa la hemostasia de ambas fosas amigdalinas, la adenoide se extirpó mediante cirugía endoscópica.

Evaluación de la función velofaríngea

Evaluación del habla

Con el consentimiento de los padres, cinco días después de la operación hicimos una evaluación del habla y una nasofaringoscopia flexible. Todos accedieron al examen. Las evaluaciones del habla se obtuvieron a partir de los análisis de rutina del habla llevados a cabo por patólogos del habla pediátricos, que utilizaron una escala desarrollada en esta institución antes de la aceptación de los parámetros del habla universales. Los resultados del análisis se clasificaron con una escala de cinco puntos (0-4), en la que 0 indica "normal" y 4, "grave". Una puntuación más baja en esta escala indicaba una disfunción menos importante.¹⁴

Nasofaringoscopia flexible

El mismo otorrinolaringólogo pediátrico hizo endoscopias nasales a los niños de ambos grupos antes y después de la cirugía. La visualización del puerto velofaríngeo se realizó utilizando un nasofaringoscopio flexible de fibra óptica. Se observaron el movimiento palatino, el movimiento de la pared faríngea lateral y el cierre velofaríngeo. El tamaño del espacio velofaríngeo se midió durante el cierre máximo en la fonación. Los resultados se clasificaron según la escala de Golding-Kushner.¹⁵ Las categorías de tamaño del espacio se definieron como amplio (cierre velofaríngeo < 50%), moderado (cierre velofaríngeo entre el 50% y el 80%) y pequeño (cierre velofaríngeo > 80%).

Análisis estadístico

El análisis estadístico se realizó utilizando el programa estadístico SPSS para Windows. Las variables demográficas de edad y sexo se compararon mediante la prueba de χ^2 . Las complicaciones pre y posoperatorias, como hipernasalidad y regurgitación nasofaríngea, se compararon usando la prueba exacta de Fisher. Un valor de $p < 0,05$ se consideró significativo en términos estadísticos.

RESULTADOS

Demografía de las cohortes

Los datos demográficos de los pacientes incluidos en este estudio se presentan en la *Tabla 1*. Con el fin de detectar apnea obstructiva del sueño, se evaluó un total de 682 pacientes de los cuales 79 se excluyeron porque sus padres se negaron a la endoscopia nasal posoperatoria. Por ende, se inscribió en el estudio a los 603 pacientes restantes. Entre estos 603 pacientes, 328 (138 niñas y 190 varones) se sometieron a faringoplastia y amigdalectomía, y conformaron el grupo de estudio, mientras que 275 pacientes (108 niñas y 167 varones) recibieron amigdalectomía solamente, con o sin adenoidectomía, y se los incluyó como el grupo de referencia (*Figura 1*). Las medias de la edad del grupo de estudio y el grupo de referencia fueron $4,9 \pm 2,1$ años (intervalo: 3-11 años) y $5,13 \pm 2,4$ años (intervalo: 3-12 años) respectivamente.

Las diferencias entre los dos grupos con respecto a cualquiera de estas variables demográficas no fueron estadísticamente significativas (*Tabla 1*).

Hemorragia posoperatoria

En lo que respecta a hemorragia primaria, los resultados obtenidos fueron estadísticamente significativos. La tasa de hemorragia posoperatoria fue del 0,91% (tres pacientes) en el grupo de estudio y del 4,36% (12 pacientes) en el grupo de referencia. La comparación de estas proporciones reveló que la diferencia entre estos dos grupos era estadísticamente significativa ($p = 0,008$; *Tabla 2*). Más aún, en el grupo de referencia, hubo dos casos de hemorragia tardía.

TABLA 1. Datos demográficos

	Faringoplastia	Amigdalectomía sola	Valor p
Cant. de pacientes	328	275	
Edad	$4,9 \pm 2,1(3-11)$	$5,13 \pm 2,4(3-12)$	NS
Sexo, femenino/masculino	138/190	108/167	NS
IMC (puntaje Z)	$0,72 \pm 1,13$	$0,75 \pm 1,16$	NS
Cociente A/N	$0,71 \pm 0,05$	$0,69 \pm 0,03$	NS
Tamaño de la amígdala	$2,22 \pm 0,13$	$2,25 \pm 0,15$	NS
IAH obstructiva (/h, todo el período de sueño)	$16,2 \pm 4,1$	$15,95 \pm 4,7$	NS

Cociente A/N: cociente adenoide/nasofaringe;

NS: no significativo. IAH: índice de apnea-hipopnea.

Características de la herida faríngea

Al examinar la garganta cinco días después de la cirugía, se observó una gran diferencia en la cicatrización de la herida faríngea. En los pacientes que se sometieron a faringoplastia y amigdalectomía, las heridas estaban limpias y casi cicatrizadas. Sin embargo, los pacientes del grupo que recibió amigdalectomía, presentaban una cantidad considerable de escaras o pseudomembranas blancas en la fosa amigdalina. Esta afección influyó sobre la hemorragia posamigdalectomía y sobre el tiempo que los pacientes debieron invertir en la fase de recuperación de la operación.

Función velofaríngea posoperatoria

Respecto de la inteligibilidad del habla posoperatoria, cinco de los pacientes del grupo de estudio y tres del grupo de referencia empeoraron de manera significativa, aunque no se observaron tendencias significativas hacia el empeoramiento cuando se compararon los resultados de ambos grupos ($p = 0,733$). Todos los pacientes se sometieron a una nasofaringoscopia electrónica flexible. No hubo cambios notables en el cierre palatino, el movimiento de la pared lateral y los

tamaños del espacio velofaríngeo en los datos pre y posamigdalectomía de cada paciente (Tabla 3 y Figura 2). Por lo tanto, la diferencia entre estos dos grupos no fue estadísticamente significativa.

En esta población, no se observaron reflujo nasofaríngeo posoperatorio ni hipernasalidad.

DISCUSIÓN

Aunque los tratamientos no quirúrgicos se han transformado en una opción cada vez más viable, la cirugía todavía continúa siendo el método de tratamiento más recomendado para niños con apnea obstructiva del sueño. El debate sobre cómo evitar las complicaciones posoperatorias y las molestias asociadas a la cirugía sigue siendo un tema fundamental. Los resultados que obtuvimos respaldaron el rendimiento de la faringoplastia y la amigdalectomía combinadas para el tratamiento de los niños con apnea obstructiva del sueño. Aunque algunos otorrinolaringólogos no aceptan este procedimiento debido a que requiere mayor tiempo de operación y sus ventajas son inciertas, nuestro estudio muestra los beneficios que

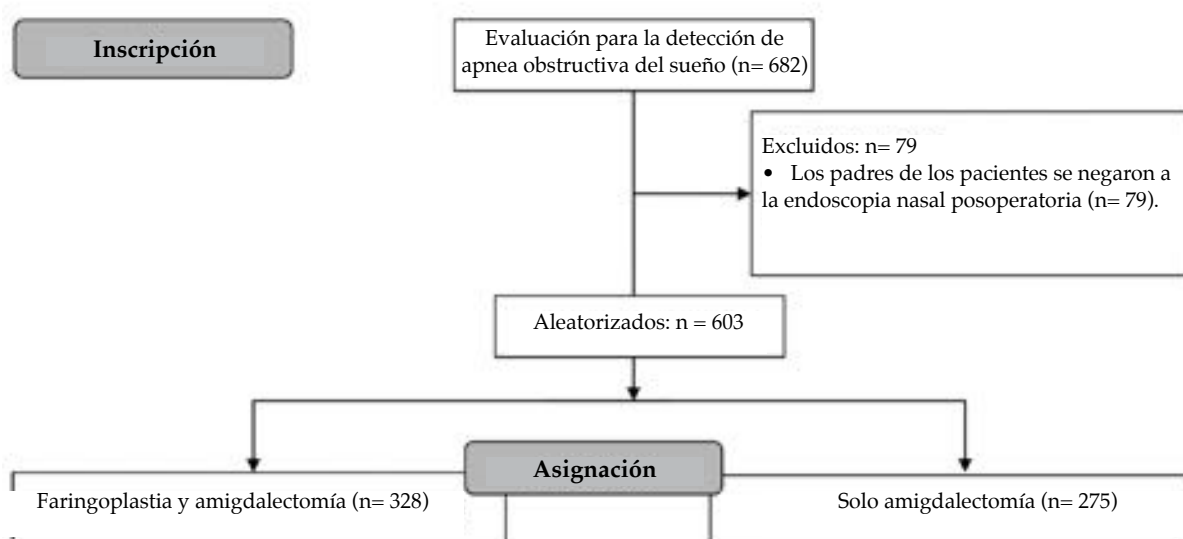
Tabla 2. Hemorragia posoperatoria (%)

	Grupo de estudio (n= 328)	Grupo de referencia (n= 275)	Valor p
Hemorragia primaria	3 (0,91)	10 (3,63)	0,025
Hemorragia tardía	0 (0)	2 (0,73)	0,208
Todas las hemorragias	3 (0,91)	12 (4,36)	0,008

Tabla 3. Cambio posoperatorio de la función velofaríngea (%)

	Grupo de estudio (n= 328)	Grupo de referencia (n= 275)	Valor p
Empeoramiento de la inteligibilidad del habla	5 (1,52)	3 (1,09)	0,733
Insuficiencia velofaríngea	0 (0)	0 (0)	
Reflujo nasofaríngeo	0 (0)	0 (0)	
Hipernasalidad	4 (1,22)	2 (0,73)	0,694

Figura 1. Diagrama de flujo del estudio



ofrecen la faringoplastia y la amigdalectomía combinadas en la prevención de la hemorragia posoperatoria y la cicatrización de la herida.

La hemorragia posoperatoria es una de las morbilidades principales tras la amigdalectomía, incluidas las hemorragias primaria o reaccionaria (< 24 horas) y las infecciones posoperatorias asociadas con hemorragias tardías o secundarias (> 24 horas).¹⁶

La hemorragia primaria es más violenta y profusa que la secundaria. Además, ocurre cuando los reflejos respiratorios protectores del paciente están atenuados por los efectos de la anestesia o efectos narcóticos.¹⁷ Los resultados que obtuvimos mostraron que la hemorragia reaccionaria ocurrió con mayor frecuencia que la hemorragia tardía en ambas poblaciones. Más aún, la hemorragia tardía ocurrió principalmente en el grupo de referencia. En el grupo de estudio, las tasas de hemorragia fueron bajas (inferiores al 1%). Estos resultados quizá estén relacionados con el cierre de la herida amigdalina mediante la sutura de los pilares amigdalinos posterior y anterior, con lo que se evitó la reapertura de vasos sanguíneos dañados en forma intraoperatoria. Además, Lehnerdt,¹⁸ consideró varios casos de traumatismo nutricional relacionados con hemorragias. El procedimiento que elegimos también puede reducir de manera eficaz la estimulación nutricional posoperatoria.

A partir de la descripción de la primera amigdalectomía que hizo Celsus en 50 a. C.,¹⁹ los otorrinolaringólogos se han acostumbrado a no suturar las heridas. En la actualidad, aún no existe la certeza de que este procedimiento sea realmente beneficioso para la cicatrización de la herida. La amigdalectomía produce una herida abierta sujeta a varios factores en un campo altamente contaminado. La cicatrización de la herida depende

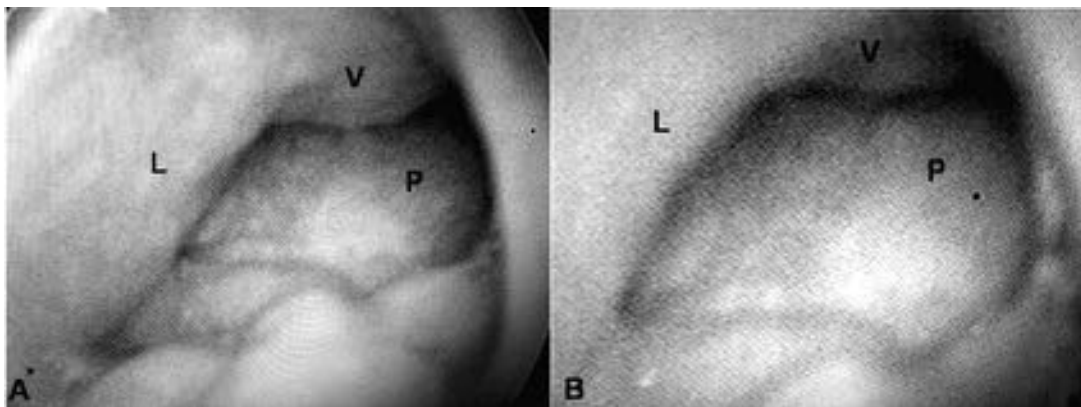
del crecimiento de la mucosa desde la periferia hacia adentro, proceso que puede continuar durante 1 a 2 semanas después de la cirugía. Durante el proceso, la fosa posoperatoria atraviesa una serie de complejos cambios fisiopatológicos, incluida la formación de coágulos de fibrina, su proliferación y separación del tejido granulado subyacente.²⁰

Los pacientes también experimentan diversos niveles de malestar. Todos estos factores pueden retrasar la cicatrización completa. Aunque la mayoría de las heridas abiertas pueden cicatrizar, es posible acortar el tiempo necesario para la cicatrización y el nivel de malestar. En nuestro estudio, en casi todos los pacientes del grupo de faringoplastia y amigdalectomía, las heridas habían cicatrizado completamente cinco días después de la cirugía, mientras que, en los pacientes del grupo de referencia, la fosa amigdalina continuaba procesando activamente coágulos de fibrina.

Algunos otorrinolaringólogos fueron adoptando la práctica de suturar los pilares amigdalinos después de la amigdalectomía en niños con apnea obstructiva del sueño. Sin embargo, sigue cuestionándose una y otra vez la posibilidad de que este método genere algunos efectos adversos, incluidos efectos negativos, sobre la función velofaríngea posoperatoria.

Habitualmente, la función está determinada por la estructura. Después de las cirugías reconstructivas, incluida la uvulopalatofaringoplastia y la faringoplastia, la modificación estructural en las vías respiratorias altas puede, en cierta medida, afectar la función y la fisiología. Si bien la insuficiencia velofaríngea es una complicación poco frecuente de la uvulopalatofaringoplastia, es un factor de riesgo

FIGURA 2. Vistas nasofaringoscópicas durante la articulación



(A) Vista preoperatoria con obliteración del espacio.

(B) Vista posoperatoria con obliteración del espacio (cierre velofaríngeo) L: pared nasofaríngea lateral; P: pared nasofaríngea posterior; V: velo.

para los pacientes cuando se hace una resección o cuando los pacientes tienen una movilidad deficiente en el paladar y/o las paredes faríngeas laterales.²¹ Un estudio mostró un riesgo menor de deterioro de la función velofaríngea entre los pacientes que no tenían paladar hendido después de la amigdalectomía con faringoplastia.²² En nuestro estudio, intentamos evaluar la función velofaríngea en niños con apnea obstructiva del sueño después de la faringoplastia. No obstante, no se observaron diferencias estadísticas significativas en comparación con el grupo de referencia. Por lo tanto, este procedimiento no implica un mayor riesgo de insuficiencia velofaríngea.

La controversia sobre la fisiopatología exacta de la apnea obstructiva del sueño en los niños continúa, pero la mayoría de los especialistas parecen aceptar la teoría de que la permeabilidad de las vías respiratorias superiores se ve limitada o se reduce notablemente durante la inspiración. Dicha reducción es el resultado integral de un conjunto de interacciones multifactoriales, que incluye factores funcionales y anatómicos. Según esta teoría, es muy importante tratar de ampliar el estrechamiento al máximo y disminuir la capacidad de reducción del área faríngea tensionando la vía respiratoria flácida en vez de extirpar solo los tejidos adenoides y amigdalinos. Algunos autores²³ defienden la práctica de suturar la herida amigdalina para agrandar al máximo el espacio aéreo retropalatino y, así, disminuir la capacidad de reducción de la pared faríngea lateral y el paladar blando. El efecto a largo plazo de suturar la herida amigdalina para aliviar la apnea obstructiva del sueño no se ha investigado.

CONCLUSIÓN

En nuestro estudio, la amigdalectomía combinada con faringoplastia ofrecieron ventajas significativas en el período posoperatorio en los pacientes pediátricos con apnea obstructiva del sueño. En comparación con la amigdalectomía sola, el tratamiento combinado reduce el tiempo de cicatrización de la herida y la proporción de hemorragias posoperatorias. Además, el riesgo de insuficiencia velofaríngea no aumentó con este método. En nuestra opinión, estos resultados indican que la combinación de faringoplastia y amigdalectomía conlleva un gran potencial para el tratamiento de la apnea obstructiva del sueño en pacientes pediátricos. Además, la ventaja que implica un ahorro potencial en los costos merece continuar las investigaciones. ■

REFERENCIAS

1. Lumeng JC, Chervin RD. Epidemiology of pediatric obstructive sleep apnea. *Proc Am Thorac Soc*. 2008;5(2):242-52.
2. Schwengel DA, Dalesio NM, Stierer TL. Pediatric obstructive sleep apnea. *Anesthesiol Clin* 2014; 32(1):237-61.

3. Arali V, Namineni S, Sampath Ch. Pediatric obstructive sleep apnea syndrome: time to wake up. *Int J Clin Pediatr Dent* 2012; 5(1):54-60.
4. Zhu J, Fang Y, Chen X, et al. The impacts of obstructive sleep apnea hypopnea syndrome severity and surgery intervention on psychological and behavioral abnormalities and postoperative recovery in pediatric patients. *Med Sci Monit* 2014; 20:1474-80.
5. Slaats MA, Van Hoorenbeek K, Van Eyck A, et al. Upper airway imaging in pediatric obstructive sleep apnea syndrome. *Sleep Med Rev* 2015; 21:59-71.
6. Mukhatiyar P, Nandalike K, Cohen HW, et al. Intracapsular and Extracapsular Tonsillectomy and Adenoidectomy in Pediatric Obstructive Sleep Apnea. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg* 2016; 142(1):25-31.
7. Reusser NM, Bender RW, Agrawal NA, et al. Post-tonsillectomy hemorrhage rates in children compared by surgical technique. *Ear Nose Throat J* 2017; 96(7):e7-11.
8. Ferary M, Biet A, Strunski V, et al. Impact of the mode of hospitalisation on the postoperative complication rate after dissection tonsillectomy in children. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis* 2014; 131(6):345-9.
9. Friedman M, Wilson MN, Friedman J, et al. Intracapsular coblation tonsillectomy and adenoidectomy for the treatment of pediatric obstructive sleep apnea/hypopnea syndrome. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2009; 140(3):358-62.
10. Kirazli T, Bilgen C, Midilli R, et al. Bipolar electrodissection tonsillectomy in children. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2005; 262(9):716-8.
11. D'Eredità R, Marsh RR. Contact diode laser tonsillectomy in children. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2004; 131(5):732-5.
12. Shen L, Zheng B, Lin Z, et al. Tailoring therapy to improve the treatment of children with obstructive sleep apnea according to grade of adenotonsillar hypertrophy. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2015; 79(4):493-8.
13. Acar M, Kankilic ES, Koksall AO, et al. Method of the diagnosis of adenoid hypertrophy for physicians: adenoid-nasopharynx ratio. *J Craniofac Surg* 2014; 25(5):e438-40.
14. Paulson LM, MacArthur CJ, Beaulieu KB, et al. Speech Outcomes after Tonsillectomy in Patients with Known Velopharyngeal Insufficiency. *Int J Otolaryngol* 2012; 2012:912767.
15. Tieu DD, Gerber ME, Milczuk HA, et al. Generation of consensus in the application of a rating scale to nasendoscopic assessment of velopharyngeal function. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2012; 138(10):923-8.
16. Amoils M, Chang KW, Saynina O, et al. Postoperative Complications in Pediatric Tonsillectomy and Adenoidectomy in Ambulatory vs Inpatient Settings. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg* 2016; 142(4):344-50.
17. Lou ZC, Lou ZH. Post-tonsillectomy hemorrhage: Underlying factors and prevention. *Am J Otolaryngol* 2018; 39(2):230-1.
18. Lehnerdt G, Senska K, Jahnke K, et al. Post-tonsillectomy haemorrhage: a retrospective comparison of abscess- and elective tonsillectomy. *Acta Otolaryngol* 2005; 125(12):1312-7.
19. Mixon CM, Weinberger PM, Austin MB. Comparison of microdebrider subcapsular tonsillectomy to harmonic scalpel and electrocautery total tonsillectomy. *Am J Otolaryngol* 2007; 28(1):13-7.
20. Isaacson G. Tonsillectomy Care for the Pediatrician. *Pediatrics* 2012; 130(2):324-34.
21. Abdel-Aziz M. The effectiveness of tonsillectomy and partial adenoidectomy on obstructive sleep apnea in cleft palate patients. *Laryngoscope* 2012; 122(11):2563-7.
22. Mora R, Crippa B, Dellepiane M, et al. Effects of adenotonsillectomy on speech spectrum in children. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2007; 71(8):1299-304.
23. Lim DJ, Kang SH, Kim BH, et al. Treatment of obstructive sleep apnea syndrome using radiofrequency-assisted uvulopalatoplasty with tonsillectomy. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2013; 270(2):585-93.

Postoperative characteristics of combined pharyngoplasty and tonsillectomy versus tonsillectomy in children with obstructive sleep apnea syndrome

Yan Shu, MD^a; Hong-Bing Yao, MM^a; Da-Zhi Yang, MM^a and Bing Wang, MM^a

ABSTRACT

Purpose. The study aims to identify the postoperative advantages of tonsillectomy in conjunction with pharyngoplasty and tonsillectomy alone in children with obstructive sleep apneas.

Methods. In a prospective observational study, patients who met the study criteria were randomly divided into two groups: tonsillectomy and pharyngoplasty group, and tonsillectomy alone group. In both groups, adenoidectomy was also performed in patients with adenoid hypertrophy. Differences in their healing processes in the pharyngeal wound and their hemorrhage proportions were compared. Furthermore, postoperative velopharyngeal function was also assessed.

Results. Pharyngoplasty together with tonsillectomy was performed in 328 children with obstructive sleep apnea from tonsillar hypertrophy, and tonsillectomy was performed in 275 children. These cohorts did not reveal any significant demographic differences between groups. Furthermore, blood loss was found to be significantly decreased in the tonsillectomy and pharyngoplasty group ($P < 0.01$), and the healing process was markedly shorter. Postoperative velopharyngeal function was not affected.

Conclusions. Tonsillectomy in conjunction with pharyngoplasty reduced the duration of the healing process and blood loss, compared with tonsillectomy alone; however, postoperative complications did not increase. We consider pharyngoplasty in conjunction with tonsillectomy has great potential in the treatment of children with obstructive sleep apnea.

Key words: Pharyngoplasty, tonsillectomy, child, obstructive sleep apnea.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.316>

a. Department of otolaryngology, Children's Hospital of Chongqing Medical University, China.

E-mail address:

Bing Wang:
bingwangdoc@163.com

Funding:

This study was supported by Medical Project of Chongqing Municipal Health Bureau, China (NO: 20120116).

Conflict of interest:

None.

Received: 7-22-2017

Accepted: 3-19-2018

age when tonsil hypertrophy and adenoids are more commonly observed.² If left untreated, OSA can lead to serious morbidity and affect the cognitive, neurobehavioral and cardiovascular systems.^{3,4} OSA in children is primarily attributed to adenotonsillar hypertrophy,⁵ and as such, tonsillectomy with or without adenoidectomy (T&A) is currently the most common treatment for children with OSA.⁶ The standard procedure for adenotonsillectomy includes the removal of the palatal tonsils and adenoids.

Although tonsillectomy is one of the most commonly performed otolaryngologic procedures, some complications may arise including postoperative bleeding, pain, decreased oral intake, postobstructive respiratory compromise, velopharyngeal insufficiency and psychological trauma.^{7,8} In order to reduce these complications, various techniques have been continuously evolved, including coblation tonsillectomy,⁹ bipolar electrodissection tonsillectomy¹⁰ and laser tonsillectomy.¹¹ However, no strong evidence supports the use of pharyngoplasty in children with OSA. The term pharyngoplasty refers to closing the tonsillar wound by suturing the anterior and posterior pillars after tonsillectomy. For a long time, the necessity and risk of suturing the tonsillar wound after tonsillectomy has remained controversial.

The aim of this study was to compare the outcomes of tonsillectomy in conjunction with pharyngoplasty with the outcomes of tonsillectomy alone in children with OSA.

Tocite: Shu Y, Yao HB, Yang DZ, Wang B. Postoperative characteristics of combined pharyngoplasty and tonsillectomy versus tonsillectomy in children with obstructive sleep apnea syndrome. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):316-321.

INTRODUCTION

Obstructive sleep apnea (OSA) syndrome is a common and highly prevalent disorder in pediatric patients, affecting 2-3% of children.¹ The incidence peak was found in pre-school children, as this is the

MATERIALS AND METHODS

Population

The population in our study were pediatric patients evaluated and scheduled to undergo tonsillectomy with or without adenoidectomy for OSA in the Children's Hospital of Chongqing Medical University between September 2008 and June 2010. We excluded patients only received adenoidectomy alone and observed the pure tonsil excision or tonsillectomy with adenoidectomy. The indications for all patients included the presence of OSA with tonsillar and/or adenoid hypertrophy. The diagnosis of OSA was based on the history provided by the caregiver (snoring, mouth-breathing, witnessed apneas, enuresis, daytime hypersomnolence, or restless sleep), physical examination, and polysomnographical data analysis results. We chose the patients with obstructive apnea-hypopnea index (AHI) >5 as documented by polysomnography, as well as with all tonsil grades (I–IV).¹² Exclusion criteria were significant comorbidities or a significant history of recurrent/chronic tonsillitis, in addition to a history of a bleeding disorder. We also ruled out chronic nasal obstruction and other causes of airway obstruction. This study was approved by the local regional ethical committee. Signed informed consent was obtained from parents/guardians of the children. According to the random number table, the children were divided into two treatment groups: pharyngoplasty and tonsillectomy group, and tonsillectomy alone group.

The children were submitted to overnight PSG in the sleep disorders laboratory. The polysomnogram was analyzed using standard techniques. The obstructive AHI was defined as the number of apneas and hypopneas per hour of total sleep time. Adenoid size was determined by a lateral X-ray of neck. The adenoid to nasopharynx ratio (A/N) is defined as the ratio between maximal adenoid thickness and distance along a line from the posterior-superior edge of the hard palate to the sphenoid-occipital synchondrosis on the base of the skull.¹³ In our study, patients with A/N >0.65 were subjected to adenoidectomy.

The data collected included the patient's age, gender, preoperative diagnosis, polysomnography (PSG) data, ranking of speech intelligibility and velopharyngeal insufficiency, and any postoperative complications.

Surgical techniques

Children from both groups were under general anesthesia and orotracheal intubation, and were placed in the standard supine position during operations. The mouth was opened by a Boyle-Davis mouth gag. The soft palate was retracted using two pediatric 9-mm catheters.

In the pharyngoplasty and tonsillectomy group, after the pericapsular dissection plane was identified, pericapsular dissection was performed with utmost care from the superior to the inferior poles of the tonsils. Then, the tonsils were dissected towards the lower pole with a blunt dissector. The tonsils were removed from the tonsillar fossa using a wire snare and then the fossa was packed with a swab dipped in normal saline to achieve hemostasis. Of course, absorbable ties and bipolar forceps were used to secure the hemostasis, when necessary. The anterior and posterior pillars and the organization of the fossa were sutured with a single 4-0 chromic gut suture to secure the hemostasis and close the tonsillar fossa. The suture was not removed after the operation.

In the tonsillectomy alone group, the surgical removal of the tonsil tissue itself and the primary procedure of hemostasis were performed, which is similar to the procedure previously described. Then, further hemostasis of the tonsillar fossa was secured by point hemostasis with bipolar forceps. After complete hemostasis of both tonsillar fossa was achieved, the adenoid was removed through endoscopic surgery.

Assessment of velopharyngeal function

Assessment of speech

We performed speech evaluation and flexible nasopharyngoscopy after obtained the consent of the parents on the fifth day after operation. All of them agree to the exam. Speech assessments were obtained based on routine speech analysis by pediatric speech pathologists, using a scale developed at this institution prior to the acceptance of universal speech parameters. The results of the analysis were graded using a five-point scale (0-4), in which 0 indicates normal and 4 indicates severe. A lower score on this scale indicated less dysfunction.¹⁴

Flexible nasopharyngoscopy

Both groups underwent pre- and post-operative nasal endoscopy administered by the same pediatric otolaryngologist. Visualization of the velopharyngeal port was performed

using a fiberoptic flexible nasopharyngoscope. Palatal motion, lateral pharyngeal wall motion and velopharyngeal closure were observed. Velopharyngeal gap size was measured during the maximal closure on phonation. Results were graded using the Golding-Kushner scale.¹⁵ Gap size categories were defined as large (velopharyngeal closure <50%), moderate (velopharyngeal closure between 50% and 80%), or small (velopharyngeal closure >80%).

Statistical analysis

Statistical analysis was performed using the statistics program SPSS for Windows. Demographic variables of age and gender were compared by chi-square test. Comparisons of preoperative and postoperative complications such as hypernasality and nasopharyngeal regurgitation were achieved using Fisher’s exact test. A P-value <0.05 was considered statistically significant.

RESULTS

Cohort demographics

The demographics of patients included in this study are indicated in Table 1. A total of 682 pediatric patients were evaluated for OSA; 79 patients were excluded because their parents rejected postoperative nasal endoscopy. Hence, the remaining 603 patients were enrolled into this study. Among these 603 patients, 328 patients

(138 females, 190 males) who underwent pharyngoplasty and tonsillectomy were included as the study group, while 275 patients (108 females, 167 males) who underwent pure tonsillectomy with or without adenoidectomy were included as the control group (Figure 1). The mean age of the study and control group was 4.9 ± 2.1 years (range 3-11 years) and 5.13± 2.4 years (range 3-12years), respectively.

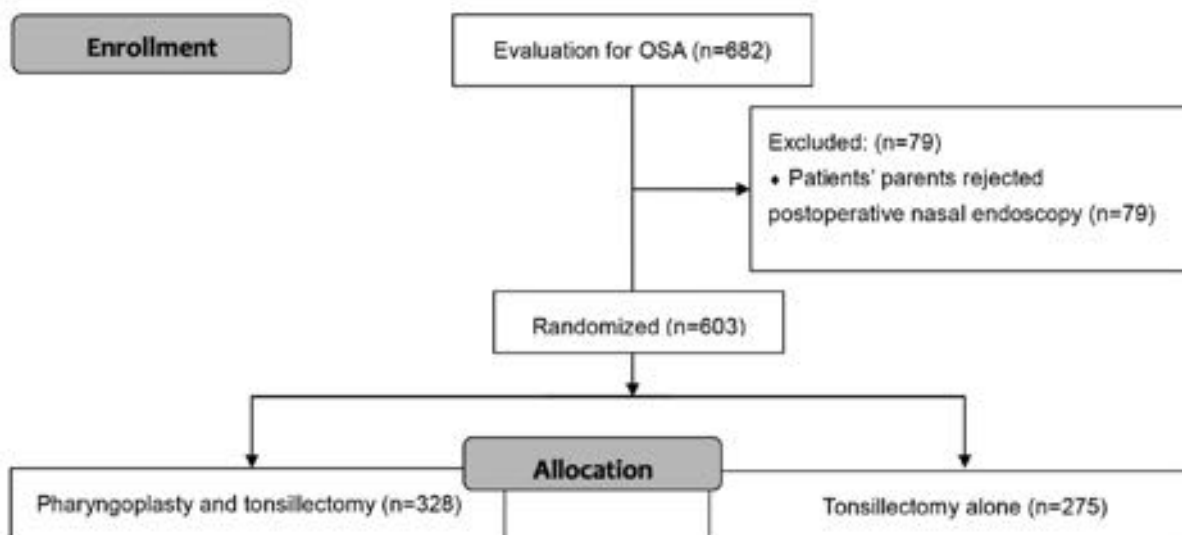
Differences in any of these demographic variables between these two groups were not statistically significant (Table 1).

TABLE 1. Demographic information

	Pharyngoplasty	Pure tonsillectomy	P-value
No. of patients	328	275	
Age (year)	4.9 ± 2.1 (3-11)	5.13 ± 2.4 (3-12)	NS
Gender, female/male	138/190	108/167	NS
BMI (z score)	0.72 ± 1.13	0.75 ± 1.16	NS
A/N ratio	0.71 ± 0.05	0.69 ± 0.03	NS
Tonsillar Size	2.22 ± 0.13	2.25 ± 0.15	NS
Obstructive AHI (/h, TST)	16.2 ± 4.1	15.95±4.7	NS

A/N ratio, adenoidal/nasopharyngeal ratio; NS, not significant; AHI, apnea-hypopnea index; /h, TST, per hour of total sleep time.

FIGURE 1. Flow chart of the study



Postoperative hemorrhage

In primary hemorrhage, the obtained results were statistically significant. The rate for post-operation hemorrhage was 0.91% (3 patients) in the study group and 4.36% (12 patients) in the control group. The comparison of these proportions revealed that the difference between these two groups was statistically significant ($P= 0.008$, Table 2). Furthermore, delayed hemorrhage occurred in two cases in the control group.

Pharyngeal wound characteristics

Upon examining the throat at five days post-operation, a large difference in the healing of the pharyngeal wound was found. The wounds in patients who underwent pharyngoplasty and tonsillectomy were clean and almost healed. However, considerable slough or white pseudomembranes were present in the tonsillar fossa in the pure tonsillectomy group. This condition had an impact on post-tonsillectomy hemorrhaging and the amount of time patients spent in the recovery phase of this operation.

Postoperative velopharyngeal function

With respect to postoperative speech intelligibility, five patients in the study group and three patients in the control group significantly worsened, although no significant trends towards worsening were noted when the outcomes of the two groups were compared ($P=0.733$). All patients underwent flexible electronic nasopharyngoscopy. Obvious changes in palatal closure, lateral wall movement and velopharyngeal gap sizes were not present between each patient’s pre- and post-tonsillectomy data (Table 3 and Figure 2). Thus, the difference between these two groups was not statistically significant.

Postoperative nasopharyngeal backflow and hypernasality were not observed in this population.

DISCUSSION

Although the study of non-operative therapies has become an increasingly viable option, surgery remains the main treatment

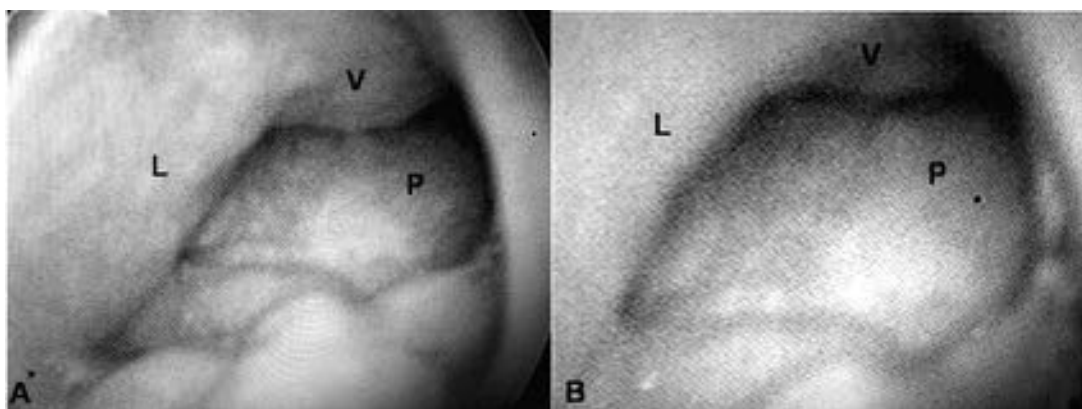
TABLE 2. Postoperative hemorrhage (%)

	Study group (n= 328)	Control group (n= 275)	P value
Primary hemorrhage	3 (0.91)	10 (3.63)	0.025
Delayed hemorrhage	0 (0)	2 (0.73)	0.208
All hemorrhage	3 (0.91)	12 (4.36)	0.008

TABLE 3. Postoperative change about velopharyngeal function (%)

	Study group (n= 328)	Control group (n= 275)	P value
Speech intelligibility worsened	5 (1.52)	3 (1.09)	0.733
Velopharyngeal insufficiency	0 (0)	0 (0)	
Nasopharyngeal backflow	0 (0)	0 (0)	
Hypernasality	4 (1.22)	2 (0.73)	0.694

FIGURE 2. Nasopharyngoscopic views during articulation



(A) Preoperative view with obliteration of the gap.
 (B) Postoperative view with obliteration of the gap (velopharyngeal closure). L=lateral nasopharynx wall; P=posterior pharyngeal wall; V=velum.

method recommended for children with OSA at present. The discussion of avoiding postoperative complications and surgery-associated discomforts remains a substantial focal point. Our results provided further support to the performance of combined pharyngoplasty and tonsillectomy for treatment of children with obstructive sleep apnea. Although this procedure is not accepted by some otolaryngologists due to its increased operating time and uncertain advantages, our study demonstrates the benefits of pharyngoplasty combined with tonsillectomy in the prevention of postoperative bleeding and wound healing.

Postoperative hemorrhage is one of the main post-tonsillectomy morbidities including primary or reactionary hemorrhages (<24 hours), and postoperative infections associated with secondary or delayed hemorrhages (>24 hours).¹⁶

Primary hemorrhage is more brisk and profuse than secondary hemorrhage. Moreover, it occurs when the patient's protective airway reflexes are blunted by post-anesthetic or narcotic effects.¹⁷ Our results have shown that reactionary hemorrhage was more common than delayed hemorrhage in both populations. Furthermore, delayed hemorrhage appeared primarily in the control group. The rates of hemorrhage were low in the study group (below 1%). These results may be related to the closing of the tonsillar wound by suturing the posterior and anterior tonsillar pillars, and thereby avoiding any reopening of intraoperative damaged blood vessels. Additionally, Lehnerdt¹⁸ considered several instances of dietary trauma related to hemorrhaging. The procedure we chose may also effectively reduce postoperative dietary stimulation.

From the first tonsillectomy described by Celsus in 50 AD,¹⁹ otolaryngologists have become accustomed to not suturing the wounds. Currently, it remains uncertain whether this procedure is really and truly beneficial to wound healing. Tonsillectomy produces an open wound that is open to influence from various factors in a grossly contaminated field. Wound healing relies on the ingrowth of the mucosa from the periphery, which may continue for 1 to 2 weeks after surgery. During the process, the postoperative fossa would undergo a series of complex pathophysiological changes including fibrin clot formation, proliferation, and separation from the underlying granulation tissue.²⁰

Patients would also experience varying levels

of discomfort. All of these factors may increase the time to complete healing. Although most of the open wounds can be healed, it may be possible to shorten the healing time and level of discomfort. In our study, almost all patients in the pharyngoplasty and tonsillectomy group had completely healed pharyngeal wounds by the fifth day after surgery, while most patients in the control group had tonsillar fossae that remained in the active processing of fibrin clots.

The practice of suturing the tonsillar pillars following tonsillectomy has gradually been adopted in children with OSA by some otolaryngologists. However, whether some adverse effects would arise from this approach including negative effects on postoperative velopharyngeal function is continuously being widely questioned.

Function is usually decided by structure. Structural modification in the upper airway may influence function and physiology to a certain extent after reconstructive surgeries, including uvulopalatopharyngoplasty and pharyngoplasty. Although velopharyngeal insufficiency is an uncommon complication of traditional uvulopalatopharyngoplasty, it is a risk factor for patients when a resection is performed or in patients who have impaired mobility of the palate and/or lateral pharyngeal walls.²¹ One study has shown a lower risk of deterioration in velopharyngeal function among patients without cleft palates after pharyngoplasty tonsillectomies.²² In our study, we tried to assess the velopharyngeal function in children with OSA after pharyngoplasty. However, no statistical significance compared with the control group. Thus, this operation does not carry an increased risk of velopharyngeal insufficiency.

Controversy remains on the exact pathophysiology of OSA in children, but most specialists appear to accept the theory that upper airway patency is restricted or collapses during inspiration. Such collapse is the integrated result of a cluster of multifactorial interactions, which include functional and anatomical factors. In accordance with this theory, it is very important to attempt to maximally enlarge the narrowing and to decrease the collapsibility of the pharyngeal area by tightening the floppy airway, rather than removing only the adenoid and tonsillar tissues. Some authors²³ have advocated the practice of suturing the tonsillar wound for a maximal enlargement of the retropalatal airspace, thereby decreasing the collapsibility of the lateral

pharyngeal wall and soft palate. In this study, the long-term effects of suturing the tonsillar wound on relieving OSA remains to be observed.

CONCLUSION

In our study, tonsillectomy in conjunction with pharyngoplasty offers significant advantages in the postoperative period for pediatric patients with OSA. This procedure reduces the duration of wound healing and the ratio of postoperative hemorrhage, compared with tonsillectomy alone. Additionally, the risk of velopharyngeal insufficiency did not increase through this method. We consider that these results indicated that the combination of pharyngoplasty and tonsillectomy has great potential in the treatment of OSA in pediatric patients. Furthermore, its potential cost-saving advantage warrants continued study. ■

REFERENCES

- Lumeng JC, Chervin RD. Epidemiology of pediatric obstructive sleep apnea. *Proc Am Thorac Soc* 2008; 5(2):242-52.
- Schwengel DA, Dalesio NM, Stierer TL. Pediatric obstructive sleep apnea. *Anesthesiol Clin* 2014; 32(1):237-61.
- Arali V, Namineni S, Sampath Ch. Pediatric obstructive sleep apnea syndrome: time to wake up. *Int J Clin Pediatr Dent* 2012; 5(1):54-60.
- Zhu J, Fang Y, Chen X, et al. The impacts of obstructive sleep apnea hypopnea syndrome severity and surgery intervention on psychological and behavioral abnormalities and postoperative recovery in pediatric patients. *Med Sci Monit* 2014; 20:1474-80.
- Slaats MA, Van Hoorenbeeck K, Van Eyck A, et al. Upper airway imaging in pediatric obstructive sleep apnea syndrome. *Sleep Med Rev* 2015; 21:59-71.
- Mukhatyar P, Nandalike K, Cohen HW, et al. Intracapsular and Extracapsular Tonsillectomy and Adenoidectomy in Pediatric Obstructive Sleep Apnea. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg* 2016; 142(1):25-31.
- Reusser NM, Bender RW, Agrawal NA, et al. Post-tonsillectomy hemorrhage rates in children compared by surgical technique. *Ear Nose Throat J* 2017; 96(7):e7-11.
- Ferary M, Biet A, Strunski V, et al. Impact of the mode of hospitalisation on the postoperative complication rate after dissection tonsillectomy in children. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis* 2014; 131(6):345-9.
- Friedman M, Wilson MN, Friedman J, et al. Intracapsular coblation tonsillectomy and adenoidectomy for the treatment of pediatric obstructive sleep apnea/hypopnea syndrome. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2009; 140(3):358-62.
- Kirazli T, Bilgen C, Midilli R, et al. Bipolar electrodissection tonsillectomy in children. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2005; 262(9):716-8.
- D'Eredità R, Marsh RR. Contact diode laser tonsillectomy in children. *Otolaryngol Head Neck Surg* 2004; 131(5):732-5.
- Shen L, Zheng B, Lin Z, et al. Tailoring therapy to improve the treatment of children with obstructive sleep apnea according to grade of adenotonsillar hypertrophy. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2015; 79(4):493-8.
- Acar M, Kankilic ES, Koksall AO, et al. Method of the diagnosis of adenoid hypertrophy for physicians: adenoid-nasopharynx ratio. *J Craniofac Surg* 2014; 25(5):e438-40.
- Paulson LM, MacArthur CJ, Beaulieu KB, et al. Speech Outcomes after Tonsillectomy in Patients with Known Velopharyngeal Insufficiency. *Int J Otolaryngol* 2012; 2012:912767.
- Tieu DD, Gerber ME, Milczuk HA, et al. Generation of consensus in the application of a rating scale to nasendoscopic assessment of velopharyngeal function. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 2012; 138(10):923-8.
- Amoils M, Chang KW, Saynina O, et al. Postoperative Complications in Pediatric Tonsillectomy and Adenoidectomy in Ambulatory vs Inpatient Settings. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg* 2016; 142(4):344-50.
- Lou ZC, Lou ZH. Post-tonsillectomy hemorrhage: Underlying factors and prevention. *Am J Otolaryngol* 2018; 39(2):230-1.
- Lehnerdt G, Senska K, Jahnke K, et al. Post-tonsillectomy haemorrhage: a retrospective comparison of abscess- and elective tonsillectomy. *Acta Otolaryngol* 2005; 125(12):1312-7.
- Mixon CM, Weinberger PM, Austin MB. Comparison of microdebrider subcapsular tonsillectomy to harmonic scalpel and electrocautery total tonsillectomy. *Am J Otolaryngol* 2007; 28(1):13-7.
- Isaacson G. Tonsillectomy Care for the Pediatrician. *Pediatrics* 2012; 130(2):324-34.
- Abdel-Aziz M. The effectiveness of tonsillectomy and partial adenoidectomy on obstructive sleep apnea in cleft palate patients. *Laryngoscope* 2012; 122(11):2563-7.
- Mora R, Crippa B, Dellepiane M, et al. Effects of adenotonsillectomy on speech spectrum in children. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol* 2007; 71(8):1299-304.
- Lim DJ, Kang SH, Kim BH, et al. Treatment of obstructive sleep apnea syndrome using radiofrequency-assisted uvulopalatoplasty with tonsillectomy. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2013; 270(2):585-93.

Prevalencia del bajo peso al nacer en un escenario de depresión económica en Argentina

Prevalence of low birth weight in a scenario of economic depression in Argentina

Lic. Julia Ratowiecki^{a,b}, Dr. Fernando A. Poletta^{a,b,c}, Dr. Lucas G. Giménez^{a,b}, Dr. Juan A. Gili^{a,b}, Dra. Mariela S. Pawluk^{a,b} y Dr. Jorge S. López Camelo^{a,b,c}

RESUMEN

Introducción. El bajo peso al nacer (BPN) es considerado un indicador general de salud por su relación con complicaciones en la vida del recién nacido y por ser una de las primeras causas de mortalidad infantil. Es multifactorial y, entre sus determinantes, se incluyen los socioeconómicos. **Objetivo.** Evaluar el impacto de la desigualdad económica sobre la prevalencia del BPN, cuantificando el efecto diferencial según edad y educación materna y nivel de atención.

Población y métodos. Estudio epidemiológico de diseño transversal, en el cual se analizaron los nacimientos ocurridos en Argentina desde 2001 a 2013 con datos obtenidos del Registro Nacional de los nacimientos, perteneciente a la Dirección de Estadísticas e Información en Salud (DEIS). Se estudió la variación temporal de la prevalencia de recién nacidos con BPN (< 2500 gramos) y su relación con indicadores demográficos y socioeconómicos. Se evaluó su asociación a través de modelos de regresión logística.

Resultados. Se incluyeron 9 001 960 nacimientos. Se observó un incremento en la prevalencia de recién nacidos con BPN durante la crisis económica de 2001 –de un 6% en 2002 y un 7% en 2003–. Fue heterogéneo y tuvo mayor impacto en hospitales públicos (razón de prevalencia –RP= 1,03) y madres adolescentes (RP= 1,07) y ningún impacto sobre la educación materna baja (RP= 0,99).

Conclusiones. El impacto de la desigualdad socioeconómica sobre la prevalencia de bajo peso fue significativo y heterogéneo, más importante en hospitales públicos y madres en edades extremas.

Palabras clave: bajo peso al nacer, factores socioeconómicos, crisis económica, Argentina.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.322>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.322>

Cómo citar: Ratowiecki J, Poletta FA, Giménez LG, et al. Prevalencia del bajo peso al nacer en un escenario de depresión económica en Argentina. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):322-327.

- a. Dirección de Investigación, CEMIC-Consejo Nacional de Investigaciones Científicas y Técnicas (CONICET).
 - b. Estudio Colaborativo de Malformaciones Congénitas (ECLAMC).
 - c. Instituto Nacional de Genética Médica Populacional (INAGEMP).
- Buenos Aires, Argentina.

Correspondencia:
Dr. Jorge S. López Camelo:
jslc@eclamc.org

Financiamiento:
PICT 2016-0952.
Agencia Financiadora:
Agencia Nacional de Promoción Científica y Tecnológica, Ministerio de Ciencia, Tecnología e Innovación Productiva.
Investigador responsable: Dr. Jorge S. López Camelo.
Beca de Reinserción de la Dirección de Investigación, Centro de Educación Médica e Investigaciones Clínicas “Norberto Quirno” (CEMIC), otorgada a Julia Ratowiecki.

Conflicto de intereses:
Ninguno que declarar.

Recibido: 28-11-2017
Aceptado: 10-4-2018

INTRODUCCIÓN

Según la Organización Mundial de la Salud, el bajo peso al nacer (BPN) es el índice predictivo más importante de mortalidad infantil, en particular, la neonatal. Ha sido estudiada la relación entre el BPN y diversas complicaciones posteriores, como infecciones respiratorias agudas y diarreas en el primer año de vida y, en la vida adulta, trastornos neurológicos y déficit intelectual, síndrome metabólico, diabetes, entre otros.^{1,2}

El BPN es el resultado de un crecimiento (intrauterino) fetal restringido y/o de un período gestacional corto, por lo tanto, puede tratarse de recién nacidos (RN) a término con bajo peso para su edad gestacional o RN prematuros con peso acorde a su edad gestacional. El BPN es multifactorial y, entre sus determinantes, se incluyen el estrés psicosocial,³ el tabaquismo,⁴ la malnutrición y la anemia^{5,6} y la edad materna extrema.²

Existe una vasta literatura que relaciona las condiciones socioeconómicas adversas con resultados desfavorables en la salud reproductiva.⁷⁻¹⁰ Las condiciones socioeconómicas adversas constituyen una problemática compleja. Un ejemplo son las crisis económicas, en las cuales el aumento de la pobreza y del desempleo suele ser característico. Las crisis traen consecuencias en toda la población, con efectos que difieren sustancialmente entre sectores sociales e influyen sobre la educación, la nutrición y los cuidados personales en forma individual.

A fines de 2001, en la Argentina, se desencadenó una reconocida crisis económica. Esta llevó la pobreza a niveles del 54% de la población, la indigencia al 25%, el desempleo a casi el 26% y generó un aumento de la desigualdad socioeconómica que mostró la peor distribución de los últimos 30 años.¹¹ En lo concerniente específicamente a salud, aumentó el estrés, las enfermedades emergentes y la mortalidad.¹²

La hipótesis de trabajo es que la crisis económica de 2001, como indicador de condición socioeconómica adversa, debería reflejar la asociación entre ella y el BPN. El objetivo fue evaluar el impacto de la desigualdad económica sobre la prevalencia del BPN, cuantificando el efecto diferencial según edad y educación materna y nivel de atención.

POBLACIÓN Y MÉTODOS

El trabajo corresponde a un estudio epidemiológico de diseño transversal. Se utilizaron datos provenientes del Registro Nacional de los nacimientos ocurridos en la República Argentina desde enero de 2001 a diciembre de 2013, obtenidos de la Dirección de Estadísticas e Información en Salud.¹³ Fueron excluidos los casos de RN muertos, con un peso menor de los 500 gramos o sin peso especificado.

La variable dependiente fue la prevalencia anual de RN con bajo peso. Sobre la base de lo definido por la Organización Mundial de la Salud, se consideró como BPN cuando se registraba un peso al nacer menor de los 2500 gramos. Como variables independientes, se estudiaron el producto bruto interno (PBI) obtenido del Banco Mundial,¹⁴ el tiempo (en años) y las variables demográficas categorizadas de la siguiente manera:

- Edad materna: nivel 1 (de 11 a 19 años), nivel 2 (de 20 a 29 años), nivel 3 (de 30 a 45 años) y nivel 4 (de 46 a 59 años). Se tomó como referencia a las madres de 20-29 años.
- Escolaridad materna: nivel 1 (hasta primario incompleto), nivel 2 (primario completo o secundario incompleto) y nivel 3 (secundario completo, universitario completo o incompleto). Se consideró como referencia el nivel intermedio: primario completo y secundario incompleto.
- Nivel de atención: se tomó en cuenta si el nacimiento había ocurrido en un hospital público (nivel 0) o privado (nivel 1). Los nacimientos en hospitales privados fueron usados como referencia.

Se calculó la prevalencia poblacional de RN con BPN y se hizo una correlación de Pearson con el valor del PBI correspondiente. Además, se estudió la prevalencia de BPN estratificada por variables demográficas. Luego, se evaluó la ocurrencia de bajo peso en función del año, la edad y la educación materna, y el nivel de atención se evaluó mediante un modelo de regresión logística múltiple (E1). Se obtuvieron las razones de productos cruzados (*odds ratio*) correspondientes y, mediante la conversión (E2) propuesta por Zocchetti et al.,¹⁵ se transformaron a razones de prevalencia (RP), las cuales se analizaron para identificar la asociación entre las variables.

$$P\{Y=1/A, X, R\} = 1 / (1 + e^{-Z}) \rightarrow Z = \log(y) \text{ (E1)}$$

$$\text{En la que } Z = a + \sum b_i A_i + \sum c_i X_i + \varepsilon$$

Y= peso al nacer en gramos (v. dependiente).

A_i= año de nacimiento.

X_i= variables demográficas (v. independiente)

b_i, c_i y d_i= coeficientes.

ε= error residual (variabilidad no explicada por los otros términos del modelo).

$$RP = \frac{OR}{(1 + p \times [OR - 1])} \text{ (E2)}$$

p_x es la prevalencia de la enfermedad (bajo peso) en el grupo de referencia; OR= *odds ratio*.

Con el objetivo de medir el impacto diferencial de la crisis, se determinaron los valores de prevalencia de RN con BPN correspondientes al período *crisis* (de enero de 2002 a diciembre de 2003) y al período *no crisis* (de enero a diciembre de 2001 y de enero de 2004 a diciembre de 2013), y se calculó el incremento relativo (*IR) dentro de cada nivel de las variables demográficas estudiadas.

$$*IR = \frac{BPN \text{ crisis} - BPN \text{ no crisis}}{BPN \text{ no crisis}} \times 100$$

Luego, se realizó una regresión logística múltiple (E3) con término de interacción sobre el indicador de salud comparando entre ambos períodos (*crisis* y *no crisis*) para identificar heterogeneidad en el impacto de la crisis económica:

$$P\{Y=1/A, X, R\} = 1 / (1 + e^{-Z}) \rightarrow Z = \log(y) \text{ (E3)}$$

$$\text{En la que } Z = a + \sum b_i X_i + c_i C + e_i C * \sum b_i X_i + \varepsilon$$

Y= peso al nacer en gramos (v. dependiente).

X_i= variables demográficas (v. independiente).

b_i , c_i , d_i y e_i = coeficientes.

C = crisis.

$e_i C \sum b_i X_i$ = término de interacción.

ε = error residual (variabilidad no explicada por los otros términos del modelo).

Debido a que, en el presente estudio, se trabajó con toda la población de nacimientos de Argentina en el período enero de 2001-diciembre de 2013, la interpretación de los resultados se basó en la magnitud de las diferencias observadas en los modelos de regresión y no en los valores de p asociados a cada coeficiente, ya que no hubo inferencia estadística.

Para todo el trabajo, se utilizó el *software* Stata 12.0 y el Microsoft Excel.

RESULTADOS

Población argentina

En el presente trabajo, se incluyeron 9 001 960 nacidos vivos en Argentina, correspondientes al período enero de 2001-diciembre de 2013.

Los valores más elevados para la prevalencia de RN con bajo peso se observaron en 2002 y 2003, cuando se registró un aumento de entre 6% y 7% respecto a 2001 (Tabla 1). A partir de 2004, se observó una caída y posterior recuperación.

Además, en 2002, hubo una caída en el PBI nacional (64%) y un progresivo aumento durante los años posteriores. La correlación de Pearson entre el PBI y la frecuencia de RN con BPN mostró una relación negativa ($r = -0,69$), que también se puede ver en la Figura 1.

Variables demográficas

Se observó un aumento en la prevalencia de RN con bajo peso en 2002, en todos los grupos. Sin embargo, se vieron diferencias entre ellos (Tabla 2). Las madres en los extremos de edad materna (adolescentes y mayores de 30 años) presentaron valores más elevados de prevalencia de RN con bajo peso que las madres de 20-29 años tomadas como referencia. Respecto al nivel educativo, se vio que las madres con el nivel más avanzado mostraron los menores valores de prevalencia de RN con BPN. En los hospitales públicos, la prevalencia fue mayor que en los hospitales privados. Se observó una mayor prevalencia de bajo peso en madres adolescentes, mayores de 30 años y en hospitales públicos.

Impacto diferencial de la crisis

El incremento relativo del período *crisis* frente al de *no crisis* fue diferente para cada grupo (Tabla 3). Respecto a la edad materna, el mayor incremento se observó en el estrato de madres adolescentes, mientras que el menor se vio en el de madres mayores de 45 años. Entre los niveles de educación materna, se observó menor impacto para aquellas con educación más avanzada, y el incremento en hospitales públicos fue mayor que en los hospitales privados (véase Anexo en formato electrónico).

DISCUSIÓN

Este trabajo tuvo como objetivo estudiar el impacto de las condiciones socioeconómicas adversas sobre el BPN. La hipótesis subyacente es

Tabla 1. Relación entre la prevalencia de nacimientos con bajo peso y el producto bruto interno durante el período 2001-2013 en Argentina

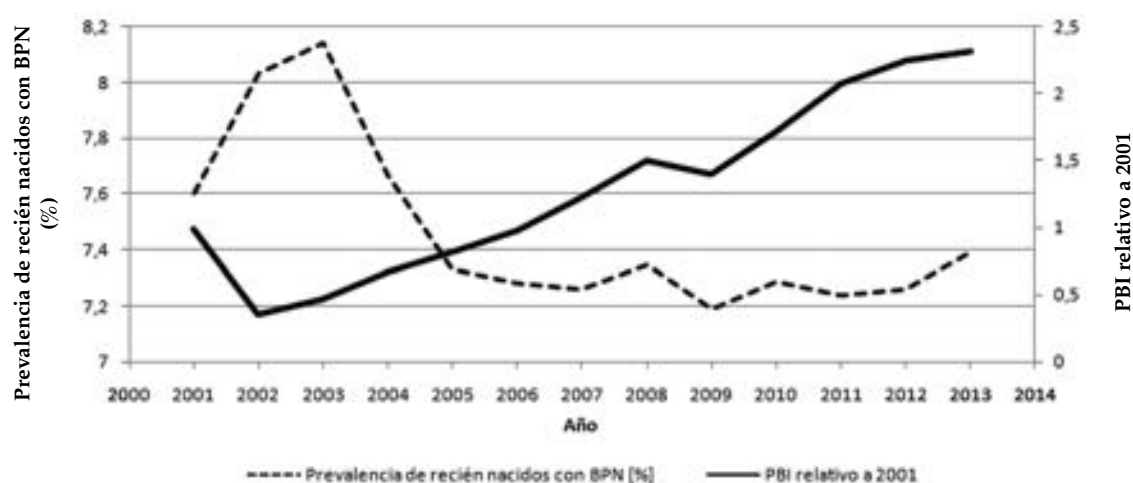
Año	Nacimientos	Nacimientos con BPN	% de BPN	PBI [miles de millones de US\$]	PBI relativo a 2001	RP
2001	635 669	48 334	7,60	2,69	1,00	REF
2002	654 578	52 582	8,03	0,98	0,36	1,06
2003	664 938	54 139	8,14	1,28	0,47	1,07
2004	690 317	52 918	7,67	1,82	0,68	1,03
2005	682 763	50 064	7,33	2,21	0,82	0,99
2006	679 831	49 482	7,28	2,63	0,98	0,99
2007	679 037	49 274	7,26	3,29	1,23	0,99
2008	721 703	53 010	7,35	4,04	1,50	1,00
2009	719 695	51 711	7,19	3,77	1,40	0,98
2010	731 591	53 315	7,29	4,62	1,72	0,99
2011	728 064	52 688	7,24	5,58	2,08	0,98
2012	727 489	52 813	7,26	6,04	2,25	0,98
2013	686 285	50 727	7,39	2,24	2,32	1,00
Total	9 001 960	671 057				

BPN: bajo peso al nacer; PBI: producto bruto interno; RP: razón de prevalencia [p = prevalencia en 2001 (0,076)]; REF: referencia.

que el BPN es susceptible a cambios ambientales originados por la falta de recursos nutricionales, cuidados prenatales, deficiencias estructurales en los servicios de salud originadas por desigualdades sociales. Para tal fin, se utilizó un indicador directo y objetivo como fue la crisis de 2001 en Argentina para evitar el uso de índices de pobreza, resultantes de combinar diferentes tipos de variables, que posteriormente resultan de difícil interpretación.

El PBI permitió visualizar la caída en la economía nacional durante la crisis económica de 2001. El análisis de correlación entre el indicador económico y el de salud mostró una evidente asociación entre la caída del PBI y el aumento en la prevalencia de RN con bajo peso. Es decir que hubo una relación inversa entre la situación económica y la salud, lo que apoyó la hipótesis de que el bajo peso estaba relacionado con determinantes socioeconómicos. De esta forma, se confirmó el período *crisis* (enero de

FIGURA 1. Relación entre la prevalencia de recién nacidos con bajo peso con el producto bruto interno relativo a 2001 en Argentina



BPN: bajo peso al nacer; PBI: producto bruto interno.

TABLA 2: Prevalencia porcentual de recién nacidos con bajo peso al nacer entre 2001 y 2013 en Argentina estratificada por variables demográficas

Año	Edad materna [años]				Educación materna*			Nivel de atención	
	11-19	20-29	30-45	46-59	Nivel 1	Nivel 2	Nivel 3	Público	Privado
2001	9,67	7,01	7,59	10,31	7,95	7,92	6,88	7,51	6,46
2002	10,28	7,37	8,03	13,25	8,38	8,35	7,34	7,97	6,69
2003	10,43	7,54	8,08	14,57	8,50	8,46	7,50	8,02	6,95
2004	9,71	6,98	7,79	13,68	7,78	8,00	7,10	7,80	6,68
2005	8,95	6,61	7,61	13,93	7,42	7,60	6,90	7,68	6,71
2006	8,75	6,62	7,53	12,10	7,19	7,55	6,91	7,65	6,71
2007	8,61	6,57	7,60	14,95	7,55	7,51	6,86	7,67	6,66
2008	8,66	6,66	7,66	15,73	7,73	7,54	7,01	7,79	6,76
2009	8,53	6,46	7,53	14,18	7,51	7,38	6,85	7,57	6,67
2010	8,45	6,51	7,75	17,30	7,56	7,47	7,02	7,59	6,89
2011	8,35	6,46	7,72	18,93	7,36	7,35	7,05	7,50	6,90
2012	8,41	6,48	7,72	17,52	7,41	7,40	7,04	7,56	6,84
2013	8,62	6,63	7,79	20,16	7,58	7,55	7,18	7,67	7,00
Total	8,98	6,76	7,72	15,24	7,72	7,70	7,04	7,68	6,78

* Clasificación de educación materna. Nivel 1: hasta primario incompleto. Nivel 2: primario completo o secundario incompleto. Nivel 3: secundario completo, universitario incompleto o completo.

2002-diciembre de 2003) como indicador de una condición socioeconómica adversa para definir la exposición.

Se observó un aumento en la prevalencia de RN con BPN luego de la crisis económica de 2001 al igual que lo hallado en España, donde el aumento en la prevalencia de RN con BPN tuvo mayor intensidad durante el período más fuerte de la crisis económica (2009-2010).¹⁶ Lo mismo ha sido observado en un caso de Islandia,¹⁷ donde encontraron un incremento en la prevalencia de RN con BPN después del colapso económico de 2008 frente al período anterior.

Para entender el impacto de la crisis económica sobre el bajo peso, cabe considerar que, si en todo el país nacieron aproximadamente 690 000 niños por año, un aumento de 0,5% en la prevalencia de RN con BPN, como ocurrió en la población argentina desde 2001 a 2002, corresponde a aproximadamente 3450 RN más con bajo peso, que podrían haber sido evitados.

En nuestro análisis, se halló que el impacto de la crisis económica sobre el BPN fue heterogéneo entre los estratos de edad materna y de nivel de atención.

Durante todo el período estudiado la prevalencia de RN con bajo peso fue mayor en los hospitales públicos que en los privados. En el período de la crisis, si bien se observa un incremento de RN con BPN en ambos niveles de atención, el impacto fue mayor en los hospitales públicos. Estos resultados concuerdan con otras investigaciones en las que se asocia el nivel socioeconómico desfavorable con problemáticas en la salud.⁷ Estudios demuestran la relación entre el consumo de tabaco y alcohol y la cantidad de consultas prenatales¹⁸ con la condición de bajo peso. Mientras que en este trabajo

no se incluyeron estas variables de manera independiente, en nuestro país, la población que asiste a los hospitales públicos es aquella con menores ingresos y condiciones de vida menos favorables, mayor consumo de alcohol, tabaco y menos consultas prenatales.¹⁹

Las madres en edades extremas presentaron una mayor prevalencia de bajo peso. Por un lado, las madres de 11-19 años mostraron mayor impacto por la crisis económica. Este resultado coincide con otros trabajos^{2,20} en los cuales se asocia el BPN con inmadurez biológica, como la falta de crecimiento y desarrollo, y con factores psicosociales, como el embarazo no deseado, madre soltera, abandono familiar y poco o ausencia de control prenatal.²¹ En el otro extremo reproductivo, una mayor prevalencia de bajo peso fue observada en madres mayores de 30 años, a pesar de que, en este grupo, el impacto de la crisis fue menor. La asociación con madres en edad avanzada coincide con un trabajo en el que determinaron el mayor riesgo de las madres mayores de 40 años frente a madres de entre 20 y 34 años, y lo ligaron con enfermedades pregestacionales y gestacionales.²²

Cabe destacar que muchos trabajos reportan una asociación entre bajos niveles educativos y mayor incidencia de BPN.^{4,23} Nuestros resultados mostraron la misma tendencia, a pesar de que la magnitud de las diferencias fue pequeña.

Fortalezas

Por un lado, este trabajo estudió la población total de nacimientos de Argentina entre enero de 2001 y diciembre de 2013, y se analizaron más de nueve millones de nacimientos. Por otro lado, al usar una crisis económica como indicador de respuesta, no fue necesario crear índices. La

TABLA 3. Porcentaje de recién nacidos con bajo peso al nacer en el período de crisis y no crisis estratificada por variables demográficas

	Porcentaje de RN con BPN		
	No crisis	Crisis	IR
Edad materna (años)			
11-19	8,77	10,35	18,01
20-29	6,64	7,46	12,35
30-45	7,67	8,05	4,95
46-59	15,47	13,92	-10,01
Educación materna			
Hasta primario incompleto	7,56	8,44	11,64
Primario completo o secundario incompleto	7,57	8,40	10,96
Secundario completo, universitario incompleto o completo	6,99	7,42	6,15
Nivel de atención			
Público	7,64	7,99	4,58
privado	6,77	6,81	0,59

RN: recién nacidos; BPN: bajo peso al nacer; IR: incremento relativo.

herramienta escogida en el presente estudio es altamente sensible y poco específica, ya que, si bien no señala cuáles variables de pobreza afectan más al bajo peso, incluye todas aquellas que no son posibles de medir cuando se genera un índice socioeconómico.

Limitaciones del estudio

No fueron provistos los nacimientos previos a 2001, aunque hubiese sido beneficioso poder contar con esta información para poder comprender cómo ha sido la variación de la prevalencia de RN con bajo peso previamente a la crisis económica.

Otra limitación es el sesgo denominado "falacia ecológica" a la que están expuestos los estudios transversales/ecológicos. Es decir, realizar inferencias individuales a partir de datos agrupados.

Debido a que, entre la información incluida, hubo más del 15% de nacimientos con edad gestacional no especificada, no fue posible realizar el análisis considerando la diferencia entre RN prematuros y RN a término. Teniendo en cuenta que ha sido demostrado que más de la mitad de los RN con BPN son prematuros,²⁴ hubiese sido interesante poder incluir esta variable en nuestro análisis. Sin embargo, el objetivo fue estudiar la asociación entre condiciones desfavorables y la salud, utilizando como indicador el BPN sin ahondar sobre los mecanismos biológicos involucrados.

En este trabajo, no se tuvo información sobre el estado civil, ocupación, el número de controles prenatales, intervalo intergenésico, enfermedades maternas ni consumo materno de tabaco o alcohol independientemente. En la literatura, estas variables se encuentran relacionadas con trastornos en el desarrollo uterino que pueden derivar en tener un RN con BPN.^{25,26}

CONCLUSIÓN

La desigualdad socioeconómica resultado de la crisis de 2001 sobre la prevalencia de bajo peso fue heterogénea dentro de la población argentina con un impacto mayor en hospitales públicos y madres en edades extremas. ■

REFERENCIAS

1. Coronel Carvajal C, Rivera Lecha I. Peso bajo al nacer. Su influencia en la salud durante el primer año de vida. *Rev Mex Pediatr* 2003; 70(6):283-7.
2. Ticona Rendón M, Huanco Apaza D, Ticona Vildoso M. Incidencia y factores de riesgo de bajo peso al nacer en población atendida en hospitales del Ministerio de Salud del Perú. *Ginecol Obstet Mex* 2012; 80(2):51-60.
3. Eriksson M, Räikkönen K, Eriksson JG. Early life stress and later health outcomes-findings from the Helsinki Birth Cohort Study. *Am J Hum Biol* 2014; 26(2):111-6.
4. Van den Berg G, van Eijsden M, Vrijkotte TG, et al. Educational inequalities in Perinatal outcomes: The mediating effect of smoking and environmental tobacco exposure. *PLoS One* 2012; 7(5):e37002.
5. Duanis Neyra N, Neyra Álvarez A. Factores que inciden en el bajo peso al nacer. *Rev Cubana Enfermer* 1998; 14(3):150-4.
6. Peraza Roque GJ, Pérez Delgado S, Figueroa Barreto Z. Factores asociados al bajo peso al nacer. *Rev Cubana Med Gen Integr* 2001; 17(5):490-6.
7. Abu-Saad K, Fraser D. Maternal Nutrition and Birth Outcomes. *Epidemiol Rev* 2010; 32:5-25.
8. Nyarko KA, López-Camelo J, Castilla EE, et al. Explaining Racial Disparities in Infant Health in Brazil. *Am J Public Health* 2013; 103(9):1675-84.
9. Bozzoli C, Quintana-Domeque C. The weight of the crisis: evidence from newborns in Argentina. *Rev Econ Stat* 2014; 96(3):550-62.
10. Wehby GL, Giménez LG, López-Camelo JS. The Impact of Unemployment Cycles on Child and Maternal Health in Argentina. *Int J Public Health* 2016; 62(2):197-207.
11. Susmel N. Argentina: Pobreza, desigualdad de oportunidades y políticas públicas. En: Albornoz V, Durán C, Fausto M, et al. *Pobreza, desigualdad de oportunidades y políticas públicas*. Rio de Janeiro, Brasil: Konrad-Adenauer-Stiftung; 2012. Págs.8-19.
12. Zeballos JL. Argentina: efectos sociosanitarios de la crisis, 2001-2003. Buenos Aires: Organización Panamericana de la Salud; 2003.
13. Argentina. Dirección de Estadística e Información en Salud (DEIS). Ministerio de Salud. [Acceso: 26 de abril de 2018]. Disponible en: <http://deis.msal.gov.ar>.
14. Banco Mundial. Banco de datos. [Consulta: 26 de abril de 2018]. Disponible en: <http://databank.bancomundial.org/data/home.aspx>.
15. Zocchetti C, Consonni D, Bertazzi PA. Relationship between prevalence rate ratios and odds ratios in cross-sectional studies. *Int J Epidemiol* 1997; 26(1):220-3.
16. Varea C, Terán JM, Bernis C, et al. Is the economic crisis affecting birth outcome in Spain? Evaluation of temporal trend in underweight at birth (2003–2012). *Ann Hum Biol* 2016; 43(2):169-82.
17. Eiríksdóttir VH, Ásgeirsdóttir TL, Bjarnadóttir RI, et al. Low birth weight, small for gestational age and Preterm births before and after the economic collapse in Iceland: A population based cohort study. *PLoS One* 2013; 8(12):e80499.
18. Wehby G, Murray J, Castilla E, et al. Quantile effects of prenatal care utilization on birth weight in Argentina. *Health Econ* 2009; 18(11):1307-21.
19. Belizán J, Farnot U, Carroli G, et al. Antenatal care in developing countries. *Paediatr Perinat Epidemiol* 1998; 12(Suppl 2):1-3.
20. Pawluk MS. Condición socioeconómica adversa y defectos del desarrollo. Impacto de factores involucrados en la pobreza. [Tesis Doctoral]. Buenos Aires: UBA-FME; 2013.
21. Álvarez Fumero R, Urza Cobas LR, Aliño Santiago M. Repercusión de los Factores de Riesgo en el Bajo Peso al Nacer. *RESUMED* 2001; 14(3):117-24.
22. Donoso SE, Villarroel del P L. Edad materna avanzada y riesgo reproductivo. *Rev Méd Chile* 2003; 131(1):55-9.
23. Mortensen LH, Diderichsen F, Arntzen A, et al. Social inequality in fetal growth: a comparative study of Denmark, Finland, Norway and Sweden in the period 1981–2000. *J Epidemiol Community Health* 2008; 62(4):325-31.
24. Placek P. Maternal and infant health factors associated with low infant birth weight: Findings from the 1972 National Natality Survey. In Reed DM, Stanley FJ (eds.). *The epidemiology of prematurity*. Baltimore: Urban and Schwarzenberg; 1977. Págs.197-212.
25. Bortman M. Factores de riesgo de bajo peso al nacer. *Rev Panam Salud Pública* 1998; 3(5):314-21.
26. Leal Soliguera M. Comportamiento del bajo peso al nacer y repercusión sobre la mortalidad infantil en el quinquenio 2001-2005. *Rev Cubana Obstet Ginecol* 2009; 35(4):99-107.

ANEXO

TABLA S1: Regresión logística sobre la prevalencia de bajo peso considerando los niveles de las variables demográficas y comparando entre el período de crisis y no crisis

Variable	RP
CRISIS (años 2002-2003)	1,05
Madres de 11-19 años	1,30
CRISIS* Madres de 11-19 años	1,07
Madres de 20-29 años	REF
CRISIS* Madres de 20-29 años	REF
Madres de 30-45 años	1,17
CRISIS* Madres de 30-45 años	0,97
Madres de 46-59 años	2,42
CRISIS* Madres de 46-59 años	0,86
Madres hasta primario incompleto	0,98
CRISIS* Madres hasta primario incompleto	0,99
Madres con primario completo o secundario incompleto	REF
CRISIS* Madres con primario completo o secundario incompleto	REF
Madres con secundario completo, universitario incompleto o completo	0,99
CRISIS* Madres con secundario completo, universitario incompleto o completo	1,01
Hospitales privados	REF
CRISIS* Hospitales privados	REF
Hospitales públicos	1,14
CRISIS* Hospitales públicos	1,03
Constante	0,08

RP: razón de prevalencia [p = prevalencia en *no crisis* (0,073)]; REF: referencia.

Fueron 7809741 observaciones totales. El Pseudo R²= 0,0030 y el Log likelihood= -2029706,7.

Prevalence of low birth weight in a scenario of economic depression in Argentina

Julia Ratowiecki, B.S.^{a,b}, Fernando A. Poletta, PhD^{a,b,c}, Lucas G. Giménez, PhD^{a,b}, Juan A. Gili, PhD^{a,b}, Mariela S. Pawluk, PhD^{a,b} and Jorge S. López Camelo, PhD^{a,b,c}

ABSTRACT

Introduction. Low birth weight (LBW) is considered a general indicator of health because it is related to complications in the life of a newborn infant and is one of the leading causes of infant mortality. It is a multifactorial indicator, and its determinants include socioeconomic factors.

Objective. To assess the impact of economic inequality on the prevalence of LBW by quantifying its differential effect by maternal age, level of maternal education, and level of care.

Population and methods. Epidemiological, cross-sectional study that analyzed all births occurred in Argentina between 2001 and 2013 based on data provided by the National Registry of births, corresponding to the Health Statistics and Information Department. The temporal variation in the prevalence of LBW newborn infants (< 2500 grams) and its relation to demographic and socioeconomic indicators were studied. Its association was assessed using logistic regression models.

Results. A total of 9 001 960 births were included. The prevalence of LBW newborn infants during the 2001 economic crisis increased -6% in 2002 and 7% in 2003- The impact was heterogeneous and higher on public hospitals (PR) = 1.03) and adolescent mothers (PR = 1.07), but no impact was observed on a low level of maternal education (PR = 0.99).

Conclusions. The impact of socioeconomic inequality on the prevalence of LBW was significant and heterogeneous, especially on public hospitals and mothers at the extremes of maternal age.

Key words: low birth weight, socioeconomic factors, economic crisis, Argentina.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.322>

To cite: Ratowiecki J, Poletta FA, Giménez LG, et al. Prevalence of low birth weight in a scenario of economic depression in Argentina. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):322-327.

INTRODUCTION

According to the World Health Organization, low birth weight (LBW) is the most important index to predict infant mortality, especially, neonatal mortality. The relation between LBW

and several post-natal complications has been studied, such as acute respiratory infection and diarrhea in the first year of life, and neurological disorders and intellectual deficit, metabolic syndrome, diabetes, among others, in adult life.^{1,2}

LBW is the result of fetal (intrauterine) growth restriction and/or a short gestational period. Therefore, LBW newborn infants may be term infants with low birth weight for gestational age or preterm infants with adequate birth weight for gestational age. LBW is multifactorial and its determinants include psychosocial stress,³ smoking,⁴ malnutrition, anemia^{5,6} and extreme maternal age.²

There is ample bibliography establishing a relation between adverse socioeconomic conditions and unfavorable reproductive health outcomes.⁷⁻¹⁰ Adverse socioeconomic conditions account for complex challenges. For example, economic crises, that typically involve a rise in poverty and unemployment. Crises have consequences on the population at large, and their effects differ considerably among social sectors and affect education, nutrition, and self-care individually.

A renowned economic crisis took place in Argentina by the end of 2001. It led to poverty levels affecting 54% of the population, destitution levels that reached 25%, and unemployment, which rose to almost 26%; this resulted in a socioeconomic inequality with the worst income distribution in the past 30 years.¹¹ Specifically in relation to health, it increased stress, emerging diseases, and mortality.¹²

The working hypothesis is that there should be an association between the economic crisis of 2001, as

- a. Research Board, Clinical Research and Medical Education Center National Scientific and Technical Research Council (CEMIC-CONICET).
- b. Latin-American Collaborative Study of Congenital Malformations (ECLAMC).
- c. National Institute of Medical Population Genetics (INAGEMP).
Buenos Aires, Argentina.

E-mail address:
Jorge S. López Camelo,
M.D.: jslc@eclamc.org

Funding:
PICT 2016-0952.
Funding agency:
National Agency of Scientific and Technological Promotion, Ministry of Science, Technology, and Productive Innovation. Main Investigator: Jorge S. López Camelo, M.D. Reintegration grant awarded by the Research Board of Clinical Research and Medical Education Center "Norberto Quirno" (CEMIC) to Julia Ratowiecki.

Conflict of interest:
None.

Received: 11-28-2017
Accepted: 4-10-2018

an indicator of adverse socioeconomic conditions, and LBW. The objective of this study was to assess the impact of economic inequality on the prevalence of LBW by quantifying its differential effect by maternal age, level of maternal education, and level of care.

POPULATION AND METHODS

This was an epidemiological, cross-sectional study. Data from the National Registry of births occurred in Argentina between January 2001 and December 2013 were used, provided by the Department of Health Statistics and Information.¹³ Stillbirths, live births with a birth weight of less than 500 grams, and infants whose weight was not recorded were excluded.

The dependent outcome measure was the annual prevalence of LBW newborn infants. Based on the definition by the World Health Organization, LBW was defined as a birth weight of less than 2500 grams. Independent outcome measures included the analysis of gross domestic product (GDP) as provided by the World Bank,¹⁴ time (in years), and demographic outcome measures categorized as follows:

- Maternal age: level 1 (11 to 19 years old), level 2 (20 to 29 years old), level 3 (30 to 45 years old), and level 4 (46 to 59 years old). Mothers aged 20-29 years old were taken as the reference.
- Level of maternal education: level 1 (incomplete primary education or less), level 2 (complete primary education or incomplete secondary education), and level 3 (complete secondary education, complete or incomplete university education). The intermediate level was taken as the reference: complete primary education or incomplete secondary education.
- Level of care: a birth taking place in a public (level 0) or private hospital (level 1). Births occurring in private hospitals were taken as the reference.

The population prevalence of LBW newborn infants was estimated, and Pearson's correlation was calculated using the corresponding GDP. In addition, the prevalence of LBW was analyzed as stratified by demographic outcome measures. Then, LBW was analyzed based on year, maternal age, level of maternal education, and level of care using a multiple logistic regression model (E1). The corresponding odds ratios were obtained and, using the conversion (E2) proposed by Zocchetti et al.,¹⁵ transformed to prevalence ratios (PRs), which were analyzed to identify the association among outcome measures.

$$P\{Y=1 / A,X,R\}=1 / (1+e^{-Z}) \quad \text{g} \quad Z=\log(y) \quad \text{(E1)}$$

$$\text{Where } Z = a + \sum b_i A_i + \sum c_i X_i + \varepsilon$$

Y = birth weight in grams (dependent outcome measure).

A_i = year of birth.

X_i = demographic outcome measures (independent outcome measure)

b_i, c_i, and d_i = coefficients.

ε = residual error (variability not accounted for by the other model terms).

$$PR = \frac{OR}{(1+p_x[OR-1])} \quad \text{(E2)}$$

p_x is the prevalence of disease (low weight) in the reference group; OR = odds ratio.

In order to measure the crisis' differential impact, the prevalence of LBW newborn infants corresponding to the *crisis* period (from January 2002 to December 2003) and the *non-crisis* period (from January 2001 to December 2001 and from January 2004 to December 2013) were determined and the relative increase (*RI) was estimated within each level of the studied demographic outcome measures.

$$*RI = \frac{LBW \text{ crisis} - LBW \text{ non-crisis}}{LBW \text{ non-crisis}} \times 100$$

Then, a multiple logistic regression (E3) was done with an interaction term on the health indicator comparing both periods (*crisis* and *non-crisis*) so as to identify the heterogeneity of the economic crisis impact:

$$P\{Y=1 / A,X,R\}=1 / (1+e^{-Z}) \quad \text{g} \quad Z=\log(y) \quad \text{(E3)}$$

$$\text{Where } Z = a + \sum b_i X_i + c_i C + e_i C * \sum b_i X_i + \varepsilon$$

Y = birth weight in grams (dependent outcome measure).

X_i = demographic outcome measures (independent outcome measure).

b_i, c_i, d_i, and e_i = coefficients.

C = crisis.

e_iC*∑b_iX_i = interaction term.

ε = residual error (variability not accounted for by the other model terms).

Given that, in this study, we included all births occurred in Argentina in the January 2001-December 2013 period, the interpretation of results was based on the size of the differences observed in the regression models and not on the p values associated with each coefficient because there was no statistical inference.

The Stata 12.0 and Microsoft Excel software programs were used for the study.

RESULTS

Argentine population

This study included 9 001 960 live births occurred in Argentina in the January 2001-December 2013 period.

The highest prevalence values for LBW newborn infants were observed in 2002 and 2003, with an increase of 6% and 7% from 2001, respectively (Table 1). As of 2004, a fall and subsequent recovery was observed.

In addition, in 2002, the GDP fell (64%) and increased progressively in the following years. The Pearson's correlation between GDP and the

frequency of LBW newborn infants was negative ($r = -0.69$), which may also be seen in Figure 1.

Demographic outcome measures

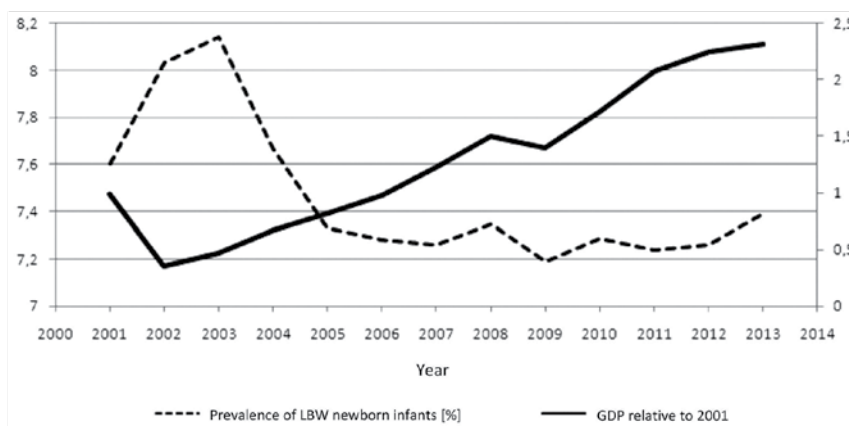
The prevalence of LBW newborn infants in 2002 was observed to increase in all groups. However, differences were noted among them (Table 2). The mothers at the extremes of maternal age (adolescents or older than 30 years) had higher prevalence values of LBW newborn infants than those who were 20-29 years taken as reference. In relation to the level of maternal education, mothers with a higher level had lower prevalence values of LBW newborn infants. The prevalence was higher in public hospitals than in private ones. A higher prevalence of LBW

TABLE 1. Relation between the prevalence of low birth weight newborn infants and gross domestic product during the 2001-2013 period in Argentina

Year	Births	LBW births	% of LBW	GDP [billion USD]	GDP relative to 2001	PR
2001	635 669	48 334	7.60	2.69	1.00	REF
2002	654 578	52 582	8.03	0.98	0.36	1.06
2003	664 938	54 139	8.14	1.28	0.47	1.07
2004	690 317	52 918	7.67	1.82	0.68	1.03
2005	682 763	50 064	7.33	2.21	0.82	0.99
2006	679 831	49 482	7.28	2.63	0.98	0.99
2007	679 037	49 274	7.26	3.29	1.23	0.99
2008	721 703	53 010	7.35	4.04	1.50	1.00
2009	719 695	51 711	7.19	3.77	1.40	0.98
2010	731 591	53 315	7.29	4.62	1.72	0.99
2011	728 064	52 688	7.24	5.58	2.08	0.98
2012	727 489	52 813	7.26	6.04	2.25	0.98
2013	686 285	50 727	7.39	2.24	2.32	1.00
Total	9 001 960	671 057				

LBW: low birth weight; GDP: gross domestic product; PR: prevalence ratio [$p =$ prevalence in 2001 (0.076)]; REF: reference.

FIGURE 1. Relation between the prevalence of low birth weight newborn infants and gross domestic product relative to 2001 in Argentina



LBW: low birth weight; GDP: gross domestic product.

newborn infants was observed in public hospitals and among mothers who were adolescents or older than 30 years old.

Differential impact of the crisis

The relative increase in the *crisis* period compared to the *non-crisis* period was different in each group (Table 3). In relation to maternal age, the higher increase was observed in the group of adolescent mothers, whereas the lower one was noted among those older than 45 years. Among the different levels of maternal education, the lower impact was observed among those with a higher education level, and the increase was higher in public hospitals than in private facilities (Annex).

DISCUSSION

The objective of this study was to analyze the impact of adverse socioeconomic conditions on LBW. The underlying hypothesis is that LBW is susceptible to environmental changes resulting from a lack of nutritional resources and antenatal care, and structural deficiencies in health care services resulting from social inequalities. To this end, we used a direct and objective indicator such as the Argentine crisis of 2001 to avoid using poverty indices that are developed by combining different types of outcome measures, which are then difficult to interpret.

GDP allowed to see the fall of the domestic economy during the economic crisis of 2001. The

TABLE 2. Percent prevalence of low birth weight newborn infants between 2001 and 2013 in Argentina stratified by demographic outcome measures

Year	Maternal age (years old)				Level of maternal education*			Level of care	
	11-19	20-29	30-45	46-59	Level 1	Level 2	Level 3	Public	Private
2001	9.67	7.01	7.59	10.31	7.95	7.92	6.88	7.51	6.46
2002	10.28	7.37	8.03	13.25	8.38	8.35	7.34	7.97	6.69
2003	10.43	7.54	8.08	14.57	8.50	8.46	7.50	8.02	6.95
2004	9.71	6.98	7.79	13.68	7.78	8.00	7.10	7.80	6.68
2005	8.95	6.61	7.61	13.93	7.42	7.60	6.90	7.68	6.71
2006	8.75	6.62	7.53	12.10	7.19	7.55	6.91	7.65	6.71
2007	8.61	6.57	7.60	14.95	7.55	7.51	6.86	7.67	6.66
2008	8.66	6.66	7.66	15.73	7.73	7.54	7.01	7.79	6.76
2009	8.53	6.46	7.53	14.18	7.51	7.38	6.85	7.57	6.67
2010	8.45	6.51	7.75	17.30	7.56	7.47	7.02	7.59	6.89
2011	8.35	6.46	7.72	18.93	7.36	7.35	7.05	7.50	6.90
2012	8.41	6.48	7.72	17.52	7.41	7.40	7.04	7.56	6.84
2013	8.62	6.63	7.79	20.16	7.58	7.55	7.18	7.67	7.00
Total	8.98	6.76	7.72	15.24	7.72	7.70	7.04	7.68	6.78

* Classification of maternal education. Level 1: incomplete primary education or less. Level 2: complete primary education or incomplete secondary education. Level 3: complete secondary education, complete or incomplete university education.

TABLE 3. Percentage of low birth weight newborn infants during the crisis and the non-crisis periods, stratified by demographic outcome measures

	Percentage of LBW newborns		
	Non-crisis	Crisis	RI
Maternal age (years old)			
11-19	8.77	10.35	18.01
20-29	6.64	7.46	12.35
30-45	7.67	8.05	4.95
46-59	15.47	13.92	-10.01
Level of maternal education			
Incomplete primary education or less	7.56	8.44	11.64
Complete primary education or incomplete secondary education	7.57	8.40	10.96
Complete secondary education, complete or incomplete university education	6.99	7.42	6.15
Level of care			
Public	7.64	7.99	4.58
Private	6.77	6.81	0.59

LBW: low birth weight; RI: relative increase.

analysis of the correlation between the economic and health indicators showed an evident association between the reduction of the GDP and the increase of the prevalence of LBW newborn infants. This means that there was a reverse association between the economic situation and health, thus supporting the hypothesis that LBW was related to socioeconomic determinants. This confirms that the *crisis* period (January 2002-December 2003) is an indicator of adverse socioeconomic conditions to define exposure.

An increase in the prevalence of LBW newborn infants was observed after the economic crisis of 2001, as in Spain, where the prevalence of LBW newborn infants increased more markedly during the worst part of their economic crisis (2009-2010).¹⁶ The same has been seen in Iceland,¹⁷ where the prevalence of LBW newborn infants increased after the economic collapse of 2008 compared to the preceding period.

To understand the impact of the economic crisis on LBW, it should be noted that if approximately 690 000 children are born each year across the country, a 0.5% increase in the prevalence of LBW newborn infants –as seen in the Argentine population between 2001 and 2002–corresponds to approximately 3450 newborn infants whose LBW could have been prevented.

As per our analysis, the impact of the economic crisis on LBW was heterogeneous among the different maternal age groups and levels of maternal care.

During the studied period, the prevalence of LBW newborn infants was higher in public hospitals than in private facilities. During the crisis period, the number of LBW newborn infants increased in both levels of care, although the impact was higher in public hospitals. These outcomes are consistent with other studies that associated an unfavorable socioeconomic level with health problems.⁷ Other studies have demonstrated the relation between LBW and tobacco and alcohol use and the number of antenatal care visits.¹⁸ Whereas this study did not include these outcome measures separately, in Argentina, the population who attends public hospitals in general has a lower income and less favorable life conditions, a higher tobacco and alcohol use, and fewer antenatal care visits.¹⁹

Mothers at the extremes of maternal age had a higher prevalence of LBW newborn infants. On the one side, mothers who were 11-19 years old evidenced a bigger impact by the economic crisis. This is consistent with other studies^{2,20}

that associated LBW with biological immaturity, such as restricted growth and development, and psychosocial factors, such as unintended pregnancy, single mother, family neglect, and few or no antenatal care visits.²¹ On the other reproductive age extreme, a higher prevalence of LBW was observed among mothers older than 30 years, although the impact of the economic crisis on this group was lower. The association with elderly mothers is consistent with a study that determined a higher risk for mothers older than 40 years compared to those aged 20-34 years, and associated it with pregestational and gestational conditions.²²

It is worth noting that many studies have reported an association between a low level of education and a higher LBW incidence.^{4,23} The same tendency has been observed based on our outcomes, although the magnitude of the differences were small.

Strengths

On the one side, this study included all births occurred in Argentina between January 2001 and December 2013, and more than nine million births were analyzed. On the other side, we used the economic crisis as a response indicator so it was not necessary to create other indices. The tool selected for this study is highly sensitive and poorly specific because, although it does not indicate which poverty outcome measures affect LBW to a greater extent, it includes all those that cannot be measured when developing a socioeconomic index.

Study limitations

Births occurring before 2001 were not provided, although it would have been beneficial to have such information in order to understand the variation in the prevalence of LBW newborn infants prior to the economic crisis.

Another limitation is the bias known as “ecological fallacy” to which all cross-sectional/ecological studies are exposed, i.e., individual inferences based on group pooled data.

Gestational age was not registered in more than 15% of births, so it was not possible to analyze the difference between preterm and term newborn infants. Considering that it has been demonstrated that more than half of LBW newborn infants are born prematurely,²⁴ it would have been interesting to include this outcome measure in our analysis. However, the objective of this study was to analyze the association

between unfavorable conditions and health, using LBW as an indicator without delving into the biological mechanisms involved.

This study did not include information on marital status, employment, number of antenatal care visits, birth interval, maternal disease or maternal tobacco or alcohol use separately. In the bibliography, these outcome measures are related to intrauterine growth disorders that may result in a LBW newborn infant.^{25,26}

CONCLUSION

The effect of the socioeconomic inequality resulting from the 2001 crisis on the prevalence of LBW was heterogeneous across the Argentine population and had a bigger impact on public hospitals and mothers at the extremes of maternal age. ■

REFERENCES

1. Coronel Carvajal C, Rivera Lecha I. Peso bajo al nacer. Su influencia en la salud durante el primer año de vida. *Rev Mex Pediatr* 2003; 70(6):283-7.
2. Ticona Rendón M, Huanco Apaza D, Ticona Vildoso M. Incidencia y factores de riesgo de bajo peso al nacer en población atendida en hospitales del Ministerio de Salud del Perú. *Ginecol Obstet Mex* 2012; 80(2):51-60.
3. Eriksson M, Räikkönen K, Eriksson JG. Early life stress and later health outcomes-findings from the Helsinki Birth Cohort Study. *Am J Hum Biol* 2014; 26(2):111-6.
4. Van den Berg G, van Eijsden M, Vrijkotte TG, et al. Educational inequalities in Perinatal outcomes: The mediating effect of smoking and environmental tobacco exposure. *PLoS One* 2012; 7(5):e37002.
5. DuanisNeyra N, Neyra Álvarez A. Factores que inciden en el bajo peso al nacer. *Rev Cubana Enfermer* 1998; 14(3):150-4.
6. Peraza Roque GJ, Pérez Delgado S, Figueroa Barreto Z. Factores asociados al bajo peso al nacer. *Rev Cubana Med Gen Integr* 2001; 17(5):490-6.
7. Abu-Saad K, Fraser D. Maternal Nutrition and Birth Outcomes. *Epidemiol Rev* 2010; 32:5-25.
8. Nyarko KA, López-Camelo J, Castilla EE, et al. Explaining Racial Disparities in Infant Health in Brazil. *Am J Public Health* 2013; 103(9):1675-84.
9. Bozzoli C, Quintana-Domeque C. The weight of the crisis: evidence from newborns in Argentina. *Rev Econ Stat* 2014; 96(3):550-62.
10. Wehby GL, Giménez LG, López-Camelo JS. The Impact of Unemployment Cycles on Child and Maternal Health in Argentina. *Int J Public Health* 2016; 62(2):197-207.
11. Susmel N. Argentina: Pobreza, desigualdad de oportunidades y políticas públicas. In: Albornoz V, Durán C, Faus-to M, et al. *Pobreza, desigualdad de oportunidades y políticas públicas*. Rio de Janeiro, Brasil: Konrad-Adenauer-Stiftung; 2012. Págs.8-19.
12. Zeballos JL. Argentina: efectos sociosanitarios de la crisis, 2001-2003. Buenos Aires: Organización Panamericana de la Salud; 2003.
13. Argentina. Dirección de Estadística e Información en Salud (DEIS). Ministerio de Salud. [Accessed on: April 26th, 2018]. Available at: <http://deis.msal.gov.ar>.
14. Banco Mundial. Banco de datos. [Accessed on: April 26th, 2018]. Available at <http://databank.bancomundial.org/data/home.aspx>.
15. Zocchetti C, Consonni D, Bertazzi PA. Relationship between prevalence rate ratios and odds ratios in cross-sectional studies. *Int J Epidemiol* 1997; 26(1):220-3.
16. Varea C, Terán JM, Bernis C, et al. Is the economic crisis affecting birth outcome in Spain? Evaluation of temporal trend in underweight at birth (2003-2012). *Ann Hum Biol* 2016; 43(2):169-82.
17. Eiriksdóttir VH, Ásgeirsdóttir TL, Bjarnadóttir RI, et al. Low birth weight, small for gestational age and preterm births before and after the economic collapse in Iceland: A population based cohort study. *PLoS One* 2013; 8(12):e80499.
18. Wehby G, Murray J, Castilla E, et al. Quantile effects of prenatal care utilization on birth weight in Argentina. *Health Econ* 2009; 18(11):1307-21.
19. Belizán J, Farnot U, Carroli G, et al. Antenatal care in developing countries. *Paediatr Perinat Epidemiol* 1998; 12(Suppl 2):1-3.
20. Pawluk MS. Condición socioeconómica adversa y defectos del desarrollo. Impacto de factores involucrados en la pobreza. [Dissertation]. Buenos Aires: UBA-FME; 2013.
21. Álvarez Fumero R, Urra Cobas LR, Aliño Santiago M. Repercusión de los Factores de Riesgo en el Bajo Peso al Nacer. *RESUMED* 2001; 14(3):117-24.
22. Donoso SE, Villarroel del P L. Edad materna avanzada y riesgo reproductivo. *Rev Méd Chile* 2003; 131(1):55-9.
23. Mortensen LH, Diderichsen F, Arntzen A, et al. Social inequality in fetal growth: a comparative study of Denmark, Finland, Norway and Sweden in the period 1981-2000. *J Epidemiol Community Health* 2008; 62(4):325-31.
24. Placek P. Maternal and infant health factors associated with low infant birth weight: Findings from the 1972 National Natality Survey. In Reed DM, Stanley FJ (eds.). *The epidemiology of prematurity*. Baltimore: Urban and Schwarzenberg; 1977. Pages 197-212.
25. Bortman M. Factores de riesgo de bajo peso al nacer. *Rev Panam Salud Pública* 1998; 3(5):314-21.
26. Leal Soliguera M. Comportamiento del bajo peso al nacer y repercusión sobre la mortalidad infantil en el quinquenio 2001-2005. *Rev Cubana Obstet Ginecol* 2009; 35(4):99-107.

ANNEX

TABLE S1. Logistic regression of the prevalence of low birth weight considering the levels of demographic outcome measures and comparing the crisis and non-crisis periods

Outcome measure	PR
CRISIS (2002-2003)	1.05
11-19-year-old mothers	1.30
CRISIS* 11-19-year-old mothers	1.07
20-29-year-old mothers	REF
CRISIS* 20-29-year-old mothers	REF
30-45-year-old mothers	1.17
CRISIS* 30-45-year-old mothers	0.97
46-59-year-old mothers	2.42
CRISIS* 46-59-year-old mothers	0.86
Mothers with incomplete primary education or less	0.98
CRISIS* Mothers with incomplete primary education or less	0.99
Mothers with complete primary education or incomplete secondary education	REF
CRISIS* Mothers with complete primary education or incomplete secondary education	REF
Mothers with complete secondary education, complete or incomplete university education.	0.99
CRISIS* Mothers with complete secondary education, complete or incomplete university education.	1.01
Private hospitals	REF
CRISIS* Private hospitals	REF
Public hospitals	1.14
CRISIS* Public hospitals	1.03
Constant	0.08

PR: prevalence ratio [p = prevalence in the *non-crisis* period (0.073)]; REF: reference.

A total of 7 809 741 cases were observed. Pseudo R2 = 0.0030 and log-likelihood = -2029706.7.

Prevalencia de hipertensión enmascarada en niños con factores de riesgo para el desarrollo de hipertensión arterial

Prevalence of masked hypertension among children with risk factors for arterial hypertension

Dra. Adriana Iturzaeta^a, Dr. Luis Pompozzi^b, Lic. Claudia Casas Rey^b,
Dra. Irma Passarelli^a y Dr. Fernando Torres^a

RESUMEN

Introducción. La hipertensión enmascarada (HE) en niños se define por registros de presión arterial normal en la consulta y elevados fuera de ella. El monitoreo ambulatorio de presión arterial de 24 horas (MAPA) permite su diagnóstico. Existe poca información sobre su prevalencia en nuestra población.

Objetivo. Estimar la prevalencia de HE en niños con factores de riesgo para el desarrollo de hipertensión arterial.

Material y método. Estudio prospectivo, observacional, corte transversal. Se incluyeron en forma consecutiva pacientes asistidos en el Hospital General de Niños P. de Elizalde entre 1/7/2015 y 1/12/2016, de 5 a 11 años, con presión arterial normal y, al menos, un factor de riesgo para hipertensión arterial. Se realizó MAPA durante 24 horas (SpaceLabs 90207/90217). Muestra estimada: 110 pacientes. Se contó con las aprobaciones pertinentes.

Resultados. Se incluyeron 110 pacientes, edad de $8,7 \pm 1,8$ años, 60 mujeres. Tiempo de MAPA: $23,18 \pm 1,8$ horas. Tenían antecedentes neonatales 23 pacientes; todos tenían, al menos, un antecedente personal (los más frecuentes, ingesta aumentada de sal y obesidad); 101 tenían, al menos, un antecedente familiar. El MAPA permitió identificar a 10 pacientes con HE (9,1%; IC 95%: 5,1-15,9); 7 con hipertensión nocturna aislada (6,4%; IC 95%: 3,1-23,5) y 28, prehipertensión (25,4%; IC 95%: 18,2-34,3). Los 10 pacientes con HE fueron 7 varones, 9 obesos y con, al menos, un antecedente familiar.

Conclusión. La prevalencia de HE en niños con factores de riesgo de desarrollar hipertensión arterial fue cercana al 10%.

Palabras clave: hipertensión enmascarada, hipertensión, factores de riesgo, pediatría.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.328>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.328>

Cómo citar: Iturzaeta A, Pompozzi L, Casas Rey C, et al. Prevalencia de hipertensión enmascarada en niños con factores de riesgo para el desarrollo de hipertensión arterial. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):328-332.

- Hospital General de Niños Pedro de Elizalde.
- Hospital de Niños "Dr. J. P. Garrahan". Ciudad de Buenos Aires.

Correspondencia:
Dra. Adriana Iturzaeta:
aiturzaeta@yahoo.com.ar

Financiamiento:
Este estudio fue realizado con el apoyo del programa de becas "Ramón Carrillo-Arturo Oñativía", categoría individual, otorgada por el Ministerio de Salud de la Nación, a través de la Comisión Nacional Salud Investiga. Año 2015. Registro Nacional de Investigaciones en Salud (RENIS)-Sistema Integrado de Información Sanitaria Argentino (SISA): código de investigación en salud asignado IS000927.

Conflicto de intereses:
Ninguno que declarar.

Recibido: 28-11-2017
Aceptado: 16-4-2018

INTRODUCCIÓN

La hipertensión enmascarada (HE) en pediatría se define por registros de presión arterial (PA) normal en el consultorio y elevados fuera de él.¹ Una manera de diagnosticar la HE es mediante el monitoreo ambulatorio de PA de 24 horas (MAPA), que, además, puede informar sobre otros patrones de PA (hipertensión nocturna, prehipertensión).²

La HE constituye un factor de riesgo conocido y modificable para desarrollar hipertensión arterial (HTA), con la posibilidad de daño de órgano blanco.^{3,4} Las guías para el diagnóstico de HE en niños contemplan el control de PA con el método auscultatorio, oscilométrico en forma repetida y MAPA de 24 horas.¹⁻³

En nuestro medio, el estudio de niños con factores de riesgo para HTA no incluye el MAPA en forma sistemática. Existe evidencia para recomendar MAPA en los siguientes casos: niños con cifras aisladas de PA en el consultorio mayores al percentil 95; diagnóstico de "HTA de guardapolvo blanco"; valoración del patrón de PA y riesgo de daño orgánico; evaluación de la efectividad de la terapia farmacológica; pacientes con enfermedades crónicas asociadas a HTA (sobrepeso/obesidad, dislipidemias, diabetes, enfermedad renal crónica, trasplantados, neurofibromatosis tipo I, síndrome de Turner y coartación de aorta) y para el diagnóstico de HE.⁵⁻⁸

Según Lurbe y col., la HE no parece ser un fenómeno inocente, y aún es

necesario conocer mejor su significado clínico e identificar correctamente a los niños con mayor riesgo e implementar medidas saludables y/o farmacológicas para su manejo.^{2,4}

No se cuenta con datos suficientes sobre la prevalencia de HE en nuestra población.

OBJETIVO

Estimar la prevalencia de HE, hipertensión nocturna aislada (HNA) y prehipertensión en niños que tenían, al menos, un factor de riesgo para el desarrollo de HTA.

MATERIAL Y MÉTODO

Diseño

Estudio observacional, de corte transversal con captura prospectiva de los datos.

Población

Criterios de inclusión

Se incluyeron en forma consecutiva niños de 5 a 11 años de edad, con PA normal en el consultorio y con, al menos, un factor de riesgo para el desarrollo de HTA, que asistieron a la consulta en forma ambulatoria al Hospital General de Niños P. de Elizalde (HGNPE) para el control de salud, derivados al consultorio de HTA, entre el 1 de julio de 2015 y el 1 de diciembre de 2016, que dieron el consentimiento y/o asentimiento informado.

Criterios de exclusión

Pacientes con tratamiento antihipertensivo y enfermedad renal aguda.

Factores de riesgo

Los factores de riesgo para el desarrollo de HTA considerados para la inclusión se dividieron en tres categorías (antecedentes neonatales, personales y familiares).

Antecedentes neonatales

- Prematuridad: menos de 37 semanas de edad gestacional (cualquier método de evaluación de la edad gestacional).
- Bajo peso al nacer (BPN): peso de nacimiento < 2500 gramos (nacidos de término).
- Antecedente de retardo de crecimiento intrauterino (RCIU): peso o talla de nacimiento ≤ 2 desvíos estándar (según la edad gestacional).
- Antecedente de canalización umbilical.

Antecedentes personales

- PA (PA sistólica y/o PA diastólica) aislada elevada: mayor del percentil 95 (para la talla, la edad y el sexo).

- Sobrepeso/obesidad: según el índice de masa corporal (IMC).⁹
- Dislipidemia: colesterol-lipoproteínas de baja densidad (*low density lipoprotein*; LDL, por sus siglas en inglés) y/o triglicéridos > percentil 95.⁹
- Diabetes tipo I y tipo II.¹⁰
- Ingesta crónica de esteroides: más de 1 mg/kg/día de prednisona al día (o sus equivalentes) durante más de 3 semanas.¹¹
- Infecciones urinarias repetidas: 2 o más episodios en un año.
- Nefropatía o enfermedad urológica: según el diagnóstico nefrológico.
- Microalbuminuria: > 30 mg/24 h en orina de 24 h o cociente albuminuria/creatininuria > 30 mg/g o μ /mg.¹²
- Antecedente de síndrome urémico hemolítico.
- Síntomas sugestivos de HTA secundaria: poliuria, nicturia y/o hematuria.
- Neurofibromatosis tipo I: confirmada por dermatología o genética.
- Síndrome de Turner, síndrome de Williams.
- Coartación de aorta.
- Ingesta aumentada de sal (CINa): definida por el agregado de sal a las comidas, según la referencia del cuidador o del niño.
- Tabaquismo pasivo: alguno de los miembros de la familia fumaba en el hogar.
- Sedentarismo: menos de 30 minutos diarios de ejercicio regular y menos de 3 días a la semana.¹³
- Traumatismos renales, abdominales y/o craneanos: documentado por la historia clínica.
- Alteraciones del sueño: ronquido nocturno y/o apnea del sueño.²
- Convulsiones de etiología desconocida: documentadas por la historia clínica.

Antecedentes familiares de riesgo cardiovascular (en padres, abuelos o hermanos)

- HTA familiar.
- Eventos cardiovasculares prematuros (< 55 años en los varones, < 65 años en las mujeres).
- Diabetes *mellitus* familiar tipo I y tipo II.
- Poliquistosis familiar.

Procedimiento

Obtenido el consentimiento y/o asentimiento informado, se realizaron 3 mediciones de PA por el método auscultatorio en los cuatro miembros (tensiómetro modelo Riester) y 3 mediciones por el método oscilométrico en los miembros superiores (Omron modelo 7200).¹⁴ Se excluyó la primera lectura y se promediaron las dos

últimas por el efecto de regresión a la media y acomodación del paciente. Todos los instrumentos fueron calibrados regularmente.¹⁴

Confirmada la PA normal por ambos métodos, se programó el MAPA de 24 horas con el método oscilométrico (modelos SpaceLabs 90207 y 90217, Redmond, Wash). Se eligió un día de escolarización o actividad normal. Se programaron lecturas cada 20 minutos en vigilia y cada 30 minutos durante el sueño.¹⁵

Variables

De resultado principal

- HE: se definió HE cuando el promedio de registros de PA sistólica (PAS) y/o PA diastólica (PAD) ambulatoria diurno o en actividad fue mayor del percentil 95 según el sexo y la talla. Variable categórica.^{2,16}

Otros resultados posibles del MAPA que no se ajustaban al diagnóstico de HE² fueron tomados como variables de resultado secundarias:

- HNA: definida como el promedio de registros de PA ambulatoria diurno o en actividad menores del percentil 95 y los registros nocturnos mayores del percentil 95 según el sexo y la talla. Variable categórica.^{2,17}
- Prehipertensión: definida como el promedio de PAS y/o PAD ambulatoria menor del percentil 95, con más del 25% de lecturas de PA mayores del percentil 95 para cada período. Variable categórica.^{2,17}

De control

- Edad decimal: en años al momento de la realización del MAPA.
- Frecuencia cardíaca: tomada por palpación de pulso radial durante un minuto.

Análisis estadístico

Para la descripción, se utilizaron números absolutos y proporciones con su intervalo de confianza del 95% (IC 95%) para variables categóricas y media o mediana con desvío estándar o cuartiles para variables continuas según se ajustaran o no a la normalidad (Kolmogorov-Smirnov).

Para el cálculo de prevalencia de HE, se utilizó el número absoluto de pacientes con HE (numerador) sobre el número total de pacientes pesquisados (denominador) multiplicado por cien para expresarla como porcentaje. El mismo procedimiento se realizó para la prevalencia de HNA y prehipertensión. Todos los valores con su IC 95%.

Para el análisis, se utilizó SPSS 10.0.

Tamaño muestral

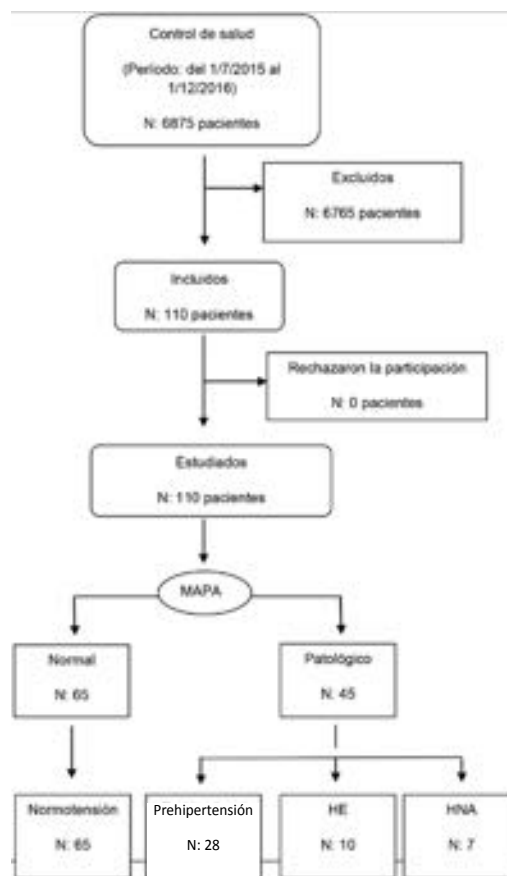
El tamaño de muestra se calculó para estimar una prevalencia esperada de HE del $10 \pm 5\%$ con un IC 95%, sumado a un 10% por fallas en la adherencia, por lo que se debió alcanzar una muestra de 110 pacientes (StatCalc, EpiInfo 7 CDC).

Consideraciones éticas

El estudio se guio por normas de buenas prácticas clínicas (normativas de los establecimientos dependientes del Gobierno de la Ciudad Autónoma de Buenos Aires). Se contó con la aprobación del Comité de Docencia e Investigación y del Comité de Ética en Investigación del HGNPE.¹⁸ Se garantizó la confidencialidad de los datos y se obtuvo consentimiento informado y asentimiento en todos los casos. Los pacientes con alteraciones en el MAPA quedaron conectados al consultorio de HTA para comenzar el tratamiento.

RESULTADOS

Esquema general del estudio



MAPA: monitoreo ambulatorio de presión arterial de 24 h.
HE: hipertensión enmascarada.
HNA: hipertensión nocturna aislada.

Sobre 110 pacientes ingresados al estudio, todos evaluados y sin ningún dato perdido, el promedio de edad fue $8,74 \pm 1,8$ años, 60 mujeres (véase *Anexo, Tabla 1* en formato electrónico).

Los antecedentes neonatales, factores de riesgo personales y antecedentes familiares se resumen en la *Tabla 1 Anexo*. Tenían antecedentes neonatales 23 pacientes; todos tenían, al menos, un antecedente personal y 101 presentaban, al menos, un antecedente familiar. Sobre la sumatoria de los 3 tipos de antecedentes (neonatales, personales y familiares), 65 pacientes tuvieron entre 7 y 10 antecedentes en total y 12 pacientes tuvieron 11 o más antecedentes.

El MAPA realizado a los 110 participantes permitió identificar a 10 pacientes con HE, con una prevalencia del 9,1% (IC 95%: 5,1-15,98%). Además, 7 pacientes mostraron HNA (6,4%; IC 95%: 3,1-23,5%); 28 pacientes fueron diagnosticados como prehipertensión (25,4%; IC 95%: 18,2-34,3%). Los tiempos de registro del MAPA, el número de observaciones diarias y los resultados se muestran en la *Tabla 2 Anexo* (véase en formato electrónico).

El análisis de los pacientes con HE (n= 10) mostró a 7 varones, 9 con obesidad o sobrepeso, con, al menos, un antecedente familiar. Los registros promedio de PAS, PAD y presión arterial media (PAM) de 24 horas diurna y nocturna (MAPA) en los pacientes con HE fueron superiores respecto de los pacientes con MAPA normal.

Hubo en total 45 pacientes con MAPA patológico (HE= 10; HNA= 7 y prehipertensión= 28); el resto (n= 65) se consideraron MAPA normal. Los controles de PA en el consultorio por los métodos auscultatorio y oscilométrico y los registros promedio de PAS, PAD y PAM de 24 horas diurna y nocturna (MAPA) en los pacientes con MAPA patológico fueron superiores respecto de los pacientes con MAPA normal (*Tabla 3 Anexo* véase en formato electrónico).

DISCUSIÓN

En el presente trabajo, se observó una prevalencia de HE del 9,1%, de HNA del 6,4% y de prehipertensión del 25,4%.

La prevalencia de HE observada mostró valores comparables con lo reportado a nivel mundial, que estimaban de un 10% a un 15% de HE en pacientes pediátricos.^{3,4} En 2004, Matsuoka y Awazu demostraron una prevalencia de HE en niños del 11%; sin embargo, ese trabajo incluyó a pacientes de 6 a 25 años.¹⁹ Nuestra muestra incluyó a pacientes de menor edad (de

5 a 11 años), lo que podría explicar la menor prevalencia observada, que se aproximó más a la reportada en otros estudios realizados en niños y adolescentes con una tasa del 7,6% al 9,4%.⁴ Esto también se apoya en otras publicaciones que observaron menor prevalencia de HE en niños de menor edad.^{20,21}

Se consideró el promedio de registros de PAS y/o PAD ambulatoria diurna o en actividad mayor del percentil 95 para el sexo y la talla como punto de corte para considerar HE, según las recomendaciones de valores de referencia estándar de MAPA en pediatría del grupo de trabajo alemán basado en un estudio multicéntrico.^{17,21} Esta medida exigente para considerar HE también pudo haber influido en nuestra prevalencia de HE.

Sobre los factores de riesgo para el desarrollo de HTA observados, los más frecuentes fueron la ingesta aumentada de sal y la obesidad. La bibliografía consultada mostró como factores de riesgo para HE el sexo masculino y la obesidad.²² No se pudo comprobar la asociación con el sexo masculino. Aunque la mayoría de los pacientes con HE tenían un IMC aumentado, dado el bajo número de observaciones, no se pudieron comprobar tales asociaciones.

Lurbe y cols., demostraron valores de PAS y PAD en el consultorio significativamente mayores en pacientes con HE.⁴ En nuestro estudio, los valores promedio de PAS y PAD medidas en el consultorio no mostraron diferencias significativas en pacientes con HE y sin ella. Los registros ambulatorios por MAPA fueron significativamente mayores en el grupo de HE, lo que demostró la utilidad del MAPA para desenmascarar la HTA en niños con factores de riesgo de desarrollar HTA.⁴

Dentro de los resultados secundarios del estudio, se observan pacientes con HNA; este hallazgo tiene valor pronóstico.²³ Para algunos, tiene la misma importancia que la HTA diurna y debería ser considerada como HE, dado que se asocia a microalbuminuria y ha demostrado mayor progresión a la insuficiencia renal crónica.¹⁵ En cuanto a la prehipertensión observada, se considera que aún se requieren más estudios para evaluar su valor predictivo para daño de órgano blanco.^{15,17}

El presente trabajo tiene potenciales debilidades que deben ser consideradas. No fue diseñado para establecer factores de riesgo, sino para estimar la prevalencia de HE. Por lo tanto, el número de pacientes con HE no permitió realizar

un análisis de inferencia que posibilitara observar resultados estadísticamente significativos (error de tipo beta).

El diseño prospectivo permitió un correcto control de la variable en estudio, lo que evitó sesgos potenciales. Además, se adoptó un criterio riguroso para el ingreso de los pacientes al estudio, que incluyó la toma de PA en los cuatro miembros, por dos métodos diferentes y en tres tomas sucesivas. Por último, la aplicación del MAPA mostró valores aceptables en cuanto a horas de utilización y número de lecturas, lo que indicó buena coherencia de los resultados.

CONCLUSIÓN

En la muestra estudiada, la prevalencia de HE en niños que tenían, al menos, un factor de riesgo para el desarrollo de HTA fue ligeramente menor del 10%.

Además, se encontró una prevalencia del 6,4% de HNA y del 25,4% de prehipertensión.

Se necesitan más estudios al respecto para confirmar estos resultados. ■

REFERENCIAS

1. Flynn JT, Daniels SR, Hayman LL, et al. Update: Ambulatory Blood Pressure Monitoring in Children and Adolescents: A Scientific Statement from the American Heart Association. *Hypertension* 2014; 63(5):1116-35.
2. Lurbe E, Agabiti-Rosei E, Cruickshank JK, et al. 2016 European Society of Hypertension guidelines for the management of high blood pressure in children and adolescents. *J Hypertens* 2016; 34(10):1887-920.
3. Lurbe E, Cifkova R, Cruickshank JK, et al. Management of high blood pressure in children and adolescents: recommendations of the European Society of Hypertension. *J Hypertens* 2009; 27(9):1719-42.
4. Lurbe E, Torro I, Alvarez V, et al. Prevalence, persistence and clinical significance of Masked Hypertension in youth. *Hypertension* 2005; 45(4):493-8.
5. Lurbe E, Torro ML, Alvarez J. Ambulatory blood pressure monitoring in children and adolescents: coming of age? *Curr Hypertens Rep* 2013; 15(3):143-9.
6. O'Brien E. Unmasking Hypertension. *Hypertension* 2005; 45(4):481-2.
7. Derogibus M, Haag D, Ferrario C, et al. Consenso sobre Factores de Riesgo de Enfermedad Cardiovascular en Pediatría. Hipertensión Arterial en el Niño y el Adolescente. *Arch Argent Pediatr* 2005; 103(4):348-57.
8. Pickering TG, Eguchi K, Kario K. Masked Hypertension: A Review. *Hypertens Res* 2007; 30(6):479-88.
9. Comité Nacional de Nutrición. Guías de práctica clínica para la prevención, el diagnóstico y el tratamiento de la obesidad. *Arch Argent Pediatr* 2011; 109(3):256-66.
10. American Diabetes association. Standards of medical care in diabetes 2016. *Diabetes Care* 2016; 39(Suppl 1):S54-5.
11. Galofré JC. Manejo de los corticoides en la práctica clínica. *Rev Med Univ Navarra* 2009; 53(1):9-18.
12. Remuzzi G, Schieppati A, Ruggenenti P. Clinical practice. Nephropathy in patients with type 2 diabetes. *N Engl J Med* 2002; 346(15):1145-51.
13. Comité Nacional de Medicina del Deporte Infante-Juvenil, Subcomisión de Epidemiología. Consenso sobre factores de riesgo de enfermedad cardiovascular en pediatría. Sedentarismo. *Arch Argent Pediatr* 2005; 103(5):450-75.
14. Grupo de Trabajo del Programa de Educación Nacional de presión arterial alta en la presión arterial alta en niños y adolescentes de los EE. UU. Cuarto informe sobre el Diagnóstico, Evaluación y Tratamiento de la Hipertensión Arterial en Niños y Adolescentes. *Pediatrics* 2004; 114(2 Suppl 4th Report):555-76.
15. Barochiner J, Bendersky M, Cuffaro P, et al. Toma de posición, medición de la presión arterial fuera del consultorio: MAPA – MDPA. Sociedad Argentina de Hipertensión Arterial. 2014. [Acceso: 27 de abril de 2018]. Disponible en: www.saha.org.ar/pdf/formacion/TomaDePosicion-Libro2015.pdf.
16. Soergel M, Kirschstein M, Busch C, et al. Oscillometric twenty-four hour ambulatory blood pressure values in healthy children and adolescents: A multicenter trial including 1141 subjects. *J Pediatr* 1997; 130(2):178-84.
17. Wühl E, Witte K, Soergel M, et al. Distribution of 24-h ambulatory blood pressure in children: normalized reference values and role of body dimensions. *J Hypertens* 2002; 20(10):1995-2007.
18. Argentina. Ministerio de Salud. Guía de las Buenas Prácticas de Investigación Clínica en Seres Humanos. Resolución 1490/2007. [Acceso: 10 de diciembre de 2014]. Disponible en: <http://www.fbioyf.unr.edu.ar/evirtual/mod/resource/view.php?id=1129&redirect=1>.
19. Matsuoka S, Awazu M. Masked hypertension in children and young adults. *Pediatr Nephrol* 2004; 19(6):651-4.
20. Lurbe E, Sorof JM, Daniels SR. Clinical and research aspects of ambulatory blood pressure monitoring in children. *J Pediatr* 2004; 144(1):7-16.
21. Urbina E, Alpert B, Flynn J, et al. Ambulatory blood pressure monitoring in children and adolescents: recommendations for standard assessment: a scientific statement from the American Heart Association Atherosclerosis, Hypertension, and Obesity in Youth Committee of the council on cardiovascular disease in the young and the council for high blood pressure research. *Hypertension* 2008; 52(3):433-51.
22. Álvarez Pitti J. Significado de la hipertensión arterial enmascarada en niños y adolescentes. 2014. [Tesis doctoral]. Valencia: Universidad de Valencia; 2014. [Acceso: 24 de noviembre de 2016]. Disponible en: <https://core.ac.uk/download/pdf/71027021.pdf>.
23. Fan HQ, Li Y, Thijs L, et al. Prognostic value of isolated nocturnal hypertension non ambulatory measurement in 8711 individuals from 10 populations. *J Hypertens* 2010; 28(10):2036-45.

Anexo

Tabla 1: Factores de riesgo de hipertensión arterial según el sexo

	Varones	Mujeres	Total
Cantidad de sujetos	50	60	110
Edad (años)*	8,7 ± 1,7	8,7 ± 1,8	8,74 ± 1,8
Puntaje Z de peso*	2,9 ± 2,1	5,4 ± 2,6	2,49 ± 2,5
Puntaje Z de talla*	2,7 ± 12,0	0,9 ± 1,0	1 ± 0,9
IMC (peso/talla ²)*	23,7 ± 4,6	21,7 ± 6,2	22,6 ± 5,5
Frecuencia cardíaca (rpm)*	90,4 ± 9,7	94,6 ± 10,2	92,7 ± 10,2
Antecedentes neonatales (n: 23)			
Prematuridad	8	11	19
Peso menor de 2500 g	6	10	16
Peso de nacimiento (g)*	3241 ± 0,524	3082 ± 0,488	3154,68 ± 0,863
RCIU	3	5	8
Antecedentes personales (n: 110)			
Ingesta aumentada de sal	38	54	92
Obesidad	42	39	81
Tabaquismo en el hogar	27	28	55
Corticoides crónicos	26	29	55
Poliuria/nicturia/hematuria	17	22	39
Sedentarismo	20	16	36
Dislipidemia	15	20	35
Alteraciones del sueño	20	19	39
PAS y/o PAD aislada > percentil 95	14	19	33
Infecciones urinarias	11	26	37
Nefropatías	5	6	11
Microalbuminuria	2	1	3
Síndrome de Turner	0	2	2
Diabetes tipo I y tipo II	1	1	2
Convulsiones de causa desconocida	4	2	6
Traumatismos	1	2	3
Coartación de aorta corregida	2	0	2
SUH	0	0	0
Antecedentes familiares (n: 101)			
Antecedentes de HTA	44	53	97
Antecedentes de diabetes	31	38	69
Antecedentes de ACV	18	20	38
Poliquistosis familiar	7	12	19

* Promedio ± desvío estándar.

IMC: índice de masa corporal.

RCIU: retraso del crecimiento intrauterino.

SUH: síndrome urémico hemolítico.

PAS: presión arterial sistólica.

PAD: presión arterial diastólica.

ACV: accidente cerebrovascular.

Tabla 2: Registros del monitoreo ambulatorio de presión arterial de 24 horas en niños estudiados con factores de riesgo de hipertensión arterial

MAPA realizados.		N = 110	
Especificaciones:*			
Horas de registro del MAPA	23,18 ± 1,8		
Número de lecturas totales	53,3 ± 9,5		
Porcentaje de lecturas totales	83,7 ± 10,4%		
Número de lecturas diurnas	36,4 ± 8,6		
Numero de lecturas nocturnas	16,9 ± 5,1		
Resultados:*		PA sistólica (mmHg)	PA diastólica (mmHg)
Promedio PA 24 h (mmHg)	109,3 ± 8,7		65,7 ± 5,8
Promedio de PA diurna (mmHg)	113,2 ± 8,6		69,4 ± 6,1
Promedio de PA nocturna (mmHg)	101,8 ± 8,6		57,5 ± 5,7
Presión arterial media de 24 h (mmHg)		81,4 ± 5,8	
Presión arterial media diurna (mmHg)		84,9 ± 6,3	
Presión arterial media nocturna (mmHg)		74,4 ± 6,1	
Diagnóstico:**			
MAPA normal	65 (59,1%; IC 95%: 49,7-67,8%)		
Hipertensión enmascarada	10 (9,1%; IC 95%: 5,1-15,98%)		
Hipertensión nocturna aislada	7 (6,4%; IC 95%: 3,1-23,5%)		
Prehipertensión	28 (25,4%; IC 95%: 18,2-34,3%)		

* Promedio y desvío estándar.

** Prevalencia e intervalo de confianza del 95%.

MAPA: monitoreo ambulatorio de presión arterial de 24 horas.

PA: presión arterial.

IC: intervalo de confianza.

Tabla 3: Registros promedios de presión arterial en pacientes con monitoreo ambulatorio de presión arterial de 24 horas patológico y normal**

	MAPA PATOLÓGICO	MAPA NORMAL	Valor de p
Número	45	65	
Sexo (varón/mujer)	21/24	29/36	N/S
Edad (años)*	8,2 ± 1,7	9,1 ± 1,8	0,02
Puntaje Z de peso	2,1 ± 2,1	2,6 ± 3,6	N/S
Puntaje Z de talla	2,6 ± 1,2	1,1 ± 0,9	N/S
IMC Z	3,1 ± 1,1	3,2 ± 1,2	N/S
Horas de registro de MAPA	22,8 ± 1,5	23,4 ± 2,1	N/S
PA en consultorio (mmHg)			
PAS del miembro superior, auscultatorio	97,4 ± 8,7	93,8 ± 10,5	0,06
PAD del miembro superior, auscultatorio	59,2 ± 7,1	55,7 ± 7,8	0,02
PAS del miembro inferior, auscultatorio	117,5 ± 9,7	115,9 ± 12,6	N/S
PAD del miembro inferior, auscultatorio	69,4 ± 9,3	68,4 ± 9,5	N/S
PAS, oscilométrico	103,1 ± 8,8	101,1 ± 8,9	N/S
PAD, oscilométrico	64,6 ± 8,1	63,9 ± 7,1	N/S
PA ambulatoria (MAPA) (mmHg)			
Promedio de PAS de 24 horas	115,8 ± 6,9	104,7 ± 6,7	< 0,001
Promedio de PAD de 24 horas	69,6 ± 5,1	63,1 ± 4,5	< 0,001
Promedio de PAM de 24 horas	85,9 ± 5,1	78,3 ± 3,8	< 0,001
Promedio de PAS diurna	119,6 ± 6,9	108,7 ± 6,6	< 0,001
Promedio de PAD diurna	73,6 ± 5,5	66,5 ± 4,5	< 0,001
Promedio de PAM diurna	89,6 ± 5,4	81,7 ± 4,7	< 0,001
Promedio de PAS nocturna	108,1 ± 8,2	97,5 ± 8,8	< 0,001
Promedio de PAD nocturna	61,5 ± 5,7	54,7 ± 3,7	< 0,001
Promedio de PAM nocturna	79,1 ± 5,8	71,2 ± 3,6	< 0,001
Frecuencia cardíaca promedio de 24 h	95,5 ± 9,7	90,7 ± 10,1	0,01

* Promedio ± desvío estándar.

N/S: no significativa.

** Prueba de t para muestras independientes; los valores se expresan en promedio y desvío estándar.

PA: presión arterial.

PAS: presión arterial sistólica.

PAD: presión arterial diastólica.

PAM: presión arterial media.

IMC: índice de masa corporal.

MAPA: monitoreo ambulatorio de presión arterial de 24 horas.

Prevalence of masked hypertension among children with risk factors for arterial hypertension

Adriana Iturzaeta, M.D.^a, Luis Pompozzi, M.D.^b, Claudia Casas Rey, B.S.^b, Irma Passarelli, M.D.^a and Fernando Torres, M.D.^a

ABSTRACT

Introduction. Masked hypertension (MH) in children is defined as normal office blood pressure values and high values outside the clinical setting. The 24-hour ambulatory blood pressure monitoring (ABPM) is helpful for diagnosis. There is little information on MH prevalence in our population.

Objective. To estimate the prevalence of MH in children with risk factors for arterial hypertension.

Material and method. Prospective, observational, cross-sectional study. Patients seen at Hospital General de Niños "P. de Elizalde" between July 1st, 2015 and December 1st, 2016, aged 5-11 years, with normal blood pressure and at least one risk factor for arterial hypertension were included in consecutive order. A 24-hour ABPM was done (SpaceLabs 90207/90217). Estimated sample: 110 patients. All relevant authorizations were obtained.

Results. One hundred and ten patients aged 8.7 ± 1.8 years were included; 60 were girls. ABPM duration: 23.18 ± 1.8 hours. Twenty-three patients had neonatal history; all had at least one factor corresponding to personal history (the most common ones were increased salt intake and obesity); 101 had at least one factor corresponding to family history. ABPM helped to identify 10 patients with MH (9.1%; 95% confidence interval [CI]: 5.1-15.9); 7 had isolated nocturnal hypertension (6.4%; 95% CI: 3.1-23.5) and 28 had prehypertension (25.4%; 95% CI: 18.2-34.3). Among the 10 patients with MH, 7 were boys, 9 were obese and had at least one factor corresponding to family history.

Conclusion. The prevalence of MH in children with risk factors for arterial hypertension was close to 10%.

Key words: masked hypertension, hypertension, risk factors, pediatrics.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.328>

To cite: Iturzaeta A, Pompozzi L, Casas Rey C, et al. Prevalence of masked hypertension among children with risk factors for arterial hypertension. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):328-332.

- a. Hospital General de Niños "Pedro de Elizalde".
- b. Hospital de Niños "Dr. J. P. Garrahan." Autonomous City of Buenos Aires.

E-mail address:

Adriana Iturzaeta, M.D.: aiturzaeta@yahoo.com.ar

Funding:

This study was conducted with the support of the "Ramón Carrillo-Arturo Oñativia" scholarship program, individual category, granted by the National Ministry of Health of Argentina through the National Health Research Committee (Comisión Nacional Salud Investiga). Year 2015. National Registry of Health Research (Registro Nacional de Investigaciones en Salud, RENIS), Argentine Integrated Health Care Information System (Sistema Integrado de Información Sanitaria Argentino, SISA): health research code no. IS000927.

Conflict of interest: None.

Received: 11-28-2017
Accepted: 4-16-2018

INTRODUCTION

Masked hypertension (MH) in pediatrics is defined by normal office blood pressure (BP) values and high values outside the clinical setting.¹ MH may be diagnosed with 24-hour ambulatory BP monitoring (ABPM), which, in addition, may also report other BP patterns (nocturnal hypertension, prehypertension).²

MH is a known, modifiable risk factor for arterial hypertension (HTN), and may potentially damage target organs.^{3,4} The guidelines for MH diagnosis in children propose BP monitoring with repeated measurements using the auscultatory and oscillometric methods, and 24-hour ABPM.¹⁻³

In our setting, the study of children with risk factors for HTN does not include the systematic use of ABPM. There is evidence to recommend ABPM in the following cases: in children with isolated office BP values greater than the 95th percentile; to diagnose "white coat HTN"; to assess BP patterns and risk for target-organ damage; to assess drug therapy effectiveness; in patients with HTN-associated chronic conditions (overweight/obesity, dyslipemias, diabetes, chronic kidney disease, transplants, neurofibromatosis type I, Turner syndrome, and coarctation of the aorta), and to diagnose MH.⁵⁻⁸

According to Lurbe et al., MH is not an innocent phenomenon, and it is still necessary to gain more knowledge on its clinical significance, adequately identify children at a higher risk, and implement health and/or pharmacological measures aimed at its management.^{2,4}

There are not sufficient data on the prevalence of MH in our population.

OBJECTIVE

To estimate the prevalence of MH, isolated nocturnal hypertension (INH), and prehypertension in children who had at least one risk factor for HTN.

MATERIAL AND METHOD**Design**

Observational, cross-sectional study with prospective data capture.

POPULATION**Inclusion criteria**

Children aged 5-11 years with normal office BP and at least one risk factor for HTN, who attended an outpatient visit at Hospital General de Niños "P. de Elizalde" (HGNPE) for a health checkup, were referred to the HTN service between July 1st, 2015 and December 1st, 2016, and gave their informed consent and/or assent were included in consecutive order.

Exclusion criteria

Patients receiving antihypertensive treatment or those with acute kidney disease were excluded.

Risk factors

The risk factors for HTN that were considered for inclusion were divided into three categories (neonatal, personal, and family history).

Neonatal history

- Prematurity: less than 37 weeks of gestational age (any gestational age assessment method).
- Low birth weight (LBW): birth weight < 2500 grams (term infants).
- History of intrauterine growth restriction (IUGR): birth weight or length \leq 2 standard deviations (based on gestational age).
- History of umbilical cord cannulation.

Personal history

- Isolated high BP (systolic BP and/or diastolic BP): greater than the 95th percentile (for height, age, and sex).
- Overweight/obesity: as per the body mass index (BMI).⁹
- Dyslipemia: low density lipoprotein-cholesterol (LDL) and/or triglycerides > 95th percentile.⁹
- Type I and type II diabetes.¹⁰
- Chronic steroid administration: more than 1 mg/kg/day of prednisone per day (or equivalent dosage) for more than 3 weeks.¹¹

- Recurrent urinary tract infections: 2 or more in a year.
- Nephropathy or urologic disease: as per nephrological diagnosis.
- Microalbuminuria: > 30 mg/24 h in 24-hour urine or urinary albumin-to-creatinine ratio > 30 mg/g or μ /mg.¹²
- History of hemolytic uremic syndrome.
- Symptoms suggestive of secondary HTN: polyuria, nocturia and/or hematuria.
- Neurofibromatosis type I: confirmed by the dermatology or genetics service.
- Turner syndrome, Williams syndrome.
- Coarctation of the aorta.
- Increased salt (ClNa) intake: defined by the addition of salt to foods, as referred by the child or his/her caregiver.
- Passive smoking: a family member who smoked at home.
- Sedentary lifestyle: less than 30 minutes of regular exercise per day and less than 3 days a week.¹³
- Renal, abdominal and/or cranial trauma injuries: as documented in the medical record.
- Sleep disorders: nocturnal snoring and/or sleep apnea.²
- Seizures of unknown etiology: as documented in the medical record.

Family history of cardiovascular risk (parents, grandparents or siblings)

- Family HTN.
- Early cardiovascular events (< 55 years old in males, < 65 years old in females).
- Type I and type II diabetes mellitus.
- Familial polycystic kidney disease.

Procedure

Once the informed consent and/or assent was obtained, BP was measured 3 times using the auscultatory method in the upper and lower limbs (Riester sphygmomanometer) and 3 times using the oscillometric method in the upper limbs (Omron 7200).¹⁴ The first reading was excluded and the second and third ones were averaged for the regression-to-mean effect and patient positioning. All instruments were calibrated regularly.¹⁴

If normal BP was confirmed with both methods, a 24-hour ABPM with oscillometric method (SpaceLabs 90207/90217, Redmond, Washington) was scheduled. A normal day in terms of school or activities was selected for the ABPM. Readings were scheduled every 20 minutes in the waking state and every 30 minutes during sleep.¹⁵

Outcome measures

Primary outcome measures

- MH: it was defined as an average ambulatory systolic BP (SBP) and/or diastolic BP (DBP) value during the day or while doing an activity greater than the 95th percentile by sex and height. Categorical outcome measure.^{2,16} Other possible ABPM results that did not match MH diagnosis² were considered secondary outcome measures:
- INH: it was defined as an average ambulatory BP during the day or while doing an activity below the 95th percentile and nighttime values greater than the 95th percentile by sex and height. Categorical outcome measure.^{2,17}
- Prehypertension: it was defined as an average ambulatory SBP and/or DBP below the 95th percentile, with more than 25% of BP readings greater than the 95th percentile for each period. Categorical outcome measure.^{2,17}

Control outcome measures

- Decimal age: in years at the time of the ABPM.
- Heart rate: measured by radial pulse palpation over 1 minute.

Statistical analysis

For the description, absolute numbers and proportions with their corresponding 95% confidence interval (95% CI) were used for categorical outcome measures and mean or median with standard deviation or quartiles were used for continuous outcome measures, based on their adjustment or not to normality (Kolmogorov-Smirnov).

The absolute number of patients with MH (numerator) divided by the total number of screened patients (denominator) multiplied by 100 was used to estimate the prevalence of MH as a percentage. The same procedure was used to estimate the prevalence of INH and prehypertension. All values were expressed with their 95% CI.

The SPSS 10.0 software was used for analysis.

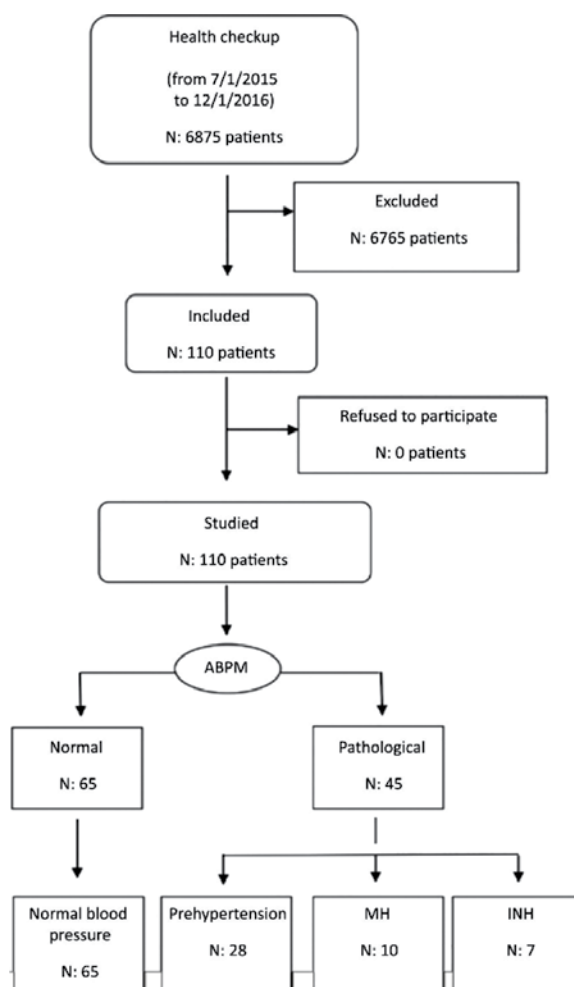
Sample size

The sample size was calculated to estimate an expected $10 \pm 5\%$ prevalence of MH with a 95% CI, together with a 10% for failure in adherence; a sample of 110 patients was therefore necessary (StatCalc, Epi Info 7 CDC).

Ethical considerations

The study followed the Good Clinical Practice Guidelines (guidelines for facilities that are part of the Government of the Autonomous City of Buenos Aires). The Teaching and Research Committee and the Research Ethics Committee of HGNPE authorized the study.¹⁸ Data confidentiality was warranted and an informed consent and assent were obtained in all cases. Patients with alterations in the ABPM were referred to the HTN service for BP management.

RESULTS



ABPM: 24-hour ambulatory blood pressure monitoring.

MH: masked hypertension.

INH: isolated nocturnal hypertension.

General diagram of the study

Among the 110 patients who entered the study (all patients assessed and no missing data), their average age was 8.74 ± 1.8 years, and 60 were girls

(Table 1 of the Annex).

Neonatal history, personal risk factors, and family history are summarized in Table 1 of the Annex. Twenty-three patients had neonatal history; all had at least one factor corresponding to personal history and 101 had at least one factor corresponding to family history. Considering a pool of the 3 types of history (neonatal, personal, and family), 65 patients had between 7 and 10 factors overall, whereas 12 had 11 or more factors.

The ABPM was done in the 110 participants and helped to identify 10 patients with MH, with a prevalence of 9.1% (95% CI: 5.1-15.98%). In addition, 7 patients had INH (6.4%; 95% CI: 3.1-23.5%), and 28 patients were diagnosed with prehypertension (25.4%; 95% CI: 18.2-34.3%). ABPM recording times, the number of daily readings, and results are shown in Table 2 of the Annex.

The analysis of patients with MH (n= 10) showed that 7 boys and 9 obese or overweight patients had at least one factor corresponding to family history. The average 24-hour, daytime, and nighttime SBP, DBP, and mean blood pressure (MBP) values (ABPM) of patients with MH were higher than those of patients with a normal ABPM.

A total of 45 patients had a pathological ABPM (MH= 10, INH= 7, and prehypertension= 28); the rest (n= 65) were considered to have a normal ABPM. Office BP controls using the auscultatory and oscillometric methods and the average 24-hour, daytime, and nighttime SBP, DBP, and MBP values (ABPM) of patients with a pathological ABPM were higher than those of patients with a normal ABPM (Table 3 of the Annex).

DISCUSSION

In this study, the prevalence values of MH, INH and prehypertension were 9.1%, 6.4%, and 25.4%, respectively.

The prevalence of MH observed here was similar to that reported globally, which estimated a 10-15% MH prevalence among pediatric patients.^{3,4} In 2004, Matsuoka and Awazu reported an 11% prevalence of MH among children; however, that study included patients aged 6-25 years.¹⁹ Our sample included younger patients (5-11 years old), which may account for the lower prevalence observed here, which was closer to the prevalence reported in other studies conducted in children and adolescents, with a

rate from 7.6% to 9.4%.⁴ This is also supported by other publications that found a lower MH prevalence among younger children.^{20,21}

The average ambulatory SBP and/or DBP values recorded during daytime or while doing activities greater than the 95th percentile for sex and height was established as the cut-off point for MH, according to the ABPM reference standard values in pediatrics recommended by a German Task Force based on a multicenter study.^{17,21} Such strict rule to consider MH may have also affected our MH prevalence.

In relation to the risk factors for HTN, the most common ones were increased salt intake and obesity. The bibliography showed that male sex and obesity were risk factors for MH.²² An association with male sex was not confirmed. Although most patients with MH had a high BMI, the small number of observations prevented us from confirming such associations.

Lurbe et al. demonstrated significantly higher office SBP and DBP values among patients with MH.⁴ In our study, no significant differences were observed in the average office SBP and DBP values between patients with and without MH. ABPM recordings were significantly higher in the MH group, thus demonstrating the usefulness of ABPM to unmask HTN in children with risk factors for HTN.⁴

As part of the study's secondary outcomes, we found patients with INH; this finding is of prognostic value.²³ Some authors consider it is as relevant as daytime HTN and should be considered MH because it is associated with microalbuminuria and has demonstrated a more rapid progression to chronic kidney failure.¹⁵ In relation to prehypertension, further studies are required to assess its predictive value for target-organ damage.^{15,17}

This study has potential weaknesses that should be taken into consideration. It was not designed to establish risk factors but to estimate the prevalence of MH. Therefore, the number of patients with MH prevented us from performing an analysis of inference that would allow to observe statistically significant results (type II error).

The study's prospective design enabled an adequate control of the study outcome measure, which prevented potential biases. In addition, we implemented a strict criterion for patient entry, which included 4-limb BP measurement using 2 different methods 3 consecutive times. Lastly, the implementation of the ABPM showed acceptable

values in relation to the number of hours it was used and the number of readings, which indicated an adequate result consistency.

CONCLUSION

In the studied sample, the prevalence of MH in children who had at least one risk factor for HTN was slightly below 10%.

In addition, the prevalence of INH was 6.4% and that of prehypertension, 25.4%.

Further studies are required to confirm these results. ■

REFERENCES

1. Flynn JT, Daniels SR, Hayman LL, et al. Update: Ambulatory Blood Pressure Monitoring in Children and Adolescents: A Scientific Statement from the American Heart Association. *Hypertension* 2014; 63(5):1116-35.
2. Lurbe E, Agabiti-Rosei E, Cruickshank JK, et al. 2016 European Society of Hypertension guidelines for the management of high blood pressure in children and adolescents. *J Hypertens* 2016; 34(10):1887-920.
3. Lurbe E, Cifkova R, Cruickshank JK, et al. Management of high blood pressure in children and adolescents: recommendations of the European Society of Hypertension. *J Hypertens* 2009; 27(9):1719-42.
4. Lurbe E, Torro I, Alvarez V, et al. Prevalence, persistence and clinical significance of Masked Hypertension in youth. *Hypertension* 2005; 45(4):493-8.
5. Lurbe E, Torró MI, Alvarez J. Ambulatory blood pressure monitoring in children and adolescents: coming of age? *Curr Hypertens Rep* 2013; 15(3):143-9.
6. O'Brien E. Unmasking Hypertension. *Hypertension* 2005; 45(4):481-2.
7. Deregibus M, Haag D, Ferrario C, et al. Consenso sobre Factores de Riesgo de Enfermedad Cardiovascular en Pediatría. Hipertensión Arterial en el Niño y el Adolescente. *Arch Argent Pediatr* 2005; 103(4):348-57.
8. Pickering TG, Eguchi K, Kario K. Masked Hypertension: A Review. *Hypertens Res* 2007; 30(6):479-88.
9. Comité Nacional de Nutrición. Guías de práctica clínica para la prevención, el diagnóstico y el tratamiento de la obesidad. *Arch Argent Pediatr* 2011; 109(3):256-66.
10. American Diabetes association. Standards of medical care in diabetes 2016. *Diabetes Care* 2016; 39(Suppl 1):S54-5.
11. Galofré JC. Manejo de los corticoides en la práctica clínica. *Rev Med Univ Navarra* 2009; 53(1):9-18.
12. Remuzzi G, Schieppati A, Ruggenti P. Clinical practice. Nephropathy in patients with type 2 diabetes. *N Engl J Med* 2002; 346(15):1145-51.
13. Comité Nacional de Medicina del Deporte Infanto-Juvenil, Subcomisión de Epidemiología. Consenso sobre factores de riesgo de enfermedad cardiovascular en pediatría. Sedentarismo. *Arch Argent Pediatr* 2005; 103(5):450-75.
14. Grupo de Trabajo del Programa de Educación Nacional de presión arterial alta en la presión arterial alta en niños y adolescentes de los EE. UU. Cuarto informe sobre el Diagnóstico, Evaluación y Tratamiento de la Hipertensión Arterial en Niños y Adolescentes. *Pediatrics* 2004; 114(2 Suppl 4th Report):555-76.
15. Barochiner J, Bendersky M, Cuffaro P, et al. Toma de posición, medición de la presión arterial fuera del consultorio: MAPA – MDPA. Sociedad Argentina de Hipertensión Arterial. 2014. [Accessed on: April 27th, 2018]. Available at: www.saha.org.ar/pdf/formacion/TomaDePosicion-Libro2015.pdf.
16. Soergel M, Kirschstein M, Busch C, et al. Oscillometric twenty-four hour ambulatory blood pressure values in healthy children and adolescents: A multicenter trial including 1141 subjects. *J Pediatr* 1997; 130(2):178-84.
17. Wühl E, Witte K, Soergel M, et al. Distribution of 24-h ambulatory blood pressure in children: normalized reference values and role of body dimensions. *J Hypertens* 2002; 20(10):1995-2007.
18. Argentina. Ministerio de Salud. Guía de las Buenas Prácticas de Investigación Clínica en Seres Humanos. Resolución 1490/2007. [Accessed on: December 10th, 2014]. Available at: <http://www.fbioyf.unr.edu.ar/evirtual/mod/resource/view.php?id=1129&redirect=1>.
19. Matsuoka S, Awazu M. Masked hypertension in children and young adults. *Pediatr Nephrol* 2004; 19(6):651-4.
20. Lurbe E, Sorof JM, Daniels SR. Clinical and research aspects of ambulatory blood pressure monitoring in children. *J Pediatr* 2004; 144(1):7-16.
21. Urbina E, Alpert B, Flynn J, et al. Ambulatory blood pressure monitoring in children and adolescents: recommendations for standard assessment: a scientific statement from the American Heart Association Atherosclerosis, Hypertension, and Obesity in Youth Committee of the council on cardiovascular disease in the young and the council for high blood pressure research. *Hypertension* 2008; 52(3):433-51.
22. Álvarez Pitti J. Significado de la hipertensión arterial enmascarada en niños y adolescentes. 2014. [Dissertation]. Valencia: Universidad de Valencia; 2014. [Accessed on: November 24th, 2016]. Available at: <https://core.ac.uk/download/pdf/71027021.pdf>.
23. Fan HQ, Li Y, Thijs L, et al. Prognostic value of isolated nocturnal hypertension non ambulatory measurement in 8711 individuals from 10 populations. *J Hypertens* 2010; 28(10):2036-45.

Annex

TABLE 1. Risk factors for arterial hypertension by sex

	Boys	Girls	Total
Number of subjects	50	60	110
Age (years)*	8.7 ± 1.7	8.7 ± 1.8	8.74 ± 1.8
Z-score for weight*	2.9 ± 2.1	5.4 ± 2.6	2.49 ± 2.5
Z-score for height*	2.7 ± 12.0	0.9 ± 1.0	1 ± 0.9
BMI (weight/height ²)*	23.7 ± 4.6	21.7 ± 6.2	22.6 ± 5.5
Heart rate (bpm)*	90.4 ± 9.7	94.6 ± 10.2	92.7 ± 10.2
Neonatal history (n: 23)			
Prematurity	8	11	19
Birth weight of less than 2500 g	6	10	16
Birth weight (g)*	3241 ± 0.524	3082 ± 0.488	3154.68 ± 0.863
IUGR	3	5	8
Personal history (n: 110)			
Increased salt intake	38	54	92
Obesity	42	39	81
Smoking in the household	27	28	55
Chronic corticosteroids	26	29	55
Polyuria/nocturia/hematuria	17	22	39
Sedentary lifestyle	20	16	36
Dyslipemia	15	20	35
Sleep disorders	20	19	39
Isolated SBP and/or DBP > 95th percentile	14	19	33
Urinary tract infections	11	26	37
Nephropathy	5	6	11
Microalbuminuria	2	1	3
Turner syndrome	0	2	2
Type I and type II diabetes	1	1	2
Seizures of unknown etiology	4	2	6
Trauma injuries	1	2	3
Corrected coarctation of the aorta	2	0	2
HUS	0	0	0
Family history (n: 101)			
History of HTN	44	53	97
History of diabetes	31	38	69
History of stroke	18	20	38
Familial polycystic kidney disease	7	12	19

* Average ± standard deviation. BMI: body mass index.

IUGR: intrauterine growth restriction.

HUS: hemolytic uremic syndrome.

SBP: systolic blood pressure.

DBP: diastolic blood pressure.

TABLE 2. Twenty-four hours ambulatory blood pressure monitoring recordings in children with risk factors for arterial hypertension

Total no. of ABPM	N = 110	
Specifications: *		
ABPM duration (hours)	23.18 ± 1.8	
Total no. of readings	53.3 ± 9.5	
Total percentage of readings	83.7 ± 10.4%	
No. of daytime readings	36.4 ± 8.6	
No. of nighttime readings	16.9 ± 5.1	
Results:*	Systolic BP (mmHg)	Diastolic BP (mmHg)
Average 24-hour BP (mmHg)	109.3 ± 8.7	65.7 ± 5.8
Average daytime BP (mmHg)	113.2 ± 8.6	69.4 ± 6.1
Average nighttime BP (mmHg)	101.8 ± 8.6	57.5 ± 5.7
Mean 24-hour BP (mmHg)	81.4 ± 5.8	81.4 ± 5.8
Mean daytime BP (mmHg)	84.9 ± 6.3	84.9 ± 6.3
Mean nighttime BP (mmHg)	74.4 ± 6.1	74.4 ± 6.1
Diagnosis:**		
Normal ABPM	65 (59.1%; 95% CI: 49.7-67.8%)	
Masked hypertension	10 (9.1%; 95% CI: 5.1-15.98%)	
Isolated nocturnal hypertension	7 (6.4%; 95% CI: 3.1-23.5%)	
Prehypertension	28 (25.4%; 95% CI: 18.2-34.3%)	

* Average and standard deviation.

** Prevalence and 95% confidence interval.

ABPM: 24-hour ambulatory blood pressure monitoring.

BP: blood pressure.

CI: confidence interval.

TABLE 3: Average blood pressure recordings** in patients with pathological and normal 24-hour ambulatory blood pressure

	Pathological ABPM	Normal ABPM	P value
Number	45	65	
Sex (male/female)	21/24	29/36	NS
Age (years)*	8.2 ± 1.7	9.1 ± 1.8	0.02
Z-score for weight	2.1 ± 2.1	2.6 ± 3.6	NS
Z-score for height	2.6 ± 1.2	1.1 ± 0.9	NS
Z-score for BMI	3.1 ± 1.1	3.2 ± 1.2	NS
ABPM duration (hours)	22.8 ± 1.5	23.4 ± 2.1	NS
Office BP (mmHg)			
SBP of the upper limb, auscultatory method	97.4 ± 8.7	93.8 ± 10.5	0.06
DBP of the upper limb, auscultatory method	59.2 ± 7.1	55.7 ± 7.8	0.02
SBP of the lower limb, auscultatory method	117.5 ± 9.7	115.9 ± 12.6	NS
DBP of the lower limb, auscultatory method	69.4 ± 9.3	68.4 ± 9.5	NS
SBP, oscillometric method	103.1 ± 8.8	101.1 ± 8.9	NS
DBP, oscillometric method	64.6 ± 8.1	63.9 ± 7.1	NS
Ambulatory BP (ABPM) (mmHg)			
Average 24-hour SBP	115.8 ± 6.9	104.7 ± 6.7	< 0.001
Average 24-hour DBP	69.6 ± 5.1	63.1 ± 4.5	< 0.001
Average 24-hour MBP	85.9 ± 5.1	78.3 ± 3.8	< 0.001
Average daytime SBP	119.6 ± 6.9	108.7 ± 6.6	< 0.001
Average daytime DBP	73.6 ± 5.5	66.5 ± 4.5	< 0.001
Average daytime MBP	89.6 ± 5.4	81.7 ± 4.7	< 0.001
Average nighttime SBP	108.1 ± 8.2	97.5 ± 8.8	< 0.001
Average nighttime DBP	61.5 ± 5.7	54.7 ± 3.7	< 0.001
Average nighttime MBP	79.1 ± 5.8	71.2 ± 3.6	< 0.001
Average 24-hour heart rate	95.5 ± 9.7	90.7 ± 10.1	0.01

* Average ± standard deviation.

NS: not significant.

** t test for independent samples; values are expressed as average and standard deviation.

BP: blood pressure.

SBP: systolic blood pressure.

DBP: diastolic blood pressure.

MBP: mean blood pressure.

BMI: body mass index.

ABPM: 24-hour ambulatory blood pressure monitoring.

Ventilación no invasiva posextubación en cuidados intensivos pediátricos: estudio multicéntrico

Post-extubation non-invasive ventilation in the pediatric intensive care unit: a multicenter study

Lic. Juan P. Bonora^a, Lic. Judith Frydman^b, Lic. Alejandra Retta^c y Lic. Andrea Canepari^d

RESUMEN

Introducción. El fracaso de extubación es una complicación que aumenta la morbimortalidad. La ventilación no invasiva (VNI) demostró ser efectiva como tratamiento de soporte ventilatorio.

Objetivo. Determinar la tasa de éxito de la VNI posextubación y los factores asociados al éxito o fracaso del procedimiento.

Población y métodos. Diseño: observacional, retrospectivo, analítico y multicéntrico. Ingresaron todos los pacientes que requirieron VNI posextubación durante 2014 y 2015. Se denominó VNI de rescate la implementación por falla respiratoria aguda y VNI electiva, su aplicación en forma profiláctica. Se definió fracaso de la VNI la necesidad de intubación orotraqueal en las primeras 48 horas. Se compararon las características entre éxitos y fracasos, los tipos de VNI y se realizó un relevamiento del equipamiento utilizado.

Resultados. Precisarón VNI de rescate 112 niños y VNI electiva, 143. Las tasas de éxitos fueron de 68,8% y 72,7%, respectivamente. Aquellos que fracasaron la VNI de rescate tuvieron una mortalidad mayor que aquellos con VNI exitosa. Se observaron más días de internación y de ventilación mecánica invasiva previa a la extubación en el grupo de VNI electiva. El diagnóstico más frecuente fue la infección respiratoria aguda baja en el niño sano.

Conclusiones. La utilización de VNI posterior a la extubación puede ser una herramienta útil para evitar el reingreso a ventilación mecánica invasiva. Los pacientes inmunocomprometidos y con antecedentes neurológicos tuvieron mayor fracaso. Los pacientes que fracasaron toleraron menos horas de VNI y presentaron mayor estadía en la Unidad de Cuidados Intensivos Pediátricos.

Palabras clave: ventilación no invasiva, pediatría, extubación traqueal.

- a. Hospital de Pediatría "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".
- b. Hospital Central de Pediatría de Malvinas Argentinas.
- c. Hospital de Niños Dr. Ricardo Gutiérrez.
- d. Hospital Italiano de Buenos Aires. Ciudad de Buenos Aires.

Correspondencia:

Lic. Juan P. Bonora:
juampabon@yahoo.com.ar

Financiamiento:
Ninguno.

Conflicto de intereses:
Ninguno que declarar.

Recibido: 16-12-2017
Aceptado: 19-4-2018

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.333>
Texto completo en inglés:
<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.333>

Cómo citar: Bonora JP, Frydman J, Retta A, Canepari A. Ventilación no invasiva posextubación en cuidados intensivos pediátricos: estudio multicéntrico. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):333-339.

INTRODUCCIÓN

La insuficiencia respiratoria es uno de los principales motivos de ingreso a una Unidad de Cuidados Intensivos Pediátricos (UCIP). Los niños, con frecuencia, requieren del uso de la ventilación mecánica invasiva (VMI) como parte de una estrategia terapéutica que, si bien ha permitido modificar el pronóstico de vida, se acompaña de complicaciones potencialmente mortales que aumentan la estadía hospitalaria.¹

La falla respiratoria posextubación es una complicación relativamente frecuente, que aumenta de manera notable la morbimortalidad.^{2,3} La tasa de falla de extubación en los niños oscila entre 3% y 22%.⁴ Por este motivo, se necesitan estrategias destinadas a evitar la reintubación en esta población.

La ventilación no invasiva (VNI) ha cobrado gran importancia como tratamiento de soporte respiratorio en los pacientes pediátricos.^{1,5} Su aplicación reduce el trabajo de la musculatura accesoria, la frecuencia cardíaca y la frecuencia respiratoria.¹ Su principal ventaja deriva de evitar la intubación orotraqueal (IOT) y, por lo tanto, sus riesgos asociados.^{2,3}

Varios trabajos analizan el uso y la eficacia de la VNI en los pacientes pediátricos.⁶⁻⁸ Algunos de ellos incluyen a todos los pacientes que requieren de este tipo de asistencia ventilatoria, mientras que, en otros reportes, excluyen del análisis la VNI posextubación, debido a las diferentes características de los pacientes respecto de los que no han recibido VMI previamente.⁹

Existe escasa bibliografía que describa la utilización de la VNI posextubación en la población pediátrica.¹⁰

OBJETIVO

Determinar la tasa de éxito de la VNI posextubación y los factores asociados al éxito o fracaso del procedimiento.

MATERIALES Y MÉTODOS

Estudio multicéntrico, analítico, observacional y retrospectivo. El período de duración del estudio fue de 2 años. Se incluyeron todos los pacientes de entre 1 mes y 18 años de edad desde el 1 de enero de 2014 hasta el 31 de diciembre de 2015 que requirieron VNI posextubación en cuatro UCIP polivalentes de alta complejidad.

Los pacientes se extubaron luego de superar una prueba de respiración espontánea, respetando la modalidad de cada centro.

Se denominó VNI de rescate (VNIr) la implementación de VNI debido a la falla respiratoria aguda dentro de las primeras 48 horas posextubación. Se consideró falla respiratoria la insuficiencia respiratoria tipo I o II y/o la obstrucción alta de la vía aérea.¹¹

Se denominó VNI electiva (VNIe) la implementación de VNI inmediatamente posterior a la extubación en forma profiláctica por posible riesgo de falla. Se aplicó VNIe en pacientes con VMI prolongada,^{12,13} fallas de extubación previas, debilidad por patología intrínseca de la musculatura, debilidad de la musculatura inspiratoria observable por disminución de la movilidad diafragmática en la ecografía o presión inspiratoria máxima inferior de -20 cm H₂O, cardiopatías, pacientes con antecedentes respiratorios de relevancia previos.

El registro se realizó por los kinesiólogos de cada Unidad en forma diaria a través de fichas de registro y mediante información de las historias clínicas.

Las interfases utilizadas fueron máscaras faciales totales (*total face* y casco), máscaras oronasales, máscaras nasales y cánulas nasales. La elección de la interfase dependió de la edad del paciente y/o de la disponibilidad, y se priorizaron las faciales totales y oronasales para insuficiencia respiratoria aguda y las nasales para cuadros crónicos.

Los respiradores empleados fueron ventiladores microprocesados con software para VNI, equipos intermedios y equipos binivelados de flujo continuo.¹⁴ La elección del respirador

dependió de la disponibilidad en cada Unidad.

Las modalidades utilizadas fueron ventilación con presión de soporte, ventilación asistido-controlada con presión de control, soporte de presión binivel en modo espontáneo/tiempo o modo espontáneo y presión positiva continua en la vía aérea. La elección del modo ventilatorio se realizó en función de la patología del paciente buscando la mejor sincronía paciente-respirador. Se consideró el modo predominante durante el requerimiento de VNI.

La estrategia ventilatoria empleada consistió en utilizar niveles de presión positiva de fin de espiración (positive end-expiratory pressure; PEEP, por sus siglas en inglés) y fracción inspirada de oxígeno (FiO₂) necesarios para lograr una saturación por encima de 92% y una presión de asistencia necesaria para lograr un volumen corriente de entre 8 y 10 ml/kg. Alcanzado el objetivo terapéutico, se procedió al descenso progresivo de parámetros ventilatorios, y se pudo rotar la interfase o bien alternar períodos de desconexión, según la estabilidad clínica, gasométrica y radiológica, hasta el retiro definitivo del soporte ventilatorio.

Las variables consideradas fueron edad, peso, sexo, puntaje de gravedad (*pediatric index of mortality 2*; PIM 2, por sus siglas en inglés), días en la UCIP, causa de ingreso a la UCIP (cardiológica, respiratoria, neurológica, posquirúrgica no cardiovascular, shock séptico, lesión externa, otros), diagnóstico (trauma, infección respiratoria aguda baja -IRAB-, IRAB en paciente secuelado [comorbilidades previas], posquirúrgico general, neuroquirúrgico, neuromuscular, inmunocomprometido, evento neurológico agudo, infección no respiratoria, insuficiencia cardíaca, otros), causa de ingreso a VNI (dificultad respiratoria, hipoventilación, obstrucción alta, riesgo de fracaso de extubación), antecedentes (pulmón secuelado, cardiopatía, lesión neurológica, inmunocompromiso, malformaciones de la vía aérea-digestiva-hepática, más de un antecedente).

Las distintas comorbilidades encontradas en los pacientes fueron clasificadas mediante la variable antecedentes, tomando la clasificación citada por Feudtner y cols.,¹⁵ que codificaba a los pacientes según el tipo de afección crónica que presentaban.

Los parámetros monitoreados fueron presión parcial de oxígeno (PO₂), saturación y presión parcial de dióxido de carbono (PCO₂) previa a la VNI y delta de presiones, PEEP, FiO₂ o litros de oxígeno (O₂) al inicio de la VNI.

Para medir la eficacia de la técnica, se registraron las siguientes variables: tipo de VNI (rescate, electiva), resultado de la VNI (éxito y fracaso), horas de VNI, días de VMI previos a la extubación y mortalidad. Se definió fracaso de la VNI la necesidad de intubación endotraqueal en las primeras 48 horas según los criterios propios establecidos en cada Unidad. De acuerdo con el momento en que se produjo la falla, se consideró fracaso inicial la necesidad de reintubación en la primera hora de aplicación; fracaso precoz, la necesidad de reintubación entre la primera hora y las 12 horas, y fracaso tardío (> 12 horas), en el resto de las necesidades de la reintubación.⁵ Las causas de fracaso fueron progresión de la dificultad respiratoria, hipoxemia, deterioro del sensorio, obstrucción alta de la vía aérea, alteraciones hemodinámicas e incapacidad de protección de la vía aérea.

Análisis estadístico

Para la descripción de la muestra, se utilizaron, como medida de tendencia central, la mediana y, como medida de dispersión, el rango intercuartilo 25-75 en el caso de las variables numéricas y, para las variables categóricas, se utilizaron el recuento absoluto y el porcentaje. Para la comparación de las variables numéricas, se usó la prueba de Mann-Whitney y la prueba de chi cuadrado para

las variables categóricas. Se utilizó un nivel de p inferior a 0,05 para considerar la significancia estadística. Para el análisis de los datos, se empleó el software IBM SPSS Macintosh, versión 20.0 (IBM Corp., Armonk, NY, USA).

RESULTADOS

Se incluyeron 255 pacientes que utilizaron VNI posextubación. En la *Figura 1*, se presenta el diagrama de flujo de los pacientes ingresados.

Las características clínico-demográficas de los pacientes se presentan en la *Tabla 1*.

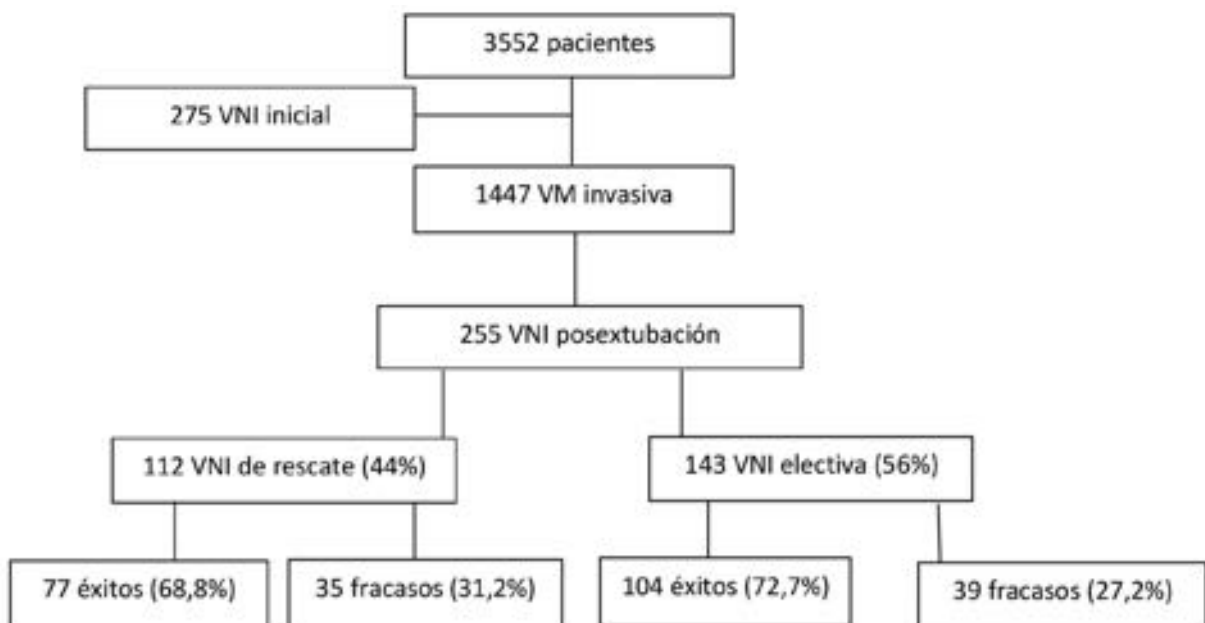
La VNIe tuvo un 72,7% de éxitos. La comparación de las variables clínicas relevantes entre los pacientes que fallaron y los que tuvieron éxito se mencionan en la *Tabla 2*.

La VNIr presentó un 68,8% de éxitos. La *Tabla 3* grafica la diferencias entre éxitos y fracasos en la VNIr.

La *total face* fue la interfase más utilizada (106 pacientes, 41,6%), seguida por máscaras oronasales (28,6%), cánula nasal (16%), máscara nasal (8,6%), máscara almohada nasal (4,3%) y por último el casco (0,8%).

El 69% de los respiradores empleados fueron microprocesados de Terapia Intensiva con software para compensar fugas; el 29% fueron respiradores intermedios y solo el 2%, binivelados de flujo continuo.

FIGURA 1. Flujograma de pacientes



VNI: ventilación no invasiva; VM: ventilación mecánica.

Los modos ventilatorios utilizados fueron presión de soporte (70,5%), presión asistido-controlada con control de presión (26,1%), soporte de presión binivel en modo espontáneo/tiempo (1,7%) y presión continua en la vía aérea (1,7%).

El análisis del total de los fracasos reveló que el 60% fracasó en forma tardía; 20%, en forma precoz, y 20%, en forma inicial. Las causas de fracaso halladas en los grupos VNIe y VNIr fueron progresión de la dificultad respiratoria (38,5% y 19,7%), obstrucción alta de la vía aérea (15,4%

y 36,3%), incapacidad de proteger la vía aérea (15,4% y 13,3%), deterioro del sensorio (11,5% y 13,3%), hipoxemia (11,5% y 6,7%) y alteración hemodinámica (7,7% y 10,7%, respectivamente). Los pacientes con antecedentes neurológicos e inmunocompromiso tuvieron mayor fracaso (n= 19, 41,3% y n= 13, 39,4%, respectivamente) en relación con otras comorbilidades, las cuales presentaron tasas de fracaso similares a la población sin secuelas previas (n= 19; 21,7%) (p= 0,007).

TABLA 1. Variables demográficas

Variable	VNI posextubación n= 255	VNI de rescate n= 112	VNI electiva n= 143
Edad (meses), mediana (Q ₂ -Q ₃)	15 (4-72)	21 (4-81)	12 (4-66)
Peso (kg), mediana (Q ₂ -Q ₃)	15 (7-26)	15 (7,5-25)	12,5 (6,75-30)
Sexo, n (%)	122 (48,4%) fem.	59 (52,3%) fem.	65 (45,4%) fem.
PIM 2, mediana (Q ₂ -Q ₃)	4,8 (1,52-10,6)	4,65 (1,5-10)	5,6 (1,54-10,8)
Diagnósticos, n (%):			
Trauma	9 (3,5%)	7 (6,3%)	2 (1,4%)
IRAB sano	70 (27,5%)	27 (24,1%)	43 (30,1%)
IRAB secuelado	47 (18,4%)	14 (12,5%)	33 (23,1%)
Posquirúrgico general	41 (16,1%)	19 (17%)	22 (15,4%)
Neuroquirúrgico	9 (3,5%)	8 (7,1%)	1 (0,7%)
Neuromuscular	9 (3,5%)	2 (1,8%)	7 (4,9%)
Inmunocomprometido	13 (5,1%)	6 (5,4%)	7 (4,9%)
Evento neurológico agudo	11 (4,3%)	5 (4,5%)	6 (4,2%)
Infección no respiratoria	24 (9,4%)	13 (11,6%)	11 (7,7%)
Insuficiencia cardíaca	3 (1,2%)	-	3 (2,1%)
Otros	19 (7,5%)	11 (9,8%)	8 (5,6%)
Motivo de ingreso a la UCIP, n (%):			
Cardiológico	10 (3,9%)	3 (2,7%)	7 (4,9%)
Respiratorio	114 (44,7%)	40 (35,7%)	74 (51,7%)
Neurológico	14 (5,5%)	8 (7,1%)	6 (4,2%)
Posquirúrgico no cardiovascular	52 (20,4%)	28 (25%)	24 (16,8%)
Shock séptico	39 (15,3%)	17 (15,2%)	22 (15,4%)
Lesión externa	12 (4,7%)	10 (8,9%)	2 (1,4%)
Otros	14 (5,5%)	6 (5,4%)	8 (5,6%)
Antecedentes, n (%):			
Cardiopatía	17 (6,7%)	4 (3,6%)	13 (9,2%)
Pulmón secuelado	25 (9,9%)	12 (10,9%)	13 (9,2%)
Lesión neurológica	46 (18,3%)	21 (19,1%)	25 (17,6%)
Inmunocomprometido	33 (13,1%)	14 (12,7%)	19 (13,4%)
Malformación de VA, hepático y digestivo	29 (11,5%)	15 (13,6%)	14 (9,9%)
Más de 1 antecedente	16 (5,2%)	5 (4,5%)	8 (5,6%)
Sin antecedentes	89 (35,3%)	41 (37,3%)	51 (35,9%)
Motivo de ingreso a VNI, n (%):			
Dificultad respiratoria	75 (28,2%)	72 (64,3%)	-
Hipoventilación	19 (7,5%)	16 (14,3%)	-
Obstrucción alta	24 (9,4%)	24 (21,4%)	-
Riesgo de fracaso de extubación	143 (54,9%)	-	143 (100%)

Q₂-Q₃: cuartil 25%-cuartil 75%; fem.: femenino; IRAB: infección respiratoria aguda baja; VA: vías aéreas; UCIP: Unidad de Cuidados Intensivos Pediátricos; PIM 2: puntaje de gravedad.

La mortalidad general de los pacientes con VNI posextubación fue de 11 pacientes (4,4%). En el grupo VNIE, se registraron 8 óbitos (5,6%), de los cuales 4 pertenecieron a los éxitos, 1 a fracaso inicial y 3 a fracasos tardíos.

En el grupo VNIr, solo 3 pacientes fallecieron, 1 fracasó en forma inicial, 1 en forma precoz y 1 en forma tardía.

DISCUSIÓN

En la población estudiada, el 71% de los pacientes logró evitar el restablecimiento de la VMI. La mediana de edad, peso y puntaje de mortalidad fue de 15 meses, 15 kg y 4,8,

respectivamente. El 48,3% de los pacientes fueron de sexo femenino y el diagnóstico más frecuente fue la infección respiratoria en el niño previamente sano. En ninguna de estas variables, se encontraron diferencias significativas entre éxitos y fracasos.

La VNIE representó el 56% de los niños estudiados. Gupta y cols. colocaron VNIE a los pacientes con alto riesgo de fracaso de extubación y a pacientes en proceso de desvinculación de la VMI, con una tasa de éxito del 74%.¹⁶ Además, James y cols. obtuvieron una tasa de éxito del 90% en la VNIE de niños que atravesaban un período posoperatorio inmediato.¹⁷ En nuestro estudio, el

TABLA 2. Ventilación no invasiva electiva

Variable	Éxitos (n= 104)	Fracasos (n= 39)	Valor de p
Edad (meses), mediana (Q ₂ -Q ₃)	12 (5-60)	15 (4-85)	0,85
Peso (kg), mediana (Q ₂ -Q ₃)	12 (7-27,5)	17 (5,75-36)	0,29
PIM 2, mediana (Q ₂ -Q ₃)	4,5 (0,95-10,8)	7,4 (2,4-11,8)	0,14
Días en la UCIP, mediana (Q ₂ -Q ₃)	21 (15-28)	28 (17-45,5)	0,019
Saturación de O ₂ (%), mediana (Q ₂ -Q ₃)	99 (97-100)	98 (97-100)	0,16
PaO ₂ (mmHg), mediana (Q ₂ -Q ₃)	148 (120-183)	138 (104-167,2)	0,61
ΔP (cmH ₂ O), mediana (Q ₂ -Q ₃)	9 (7-10)	10 (7,5-11)	0,18
PCO ₂ (mmHg), mediana (Q ₂ -Q ₃)	37 (31,2-42,3)	38,5 (33-46,5)	0,56
PEEP (cmH ₂ O), mediana (Q ₂ -Q ₃)	5 (5-6)	6 (5-7)	0,12
FiO ₂ (%), mediana (Q ₂ -Q ₃)	0,5 (0,4-0,6)	0,5 (0,4-0,6)	0,33
Días de VMI previos, mediana (Q ₂ -Q ₃)	10 (5-15)	10 (5,5-22)	0,47
Horas de VNI, mediana (Q ₂ -Q ₃)	72 (35,2-120)	24 (20-66)	< 0,001
Mortalidad, n (%)	4 (3,9%)	4 (11%)	0,1
Antecedentes, n (%)	62 (60,2%)	30 (76,9%)	0,062

Q₂-Q₃: cuartil 25%-cuartil 75%; PaO₂: presión parcial de oxígeno en sangre arterial; PCO₂: presión parcial de dióxido de carbono; PEEP: presión positiva de fin de espiración; ΔP: delta de presión; FiO₂: fracción inspirada de oxígeno; UCIP: Unidad de Cuidados Intensivos Pediátricos; VNI: ventilación no invasiva; O₂: oxígeno; PIM 2: puntaje de gravedad.

TABLA 3. Ventilación no invasiva de rescate

Variable	Éxitos (n= 77)	Fracasos (n= 35)	Valor de p
Edad (meses), mediana (Q ₂ -Q ₃)	30 (4-84)	10 (3-60)	0,6
Peso (kg), mediana (Q ₂ -Q ₃)	15 (7,2-24,7)	14 (6,5-26)	0,59
PIM 2, mediana (Q ₂ -Q ₃)	4,5 (1,8-10)	4,8 (1-9,7)	0,49
Días en la UCIP, mediana (Q ₂ -Q ₃)	15,5 (11-24,25)	22 (15-37)	0,005
Saturación de O ₂ (%), mediana (Q ₂ -Q ₃)	99 (97-100)	99 (95-100)	0,6
PAO ₂ (mmHg), mediana (Q ₂ -Q ₃)	122,7 (132,5-165,5)	101,5 (81,1-232,7)	0,2
PCO ₂ (mmHg), mediana (Q ₂ -Q ₃)	39,5 (33,7-44,1)	31,5 (29,2-37,5)	0,08
ΔP (cmH ₂ O), mediana (Q ₂ -Q ₃)	10 (7-10)	10 (8-11)	0,2
PEEP (cmH ₂ O), mediana (Q ₂ -Q ₃)	5 (5-6)	6 (5-7)	0,15
FiO ₂ (%), mediana (Q ₂ -Q ₃)	0,5 (0,4-0,6)	0,6 (0,5-0,6)	0,2
Días de VMI previos, mediana (Q ₂ -Q ₃)	5 (2,5-10)	6 (3-9)	0,33
Horas de VNI, mediana (Q ₂ -Q ₃)	66 (24-120)	24 (2-45)	< 0,001
Mortalidad, n (%)	-	3 (8,6%)	0,01
Antecedentes, n (%)	48 (62,3%)	23 (69,7%)	0,46

Q₂-Q₃: cuartil 25%-cuartil 75%; PaO₂: presión parcial de oxígeno en sangre arterial; PCO₂: presión parcial de dióxido de carbono; PEEP: presión positiva de fin de espiración; ΔP: delta de presión; FiO₂: fracción inspirada de oxígeno; UCIP: Unidad de Cuidados Intensivos Pediátricos; VNI: ventilación no invasiva; O₂: oxígeno; PIM 2: puntaje de gravedad.

éxito de la VNIe fue del 72,7%, valor semejante a los observados en trabajos similares.^{9,18} Se encontró una relación directa entre las horas de VNI y el éxito de la terapéutica, y una relación inversa entre los días de internación en la UCIP y el éxito de la VNI. Esto evidencia que los pacientes que tuvieron éxito perduraron más tiempo en VNI, pero tuvieron menor estadía en la UCIP. Aunque se considera que, dentro de nuestro estudio, algunos niños de este grupo posiblemente hubieran podido evitar la IOT sin el uso de VNIe, los potenciales efectos secundarios de esta terapéutica parecen ser mínimos.

La VNIr constituyó el 44% de los casos. Al igual que en el trabajo de Gupta y cols.,¹⁶ nuestros resultados demuestran una asociación entre la reducción de la mortalidad y el éxito del soporte ventilatorio. Además, Mayordomo-Colunga y cols. observaron un 50% de éxitos en su estudio preliminar.⁹ En este grupo, se observa 68,8% de éxitos, lo que parece lógico teniendo en cuenta que las condiciones son diferentes al grupo electivo en el que la terapéutica es profiláctica, mientras que, en la VNIr, los pacientes presentan signos de falla respiratoria. Existe escasa bibliografía acerca de la VNIr en la población pediátrica. Los estudios en la población adulta no son concluyentes con respecto a su uso. Esteban y cols., demostraron, en un trabajo multicéntrico, una mayor mortalidad en los pacientes que requirieron VNIr versus la terapia convencional y atribuyeron este efecto a la demora en los tiempos de reintubación.¹⁹ Keenan y cols., no encontraron diferencias entre los dos grupos respecto de la tasa de reintubación y la mortalidad.²⁰ Girault y cols., observaron que la VNIr fue beneficiosa en los pacientes con falla hipercápnica posextubación.²¹ Dean Hess recomendó ser cautelosos en la VNIr y no demorar la reintubación en caso de no encontrar una respuesta satisfactoria en la primera hora de su colocación.²²

En nuestro trabajo, el 15% de los pacientes que ingresaron a Cuidados Críticos requirió VNI posextubación. Esto se corresponde con lo descrito por Wolfler y cols., en un trabajo que involucró a 13 terapias intensivas de Italia, en el que encontraron un porcentaje similar.²³

La presencia de una enfermedad crónica compleja parecería ser influyente en los resultados de la aplicación de VNI.¹⁵ El 35% de la población estudiada presentó algún tipo de comorbilidad previa. Los pacientes con secuela neurológica e innocomprometidos tuvieron mayor porcentaje de fracasos. Mayordomo-Colunga y cols.

describieron una mayor tasa de fracasos en los pacientes con antecedentes neurológicos y lo atribuyeron a la hipotonía faríngea e incapacidad de proteger la vía aérea adecuadamente.⁹

El análisis de los fracasos reveló que la mayoría de los pacientes fracasó en forma tardía. Está descrito que el retraso en la reintubación puede incrementar la mortalidad, por lo que el fracaso tardío podría aumentarla.^{19,20} Sin embargo, la baja mortalidad registrada en la población estudiada no nos permitió observar la asociación con los tipos de fracasos.

Las interfases y los arneses de fijación juegan un rol trascendental en la utilización de la VNI. Desde el ingreso al país de la interfase total face en tamaños pediátricos, en el año 2013, su demanda ha aumentado y es actualmente la interfase preferida. Sus apoyos en la zona frontal, mejillas y parte anterior del mentón, zonas con mayor tejido celular subcutáneo, han permitido reducir las úlceras por decúbito y mejorar el confort de los pacientes, especialmente, en los más pequeños. Chacur y cols. encontraron que la total face fue más confortable para sus pacientes adultos que la máscara oronasal, lo que les permitió utilizarla por más tiempo, pero no observaron diferencias en cuanto a la relación éxitos-fracasos.²⁴ Lemyze y cols. pudieron evitar la intubación en pacientes adultos con falla hipercápnica que se prolongaban en VNI o que presentaban lesiones faciales al pasar de una interfase oronasal a una total face.²⁵

Los respiradores más utilizados para VNI en las UCIP son los microprocesados, que actualmente cuentan con software para poder compensar fugas. Faroux y cols. compararon en laboratorio el rendimiento de 17 respiradores para uso de VNI en pediatría simulando diferentes situaciones clínicas y pesos. Concluyeron que ningún respirador pudo responder correctamente a todas las simulaciones y presentaron dificultad para ventilar a los niños más pequeños.²⁶ El reducido esfuerzo respiratorio, la frecuencia respiratoria alta y las fugas de los pacientes pediátricos implican un desafío tecnológico importante en la evolución de los respiradores para poder responder a estas exigencias.

La naturaleza retrospectiva del trabajo lo condiciona a ser más susceptible a errores y sesgos. Además, al ser un estudio multicéntrico, se desconoce cómo se trató a cada paciente por su patología de base en cada una de las unidades participantes. Otra de las limitaciones de este estudio consiste en que no se trata de un trabajo aleatorizado y controlado, y carece de un grupo

control de pacientes que no recibieron VNI para prevenir la reintubación. En este sentido, los pacientes que recibieron VNIe pueden no haber necesitado ningún tipo de presión positiva, y esto puede haber influenciado los resultados finales. Por último, se debe considerar una limitación semántica, ya que, al ser los autores de 4 hospitales distintos, cada uno manejaba terminología propia de cada Unidad para asignar los eventos de la VNI.

CONCLUSIONES

La utilización de VNI posterior a la extubación puede ser una herramienta útil para evitar el reingreso a VMI. El diagnóstico más frecuente fue la IRAB en el niño previamente sano. Los pacientes inmunocomprometidos y con antecedentes neurológicos tuvieron mayor fracaso en relación con otras comorbilidades, las cuales presentaron tasas de fracaso similares a la población sin secuelas previas. Los pacientes que fracasaron toleraron menos horas de VNI y presentaron mayor estadía en la UCIP. Se requieren más estudios para confirmar la eficacia de la VNI posextubación en la población pediátrica, así como la influencia de las diferentes interfases y respiradores en su rendimiento. ■

REFERENCIAS

1. Mayordomo-Colunga J, Medina A, Rey C, et al. Predictores de éxito y de fracaso en la ventilación no invasiva en la bronquiolitís aguda. *An Pediatr (Barc)* 2009; 70(1):34-9.
2. Epstein SK, Ciubotaru RL, Wong JB. Effect of failed extubation on the outcome of mechanical ventilation. *Chest* 1997; 112(1):186-92.
3. Epstein SK, Nevins ML, Chung J. Effect of unplanned extubation on outcome of mechanical ventilation. *Am J Respir Crit Care Med* 2000; 161(6):1912-6.
4. Kurachek S, Newth CJ, Quasney MW, et al. Extubation failure in pediatric intensive Care: a multiple-center study of risk factors and outcomes. *Crit Care Med* 2003; 31(11):2657-64.
5. Pons Ódena M, Piqueras Marimbaldo I, Segura Matute S, et al. Aplicación de ventilación no invasiva en pacientes postoperados cardíacos. Estudio retrospectivo. *An Pediatr (Barc)* 2009; 71(1):13-9.
6. Essouri S, Chevret L, Durand P, et al. Noninvasive positive pressure ventilation: Five years of experience in a pediatric intensive care unit. *Pediatr Crit Care Med* 2006; 7(4):329-34.
7. Yañez L, Yunge M, Emilfork M, et al. A prospective, randomized, controlled trial of noninvasive ventilation in pediatric acute respiratory failure. *Pediatr Crit Care Med* 2008; 9(5):484-9.
8. Abadesso C, Nunes P, Silvestre C, et al. Non-invasive ventilation in acute respiratory failure in children. *Pediatr Rep* 2012; 4(2):e16.
9. Mayordomo-Colunga J, Medina A, Rey C, et al. Non invasive ventilation after extubation in paediatric patients: a preliminary study. *BMC Pediatr* 2010; 10:29.
10. Demaret P, Mulder A, Loeckx I, et al. Non-invasive ventilation is useful in paediatric intensive care units if children are appropriately selected and carefully monitored. *Acta Paediatr* 2015; 104(9):861-71.
11. Casas Quiroga I, Contreras Zúñiga E, Zuluaga Martínez S, et al. Diagnóstico y manejo de la insuficiencia respiratoria aguda. *Neumol Cir Tórax* 2008; 67(1):24-33.
12. Traiber C, Piva JP, Fritsher CC, et al. Profile and consequences of children requiring prolonged mechanical ventilation in three Brazilian pediatric intensive care units. *Pediatr Crit Care Med* 2009; 10(3):375-80.
13. Monteverde E, Fernández A, Poterala R, et al. Characterization of pediatric patients receiving prolonged mechanical ventilation. *Pediatr Crit Care Med* 2011; 12(6):e287-91.
14. Scala R, Naldi M. Ventilators for Noninvasive ventilation to Treat Acute Respiratory Failure. *Respir Care* 2008; 53(8):1054-80.
15. Feudtner C, Feinstein JA, Zhong W, et al. Pediatric complex chronic conditions classification system version 2: updated for ICD-10 and complex medical technology dependence and transplantation. *BMC Pediatr* 2014; 14:199.
16. Gupta P, Kuperstock J, Hashmi S, et al. Efficacy and predictors of success of noninvasive ventilation for prevention of extubation failure in critically ill children with heart disease. *Pediatr Cardiol* 2013; 34(4):964-77.
17. James C, Hallowell C, James D, et al. Predicting the success of non-invasive ventilation in preventing intubation and re-intubation in the paediatric intensive care unit. *Intensive Care Med* 2011; 37(12):1994-2001.
18. Bonora J, Frachia D, García M, et al. Ventilación no invasiva en Cuidado Intensivo Pediátrico: cuatro años de experiencia. *Arch Argent Pediatr* 2011; 109(2):124-8.
19. Esteban A, Frutos-Vivar F, Ferguson N, et al. Noninvasive Positive-Pressure Ventilation for Respiratory Failure after Extubation. *N Engl J Med* 2004; 350(24):2452-60.
20. Keenan SP, Powers C, McCormack DG, et al. Noninvasive positive-pressure Ventilation for postextubation respiratory distress: a randomized controlled trial. *JAMA* 2002; 287(24):3238-44.
21. Girault C, Bubenheim M, Abroug F, et al. Noninvasive ventilation and weaning in chronic hypercapnic respiratory failure: a randomized multicenter trial. *Am J Respir Crit Care Med* 2011; 184(6):672-9.
22. Hess D. Role of Noninvasive Ventilation in the Ventilator Discontinuation Process. *Respir Care* 2012; 57(10):1619-25.
23. Wolfler A, Calderini E, Iannella E, et al. Evolution of Noninvasive Mechanical Ventilation Use: A Cohort Study Among Italian PICUs. *Pediatr Crit Care Med* 2015; 16(5):418-27.
24. Chacur FH, Vilella Felipe LM, Fernandes CG, et al. The Total Face Mask Is More Comfortable than the Oronasal Mask in Noninvasive Ventilation but Is Not Associated with Improved Outcome. *Respiration* 2011; 82(5):426-30.
25. Lemyze M, Mallat J, Nigeon O, et al. Rescue Therapy by Switching to Total Face Mask After Failure of Face Mask-Delivered Noninvasive Ventilation in Do-Not-Intubate Patients in Acute Respiratory Failure. *Crit Care Med* 2013; 41(2):481-8.
26. Faroux B, Leroux K, Desmarais G, et al. Performance of ventilators for noninvasive positive-pressure ventilation in children. *Eur Resp J* 2008; 31(6):1300-7.

Post-extubation non-invasive ventilation in the pediatric intensive care unit: a multicenter study

Juan P. Bonora, B.S.^a, Judith Frydman, B.S.^b, Alejandra Retta, B.S.^c and Andrea Canepari, B.S.^d

ABSTRACT

Introduction. Extubation failure is a complication that increases morbidity and mortality. Non-invasive ventilation (NIV) has demonstrated to be effective as ventilatory support therapy.

Objective. To determine the rate of post-extubation NIV success and the factors associated with procedural failure or success.

Population and methods. Design: observational, retrospective, analytical, and multicenter study. All patients who required post-extubation NIV during 2014 and 2015 were included. Rescue NIV was defined as the implementation of NIV for acute respiratory failure; elective NIV was described as its implementation for prophylaxis. NIV failure was defined as the need for orotracheal intubation within the first 48 hours. The characteristics of failure and success and the types of NIV were compared, and the equipment used was assessed.

Results. Rescue NIV was required in 112 children; elective NIV, in 143. The rates of success were 68.8% and 72.7%, respectively. Mortality was higher among patients in whom rescue NIV failed compared to those with successful NIV. A longer length of stay and more days of invasive mechanical ventilation prior to extubation were observed in the elective NIV group. The most common diagnosis was acute lower respiratory tract infection in previously healthy children.

Conclusions. The use of post-extubation NIV may be a useful tool to prevent reintubation with invasive mechanical ventilation. Immunocompromised patients and those with neurological history had a higher rate of failure. Patients with failure tolerated less hours of NIV and had a longer length of stay in the pediatric intensive care unit.

Key words: non-invasive ventilation, pediatrics, tracheal extubation.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.333>

To cite: Bonora JP, Frydman J, Retta A, Canepari A. Post-extubation non-invasive ventilation in the pediatric intensive care unit: a multicenter study. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):333-339.

- Hospital de Pediatría "Prof. Dr. Juan P. Garrahan."
- Hospital Central de Pediatría de Malvinas Argentinas.
- Hospital de Niños "Dr. Ricardo Gutiérrez."
- Hospital Italiano de Buenos Aires. Autonomous City of Buenos Aires.

E-mail address:
Juan P. Bonora, B.S.:
juampabon@yahoo.com.ar

Funding:
None.

Conflict of interest:
None.

Received: 12-16-2017
Accepted: 4-19-2018

of a therapeutic approach, which, despite allowing to modify the prognosis, involves life-threatening complications that extend the length of stay in the hospital.¹

Post-extubation respiratory failure is a relatively common complication that remarkably increases morbidity and mortality.^{2,3} The rate of extubation failure among children ranges from 3% to 22%.⁴ For this reason, strategies aimed at preventing reintubation in this population are required.

Non-invasive ventilation (NIV) has gained impetus as a ventilatory support therapy for pediatric patients.^{1,5} Its implementation/administration reduces the use of accessory muscles, heart rate, and respiratory rate.¹ The main advantage of NIV is that it prevents orotracheal intubation (OTI) and, therefore, any associated risk.^{2,3}

Several studies have analyzed the use and effectiveness of NIV in pediatric patients.⁶⁻⁸ Some included all patients who required this type of ventilatory support, whereas other reports excluded post-extubation NIV from analysis because of the different characteristics of patients compared to those who had not previously received IMV.⁹

The bibliography on the use of post-extubation NIV in the pediatric population is scarce.¹⁰

OBJECTIVE

To determine the rate of post-extubation NIV success and the factors associated with procedural failure or success.

MATERIALS AND METHODS

This was an observational, retrospective, analytical, and multicenter study. The study lasted

INTRODUCTION

Respiratory failure is one of the main reasons for admission to the pediatric intensive care unit (PICU). Children frequently require invasive mechanical ventilation (IMV) as part

2 years. All patients aged 1 month to 18 years old who required post-extubation NIV between January 1st, 2014 and December 31st, 2015 in four multipurpose PICUs of tertiary care facilities were included.

Patients were extubated after a spontaneous breathing trial in accordance with the criteria in place at each facility.

Rescue NIV (rNIV) was defined as the implementation of NIV for acute respiratory failure within the first 48 hours after extubation. Respiratory failure was defined as type I or type II respiratory failure and/or upper airway obstruction.¹¹

Elective NIV (eNIV) was defined as the implementation of NIV immediately after extubation for prophylaxis due to a potential risk for failure. eNIV was implemented in patients with prolonged IMV,^{12,13} prior extubation failures, weakness caused by intrinsic muscle disease, weakness of the inspiratory muscles evidenced by a reduced diaphragmatic mobility in the ultrasound or maximal inspiratory pressure below $-20 \text{ cmH}_2\text{O}$, heart disease or relevant respiratory history.

The physical therapists working at each PICU recorded data every day using cards and collecting information from the medical records.

Interfaces included full-face masks, helmets, oronasal masks, nasal masks, and nasal cannulae. The interface choice depended on the patient's age and/or availability; full-face and oronasal masks were prioritized for acute respiratory failure patients, whereas nasal masks were reserved for chronic conditions.

Microprocessor-controlled ventilators with NIV-dedicated software, intermediate ventilators, and continuous flow bi-level ventilators were used.¹⁴ The ventilator was selected depending on its availability at each PICU.

Ventilation modes included pressure support ventilation, pressure-assist/control ventilation, bi-level pressure support delivered in the spontaneous or spontaneous/timed mode, and continuous positive airway pressure. The ventilation mode was chosen based on the patient's condition in an attempt to achieve the best patient-ventilator synchrony. The prevailing mode during NIV requirement was taken into consideration.

The ventilation strategy consisted in using positive end-expiratory pressure (PEEP) and fraction of inspired oxygen (FiO_2) levels necessary to achieve an oxygen saturation above 92%

and the assistance pressure necessary to reach a tidal volume between 8 and 10 mL/kg. Once the therapeutic target is achieved, ventilatory parameters were progressively reduced, with rotation of the interface or periodic equipment disconnection, depending on the patient's stability in terms of clinical, blood gases, and radiological parameters, until ventilatory support was removed completely.

The following outcome measures were considered: age, weight, sex, severity score (pediatric index of mortality 2, PIM2), length of stay in the PICU (days), reason for admission to the PICU (cardiac, respiratory, neurological, postoperative period after non-cardiovascular surgery, septic shock, external injury, other), diagnosis (trauma, acute lower respiratory tract infection [ALRTI], ALRTI in a patient with sequelae [from prior comorbidities], postoperative period of a general surgery, neurosurgery, neuromuscular condition, immunocompromise, acute neurological event, non-respiratory infection, heart failure, other), reason for implementation of NIV (respiratory distress, hypoventilation, upper airway obstruction, risk for extubation failure), history (sequelae of lung disease, heart disease, neurological injury, immunocompromise, airway, digestive or liver malformations, more than one factor corresponding to the history).

The different comorbidities present in the patients were classified based on the history outcome measure, considering the classification mentioned by Feudtner et al.,¹⁵ which coded patients based on the type of chronic disease.

The following parameters were monitored: partial pressure of oxygen (PO_2), saturation and partial pressure of carbon dioxide (PCO_2) prior to NIV, and delta of pressure, PEEP, FiO_2 or liters of oxygen (O_2) at NIV initiation.

To measure technique effectiveness, the following outcome measures were recorded: NIV type (rescue, elective), NIV result (success, failure), hours of NIV, days of IMV prior to extubation, and mortality. NIV failure was defined as the need for endotracheal intubation within the first 48 hours in accordance with the criteria in place at each PICU. Depending on the time of failure, initial failure was defined as the need for reintubation within the first hour; early failure, as the need for reintubation from 1 to 12 hours; and late failure (> 12 hours), as the need for reintubation in any other occasion.⁵ The reasons for failure included

progression of respiratory distress, hypoxemia, impaired sensorium, upper airway obstruction, hemodynamic alterations, and inability to protect the airway.

Statistical analysis

The sample was described using the median as a measure of central tendency and the 25-75 interquartile range as a measure of dispersion for numerical outcome measures; whereas, absolute count and percentage were used for categorical outcome measures. Numerical outcome measures were compared using the Mann-Whitney test and categorical outcome measures, using the χ^2 test. A *p* value < 0.05 was considered statistically significant. Data were analyzed using the IBM SPSS Macintosh software, version 20.0 (IBM Corp., Armonk, NY, USA).

RESULTS

A total of 255 patients who received post-extubation NIV were included. *Figure 1* shows the flow chart of included patients.

The clinical and demographic characteristics of patients are described in *Table 1*.

The success of eNIV reached 72.7%. A comparison of relevant clinical outcome measures between patients who experienced eNIV failure or success is shown in *Table 2*.

The success of rNIV reached 68.8%. *Table 3* describes the differences between patients who experienced rNIV failure or success.

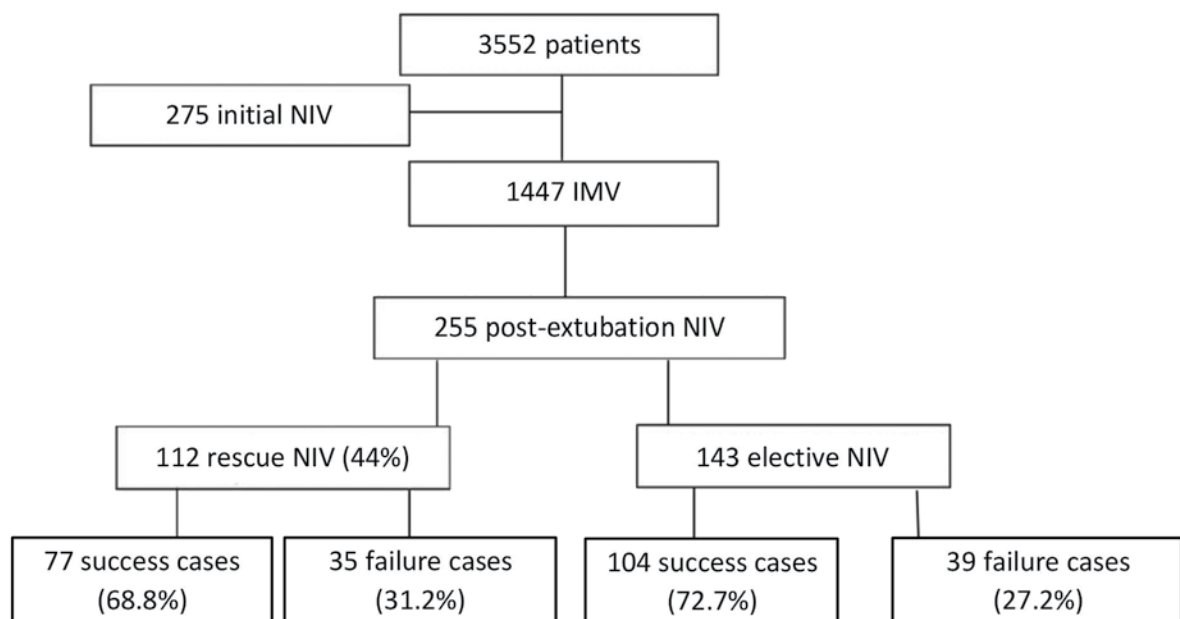
The full-face mask was the most commonly used interface (106 patients, 41.6%), followed by the oronasal mask (28.6%), nasal cannula (16%), nasal mask (8.6%), nasal pillow mask (4.3%), and helmet (0.8%).

Also, 69% of ventilators were microprocessor-controlled ventilators for intensive care with software to account for leakages; 29% were intermediate ventilators, and only 2% were continuous flow bi-level ventilators.

Ventilation modes included pressure support (70.5%), pressure assist-control (26.1%), bi-level pressure support delivered in the spontaneous/timed mode (1.7%), and continuous positive airway pressure (1.7%).

The total analysis of failures revealed that 60% corresponded to late failure; 20%, to early failure; and 20%, to initial failure. The causes of failure in the eNIV and rNIV groups were progression of respiratory distress (38.5% and 19.7%), upper airway obstruction (15.4% and 36.3%), inability to protect the airway (15.4% and 13.3%), impaired sensorium (11.5% and 13.3%), hypoxemia (11.5% and 6.7%), and hemodynamic alterations (7.7% and 10.7%, respectively). Patients with neurological history and immunocompromised

FIGURE 1. Flow chart of patients



NIV: non-invasive ventilation; IMV: invasive mechanical ventilation.

patients had a higher rate of failure ($n = 19$; 41.3% and $n = 13$; 39.4%, respectively) compared to those with other comorbidities, for whom the rate of failure was similar to that of the population without prior sequelae ($n = 19$; 21.7%) ($p = 0.007$).

The overall mortality of patients with post-extubation NIV was 4.4% (11 patients). Eight deaths (5.6%) were recorded in the eNIV group; of these, 4 corresponded to those with successful eNIV, 1 with initial failure, and 3 with late failure.

Only 3 patients died in the rNIV group: 1 case of initial failure, 1 case of early failure, and 1 case of late failure.

DISCUSSION

In the studied population, it was possible to avoid reimplementation of IMV in 71% of patients. Patients' median age, weight, and mortality score were 15 months, 15 kg, and 4.8, respectively. Besides, 48.3% of patients were girls; the most common diagnosis was respiratory infection in previously healthy children. No significant differences were observed between failure and success cases in terms of any of these outcome measures.

eNIV accounted for 56% of studied children. Gupta et al. allocated patients to receive eNIV if

TABLE 1. Demographic outcome measures

Outcome measure	Post-extubation NIV n = 255	Rescue NIV n = 112	Elective NIV n = 143
Age (months old), median (Q ₂ -Q ₃)	15 (4-72)	21 (4-81)	12 (4-66)
Weight (kg), median (Q ₂ -Q ₃)	15 (7-26)	15 (7.5-25)	12,5 (6,75-30)
Sex, n (%)	122 (48,4%) fem.	59 (52,3%) fem.	65 (45,4%) fem.
PIM2, median (Q ₂ -Q ₃)	4,8 (1,52-10,6)	4,65 (1,5-10)	5,6 (1,54-10,8)
Diagnosis, n (%):			
Trauma	9 (3.5%)	7 (6.3%)	2 (1.4%)
ALRTI in previously healthy child	70 (27.5%)	27 (24.1%)	43 (30.1%)
ALRTI in a patient with sequelae	47 (18.4%)	14 (12.5%)	33 (23.1%)
Post-operative period of a general surgery	41 (16.1%)	19 (17%)	22 (15.4%)
Neurosurgery	9 (3.5%)	8 (7.1%)	1 (0.7%)
Neuromuscular condition	9 (3.5%)	2 (1.8%)	7 (4.9%)
Immunocompromise	13 (5.1%)	6 (5.4%)	7 (4.9%)
Acute neurological event	11 (4.3%)	5 (4.5%)	6 (4.2%)
Non-respiratory infection	24 (9.4%)	13 (11.6%)	11 (7.7%)
Heart failure	3 (1.2%)	-	3 (2.1%)
Other	19 (7.5%)	11 (9.8%)	8 (5.6%)
Reason for admission to the PICU, n (%):			
Cardiac	10 (3.9%)	3 (2.7%)	7 (4.9%)
Respiratory	114 (44.7%)	40 (35.7%)	74 (51.7%)
Neurological	14 (5.5%)	8 (7.1%)	6 (4.2%)
Post-operative period after non-cardiovascular surgery	52 (20.4%)	28 (25%)	24 (16.8%)
Septic shock	39 (15.3%)	17 (15.2%)	22 (15.4%)
External injury	12 (4.7%)	10 (8.9%)	2 (1.4%)
Other	14 (5.5%)	6 (5.4%)	8 (5.6%)
History, n (%):			
Heart disease	17 (6.7%)	4 (3.6%)	13 (9.2%)
Sequelae of lung disease	25 (9.9%)	12 (10.9%)	13 (9.2%)
Neurological injury	46 (18.3%)	21 (19.1%)	25 (17.6%)
Immunocompromise	33 (13.1%)	14 (12.7%)	19 (13.4%)
Airway, liver, digestive malformation	29 (11.5%)	15 (13.6%)	14 (9.9%)
More than one factor corresponding to history	16 (5.2%)	5 (4.5%)	8 (5.6%)
No history	89 (35.3%)	41 (37.3%)	51 (35.9%)
Reason for implementation of NIV, n (%):			
Respiratory distress	75 (28.2%)	72 (64.3%)	-
Hypoventilation	19 (7.5%)	16 (14.3%)	-
Upper airway obstruction	24 (9.4%)	24 (21.4%)	-
Risk for extubation failure	143 (54.9%)	-	143 (100%)

Q₂-Q₃: 25%-75% quartile; fem.: female; ALRTI: acute lower respiratory tract infection; PICU: pediatric intensive care unit; PIM2: severity score.

they were at a high risk for extubation failure and if they were weaning from IMV, and achieved a success rate of 74%.¹⁶ In addition, James et al. reached a 90% success rate with eNIV in children who were in the immediate postoperative period.¹⁷ In our study, the success of eNIV was 72.7%, which was similar to that observed in comparable studies.^{9,18} A direct association was observed between the hours of NIV and therapeutic success, and a reverse association was noted between the length of stay in the PICU and NIV success. This evidences that patients with successful NIV remained more hours in NIV, but had a shorter stay in the PICU. Although we believe that, in our study, some children in this group would have possibly avoided OTI without

eNIV, the potential side effects of this therapy appear to be minimal.

rNIV accounted for 44% of cases. As in the study by Gupta et al.,¹⁶ our results show an association between a reduced mortality and ventilatory support success. In addition, Mayordomo-Colunga et al. observed a 50% success rate in their pilot study.⁹ In this group, the rate of success was 68.8%, which seems logical considering that conditions are different from the eNIV group that used the therapy as prophylaxis, whereas in the rNIV group patients had signs of respiratory failure. The bibliography on the use of rNIV in the pediatric population is scarce. Studies in the adult population have not been conclusive in relation to its use. Esteban et al. demonstrated,

TABLE 2. Elective non-invasive ventilation

Outcome measure	Successful (n = 104)	Failed (n = 39)	p value
Age (months old), median (Q ₂ -Q ₃)	12 (5-60)	15 (4-85)	0.85
Weight (kg), median (Q ₂ -Q ₃)	12 (7-27.5)	17 (5.75-36)	0.29
PIM ₂ , median (Q ₂ -Q ₃)	4.5 (0.95-10.8)	7.4 (2.4-11.8)	0.14
Length of stay in the PICU (days), median (Q ₂ -Q ₃)	21 (15-28)	28 (17-45.5)	0.019
O ₂ saturation (%), median (Q ₂ -Q ₃)	99 (97-100)	98 (97-100)	0.16
PaO ₂ (mmHg), median (Q ₂ -Q ₃)	148 (120-183)	138 (104-167.2)	0.61
ΔP (cmH ₂ O), median (Q ₂ -Q ₃)	9 (7-10)	10 (7.5-11)	0.18
PCO ₂ (mmHg), median (Q ₂ -Q ₃)	37 (31.2-42.3)	38.5 (33-46.5)	0.56
PEEP (cmH ₂ O), median (Q ₂ -Q ₃)	5 (5-6)	6 (5-7)	0.12
FiO ₂ , median (Q ₂ -Q ₃)	0.5 (0.4-0.6)	0.5 (0.4-0.6)	0.33
Days of prior IMV, median (Q ₂ -Q ₃)	10 (5-15)	10 (5.5-22)	0.47
Hours of NIV, median (Q ₂ -Q ₃)	72 (35.2-120)	24 (20-66)	< 0.001
Mortality, n (%)	4 (3.9%)	4 (11%)	0.1
History, n (%)	62 (60.2%)	30 (76.9%)	0.062

Q₂-Q₃: 25%-75% quartile; PaO₂: partial pressure of oxygen in arterial blood; PCO₂: partial pressure of carbon dioxide; PEEP: positive end expiratory pressure; ΔP: Delta of pressure; FiO₂: fraction of inspired oxygen; PICU: pediatric intensive care unit; NIV: non-invasive ventilation; O₂: oxygen; PIM₂: severity score.

TABLE 3. Rescue non-invasive ventilation

Outcome measure	Successful (n = 77)	Failed (n = 35)	p value
Age (months old), median (Q ₂ -Q ₃)	30 (4-84)	10 (3-60)	0.6
Weight (kg), median (Q ₂ -Q ₃)	15 (7.2-24.7)	14 (6.5-26)	0.59
PIM ₂ , median (Q ₂ -Q ₃)	4.5 (1.8-10)	4.8 (1-9.7)	0.49
Length of stay in the PICU (days), median (Q ₂ -Q ₃)	15.5 (11-24.25)	22 (15-37)	0.005
O ₂ saturation (%), median (Q ₂ -Q ₃)	99 (97-100)	99 (95-100)	0.6
PaO ₂ (mmHg), median (Q ₂ -Q ₃)	122.7 (132.5-165.5)	101.5 (81.1-232.7)	0.2
PCO ₂ (mmHg), median (Q ₂ -Q ₃)	39.5 (33.7-44.1)	31.5 (29.2-37.5)	0.08
ΔP (cmH ₂ O), median (Q ₂ -Q ₃)	10 (7-10)	10 (8-11)	0.2
PEEP (cmH ₂ O), median (Q ₂ -Q ₃)	5 (5-6)	6 (5-7)	0.15
FiO ₂ , median (Q ₂ -Q ₃)	0.5 (0.4-0.6)	0.6 (0.5-0.6)	0.2
Days of prior IMV, median (Q ₂ -Q ₃)	5 (2.5-10)	6 (3-9)	0.33
Hours of NIV, median (Q ₂ -Q ₃)	66 (24-120)	24 (2-45)	< 0.001
Mortality, n (%)	-	3 (8.6%)	0.01
History, n (%)	48 (62.3%)	23 (69.7%)	0.46

Q₂-Q₃: 25%-75% quartile; PaO₂: partial pressure of oxygen in arterial blood; PCO₂: partial pressure of carbon dioxide; PEEP: positive end expiratory pressure; ΔP: Delta of pressure; FiO₂: fraction of inspired oxygen; PICU: pediatric intensive care unit; NIV: non-invasive ventilation; O₂: oxygen; PIM₂: severity score.

in a multicenter study, a higher mortality among patients who required rNIV compared to conventional therapy, and attributed such effect to a delay in reintubation times.¹⁹ Keenan et al. did not find differences between both groups in terms of the reintubation rate and mortality.²⁰ Girault et al. observed that rNIV was beneficial for patients with hypercapnic ventilatory failure after extubation.²¹ Dean Hess recommended caution in the use of rNIV and to prevent reintubation delays if no satisfactory response is observed in the first hour of implementation.²²

In our study, 15% of patients who were admitted to the critical care unit required post-extubation NIV. This is comparable to what has been described by Wolfler et al. in a study with 13 Italian intensive care units where the percentage was similar.²³

The presence of a complex chronic disease seems to have an impact on the outcomes of NIV implementation.¹⁵ In the studied population, 35% of patients had some type of prior comorbidity. Immunocompromised patients and those with neurological sequelae showed a higher percentage of failures. Mayordomo-Colunga et al. described a higher rate of failure among patients with neurological history and attributed it to pharyngeal hypotonia and inability to protect the airway adequately.⁹

The analysis of failures revealed that most patients had a late failure. It has been described that a delay in reintubation increases mortality, so a late failure may increase it.^{19,20} However, the low mortality level observed in the studied population prevented us from establishing an association with the types of failure.

Interfaces and harnesses play a key role in NIV use. Since the introduction of the full-face mask for pediatric patients in Argentina, in 2013, there has been an increase in its demand, and, at present, it has become the preferred interface. The mask adjusts on the front, cheeks, and chin of the face, all areas where there is much subcutaneous tissue, and this has helped to reduce pressure ulcers and improve patients' comfort, especially, younger ones. Chacur et al. found that the full-face mask was more comfortable than the oronasal mask for adult patients, allowing them to use it for more time, but the authors did not find differences in the success-failure rates.²⁴ Lemyze et al. managed to prevent intubation in adult patients with hypercapnic ventilatory failure who were receiving NIV for a prolonged time or who had facial injuries when changing from an oronasal mask to the full-face mask.²⁵

Microprocessor-controlled ventilators are the most commonly used ones for NIV at the PICUs, which now include software to account for leakages. Faroux et al. compared, in a lab setting, the performance of 17 ventilators for NIV in pediatrics mimicking different clinical situations and patient weights. They concluded that no ventilator responded correctly to all simulation settings and had trouble working in younger children.²⁶ The reduced respiratory effort, the high respiratory rate, and leakages in pediatric patients are a major technological challenge that needs to be resolved by advances in ventilators.

The retrospective nature of this study makes it more susceptible to biases and errors. Besides, since this is a multicenter study, there is no information on the management of each patient's underlying condition at each participating PICU. Other limitation of this study is that it did not have a randomized, controlled design and lacked a control group with patients who did not receive NIV to prevent reintubation. In this regard, patients who received eNIV may have not required any type of positive pressure, and this may have affected the end results. Lastly, there is a semantic limitation because the authors worked in four different hospitals, so each may have used different terms typical of each PICU to record NIV events.

CONCLUSIONS

The use of post-extubation NIV may be useful to prevent the reimplementation of IMV. The most common diagnosis was ALRTI in previously healthy children. Immunocompromised patients and those with neurological history had a higher rate of failure compared to those with other comorbidities, for whom the rate of failure was similar to that of the population without prior sequelae. Patients with failure tolerated less hours of NIV and had a longer length of stay in the PICU. Further studies are required to confirm the effectiveness of post-extubation NIV in the pediatric population, as well as the influence of the different interfaces and ventilators on its performance. ■

REFERENCES

1. Mayordomo-Colunga J, Medina A, Rey C, et al. Predictores de éxito y de fracaso en la ventilación no invasiva en la bronquiolitis aguda. *An Pediatr (Barc)* 2009; 70(1):34-9.
2. Epstein SK, Ciubotaru RL, Wong JB. Effect of failed extubation on the outcome of mechanical ventilation. *Chest* 1997; 112(1):186-92.
3. Epstein SK, Nevins ML, Chung J. Effect of unplanned extubation on outcome of mechanical ventilation. *Am J Respir Crit Care Med* 2000; 161(6):1912-6.

4. Kurachek S, Newth CJ, Quasney MW, et al. Extubation failure in pediatric intensive care: a multiple-center study of risk factors and outcomes. *Crit Care Med* 2003; 31(11):2657-64.
5. Pons Ódena M, Piqueras Marimbaldó I, Segura Matute S, et al. Aplicación de ventilación no invasiva en pacientes postoperados cardíacos. Estudio retrospectivo. *An Pediatr (Barc)* 2009; 71(1):13-9.
6. Essouri S, Chevret L, Durand P, et al. Noninvasive positive pressure ventilation: Five years of experience in a pediatric intensive care unit. *Pediatr Crit Care Med* 2006; 7(4):329-34.
7. Yañez L, Yunge M, Emilfork M, et al. A prospective, randomized, controlled trial of noninvasive ventilation in pediatric acute respiratory failure. *Pediatr Crit Care Med* 2008; 9(5):484-9.
8. Abadeso C, Nunes P, Silvestre C, et al. Non-invasive ventilation in acute respiratory failure in children. *Pediatr Rep* 2012; 4(2):e16.
9. Mayordomo-Colunga J, Medina A, Rey C, et al. Non invasive ventilation after extubation in paediatric patients: a preliminary study. *BMC Pediatr* 2010; 10:29.
10. Demaret P, Mulder A, Loeckx I, et al. Non-invasive ventilation is useful in paediatric intensive care units if children are appropriately selected and carefully monitored. *Acta Paediatr* 2015; 104(9):861-71.
11. Casas Quiroga I, Contreras Zúñiga E, Zuluaga Martínez S, et al. Diagnóstico y manejo de la insuficiencia respiratoria aguda. *Neumol Cir Tórax* 2008; 67(1):24-33.
12. Traiber C, Piva JP, Fritsher CC, et al. Profile and consequences of children requiring prolonged mechanical ventilation in three Brazilian pediatric intensive care units. *Pediatr Crit Care Med* 2009; 10(3):375-80.
13. Monteverde E, Fernández A, Poterala R, et al. Characterization of pediatric patients receiving prolonged mechanical ventilation. *Pediatr Crit Care Med* 2011; 12(6):e287-91.
14. Scala R, Naldi M. Ventilators for Noninvasive ventilation to Treat Acute Respiratory Failure. *Respir Care* 2008; 53(8):1054-80.
15. Feudtner, C Feinstein JA, Zhong W, et al. Pediatric complex chronic conditions classification system version 2: updated for ICD-10 and complex medical technology dependence and transplantation. *BMC Pediatr* 2014; 14:199.
16. Gupta P, Kuperstock J, Hashmi S, et al. Efficacy and predictors of success of noninvasive ventilation for prevention of extubation failure in critically ill children with heart disease. *Pediatr Cardiol* 2013; 34(4):964-77.
17. James C, Hallewell C, James D, et al. Predicting the success of non-invasive ventilation in preventing intubation and re-intubation in the paediatric intensive care unit. *Intensive Care Med* 2011; 37(12):1994-2001.
18. Bonora J, Frachia D, García M, et al. Ventilación no invasiva en Cuidado Intensivo Pediátrico: cuatro años de experiencia. *Arch Argent Pediatr* 2011; 109(2):124-8.
19. Esteban A, Frutos-Vivar F, Ferguson N, et al. Noninvasive Positive-Pressure Ventilation for Respiratory Failure after Extubation. *N Engl J Med* 2004; 350(24):2452-60.
20. Keenan SP, Powers C, McCormack DG, et al. Noninvasive positive-pressure Ventilation for postextubation respiratory distress: a randomized controlled trial. *JAMA* 2002; 287(24):3238-44.
21. Girault C, Bubenheim M, Abroug F, et al. Noninvasive ventilation and weaning in chronic hypercapnic respiratory failure: a randomized multicenter trial. *Am J Resp Crit Care Med* 2011; 184(6):672-9.
22. Hess D. Role of Noninvasive Ventilation in the Ventilator Discontinuation Process. *Respir Care* 2012; 57(10):1619-25.
23. Wolfler A, Calderini E, Iannella E, et al. Evolution of Noninvasive Mechanical Ventilation Use: A Cohort Study Among Italian PICUs. *Pediatr Crit Care Med* 2015; 16(5):418-27.
24. Chacur FH, Vilella Felipe LM, Fernandes CG, et al. The Total Face Mask Is More Comfortable than the Oronasal Mask in Noninvasive Ventilation but Is Not Associated with Improved Outcome. *Respiration* 2011; 82(5):426-30.
25. Lemyze M, Mallat J, Nigeon O, et al. Rescue Therapy by Switching to Total Face Mask After Failure of Face Mask-Delivered Noninvasive Ventilation in Do-Not-Intubate Patients in Acute Respiratory Failure. *Crit Care Med* 2013; 41(2):481-8.
26. Faroux B, Leroux K, Desmarais G, et al. Performance of ventilators for noninvasive positive-pressure ventilation in children. *Eur Resp J* 2008; 31(6):1300-7.

Prevalencia de hipertensión arterial en escolares de Córdoba, Argentina, y su relación con el nivel socioeconómico

Prevalence of high blood pressure among schoolchildren from Córdoba, Argentina, and its relation to socioeconomic status

Dr. Agustín González Calbano^a, Dr. Manuel Álvarez Moyano^b,
Prof. Mgt. Verónica Mamondi^c y Prof. Dra. Silvina Berra^d

- Departamento de Ciencias de la Salud, Universidad Nacional del Sur, Bahía Blanca.
- Departamento de Cardiología Clínica y Cirugía Cardiorrástica, Hospital Córdoba.
- Escuela de Nutrición, Facultad de Ciencias Médicas, Universidad Nacional de Córdoba.
- Centro de Investigaciones y Estudios sobre Cultura y Sociedad (CIECS), Consejo Nacional de Investigaciones Científicas y Técnicas (CONICET)/ Universidad Nacional de Córdoba (UNC), y Escuela de Salud Pública, Facultad de Ciencias Médicas, UNC, Argentina.

RESUMEN

Introducción. Estudios previos en Argentina encontraron prevalencias variables de hipertensión arterial (HTA) en niños, utilizando diferentes métodos de medición. El objetivo de este estudio fue conocer la prevalencia de HTA en escolares de la ciudad de Córdoba y su relación con el sexo, el estado nutricional, el nivel socioeconómico (NSE) y la escolaridad materna. **Población y métodos.** Se obtuvieron mediciones de presión arterial e información sobre el NSE, la educación materna y el índice de masa corporal de niños escolarizados de la ciudad de Córdoba, Argentina. La HTA se definió como niveles de presión arterial sistólica o diastólica iguales al percentil 95 o mayores para una edad, sexo y percentil de altura determinados, en tres mediciones consecutivas realizadas en días diferentes.

Resultados. Participaron 1531 niños y niñas de 10,6 años de edad promedio. Cincuenta y cinco niños tenían HTA. Los niveles de presión arterial sistólica y diastólica se asociaron significativamente con la obesidad ($p=0,001$), pero no con la edad ($p=0,87$), el sexo (sistólica: $p=0,48$; diastólica: $p=0,71$) o el NSE (sistólica: $p=0,07$; diastólica: $p=0,09$).

Conclusiones. La prevalencia de HTA en una muestra de escolares de Argentina fue de 3,7%. Se asoció significativamente con la obesidad, pero no con el NSE.

Palabras clave: hipertensión, niño, factores socioeconómicos, índice de masa corporal.

INTRODUCCIÓN

Tradicionalmente, la hipertensión arterial (HTA) se diagnosticaba en la vida adulta; sin embargo, la evidencia del desarrollo de daño vascular en los primeros años de vida ha impulsado su estudio a edades más tempranas. Además de los distintos factores de riesgo que han sido asociados con la HTA esencial en los niños, particularmente, la obesidad, los estudios sugieren que determinantes sociales, tales como el nivel socioeconómico (NSE) y la escolaridad materna, también tendrían asociación con el diagnóstico.^{1,2}

Es conocida la variabilidad de la presión arterial (PA) en los niños, que puede oscilar en el mismo individuo en mediciones realizadas en días diferentes o incluso en el mismo día.³ Esto puede deberse al "fenómeno de alerta", el cual se define como la elevación de la PA que se produce durante la consulta. A causa de este fenómeno, 30-50% de los niños con valores anormales de PA en el consultorio presentan valores normales fuera de él.^{4,5} Este efecto se conoce como "hipertensión de bata blanca", y no existe consenso sobre su impacto o su tratamiento.⁶ En esta situación, el monitoreo ambulatorio de la presión arterial (MAPA) durante 24 horas define la presencia o no de hipertensión de bata blanca. De la misma manera, el efecto inverso, conocido como "hipertensión enmascarada", se refiere a la presencia de mediciones normales en el consultorio y valores ambulatorios anormales.⁷

Correspondencia:
Prof. Dra. Silvina Berra:
sberra@fcm.unc.edu.ar.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.340>
Texto completo en inglés:
<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.340>

Financiamiento:
Proyecto de Investigación y Desarrollo (PID) 2010. Res. N.º 000153/2011. Ministerio de Ciencia y Tecnología de la Provincia de Córdoba.

Conflicto de intereses:
Ninguno que declarar.

Recibido: 2-11-2017
Aceptado: 19-4-2018

Cómo citar: González Calbano A, Álvarez Moyano M, Mamondi V, Berra S. Prevalencia de hipertensión arterial en escolares de Córdoba, Argentina, y su relación con el nivel socioeconómico. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):340-344.

Sin embargo, la realización de un MAPA es dificultosa, costosa, y requiere de personal especialmente entrenado para su realización.⁸ Por ello, el grupo de trabajo en hipertensión del *National Heart, Lung and Blood Institute* (NHLBI) de Estados Unidos recomienda el uso de tres mediciones ambulatorias repetidas, en ocasiones diferentes alejadas entre sí.⁸

En Argentina, estudios previos encontraron prevalencias de HTA de 1,4-13,4%,⁹ aunque solo los estudios de Dumas y cols., y Díaz y cols., utilizaron el criterio del NHLBI.^{10,11} La variabilidad de la prevalencia en los distintos estudios puede deberse a la utilización de diferentes métodos de medida de la PA, tal como lo demuestran las revisiones sistemáticas realizadas en niños y adolescentes brasileiros.^{12,13} Asimismo, se conoce la asociación de la HTA en niños argentinos con factores de riesgo clásicos, pero no se conoce su relación con el NSE, lo cual es de especial importancia en países con altos niveles de desigualdad en la distribución del ingreso, como es el caso de los de América Latina.

El objetivo de este estudio fue conocer la prevalencia de HTA en escolares de la ciudad de Córdoba y su relación con el sexo, el estado nutricional, el NSE y la escolaridad materna.

POBLACIÓN Y MÉTODOS

La población del estudio fue la de alumnos regulares de cuarto, quinto y sexto grado en 2011 de las 37 escuelas públicas municipales de la ciudad de Córdoba (Argentina), que, en marzo de ese año, contaba con una matrícula de 4900 niños/as. El estudio tuvo como unidad de análisis a los niños y niñas, y a las escuelas como unidad muestral. Se conformaron dos grupos de escuelas: el primero incluyó aquellas que presentaban un 25% o menos de padres con primaria incompleta o sin estudios ($n=20$ escuelas) y el segundo, aquellas que tenían un porcentaje mayor del 25% ($n=17$ escuelas). Se seleccionaron aleatoriamente 19 escuelas (10 del primer grupo y 9 del segundo) y se incluyeron todos los alumnos de los cursos de cuarto a sexto grado, un total de 2423 escolares. Se aplicaron los siguientes criterios de exclusión: niños/as que no quisieran ser medidos, niños/as cuyos padres o tutores legales negaran su consentimiento a participar, niños/as que se encontraran ausentes al momento en que se realizaban las mediciones del estudio y la presencia de HTA secundaria conocida.

La medición de la PA se realizó utilizando un tensiómetro oscilométrico. El método

oscilométrico analiza las ondas de pulso en vez del fenómeno audible del flujo sanguíneo, por lo que, si bien el uso de un dispositivo automático elimina los sesgos del observador, cada fabricante usa su propio algoritmo para adquirir mediciones de PA y esto puede generar lecturas variables entre los dispositivos.¹⁴ Con el fin de minimizar estas diferencias, se utilizó un tensiómetro oscilométrico marca OMRON, modelo 705CP-II, validado para su uso en niños y adolescentes.¹⁵

La determinación se realizó en un ambiente tranquilo y a temperatura adecuada, con el niño sentado luego de 3 a 5 minutos de descanso. El manguito se colocó en el brazo derecho a la altura del corazón, de acuerdo con las recomendaciones de la Asociación Americana del Corazón y del NHLBI.⁸ Se realizó una medición única por visita. Los niños con PA elevada para la edad y talla en la primera medición fueron reevaluados en una segunda visita. De la misma manera, los niños que presentaron PA elevada en la segunda visita fueron reevaluados una tercera y última vez. Como no fue posible reevaluar a todos los niños citados para una segunda y tercera vez, los análisis se realizaron en relación con el número inicial de niños evaluados.

Para la medición de la talla, se utilizó un estadiómetro portátil con precisión de 0,1 cm y capacidad de 200 cm, apoyado contra una pared y con una plataforma rígida incorporada en la base. Los niños se midieron con ropa liviana y sin zapatos, de espaldas a la escala del estadiómetro. La talla se clasificó en percentilos de acuerdo con los estándares de referencia nacional.¹⁷ Los valores de PA se percentilaron de acuerdo con las referencias del NHLBI.⁸ La PA elevada fue definida como los niveles de presión arterial sistólica (PAS) o presión arterial diastólica (PAD) iguales al percentilo 95 (P95) o mayores para una determinada edad, sexo y percentilo de talla. La HTA se definió como PA igual al P95 o mayor según la edad, el sexo y el percentilo de talla, en tres mediciones sucesivas, en días alejados entre sí.

También se recogieron datos sobre la edad (años), el sexo, el nivel de educación materna y el NSE. Este último se midió con la *Family Affluence Scale* (FAS), que evaluaba los recursos materiales en el hogar del niño en términos del número de automóviles y computadoras que poseía la familia, si el niño tenía su habitación individual y las vacaciones familiares en los últimos 12 meses. El cuestionario fue respondido por los propios niños en el aula, después de una explicación por parte de un miembro capacitado del equipo de investigación.

Antes del desarrollo de las actividades de campo, se realizó una prueba piloto en una de las escuelas, con el objetivo de evaluar la factibilidad del estudio y realizar los ajustes pertinentes para minimizar errores durante la recolección de datos. Ello permitió también entrenar al equipo en lo referido al protocolo de estudio de las mediciones antropométricas y de tensión arterial en el ámbito pediátrico, con el fin de reducir la variabilidad intra- e interoperador.

Los datos se analizaron utilizando la versión 18 de SPSS para Windows. Las estadísticas descriptivas de las características de la muestra incluyeron medidas de tendencia central y de dispersión para variables cuantitativas y distribución de frecuencia para variables categóricas. Las asociaciones entre las variables se evaluaron utilizando la prueba de chi cuadrado para las variables categóricas y la prueba t de Student o análisis de la varianza (*analysis of variance*; ANOVA, por sus siglas en inglés) para las variables cuantitativas, después de verificar que los datos se hubiesen distribuido normalmente.

El protocolo fue evaluado y aprobado por el Comité Institucional de Ética en Investigación en Salud (CIEIS) del Hospital Nacional de Clínicas de Córdoba (registro número 066/10). A los padres de los niños con HTA confirmada se les informaron los resultados y se les recomendó acudir a un consultorio de pediatría.

RESULTADOS

Participaron 1531 de los 2423 niños seleccionados. Los motivos por los que algunos niños no participaron del estudio fueron: 748 no tuvieron el consentimiento informado firmado por sus padres y/o tutores, 98 se encontraban ausentes al momento de las mediciones y 46 declinaron participar por voluntad propia. La edad promedio fue de 10,6 años (rango: 8-14), sin

diferencias significativas por sexo ($p=0,95$). Al momento de la encuesta, 6 niños de cuarto grado aún no habían cumplido los 9 años de edad.

El 54% eran mujeres; 21,4% pertenecían al grupo de NSE bajo; 72,4% de las madres tenían educación primaria completa o menos; 15,2% de los niños tenían obesidad, y 22,7% tenían sobrepeso. El 24% de los niños tuvo PA > P95 en la primera toma; 7,5%, en la segunda toma y, finalmente, 55 niños (3,7%; IC 95%: 2,9-4,8) tuvieron HTA, de acuerdo con el criterio de tres mediciones iguales al P95 o mayores obtenidas en días alejados entre sí (Tabla 1). En la segunda toma, 55 niños declinaron participar o se encontraban ausentes (3,7%).

La prevalencia de hipertensión fue mayor en el grupo de los niños con obesidad ($p < 0,01$). El grupo de 8-10 años presentó una prevalencia de 3,4%, mientras que, en el grupo de 11-14 años, fue de 4,1%. Los valores medios de PAS y PAD fueron mayores en el grupo de 11-14 años, pero sin diferencias significativas (Tabla 2). No se encontraron diferencias significativas según el sexo, la edad, el NSE y la escolaridad materna (Tabla 2).

DISCUSIÓN

Los hallazgos son consistentes con los de Dumas y cols. y Díaz y cols., quienes, utilizando una metodología similar, encontraron una prevalencia de 3,4% (IC 95%: 2,4-4,7) y 4,3% (IC 95%: 2,3-7), respectivamente.^{10,11} En una muestra de niños más pequeños, Szer y cols. encontraron una prevalencia significativamente mayor (IC 95%: 7,4-11,6), pero, a diferencia de Dumas y cols., este estudio obtuvo las tres mediciones de PA en el mismo día.¹⁸ Otros estudios se realizaron en niños de mayor edad o utilizaron diferentes metodologías.⁹

A nivel regional, dos estudios que utilizaron una metodología similar arrojaron resultados

TABLA 1. Prevalencia de hipertensión arterial en cada visita, en relación con el número inicial de niños evaluados

	Primera visita		Segunda visita			Tercera visita		Total		
	n	%	n	% ^a	% válido ^b	n	% ^b	N	% ^b	% válido ^b
< P95	1164	76,0	202	13,2	13,7	55	3,7	1421	92,8	96,3
≥ P95	367	24,0	110	7,1	7,5	55	3,7	55	3,6	3,7
Perdidos			55	3,6		0	0	55	3,6	
Total	1531	100	367	24,0		110	7,5	1531	100	

^a En el cálculo del porcentaje, se incluyen los 1531 casos.

^b En el cálculo del porcentaje válido, se excluyen los 55 casos perdidos en la 2.ª visita, que da el total de 1476 casos.

mixtos: en Brasil, Rinaldi y cols., encontraron una prevalencia del 3,2%, mientras que Ferreira y cols. informaron una prevalencia de 1,9%.^{19,20} En el mismo país, Nogueira y cols., utilizando solo dos mediciones, pero con intervalo de un año, describieron una prevalencia de 0,6%.²¹ Los dos últimos resultados muestran diferencias significativas con respecto al nuestro. A nivel internacional, utilizando mediciones repetidas en ocasiones separadas entre sí, en Estados Unidos, el estudio de Sorof y cols. mostró una prevalencia de 4,5% (IC 95%: 4-5,1), y Hansen y cols. describieron una prevalencia de 3,6% (IC 95%: 3,3-3,9).^{16,22} Ninguno de los dos estudios muestran diferencias significativas con el nuestro.

Es destacable señalar que la prevalencia de HTA en la primera medición es de 24%, significativamente superior a otros estudios. Asimismo, la PA media en la primera medición es también superior a otros estudios.¹⁹ Esto puede deberse a haber realizado una toma única en la primera medición y a que, probablemente, era la primera vez que a los niños participantes se les tomaba la presión.

Los resultados confirman la relación entre obesidad infantil e HTA. Por la estrecha relación entre HTA infantil y obesidad, diversos estudios

señalan la correlación entre el aumento de la prevalencia de sobrepeso y obesidad y el aumento en la prevalencia de HTA.^{23,24} Sin embargo, en una revisión reciente, esta correlación no parece ser absoluta y, en varios países, el aumento en la prevalencia de obesidad se correlacionó negativamente con la prevalencia de HTA, lo que parece indicar que debe investigarse el papel de otros determinantes, tales como el bajo peso al nacer, los antecedentes familiares, la ingesta de sal y los niveles de actividad física, entre otros.²⁵

Los estudios previos sobre el papel del NSE en la PA en los niños han utilizado la educación materna como un indicador de NSE¹ o han utilizado cuestionarios no validados para evaluar la adecuación del ingreso.² En nuestro estudio, no hubo diferencias significativas según el NSE, medido mediante un cuestionario validado. La educación materna no se asoció con la PA, a excepción de la PAD. Sin embargo, nuestra muestra estuvo restringida a las escuelas públicas y no fue representativa de toda la población de Córdoba al excluir específicamente las escuelas privadas.

La limitación más importante de este estudio es la tasa de participación subóptima y la correspondiente pérdida de seguimiento de

TABLA 2. Valores de presión arterial sistólica y diastólica y porcentaje clasificado como hipertensión arterial después de tres mediciones en días diferentes, en niños de las escuelas municipales de la ciudad de Córdoba, 2011

Características	n	PAS promedio	P ANOVA	PAD promedio	P ANOVA	% con HTA (n)	P chi ²
Sexo							
Masculino	675	110,74	0,482	64,06	0,717	4,6 (31)	0,07
Femenino	801	110,41		64,28		3,0 (24)	
Edad							
De 8 a 10 años	734	107,75	0,937	63,78	0,252	3,4 (24)	0,46
De 11 a 14 años	797	113,16		64,56		4,1 (31)	
NSE							
Bajo	318	110,06	0,074	64,03	0,089	4,2 (13)	0,90
Medio	797	110,74		64,21		3,7 (28)	
Alto	371	110,66		64,44		3,9 (14)	
Educación materna							
Bajo (hasta primario completo)	318	110,24	0,16	63,78	0,04	3,7 (32)	0,59
Medio (hasta secundario completo)	797	111,35		65,66		4,1 (11)	
Alto (hasta universitario completo)	371	110,68		64,29		6,4 (4)	
Estado nutricional (OMS)							
Bajo peso-normal	916	106,28	< 0,01	62,28	< 0,01	0,7 (6)	< 0,01
Sobrepeso	335	113,86		64,76		3,6 (12)	
Obesidad	224	121,81		70,4		16,5 (37)	

PAS: presión arterial sistólica; PAD: presión arterial diastólica; ANOVA: análisis de la varianza; HTA: hipertensión arterial; NSE: nivel socioeconómico; OMS: Organización Mundial de la Salud.

algunos individuos en quienes la PA debería haber sido reevaluada. Estos niños no concurren a la escuela con frecuencia, y se puede suponer que esta conducta está asociada con características familiares más desfavorables. Sin embargo, el estudio de Sorof y cols. tiene una pérdida de seguimiento similar, y la prevalencia de HTA no presenta diferencias significativas ni con el nuestro ni con otros trabajos que utilizaron la misma metodología.¹⁶

La principal fortaleza de esta investigación es el uso de la metodología recomendada para la definición de HTA en niños. Otras radican en un tamaño de muestra lo suficientemente grande para una precisión adecuada, la recopilación de datos por parte de un equipo capacitado para minimizar la variabilidad intra- e interoperador, y la utilización de un indicador de NSE de amplio uso internacional.

CONCLUSIÓN

La prevalencia de HTA en una muestra de niños escolares de Argentina, de acuerdo con la metodología recomendada a nivel internacional, fue de 3,7%. La prevalencia de HTA en esta muestra estuvo asociada significativamente a la prevalencia de obesidad, pero no al NSE. ■

REFERENCIAS

- Bouthoorn SH, Van Lenthe FJ, De Jonge LL, et al. Maternal educational level and blood pressure, aortic stiffness, cardiovascular structure and functioning in childhood: the generation R study. *Am J Hypertens* 2014; 27(1):89-98.
- Van den Berg G, van Eijsden M, Galindo-Garre F, et al. Explaining socioeconomic inequalities in childhood blood pressure and prehypertension: the ABCD study. *Hypertension* 2013; 61(1):35-41.
- Osborne R, Mullin CS, Roberson PK. The variability of blood pressure measurements in children. *Am J Public Health* 1983; 73(10):1207-10.
- Ogborn MR, Crocker JF. Investigation of pediatric hypertension. Use of a tailored protocol. *Am J Dis Child* 1987; 141(11):1205-9.
- Tschumi S, Noti S, Bucher BS, et al. Is childhood blood pressure higher before or after clinic consultation? *Acta Paediatr* 2011; 100(5):775-7.
- Jurko A, Minarik M, Jurko T, et al. White coat hypertension in pediatrics. *Ital J Pediatr* 2016; 42:4.
- Pickering TG, Davidson K, Gerin W, et al. Masked hypertension. *Hypertension* 2002; 40(6):795-6.
- National High Blood Pressure Education Program Working Group on Children and Adolescents. The Fourth Report on the Diagnosis, Evaluation, and Treatment of High Blood Pressure in Children and Adolescents. *Pediatrics* 2004; 114(2 Suppl 4th Report):555-76.
- Díaz A, Calandra L. Presión arterial elevada en niños y adolescentes escolarizados de Argentina en los últimos 25 años: revisión sistemática de estudios observacionales. *Arch Argent Pediatr* 2017; 115(1):5-11.
- Dumas LV, López Cross SA, Peroni DS, et al. Detección de hipertensión arterial en niños en edad escolar. *Rev Fac Cien Med (Córdoba)* 2005; 62(3):47-52.
- Díaz A, Tringler M, Molina JD, et al. Control de la presión arterial y prevalencia de hipertensión arterial en niños y adolescentes de una población rural de Argentina: Datos preliminares del Proyecto Vela. *Arch Argent Pediatr* 2010; 108(1):68-70.
- Bezerra M, Soares P, Leite E, et al. Hipertensão em crianças e adolescentes: revisão sistemática sobre prevalência e fatores de risco. *Rev Enferm UFPE on line* 2013; 7(8):5813-22.
- Magalhaes MG, Oliveira LM, Christofaro DG, et al. Prevalence of high blood pressure in Brazilian adolescents and quality of the employed methodological procedures: systematic review. *Rev Bras Epidemiol* 2013; 16(4):849-59.
- Bonnafoux P. Auscultatory and oscillometric methods of ambulatory blood pressure monitoring, advantages and limits: a technical point of view. *Blood Press Monit* 1996; 1(3):181-5.
- Stergiou GS, Yiannes NG, Rarra VC. Validation of the Omron 705IT oscillometric device for home blood pressure measurement in children and adolescents: the Arsakion School Study. *Blood Press Monit* 2006; 11(4):229-34.
- Sorof JM, Lai D, Turner J, et al. Overweight, ethnicity, and the prevalence of hypertension in school-aged children. *Pediatrics* 2004; 113(3 Pt 1):475-82.
- De Onis M, Onyango AW, Borghi E, et al. Development of a WHO growth reference for school-aged children and adolescents. *Bull World Health Organ* 2007; 85(9):660-7.
- Szer G, Kovalskys I, De Gregorio MJ. Prevalencia de sobrepeso, obesidad y su relación con hipertensión arterial y centralización del tejido adiposo en escolares. *Arch Argent Pediatr* 2010; 108(6):492-8.
- Rinaldi AEM, Nogueira PCK, Riyuzo M, et al. Prevalência de pressão arterial elevada em crianças e adolescentes do ensino fundamental. *Rev Paul Pediatr* 2012; 30(1):79-86.
- Ferreira CEF, Faria RJ, Bazoni PS. Hipertensão arterial em crianças e adolescentes moradores da região do Caparaó, ES, Brasil. *Rev Bras Cardiol* 2013; 26(4):267-71.
- Nogueira PCK, Costa RFd, Cunha JSN, et al. Pressão arterial elevada em escolares de Santos: relação com a obesidade. *Rev Assoc Med Bras* 2007; 53(5):426-32.
- Hansen ML, Gunn PW, Kaelber DC. Underdiagnosis of hypertension in children and adolescents. *JAMA* 2007; 298(8):874-9.
- Rosner B, Cook NR, Daniels S, et al. Childhood blood pressure trends and risk factors for high blood pressure: the NHANES experience 1988-2008. *Hypertension* 2013; 62(2):247-54.
- Din-Dzietham R, Liu Y, Bielo MV, et al. High blood pressure trends in children and adolescents in national surveys, 1963 to 2002. *Circulation* 2007; 116(13):1488-96.
- Roulet C, Bovet P, Brauchli T, et al. Secular trends in blood pressure in children: A systematic review. *J Clin Hypertens (Greenwich)* 2017; 19(5):488-97.

Prevalence of high blood pressure among schoolchildren from Córdoba, Argentina, and its relation to socioeconomic status

Agustín González Calbano, M.D.^a, Manuel Álvarez Moyano, M.D.^b,
Prof. Verónica Mamondi, MPH and Prof. Silvina Berra, PhD.^d

ABSTRACT

Introduction. Prior studies conducted in Argentina found variable prevalence rates of high blood pressure (HBP) among children using different measurement methods. The objective of this study was to know the prevalence of HBP among schoolchildren from the city of Córdoba and its relation to sex, nutritional status, socioeconomic status (SES), and level of maternal education.

Population and methods. Blood pressure measurements and information on SES, level of maternal education, and body mass index of schoolchildren from the city of Córdoba, Argentina, were obtained. HBP was defined as systolic or diastolic blood pressure levels that are greater than or equal to the 95th percentile for a given age, sex, and height percentile at three consecutive measurements on separate days.

Results. A total of 1531 boys and girls participated; their average age was 10.6 years. Fifty-five children had HBP. Systolic and diastolic blood pressure levels showed a significant association with obesity ($p = 0.001$), but not with age ($p = 0.87$), sex (systolic: $p = 0.48$; diastolic: $p = 0.71$) or SES (systolic: $p = 0.07$; diastolic: $p = 0.09$).

Conclusions. The prevalence of HBP in a sample of schoolchildren from Argentina was 3.7%. It showed a significant association with obesity, but not with SES.

Key words: hypertension, child, socioeconomic factors, body mass index.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.340>

- a. Department of Health Sciences, Universidad Nacional del Sur, Bahía Blanca.
- b. Department of Clinical Cardiology and Cardiothoracic Surgery, Hospital Córdoba.
- c. School of Nutrition, Facultad de Ciencias Médicas, Universidad Nacional de Córdoba.
- d. Center for Research and Studies on Culture and Society (CIECS), National Scientific and Technical Research Council (CONICET), Universidad Nacional de Córdoba, Argentina.

E-mail address:
Silvina Berra, PhD:
sberra@fcm.unc.edu.ar

Funding:
Research and Development Project 2010. Res. no. 000153/2011. Ministry of Science and Technology of the province of Córdoba.

Conflict of interest:
None.

Received: 11-2-2017
Accepted: 4-19-2018

To cite: González Calbano A, Álvarez Moyano M, Mamondi V, Berra S. Prevalence of high blood pressure among schoolchildren from Córdoba, Argentina, and its relation to socioeconomic status. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):340-344.

INTRODUCTION

Traditionally, high blood pressure (HBP) used to be diagnosed in adult life; however, the evidence of vascular damage developing in the first years of life has prompted its study at earlier ages. In addition to the different risk factors that have been associated with essential HBP among children, specifically obesity, studies have suggested that social

determinants such as socioeconomic status (SES) and the level of maternal education may also be associated with this diagnosis.^{1,2}

It is known that pediatric blood pressure (BP) varies and a child's BP readings may fluctuate day by day or even within the same day.³ This may be due to the "alerting response", which is defined as an increase in BP noticed during the medical consultation. Because of this phenomenon, 30-50% of children with abnormal BP values at the physician's office have normal values once outside.^{4,5} Such effect is known as "white coat hypertension" and there is no consensus on its impact or management.⁶ In this situation, ambulatory blood pressure monitoring (ABPM) over 24 hours defines the presence or absence of white coat hypertension. Likewise, there is a reverse effect known as "masked hypertension," that refers to the presence of normal measurements at the physician's office and abnormal ambulatory values.⁷

However, ABPM is complicated and costly, and requires staff especially trained on this method.⁸ For this reason, the National High Blood Pressure Education Program Working Group on Children and Adolescents of the National Heart, Lung and Blood Institute (NHLBI) of the United States has recommended the use of three repeated ambulatory measurements on separate occasions, far from each other.⁸

In Argentina, prior studies found that the prevalence of HBP ranged from 1.4% to 13.4%,⁹ although only the studies by Dumas et al. and Díaz et al. used the NHLBI's criterion.^{10,11}

The variability in the prevalence observed by the different studies may be due to the use of diverse methods to measure BP, as shown by the systematic reviews done in Brazilian children and adolescents.^{12,13} Likewise, among Argentine children, there is a known association between HBP and typical risk factors, but there is no knowledge on its relation to SES, which is especially relevant in countries with a highly unequal income distribution, as observed in Latin America.

The objective of this study was to know the prevalence of HBP among schoolchildren from the city of Córdoba and its relation to sex, nutritional status, SES, and level of maternal education.

POPULATION AND METHODS

The study population was made up of regular students who were in fourth, fifth, and sixth grade in 2011 at the 37 municipal public schools from the city of Córdoba (Argentina), which, in March 2011, had 4900 children enrolled. Children represented the study's unit of analysis and schools, the unit of sampling. Two school groups were established: the first one included those where 25% or less of parents had no education or incomplete primary education (n= 20 schools) and the second one was made up of those schools where such level of education corresponded to more than 25% of parents (n= 17 schools). Nineteen schools were randomly SEcted (10 from the first group and 9 from the second one) and all students from fourth to sixth grade were included, for a total of 2423 schoolchildren. The following exclusion criteria were applied: children who refused to have measurements taken, children whose parents or legal guardians refused to give their consent to participate, children who were absent at the time of study measurements, and children with known secondary HBP.

BP was measured using an oscillometric sphygmomanometer. The oscillometric method analyzes pulse waves instead of the audible blood flow; therefore, although using an automatic device rules out observer bias, each manufacturer uses its own algorithms to obtain BP measurements, and this may lead to variable readings among the different devices.¹⁴ In order to minimize such differences, we used the OMRON 705CP-II oscillometric sphygmomanometer, which has been validated for its use in children and adolescents.¹⁵

Measurements were taken in a quiet room at the right temperature, with the child sitting

down after resting for 3-5 minutes. The cuff was positioned on the right arm, at the height of the heart, according to the recommendations made by the American Heart Association and the NHLBI.⁸ A single measurement was taken per visit. Children with elevated BP for their age and height at the first measurement were reassessed at a second visit. Likewise, children with elevated BP at the second visit were reassessed at a third, final visit. Since it was not possible to reassess all children who had been asked to return for a second and third visit, analyses were done considering the initial number of assessed children.

Height was measured using a portable stadiometer with a 0.1 cm precision and a range up to 200 cm, attached to a wall and with a rigid platform placed in the base. Children were measured in light clothing and barefoot, with their back against the scale of the stadiometer. Height was classified in percentiles according to the national reference standards.¹⁷ BP percentiles were estimated according to the NHLBI standards.⁸ Elevated BP was defined as systolic blood pressure (SBP) or diastolic blood pressure (DBP) greater than or equal to the 95th percentile (P95) for a given age, sex, and height percentile. HBP was defined as a BP greater than or equal to the P95 for age, sex, and height percentile in three measurements on separate nonconsecutive days.

Data on age (years), sex, level of maternal education, and SES were also collected. The SES was measured using the Family Affluence Scale (FAS), which assesses the child's household material resources in terms of number of cars and computers owned by the family, whether the child has his/her own room, and family vacations in the past 12 months. The questionnaire was completed by children themselves in the classroom, after receiving an explanation by a trained member of the research team.

Before developing field activities, a pilot test was carried out in one of the schools in order to test the study feasibility and make the necessary adjustments to minimize errors during data collection. This was also helpful to train the team on the study protocol regarding anthropometric and blood pressure measurements in the pediatric setting to reduce intra- and inter-observer variability.

Data were analyzed using the SPSS software, version 18 for Windows. The descriptive statistics of the sample characteristics included measures of central tendency and dispersion for quantitative

outcome measures and frequency distribution for categorical outcome measures. The association among outcome measures was assessed using the χ^2 test for categorical outcome measures and Student's t test or an analysis of variance (ANOVA) for quantitative outcome measures once it was confirmed that data had a normal distribution.

The protocol was reviewed and approved by the Institutional Ethics Committee in Health Research (*Comité Institucional de Ética en Investigación en Salud*, CIEIS) of Hospital Nacional de Clínicas de Córdoba (file no. 066/10). The results of children with confirmed HBP were communicated to their parents, together with a recommendation to see a pediatrician.

RESULTS

A total of 1531 children participated out of 2423 who had been SESelected. The following are the reasons why some children did not take part in the study: 748 did not have their parents' or legal guardian's informed consent, 98 were absent at the time of the measurements, and 46 refused to participate on their own. Participants' average age was 10.6 years (range: 8-14), and no significant differences were observed by sex ($p=0.95$). At the time of the survey, 6 children in fourth grade had not turned 9 years old yet.

Also, 54% of participants were girls; 21.4% had a low SES; 72.4% of mothers had completed primary education or less; 15.2% of children were obese, and 22.7%, overweight. At the first measurement, 24% of children had a BP \geq P95; at the second measurement, 7.5%; and at the final measurement, 3.7% (55 children, 95% confidence interval [CI]: 2.9-4.8), based on the criterion of three measurements greater than or equal to the P95 on nonconsecutive days (*Table 1*). At the second measurement, 55 children refused to participate or were absent (3.7%).

The prevalence of HBP was higher in the

group of obese children ($p < 0.01$). The prevalence in the 8-to-10-year-old group was 3.4%, whereas in the 11-to-14-year-old group, it was 4.1%. Mean SBP and DBP were higher in the 11-to-14-year-old group, but no significant differences were observed (*Table 2*). Also, no significant difference was noted in terms of sex, age, SES, and level of maternal education (*Table 2*).

DISCUSSION

Findings are consistent with those of Dumas et al. and Díaz et al., who found, using a similar methodology, a prevalence of 3.4% (95% CI: 2.4-4.7) and 4.3% (95% CI: 2.3-7), respectively.^{10,11} In a sample of younger children, Szer et al. found a significantly higher prevalence (95% CI: 7.4-11.6), but, unlike Dumas et al., that study made three BP measurements within the same day.¹⁸ Other studies were done in older children or using different methodologies.⁹

At a regional level, two studies using a similar methodology found mixed results: in Brazil, Rinaldi et al. found a prevalence of 3.2%, whereas Ferreira et al. reported a prevalence of 1.9%.^{19,20} Also in Brazil, Nogueira et al. used only two measurements but with a 1-year interval and described a prevalence of 0.6%.²¹ The two latter results are significantly different from our results. At an international level, in the United States and using repeated measurements on separate occasions, Sorof et al. found a 4.5% prevalence (95% CI: 4-5.1) and Hansen et al. described a 3.6% prevalence (95% CI: 3.3-3.9).^{16,22} None of those studies showed significant differences with our study.

It is worth noting that HBP prevalence at the first measurement was 24%, significantly higher than what has been observed in other studies. In addition, the mean BP value at the first measurement was also higher than that of other studies.¹⁹ This may be because we did a single measurement at the first visit and also probably because this was the first time participating

TABLE 1. Prevalence of high blood pressure at each visit, in relation to the initial number of assessed children

	First visit		Second visit			Third visit		Total		
	n	%	n	% ^a	% valid ^b	n	% ^b	N	% ^b	% valid ^b
< P95	1164	76.0	202	13.2	13.7	55	3.7	1421	92.8	96.3
\geq P95	367	24.0	110	7.1	7.5	55	3.7	55	3.6	3.7
Lost-to-follow-up			55	3.6		0	0	55	3.6	
Total	1531	100	367	24.0		110	7.5	1531	100	

^a The percentage estimation includes the 1531 cases.

^b The valid percentage estimation excluded the 55 cases who were lost-to-follow-up at the second visit, for a total of 1476 cases.

children had their BP measured.

The results confirm the relation between childhood obesity and HBP. Given the close relation between childhood HBP and obesity, several studies have pointed out the correlation between the increase of overweight and obesity prevalence and the increase of HBP prevalence.^{23,24} However, in a recent review, this correlation does not seem to be absolute and, in several countries, the increase in the prevalence of obesity showed a negative correlation to HBP prevalence; this suggests that the role of other determinants, such as low birth weight, family history, salt intake, and physical activity, among others, should be studied.²⁵

Prior studies on the role of SES in children's BP used the level of maternal education as a SES indicator¹ or questionnaires that had not been validated to assess income adequacy.² In our study, no significant differences were observed by SES, which was measured using a validated questionnaire. The level of maternal education was not associated with BP, except for DBP. However, our sample was restricted to public schools and was not representative of the entire Córdoba population because private schools were specifically excluded.

The major limitation of this study was a

suboptimal participation rate and the corresponding loss to follow-up of some participants whose BP should have been reassessed. These children often miss school; it may be assumed that such behavior is associated with more unfavorable family conditions. However, the study by Sorof et al. described a similar rate of loss to follow-up, and their HBP prevalence was not significantly different from our study or other studies using the same methodology.¹⁶

The main strength of this study was the use of the recommended methodology to define HBP in children. Other strengths were that the sample size was large enough for an adequate accuracy, data were collected by a trained team to minimize intra- and inter-observer variability, and that the SES indicator of our study is widely used at the international level.

CONCLUSION

The prevalence of HBP in a sample of schoolchildren from Argentina, based on the internationally recommended methodology, was 3.7%. The prevalence of HBP in this sample showed a significant association with the prevalence of obesity, but not with SES. ■

TABLE 2. Systolic and diastolic blood pressure values and percentage classified as high blood pressure after three measurements on separate days in students from municipal schools of the city of Córdoba, 2011

Characteristics	n	Average SBP	P ANOVA	Average DBP	P ANOVA	% with HBP (n)	P χ^2
Sex							
Male	675	110.74	0.482	64.06	0.717	4.6 (31)	0.07
Female	801	110.41		64.28		3.0 (24)	
Age							
8 to 10 years old	734	107.75	0.937	63.78	0.252	3.4 (24)	0.46
11 to 14 years old	797	113.16		64.56		4.1 (31)	
SES							
Low	318	110.06	0.074	64.03	0.089	4.2 (13)	0.90
Middle	797	110.74		64.21		3.7 (28)	
High	371	110.66		64.44		3.9 (14)	
Level of maternal education							
Low (primary education or less)	318	110.24	0.16	63.78	0.04	3.7 (32)	0.59
Middle (secondary education or less)	797	111.35		65.66		4.1 (11)	
High (university education or less)	371	110.68		64.29		6.4 (4)	
Nutritional status (WHO):							
Underweight-normal weight	916	106.28	< 0.01	62.28	< 0.01	0.7 (6)	< 0.01
Overweight	335	113.86		64.76		3.6 (12)	
Obesity	224	121.81		70.4		16.5 (37)	

SBP: systolic blood pressure; DBP: diastolic blood pressure; ANOVA: analysis of variance; HBP: high blood pressure; SES: socioeconomic status; WHO: World Health Organization.

REFERENCES

- Bouthoorn SH, Van Lenthe FJ, De Jonge LL, et al. Maternal educational level and blood pressure, aortic stiffness, cardiovascular structure and functioning in childhood: the generation R study. *Am J Hypertens* 2014; 27(1):89-98.
- Van den Berg G, van Eijsden M, Galindo-Garre F, et al. Explaining socioeconomic inequalities in childhood blood pressure and prehypertension: the ABCD study. *Hypertension* 2013; 61(1):35-41.
- Osborne R, Mullin CS, Roberson PK. The variability of blood pressure measurements in children. *Am J Public Health* 1983; 73(10):1207-10.
- Ogborn MR, Crocker JF. Investigation of pediatric hypertension. Use of a tailored protocol. *Am J Dis Child* 1987; 141(11):1205-9.
- Tschumi S, Noti S, Bucher BS, et al. Is childhood blood pressure higher before or after clinic consultation? *Acta Paediatr* 2011; 100(5):775-7.
- Jurko A, Minarik M, Jurko T, et al. White coat hypertension in pediatrics. *Ital J Pediatr* 2016; 42:4.
- Pickering TG, Davidson K, Gerin W, et al. Masked hypertension. *Hypertension* 2002; 40(6):795-6.
- National High Blood Pressure Education Program Working Group on Children and Adolescents. The Fourth Report on the Diagnosis, Evaluation, and Treatment of High Blood Pressure in Children and Adolescents. *Pediatrics* 2004; 114(2 Suppl 4th Report):555-76.
- Díaz A, Calandra L. Presión arterial elevada en niños y adolescentes escolarizados de Argentina en los últimos 25 años: revisión sistemática de estudios observacionales. *Arch Argent Pediatr* 2017; 115(1):5-11.
- Dumas LV, López Cross SA, Peroni DS, et al. Detección de hipertensión arterial en niños en edad escolar. *Rev Fac Cien Med (Córdoba)* 2005; 62(3):47-52.
- Díaz A, Tringler M, Molina JD, et al. Control de la presión arterial y prevalencia de hipertensión arterial en niños y adolescentes de una población rural de Argentina: Datos preliminares del Proyecto Vela. *Arch Argent Pediatr* 2010; 108(1):68-70.
- Bezerra M, Soares P, Leite E, et al. Hipertensão em crianças e adolescentes: revisão sistemática sobre prevalência e fatores de risco. *Rev Enferm UFPE* on line 2013; 7(8):5813-22.
- Magalhaes MG, Oliveira LM, Christofaro DG, et al. Prevalence of high blood pressure in Brazilian adolescents and quality of the employed methodological procedures: systematic review. *Rev Bras Epidemiol* 2013; 16(4):849-59.
- Bonnafox P. Auscultatory and oscillometric methods of ambulatory blood pressure monitoring, advantages and limits: a technical point of view. *Blood Press Monit* 1996; 1(3):181-5.
- Stergiou GS, Yiannes NG, Rarra VC. Validation of the Omron 705 IT oscillometric device for home blood pressure measurement in children and adolescents: the Arsakion School Study. *Blood Press Monit* 2006; 11(4):229-34.
- Sorof JM, Lai D, Turner J, et al. Overweight, ethnicity, and the prevalence of hypertension in school-aged children. *Pediatrics* 2004; 113(3 Pt 1):475-82.
- De Onis M, Onyango AW, Borghi E, et al. Development of a WHO growth reference for school-aged children and adolescents. *Bull World Health Organ* 2007; 85(9):660-7.
- Szer G, Kovalskys I, De Gregorio MJ. Prevalencia de sobrepeso, obesidad y su relación con hipertensión arterial y centralización del tejido adiposo en escolares. *Arch Argent Pediatr* 2010; 108(6):492-8.
- Rinaldi AEM, Nogueira PCK, Riyuzo M, et al. Prevalência de pressão arterial elevada em crianças e adolescentes do ensino fundamental. *Rev Paul Pediatr* 2012; 30(1):79-86.
- Ferreira CEF, Faria RJ, Bazoni PS. Hipertensão arterial em crianças e adolescentes moradores da região do Caparaó, ES, Brasil. *Rev Bras Cardiol* 2013; 26(4):267-71.
- Nogueira PCK, Costa RFd, Cunha JSN, et al. Pressão arterial elevada em escolares de Santos: relação com a obesidade. *Rev Assoc Med Bras* 2007; 53(5):426-32.
- Hansen ML, Gunn PW, Kaelber DC. Underdiagnosis of hypertension in children and adolescents. *JAMA* 2007; 298(8):874-9.
- Rosner B, Cook NR, Daniels S, et al. Childhood blood pressure trends and risk factors for high blood pressure: the NHANES experience 1988-2008. *Hypertension* 2013; 62(2):247-54.
- Din-Dzietham R, Liu Y, Bielo MV, et al. High blood pressure trends in children and adolescents in national surveys, 1963 to 2002. *Circulation* 2007; 116(13):1488-96.
- Roulet C, Bovet P, Brauchli T, et al. Secular trends in blood pressure in children: A systematic review. *J Clin Hypertens (Greenwich)* 2017; 19(5):488-97.

Descripción del consumo de nutrientes según el nivel de procesamiento industrial de los alimentos. Encuesta Nacional de Nutrición y Salud - 2005

Description of nutrient consumption based on the level of industrial food processing. National Survey on Nutrition and Health of 2005

Lic. Ignacio Drake^a, Dr. Enrique Abeyá Gilardon^a, Mag. Guadalupe Mangialavori^a y Lic. Ana Biglieri^a

RESUMEN

Los avances tecnológicos y el cambio de estilos de vida se reflejan en mayor consumo de alimentos procesados y ultraprocesados respecto de los naturales. Con datos de la Encuesta Nacional de Nutrición y Salud, se describe el consumo de esos alimentos y su relación con condiciones de vida en tres grupos etarios de Argentina (niñas y niños de 6-23 meses, niñas y niños de 2-5 años y mujeres de 10-49 años).

El consumo en niños de 6-23 meses es alto en nutrientes provenientes de alimentos naturales: calcio (75,9%), proteínas (72,7%), hierro (71,5%) y fibra (68,9%). En niños de 2-5 años, desciende significativamente. En las mujeres, disminuye aún más. La proporción del aporte de energía de productos ultraprocesados es mayor en la población de más altos ingresos respecto de los bajos ingresos en todos los grupos poblacionales.

Palabras clave: industria de alimentos, epidemiología, Argentina, alimentos, encuestas nutricionales.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.345>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.345>

Cómo citar: Drake I, Abeyá Gilardon E, Mangialavori G, Biglieri A. Descripción del consumo de nutrientes según el nivel de procesamiento industrial de los alimentos. Encuesta Nacional de Nutrición y Salud - 2005. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):345-352.

a. Área de Nutrición, Dirección Nacional de Maternidad, Infancia y Adolescencia, Ciudad de Buenos Aires, Argentina.

Correspondencia:
Lic. Ignacio Drake:
ignacio.drake@gmail.com

Financiamiento:
Ninguno.

Conflicto de intereses:
Ninguno que declarar.

Recibido: 28-7-2017
Aceptado: 14-2-2018

INTRODUCCIÓN

A nivel mundial, se observa un crecimiento sostenido de la carga de morbilidad asociada a enfermedades crónicas no transmisibles (ECNT) y sus condicionantes, particularmente, el sobrepeso y la obesidad.^{1,2} Este problema adquiere las características de pandemia y hay evidencia que lo atribuye al aumento del consumo de energía a través de alimentos y bebidas con un alto nivel de procesamiento.³ Esta carga de

morbilidad no afecta a todos por igual, sino de manera inequitativa: son más afectadas las poblaciones con bajos recursos socioeconómicos.^{4,6}

Desde hace tiempo, la industria de la alimentación ha favorecido la proliferación de productos ultraprocesados con desarrollos tecnológicos que refuerzan los aspectos positivos de sabor, textura, aroma, etc., pero que son poco saludables y tienen consecuencias en las ECNT.^{7,8} Asimismo, los productos ultraprocesados contienen menos proteínas, fibras, más azúcares libres, sodio, grasas totales y saturadas y alta densidad energética, cuyo consumo elevado promueve perfiles de nutrición muy perjudiciales. La propuesta de categorizar los alimentos según su nivel de procesamiento ganó consenso e importancia para diferenciar los patrones alimentarios de las poblaciones.⁸⁻¹⁰

En las últimas dos décadas, sobre la base de las Encuestas de Gasto de los Hogares del Instituto Nacional de Estadística y Censos (INDEC), se observa un claro desplazamiento de la alimentación tradicional basada en alimentos frescos o mínimamente procesados hacia un patrón alimentario basado en alimentos ultraprocesados. El cambio conlleva un deterioro en la calidad de la ingesta con modificaciones en los consumos de fibra, grasas, sodio y azúcares libres de significativa importancia¹¹ y una reducción importante en el aporte de vitaminas y minerales.

La Encuesta Nacional de Nutrición y Salud (ENNyS) de Argentina realizada en 2005 aportó un panorama de la situación nutricional de distintos grupos poblacionales, pero no se analizó desde la perspectiva del procesamiento tecnológico de los alimentos. El objetivo del presente artículo fue describir la ingesta alimentaria de grupos etarios seleccionados de la población argentina utilizando la clasificación NOVA,¹² que tomaba en cuenta el nivel de procesamiento industrial de los alimentos y lo relacionaba con variables socioeconómicas y geográficas.

POBLACIÓN Y MÉTODOS

La ENNyS se realizó mediante un muestreo probabilístico multietápico de grupos etarios independientes en localidades de más de 5000 habitantes de todo el país. El detalle del diseño muestral y los grupos poblacionales de la ENNyS, así como los aspectos metodológicos, fueron explicados en publicaciones previas.^{13,14} El estudio que aquí se presenta se realizó sobre los registros de ingesta alimentaria. La ingesta fue estimada mediante el método del recordatorio de las últimas 24 horas (R24H) para niños y niñas de 6 a 23 meses, de 2 a 5 años y mujeres de 10 a 49 años representativas de la población para cada una de las seis regiones de Argentina.

Se utilizaron los indicadores de condiciones de vida siguiendo la metodología del INDEC para la estimación de las necesidades básicas insatisfechas (NBI),¹⁵ línea de indigencia y de pobreza (LI/LP)¹⁶ y la distribución quintilica del ingreso per cápita familiar.

Los alimentos fueron categorizados según la clasificación NOVA de alimentos. Esta reúne los alimentos en cuatro grupos de acuerdo con la naturaleza, extensión y propósito de los procesos de su producción y/o conservación, respondiendo a las siguientes características:

- **Grupo 1.** Alimentos no procesados o mínimamente procesados: se definen como partes de plantas o animales que no han sido procesados industrialmente o han sido modificados de manera que no agregan ninguna sustancia nueva (como grasas, azúcar o sal), pero pueden implicar la eliminación de partes del alimento. Por ejemplo, frutas o verduras, carne fresca o congelada, huevos, leche y arroz u otros granos.
- **Grupo 2.** Ingredientes culinarios procesados: son sustancias extraídas de alimentos no procesados, como aceite y azúcar, u obtenidos de la naturaleza, como la sal. Los ingredientes

culinarios normalmente no se consumen solos, pero se usan en combinación con alimentos no procesados y mínimamente procesados en la cocina para preparar platos y comidas.

- **Grupo 3.** Alimentos procesados: se producen agregando sal, aceite, azúcar u otros ingredientes culinarios a los alimentos mínimamente procesados. Los alimentos procesados siguen siendo reconocibles como versiones modificadas de alimentos no procesados e incluyen elementos tales como frutas o vegetales enlatados, nueces saladas, carnes curadas o ahumadas y queso.
- **Grupo 4.** Alimentos ultraprocesados: se definen como formulaciones industriales de ingredientes múltiples e incluyen bebidas azucaradas, panes envasados, galletas, aperitivos salados, golosinas, helados, cereales para el desayuno y comidas congeladas listas para consumir.

Cada alimento mencionado en el R24H fue asignado de manera independiente por cada una de las nutricionistas del equipo a uno de los cuatro grupos anteriores. Las discrepancias se resolvieron por consenso.

Asimismo, la composición química de cada alimento es la consignada en la base de datos de composición de alimentos del sistema de análisis y registro de alimentos (SARA). Está integrada por 379 alimentos. Para estos, la base cuenta con información de energía, proteínas, lípidos, hidratos de carbono disponibles, fibra, sodio, calcio, hierro, ácidos grasos (AG) saturados, AG monoinsaturados, AG poliinsaturados, entre otros.

Para el cálculo de porcentajes, en el numerador, se utilizó la suma de energía y nutrientes aportados por cada uno de los alimentos ingeridos según cada categoría de la clasificación NOVA y, para el denominador, se realizó la suma de energía y/o nutrientes aportados por todos los alimentos registrados en el R24H.

RESULTADOS

El número de casos encuestados según región y grupo etario se presenta en la *Tabla 1 del Anexo* (véase en formato electrónico).

Grupo etario: de 6 a 23 meses

En las comidas de los niños más pequeños, el mayor aporte de energía y nutrientes proviene de alimentos naturales e ingredientes (*Figura 1*). En este sentido, el 75,9% del calcio, el 72,7% de las proteínas, el 71,5% del hierro y el 68,9% de la fibra

están provistos por el grupo 1 de la clasificación NOVA. Asimismo, es baja la proporción de los productos procesados, salvo en el caso de los AG saturados (63,4%), de los hidratos de carbono (43,9%) y del sodio (40,3%).

Si solo se considera el grupo 4 –ultraprocesados–, las diferencias de ingesta de energía y nutrientes según las NBI son significativas y varían hasta un máximo de 10 puntos porcentuales entre los niños que tienen NBI y los que no; algo similar sucede si se analiza por LP/LI. En tanto que, en los quintiles de ingreso más altos, aumenta el aporte de energía proveniente de productos ultraprocesados: 19,5% en el quintil 1 de más bajos ingresos versus 32,9% en el quintil 5 de más altos ingresos (Figura 2). Si bien la proporción es menor que lo que se observa en otros grupos poblacionales, se verifica que la capacidad de generar ingresos afecta los tipos de consumo de productos procesados, aún entre la población de menos edad.

Considerando el consumo de estos niños según su distribución geográfica, se observa que los menores aportes de energía provenientes de productos ultraprocesados se registran en el Noroeste Argentino (NOA) y Noreste Argentino (NEA) (alrededor del 19%), seguidos por Cuyo y la región Pampeana (25%), y los mayores, en el Área Metropolitana de Buenos Aires (AMBA) y la Patagonia (31%).

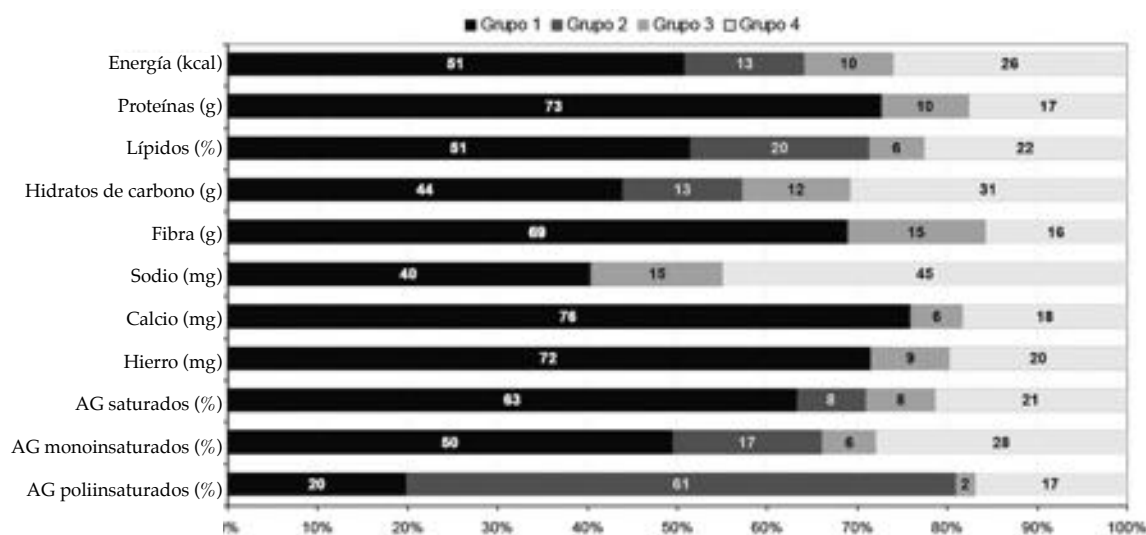
El promedio del contenido nutricional de los alimentos consumidos para este grupo etario según el grupo NOVA se presenta en la Tabla 2 del Anexo (véase en formato electrónico).

Grupo etario: de 2 a 5 años

Los niños de esta edad, a diferencia del anterior, ya incorporaron plenamente alimentos sólidos del resto del grupo familiar. Se observa que la ingesta de energía y nutrientes de alimentos naturales e ingredientes disminuye significativamente; el 72,3% del calcio, el 67,2% de las proteínas, el 60,4% del hierro y el 56,5% de la fibra provienen de este grupo de alimentos (Figura 3). En tanto que la ingesta de nutrientes provenientes de productos ultraprocesados se mantuvo en los mismos niveles que en el grupo anterior.

Se observa un marcado aumento en el consumo de productos ultraprocesados entre los niños de esta edad que viven en hogares con mejores condiciones de vida, tanto en los que no tienen NBI como en los no pobres. En ambos casos, aumenta significativamente la brecha entre los que más privaciones tienen y los que menos tienen, incluso mayor que en el grupo anterior. En este mismo sentido, se observa una baja importante en la ingesta de energía proveniente de los alimentos naturales (grupo 1) de los quintiles de más altos ingresos –alrededor de 10 puntos porcentuales–

FIGURA 1. Distribución relativa de energía y nutrientes según la clasificación NOVA en niños y niñas de 6 a 23 meses (en porcentajes). N= 6035



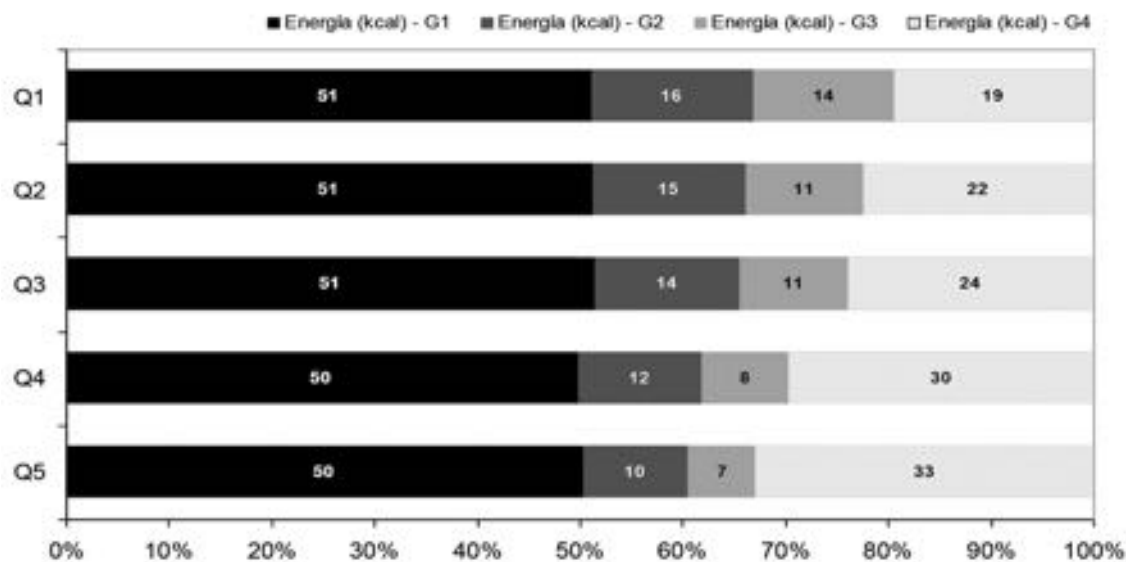
Fuente: Elaboración propia con datos de ENNyS (2005) y Monteiro et al. (2011).
AG: ácidos grasos.

y un salto en la provisión de energía gracias al mayor consumo de productos procesados y ultraprocesados (grupo 3 y 4) entre los quintiles de más altos ingresos (Figura 4).

En la incorporación de energía por parte de

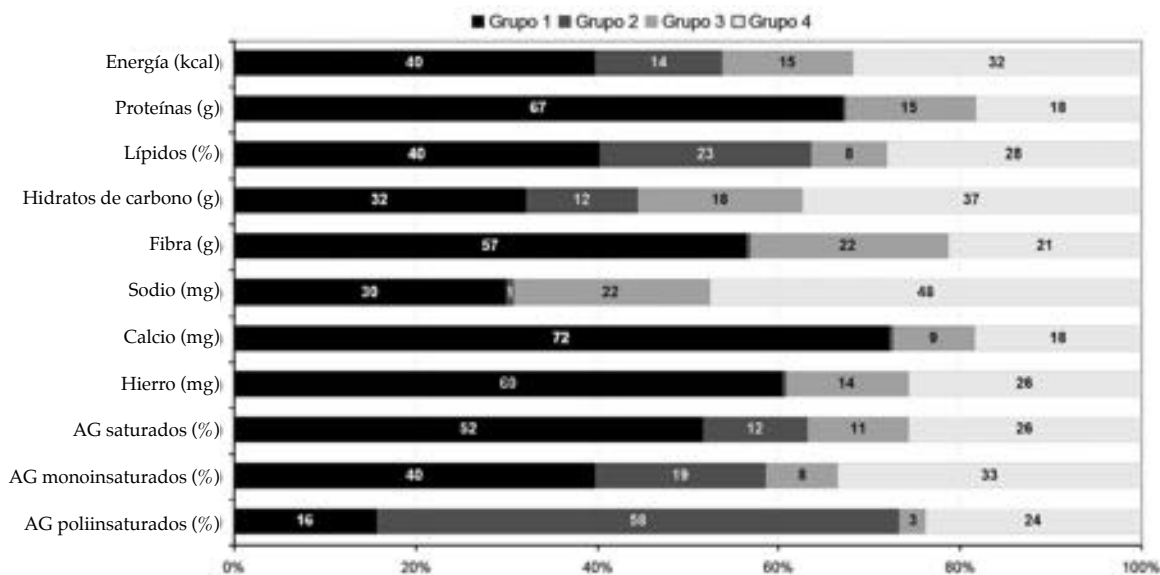
los niños, en todas las regiones, se observó que el aporte proporcional de energía fue mayor a partir de alimentos ultraprocesados a expensas de los naturales. Al igual que entre los niños de 6 a 23 meses, el mayor consumo de productos

FIGURA 2. Distribución relativa de energía por quintiles de ingreso per cápita familiar según la clasificación NOVA en niños y niñas de 6 a 23 meses (en porcentajes). N= 6035



Fuente: Elaboración propia con datos de ENNyS (2005) y Monteiro et al. (2011).
Q: quintil; G: grupo; Kcal: kilocaloría.

FIGURA 3. Distribución relativa de energía y nutrientes según la clasificación NOVA en niños y niñas de 2 a 5 años (en porcentajes). N= 7364



Fuente: Elaboración propia con datos de ENNyS (2005) y Monteiro et al. (2011).
AG: ácidos grasos.

procesados y ultraprocesados se registra entre los niños que viven en el AMBA y la Patagonia. En este tipo de productos, los niños de estas regiones tienen los valores de ingesta más altos del país.

El promedio del contenido nutricional de los alimentos consumidos para este grupo etario según el grupo NOVA se presenta en la *Tabla 3 del Anexo* (véase en formato electrónico).

Grupo etario: mujeres de 10 a 49 años

Al realizar el análisis de este grupo, existe también la posibilidad de tomarlo como referencia para el consumo de alimentos de la población adulta. Se observa que la ingesta de energía y nutrientes a través de alimentos naturales (grupo 1) es aún menor que la del grupo de niños y niñas de 2 a 5 años. En este sentido, solo el 59,0% de las proteínas, el 55,1% del hierro, el 51,6% de fibra y el 46,4% del calcio provienen de alimentos naturales (*Figura 5*). Este grupo de mayor edad es el que menos aportes de nutrientes registra en este tipo de alimentos entre todos los grupos analizados.

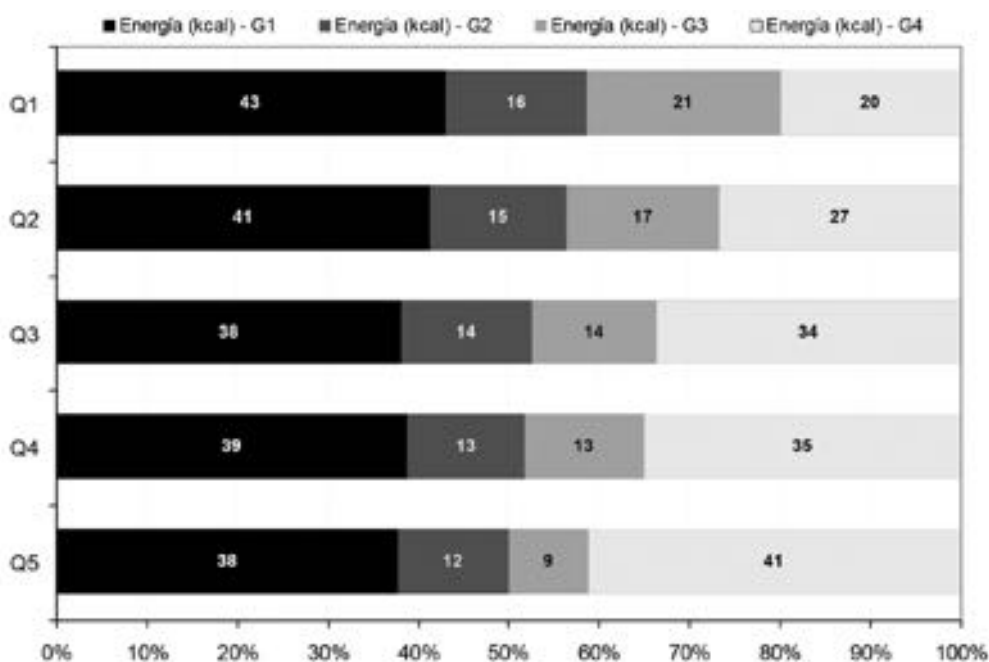
En relación con la ingesta de nutrientes de productos ultraprocesados, se observa que las mujeres con menos privaciones socioeconómicas –sin NBI o no pobres– adquieren mayor

proporción de nutrientes provenientes de este tipo de productos. Este aporte es muy similar al que tienen estos productos entre los niños y niñas de 2 a 5 años. En cuanto al consumo de mujeres diferenciado por quintiles de ingreso, se observa que, en todos los estratos, el aporte de energía a partir de los alimentos naturales o mínimamente procesados es menor que en el grupo anterior –alrededor de 10 puntos porcentuales menos– (*Figura 6*). En tanto que el aporte de energía proveniente de productos ultraprocesados es significativamente mayor a medida que aumenta el nivel de ingresos.

En cuanto a las diferencias de consumo según la ubicación geográfica, las mujeres de prácticamente todas las regiones incorporan alrededor de un 30% de energía a través de alimentos poco procesados o naturales; la única excepción es el NEA, con un aporte mayor del 35,9%. Esto se acompaña con una menor ingesta de energía a través de productos ultraprocesados en las regiones NOA, NEA y Cuyo (alrededor del 26%) y un aporte de energía significativamente mayor a partir de este tipo de productos en la Patagonia y el AMBA (alrededor del 36%).

El promedio del contenido nutricional de los alimentos consumidos para este grupo etario

FIGURA 4. Distribución relativa de energía por quintiles de ingreso per cápita familiar según la clasificación NOVA en niños y niñas de 2 a 5 años (en porcentajes). N = 7364



Fuente: Elaboración propia con datos de ENNyS (2005) y Monteiro et al. (2011).
Q: quintil; G: grupo; Kcal: kilocaloría.

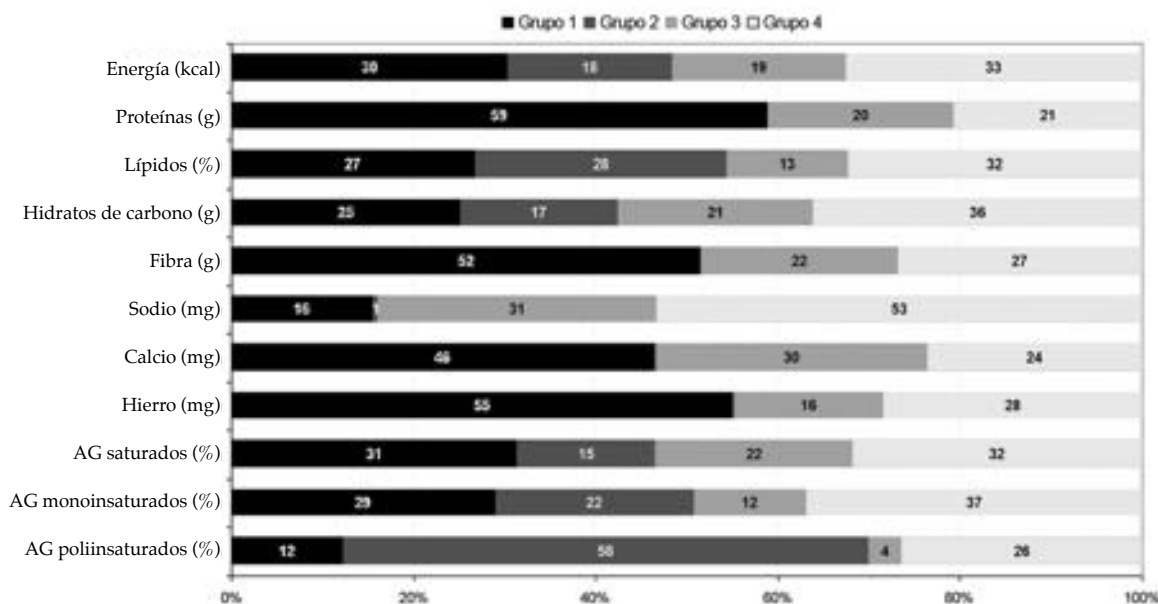
según el grupo NOVA se presenta en la *Tabla 4 del Anexo* (véase en formato electrónico).

DISCUSIÓN

Es amplia y variada la bibliografía sobre la descripción de la ingesta alimentaria según la composición química de los alimentos que

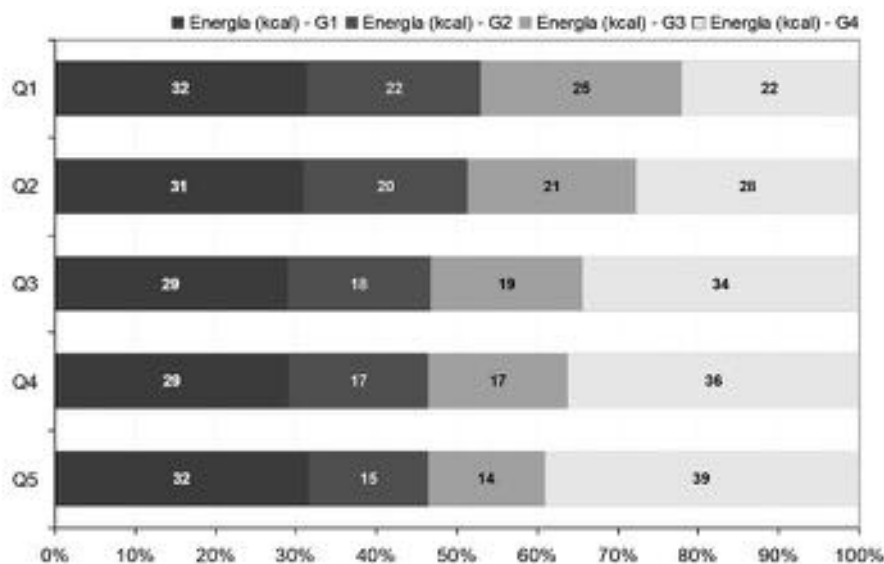
ha permitido identificar y dimensionar los requerimientos de nutrientes y la magnitud de sus deficiencias. Esta descripción de la ingesta según la composición química es la que orientó el análisis de los resultados de la ENNyS en 2007. Existen similares marcos de referencia que clasifican los alimentos según su nivel

FIGURA 5. Distribución relativa de energía y nutrientes según la clasificación NOVA en mujeres de 10 a 49 años (en porcentajes). N= 6605



Fuente: Elaboración propia con datos de ENNyS (2005) y Monteiro et al. (2011).
AG: ácidos grasos.

FIGURA 6. Distribución de energía por quintiles de ingreso per cápita familiar según la clasificación NOVA en mujeres de 10 a 49 años. N= 6605



Fuente: Elaboración propia con datos de ENNyS (2005) y Monteiro et al. (2011).
Q: quintil; G: grupo; Kcal: kilocaloría.

de procesamiento.^{17,18} El más apropiado nos parece el sistema NOVA, que desde 2014 ha aumentado considerablemente en PubMed de Medline las publicaciones que utilizan la descripción de la ingesta desde este marco de referencia. Este sistema de clasificación de alimentos según su nivel de procesamiento ha ido ganando reconocimiento en la bibliografía hasta la publicación de un número especial en enero de 2018 de la revista líder en políticas públicas de nutrición¹⁹ y como parte de informes de la Organización Panamericana de la Salud (OPS) y la Food and Agriculture Organization (FAO).^{9,20}

Hay suficiente evidencia epidemiológica que demuestra que el consumo de alimentos ultraprocesados se asocia con baja calidad de la dieta y malas condiciones de salud.²¹ El análisis del aporte de energía y nutrientes según el nivel de procesamiento aporta datos útiles para comprender e implementar políticas sanitarias que tiendan a mejorar la situación nutricional de la población de un país.²² Si bien no hay datos actuales de consumos en Argentina, el análisis de la ingesta a través de los datos disponibles en la ENNyS permite conocer cómo es el consumo en edades críticas, como son los niños menores de 6 años y las mujeres en edad fértil.

La información aquí analizada de ingesta alimentaria, si bien se refiere a 12 años atrás, es la única disponible en Argentina con representatividad probabilística y sirve como línea de base para la comparación con próximas encuestas para observar cambios a través del tiempo. A partir de los grupos poblacionales analizados, se observa que, a medida que se incrementa la edad de la población, también aumenta la contribución de energía y ciertos nutrientes a partir de alimentos ultraprocesados.

La contribución de los alimentos ultraprocesados a la ingesta energética del presente estudio fue superior a la estimada para Brasil con datos de encuesta de gasto en los hogares para 2008-2009 equivalente a 21,5% del consumo energético cuando, para nuestras estimaciones, es de 26% y 32% en niños de 6 a 23 meses y niños de 2 a 5 años, respectivamente, y de 33% en mujeres de 10 a 49 años.²³ Además, en un estudio ecológico transversal de 19 países europeos, la mediana de contribución del consumo de energía por ultraprocesados en los hogares fue de 26,4%.²⁴

Existe en este estudio una fuerte relación directa entre la contribución de ultraprocesados a la ingesta energética y el nivel del ingreso familiar, es decir, a mayor ingreso familiar per cápita, es mayor la proporción de la ingesta energética

proveniente de los alimentos ultraprocesados. Esta relación directa entre ingreso familiar y consumo de ultraprocesados ha sido observada también en Brasil. Además, esta relación directa se da entre países, ya que, a mayor ingreso nacional, mayor proporción de consumo de ultraprocesados.²⁵

De los nutrientes analizados es el sodio el que en mayor proporción es aportado por los alimentos ultraprocesados. En el caso de los AG poliinsaturados, se incluyen las grasas trans, que la industria de alimentos de Argentina, en 2005, aún las utilizaba como aceite vegetal hidrogenado por ser el más económico para elaborar alimentos procesados y ultraprocesados. Es por esto por lo que la contribución de los no procesados al consumo de estos AG aparece como más importante. En el año 2010, ya se incorporó su prohibición al Código Alimentario Argentino.²⁶ La intervención regulatoria desde el Estado ha logrado descender los consumos de AG trans desde entonces.

La fortaleza de este estudio es la estimación de los consumos en una muestra probabilística de grupos poblacionales que son prioritarios para las políticas de nutrición pública desde el marco de referencia del nivel de procesamiento y de sobrepeso y obesidad en la población argentina.²⁷⁻³⁰ El análisis de las dos últimas décadas a través de las encuestas de gasto de los hogares de Argentina muestra un progresivo avance hacia los alimentos procesados desde 19% de la ingesta calórica en 1996-1997 a 29% en 2012-2013.³¹

Su debilidad es que los consumos fueron registros únicos por individuo, sin la estimación de la variabilidad intraindividual, lo cual produce cierta incertidumbre en las estimaciones de los intervalos de confianza de las estimaciones de las medias.³²

El monitoreo de la contribución de los ultraprocesados a la ingesta energética habitual puede ser una estrategia útil para orientar la promoción de políticas públicas por hábitos alimentarios más saludables. Se sabe que el consumo de ultraprocesados se asocia con mala calidad de la dieta y este ha sido el argumento fundamental para proponerlo como indicador poblacional de calidad de la dieta.^{33,34}

CONCLUSIÓN

El aporte de energía y nutrientes provenientes de alimentos naturales o mínimamente procesados es mayoritario en los primeros años de vida. A medida que se consideran grupos poblacionales de mayor edad, la incorporación de ultraprocesados aumenta. El consumo de este

tipo de productos es más frecuente dentro de los niveles socioeconómicos más altos o con mejores condiciones de vida. ■

Agradecimientos

A la Lic. Luciana Paduano por su colaboración en la asignación de alimentos a la clasificación NOVA y al Lic. Carlos Defrancisco por el procesamiento y armado de la base de datos.

REFERENCIAS

- Ng M, Fleming T, Robinson M, et al. Global, regional, and national prevalence of overweight and obesity in children and adults during 1980–2013: a systematic analysis for the Global Burden of Disease Study 2013. *Lancet* 2014; 384(9945):766-81.
- NCD Risk Factor Collaboration (NCD-RisC). Trends in adult body-mass index in 200 countries from 1975 to 2014: a pooled analysis of 1698 population-based measurement studies with 19.2 million participants. *Lancet* 2016; 387(10026):1377-96.
- Vandevijvere S, Chow CC, Hall KD, et al. Increased food energy supply as a major driver of the obesity epidemic: a global analysis. *Bull World Health Organ* 2015; 93(7):446-56.
- Wang Y, Beydoun MA. The obesity epidemic in the United States- gender, age, socioeconomic, racial/ethnic, and geographic characteristics: a systematic review and meta-regression analysis. *Epidemiol Rev* 2007;29:6-28.
- Wang Y, Lobstein T. Worldwide trends in childhood overweight and obesity. *Int J Pediatr Obes* 2006;1(1):11-25.
- Wang Y. Disparities in pediatric obesity in the United States. *Adv Nutr* 2011; 2(1):23-31.
- Breslin PA. An evolutionary perspective on food and human taste. *Curr Biol* 2013; 23(9):R409-18.
- FAO/OPS. América Latina y el Caribe: Panorama de la seguridad alimentaria y nutricional. Sistemas alimentarios sostenibles para poner fin al hambre y la malnutrición. Santiago: OPS; 2017. [Acceso: 15 de febrero de 2018]. Disponible en: <http://www.fao.org/3/a-i6747s.pdf>.
- OPS/OMS. Alimentos y bebidas ultraprocesados en América Latina: tendencias, efecto sobre la obesidad e implicaciones para las políticas públicas. Washington: OPS; 2015. [Acceso: 15 de febrero de 2018]. Disponible en: iris.paho.org/xmlui/bitstream/handle/123456789/7698/9789275318645_esp.pdf.
- Ludwig DS. Technology, diet, and the burden of chronic disease. *JAMA* 2011; 305(13):1352-3.
- Zapata ME, Rovirosa A, Carmuega E. La mesa Argentina en las últimas dos décadas: cambios en el patrón de consumo de alimentos y nutrientes 1996-2013. Ciudad Autónoma de Buenos Aires: Centro de Estudios sobre Nutrición Infantil - CESNI; 2016.
- Monteiro CA, Cannon G, Levy R, et al. Food classification. Public Health. NOVA. The star shines bright. *World Nutr* 2016;7(1-3):28-38. [Acceso: 18 de diciembre de 2017]. Disponible en: <https://worldnutritionjournal.org/index.php/wn/article/view/5/4>.
- Durán P, Mangialavori G, Biglieri A, et al. Estudio descriptivo de la situación nutricional en niños de 6-72 meses de la República Argentina. Resultados de la Encuesta Nacional de Nutrición y Salud (ENNyS). *Arch Argent Pediatr* 2009; 107(5): 397-404.
- Ministerio de Salud. Encuesta Nacional de Nutrición y Salud. Documento de Resultados 2007. Buenos Aires: Ministerio de Salud, 2007. [Acceso: 18 de diciembre de 2017]. Disponible en: <http://datos.dinami.gov.ar/produccion/nutricion/ennys.html>.
- INDEC. Mapa de necesidades básicas insatisfechas 2001. Aquí se Cuenta. 2003; 7. [Acceso: 15 de febrero de 2018]. Disponible en: https://www.indec.gov.ar/micro_sitios/webcenso/aquise cuenta/aqui7.pdf.
- Dirección Nacional de Encuestas de Hogares del INDEC. Acerca del método utilizado para medir la pobreza en la Argentina. Buenos Aires: INDEC. 2003. [Acceso: 15 de febrero de 2018]. Disponible en: <https://www.indec.gov.ar/ftp/cuadros/sociedad/pobreza2.pdf>.
- Crino M, Barakat T, Trecena H, et al. Systematic review and comparison of classification frameworks describing the degree of food processing. *Nutr Food Technol* 2017; 3(1):138.
- Moubarac JC, Parra DC, Cannon G, et al. Food Classification Systems Based on Food Processing: Significance and Implications for Policies and Actions: A Systematic Literature Review and Assessment. *Curr Obes Rep* 2014; 3(2):256-72.
- Kelly B, Jacoby E. Public Health Nutrition special issue on ultra-processed foods. *Public Health Nutr* 2018; 21(1):1-4.
- FAO. Guidelines on the collection of information on food processing through food consumption surveys. Roma: FAO; 2015. [Acceso: 18 de diciembre de 2017]. Disponible en: <http://www.fao.org/3/a-i4690e.pdf>.
- Batal M, Johnson-Down L, Moubarac JC, et al. Quantifying associations of the dietary share of ultra-processed foods with overall diet quality in First Nations peoples in the Canadian provinces of British Columbia, Alberta, Manitoba and Ontario. *Public Health Nutr* 2017; 21:103-13.
- Monteiro CA, Cannon G, Moubarac JC, et al. The UNDecade of Nutrition, the NOVA food classification and the trouble with ultra-processing. *Public Health Nutr* 2017; 21(1):5-17.
- Costa Louzada ML, Martins A, Canella D, et al. Ultra-processed foods and the nutritional dietary profile in Brazil. *Rev Saude Publica* 2015; 49:38.
- Monteiro CA, Moubarac JC, Levy RB, et al. Household availability of ultra-processed foods and obesity in nineteen European countries. *Public Health Nutr* 2018; 21(1):18-26.
- Monteiro CA, Levy RB, Claro RM, et al. Increasing consumption of ultra-processed foods and likely impact on human health: evidence from Brazil. *Public Health Nutr* 2011; 14(1): 5-13.
- Ministerio de Justicia y Derechos Humanos. Secretaría de Políticas, Regulación e Institutos y Secretaría de Agricultura, Ganadería y Pesca. Código Alimentario Argentino. Resolución Conjunta 137/2010 y 941/2010 Modificación. Buenos Aires, 3 de diciembre de 2010. [Acceso: 18 de diciembre de 2017]. Disponible en: <http://servicios.infoleg.gob.ar/infolegInternet/anexos/175000-179999/176669/norma.htm>.
- Galante M, Konfino J, Ondarsuhu D, et al. Principales resultados de la tercera Encuesta Nacional de Factores de Riesgo de enfermedades no transmisibles en Argentina. *Rev Argent Salud Pública* 2015; 6(24):22-9.
- Datum Internacional. PERCEPCIÓN Y REALIDAD. Un estudio sobre obesidad en América. Octubre de 2014. [Acceso: 15 de febrero de 2018]. Disponible en: <http://docplayer.es/15684192-Percepcion-y-realidad-un-estudio-sobre-obesidad-en-america-octubre-2014.html>.
- Zapata ME. Patrón de consumo de bebidas en Argentina: resultados de los estudios Hidratar I y II. En: Carmuega E. (editor). Hidratación saludable en la infancia. Buenos Aires: CESNI, 2015. Págs.119-41.
- Euromonitor International. Carbonates in Argentina. 2017. [Acceso: 18 de diciembre de 2017]. Disponible en: <http://www.euromonitor.com/carbonates-in-argentina/report>.
- Zapata ME, Rovirosa A, Carmuega E. Cambios en el patrón de consumo de alimentos y bebidas en Argentina, 1996-2013. *Salud Colectiva* 2016; 12(4):473-86.
- Gibson R, Charrondiere R, Bell W. Measurement errors in dietary assessment using self-reported 24-hour recalls in low-income countries and strategies for their prevention. *Adv Nutr* 2017; 8(6):980-91.
- Vandevijvere S, Monteiro C, Krebs-Smith SM, et al. Monitoring and benchmarking population diet quality globally: a step-wise approach. *Obes Rev* 2013; 14(Suppl 1):135-49.
- Popkin BM, Adair LS, Ng SW. Now and then: The global nutrition transition: the pandemic of obesity in developing countries. *Nutr Rev* 2012; 70(1):3-21.

ANEXO

TABLA 1. Número de casos encuestados según grupo etario y región

Región	Grupo etario		
	Niños y niñas de 6 a 23 meses	Niños y niñas de 2 a 5 años	Mujeres de 10 a 49 años
AMBA			
(CABA y partidos del conurbano)	682	1012	854
Cuyo (Mendoza, San Juan y San Luis)	1004	1230	1089
NEA (Chaco, Corrientes, Formosa y Misiones)	1042	1270	1169
NOA (Catamarca, Jujuy, La Rioja, Salta, Santiago del Estero y Tucumán)	1203	1361	1259
Pampeana (resto de Buenos Aires, Córdoba, Entre Ríos y Santa Fe)	966	1221	1047
Patagonia (Chubut, La Pampa, Neuquén, Río Negro, Santa Cruz y Tierra del Fuego)	1138	1270	1187
País	6035	7364	6605

Fuente: ENNyS 2005.

AMBA: Área Metropolitana de Buenos Aires; CABA: Ciudad Autónoma de Buenos Aires; NEA: Noreste Argentino; NOA: Noroeste Argentino.

TABLA 2. Promedio de contenido nutricional de los alimentos consumidos según el grupo NOVA. Niños y niñas de 6 a 23 meses. Total del país. N= 6035

	Total	G1	G2	G3	G4
Energía (kcal)	1175,4	558,7	161,3	138,2	317,2
Proteínas (g)	45,3	31,7	0,0	5,5	8,1
AG saturados ¹	13,2	15,9	8,9	11,6	9,6
AG monoinsaturados ¹	10,1	9,7	13,7	6,6	9,8
AG poliinsaturados ¹	5,9	2,3	26,4	1,3	3,3
Lípidos (g)	41,4	20,0	8,7	3,1	9,6
Hidratos disponibles (g)	155,5	63,1	20,8	22,0	49,6
Fibra (g) ²	5,8	3,7	0,0	1,1	1,0
Sodio (mg)	855,4	316,8	2,7	147,1	388,8
Calcio (mg)	766,6	573,1	0,4	57,9	135,2

G1: alimentos no procesados; G2: ingredientes; G3: alimentos procesados; G4: alimentos ultraprocesados.

AG: ácidos grasos; Kcal: kilocalorías; G: grupo; g: gramos; mg: miligramos.

¹: Porcentaje sobre el total de la energía consumida.

²: Estimado solo para niños y niñas de 13 a 23 meses por no haber recomendaciones para niños y niñas menores.

TABLA 3. Promedio de contenido nutricional de los alimentos consumidos según el grupo NOVA. Niños y niñas de 2 a 5 años. Total del país. N= 7364

	Total	G1	G2	G3	G4
Energía (kcal)	1683,5	646,1	234,7	262,3	540,4
Proteínas (g)	59,9	39,3	0,0	9,5	11,0
AG saturados ¹	11,8	15,1	9,7	10,8	8,2
AG monoinsaturados ¹	10,3	10,3	13,9	6,9	9,3
AG poliinsaturados ¹	6,4	2,6	26,2	1,4	3,9
Lípidos (g)	58,4	22,7	13,9	5,4	16,5
Hidratos disponibles (g)	229,6	71,2	27,4	44,0	86,9
Fibra (g)	8,6	4,7	0,0	2,0	1,9
Sodio (mg)	1152,0	329,7	6,1	266,3	550,0
Calcio (mg)	761,0	540,3	0,7	81,1	138,9

G1: alimentos no procesados; G2: ingredientes; G3: alimentos procesados; G4: alimentos ultraprocesados.

AG: ácidos grasos; Kcal: kilocalorías; G: grupo; g: gramos; mg: miligramos.

¹: Porcentaje sobre el total de la energía consumida.

TABLA 4. Promedio de contenido nutricional de los alimentos consumidos según el grupo NOVA. Mujeres de 10 a 49 años. Total del país. N= 6605

	Total	G1	G2	G3	G4
Energía (kcal)	2038,4	635,2	370,0	441,9	591,3
Proteínas (g)	68,9	40,0	0,0	16,1	12,8
AG saturados ¹	10,0	10,7	8,8	10,7	8,7
AG monoinsaturados ¹	10,2	9,7	13,3	7,0	10,1
AG poliinsaturados ¹	6,7	2,7	23,0	1,4	4,6
Lípidos (g)	67,9	17,4	18,7	9,7	22,1
Hidratos disponibles (g)	250,6	61,1	41,7	55,7	92,1
Fibra (g)	13,4	7,2	0,0	3,3	2,9
Sodio (mg)	1391,4	235,5	7,8	463,5	684,6
Calcio (mg)	473,4	210,9	0,9	151,2	110,3

G1: alimentos no procesados; G2: ingredientes; G3: alimentos procesados; G4: alimentos ultraprocesados.

AG: ácidos grasos; Kcal: kilocalorías; G: grupo; g: gramos; mg: miligramos.

¹: Porcentaje sobre el total de la energía consumida.

Description of nutrient consumption based on the level of industrial food processing. National Survey on Nutrition and Health of 2005

Ignacio Drake, B.S.^a, Enrique Abeyá Gilardon, M.D.^a, Guadalupe Mangialavori, Magister^a and Ana Biglieri, B.S.^a

ABSTRACT

Technological advances and changes in lifestyles reflect in a greater consumption of processed and ultra-processed foods compared to natural ones. Using data from the National Survey on Nutrition and Health, the consumption of these foods and their relation to living conditions were described in three age groups of Argentina (infants aged 6-23 months, children aged 2-5 years, and women aged 10-49 years).

Consumption among infants 6-23 months old is high in nutrients from natural foods: calcium (75.9%), proteins (72.7%), iron (71.5%), and fiber (68.9%). Among children 2-5 years old, consumption drops significantly. And among women, it drops even more. The proportion of the energy contribution from ultra-processed foods is higher in the high-income population compared to the low-income population across all groups.

Key words: food industry, epidemiology, Argentina, food, survey on nutrition.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.345>

To cite: Drake I, Abeyá Gilardon E, Mangialavori G, Biglieri A. Description of nutrient consumption based on the level of industrial food processing. National Survey on Nutrition and Health of 2005. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):345-352.

a. Department of Nutrition, National Board of Maternity, Childhood, and Adolescence, Autonomous City of Buenos Aires, Argentina.

E-mail address:
Ignacio Drake, B.S.:
ignacio.drake@gmail.com

Funding:
None.

Conflict of interest:
None.

Received: 7-28-2017
Accepted: 2-14-2018

INTRODUCTION

A sustained increase has been observed worldwide in the morbidity burden associated with non-communicable chronic diseases (NCCDs) and their determinants, especially overweight and obesity.^{1,2} This problem has acquired the characteristics of a pandemic, and there is evidence that attributes it to an increased energy consumption from highly-processed foods and beverages.³ Such morbidity burden does not affect everyone equally: low-income populations suffer a greater impact.⁴⁻⁶

For some time, the food industry has favored the thriving of ultra-processed products with technological advances that reinforce the positive aspects of flavor, texture, smell, etc., but which are unhealthy and result in NCCDs.^{7,8} Likewise, ultra-processed products contain less proteins and fibers, more free sugars, sodium, total and saturated fats, and a high energy density; therefore, a high consumption of these products promotes extremely harmful nutritional profiles. The proposal to categorize foods based on their level of processing gained consensus and relevance to differentiate population eating patterns.⁸⁻¹⁰

Over the past two decades, according to the Survey on Household Expenditure conducted by the National Statistics and Censuses Institute of Argentina (*Instituto Nacional de Estadística y Censos*, INDEC), there has been a clear shift from the traditional diet based on fresh or minimally-processed foods towards an eating pattern based on ultra-processed foods. Such displacement leads to a decline in the quality of intake, with significant changes in fiber, fat, sodium, and free-sugar consumption¹¹ and a major reduction in vitamin and mineral consumption.

The National Survey on Nutrition and Health (*Encuesta Nacional de Nutrición y Salud*, ENNyS) was conducted in Argentina in 2005 and described the big picture of the nutritional situation of different population groups, but data were not analyzed from the perspective of food processing techniques. The objective of this article was to describe

the dietary intake of selected age groups from the Argentine population using the NOVA food classification,¹² which considered the level of industrial food processing and related it to socioeconomic and geographic outcome measures.

POPULATION AND METHODS

The ENNyS was conducted using a multistage probability sampling of independent age groups from towns with more than 5000 inhabitants across Argentina. The details of the ENNyS sample design and population groups, as well as the methodological aspects, have been explained in previous publications.^{13,14} The study described here was carried out based on dietary intake records. Intake was estimated using the 24-hour dietary recall (24HR) method for infants aged 6-23 months, children aged 2-5 years, and women aged 10-49 years, who were representative of the population of each of the six regions of Argentina.

Quality of life indicators were used according to the INDEC's methodology to estimate unmet basic needs (UBNs),¹⁵ destitution line and poverty line (DL/PL),¹⁶ and quintile distribution of the per capita family income.

Foods were categorized based on the NOVA food classification. This classification categorizes foods into four groups based on their nature, and the extent and purpose of the processes applied to produce and/or preserve them based on the following characteristics:

- **Group 1.** Unprocessed or minimally processed foods: these are defined as parts of plants or animals that have not been subjected to industrial processes or that have been modified but without adding new substances (such as salt, sugar or oil); however, these foods may be altered by removing parts of them. Group 1 foods include fruits or vegetables, fresh or frozen meat, eggs, milk, and rice or other grains.
- **Group 2.** Processed culinary ingredients: these are substances obtained directly from unprocessed foods such as oil and sugar, or from nature, such as salt. Culinary ingredients are rarely consumed alone but used in combination with unprocessed or minimally processed foods in the kitchen to prepare other dishes.
- **Group 3.** Processed foods: these products are made by adding salt, oil, sugar or other culinary ingredients to minimally processed foods. Processed foods are still recognizable

as modified versions of unprocessed foods; they include canned fruits or vegetables, salted nuts, cured or smoked meats, and cheese.

- **Group 4.** Ultra-processed foods: these are defined as industrial formulations with multiple ingredients; they include sugar-sweetened beverages, packaged breads, cookies, savory snacks, confectionery, ice-cream, breakfast cereals, and frozen, ready-to-eat products.

Each food mentioned during the R24H was independently assigned by one of the team nutritionists to one of these four groups. Discrepancies were resolved by consensus.

Likewise, the chemical composition of each food was taken from the Analysis System and Food Registry (*Sistema de análisis y registro de alimentos*, SARA). The SARA database is made up of 379 foods, for which data on energy, proteins, lipids, carbohydrates, fiber, sodium, calcium, iron, saturated fatty acids (FAs), monounsaturated FAs, polyunsaturated FAs, and other data are available.

To estimate percentage values, the numerator was the sum of energy and nutrients provided by each food consumed based on the NOVA classification category, and the denominator was the sum of energy and/or nutrients provided by all foods recorded in the R24H.

RESULTS

The number of surveyed participants by region and age group is described in *Table 1 of the Annex*.

Age group: 6-23 months old

Among infants, the highest energy and nutrient intake was from natural foods and ingredients (*Figure 1*). In this regard, 75.9% of calcium, 72.7% of proteins, 71.5% of iron, and 68.9% of fiber were provided by NOVA group 1 foods. In addition, the proportion of processed products was low, except for saturated FAs (63.4%), carbohydrates (43.9%), and sodium (40.3%).

When considering only group 4 foods (ultra-processed products), differences in energy and nutrient intake based on UBNs were significant and varied up to 10 percentage points between infants who had UBNs and those who did not; this was similar when analyzed by DL/PL. However, among the higher-income quintiles, energy intake from ultra-processed products increased: it accounted for 19.5% in quintile

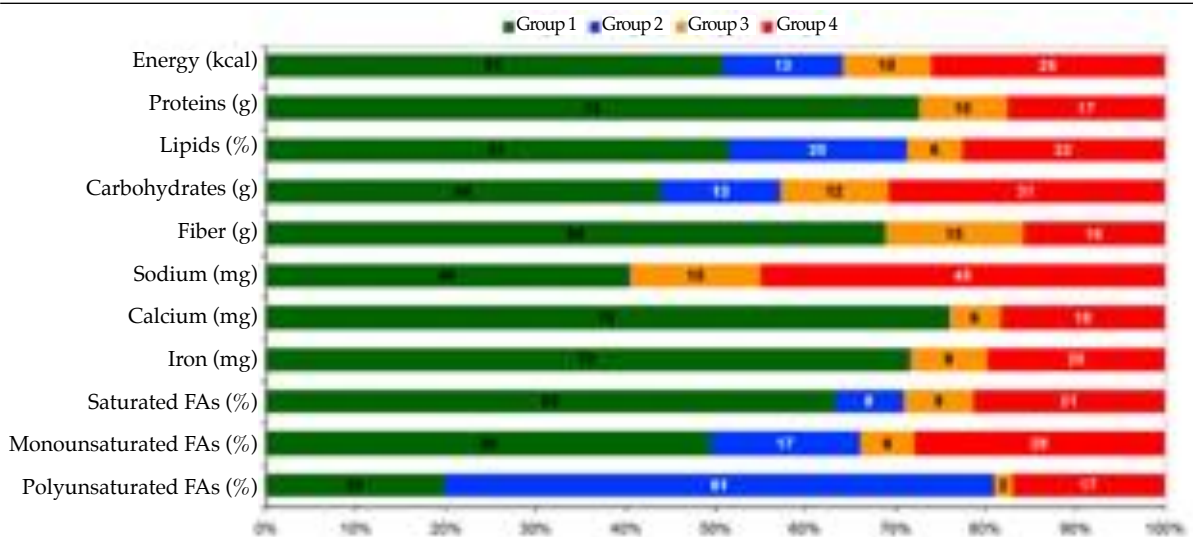
1 among lower-income individuals versus 32.9% in quintile 5 among higher-income individuals (Figure 2). Although the proportion is lower than that observed in other population groups, it has been confirmed that the ability to generate income affects the types of processed products consumed, even among the youngest populations.

Considering consumption in this infant group by geographic distribution, it was observed that the lowest energy intake from ultra-processed

products was recorded in the Northwest region of Argentina (NOA) and the Northeast region of Argentina (NEA) (approximately 19%), followed by the Cuyo and Pampa regions (25%), whereas the highest intake was observed in the Metropolitan Area of Buenos Aires (AMBA) and the Patagonia region (31%).

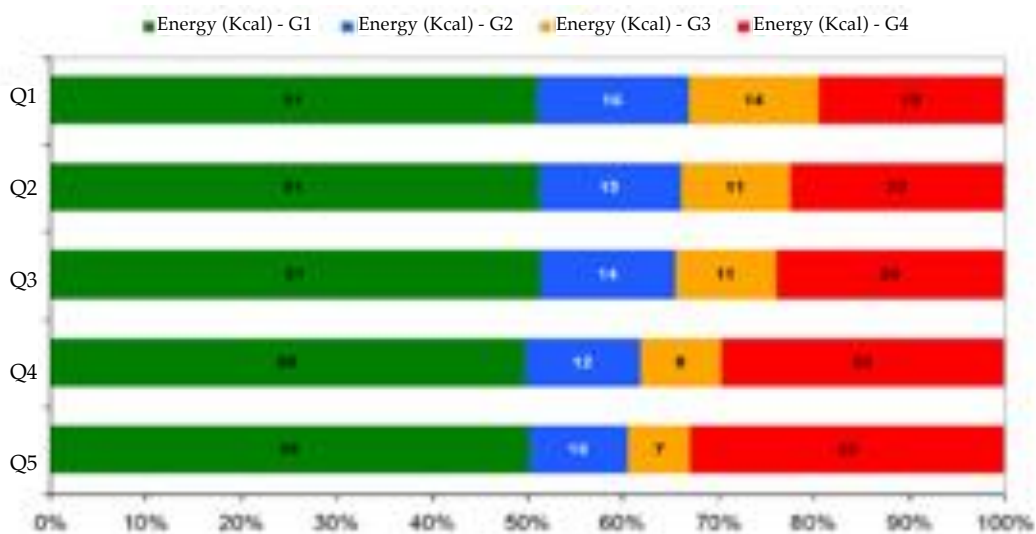
The average nutritional content of foods consumed in this age group per NOVA group is presented in Table 2 of the Annex.

FIGURE 1. Relative energy and nutrient distribution according to the NOVA classification among infants aged 6-23 months (in percentage). N= 6035



Source: Developed based on data from the ENNyS (2005) and Monteiro et al. (2011). FAs: fatty acids.

FIGURE 2. Relative energy and nutrient distribution by quintile of the per capita family income according to the NOVA classification among infants aged 6-23 months (in percentage). N= 6035



Source: Developed based on data from the ENNyS (2005) and Monteiro et al. (2011). Q: quintile; G: group; Kcal: kilocalories.

Age group: 2-5 years old

Unlike the previous age group, children in this group were already fully eating solid foods that they shared with the rest of their families. The energy and nutrient intake from natural foods and ingredients reduced significantly; 72.3% of calcium, 67.2% of proteins, 60.4% of iron, and 56.5% of fiber corresponded to this food group (Figure 3). However, the nutrient intake from ultra-processed products remained in the same levels as those observed for the previous age group.

A marked increase was observed in ultra-processed product consumption among children in this age group living in households with a better quality of life, both among those without UBNs and those who were not considered poor. In both cases, the gap widened significantly between those with more and less deprivations, and it was even greater than in the previous group. Also in this regard, an important decrease was observed in the energy intake from natural foods (group 1) among the higher-income quintiles –approximately 10 percentage points– together with a leap in the energy intake due to the higher consumption of processed and ultra-processed products (groups 3 and 4) among the higher-income quintiles (Figure 4).

In relation to energy consumption among children from all regions, the proportional energy

intake was higher from ultra-processed foods at the expense of natural foods. As observed in the 6-23-month-old group, the higher consumption of processed and ultra-processed products was recorded in children from the AMBA and Patagonia regions. In relation to this type of products, children from these regions showed the highest intake values compared to the rest of the country.

The average nutritional content of foods consumed in this age group per NOVA group is presented in Table 3 of the Annex.

Age group: 10-49 years old

The analysis of this age group is also useful as a reference for food consumption among the adult population. It was observed that energy and nutrient intake from natural foods (group 1) was even lower than in the group of children aged 2-5 years. In this regard, only 59.0% of proteins, 55.1% of iron, 51.6% of fiber, and 46.4% of calcium came from natural foods (Figure 5). This older age group showed the lowest nutrient intake from natural foods among all analyzed groups.

In relation to the nutrient intake from ultra-processed products, it was observed that women with less socioeconomic deprivations –without UBNs or not poor– consumed a higher proportion of nutrients from this type of products. Such intake was very similar to that observed in

FIGURE 3. Relative energy and nutrient distribution according to the NOVA classification among children aged 2-5 years (in percentage). N= 7364

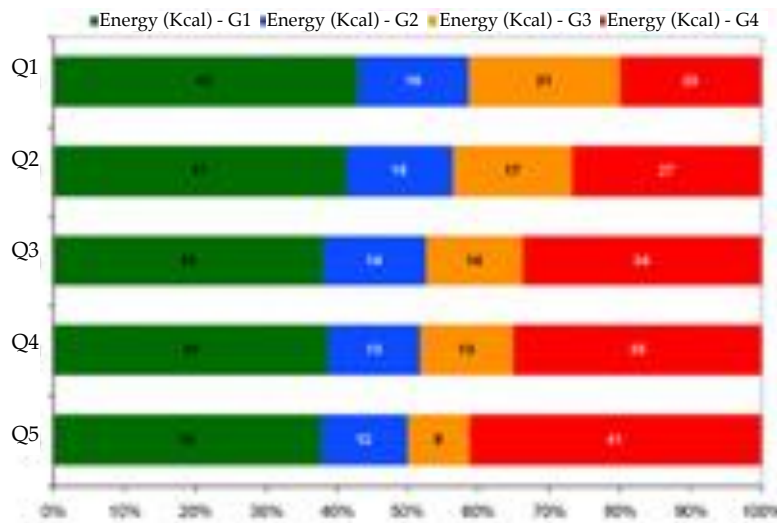


Source: Developed based on data from the ENNyS (2005) and Monteiro et al. (2011).
FAs: fatty acids.

children aged 2-5 years. Consumption among women by income quintile showed that, across all strata, energy intake from natural or minimally processed foods was lower than in the previous group (approximately 10 percentage points lower) (Figure 6). However, the energy intake from ultra-processed products was significantly higher as the level of income increased.

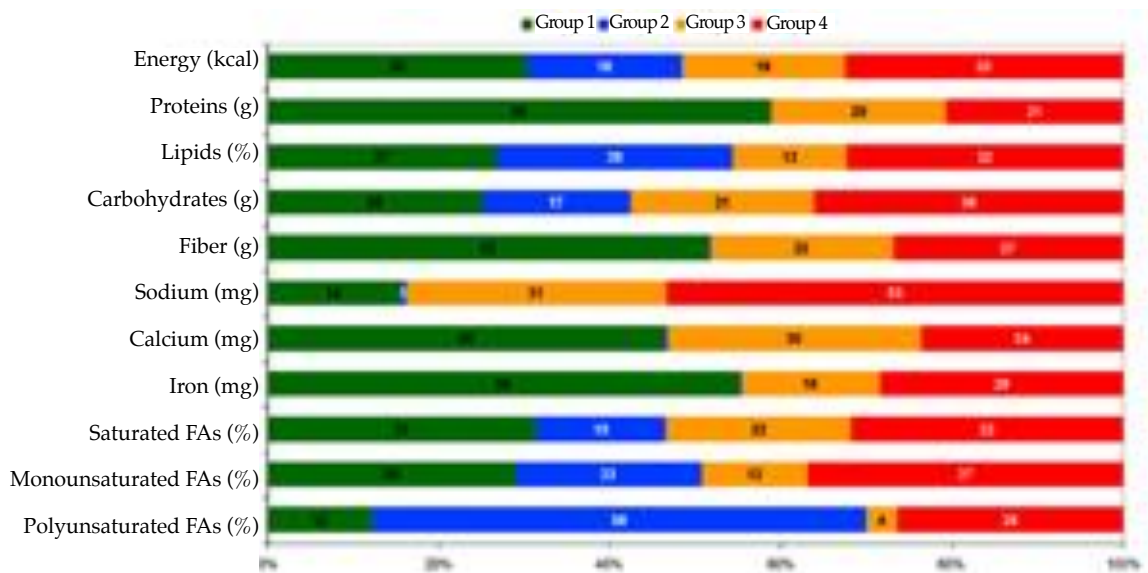
In relation to differences in consumption by geographic location, women from practically all regions consumed around 30% of energy from natural or minimally-processed foods; the only exception was the NEA, where consumption accounted for 35.9%. This was accompanied by a lower energy intake from ultra-processed products in the NOA, NEA, and Cuyo regions

FIGURE 4. Relative energy and nutrient distribution by quintile of the per capita family income according to the NOVA classification among children aged 2-5 years (in percentage). N= 7364



Source: Developed based on data from the ENNyS (2005) and Monteiro et al. (2011).
Q: quintile; G: group; Kcal: kilocalories.

FIGURE 5. Relative energy and nutrient distribution according to the NOVA classification among women aged 10-49 years (in percentage). N= 6605



Source: Developed based on data from the ENNyS (2005) and Monteiro et al. (2011).
FAs: fatty acids.

(approximately 26%) and a significantly higher energy intake from this type of products in the Patagonia and AMBA regions (around 36%).

The average nutritional content of foods consumed in this age group per NOVA group is presented in *Table 4 of the Annex*.

DISCUSSION

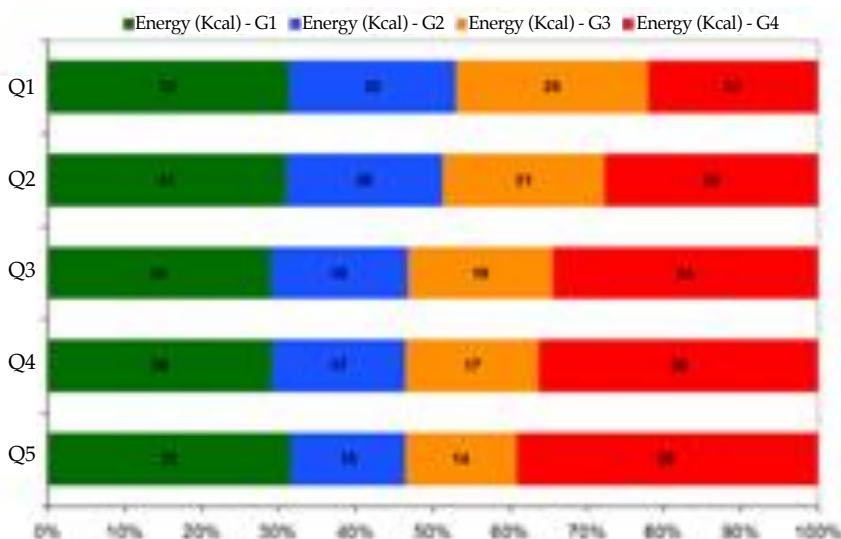
The bibliography on the description of dietary intake based on the chemical composition of foods is wide and varied and has made it possible to identify and measure nutrient requirements and the importance of nutrient deficiencies. Such description based on chemical composition guided the analysis of results of the ENNyS in 2007. There are similar reference frameworks that classify foods based on the level of processing.^{17,18} In our opinion, the most appropriate one is the NOVA classification; since 2014, the number of publications using the description of intake based on this reference framework has increased considerably in PubMed via Medline. This food classification system by processing level has gained recognition in the bibliography until the publication of a special issue of the leading journal in public nutrition policies in January 2018¹⁹ and as part of the reports by the Pan American Health Organization (PAHO) and the Food and Agriculture Organization (FAO).^{9,20}

There is sufficient epidemiological evidence demonstrating that ultra-processed food consumption is associated with a low-quality diet and poor health conditions.²¹ The analysis of energy and nutrient intake based on the level of processing provides useful data to understand and implement health policies aimed at improving the nutritional status of a country's population.²² Although there are no current data on consumption in Argentina, intake analysis based on the data available from the ENNyS is useful to know consumption at critical ages, such as children younger than 6 years and women of childbearing potential.

The information on dietary intake analyzed here, even though it was obtained 12 years ago, is the only information available in Argentina with probabilistic representativeness and serves as the baseline for the comparison with future surveys so as to establish changes over time. Based on the population groups analyzed here, it was observed that as the population age increases, also does the contribution of energy and certain nutrients from ultra-processed foods.

Energy intake from ultra-processed foods in this study was higher than that estimated for Brazil using data from a survey on household expenditure for 2008-2009, which was equivalent to 21.5% of energy consumption, compared

FIGURE 6. Relative energy and nutrient distribution by quintile of the per capita family income according to the NOVA classification among women aged 10-49 years. N= 6605



Source: Developed based on data from the ENNyS (2005) and Monteiro et al. (2011).

Q: quintile; G: group; Kcal: kilocalories.

to our estimations, which were 26%, 32%, and 33% among infants aged 6-23 months, children aged 2-5 years, and women aged 10-49 years, respectively.²³ In addition, an ecological, cross-sectional study conducted in 19 European countries indicated that the median energy intake from ultra-processed foods at home was 26.4%.²⁴

This study showed a strong direct relationship between energy intake from ultra-processed foods and the family income, i.e., a higher per capita family income corresponded to a higher energy intake proportion from ultra-processed foods. Such direct relationship between family income and ultra-processed food consumption has also been observed in Brazil. Besides, this direct relationship takes place at a country level: the higher the domestic income, the higher the proportion of ultra-processed food consumption.²⁵

Among analyzed nutrients, sodium is the one that is most contributed by ultra-processed foods. Polyunsaturated FAs include trans fats, which were still used in the Argentine food industry in 2005, such as hydrogenated vegetable oils, because they were cheaper for the production of processed and ultra-processed foods. For this reason, the contribution of unprocessed foods to the consumption of polyunsaturated FAs appears to be relevant. In 2010, the Argentine Food Code forbade them.²⁶ This state regulatory intervention has managed to reduce the consumption of trans fatty acids since then.

The strength of this study is that it estimated consumption in a probability sample of population groups which are a priority for public nutrition policies based on the reference framework of food processing level and in relation to overweight and obesity in the Argentine population.²⁷⁻³⁰ The analysis of what has occurred in the past two decades based on household expenditure shows a steady advance towards processed foods, from 19% of calorie intake in 1996-1997 to 29% in 2012-2013.³¹

The weakness of the study is that consumption corresponded to single records by person and intra-individual variability was not estimated, which causes some uncertainty in the estimations of confidence intervals of mean estimates.³²

Monitoring the contribution of ultra-processed foods to usual energy intake may be a useful strategy to guide the promotion of public policies aimed at establishing healthy eating habits. It is known that the consumption of ultra-processed foods is associated with a poor-quality diet, and this has been the main argument to propose it as a population indicator of diet quality.^{33,34}

CONCLUSION

Energy and nutrient intake from natural or minimally processed foods is higher in the first years of life. As older age population groups are taken into consideration, consumption of ultra-processed foods increases. The consumption of this type of products is more common among higher socioeconomic levels or those with a better quality of life. ■

Acknowledgments

We would like to thank Luciana Paduano, B.S., for her help assigning foods to the NOVA classification, and Carlos Defrancisco, B.S., for processing and putting together the database.

REFERENCES

1. Ng M, Fleming T, Robinson M, et al. Global, regional, and national prevalence of overweight and obesity in children and adults during 1980-2013: a systematic analysis for the Global Burden of Disease Study 2013. *Lancet* 2014; 384(9945):766-81.
2. NCD Risk Factor Collaboration (NCD-RisC). Trends in adult body-mass index in 200 countries from 1975 to 2014: a pooled analysis of 1698 population-based measurement studies with 19.2 million participants. *Lancet* 2016; 387(10026):1377-96.
3. Vandevijvere S, Chow CC, Hall KD, et al. Increased food energy supply as a major driver of the obesity epidemic: a global analysis. *Bull World Health Organ* 2015; 93(7):446-56.
4. Wang Y, Beydoun MA. The obesity epidemic in the United States- gender, age, socioeconomic, racial/ethnic, and geographic characteristics: a systematic review and meta-regression analysis. *Epidemiol Rev* 2007; 29:6-28.
5. Wang Y, Lobstein T. Worldwide trends in childhood overweight and obesity. *Int J Pediatr Obes* 2006;1(1):11-25.
6. Wang Y. Disparities in pediatric obesity in the United States. *Adv Nutr* 2011; 2(1):23-31.
7. Breslin PA. An evolutionary perspective on food and human taste. *Curr Biol* 2013; 23(9):R409-18.
8. FAO/OPS. América Latina y el Caribe: Panorama de la seguridad alimentaria y nutricional. Sistemas alimentarios sostenibles para poner fin al hambre y la malnutrición. Santiago: OPS; 2017. [Accessed on: February 15th, 2018]. Disponible en: <http://www.fao.org/3/a-i6747s.pdf>.
9. OPS/OMS. Alimentos y bebidas ultraprocesados en América Latina: tendencias, efecto sobre la obesidad e implicaciones para las políticas públicas. Washington: OPS; 2015. [Accessed on: February 15th, 2018]. Available at: iris.paho.org/xmlui/bitstream/handle/123456789/7698/9789275318645_esp.pdf.
10. Ludwig DS. Technology, diet, and the burden of chronic disease. *JAMA* 2011; 305(13):1352-3.
11. Zapata ME, Roviroso A, Carmuega E. La mesa Argentina en las últimas dos décadas: cambios en el patrón de consumo de alimentos y nutrientes 1996-2013. Ciudad Autónoma de Buenos Aires: Centro de Estudios sobre Nutrición Infantil - CESNI; 2016.
12. Monteiro CA, Cannon G, Levy R, et al. Food classification. Public Health. NOVA. The star shines bright. *World Nutr* 2016;7(1-3):28-38. [Accessed on: December 18th, 2017]. Available at: <https://worldnutritionjournal.org/index.php/wn/article/view/5/4>.
13. Durán P, Mangialavori G, Biglieri A, et al. Estudio descriptivo de la situación nutricional en niños de 6-72

- meses de la República Argentina. Resultados de la Encuesta Nacional de Nutrición y Salud (ENNyS). *Arch Argent Pediatr* 2009; 107(5): 397-404.
14. Ministerio de Salud. Encuesta Nacional de Nutrición y Salud. Documento de Resultados 2007. Buenos Aires: Ministerio de Salud, 2007. [Accessed on: December 18th, 2017]. Available at: <http://datos.dinami.gov.ar/produccion/nutricion/ennys.html>.
 15. INDEC. Mapa de necesidades básicas insatisfechas 2001. *Aquí se Cuenta*. 2003;7. [Accessed on: February 15th, 2018]. Available at: https://www.indec.gov.ar/micro_sitios/webcenso/aquise cuenta/aqui7.pdf.
 16. Dirección Nacional de Encuestas de Hogares del INDEC. Acerca del método utilizado para medir la pobreza en la Argentina. Buenos Aires: INDEC. 2003. [Accessed on: February 15th, 2018]. Available at: <https://www.indec.gob.ar/ftp/cuadros/sociedad/pobreza2.pdf>.
 17. Crino M, Barakat T, Trecena H, et al. Systematic review and comparison of classification frameworks describing the degree of food processing. *Nutr Food Technol* 2017; 3(1):138.
 18. Moubarac JC, Parra DC, Cannon G, et al. Food Classification Systems Based on Food Processing: Significance and Implications for Policies and Actions: A Systematic Literature Review and Assessment. *Curr Obes Rep* 2014; 3(2):256-72.
 19. Kelly B, Jacoby E. Public Health Nutrition special issue on ultra-processed foods. *Public Health Nutr* 2018; 21(1):1-4.
 20. FAO. Guidelines on the collection of information on food processing through food consumption surveys. Roma: FAO; 2015. [Accessed on: December 18th, 2017]. Available at: <http://www.fao.org/3/a-i4690e.pdf>.
 21. Batal M, Johnson-Down L, Moubarac JC, et al. Quantifying associations of the dietary share of ultra-processed foods with overall diet quality in First Nations peoples in the Canadian provinces of British Columbia, Alberta, Manitoba and Ontario. *Public Health Nutr* 2017; 21:103-13.
 22. Monteiro CA, Cannon G, Moubarac JC, et al. The UN Decade of Nutrition, the NOVA food classification and the trouble with ultra-processing. *Public Health Nutr* 2017; 21(1):5-17.
 23. Costa Louzada ML, Martins A, Canella D, et al. Ultra-processed foods and the nutritional dietary profile in Brazil. *Rev Saude Publica* 2015; 49:38.
 24. Monteiro CA, Moubarac JC, Levy RB, et al. Household availability of ultra-processed foods and obesity in nineteen European countries. *Public Health Nutr* 2018; 21(1):18-26.
 25. Monteiro CA, Levy RB, Claro RM, et al. Increasing consumption of ultra-processed foods and likely impact on human health: evidence from Brazil. *Public Health Nutr* 2011; 14(1): 5-13.
 26. Ministerio de Justicia y Derechos Humanos. Secretaría de Políticas, Regulación e Institutos y Secretaría de Agricultura, Ganadería y Pesca. Código Alimentario Argentino. Resolución Conjunta 137/2010 y 941/2010 Modificación. Buenos Aires, 3 de diciembre de 2010. [Accessed on: December 18th, 2017]. Available at: <http://servicios.infoleg.gob.ar/infolegInternet/anexos/175000-179999/176669/norma.htm>.
 27. Galante M, Konfino J, Ondarsuhu D, et al. Principales resultados de la tercera Encuesta Nacional de Factores de Riesgo de enfermedades no transmisibles en Argentina. *Rev Argent Salud Pública* 2015; 6(24):22-9.
 28. Datum Internacional. PERCEPCIÓN Y REALIDAD. Un estudio sobre obesidad en América. Octubre de 2014. [Accessed on: February 15th, 2018]. Available at: <http://docplayer.es/15684192-Percepcion-y-realidad-un-estudio-sobre-obesidad-en-america-octubre-2014.html>.
 29. Zapata ME. Patrón de consumo de bebidas en Argentina: resultados de los estudios Hidratar I y II. In: Carmuega E. (editor). *Hidratación saludable en la infancia*. Buenos Aires: CESNI, 2015. Págs.119-41.
 30. Euromonitor International. Carbonates in Argentina. 2017. [Accessed on: December 18th, 2017]. Available at: <http://www.euromonitor.com/carbonates-in-argentina/report>.
 31. Zapata ME, Roviroso A, Carmuega E. Cambios en el patrón de consumo de alimentos y bebidas en Argentina, 1996-2013. *Salud Colectiva* 2016; 12(4):473-86.
 32. Gibson R, Charrondiere R, Bell W. Measurement errors in dietary assessment using self-reported 24-hour recalls in low-income countries and strategies for their prevention. *Adv Nutr* 2017; 8(6):980-91.
 33. Vandevijvere S, Monteiro C, Krebs-Smith SM, et al. Monitoring and benchmarking population diet quality globally: a step-wise approach. *Obes Rev* 2013; 14(Suppl 1):135-49.
 34. Popkin BM, Adair LS, Ng SW. Now and then: The global nutrition transition: the pandemic of obesity in developing countries. *Nutr Rev* 2012; 70(1):3-21.

ANNEX

TABLE 1. Number of surveyed participants by age group and region

Region	Age group		
	Infants aged 6-23 months	Children aged 2-5 years	Women aged 10-49 years
AMBA			
(CABA and Greater Buenos Aires districts)	682	1012	854
Cuyo (Mendoza, San Juan, and San Luis)	1004	1230	1089
NEA (Chaco, Corrientes, Formosa, and Misiones)	1042	1270	1169
NOA (Catamarca, Jujuy, La Rioja, Salta, Santiago del Estero, and Tucumán)	1203	1361	1259
Pampa region (rest of Buenos Aires, Córdoba, Entre Ríos, and Santa Fe)	966	1221	1047
Patagonia (Chubut, La Pampa, Neuquén, Río Negro, Santa Cruz, and Tierra del Fuego)	1138	1270	1187
Argentina	6035	7364	6605

Source: ENNyS 2005.

AMBA: Metropolitan Area of Buenos Aires; CABA: Autonomous City of Buenos Aires; NOA: Northwest region of Argentina; NEA: Northeast region of Argentina.

TABLE 2. Average nutritional content of consumed foods per NOVA group. Infants aged 6-23 months. Total for the country. N = 6035

	Total	G1	G2	G3	G4
Energy (kcal)	1175.4	558.7	161.3	138.2	317.2
Proteins (g)	45.3	31.7	0.0	5.5	8.1
Saturated FAs*	13.2	15.9	8.9	11.6	9.6
Monounsaturated FAs*	10.1	9.7	13.7	6.6	9.8
Polyunsaturated FAs*	5.9	2.3	26.4	1.3	3.3
Lipids (g)	41.4	20.0	8.7	3.1	9.6
Available carbohydrates (g)	155.5	63.1	20.8	22.0	49.6
Fiber (g)**	5.8	3.7	0.0	1.1	1.0
Sodium (mg)	855.4	316.8	2.7	147.1	388.8
Calcium (mg)	766.6	573.1	0.4	57.9	135.2

G1: unprocessed foods; G2: ingredients; G3: processed foods; G4: ultra-processed foods.

FA: fatty acids; Kcal: kilocalories; G: group; g: grams; mg: milligrams.

*: Percentage over total energy intake.

**: Estimated only for infants aged 13-23 months because there are no recommendations for younger infants.

TABLE 3. Average nutritional content of consumed foods per NOVA group. Children aged 2-5 years. Total for the country. N = 7364

	Total	G1	G2	G3	G4
Energy (kcal)	1683.5	646.1	234.7	262.3	540.4
Proteins (g)	59.9	39.3	0.0	9.5	11.0
Saturated FAs*	11.8	15.1	9.7	10.8	8.2
Monounsaturated FAs*	10.3	10.3	13.9	6.9	9.3
Polyunsaturated FAs*	6.4	2.6	26.2	1.4	3.9
Lipids (g)	58.4	22.7	13.9	5.4	16.5
Available carbohydrates (g)	229.6	71.2	27.4	44.0	86.9
Fiber (g)	8.6	4.7	0.0	2.0	1.9
Sodium (mg)	1152.0	329.7	6.1	266.3	550.0
Calcium (mg)	761.0	540.3	0.7	81.1	138.9

G1: unprocessed foods; G2: ingredients; G3: processed foods; G4: ultra-processed foods.

FA: fatty acids; Kcal: kilocalories; G: group; g: grams; mg: milligrams.

*: Percentage over total energy intake.

TABLE 4. *Average nutritional content of consumed foods per NOVA group. Women aged 10-49 years. Total for the country. N = 6605*

	Total	G1	G2	G3	G4
Energy (kcal)	2038.4	635.2	370.0	441.9	591.3
Proteins (g)	68.9	40.0	0.0	16.1	12.8
Saturated FAs*	10.0	10.7	8.8	10.7	8.7
Monounsaturated FAs*	10.2	9.7	13.3	7.0	10.1
Polyunsaturated FAs*	6.7	2.7	23.0	1.4	4.6
Lipids (g)	67.9	17.4	18.7	9.7	22.1
Available carbohydrates (g)	250.6	61.1	41.7	55.7	92.1
Fiber (g)	13.4	7.2	0.0	3.3	2.9
Sodium (mg)	1391.4	235.5	7.8	463.5	684.6
Calcium (mg)	473.4	210.9	0.9	151.2	110.3

G1: unprocessed foods; G2: ingredients; G3: processed foods; G4: ultra-processed foods.

FA: fatty acids; Kcal: kilocalories; G: group; g: grams; mg: milligrams.

*: Percentage over total energy intake.

Aplicación del arte a la investigación científica: fundamentos de un método original para su utilización

Applying art to scientific research: Reasons for using an original method

Dr. Carlos G. Musso^a, Mg. Débora Dricas^b y Mg. Henry González-Torres^c

RESUMEN

El arte en virtud de su poder simbólico puede funcionar como instrumento cognitivo y contribuir, incluso, al proceso de investigación científica, sobre todo, en sus etapas de generación de hipótesis y discusión de datos, debido a su capacidad inductora del pensamiento intuitivo y creativo. En el presente artículo, se propone un método para llevar a la práctica esta concepción, basado en la exposición de los científicos a actividades artísticas colectivas en ambientes protegidos, metodología diseñada a partir de experiencias relatadas por destacados artistas y científicos.

Palabras clave: investigación, ciencia, arte, cognición, simbolismo.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.353>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.353>

Cómo citar: Musso C, Dricas D, González-Torres H. Aplicación del arte a la investigación científica: fundamentos de un método original para su utilización. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):353-358.

- Departamento de Ciencias Humanas, Instituto Universitario del Hospital Italiano de Buenos Aires, Argentina.
- Universidad del Salvador-Asociación Odontológica Argentina.
- Universidad Simón Bolívar, Facultad de Ciencias de la Salud, Barranquilla, Colombia.

Correspondencia:

Dr. Carlos G. Musso:
carlos.musso@hospitalitaliano.org.ar

Financiamiento:

Ninguno.

Conflicto de intereses:

Ninguno que declarar.

Recibido: 11-2-2018

Aceptado: 19-2-2018

I. EL ARTE COMO INSTRUMENTO DE COGNICIÓN

El lenguaje verbal constituye para el hombre un instrumento de abordaje cognitivo del mundo, ya que, por medio de la palabra, este logra segmentarlo en múltiples categorías (signos) que poseen el valor que les confiere su utilidad práctica y el consenso de los hablantes. Sin embargo, el hombre posee otra forma de abordaje del mundo, que se realiza a través de los sentidos, proyectando esquemas de imágenes primordiales (símbolos) provenientes de la experiencia corporal individual y de la herencia de la especie.^{1,2}

En este sentido, Nelson Goodman y Jean-Luc Nancy sostienen que arte

y ciencia le ofrecen al ser humano distintos sistemas para ampliar el conocimiento, pues le brindan la posibilidad de percibirse a sí mismo y, desde allí, darle forma al mundo.^{3,4} Jacques Rancière sostiene que el arte contribuye a “diseñar nuevas configuraciones de lo visible, decible y pensable”, que permite conocer desde el no saber al propiciar la creatividad. Desde la teoría de la “educación por el arte”, no se trata de hacer de los científicos artistas, sino de acercarlos los lenguajes artísticos durante su proceso de investigación, a través del estímulo de la sensibilización, la experimentación y la imaginación creadora. Como pregona el “arte conceptual”, lo principal no es el objeto físico producido, sino los conceptos e ideas que lo originaron y emergen de él.⁵ Charles Percy Snow señala la perjudicial separación que actualmente padecen ciencia y arte, con la consecuente limitación al desarrollo cultural.⁶ Por esta razón, desde finales del siglo pasado, comenzó la incorporación de seres vivos a las expresiones artísticas, así como las producciones colaborativas entre artistas y científicos en los laboratorios de biotecnología.⁷ En este contexto, las discusiones contemporáneas en torno al método de las ciencias (Morin), la pregunta de qué es ciencia (Khun), la interdependencia entre el mundo interior y el laboratorio (Latour) dan cuenta de un nuevo modo de producción del conocimiento (Fried Schnitman).⁸⁻¹¹

De lo antes expuesto, se desprende que los fundamentos que separan el

arte de la ciencia son sus diferentes estrategias para conocer (representar) el mundo, de modo que sus contextos discursivos estarían basados en distintas pretensiones referenciales: verificables en el caso de la ciencia y metafóricas en las artes. Sin embargo, el mundo que exploran es el mismo, por lo cual sus diferencias metodológicas, lejos de justificar su falta de colaboración, remarcan sus potenciales beneficios.¹²

II.a. EL ARTE COMO INSTRUMENTO DE INVESTIGACIÓN: SUS FUNDAMENTOS

Arte y filosofía

El arte posee características que avalan su uso en la investigación, tales como su correspondencia con el lenguaje natural, su función de disparador externo y su rol en la cognición afectiva.^{2,13-15}

El filósofo Friedrich Schelling sostiene que la naturaleza se expresa a través de sus configuraciones, donde el concepto vive en la forma, y es esta el idioma del mundo natural (Schelling-Maturana). Las leyes del mundo natural operan calladamente y solo pueden develarse cuando afloran a la conciencia humana. Schelling sostiene que las formas simbólicas del arte pueden lograr poner de manifiesto esta conexión entre naturaleza y psiquis, a través de su materialización durante la expresión artística, ya que lenguaje natural y artístico se basan ambos en la imagen. Se establece, entonces, un círculo interpretativo en el que la naturaleza encierra en la forma el concepto, y se devela este a la conciencia a través del símbolo artístico.^{13,14}

Según el biólogo Maturana, el sistema nervioso opera haciendo correlaciones internas e independientes del entorno (sistema cerrado), de modo que, si bien existen estímulos externos (imágenes y palabras), el organismo no actúa como consecuencia de dichos estímulos, sino como consecuencia de su propio operar gatillado por ellos. Los estímulos externos más que generadores de conductas serían disparadores de conductas pre-existentes en estado latente (plegado) que luego se expresarían (desplegado). Las imágenes del arte (símbolos) ejercerían un efecto disparador de programas internos, percibidos como intuiciones o certezas interiores.^{14,15}

La emoción impregna siempre el proceso cognitivo y constituye un ingrediente fundamental de él. Esto se debe a que la razón es incapaz de determinar enteramente las creencias y acciones del hombre, por lo que dicha carencia es completada por la emoción (Dewey), al delimitar

esta el rango de información que la razón tiene en cuenta para analizar, de modo que la emoción es portadora de relevancia y establece los objetivos y los límites de todo razonamiento. Además, la emoción es promotora de heurísticas, creatividad e innovación. Entre los mecanismos heurísticos del arte, se encuentra la capacidad metafórica, basada en la fusión de imágenes previas a fin de obtener imágenes nuevas, que permite así trascender fronteras conceptuales. El arte al evocar la emoción contribuye, entonces, a direccionar y fecundar el pensamiento científico.^{15,16}

Arte y creatividad

Según John Dewey, cuando el hombre concibe, produce y/o disfruta de una obra de arte, surge de sí (intuición) la capacidad de distinguir lo estético, lo que da lugar a una experiencia significativa, que propicia el análisis y la reflexión. Por lo tanto, desde esta cosmovisión, las artes ocupan un lugar central dentro de la cultura, y sus productos no son meros objetos de ornamentación y/o especulación financiera, sino, fundamentalmente, promotores del desarrollo humano.¹⁷

Hans-Georg Gadamer considera que, en la experiencia estética, se dan los mecanismos hermenéuticos de comprensión, interpretación y aplicación. A través de ella, la persona toma conciencia de su horizonte interpretativo y, desde allí, sale al encuentro de lo que transmite la obra de arte, por lo que puede ocurrir, entonces, la fusión entre ambos horizontes. La persona compara lo nuevo que recibe de la obra con lo de otras obras, lecturas y experiencias pasadas. Se replantea, por consiguiente, el pasado a través de su situación presente y explora estrategias para modificar lo establecido a fin de generar algo nuevo. En esta fusión de horizontes, ocurre un diálogo, un intercambio de preguntas y respuestas. Al aceptar que existe una pregunta, se identifica que hay algo cuestionable, se re-examinan opiniones y se propicia la construcción de nuevos conceptos.¹⁸

David Perkins sostiene que el acto creativo, tanto en ciencia como en arte, es una extensión natural de las capacidades mentales cotidianas: percepción, entendimiento, memoria, etc. Es decir, que las personas creativas no poseen capacidades intelectuales diferentes, sino que, a partir de los mismos recursos que el resto de la gente, llegan a soluciones innovadoras. Asimismo, este autor considera que, a través de la práctica del diseño, se puede innovar, pues la capacidad para diseñar

es una característica presente en la mayoría de la población. Esto sugiere un modelo inductor del pensamiento creativo basado en el diseño, el cual permitiría separar y reagrupar mentalmente las cosas para generar nuevas ideas.¹⁹

Finalmente, Gastón Bachelard, sostiene que la dificultad para captar un fenómeno nuevo se debe a las condiciones psicológicas generadas en el individuo por los conocimientos previos. En su opinión, es imposible hacer tabla rasa de los conocimientos previamente adquiridos, y se requiere esfuerzo para desplazar ciertas trabas que ofuscan la mente, dificultan la percepción del problema y/o la búsqueda de soluciones a él. Las prácticas artísticas contribuirían a disipar estas trabas mentales.²⁰

II.b. EL ARTE COMO INSTRUMENTO DE INVESTIGACIÓN: SU METODOLOGÍA

A lo largo de la historia del arte, se ha documentado reiteradamente como este ha logrado obtener nuevas perspectivas interpretativas y descripciones de los fenómenos del mundo mucho antes de que lo hiciera la ciencia.²¹ Incluso, arte y ciencia se sirven de heurísticas comunes al momento de crear estilos o postular hipótesis de trabajo, respectivamente.² En función de lo expuesto, es que, en el presente artículo, se propone integrar ambas formas de abordaje cognitivo (síglico y simbólico) a fin de enriquecer y potenciar la investigación científica. Esta postura epistemológica se basa en la hipótesis de que, al funcionar el arte como un disparador de certezas interiores, es decir, de un saber del mundo que reside en el inconsciente humano por el solo hecho de ser el hombre parte constitutiva del mundo, podría contribuir a que este conocimiento aflorara al plano consciente (Wittgenstein).²² Es precisamente desde esta concepción que se propone que las imágenes cargadas de simbolismo del arte podrían activar cadenas asociativas que llegasen a propiciar el surgimiento de ideas innovadoras durante el proceso de investigación, de modo que funcionasen como "llaves" capaces de abrir portales del inconsciente.^{1,2}

En cuanto a cómo aplicar concretamente esta propuesta a la actividad investigativa (método), existen procedimientos descritos por el pintor Salvador Dalí y el psiquiatra Carl Jung que podrían tomarse como modelo, así como una serie de imágenes ancestrales de alto contenido simbólico, es decir, con gran capacidad de funcionar como disparadores externos, descritas

por la psicología, la antropología y el arte, las cuales podrían contribuir a crear una atmósfera creativa (Perkins-Nachmanovitch), sustrato fundamental en la elaboración de un método capaz de integrar el arte a la investigación científica.^{16,21-32}

El método paranoico-crítico (Salvador Dalí)

Salvador Dalí desarrolló un método investigativo basado en el arte, al cual denominó "paranoico-crítico". Este consiste en la observación de diversas imágenes, en la que el pasaje espontáneo de una imagen a otra se realiza a través de asociaciones metonímicas (desplazamiento de una idea a otra) o metafóricas (arriba a ideas nuevas por fusión de ideas antiguas), sin ningún control de la razón, de la estética o de la moral. Se trata de un dejarse sugerir por las formas, un proceso en el que una imagen lleva a la otra, y así sucesivamente, hasta descubrir el secreto oculto de lo que se investiga.

Dalí demostró la efectividad de este método cognitivo cuando realizó su famoso análisis del cuadro *El Ángelus*, de Millet (*Figura 1*). Éste muestra a dos campesinos que detienen su trabajo rural vespertino para elevar una plegaria. A Salvador Dalí siempre le pareció que guardaba un significado oculto y se dispuso a descubrirlo, ideando un método para lograrlo. Fue así que comenzó observando distintos tipos de piedras, tanto menhires en Finisterre como guijarros de la playa en Cadaqués, cuyas formas irregulares le eran sumamente evocadoras de la pareja de *El Ángelus*. Percibió luego en su imagen un signo de muerte, idea que se reforzó al experimentar pictóricamente en reiteradas oportunidades con la imagen de la pareja. Por último, intuyó el significado oculto del cuadro: la plegaria de la pareja estaba dedicada a su hijo muerto y enterrado. Un posterior análisis radiográfico del cuadro hecho por el Museo del Louvre demostró la presencia de un pequeño ataúd a los pies de la campesina, y una investigación epistolar documentó que Millet había borrado la imagen de dicho ataúd por consejo de un amigo que le había dicho que los cuadros de temas melodramáticos ya no estaban de moda en París.²

Cabe señalar que la visualización de imágenes cinematográficas podría officiar como una "máquina inductora de pensamiento paranoico-crítico", ya que una película, merced al realismo de sus imágenes, posee la capacidad de hacer pensar y despertar la conciencia. Sin embargo, tendría que ser una

película con mínimo montaje cinematográfico, ya que, como señala Benjamín, el montaje, lejos de estimular la liberación del pensamiento, lo condiciona al sobre determinar el sentido. Por esta razón, un film estimulante del pensamiento asociativo libre debería remedar un sueño o una película de género surrealista, donde el montaje fuese reemplazado por el “mostraje” (Deleuze).²⁴

El método alquímico (Carl Jung)

Según Carl Jung, el *opus alquimicum* u obra de los alquimistas medievales no consistía en la búsqueda del oro material a partir de metales no preciosos, sino, en realidad, en la obtención del conocimiento, no solo por lo que podían aprender de los experimentos químicos que realizaban, sino, fundamentalmente, por la proyección de contenidos psíquicos que el ejercicio de la práctica alquímica les permitía alcanzar al estimular la aparición de esclarecedoras intuiciones. El lema de los alquimistas medievales era: “Nuestro oro no es el oro del vulgo” (*aurum nostrum non est aurum vulgi*), pues el “oro” que perseguían no era material (metal), sino espiritual (conocimiento). Durante el experimento, el alquimista proyectaba su inconsciente a la materia y volvía manifiesto involuntariamente (proyección) lo inconsciente (emergentismo). El mismo Jung aplicó estos principios al emplear la práctica de la escultura en piedra como medio para desarrollar sus teorías psicológicas.

Además, Jung describió la existencia de una serie de imágenes que constituían símbolos oníricos clásicos, capaces de propiciar también el fenómeno de proyección psíquica antes mencionado. Se destacaron entre estos diseños figuras geométricas (círculo, espiral, triángulo, cuadrado, rombo, cruz, zigzag), colores (blanco, negro, amarillo, rojo), imágenes de la Tierra y del firmamento (mar, arco iris, sol, luna, cielo, montaña, caverna, abismo), seres vivos (árbol, flor, serpiente, ave, fiera, jardín), obras ingenieriles (escalera, camino, palacio, fuente, reloj) y figuras arquetípicas (padre, madre, ángel, demonio, muerte).¹⁵

No es casual que la inmensa mayoría de las imágenes onírico-arquetípicas descritas por Jung como capaces de estimular la proyección de los saberes inconscientes (disparadores) coincidan precisamente con aquellas que la mente neolítica plasmó en las pinturas rupestres, los chamanes refieren percibir durante sus experiencias extáticas y las artes visuales han empleado como parte de su lenguaje a lo largo de la historia universal.²⁶⁻³² Todos estos son símbolos arcanos, que podrían funcionar como verdaderos puentes entre el inconsciente (saber oculto) y la materia (producciones artísticas). Durante su pasaje, se daría lugar a un proceso de transformación (método alquímico) del cual resultaría el arribo de dicha información a la conciencia (saber develado).

FIGURA 1. El Ángelus, de Millet



El físico Wolfgang Pauli y Carl Jung, basados, en parte, en las ideas del biólogo Paul Kammerer y el filósofo Arthur Schopenhauer, han atribuido (hipótesis) la súbita y transitoria aparición de una correspondencia entre la concientización de un saber inconsciente y la percepción de una imagen externa a la mente a la existencia de una supuesta ley de correspondencia, basada en patrones de comportamiento que regulan el mundo natural y propician estas coincidencias significativas, que serían la base del pensamiento intuitivo.¹⁵

La atmósfera creativa de Perkins-Nachmanovitch

El pensamiento creativo puede surgir tanto del ámbito externo al individuo (medioambiente o situaciones) como de su interior; por ende, deben eliminarse las barreras que pudiesen bloquearlo.

David Perkins destaca la necesidad de construir un ambiente propicio para que las prácticas artísticas puedan promover experiencias cognitivas amplias, revisar distintos puntos de vista y, de ese modo, elaborar reflexiones originales y creativas. Si bien la creatividad implica poner en práctica nuevas ideas en un proceso de investigación y reflexión, para que esto suceda, debe estar presente el objeto arte o se debe realizar alguna práctica artística, para lo cual se requiere un anclaje fuerte sensorial en una atmósfera afectiva que lo potencie.³³

Según Stephen Nachmanovitch, el campo de acción para que surja la creatividad debe estar mediado por el juego, la exploración y la experimentación. En el caso del juego, se considera que no es importante lo que se hace, sino cómo se lo hace, en un ambiente donde ocurra una interacción comunicativa flexible, sensible y donde haya una tolerancia a los errores y a las situaciones ambiguas.³⁴

Una nueva propuesta metodológica

Teniendo en cuenta los pasos clásicos del método científico (a saber: detección del problema, elaboración de la hipótesis explicativa, elección del material y del método con el que se intentará falsear la hipótesis, realización del estudio, obtención de los resultados, discusión de estos y, finalmente, obtención de la conclusión) y sabiendo a partir de lo previamente analizado que la potencial utilidad del arte en la investigación científica consistiría en facilitar que emergieran a la conciencia intuiciones capaces de dar respuesta a los interrogantes en estudio, resulta, entonces, razonable determinar que los pasos del proceso de investigación que más se

beneficiarían de la influencia del arte serían aquellos que más necesitarían del pensamiento creativo, vale decir, la generación de la hipótesis y la discusión de los datos obtenidos. Sobre la base de las experiencias previas descritas por Salvador Dalí y Carl Jung, y el concepto de atmósfera creativa de Perkins y Nachmanovitch, se propone que, al momento de diseñar una metodología que permita poner en práctica estos conceptos, imbricarlos en el proceso de investigación y poder someterlos a evaluación, se emplee la siguiente metodología:

Durante el período en que el investigador estuviese elaborando la hipótesis de su investigación o de la discusión de los datos obtenidos, este debería hacerlo junto con otros investigadores, no necesariamente de su misma disciplina, compartiendo un ambiente donde todos ellos se hallasen expuestos a distintas obras de arte y/o realizasen diversas prácticas artísticas, a fin de propiciar el pensamiento intuitivo, creativo e innovador. Dicha exposición podría lograrse mediante el diseño de un ambiente protegido, en sitios preferentemente ubicados en entornos naturales (Schelling, Heidegger) y equipados para este fin, en los cuales los investigadores pudieran compartir una serie de actividades, no excluyentes entre sí, tales como:

- Realizar actividades plásticas (pintura, dibujo, cerámica, etc.).
- Escuchar piezas musicales pertenecientes a grandes compositores.
- Presenciar la proyección de películas de alto contenido simbólico.

Con respecto a este último recurso, podrían crearse cortos diseñados ex profeso con imágenes de la naturaleza o culturales de alto contenido simbólico.

El poder constatar la existencia de una producción científica significativamente mayor y más original por parte de los científicos que hubiesen estado expuestos a la influencia de este tipo de prácticas artísticas en ambientes protegidos podría corroborar la utilidad de introducir el arte en el proceso de investigación científica.

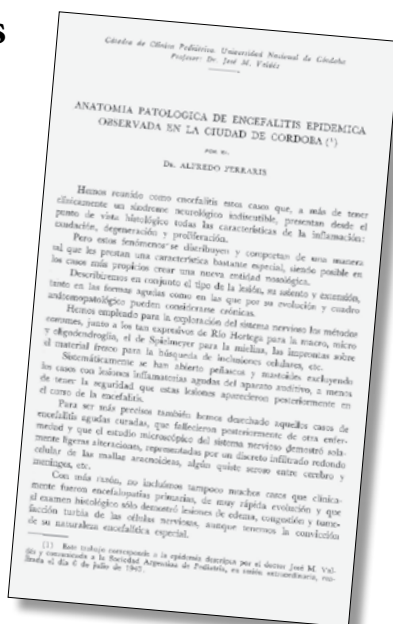
Se concluye que el arte, en virtud de su poder simbólico, cognitivo e innovador, es estimulante del pensamiento creativo y podría contribuir a optimizar las etapas de elaboración de hipótesis, diseño de la pregunta de investigación y discusión de los resultados dentro del proceso de investigación científica, para lo cual se propone en

forma original un método basado en la exposición de los científicos a actividades artísticas colectivas en ambientes protegidos y acondicionados para tal fin. ■

REFERENCIAS

- Musso CG. La intersección de las paralelas: arte y ciencia en un único proceso cognitivo. Hacia una nueva forma de investigar. *Rev Hosp Ital B Aires* 2012; 32(1):1-2.
- Castro S, Marcos A. Arte y ciencia. Mundos convergentes. Madrid: Plaza y Valdés; 2010.
- Goodman N. Maneras de hacer mundos. Madrid: Hackett Publishing; 1990.
- Nancy JL. El arte hoy. Buenos Aires: Prometeo Libros; 2015.
- Rancière J. El espectador emancipado. Pontevedra: Ellago; 2012.
- Snow CP. Las dos culturas. Buenos Aires: Nueva Visión; 2000.
- Machado A. El paisaje mediático. Sobre el desafío de las poéticas tecnológicas. Buenos Aires: Nueva Librería; 2009.
- Morin E. El método III El conocimiento del conocimiento. Madrid: Cátedra; 1999.
- Kuhn T. La estructura de las revoluciones científicas. México: Fondo de Cultura Económica; 2004.
- Latour B. Nunca fuimos modernos. Ensayo de antropología simétrica. Buenos Aires: Siglo XXI; 2007.
- Fried Schnitman D, Schnitman J. Resolución de conflictos. Nuevos diseños, nuevos contextos. Buenos Aires: Granica; 2000.
- Ricoeur P. Historia y narrativa. Barcelona: Paidós; 1999.
- Schelling F. La relación del arte con la naturaleza. Madrid: Globus; 2012.
- Maturana-Romesín H, Pörksen B. Del ser al hacer. Los orígenes de la biología del conocer. Buenos Aires: Gránica; 2015.
- Musso CG, Baez F, Elias MJ, et al. The principle of synchronicity-equivalence and chronomedicine: relevance and methodological exploration. *Arch Argent Pediatr* 2017;115(4):309-10.
- Musso CG, Enz P. Semiótica médica. Principios lingüísticos y comunicacionales de uso médico. Buenos Aires: Delhospital ediciones; 2007.
- Dewey J. El arte como experiencia. Barcelona: Paidós; 2008.
- Gadamer HG. Verdad y método Fundamentos de una Filosofía, Hermenéutica, Obras completas. Tübingen: Mohr; 1986.
- Perkins D. Las obras de la mente. México: Fondo de Cultura Económica; 1988.
- Bachelard G. La formación del espíritu científico. Contribución al psicoanálisis del conocimiento objetivo. México: Siglo XXI; 2000.
- Leherer J. Poust y la neurociencia. Barcelona: Paidós; 2010.
- Wittgenstein L. Investigaciones filosóficas. Barcelona: Crítica; 2004.
- Dalí S. El mito trágico de "El Ángelus" de Millet. Barcelona: Tusquets; 2002.
- González D, Llevadot L, Saez Tajafuerce B, Kierkegaard y las artes. Pensar la creación. Barcelona: UOC; 2015.
- Jung CG. Psicología y alquimia. Buenos Aires: Santiago Rueda; 1957.
- Lewis-Williams D. La mente en la caverna. Madrid: Akal; 2005.
- Lewis-Williams D, Pearce D. Dentro de la mente neolítica. Madrid: Akal; 2009.
- Eliade M. El chamanismo y las técnicas arcaicas del éxtasis. México: Fondo de Cultura Económica; 1960.
- Clothes J, Lewis-Williams D. Los chamanes de la prehistoria. Barcelona: Planeta; 2001.
- Reichel-Dolmatoff G. Orfebrería y chamanismo: Un estudio iconográfico del Museo del Oro del Banco de la República, Colombia. Bogotá: Museo del Oro; 2014.
- Pineda Camacho R. El poder de los hombres que vuelan. Gerardo Reichel Dolmatoff y su contribución a la teoría del Chamanismo. *Tabula Rasa (Bogotá)* 2003; 1:15-47.
- Arola R. Cuestiones simbólicas. Las formas básicas. Barcelona: Herder; 2015.
- Perkins D. Las obras de la mente. México: Fondo de Cultura Económica; 1988.
- Nachmanovitch S. Free Play. La improvisación en la vida y en el arte. Buenos Aires: Barrendero; 2011.

Archivos hace 75 años



El texto completo se encuentra disponible en la versión electrónica de este número.

Applying art to scientific research: Reasons for using an original method

Carlos G. Musso, M.D.PhD.^a, Débora Dricas, Magister^b and Henry González-Torres, Magister^c

ABSTRACT

Art, by virtue of its symbolic power, may function as a cognitive instrument and even as an aid in the scientific research process, especially in the phase of hypothesis generation and data analysis given its ability to induce creative and intuitive thinking. In this article, we propose a method to put such concept into practice based on the exposure of scientists to collective artistic activities in protected settings, a methodology developed from the experiences described by renowned artists and scientists.

Key words: research, science, art, cognition, symbolism.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.353>

To cite: Musso C, Dricas D, González-Torres H. Applying art to scientific research: Reasons for using an original method. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):353-358.

- a. Department of Human Sciences, Instituto Universitario del Hospital Italiano de Buenos Aires, Argentina.
- b. Universidad del Salvador-Argentine Dental Association (Asociación Odontológica Argentina).
- c. Universidad Simón Bolívar, Facultad de Ciencias de la Salud. Barranquilla, Colombia.

E-mail address:
Carlos G. Musso, M.D.PhD:
carlos.musso@hospitalitaliano.org.ar

Funding:
None.

Conflict of interest:
None.

Received: 2-11-2018
Accepted: 2-19-2018

I. ART AS AN INSTRUMENT OF COGNITION

Spoken language is, for humans, a cognitive instrument to address the world because it allows them to segment the world into multiple categories (signs), whose value is bestowed by their practical utility and the consensus agreed by speakers. However, humans also approach the world through the senses, projecting outlines of essential images (symbols) based on their individual bodily experience and the heritage of the human species.^{1,2}

In this regard, Nelson Goodman and Jean-Luc Nancy state that art and science offer humans different systems to widen such knowledge by providing the possibility of perceiving themselves and, from there, shape the world.^{3,4} Jacques Rancière claims that art helps to “design new configurations of what

can be seen, said, and thought,” and enables to gain knowledge from ignorance by promoting creativity. The theory of “education based on art” does not attempt to turn scientists into artists but to offer them artistic languages during the research process by stimulating sensitivity, experimentation, and creative imagination. As proclaimed by “conceptual art,” the main point does not lie in the resulting physical object but in the concepts and ideas that gave rise to, and emerged from, it.⁵ Charles Percy Snow points out that the current separation between science and art is detrimental and restrains cultural development.⁶ For this reason, by the end of the 20th century, live beings started to become part of artistic expressions, and collaborations between artists and scientists took place at biotechnology laboratories.⁷ In this setting, contemporary discussions regarding the science method (Morin), the question of what is science (Khun), the interdependence between the inner world and the laboratory (Latour) give account of a new way of creating knowledge (Fried Schnitman).⁸⁻¹¹

Based on the preceding, it is observed that the grounds for the separation of art and science are the differences in the strategies to gain knowledge of (represent) the world; therefore, the discursive contexts would be based on different referential expectations: verifiable in the case of science and metaphorical in that of art. However, the world they explore is the same, so such methodological differences, far from justifying the lack of collaboration, highlight their potential benefits.¹²

II. ART AS AN INSTRUMENT OF RESEARCH: FOUNDATIONS

Art and philosophy

The characteristics of art endorse its use in research, such as its correspondence to natural language, its role as an external trigger, and its participation in emotional cognition.^{2,13-15}

Philosopher Friedrich Schelling stated that nature expresses itself through its configurations, where concept lives in the form, and this is the language of the natural world (Schelling-Maturana). The laws of the natural world function quietly and may be revealed when they surface in the human consciousness. Schelling claims that the symbolic forms of art may be able to evince the connection between nature and the psyche, through its embodiment during artistic expression because natural and artistic languages are both based on image. Therefore, an interpretative circle takes place where nature contains concept in the form, and concept reveals itself to consciousness through the artistic symbol.^{13,14}

According to biologist Maturana, the nervous system functions by making internal correlations, which are independent from the setting (closed system); therefore, although there are external stimuli in place (images and words), the body does not act in response to such stimuli but as a result of its own stimulus-triggered function. Rather than acting as behavior generators, external stimuli may be the triggers of latent, pre-existing (folded) behaviors that are later expressed (unfolded). Artistic images (symbols) may trigger inner programs, which are perceived as intuition or internal convictions.^{14,15}

Emotion always permeates the cognitive process and is an integral part of it. This is because reason is unable to wholly determine human actions and beliefs; in consequence, such shortage is complemented by emotion (Dewey), defining the range of information that reason takes into consideration for analysis, so that emotion carries relevance and sets the goals and boundaries of reasoning. In addition, emotion promotes heuristics, creativity, and innovation. The heuristic mechanisms of art include metaphoric ability, based on the merger of existing images to obtain new ones, which allows to transcend conceptual borders. By recalling emotion, art helps to guide and impregnate scientific thinking.^{15,16}

Art and creativity

According to John Dewey, when humans conceive, produce and/or enjoy a work of art, their ability to recognize aesthetics emerges (intuition), thus causing a significant experience that promotes analysis and reflection. Therefore, considering this view of the world, art takes center stage within culture, and art products are not merely the objects of decoration and/or financial speculation but, basically, the promoters of human development.¹⁷

Hans-Georg Gadamer considers that the aesthetic experience involves the hermeneutical mechanisms of understanding, interpretation, and implementation. Through it, individuals become aware of the horizon of their interpretation and, from there, they go out to meet what the work of art conveys; therefore, both horizons may then come together. Individuals compare what they have just perceived from the artwork to what they received from other works of art, texts, and past experiences. As a consequence, the past is posed again through the present situation and the exploration of strategies to change what is given by default to create something new. In such merger of horizons, dialog takes place as an exchange of questions and answers. By accepting that there is a question, we recognize that there is something questionable, opinions are reviewed, and new concepts are promoted.¹⁸

David Perkins states that the creative act, in the fields of both science and art, is a natural prolongation of everyday mental abilities: perception, understanding, memory, etc. This means that creative people do not have different intellectual abilities but, based on the same resources as the rest, they reach innovative solutions. In addition, Perkins considers that innovation may occur through the practice of design because the ability to design is present in the large majority of the people. This suggests a model that induces creative thinking based on design, which would allow to mentally separate and regroup things to generate new ideas.¹⁹

Lastly, Gastón Bachelard claims that the difficulty to understand a new phenomenon is based on the individuals' psychological conditions resulting from their prior knowledge. In his opinion, it is not possible to wipe the slate clean of previously acquired knowledge and it takes an effort to take down the obstacles that bewilder the mind, hinder the perception of problems and/or the search for a solution. Artistic practice may help to remove such mental barriers.²⁰

II. ART AS AN INSTRUMENT OF RESEARCH: THE METHODOLOGY

Throughout the history of art, it has been repeatedly documented that it has managed to gain new interpretative perspectives and descriptions of the world phenomena long before science did.²¹ Art and science even share heuristic features when creating styles or proposing work hypothesis, respectively.² Based on the preceding, in this article, we propose to integrate both forms of cognitive approach (signs and symbols) to enhance and strengthen scientific research. This epistemological perspective is based on the hypothesis that since art functions as a trigger of inner certainties, i.e., of a knowledge that resides in the human subconscious by the mere fact that humans are an integral part of the world, it may help to surface knowledge to the conscious plane (Wittgenstein).²² Precisely based on this concept, we propose that symbol-loaded artistic images may activate chains of association that could encourage the development of innovative ideas during the research process so that they may work as “keys” to open the doors of the subconscious.¹²

In relation to how this proposal for research activity may be specifically put in practice (method), painter Salvador Dalí and psychiatrist Carl Jung described procedures that may serve as models, and there is also a series of highly-symbolic, ancient images, i.e., that have a great capacity to work as external triggers and that have been described by psychology, anthropology, and art, and which may help to generate a creative setting (Perkins-Nachmanovitch), an essential background in the development of a method capable of integrating art and scientific research.^{16,21-32}

The paranoid-critical method (Salvador Dalí)

Salvador Dalí developed an art-based research technique called the “paranoiac-critical” method. It consists of the observation of different images where the spontaneous navigation from one image to the next takes place through metonymic associations (shift from one image to another) or metaphoric associations (having new ideas through the merger with old ones), with no control of reason, aesthetics or moral. It means letting yourself be influenced by shapes, a process where one image leads to another, and so on, until discovering the hidden secret of the object of research.

Dalí demonstrated the effectiveness of this cognitive method when he famously analyzed *The Angelus* by Millet (*Figure 1*). The painting shows two peasants who have stopped working in the field one afternoon to pray. Salvador Dalí always thought the painting had a hidden meaning and set to discover it, thus conceiving a method to achieve it. This is how he started observing different types of rocks, either menhirs in Finistère or pebbles on the beach of Cadaqués, whose irregular shapes resulted extremely evocative of the couple in *The Angelus*. He then perceived a sign of death in the image, which was reinforced by the repeated painting experimentations he did of the couple’s image. Lastly, he sensed the hidden meaning of the painting: the couple was praying in honor of their dead, buried child. A subsequent X-ray analysis done by the Louvre Museum showed the presence of a little casket at the feet of the woman, and an investigation of Millet’s letters documented that he had removed the casket from the image following the advice of a friend who had said that melodramatic paintings were no longer fashionable in Paris.²

It is worth noting that watching cinematographic images may act as a “machine that induces paranoiac-critical thinking,” because a film has, at the mercy of the realism of its images, the ability to make people think and to awaken the human consciousness. However, it would have to be a movie with minimal film montage because, as pointed out by Benjamín, instead of stimulating the liberation of thoughts, film editing conditions it by over-determining

FIGURE 1. *The Angelus*, by Millet



meaning. For this reason, a film that stimulates the liberation of associative thoughts should mimic a dream or a surrealist movie, where “*montage*” is replaced by “*montrage*” (Deleuze).²⁴

The alchemical method (Carl Jung)

According to Carl Jung, the purpose of the opus alquimicum, or work of medieval alchemists, was not to change base metals into gold but, actually, to find knowledge, not only because they could learn a lot from their chemical experiments but, basically, because alchemy practice projected psychic content and this allowed them to stimulate the development of enlightening intuition. Medieval alchemists had a saying: “our gold is not common gold” (aurum nostrum non est aurum vulgi), which meant that the “gold” they were after was not material (metal) but spiritual (knowledge). During the experiment, alchemists projected their subconscious onto the matter, which turned the subconscious (emergence) inadvertently evident (projection). Jung himself applied these principles when practicing stone carving as a means to develop his psychological theories.

In addition, Jung described the existence of a series of images that represented classical oneiric symbols, also capable of encouraging the psychic projection phenomenon described above. The most well-known designs included geometric figures (circle, spiral, triangle, square, diamond, cross, zig zag), colors (white, black, yellow, red), Earth and firmament images (sea, rainbow, sun, moon, sky, mountain, cavern, abyss), live beings (tree, flower, serpent, bird, wild animal, garden), engineering works (stairs, road, palace, fountain, clock), and archetypal images (father, mother, angel, demon, death).¹⁵

It is not by chance that the large majority of oneiric-archetypal images that Jung described as capable of stimulating the projection of subconscious knowledge (trigger) match accurately those that the Neolithic mind expressed in cave paintings, those that witch doctors perceive during ecstatic experiences, and those that visual arts have employed as part of their language throughout universal history.²⁶⁻³² All these are arcane symbols, which may serve as true bridges between the subconscious (hidden knowledge) and the matter (artworks). During the passage, a transformation process (alchemical method) would take place which would result in the advent of such information onto consciousness (revealed knowledge).

Physicist Wolfgang Pauli and Carl Jung, partially based on the ideas of biologist Paul Kammerer and philosopher Arthur Schopenhauer, attributed (hypothesis) the sudden and transient emergence of a correspondence between the awareness of an unconscious knowledge and the perception of an image outside the mind to the existence of an alleged correspondence law, based on behavior patterns that rule the natural world and promote these significant coincidences, which would be the basis of intuitive thinking.¹⁵

The creative atmosphere of Perkins-Nachmanovitch

Creative thinking may emerge from both the surroundings of a person (environment or circumstances) and his/her inner side; therefore, any barrier that could block it should be removed. David Perkins highlights the need to build an enabling environment so that artistic practice may promote broad cognitive experiences, review different perspectives and, as a consequence, reach original and creative reflections. Although creativity implies putting new ideas in practice in a research and reflection process, for this to occur, art should be present or an artistic expression should be practiced, and this requires a strong sensory anchorage in a supportive emotional setting.³³

According to Stephen Nachmanovitch, the field of action for the emergence of creativity should be mediated by recreation, exploration, and experimentation. In the case of recreation, what matters is not what you do but how you do it, in a setting where a flexible, sensitive communicative interaction takes place and where there is tolerance of mistakes and ambiguous situations.³⁴

Proposal of a new methodology

Considering the typical steps of the scientific method (i.e., detection of a problem, development of an explanatory hypothesis, selection of materials and the method used to attempt to falsify the hypothesis, conduct of the study, achievement and discussion of results, and finally, the approach of a conclusion) and based on what we have analyzed above that art could be potentially used in scientific research to facilitate the emergence of an intuition onto consciousness that is capable of answering the study questions, then, it is reasonable to determine that the research steps that would be most benefited

from art would be those that require creative thinking, i.e., hypothesis development and result discussion. Based on the experiences described here regarding Salvador Dalí and Carl Jung, and Perkins' and Nachmanovitch's creative atmosphere, we propose that the following methodology could be used when designing a method to put these concepts in practice, interweave them in the research process, and assess them.

In the period during which the investigator develops his/her research hypothesis or data discussion, he/she should collaborate with other investigators, who may not necessarily share his/her discipline, sharing an environment where they are all exposed to different works of art and/or do different artistic activities so as to foster intuitive, creative, and innovative thinking. Such exposure may be achieved through the design of a protected environment, preferably in natural settings (Schelling, Heidegger) that are equipped to this end, where investigators may share a series of not mutually exclusive activities, such as:

- Participating in visual art activities (painting, drawing, ceramics, etc.).
- Listening to music of the great composers.
- Watching films of a high symbolic content.

In relation to this last resource, purposely designed short films with nature- or culture-related images of a high symbolic content could be devised.

The possibility of confirming the existence of a significantly larger and more original scientific production by scientists exposed to the influence of this type of artistic activities in protected environments may corroborate the usefulness of art in the scientific research process.

In short, art, by virtue of its symbolic, cognitive, and innovative power, stimulates creative thinking and may help to enhance the process of hypothesis development, the design of the research question, and the analysis of results as part of the research process. To this end, we propose an original method based on the exposure of scientists to collective artistic activities in protected, specially-designated settings. ■

REFERENCES

1. Musso CG. La intersección de las paralelas: arte y ciencia en un único proceso cognitivo. Hacia una nueva forma de investigar. *Rev Hosp Ital B Aires* 2012; 32(1):1-2.
2. Castro S, Marcos A. Arte y ciencia. Mundos convergentes. Madrid: Plaza y Valdés; 2010.
3. Goodman N. Maneras de hacer mundos. Madrid: Hackett Publishing; 1990.
4. Nancy JL. El arte hoy. Buenos Aires: Prometeo Libros; 2015.
5. Rancière J. El espectador emancipado. Pontevedra: Ellago; 2012.
6. Snow CP. Las dos culturas. Buenos Aires: Nueva Visión; 2000.
7. Machado A. El paisaje mediático. Sobre el desafío de las poéticas tecnológicas. Buenos Aires: Nueva Librería; 2009.
8. Morin E. El método III El conocimiento del conocimiento. Madrid: Cátedra; 1999.
9. Kuhn T. La estructura de las revoluciones científicas. México: Fondo de Cultura Económica; 2004.
10. Latour B. Nunca fuimos modernos. Ensayo de antropología simétrica. Buenos Aires: Siglo XXI; 2007.
11. Friedl Schnitman D, Schnitman J. Resolución de conflictos. Nuevos diseños, nuevos contextos. Buenos Aires: Granica; 2000.
12. Ricoeur P. Historia y narratividad. Barcelona: Paidós; 1999.
13. Schelling F. La relación del arte con la naturaleza. Madrid: Globus; 2012.
14. Maturana-Romesín H, Pörksen B. Del ser al hacer. Los orígenes de la biología del conocer. Buenos Aires: Gránica; 2015.
15. Musso CG, Baez F, Elias MJ, et al. The principle of synchronicity-equivalence and chronomedicine: relevance and methodological exploration. *Arch Argent Pediatr* 2017;115(4):309-10.
16. Musso CG, Enz P. Semiótica médica. Principios lingüísticos y comunicacionales de uso médico. Buenos Aires: Delhospital ediciones; 2007.
17. Dewey J. El arte como experiencia. Barcelona: Paidós; 2008.
18. Gadamer HG. Verdad y método Fundamentos de una Filosofía, Hermenéutica, Obras completas. Tübingen: Mohr; 1986.
19. Perkins D. Las obras de la mente. México: Fondo de Cultura Económica; 1988.
20. Bachelard G. La formación del espíritu científico. Contribución al psicoanálisis del conocimiento objetivo. México: Siglo XXI; 2000.
21. Leherer J. Pousty y la neurociencia. Barcelona: Paidós; 2010.
22. Wittgenstein L. Investigaciones filosóficas. Barcelona: Crítica; 2004.
23. Dalí S. El mito trágico de "El Ángelus" de Millet. Barcelona: Tusquets; 2002.
24. González D, Llevadot L, Saez Tajafuerce B. Kierkegaard y las artes. Pensar la creación. Barcelona: UOC; 2015.
25. Jung CG. Psicología y alquimia. Buenos Aires: Santiago Rueda; 1957.
26. Lewis-Williams D. La mente en la caverna. Madrid: Akal; 2005.
27. Lewis-Williams D, Pearce D. Dentro de la mente neolítica. Madrid: Akal; 2009.
28. Eliade M. El chamanismo y las técnicas arcaicas del éxtasis. México: Fondo de Cultura Económica; 1960.
29. Clothes J, Lewis-Williams D. Los chamanes de la prehistoria. Barcelona: Planeta; 2001.
30. Reichel-Dolmatoff G. Orfebrería y chamanismo: Un estudio iconográfico del Museo del Oro del Banco de la República, Colombia. Bogotá: Museo del Oro; 2014.
31. Pineda Camacho R. El poder de los hombres que vuelan. Gerardo Reichel Dolmatoff y su contribución a la teoría del Chamanismo. *Tabula Rasa* (Bogotá) 2003; 1:15-47.
32. Arola R. Cuestiones simbólicas. Las formas básicas. Barcelona: Herder; 2015.
33. Perkins D. Las obras de la mente. México: Fondo de Cultura Económica; 1988.
34. Nachmanovitch S. Free Play. La improvisación en la vida y en el arte. Buenos Aires: *Barrendero*; 2011.

Talla, peso e índice de masa corporal en niños y niñas wichí de Formosa, Argentina

Height, weight and body mass index of Wichí children from Formosa, Argentina

Dra. Marta P. Alfonso-Durruty^{a,b} y Dra. Claudia R. Valeggia^c

RESUMEN

Este trabajo presenta datos antropométricos descriptivos de 194 niños y niñas (0-18 años) de una población wichí de la provincia de Formosa, Argentina. El objetivo fue documentar el crecimiento y el estado nutricional de este pueblo originario. Se tomaron datos de peso, talla e índice de masa corporal y se calcularon los respectivos puntajes Z utilizando referencias nacionales e internacionales. La mayoría de los parámetros analizados caen dentro de los rangos de la normalidad. Sin embargo, es preocupante la presencia de un porcentaje significativo de niñas y niños con sobrepeso, lo cual indicaría que esta población se encuentra atravesando un proceso de occidentalización que promueve el consumo de alimentos procesados hipercalóricos y una menor actividad física.

Palabras clave: wichí, peso corporal, estatura, índice de masa corporal.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.359>
Texto completo en inglés:
<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.359>

- a. Departamento de Antropología, Universidad Alberto Hurtado, Chile.
- b. Sociology, Anthropology and Social Work Department, Kansas State University, Estados Unidos de América.
- c. Department of Anthropology, Yale University, Estados Unidos de América.

Cómo citar: Alfonso-Durruty MP, Valeggia CR. Talla, peso e índice de masa corporal en niños y niñas wichí de Formosa, Argentina. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):359-364.

INTRODUCCIÓN

Las poblaciones originarias del Gran Chaco Argentino son de especial interés desde el punto de vista sanitario, ya que se encuentran en un proceso de profunda transformación social, cultural, económica y epidemiológica.¹ Sin importar su ubicación geográfica o su condición sociopolítica, los indicadores de salud de los pueblos indígenas son siempre más desfavorables en relación con los no indígenas. Los determinantes de esta brecha son múltiples y su interacción es compleja, por lo cual cuanta más información se tenga sobre el estado de salud de estas poblaciones, más cerca se estará de ofrecer servicios y crear políticas de

salud adecuadas. Dado que el estado nutricional de los niños y niñas de una población es un índice confiable de su salud general, este estudio tiene como objetivo presentar información antropométrica descriptiva de niños y niñas wichí de la provincia de Formosa, Argentina. Existen pocos trabajos que versen sobre la biología y la salud de este pueblo originario y es menor aún la información sobre el crecimiento y desarrollo infantil,² por lo que se confía en que este trabajo sea de interés.

Los wichí habitan la región del Gran Chaco en el noroeste de Argentina (Figura 1). Originalmente, estos cazadores-recolectores seminómicos complementaban su dieta con horticultura incipiente.²⁻⁴ En los siglos XIX y XX, la disrupción de su estilo de vida llevó a su desplazamiento geográfico y la pérdida de un porcentaje significativo de la población. Esto explica, parcialmente, la progresiva pérdida de autonomía y su actual situación de aislamiento y marginalización.^{3,4} La drástica transformación del estilo de vida wichí se evidencia en lo siguiente: (1) la dieta, que incorpora productos envasados y "del monte", en donde estos últimos son estigmatizados, y (2) la ocupación de asentamientos permanentes con una movilidad limitada, principalmente, a migraciones laborales temporales.^{1,3}

Este estudio fue diseñado dentro del Programa de Ecología Reproductiva del Chaco Argentino, que ha trabajado con comunidades wichí y qom del Noroeste Argentino desde 2004. El propósito del programa es examinar las relaciones entre la

Correspondencia:
Dra. Marta Alfonso-Durruty: marta.alfonso7@gmail.com

Financiamiento:
National Geographic Society, Subsidio N° 8395-08; L. S. B. Leakey Foundation s/n.

Conflicto de intereses:
Ninguno que declarar.

Recibido: 28-8-2017
Aceptado: 7-3-2018

ecología, el comportamiento y la biología de las poblaciones originarias y no originarias del Gran Chaco. Los resultados aquí presentados corresponden a uno de los objetivos centrales de dicho programa: aportar datos sobre el crecimiento y desarrollo infantil en diferentes ecologías y ambientes socioculturales.

MATERIAL Y MÉTODOS

Diseño y población

El diseño de este estudio fue transversal y cuantitativo, y las actividades de recolección de los datos aquí presentados fueron ejecutadas entre julio de 2008 y junio de 2009. Todas las familias fueron invitadas a participar; se reclutó la participación de las niñas y niños de 0 a 18 años, y, al momento de comenzar el estudio, se realizó un censo poblacional para estimar la representatividad de los participantes sobre la población total.

Descripción del ámbito del estudio y procedimientos

La población de estudio habitaba la comunidad de Pozo de Maza, 50 km al norte de Ingeniero Juárez (Figura 1), donde los wichí se organizaban en una comunidad central (1300 personas) y cuatro comunidades pequeñas (50-120 personas). La dieta era mixta y se componía de alimentos comprados y productos del monte que resultaban

de la caza, la pesca y la recolección.^{1,2} Las familias vivían, principalmente, de los subsidios del Estado y de mercadería provista por partidos políticos. Pozo de Maza contaba con un centro de salud administrado por la provincia, un médico clínico, pediatría intermitente y agentes sanitarios de la etnia.

Se excluyeron del estudio niños(as) que presentaran una o más de las siguientes características: (1) síndrome de Down, (2) gemelo que participaba en el estudio, (3) embarazo, (4) fecha de nacimiento desconocida. Todos los participantes fueron categorizados por sexo y edad. La edad fue calculada en años basándose en la fecha de nacimiento reportada por los padres, la cual fue corroborada con el documento nacional de identidad u otro registro oficial (ficha médica o certificado de nacimiento).

Los niños(as) de 0,0-0,99 años fueron separados en tres categorías etarias (0,0, 0,25 y 0,75 años), siguiendo las recomendaciones para los cálculos Z usando la referencia Argentina⁵ (véase más abajo). Los datos fueron obtenidos en la casa de los participantes bajo supervisión parental. La talla y el peso fueron medidos con un tallímetro portátil SECA 213® y una balanza electrónica Tanita TBF®, respectivamente. La balanza fue calibrada en el centro de salud, con una balanza de pesas, al comienzo del estudio. Los datos de peso y talla fueron utilizados

FIGURA 1. Ubicación de la población wichí de Pozo de Maza, provincia de Formosa, Argentina



para calcular el índice de masa corporal –IMC; $\text{kg}/(\text{m})^2$ –. Al inicio del estudio (julio de 2008), se realizaron controles de fiabilidad entre el investigador responsable (CV) y las asistentes de campo para las medidas antropométricas mencionadas. El entrenamiento fue completado al alcanzar un 95% de concordancia. Las medidas de talla en niños(as) menores de 7 años no se consideraron suficientemente confiables, por lo que se presentaron datos de talla en niños de 7-14 años y de niñas de 7-18 años. Las idiosincrasias culturales y características propias de la adolescencia impidieron la participación de varones mayores de 14 años en el estudio. Se obtuvo el consentimiento informado de los padres y el asentimiento de los niños(as) previo a la recolección de datos. El protocolo de trabajo fue aprobado por el Comité de Ética de la Universidad de Pensilvania, Estados Unidos de América (EE. UU.). La información obtenida respecto al sobrepeso/obesidad, desnutrición y/o retraso en el crecimiento en los participantes fue compartida con el centro médico local.

Se calculó el puntaje Z para talla (ZTE), peso (ZPE) e IMC (ZIMC) con el programa lambda-delta-sigma (LMS),⁶ usando valores de referencia internacionales (int.)^{7,8} y argentinos (nac.).⁵ La referencia internacional se aplicó al cálculo de ZTEint, ZPEint (solo hasta los 10 años debido a sus limitaciones) y ZIMCint. La referencia nacional se aplicó al cálculo de ZTEnac y ZPENac. Los puntajes Z individuales para la talla y el IMC fueron interpretados conforme a las pautas de la Organización Mundial de la Salud (OMS) (ZTE < -2 = retraso de crecimiento, < -3 = retraso grave, ZIMC > +3 = obeso, > +2 = sobrepeso, > 1 = riesgo de sobrepeso, < -2 = bajo peso, < -3 = bajo peso grave).⁹ Los análisis estadísticos se ejecutaron en SPSS 21.0.¹⁰

RESULTADOS

Ciento noventa y siete (n = 197) niños y niñas accedieron originalmente a participar, pero tres (n = 3) niñas fueron excluidas del estudio, ya que estaban embarazadas. Por ende, ciento noventa y cuatro (n = 194) participantes fueron incluidos en este estudio. El número de niños (n = 95) y niñas (n = 99) medidos fue similar y, de acuerdo con el censo poblacional realizado al momento de iniciar el estudio, se contó con la participación del 96% (99 de n = 103) y 89% (95 de n = 110) de las niñas y niños de 0 a 18 años, respectivamente (véanse las *Tablas 1 y 2*). La *Tabla 1* presenta el peso, talla e IMC de las niñas wichí. La talla de

las niñas (ZTEint y ZTEnac) es normal en todas las edades, pero se encuentran mayoritariamente bajo la media (*Tabla 1*). Esta tendencia se acentúa en niñas de 14-18 años, en las que los puntajes ZTEint y ZTEnac son más bajos. Los puntajes ZTEint y ZTEnac individuales muestran valores normales en el 96,5% (n = 55) de las niñas. Sin embargo, dos (n = 2; 3,5%) de las niñas presentan retraso del crecimiento.

En niñas, los puntajes ZPEint y ZPENac son, en su mayor parte, normales; se agrupan alrededor de la media y se encuentran consistentemente por sobre esta durante los tres primeros años de vida (0-3 años; *Tabla 1*). Desde los 4 y hasta los 7 años, el ZPEint y el ZPENac se encuentran mayoritariamente por debajo de la media (*Tabla 1*), pero estos revierten a valores positivos desde los 7-8 años, con algunas excepciones (*Tabla 1*). Los puntajes ZIMCint en niñas se agrupan en torno a la media internacional; caen mayoritariamente dentro del rango de la normalidad y son, de modo predominante, positivos (*Tabla 1*). El análisis de los resultados individuales muestra que el 78,9% (n= 45) de las niñas tienen un ZIMCint normal, mientras el 17,5% están en riesgo de sobrepeso (n= 10). Las dos (n= 2, 3,5%) niñas restantes presentan sobrepeso.

El peso, talla e IMC en niños se presentan en la *tabla 2*. Los puntajes ZTEint y ZTEnac indican que la talla de los niños, aunque agrupada alrededor de la media, se encuentra mayoritariamente por debajo de esta (*Tabla 2*). Los análisis de los puntajes ZTEint y ZTEnac individuales muestran que la mayoría de los niños tiene una talla normal (ZTEint= 95,6%, ZTEnac= 97,8%). El resto de los niños presenta retraso del crecimiento (n= 2, ZTEint= 4,3%; n= 1, ZTEnac= 2,2%).

En niños, los puntajes ZPEint y ZPENac son mayoritariamente negativos, pero tienden a caer dentro del rango de la normalidad (*Tabla 2*). Sin embargo, se observan valores positivos altos durante el primer año de vida (*Tabla 2*). Los puntajes ZIMC se agrupan en torno al promedio internacional (*Tabla 2*). Análisis de los ZIMCint individuales indican que el 84,8% de los niños (n= 39) presenta un IMC normal, el 13,0% está en riesgo de sobrepeso (n= 6) y uno (n= 1, 2,2%) de los niños sufre de bajo peso.

DISCUSIÓN

El análisis de los datos antropométricos indica que, en esta población wichí, la mayoría de los niños(as) caen dentro de los rangos de

TABLA 1. Talla (en cm), peso (en kg), índice de masa corporal (kg/m²) y puntajes Z en niñas wichí (N = 99)

Edad (años)	n	DATOS ANTROPOMÉTRICOS				REFERENCIA INTERNACIONAL				REFERENCIA NACIONAL							
		TE		PE		IMC		ZTEint		ZPEint		ZIMCint		ZTEnac		ZPENac	
		Media	DE	Media	DE	Media	DE	Media	DE	Media	DE	Media	DE	Media	DE	Media	DE
0,00	0																
0,25	3			6,3	0,8					0,6	1,1					0,6	1,0
0,5	1			8,7						1,4						1,4	
0,75	6			9,0	1,0					0,7	0,9					0,7	0,9
1	3			10,2	1,4					1,0	1,0					1,0	1,0
2	3			12,0	1,2					0,3	0,8					0,3	0,8
3	5			14,4	2,4					0,2	1,3					0,00	1,4
4	7			14,4	2,3					-0,9	1,2					-1,2	1,4
5	9			17,9	1,8					-0,2	0,6					-0,1	0,8
6	6	112,0		19,4	1,1	15,9		-0,6		-0,3	0,4	0,4		-0,2		-0,3	0,4
7	10	120,8	5,1	23,1	2,7	15,8	1,1	0,0	0,9	0,1	0,7	0,2	0,6	0,4	0,94	0,1	0,8
8	3	126,3	9,5	29,3	9,3	18,0	3,1	-0,04	1,6	0,7	1,6	0,9	1,2	0,4	1,6	0,6	1,6
9	10	131,0	4,8	27,1	4,2	15,7	1,6	-0,2	0,8	-0,3	0,9	-0,3	0,8	0,3	0,8	-0,3	0,9
10	9	136,9	5,3	32,1	3,6	17,1	1,6	-0,3	0,8	0,0	0,7	0,2	0,8	0,3	0,8	0,1	0,6
11	1	144,0		39,8		19,2		-0,1				0,8		0,4		0,6	
12	8	148,1	7,9	44,9	8,2	20,5	3,3	-0,5	1,2			0,7	1,1	0,12	1,0	0,5	1,0
13	3	152,7	3,1	46,4	2,6	19,9	1,0	-0,5	0,4			0,4	0,3	-0,03	0,4	0,1	0,3
14	5	151,6	4,5	52,9	4,5	22,9	1,1	-1,2	0,6			1,0	0,3	-0,8	0,6	0,5	0,5
15	1	143,0		47,8		23,4		-2,7				0,9		-2,6		-0,5	
16	3	153,0	3,0	50,1	6,4	21,4	2,8	-1,4	0,4			0,1	0,98	-1,2	0,5	-0,4	1,1
17	1	155,0		51,9		21,6		-1,2				0,2		-0,9		-0,2	
18	2	151,0	9,9	56,5	13,9	24,5	2,9	-1,8	1,5			0,9	0,7	-1,6	1,6	0,2	1,8

PE: peso; TE: talla; IMC: índice de masa corporal; DE: desvío estándar; ZTEint: puntaje Z para la talla internacional; ZPEint: puntaje Z para el peso internacional; ZIMCint: puntaje Z para el índice de masa corporal internacional; ZTEnac: puntaje Z para la talla nacional; ZPENac: puntaje Z para el peso nacional.

TABLA 2. Talla (en cm), peso (en kg), índice de masa corporal (kg/m²) y puntajes Z en niños wichí (N = 95)

Edad (años)	n	DATOS ANTROPOMÉTRICOS				REFERENCIA INTERNACIONAL				REFERENCIA NACIONAL							
		TE		PE		IMC		ZTEint		ZPEint		ZIMCint		ZTEnac		ZPENac	
		Media	DE	Media	DE	Media	DE	Media	DE	Media	DE	Media	DE	Media	DE	Media	DE
0,00	1			3,9						1,1						1,2	
0,25	0																
0,5	1			9,8						2,0						1,9	
0,75	3			9,2	1,4					0,2	1,4					0,2	1,4
1	8			9,3	1,4					-0,4	1,3					-0,4	1,4
2	4			12,2	0,1					0,1	0,1					0,0	0,1
3	7			14,3	0,6					-0,0	0,4					-0,2	0,4
4	9			15,3	3,5					-0,8	2,4					-1,0	2,5
5	9			16,4	4,1					-1,2	2,3					-1,4	2,5
6	7			19,5	2,7					-0,5	1,1					-0,5	1,1
7	4	117,7	2,0	22,8	0,6	16,5	0,5	-0,8	0,4	-0,0	0,2	0,7	0,3	-0,5	0,4	-0,1	0,2
8	7	123,1	4,8	24,5	1,9	16,2	1,3	-0,7	0,9	-0,3	0,6	0,2	0,8	-0,5	0,9	-0,4	0,5
9	8	130,0	6,0	26,6	3,2	15,7	1,6	-0,4	1,0	-0,4	0,8	-0,3	1,1	-0,2	1,0	-0,5	0,8
10	11	134,5	5,7	30,1	4,4	16,6	1,4	-0,5	0,9	-0,3	1,0	-0,0	0,8	-0,2	0,9	-0,4	0,9
11	5	139,0	6,9	34,4	4,3	17,8	2,3	-0,6	1,0			0,3	1,1	-0,2	1,0	-0,2	0,8
12	4	142,7	10,8	34,5	5,6	16,8	0,3	-0,9	1,5			-0,4	0,2	-0,4	1,4	-0,8	1,0
13	2	161,5	0,7	53,1	4,4	20,4	1,5	0,7	0,1			0,8	0,5	1,2	0,1	0,9	0,4
14	4	159,2	3,6	46,9	5,7	18,4	1,8	-0,5	0,5			-0,3	0,8	0,1	0,4	-0,4	0,7
15	0																
16	0																
17	0																
18	1	169,0		71,6		25,1		-1,0				1,0		-0,5		0,7	

PE: peso; TE: talla; IMC: índice de masa corporal; DE: desvío estándar; ZTEint: puntaje Z para la talla internacional; ZPEint: puntaje Z para el peso internacional; ZIMCint: puntaje Z para el índice de masa corporal internacional; ZTEnac: puntaje Z para la talla nacional; ZIMCnac: puntaje Z para el índice de masa corporal nacional.

normalidad de acuerdo con referencias de crecimiento internacionales y nacionales. Sin embargo, aunque normales, los valores de ZTEint y ZTEnac muestran que tanto niños como niñas wichí presentan una talla cuyos valores se encuentran mayoritariamente por debajo de la media de la referencia. Más aún, entre las niñas, aunque poco frecuente, se observan casos con retraso del crecimiento. Estos resultados sugieren que las condiciones para el crecimiento de los niños y niñas wichí requieren de mejora.

En ambos sexos, los ZPE son predominantemente positivos durante el primer año de vida, los cuales pueden ser explicados por la lactancia extendida practicada en este grupo. A edades más avanzadas, estos tienden a ser negativos, aunque, por lo general, caen dentro del rango normal.

La reducción de la talla es más acentuada que la del peso (en relación con los estándares), ya que, aunque los puntajes ZIMCint son principalmente normales, el 21% de las niñas y el 13% de los niños están en riesgo de padecer o tienen sobrepeso. Esto último es particularmente relevante dado que más de un tercio de la población adulta wichí presenta sobrepeso.¹ Este patrón es común en poblaciones indígenas sudamericanas que están atravesando la transición nutricional, que incluyen comunidades indígenas vecinas.^{11,12} Los valores de sobrepeso observados en este estudio son similares a los de los niños rurales qom del noroeste de Argentina.¹³

Esto indica que niños(as) rurales wichí son partícipes de los procesos de occidentalización que se caracterizan por la incorporación a una economía de mercado, un aumento del consumo de alimentos procesados, disminución de la actividad física y, en el caso de los grupos wichí, una desvalorización cultural de las fuentes de comida tradicionales.^{1,2,14,15}

Las causas sociales del sobrepeso en niños (as) wichí requieren de más estudios y deben considerar la acción de fuerzas externas, como los programas políticos y religiosos en la zona, que han reducido el acceso a productos del monte, y la desvalorización del modo de vida tradicional. El sobrepeso y la obesidad infantil son problemas de nivel mundial, que afectan especialmente a las poblaciones indígenas y cuyas consecuencias para la salud son de largo alcance.¹⁶⁻¹⁸

En el caso particular de los wichí, el sobrepeso y la obesidad en adultos se asocia a un estatus socioeconómico alto, que resulta de altos grados de conectividad social con grupos políticos no indígenas,¹ lo que refuerza la idea de que los

cambios en la dieta resultan de procesos de aculturación.

Este estudio presenta datos únicos para la población wichí del Noroeste Argentino. Sin embargo, el número de participantes es limitado, a pesar de que representa un porcentaje elevado de la población wichí de Pozo de Maza. Estudios futuros deben ampliar el tamaño de la muestra y considerar el desarrollo de estudios longitudinales que documenten los cambios en estos indicadores antropométricos a lo largo del período de crecimiento y desarrollo de estos niños.

Nuestra experiencia de más de 20 años de trabajar en la provincia de Formosa sugiere que una política de salud que incorpore saberes tradicionales de los pueblos originarios y una visión holística de su situación social y cultural permitiría una llegada más efectiva a estos pobladores, muchas veces discriminados o directamente olvidados. El desafío no es menor dadas las barreras estructurales e ideológicas que suelen afectar a estas poblaciones. Sin embargo, se confía en que cuanto más se conozca de esta realidad, de una manera no sesgada por intereses políticos, y cuantos más esfuerzos se realicen por incorporar a los miembros de los pueblos originarios en el diálogo, se podrán diseñar estrategias mejores y actuar en consecuencia.

CONCLUSIÓN

El peso y la talla en niños y niñas wichí caen mayoritariamente dentro de los rangos de la normalidad establecidos por parámetros nacionales e internacionales. Sin embargo, mientras los valores de ZTE nacionales e internacionales se encuentran mayoritariamente bajo la media, la evaluación del puntaje ZIMC revela que el 13% de los niños y el 21% de las niñas wichí están en riesgo de padecer o tienen sobrepeso. Estos resultados indican que las poblaciones wichí se encuentran en un proceso de occidentalización que favorece un cambio de dieta y modo de vida que conducen al sobrepeso y la obesidad. ■

REFERENCIAS

1. Vallengia CR, Burke KM, Fernandez-Duque E. Nutritional status and socioeconomic change among Toba and Wichí populations of the Argentinean Chaco. *Econ Hum Biol* 2010; 8(1):100-10.
2. Lanza NA, Vallengia CR. Sobrepeso y obesidad en una población Wichí del Oeste Formoseño: prevalencia y efectos bioculturales. *Rev Argent Antropol Biol* 2005; 7(1):155.
3. Parolín ML, Carnese FR. HLA-DRB1 alleles in four Amerindian populations from Argentina and Paraguay.

- Genet Mol Biol* 2009; 32(2):212-9.
4. Alvarsson, J-A. The Mataco of the Gran Chaco: an ethnographic account of change and continuity in Mataco socio-economic organization. Uppsala: Academiae Upsaliensis; 1988.
 5. Lejarraga H, del Pino M, Fano V, et al. Referencias de peso y estatura desde el nacimiento hasta la madurez para niñas y niños argentinos. Incorporación de datos de la OMS de 0 a 2 años, recálculo de percentilos para la obtención de valores LMS. *Arch Argent Pediatr* 2009; 107(2):126-33.
 6. Cole TJ. The LMS method for constructing normalized growth standards. *Eur J Clin Nutr* 1990; 44(1):45-60.
 7. WHO Multicentre Growth Reference Study Group. WHO Child Growth Standards based on length/height, weight and age. *Acta Paediatr Suppl* 2006; 450:76-85.
 8. World Health Organization. Child Growth Standards: Methods and Development: Head Circumference-for-Age, Arm Circumference-for-Age, Triceps Skinfold-for-Age and Subscapular Skinfold-for-Age. Geneva: WHO; 2007.
 9. World Health Organization. Training Course on Child Growth Assessment. WHO Child Growth Standards. Geneva: WHO; 2008.
 10. IBM Corp. IBM SPSS Statistics for Windows, Version 21.0. Armon, NY: IBM Corp.; 2012.
 11. Tanner S, Leonard WR, Reyes-García V, et al. The consequences of linear growth stunting: influence on body composition among youth in the Bolivian Amazon. *Am J Phys Anthropol* 2014; 153(1):92-102.
 12. Urlacher SS, Blackwell AD, Liebert MA, et al. Physical growth of the shuar: Height, Weight, and BMI references for an indigenous amazonian population. *Am J Hum Biol*. 2016; 28(1):16-30.
 13. Alfonso-Durruty MP, Valeggia CR. Growth patterns among indigenous Qom children of the Argentine Gran Chaco. *Am J Hum Biol* 2016; 28(6):895-904.
 14. Valeggia C, Lanza NA, Córdoba L. Fuentes de variación en la alimentación actual de los Toba-Pilagá del oeste formoseño. Actas del Quinto Congreso de Americanistas, Sociedad Argentina de Americanistas. Buenos Aires; 2005. Págs.123-42.
 15. Gordillo G. Locations of Hegemony: The Making of Places in the Toba's Struggle for La Comuna, 1989-99. *Am Anthropol* 2002; 104(1):262-77.
 16. NCD Risk Factor Collaboration (NCD-RisC). Worldwide trends in body-mass index, underweight, overweight, and obesity from 1975 to 2016: a pooled analysis of 2416 population-based measurement studies in 128.9 million children, adolescents, and adults. *Lancet* 2017; 390(10113):2627-42.
 17. Ernst MA, Gerver WJ, Simons MY, et al. Obesity in childhood: a secular trend or an epidemic disease? *J Child Health Care* 2013; 17(1):30-40.
 18. Thearle MS, Votruba SB, Piaggi P, et al. The effect of differing patterns of childhood body mass index gain on adult physiology in American Indians. *Obesity (Silver Spring)* 2015; 23(9):1872-80.

Height, weight, and body mass index of Wichí children from Formosa, Argentina

Marta P. Alfonso-Durruty, M.D.^{a,b} and Claudia R. Valeggia, M.D.^c

ABSTRACT

This study provides the descriptive, anthropometric data of 194 children (aged 0-18 years) from a Wichí population located in the province of Formosa, Argentina. The objective of this study was to document growth and nutritional status in this indigenous people. Weight, height, and body mass index data were collected and the corresponding Z-scores were estimated using national and international reference standards. Most analyzed parameters were within the normal range. However, it is concerning that a significant percentage of children are overweight, which may indicate that this population is going through a process of westernization that promotes the consumption of high-calorie, highly-processed foods and a lower level of physical activity.

Key words: *Wichí, body weight, height, body mass index.*

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.359>

To cite: Alfonso-Durruty MP, Valeggia CR. Height, weight, and body mass index of Wichí children from Formosa, Argentina. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):359-364.

- a. Department of Anthropology, Universidad Alberto Hurtado, Chile.
- b. Sociology, Anthropology, and Social Work Department, Kansas State University, United States of America.
- c. Department of Anthropology, Yale University, United States of America.

E-mail address:
Marta Alfonso-Durruty,
M.D.: marta.alfonso7@gmail.com

Funding:
National Geographic Society, grant no. 8395-08; L. S. B. Leakey Foundation, unnumbered.

Conflict of interest:
None.

Received: 8-28-2017
Accepted: 3-7-2018

INTRODUCTION

From a health perspective, the indigenous peoples of the Argentine Gran Chaco are specially interesting because they are going through a process of profound social, cultural, economic, and epidemiological transformation.¹ Regardless of their geographic location or socio-political condition, the health indicators of indigenous peoples are always more unfavorable than those of non-indigenous populations. Multiple determinants lead to such gap and their interaction is intricate; therefore, the more information is available on the health status of these populations, more services could be offered and adequate health policies could be created. Given that the nutritional status of children in a population serves as a reliable index of general

health, the objective of this study was to provide descriptive, anthropometric data of Wichí children from the province of Formosa, Argentina. Few studies have dealt with the biology and health of this indigenous people, and there are even fewer data available on child growth and development,² so this study will be of great interest.

The Wichí live in the Gran Chaco region in the Northwest of Argentina (*Figure 1*). Originally, these semi-nomadic hunter-gatherers complemented their diet with incipient horticulture.²⁻⁴ During the 19th and 20th centuries, the disruption of their lifestyle resulted in their geographic displacement and the loss of a significant number of population members. This partially explains the progressive loss of autonomy and the current situation of isolation and marginalization.^{3,4} The dramatic transformation of the Wichí lifestyle has been evidenced in (1) their diet, which now includes both packaged and “mountain” products, although the latter are stigmatized, and (2) the occupation of permanent settlements with limited mobility, mostly only for temporary labor migration.^{1,3}

This study was designed as part of the Chaco Area Reproductive Ecology Program, which has worked with the Wichí and Qom peoples in the Northwest region of Argentina since 2004. The purpose of the program is to study the relationship between ecology, behavior, and biology in the indigenous and non-indigenous populations of the Gran Chaco area. The results described here correspond to one of the main objectives of the program: to provide data on child growth and development in different ecologies and socio-cultural settings.

MATERIAL AND METHODS

Design and population

This was a cross-sectional, quantitative study, and the data presented here were collected between July 2008 and June 2009. All families were invited to participate; male and female children aged 0-18 years were recruited and, at the time of study initiation, a population census was conducted to estimate the representativeness of the participants in relation to the total population.

Description of the study setting and procedures

The study population lived in the community of Pozo de Maza, located 50 km north of Ingeniero Juárez (Figure 1), where the Wichí people had a central community (1300 individuals) and four small communities (50-120 individuals). Their mixed diet was made up of purchased foods and mountain items they hunted, fished, and gathered.^{1,2} Families lived mainly on state-provided social benefits and goods provided by political groups. In Pozo de Maza there was a province-run health care center with a primary care physician, a pediatrician who worked intermittently, and indigenous health workers.

Children who had one or more of the following were excluded from the study: (1) Down syndrome, (2) a twin also participating in the study, (3) pregnancy, (4) unknown date of birth. All participants were categorized by

age and sex. Age was estimated based on the date of birth as reported by parents, which was corroborated with the child's national identity document or other official record (medical record or birth certificate).

Children aged 0.0-0.99 years were divided into three age categories (0.0, 0.25, and 0.75 years), according to the recommendations for Z-score estimations using the Argentine reference⁵ (see below). Data were collected at the house of participants under parental supervision. Height and weight were measured using a portable stadiometer (SECA 213®) and an electronic scale (Tanita TBF®), respectively. The scale was calibrated at the health care center using a counterweight scale at study initiation. Weight and height data were used to estimate the body mass index (BMI, kg/m²). At study initiation (July 2008), reliability controls were carried out with the main investigator (CV) and field assistants to check the anthropometric measures mentioned above. Training was completed once a 95% agreement was reached. Height measurements in children younger than 7 years were not considered reliable enough; therefore, height data are presented for boys 7-14 years old and girls 7-18 years old. The cultural idiosyncrasy and characteristics typical of adolescence prevented us from including boys older than 14 years in the study. Children's assent and parents' informed consent were obtained before data collection.

FIGURE 1. Location of the Wichí people in Pozo de Maza, province of Formosa, Argentina



The study protocol was approved by the Ethics Committee of the University of Pennsylvania, United States of America (USA). The information regarding participants with overweight/obesity, malnutrition and/or delayed growth was shared with the local health care center.

The height-for-age Z-score (HAZ), weight-for-age Z-score (WAZ), and body-mass-index-Z-score (BMIZ) were estimated with the lambda-mu-sigma (LMS) method,⁶ using international (int.)^{7,8} and Argentine (nat.)⁵ reference values. The international reference was used to estimate the HAZint score, the WAZint score (only up to 10 years old due to its limitations), and the BMIZint score. The national reference was used to estimate the HAZnat and WAZnat scores. Individual Z-scores for height and BMI were interpreted according to the World Health Organization's guidelines (HAZ <-2= delayed growth, <-3 = severe delay, BMIZ > +3= obese, >+2= overweight, > 1= risk for overweight, <-2 = underweight, < -3= severely underweight).⁹ The statistical analyses were done using the SPSS 21.0 software.¹⁰

RESULTS

One hundred and ninety-seven (n= 197) children were originally selected for participation, but three (n= 3) girls were excluded from the study because they were pregnant. Therefore, one hundred and ninety-four (n= 194) participants were included in this study. The number of male (n= 95) and female (n= 99) children was similar and, according to the population census conducted at the time of study initiation, they accounted for 96% (99 out of n= 103) and 89% (95 out of n= 110) of girls and boys aged 0-18 years, respectively (see *Tables 1* and *2*). *Table 1* shows the weight, height, and BMI of Wichí girls. Girls' height (HAZint and HAZnat) is normal at all ages, but values are mostly below the mean (*Table 1*). This trend deepens in girls aged 14-18 years, whose HAZint and HAZnat scores are lower. Individual HAZint and HAZnat scores are normal in 96.5% (n= 55) of girls. However, two (n= 2, 3.5%) girls showed delayed growth.

Among the girls, the WAZint and WAZnat scores are mostly normal; they group around the mean and are consistently above it over the first

TABLE 1. Height (cm), weight (kg), body mass index (kg/m²), and Z-scores of Wichí girls (N= 99)

Age (years)	n	ANTHROPOMETRIC DATA						INTERNATIONAL REFERENCE						NATIONAL REFERENCE			
		HA		WA		BMI		HAZint		WAZint		BMIZint		HAZnat		WAZnat	
		Mean	SD	Mean	SD	Mean	SD	Mean	SD	Mean	SD	Mean	SD	Mean	SD	Mean	SD
0.00	0																
0.25	3			6.3	0.8					0.6	1.1					0.6	1.0
0.5	1			8.7						1.4						1.4	
0.75	6			9.0	1.0					0.7	0.9					0.7	0.9
1	3			10.2	1.4					1.0	1.0					1.0	1.0
2	3			12.0	1.2					0.3	0.8					0.3	0.8
3	5			14.4	2.4					0.2	1.3					0.00	1.4
4	7			14.4	2.3					-0.9	1.2					-1.2	1.4
5	9			17.9	1.8					-0.2	0.6					-0.1	0.8
6	6	112.0		19.4	1.1	15.9		-0.6		-0.3	0.4	0.4		-0.2		-0.3	0.4
7	10	120.8	5.1	23.1	2.7	15.8	1.1	0.0	0.9	0.1	0.7	0.2	0.6	0.4	0.94	0.1	0.8
8	3	126.3	9.5	29.3	9.3	18.0	3.1	-0.04	1.6	0.7	1.6	0.9	1.2	0.4	1.6	0.6	1.6
9	10	131.0	4.8	27.1	4.2	15.7	1.6	-0.2	0.8	-0.3	0.9	-0.3	0.8	0.3	0.8	-0.3	0.9
10	9	136.9	5.3	32.1	3.6	17.1	1.6	-0.3	0.8	0.0	0.7	0.2	0.8	0.3	0.8	0.1	0.6
11	1	144.0		39.8		19.2		-0.1				0.8		0.4		0.6	
12	8	148.1	7.9	44.9	8.2	20.5	3.3	-0.5	1.2	0.7	1.1	0.12	1.0	0.5	1.0	0.5	1.0
13	3	152.7	3.1	46.4	2.6	19.9	1.0	-0.5	0.4			0.4	0.3	-0.03	0.4	0.1	0.3
14	5	151.6	4.5	52.9	4.5	22.9	1.1	-1.2	0.6			1.0	0.3	-0.8	0.6	0.5	0.5
15	1	143.0		47.8		23.4		-2.7				0.9		-2.6		-0.5	
16	3	153.0	3.0	50.1	6.4	21.4	2.8	-1.4	0.4			0.1	0.98	-1.2	0.5	-0.4	1.1
17	1	155.0		51.9		21.6		-1.2				0.2		-0.9		-0.2	
18	2	151.0	9.9	56.5	13.9	24.5	2.9	-1.8	1.5			0.9	0.7	-1.6	1.	0.2	1.8

WA: weight-for-age; HA: height-for-age; BMI: body mass index; SD: standard deviation; HAZint: international height-for-age Z-score; WAZint: international weight-for-age Z-score; BMIZint: international body mass index Z-score; HAZnat: national height-for-age Z-score; WAZnat: national weight-for-age Z-score.

three years of life (0-3 years; *Table 1*). Between 4 and up to 7 years old, the WAZint and WAZnat scores are mostly below the mean (*Table 1*), but they reverse to positive values as of 7-8 years old, with some exceptions (*Table 1*). Girls' BMIZint scores are grouped around the international mean value; they are mostly in the range of normal and predominately positive (*Table 1*). The analysis of individual results shows that 78.9% (n= 45) of girls have a normal BMIZint score, whereas 17.5% are at risk of overweight (n= 10). The two remaining girls (n= 2, 3.5%) were overweight.

The weight, height, and BMI of boys are shown in *Table 2*. The HAZint and HAZnat scores indicate that boys' height is mostly below the mean, even though it groups around it (*Table 2*). The analysis of individual HAZint and HAZnat scores shows that most children have a normal height (HAZint= 95.6%, HAZnat= 97.8%). The remaining boys showed delayed growth (n= 2, HAZint= 4.3%; n= 1, HAZnat= 2.2%).

Boys' WAZint and WAZnat scores are mainly negative, but they tend to fall within the normal range (*Table 2*). However, high, positive values are observed in the first year of life (*Table 2*). BMIZ

scores group around the international average (*Table 2*). The analysis of individual BMIZint scores indicates that 84.8% of boys (n= 39) have a normal BMI, 13.0% are at risk for overweight (n= 6), and one (n= 1, 2.2%) is underweight.

DISCUSSION

The analysis of anthropometric data shows that, in this Wichí population, most children are within the range of normality according to the international and national growth reference standards. However, although the HAZint and HAZnat scores were normal, they indicate that Wichí boys' and girls' height was mostly below the mean of the reference standard. Moreover, although it was infrequent, girls showed delayed growth. These results suggest that the growth conditions of Wichí children need to be improved.

In both boys and girls, the WAZ scores are predominately positive during the first year of life, which may be explained by the extended breastfeeding practiced by this group of people. At later ages, WAZ scores tend to turn negative, although, in general, they are within the normal range.

TABLE 2. Height (cm), weight (kg), body mass index (kg/m²), and Z-scores of Wichí boys (N= 95)

Age (years)	n	ANTHROPOMETRIC DATA						INTERNATIONAL REFERENCE				NATIONAL REFERENCE					
		HA		WA		BMI		HAZint		WAZint		BMIZint		HAZnat		WAZnat	
		Mean	SD	Mean	SD	Mean	SD	Mean	SD	Mean	SD	Mean	SD	Mean	SD	Mean	SD
0.00	1			3.9						1.1				1.2			
0.25	0																
0.5	1			9.8						2.0				1.9			
0.75	3			9.2	1.4					0.2	1.4			0.2	1.4		
1	8			9.3	1.4					-0.4	1.3			-0.4	1.4		
2	4			12.2	0.1					0.1	0.1			0.0	0.1		
3	7			14.3	0.6					-0.0	0.4			-0.2	0.4		
4	9			15.3	3.5					-0.8	2.4			-1.0	2.5		
5	9			16.4	4.1					-1.2	2.3			-1.4	2.5		
6	7			19.5	2.7					-0.5	1.1			-0.5	1.1		
7	4	117.7	2.0	22.8	0.6	16.5	0.5	-0.8	0.4	-0.0	0.2	0.7	0.3	-0.5	0.4	-0.1	0.2
8	7	123.1	4.8	24.5	1.9	16.2	1.3	-0.7	0.9	-0.3	0.6	0.2	0.8	-0.5	0.9	-0.4	0.5
9	8	130.0	6.0	26.6	3.2	15.7	1.6	-0.4	1.0	-0.4	0.8	-0.3	1.1	-0.2	1.0	-0.5	0.8
10	11	134.5	5.7	30.1	4.4	16.6	1.4	-0.5	0.9	-0.3	1.0	-0.0	0.8	-0.2	0.9	-0.4	0.9
11	5	139.0	6.9	34.4	4.3	17.8	2.3	-0.6	1.0			0.3	1.1	-0.2	1.0	-0.2	0.8
12	4	142.7	10.8	34.5	5.6	16.8	0.3	-0.9	1.5			-0.4	0.2	-0.4	1.4	-0.8	1.0
13	2	161.5	0.7	53.1	4.4	20.4	1.5	0.7	0.1			0.8	0.5	1.2	0.1	0.9	0.4
14	4	159.2	3.6	46.9	5.7	18.4	1.8	-0.5	0.5			-0.3	0.8	0.1	0.4	-0.4	0.7
15	0																
16	0																
17	0																
18	1	169.0		71.6		25.1		-1.0				1.0		-0.5		0.7	

WA: weight-for-age; HA: height-for-age; BMI: body mass index; SD: standard deviation; HAZint: international height-for-age Z-score; WAZint: international weight-for-age Z-score; BMIZint: international body mass index Z-score; HAZnat: national height-for-age Z-score; WAZnat: national weight-for-age Z-score.

The reduction in height is more marked than that in weight (compared to reference values), because, although the BMIZint scores are mostly normal, 21% of girls and 13% of boys are at risk for or are overweight. This is particularly relevant because more than one third of the adult Wichí population is overweight.¹ This pattern is common among South American indigenous peoples who are going through a nutritional transition, including neighboring indigenous communities.^{11,12} Overweight values observed in this study are similar to those seen in Qom children living in rural communities in the Northwest of Argentina.¹³

This indicates that rural Wichí children are part of the westernization process, characterized by the introduction of a market economy, an increased consumption of processed foods, reduced physical activity, and, in the case of Wichí groups, the cultural detraction of traditional food sources.^{1,2,14,15}

The social causes of overweight among Wichí children require further studies that would consider the effects of external factors, such as political and religious programs in the area, which have cut down the access to mountain products, and the detraction of the traditional lifestyle. Childhood overweight and obesity are worldwide health problems that especially affect indigenous peoples, and their health consequences are far-reaching.¹⁶⁻¹⁸

In the particular case of the Wichí people, adult overweight and obesity are associated with a high socio-economic status, which is the result of the considerable social communication with non-indigenous political groups,¹ which reinforces the idea that diet modifications are caused by an acculturation process.

This study provides exclusive data in relation to the Wichí people in the Northwest region of Argentina. However, the number of participants is limited, although it accounts for a high percentage of the Wichí people from Pozo de Maza. Future studies should include larger samples and consider the development of longitudinal studies that document changes in these anthropometric indicators over the growth and development period of these children.

Our experience of more than 20 years working in the province of Formosa suggests that it is necessary to have a health policy that includes the traditional knowledge of indigenous peoples and a holistic approach to their social and cultural situation that would allow to reach

these individuals, many times discriminated or directly forgotten, in a more effective manner. This is no easy challenge given the structural and ideological barriers that usually affect these populations. However, we trust that gaining more knowledge about this reality -leaving biased political interests aside- and making bigger efforts to include the indigenous peoples in the conversation will make it possible to design better strategies and act accordingly.

CONCLUSION

The weight and height of Wichí children are mostly within the range of normality established by national and international parameters. However, whereas national and international HAZ scores are mostly below the mean, the assessment of the BMIZ score shows that 13% of Wichí boys and 21% of Wichí girls are at risk for or are overweight. These results indicate that the Wichí peoples are going through a process of westernization that favors a change in their diet and lifestyle that leaves them overweight and obese. ■

REFERENCES

1. Valeggia CR, Burke KM, Fernandez-Duque E. Nutritional status and socioeconomic change among Toba and Wichí populations of the Argentinean Chaco. *Econ Hum Biol* 2010; 8(1):100-10.
2. Lanza NA, Valeggia CR. Sobrepeso y obesidad en una población Wichí del Oeste Formoseño: prevalencia y efectos bioculturales. *Rev Argent Antropol Biol* 2005; 7(1):155.
3. Parolín ML, Carnese FR. HLA-DRB1 alleles in four Amerindian populations from Argentina and Paraguay. *Genet Mol Biol* 2009; 32(2):212-9.
4. Alvarsson, J-A. The Mataco of the Gran Chaco: an ethnographic account of change and continuity in Mataco socio-economic organization. Uppsala: Academiae Upsaliensis; 1988.
5. Lejarraga H, del Pino M, Fano V, et al. Referencias de peso y estatura desde el nacimiento hasta la madurez para niñas y niños argentinos. Incorporación de datos de la OMS de 0 a 2 años, recálculo de percentilos para la obtención de valores LMS. *Arch Argent Pediatr* 2009; 107(2):126-33.
6. Cole TJ. The LMS method for constructing normalized growth standards. *Eur J Clin Nutr* 1990; 44(1):45-60.
7. WHO Multicentre Growth Reference Study Group. WHO Child Growth Standards based on length/height, weight and age. *Acta Paediatr Suppl* 2006; 450:76-85.
8. World Health Organization. Child Growth Standards: Methods and Development: Head Circumference-for-Age, Arm Circumference-for-Age, Triceps Skinfold-for-Age and Subscapular Skinfold-for-Age. Geneva: WHO; 2007.
9. World Health Organization. Training Course on Child Growth Assessment. WHO Child Growth Standards. Geneva: WHO; 2008.
10. IBM Corp. IBM SPSS Statistics for Windows, Version 21.0. Armon, NY: IBM Corp.; 2012.
11. Tanner S, Leonard WR, Reyes-García V, et al. The consequences of linear growth stunting: influence on body composition among youth in the Bolivian Amazon. *Am J Phys Anthropol* 2014; 153(1):92-102.

12. Urlacher SS, Blackwell AD, Liebert MA, et al. Physical growth of the shuar: Height, Weight, and BMI references for an indigenous amazonian population. *Am J Hum Biol* 2016; 28(1):16-30.
13. Alfonso-Durruty MP, Valeggia CR. Growth patterns among indigenous Qom children of the Argentine Gran Chaco. *Am J Hum Biol* 2016; 28(6):895-904.
14. Valeggia C, Lanza NA, Córdoba L. Fuentes de variación en la alimentación actual de los Toba-Pilagá del oeste formoseño. Actas del Quinto Congreso de Americanistas, Sociedad Argentina de Americanistas. Buenos Aires; 2005. Pages. 123-42.
15. Gordillo G. Locations of Hegemony: The Making of Places in the Toba's Struggle for La Comuna, 1989-99. *Am Anthropol* 2002; 104(1):262-77.
16. NCD Risk Factor Collaboration (NCD-RisC). Worldwide trends in body-mass index, underweight, overweight, and obesity from 1975 to 2016: a pooled analysis of 2416 population-based measurement studies in 128.9 million children, adolescents, and adults. *Lancet* 2017; 390(10113):2627-42.
17. Ernst MA, Gerver WJ, Simons MY, et al. Obesity in childhood: a secular trend or an epidemic disease? *J Child Health Care* 2013; 17(1):30-40.
18. Thearle MS, Votruba SB, Piaggi P, et al. The effect of differing patterns of childhood body mass index gain on adult physiology in American Indians. *Obesity* (Silver Spring) 2015; 23(9):1872-80.

Crear o no creer: ¿esa es la cuestión?

To believe or not to believe: is that the question?

Dra. María S. Ciruzzi^a

RESUMEN

Es un dato de la realidad que, en pediatría, los padres son los representantes legales de sus hijos, lo cual implica que las decisiones médicas en relación con el pequeño deben ser tomadas con la intervención de, al menos, uno de sus padres, quien –en ejercicio de la autonomía subrogada y de la representación legalmente conferida– brindará su consentimiento informado. El problema surge cuando los padres niegan su consentimiento informado o, directamente, asumen decisiones que repercuten de modo concreto en el bienestar e integridad del niño, lo que provoca un daño o –cuando menos– lo coloca en riesgo de sufrir un daño.

Nuestro desafío es procurar una conciliación de los intereses y derechos en juego siempre teniendo presente que la pauta constitucional de interpretación cuando de un niño se trata es su interés superior.

Palabras clave: *responsabilidad parental, interés superior del niño, atención médica, medicina alternativa.*

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.365>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.365>

- a. Abogada y Especialista en Derecho Penal. Universidad Nacional de Buenos Aires (UBA). Especialista en Bioética (FLACSO). Comité de Ética del Hospital de Pediatría SAMIC “Prof. Dr. Juan P. Garrahan”. Comité de Ética del Instituto de Investigaciones Médicas “Dr. Alfredo Lanari”.

Cómo citar: Ciruzzi MS. Creer o no creer: ¿esa es la cuestión? *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):365-367.

*Cada uno somos
un sistema de creencias.
Y ese sistema es el filtro
con el que construimos
nuestra visión del mundo.*

Xavier Guix

Un reciente caso publicado en el *British Medical Journal*¹ nos despertó una serie de breves reflexiones acerca de la interacción entre ciencia y creencias, aplicadas al cuidado de la salud.

A menudo, en la relación asistencial, surgen conflictos que lucen irreconciliables: fe y ciencia, creencias, doxa y episteme parecen enfrentarse, contraponerse y hasta fagocitarse sin solución de continuidad. El paciente no es un ente vacío que acude a la consulta despojado de su ser. Es un

sujeto que trae consigo su experiencia vital, ese conjunto de hechos, acciones, valores y pensamientos que atraviesan y conforman a la persona a lo largo de sus años. El paciente no solo es un padeciente de su enfermedad, sino que su enfoque se moldea conforme su propio prisma.

En principio, y por imperativo constitucional que deriva de su art. 19, las decisiones autónomas que toman las personas legalmente capaces y bioéticamente competentes, en pos de elegir su propio proyecto de vida, aún cuando los terceros puedan percibirlos como irracionales, disparatadas o infundadas, solo pertenecen al propio adulto. Es el “derecho a ser dejado a solas” del derecho anglosajón, en el que la intimidad y la privacidad que no interfieren arbitrariamente con derechos de terceros gozan de plena protección legal. Dentro de este grupo de decisiones, aquellas referidas al autocuidado toman especial relevancia. No existe un deber ético ni jurídico de ser saludable.

El Estado tiene obligación de garantizar el acceso a la atención sanitaria de calidad y oportuna, pero no tiene derecho a imponerla, mucho menos a asegurarnos que no enfermaremos.

La decisión médica es un proceso multilateral, compartido, discutido, dinámico, en el cual participan dos actores fundamentales: el equipo de salud y el paciente. Esta interacción entre quien detenta el conocimiento científico y quien es titular del derecho a la vida y a la salud no está exenta de tensiones ni de reproches, ya que supone un componente en cierta manera “altruista”, el cual está constituido, por un lado, por el reconocimiento médico de que el paciente es quien tiene la última

Correspondencia:
Dra. María S. Ciruzzi:
mrciruzzi@cpacf.org.ar

Financiamiento:
Ninguno.

Conflicto de intereses:
Ninguno que declarar.

Recibido: 17-4-2018
Aceptado: 17-4-2018

palabra en la toma de decisiones, es él quien acepta o no la propuesta médica y ello no implica ningún cuestionamiento a la capacidad del profesional. Por el otro lado, el paciente debe admitir que es el facultativo aquel que está mejor preparado para ayudarlo y guiarlo en decisión más acorde, idónea y correcta para él.

En este contexto, el consentimiento informado no es más que una concreción de la autonomía del paciente. El derecho a la autodeterminación, sobre la base de la comprensión de la información brindada por el médico, en cuanto al diagnóstico, pronóstico, tratamiento indicado y alternativas terapéuticas, es una de las caras de la moneda de la autonomía. Su contracara es el derecho al rechazo del tratamiento, contemplado por la Ley de Derechos de los Pacientes (art. 2, inc. e, Ley 26529) y el art. 59 del Código Civil y Comercial (CCyC). Es decir, toda vez que, para intervenir sobre el cuerpo de un tercero –incluso con una finalidad terapéutica– se requiere necesariamente su consentimiento, ello implica que el propio paciente puede negarse a prestarlo, aun cuando suponga la “autopuesta en peligro”; en otras palabras, aun cuando signifique poner en riesgo su salud y hasta su vida.

Es en el campo de la pediatría donde esta relación se complica todavía más. El paciente ya no es aquella persona plenamente capaz, desde el punto de vista jurídico, a quien se le reconoce sin ningún tipo de cortapisas su autonomía en la toma de decisiones. Estamos frente a un paciente vulnerable, muchas veces, inmaduro y la relación médico/paciente ya no es de a dos, sino que asume un rol preponderante la actuación de un tercero, a la sazón, sus padres y/o representante legal o adulto de confianza a su cuidado.

La responsabilidad parental es el conjunto de deberes y derechos que corresponden a los progenitores sobre la persona y bienes del hijo para su protección, desarrollo y formación integral mientras sea menor de edad y no se haya emancipado (art. 638 del CCyC).

Los padres ejercen la representación de sus niños para su cuidado y protección. Detentan aquello que la doctrina jurídica denomina “posición de garante”, que es la situación en que se halla una persona, en virtud de la cual tiene el deber jurídico concreto de obrar para impedir que se produzca un resultado típico que es evitable. Existen determinadas personas que tienen la obligación de proteger un determinado bien jurídico. Los padres, por ejemplo, son garantes de la vida y la libertad de sus hijos. Esto quiere

decir que el Estado les confía su crianza y cuidado y debe intervenir cuando ello no se cumple o se cumple ineficientemente.

Es en este ámbito donde el art. 19 de la Constitución Nacional (CN) se redimensiona y cobra un significado un poco más acotado. Cuando se trata de un niño que no puede expresarse, sea por su corta edad o por sus condiciones personales, y depende exclusivamente de la atención y cuidado de los mayores, el adulto asume un deber legal y ético de cuidado, lo cual implica, entre otras cuestiones, que, frente a toda situación, conducta, hecho que involucra a un niño prima su interés superior, en los términos del art. 3 de la Convención de los Derechos del Niño (CDN).

Por interés superior del niño se entiende la realización efectiva y concreta de los derechos expresa o implícitamente reconocidos a los niños.²

Consideramos, así, que el interés superior del niño es la plena satisfacción de sus derechos, reafirmación que no es para nada superflua, sino que es permanentemente necesaria debido a la tendencia generalizada a desconocer los derechos del niño como un límite y una orientación a las actuaciones de las autoridades y los adultos en general.³

El carácter de principio jurídico que ostenta el interés superior del niño impone que su idea, definición o desarrollo conceptual considere las diversas funciones normativas que por la doctrina se le reconocen, por ejemplo: generación de normas legales o reglamentarias, solución de conflictos de derechos, orientación de las políticas públicas y de la actuación familiar y/o privada, etc. Para realizar ese desarrollo conceptual, nada mejor que recurrir a los cuerpos normativos internacionales que, al propio tiempo que consagraron un extenso catálogo de derechos, reconocieron los “intereses de los niños” como el principio “superior” del cual se derivan y al que se someten, en orden a su interpretación y conciliación, entre sí y con otros derechos individuales.²

“El principio es de contenido indeterminado sujeto a la comprensión y extensión propios de cada sociedad y momento histórico, de modo tal que lo que hoy se estima que beneficia al niño o joven mañana se puede pensar que lo perjudica. Constituye un instrumento técnico que otorga poderes a los jueces, quienes deben apreciar tal interés en concreto, de acuerdo con las circunstancias del caso”.⁴

Es que el interés superior del niño es el interés, en primer lugar, por los derechos de un niño aquí y ahora; no se trata ni de la protección física, ni

económica, ni material; es, en primer lugar, la protección de la mayor cantidad de derechos posible en una circunstancia temporal determinada para un niño en particular. El interés superior del niño está vinculado con necesidades psicológicas, educativas, sociales, jurídicas, medioambientales y de recursos del niño y para el niño. Estas necesidades son derechos incorporados en los instrumentos internacionales de derechos humanos y en la CN (que los recepciona), además de en las legislaciones nacionales.²

Ello quiere decir que, más allá de las propias preferencias, opiniones y creencias, “los padres no pueden hacer mártires de sus hijos”.⁵ Los padres están obligados a deponer sus propias creencias, valores y opiniones cuando colocan en riesgo a su hijo, sea provocándole un daño o privándolo de la atención médica adecuada, científicamente idónea y oportuna. Tanto se trate de preferencias en la alimentación (vegetarianos) como de la vacunación obligatoria (movimiento antivacunas) o de la medicina basada en la evidencia (medicinas alternativas), en toda situación que involucra a un niño, debe darse preeminencia a su mejor interés, protegiendo y garantizando de manera plena sus derechos.

No hay duda de que existe, en estos casos, una tensión casi permanente entre la responsabilidad parental, el derecho a la educación y formación de un hijo, el derecho a la conformación familiar sobre la base de los propios valores e intereses, la libertad de conciencia (mucho más amplia que la libertad de creencias) y el derecho a la integridad física y a la vida del niño. Concretada esta colisión, no resulta susceptible de solución alguna, solo de opciones. Es un verdadero dilema. Si nos decantamos por la protección de la libertad de conciencia de los padres, en cuanto a la asistencia médica “no tradicional” de un niño, ello puede limitar severamente el derecho a la integridad y a la salud del pequeño. Si, por el contrario, optamos por proteger al niño, deberemos limitar las decisiones de los padres en este punto. Y lo concreto es que el Estado tiene un muy especial interés, que es –además– un imperativo legal, de privilegiar los derechos del niño por sobre cualquier otro legítimo interés.

Finalmente: no queremos dejar pasar esta oportunidad para recalcar que no debería ser el derecho penal aquel llamado a intervenir en cuestiones de salud pública. Salvo casos específicos de maltrato o abuso parental, muy difícilmente los padres decidan un curso de acción pensando en dañar a sus hijos. Suelen malinterpretar aquello que resulta en su mejor

interés, exponiendo involuntariamente al niño a un riesgo en su salud o daño a su integridad. Introducimos aquí el concepto de pena natural, que es aquella que constituye un grave daño en la salud psíquica o física del autor de un delito, producto inmediato o directo de su conducta ilícita, que permite prescindir de la pena estatal para evitar que esta se superponga a la padecida primigeniamente a raíz del hecho delictivo. De lo contrario, el sufrimiento que implicaría la aplicación de la pena regulada desde el Estado violentaría, en el caso concreto, el principio de proporcionalidad que debe mediar entre el hecho y la pena, y el de humanidad, íntimamente ligado al anterior, ya que el autor será reprimido penalmente en dos oportunidades y desigualmente.⁶

En nuestra opinión, una madre que pierde a su hijo por su conducta omisiva (no brindarle el cuidado adecuado) por privilegiar sus propias convicciones, que pueden no ser criticables en cuanto conductas autorreferentes, pero que conculcan derechos de terceros cuando son aplicadas a un niño, de quien, además, se encuentra en una especial posición de garante, ya tiene suficiente castigo como para pensar –además– en la imposición de una sanción penal. ■

Lovett, who cried repeatedly when her son's death was described, was impassive on hearing her three year sentence. "I can't begin to forgive myself", she said. "I hope others learn from my ignorance".¹

“Lovett, quien lloró repetidamente cuando describían la muerte de su hijo, lució impávida cuando escuchaba su sentencia a 3 años de prisión. ‘No puedo empezar a perdonarme’, dijo. ‘Espero que los demás aprendan de mi ignorancia’”.¹

REFERENCIAS

1. Dyer O. Canadian mother whose son died from strep throat sentenced to three years in prison. *BMJ* 2017; 359:j5521.
2. Lora L. Discurso jurídico sobre El Interés superior del niño. En Salvin P. *Avances de Investigación en Derecho y Ciencias Sociales: X Jornadas de Investigadores y Becarios*. Mar del Plata: Ed. Suárez; 2006. Págs.479-88.
3. Diez Ojeda A. El interés superior del niño necesidad de su regulación legal, nota al fallo de la SC de la Provincia de Buenos Aires. Buenos Aires: La Ley; 1999. Págs.238-53.
4. Grossman C. Significado de la Convención de los Derechos del Niño en las Relaciones de Familia. Buenos Aires: La Ley; 1993.
5. U.S. Supreme Court. *Prince v. Massachusetts*, 321 U.S. 158. Massachusetts, January 31, 1944. [Acceso: 27 de abril de 2018]. Disponible en: <https://supreme.justia.com/cases/federal/us/321/158/case.html>.
6. Bacigalupo E. *Teorías actuales del Derecho Penal*. Buenos Aires: Ad-Hoc; 1998.

To believe or not to believe: Is that the question?

María S. Ciruzzi, PhD^a

ABSTRACT

It is a reality that, in the field of pediatrics, parents are the legal representatives of their children, which means that any medical decision in relation to the child should be taken with the intercession of at least one of his/her parents who—in the exercise of a subrogated autonomy and a legally granted representation— provide their informed consent. The problem arises when the parents refuse to give their informed consent or directly make decisions that will have a specific impact on their child's well-being, thus causing damage or at least a risk for damage.

The challenge here is to reconcile the interests and rights at stake, always considering that the constitutional rule of interpretation in the case of a child are his/her best interests.

Key words: parental responsibility, best interests of a child, medical care, alternative medicine.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.365>

To cite: Ciruzzi MS. To believe or not to believe: Is that the question? *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):365-367.

*Each one of us has a system of beliefs.
And this system is the filter with which
we build our view of the world.*

Xavier Guix

- a. Attorney and Criminal Law Specialist Universidad Nacional de Buenos Aires (UBA). Specialist in Bioethics (FLACSO). Ethics Committee of Hospital de Pediatría SAMIC "Prof. Dr. Juan P. Garrahan." Ethics Committee of Instituto de Investigaciones Médicas "Dr. Alfredo Lanari."

E-mail address:

María S. Ciruzzi, PhD.: msciruzzi@cpacf.org.ar

Funding:

None.

Conflict of interest:

None.

Received: 4-17-2018

Accepted: 4-17-2018

A recent case published in the *British Medical Journal* triggered a series of brief considerations in relation to the interaction between science and beliefs in the field of health care.

Often, in the context of the physician-patient relationship, some conflicts appear irreconcilable: faith and science, beliefs, doxa and episteme seem to oppose, contrast, and even devour one another without interruption. The patient is not an empty entity that attends the physician's office stripped of his/her being. The patient is a subject whose baggage includes his/her life experience, a set of facts, actions, values, and thoughts that run through and make up a person over the years. The patient is not only the subject of a disease, but his/her focus is shaped

according to his/her own perspective.

At first, and based on a mandate set out in Section 19 of the Constitution, autonomous decisions made by legally capable and bioethically competent people for the purpose of choosing their own life project, even if a third party perceives such decisions as irrational, ridiculous or unfounded, correspond exclusively to such adult person. It is the "right to be let alone" claimed by Anglo-American jurisprudence, where intimacy and privacy are fully and legally safeguarded provided they do not arbitrarily interfere with the rights of a third party. Considering this set of decisions, those related to self-care become particularly relevant. There is no ethical or legal duty to be healthy.

The State is forced to warrant access to a timely, high-quality health care, but is not entitled to impose it, least of all to ensure that we will not become ill.

Any medical decision is a multilateral, dynamic process that is shared and discussed between two fundamental actors: the health care team and the patient.

Such interaction between someone who possesses the scientific knowledge and someone who holds the right to life and health is not exempt from tension or reproach because it involves a somewhat "altruistic" component, which is made up of, on the one side, medical recognition that the patient has the last word regarding his/her decisions, that the patient agrees or rejects the medical proposal, and this does not mean that he/she is questioning the physician's professional skills. On the other side, the patient should admit that the health care provider is better prepared to help and guide him/her to make the most adequate, optimal, correct decision.

In this context, the informed consent is merely the realization of the patient's autonomy. The right to self-determination, based on the understanding of the information provided by the physician in terms of diagnosis, prognosis, prescribed treatment, and alternative therapies is one of the sides of autonomy. The other side is the right to refuse treatment, stated in the Patient's Rights Act (Section 2, paragraph e, Act 26 529) and Section 59 of the National Civil and Commercial Code. That is to say, any time a consent is required to intervene on a third party's body—even with medical purposes—it means that the patient may refuse to provide his/her consent, even if it means "putting him/herself in danger." In other words, even if it means putting his/her health, and even his/her life, at risk.

In the field of pediatrics, such relation is even more complicated. The patient is no longer a fully capable person, from a legal perspective, for whom the autonomy of making decisions is recognized unrestrictedly. We are talking about a patient who is vulnerable and, many times, immature; the physician-patient relationship is no longer two-way. In this case, a third party plays a relevant role, i.e., the patient's parents and/or legal guardian and/or reliable adult caregiver.

Parental responsibility entails a set of rights and obligations regarding the child and his/her assets for the protection, development, and comprehensive education for as long as he/she is underage and has not emancipated (Section 638 of the National Civil and Commercial Code).

Parents are the representatives of their child to protect and safeguard him/her. They are in a position known as a "guarantor" according to the legal doctrine; this means that a person is in a situation by virtue of which he/she has a specific, legal duty to act in order to prevent a typical, avoidable outcome. Some people are obliged to safeguard a certain legal asset. For example, parents are the guarantors of their child's life and freedom. This means that the State trusts a child's upbringing and care on them and should interfere when such duty is not fulfilled or is fulfilled ineffectively.

In this setting, Section 19 of the National Constitution takes a different dimension and a stricter meaning. If a child cannot express him/herself, either because of his/her age or personal condition, and depends exclusively on the care provided by adults, such adults should assume the legal and ethical duty to care for him/her. This implies, among other things, that the child's best interests should prevail in any situation,

behavior or act involving him/her, as set out in the provisions of Article 3 of the Convention on the Rights of the Child.

A child's best interests refer to the effective, specific realization of the rights that are expressly or implicitly recognized for children.²

Thus, it is considered that the child's best interest is the full adherence to his/her rights, a statement that is not at all superfluous; on the contrary, it is continuously necessary due to the generalized tendency to ignore that children's rights act as a boundary and a guidance for the actions of authorities and adults in general.³

The legal principle nature held by the best interests of a child implies that the idea, definition or conceptual development of such interests should consider the different regulatory functions acknowledged by the legal doctrine, e.g., the development of legal or regulatory standards, legal conflict resolution, guidance for public policies, family and/or private actions, etc. For such conceptual development to take place, it is best to review international regulatory bodies, which, in addition to establishing an extensive catalog of rights, recognized "children's interests" as the "higher" principle from which they derive and which they obey, in relation to their interpretation and reconciliation with one another and with other individual rights.²

"The principle's content is uncertain and subject to the understanding and extension typical of each society and historical moment, so that what is considered beneficial for a child or adolescent at present may be considered harmful in the future. It is a technical instrument that grants power to judges, who should recognize such interests specifically, depending on the case".⁴

This means that a child's best interests are, above all, the interests on the child's rights here and now; it does not refer to bodily, financial or material protection; it refers, first of all, to safeguarding as many rights as possible for a particular child in a given temporary circumstance. The best interests of a child are related to his/her psychological, educational, social, legal, environmental, and resource needs. These needs are rights that have been included in international human rights instruments, the National Constitution (which embraces them), and also in other national laws.²

This means that, leaving aside personal preferences, opinions, and beliefs, "parents may not turn their children into martyrs".⁵ Parents

are obliged to drop their own beliefs, values, and opinions when putting their child at risk, either by causing damage or preventing him/her from receiving adequate, scientifically appropriate, and timely medical care. Whether it is in relation to a type of diet (for example, in the case of vegetarians) or mandatory immunizations (anti-vaccine activists) or evidence-based medicine (advocates of alternative medicine), the best interests of a child should prevail in any situation involving a child, thus fully safeguarding and guarantying his/her rights.

There is no doubt that, in these cases, there is an almost permanent tension among parental responsibility, a child's right to education and training, the right to create a family based on one's own values and interests, the freedom of conscience (much broader than freedom of beliefs), and the right to bodily integrity and life. Once such collision occurs, it is not susceptible to a single solution, but only options. It is a true dilemma. If we choose to protect the parents' freedom of conscience in relation to a child's "non-traditional" health care, it may severely restrict the child's right to integrity and health. If, on the contrary, we opt to safeguard the child, the parents' decisions would be limited. In short, the State has a very special interest, which is also a legal mandate, to prioritize a child's rights over any other legitimate interest.

Finally, let us not miss the opportunity to underline that criminal law should not be summoned to intervene in matters of public health. Except for specific cases of parental abuse or violence, parents would hardly decide on a course of action with the purpose of harming their child. What results in the best interests of a child is usually misinterpreted, thus involuntarily exposing the child to a health risk or damage to his/her bodily integrity. Here emerges the concept of natural punishment—one that accounts for a grave damage to the offender's mental or physical health resulting immediately or directly from his/her illegal behavior—, which allows

a State-given punishment to be disregarded in order to prevent it from overlapping with the burden suffered originally as a result of the offense. On the contrary, the distress that would result from the implementation of a State-sanctioned punishment would violate, in the specific case, the principle of proportionality that should mediate between the action and the punishment, and the principle of humanity, which is closely related to the former, because the offender would be criminally reprimanded twice and unequally.⁶

In my opinion, a mother who losses her child through an act of omission (preventing him/her from receiving an adequate care) because she prioritized her own convictions, which may not be reprehensible as long as they are self-referential but which violate the rights of a third party when applied to a child by someone who is also playing the role of guarantor, is already being punished enough to consider, in addition, the implementation of a criminal punishment. ■

*Lovett, who cried repeatedly when her son's death was described, was impassive on hearing her three year sentence. "I can't begin to forgive myself", she said. "I hope others learn from my ignorance."*¹

REFERENCES

1. Dyer O. Canadian mother whose son died from strep throat sentenced to three years in prison. *BMJ* 2017; 359:j5521.
2. Lora L. Discurso jurídico sobre El Interés superior del niño. In Salvin P. *Avances de Investigación en Derecho y Ciencias Sociales: X Jornadas de Investigadores y Becarios*. Mar del Plata: Ed. Suárez; 2006. Pages 479-88.
3. Díez Ojeda A. El interés superior del niño necesidad de su regulación legal, nota al fallo de la SC de la Provincia de Buenos Aires. Buenos Aires: La Ley; 1999. Páginas 238-53.
4. Grossman C. Significado de la Convención de los Derechos del Niño en las Relaciones de Familia. Buenos Aires: La Ley; 1993.
5. U.S. Supreme Court. Prince v. Massachusetts, 321 U.S. 158. Massachusetts, January 31, 1944. [Accessed on: April 27th, 2018]. Available at: <https://supreme.justia.com/cases/federal/us/321/158/case.html>.
6. Bacigalupo E. Teorías actuales del Derecho Penal. Buenos Aires: Ad-Hoc; 1998.

Síndrome de Beckwith-Wiedemann. Aspectos clínicos y etiopatogénicos de una entidad ejemplo de impronta genómica

*Beckwith-Wiedemann syndrome. Clinical and etiopathogenic
aspects of a model genomic imprinting entity*

Prof. Francisco Cammarata-Scalisi^a, Prof. Andrea Avendaño^a, Dra. Frances Stock^b,
Dr. Michele Callea^c, Dra. Angela Sparago^d y Prof. Andrea Riccio^{d,e}

RESUMEN

El síndrome de Beckwith-Wiedemann es la entidad genética de sobrecrecimiento más común, con una incidencia aproximada de 1 en 10000-13700 nacimientos. Presenta un amplio espectro clínico, que incluye macrosomía pre- y posnatal, macroglosia, alteraciones en el pabellón auricular, defectos en la pared abdominal, visceromegalia e hipoglucemia por hiperinsulinemia. Es un síndrome de predisposición a cáncer en la infancia, causado por una variedad de alteraciones genéticas y/o epigenéticas que suelen afectar la regulación de los genes impresos en 11p15.5. Conocer las correlaciones (epi) genotipo/fenotipo ha impulsado recomendaciones para plantear las diferentes estrategias de atención, entre ellas, los protocolos de vigilancia de tumores basados en la clasificación molecular, con la finalidad de estandarizar la práctica clínica. El objetivo del presente artículo es mostrar el estado actual del síndrome de Beckwith-Wiedemann, un ejemplo de impronta genómica.

Palabras clave: *síndrome de Beckwith-Wiedemann, neoplasias, predisposición genética a la enfermedad, impresión genómica, correlaciones genotipo-fenotipo.*

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.368>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.368>

Cómo citar: Cammarata-Scalisi F, Avendaño A, Stock F, et al. Síndrome de Beckwith-Wiedemann. Aspectos clínicos y etiopatogénicos de una entidad ejemplo de impronta genómica. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):368-373.

INTRODUCCIÓN

El síndrome de Beckwith-Wiedemann (SBW, OMIM 130650) es la entidad genética de sobrecrecimiento más común.¹⁻⁹ Fue descrito por primera vez por Beckwith en 1963 y Wiedemann en 1964.⁵ Es panétnico, con una razón por sexo de 1:1,² y una incidencia aproximada de 1 en 10000-13700 nacimientos.^{1,2,8}

Esta cifra se puede subestimar en los casos de fenotipos leves y es posible que aumente debido a una correlación positiva al uso de técnicas de reproducción asistida.⁸

CLÍNICA Y SEGUIMIENTO

Presenta un variable y amplio espectro clínico, que incluye los antecedentes de polihidramnios⁷ y macrosomía prenatal.²⁻⁷ Posteriormente, se caracteriza por crecimiento posnatal excesivo,⁵ hipotonía,⁷ hemangiomas, nevus flammeus en la glabella,^{1,4,5,8-11} pliegue infraorbitario,¹¹ hipoplasia mediofacial,^{8,11} macroglosia,¹⁻¹¹ paladar hendido,^{4,8,9,11} sialorrea, prognatismo,^{8,11} alteraciones en el pabellón auricular (pliegues en el lóbulo e indentaciones posteriores del hélix, *Figura 1*),^{1,4,8,11} disnea,⁸ anomalías cardíacas⁴ (cardiomegalia e, infrecuentemente, el síndrome de QT largo),⁸ pezones supernumerarios,¹¹ defectos en la pared abdominal (onfalocele, hernia umbilical¹⁻⁹ y diástasis de los rectos),^{8,10} visceromegalia^{3,5,8,10,12} (hígado, páncreas, bazo o riñones),^{3,12,13} riñón con médula en esponja,¹² malformaciones urolrenales,^{3,4,5} hemihiperplasia corporal,^{1-3,5,6,9,10,13} comúnmente evidente al momento del nacimiento,⁸ polidactilia^{4,11} e hipoglucemia por hiperinsulinemia,^{8,10} entre otras características fenotípicas,^{3,6,9} y el desarrollo psicomotor suele ser normal.¹¹

El diagnóstico se basa en signos clínicos, y la presencia de tres

- Unidad de Genética Médica, Departamento de Puericultura y Pediatría, Universidad de Los Andes, Mérida, Venezuela.
- Unidad de Oncología Pediátrica, Instituto Autónomo Hospital Universitario de Los Andes, Mérida, Venezuela.
- Unit of Dentistry, Bambino Gesù Children's Hospital – IRCCS, Rome, Italy.
- Department of Environmental, Biological and Pharmaceutical Sciences and Technologies, University of Campania "Luigi Vanvitelli", Caserta, Italy.
- Institute of Genetics and Biophysics "Adriano Buzzati-Traverso", Consiglio Nazionale delle Ricerche (CNR), Naples, Italy.

Correspondencia:

Prof. Francisco Cammarata-Scalisi:
francocammarata19@gmail.com

Financiamiento:

Ninguno.

Conflicto de intereses:

Ninguno que declarar.

Recibido: 18-10-2017

Aceptado: 8-3-2018

signos mayores o dos mayores y uno menor puede orientar el diagnóstico clínico (Tabla 1).^{1,4,10,11}

Ante la presencia de macrosomía, puede existir un mayor riesgo de traumatismos en los recién nacidos con cefalohematoma, lesión en el plexo braquial, síndrome de dificultad respiratoria y hasta producirse la muerte. Estas posibles complicaciones aumentan la probabilidad de optar por la realización de cesárea y la asociación con el parto prematuro ha sido encontrada.¹¹

Por su parte, la macroglosia es la característica más común. Se puede encontrar hasta en 97% de los pacientes (Tabla 1). Constituye el rasgo más sensible para la identificación de la entidad¹¹ y un factor de riesgo para la apnea obstructiva del sueño. El tratamiento quirúrgico de reducción ha sido exitoso en este trastorno, aunque es necesario comprender mejor cuáles individuos se pueden beneficiar de este procedimiento¹⁴ y su impacto en la respiración,¹⁵ el lenguaje y la deglución.^{14,15} Presenta, además, otras implicaciones estéticas caracterizadas por la apariencia de boca abierta, aumento en los espacios interdentes y prognatismo, que puede causar consecuencias negativas en relación con la imagen corporal y la alteración del bienestar psicológico.¹⁵ De forma infrecuente, se puede presentar hipoacusia de tipo conductiva, que debe manejarse para evitar trastornos en el aprendizaje.⁸

Tabla 1. Criterios diagnósticos del síndrome de Beckwith-Wiedemann^{1,4,10,11}

Hallazgos	Frecuencia (%)
Mayores	
Defecto en la pared abdominal	80
Macroglosia	97
Macrosomía	84
Tumores embrionarios	~ 7,5
Malformaciones en el pabellón auricular	63
Visceromegalia	41,4
Hemihiperplasia	63,8
Anomalías renales y ureterales	28-61
Antecedente familiar positivo de SBW	-
Paladar hendido	5,5
Menores	
Prematuridad	50
Hipoglucemia neonatal	> 50
Nevus flammeus en glabella	54
Facies típica	-
Placentomegalia	50
Polihidramnios	50
Cardiomegalia, cardiomiopatía hipertrófica	20
Diástasis de los rectos	27,6
Polidactilia	-
Pezones supernumerarios	-
Edad ósea avanzada	-

SBW: síndrome de Beckwith-Wiedemann.

Figura 1. Macroglosia y alteraciones en el pabellón auricular (indentaciones posteriores del hélix)



En el caso de la hipoglucemia, se debe descartar el hiperinsulinismo y la nesidioblastosis, por lo que se considera la evaluación por Endocrinología Infantil y la implementación de medicación temprana,¹⁶ y, con ello, se busca reducir las convulsiones que pueden conducir al retraso en el desarrollo.¹⁷

Es un síndrome de predisposición a cáncer en la infancia, en comparación con la población general,^{1-3,5,7,9,10} con riesgo de malignidad estimado de 4% a 21% (~7,5%).^{2,4,8} Es mayor al nacer y se aproxima a la línea de base de la población general antes de la pubertad.¹ El espectro de tumores comprende, principalmente, histiotipos embrionarios, como el tumor de Wilms^{1,2,4,6,8,13} y el hepatoblastoma, entre los más frecuentes,^{1,4} además de neuroblastoma,^{4,8} carcinoma adrenocortical,^{4,18} feocromocitomas¹⁹ y rhabdomyosarcomas.^{6,8} Sin embargo, el riesgo de aparición de tumores difiere considerablemente entre la expresión anormal de un grupo de genes con impronta localizados en 11p15.5.^{3,4}

El reconocimiento precoz durante el período prenatal o neonatal es esencial, ya que facilita las intervenciones médico-quirúrgicas que puedan cubrir las complicaciones presentadas, mientras que se inicia el monitoreo a largo plazo para la detección de las neoplasias anteriormente mencionadas, por lo que se permite educar a los padres sobre los diversos tratamientos.

DIAGNÓSTICO PRENATAL

La evaluación prenatal se recomienda en circunstancias en las que existe una historia familiar positiva o se diagnostican algunas características clínicas de la entidad. Se confirma por la presencia de dos características mayores, (macroglosia, macrosomía, defectos en la pared abdominal, como el onfalocele, placentomegalia) o una característica mayor y dos características menores, (polihidramnios, nefromegalia, displasia o citomegalia suprarrenal). Estos pueden ser explorados por ecografía a las 18-20 semanas de gestación y confirmar a las 25-32 semanas de gestación.⁸ Es por esto por lo que se debe considerar la realización de una ecografía morfogenética que evalúe con detalle la región craneofacial y el abdomen, en la que se incluya la medición de órganos sólidos. Además, la elevación de niveles de alfa-fetoproteína sérica se asocia con la presencia de onfalocele.¹⁶

La realización de la biopsia de vellosidades coriónicas en el primer trimestre o de amniocentesis en el segundo trimestre puede

ser empleada para determinar las diferentes alteraciones moleculares, que se expondrán posteriormente. Durante la gestación, se puede desarrollar mayor riesgo de hipertensión y proteinuria (sugestivo de preeclampsia) y diabetes mellitus gestacional.⁸

FACTORES DE RIESGO

La frecuencia en gemelos monocigóticos entre los individuos con SBW es más alta que en la población general (2,5% versus 0,3-0,4%)^{8,9} y más frecuente en el tipo monocorial diamniótico.⁹ Es predominante en el sexo femenino⁸ y en gemelos, en los que uno muestra el fenotipo de la entidad y el otro muestra un fenotipo normal o parcial.⁹

Desde el primer caso de SBW concebido a través de técnicas de reproducción asistida en 1995,¹⁰ se ha asociado a un mayor riesgo ante el empleo de estas herramientas y la presencia de defectos de impronta genómica.⁷ La incidencia del SBW en la población concebida por esta técnica es aproximadamente 1 en 4000 nacimientos.¹ Durante el desarrollo embrionario temprano, el mecanismo epigenético puede alterar los patrones de metilación, después de la implantación del blastocisto hasta el final del desarrollo del embrión, cuando se añaden marcas de metilación del ácido desoxirribonucleico (ADN) en aquellas regiones susceptibles de regulación. Indistintamente, los pacientes con problemas de fertilidad tratados o no tienen una mayor frecuencia de trastornos de impresión y es por ello por lo que se ha sugerido a estas técnicas como un factor de riesgo.⁷

DIAGNÓSTICOS DIFERENCIALES

Se encuentran otras entidades de sobrecrecimiento, que incluyen los síndromes de Sotos, Simpson-Golabi-Behmel, Costello^{8,20,21} y Perlman,^{20,21} y se puede dificultar la distinción en el período prenatal. Se deben descartar otras entidades endócrinas, como el hipotiroidismo congénito, alteraciones metabólicas con dismorfismo facial, como las mucopolisacaridosis (síndromes de Hurler, Hunter y Maroteaux-Lamy), además de las gangliosidosis y enfermedad de Pompe.¹

ETIOPATOGENIA

El SBW es causado por una variedad de alteraciones genéticas y/o epigenéticas que suelen afectar la regulación de los genes impresos en 11p15.5,^{2,6} que pueden producir heterogeneidad en el espectro clínico. Es, por lo

tanto, un paradigma de alteraciones congénitas asociadas con la impronta genómica,^{1,5} un proceso que consiste en la expresión génica específica de origen parental. Hasta 90% de los casos es causado por la alteración en la expresión de genes implicados en la progresión del ciclo celular y control del crecimiento somático, regulada por dos centros de impronta independientes (CI1 y CI2),^{1,6,7,22} que abarcan aproximadamente 1 Mb.⁷

En todo el genoma, hay aproximadamente 120 genes impresos que están asociados con 44 centros de impronta. Además del SBW, otros trastornos han sido bien caracterizados, como el síndrome de Prader-Willi, Angelman, Temple, Kagami-Ogata y Silver-Russell, junto con la diabetes mellitus neonatal transitoria y el pseudohipoparatiroidismo.⁷

La impronta se refiere a la expresión preferencial o exclusiva del alelo paterno o materno de un gen impreso. La expresión génica de impronta está regulada por mecanismos epigenéticos, y la más común es la metilación del ADN de los centros de impronta ricos en islas CpG, que conforman un porcentaje importante en los promotores de genes.² El CI1 y CI2 son caracterizados por metilaciones diferenciales de sus alelos maternos y paternos,¹ y en condiciones

normales, el CI1 del alelo paterno y el CI2 del alelo materno están metilados.⁵

La principal causa se debe a la pérdida de metilación en CI2, en 50-60% de los casos (Tabla 2), el cual es centromérico en relación con CI1.^{1,2,4,5,9,10,22} Produce la reducción de la expresión del gen inhibidor de cinasa dependiente de ciclina 1C (*CDKN1C*),^{1,22} que funciona como gen supresor de tumor y un regulador negativo del crecimiento fetal,² normalmente expresado por el cromosoma materno.^{1,22} Los individuos portadores de este tipo de alteración genética son más propensos a presentar macroglosia,¹⁴ hepatoblastoma, neuroblastoma y tumores suprarrenales.¹²

Además, las mutaciones puntuales maternas en *CDKN1C* representan 5-10% de los casos^{1,4,5,6,9,10} y son responsables de 5% de los casos esporádicos^{1,4} y la mitad de los casos con historia familiar positiva,^{1,6,7} con preferencia materna y patrón de herencia autosómico dominante.²¹ Es por ello por lo que la mayoría de los casos del SBW son esporádicos.^{10,21} La polidactilia, los pezones supernumerarios y el paladar hendido se observan con mayor frecuencia en este tipo de alteración génica.¹¹

El onfalocele ocurre con mayor frecuencia en pacientes con hipometilación de CI2,⁶ o

Tabla 2. Factores etiopatogénicos en el síndrome de Beckwith-Wiedemann, frecuencia y hallazgos asociados^{1,2,4-7,9-13,17,31,32}

Mecanismo	Frecuencia (%)	Hallazgos clínicos relacionados
Hipometilación en CI2	50-60	Macroglosia Onfalocele Hepatoblastoma Neuroblastoma Tumores suprarrenales No requiere pesquisa para tumor de Wilms
Disomía uniparental paterna en mosaico	20-25	Hemihipertrofia Mayor riesgo de desarrollo tumoral: Tumor de Wilms Hepatoblastoma
Mutaciones en <i>CDKN1C</i> *	5-10	Paladar hendido Pezones supernumerarios Onfalocele Polidactilia Menor riesgo de tumor
Hipermetilación en CI1	5-10	Macrosomía Onfalocele Aumento de riesgo de tumor de Wilms
Reordenamiento cromosómico	< 1	
No detectable	10-15	

* Autosómico dominante.

CI1: centro de impronta independiente 1.

CI2: centro de impronta independiente 2.

mutaciones puntuales en el gen *CDKN1C*.^{2,6,13} No obstante, el riesgo de tumor es significativamente menor ante estas dos circunstancias,^{2,6} y múltiples investigaciones han concluido que la pérdida de metilación en *CI2* no confiere un mayor riesgo y, por lo tanto, no requieren pesquisa para el tumor de Wilms.²

Además, 5-10% de los casos son causados por hipermetilación en *CI1*,^{1,4,5,10,17} que da como resultado la regulación de la expresión bialélica del gen del factor de crecimiento similar a la insulina tipo 2 *IGF2*, normalmente expresado en el alelo paterno, y el ácido ribonucleico (ARN) no codificante del gen oncosupresor *H19*, normalmente expresado por el alelo materno.^{1,2,4,22} La presencia de macrosomía,⁴ onfalocelo¹³ y un mayor riesgo de tumor de Wilms se asocia más comúnmente a este tipo de alteración epigenética.^{4,13}

La alteración en la metilación de *CI1* y *CI2* se explica por una disomía uniparental paterna en mosaico, que ocurre en 20-25%^{1,2,5,6,9,10} y se encuentra asociada con características fenotípicas adicionales,¹ como la hemihipertrofia,^{4,13} y un riesgo más alto de desarrollo tumoral, especialmente para tumor de Wilms^{2,6,12} y el hepatoblastoma.^{13,23}

En general, menos de 1% de los casos son causados por reordenamientos cromosómicos, tales como duplicaciones, translocaciones, inversiones, deleciones, que engloban los genes en el grupo de *CI*,^{1,5,22} y alrededor de 10-15% de los individuos clínicamente diagnosticados no tienen defecto molecular detectable, a pesar de presentar un fenotipo evidente.^{1,2,5,6}

PROTOCOLOS DE VIGILANCIA DE TUMORES

Aunque todos estos mecanismos juegan aún un papel desconocido en la patogénesis del SBW,⁶ conocer las correlaciones (epi)genotipo/ fenotipo ha impulsado recomendaciones para plantear las diferentes estrategias de atención, entre ellas, los protocolos de vigilancia de tumores basados en la clasificación molecular, con el objetivo de estandarizar la práctica clínica.^{5,11}

Ante los hallazgos genéticos anteriormente expuestos, se debe realizar una ecografía abdominal (cada 3-4 meses en la infancia para descartar el tumor de Wilms^{6,23} y el neuroblastoma). Otros estudios que pueden formar parte de esta pesquisa son la radiografía de tórax anual y la tomografía computarizada abdominal si existe nefromegalia o alguna

imagen sospechosa.¹⁶ Además, el cribado de niveles de alfa-fetoproteína sérica (cada 2-3 meses durante los primeros cuatro años) para la pesquisa del hepatoblastoma.^{6,16,23} Igualmente, se deben determinar los valores de gonadotropina coriónica y catecolaminas para la detección de tumores de células germinales y neuroblastoma, respectivamente. Los estudios de orina completa anual también deben formar parte de la evaluación. La detección temprana puede garantizar el adecuado manejo de estas neoplasias malignas de alto riesgo.¹⁶ Se debe promover este cribado, en especial, en los casos de disomía uniparental paterna.²³

ASESORAMIENTO GENÉTICO

Como ya se hizo referencia, la mayoría de los pacientes con SBW son esporádicos, por lo que el caso estudiado sería, por lo general, el único afectado en el grupo familiar. Excepto cuando se determina mutación puntual en el gen *CDKN1C*, que exhibe un patrón de herencia autosómica dominante, por lo que el riesgo de recurrencia es de 50% en los que presentan dicha alteración genética. El pronóstico varía de acuerdo con la forma de presentación de la entidad, la cual puede ser diferente incluso en los casos familiares.

Por lo tanto, el seguimiento y control de estos pacientes debe iniciarse de forma precoz e individual con el objeto de minimizar las complicaciones que pueden presentarse y brindar el tratamiento disponible.

El objeto del presente artículo es mostrar el estado actual del SBW, poder realizar el diagnóstico a través de una aproximación clínica y descartar los diagnósticos diferenciales. Las causas etiopatogénicas son variadas y es necesario comprenderlas para orientar los protocolos de vigilancia médicos interdisciplinarios, que deben ser individualizados e incluir un oportuno asesoramiento genético familiar. ■

REFERENCIAS

1. Mussa A, Russo S, De Crescenzo A, et al. (Epi)genotype-phenotype correlations in Beckwith-Wiedemann syndrome. *Eur J Hum Genet* 2016; 24(2):183-90.
2. Brzezinski J, Shuman C, Choufani S, et al. Wilms tumour in Beckwith-Wiedemann syndrome and loss of methylation at imprinting centre 2: revisiting tumour surveillance guidelines. *Eur J Hum Genet* 2017; 25(9):1031-9.
3. Giabicani É, Brioude F, Le Bouc Y, et al. Imprinted disorders and growth. *Ann Endocrinol (Paris)* 2017; 78(2):112-3.
4. Lin HY, Chuang CK, Tu RY, et al. Epigenotype, genotype, and phenotype analysis of patients in Taiwan with Beckwith-Wiedemann syndrome. *Mol Genet Metab* 2016; 119(1-2):8-13.

5. Luk HM. Clinical and molecular characterization of Beckwith-Wiedemann syndrome in a Chinese population. *J Pediatr Endocrinol Metab* 2017; 30(1):89-95.
6. Maas SM, Vansenne F, Kadouch DJ, et al. Phenotype, cancer risk, and surveillance in Beckwith-Wiedemann syndrome depending on molecular genetics subgroups. *Am J Med Genet A* 2016; 170(9):2248-60.
7. Tenorio J, Romanelli V, Martin-Trujillo A, et al. Clinical and molecular analyses of Beckwith-Wiedemann syndrome: Comparison between spontaneous conception and assisted reproduction techniques. *Am J Med Genet A* 2016; 170(10):2740-9.
8. Zammit M, Caruana E, Cassar D, et al. Beckwith-Wiedemann Syndrome Review: A Guide for the Neonatal Nurse. *Neonatal Netw* 2017; 36(3):129-33.
9. Inoue T, Nakamura A, Matsubara K, et al. Continuous hypomethylation of the KCNQ1OT1:TSS-DMR in monozygotic twins discordant for Beckwith-Wiedemann syndrome. *Am J Med Genet A* 2017; 173(10):2847-50.
10. Mussa A, Molinatto C, Cerrato F, et al. Assisted reproductive techniques and risk of Beckwith-Wiedemann syndrome. *Pediatrics* 2017; 140(1):e20164311.
11. Mussa A, Di Candia S, Russo S, et al. Recommendations of the Scientific Committee of the Italian Beckwith-Wiedemann Syndrome Association on the diagnosis, management and follow-up of the syndrome. *Eur J Med Genet* 2016; 59(1):52-64.
12. Cheungpasitporn W, Erickson SB. Beckwith-Wiedemann syndrome and recurrent bilateral renal calculi. *Urol Ann* 2017; 9(1):113-4.
13. Eggermann K, Blied J, Brioude F, et al. EMQN best practice guidelines for the molecular genetic testing and reporting of chromosome 11p15 imprinting disorders: Silver-Russell and Beckwith-Wiedemann syndrome. *Eur J Hum Genet* 2016; 24(10):1377-87.
14. Cielo CM, Duffy KA, Vyas A, et al. Obstructive sleep apnoea and the role of tongue reduction surgery in children with Beckwith-Wiedemann syndrome. *Paediatr Respir Rev* 2018; 25:58-63.
15. Maas SM, Kadouch DJ, Masselink AC, et al. Taste and speech following surgical tongue reduction in children with Beckwith-Wiedemann syndrome. *J Craniomaxillofac Surg* 2016; 44(6):659-63.
16. Lapunzina Badía P, del Campo Casanelles M, Delicado Navarro A, et al. Guía clínica para el seguimiento de pacientes con síndrome de Beckwith-Wiedemann. *An Pediatr (Barc)* 2006; 64(3):252-9.
17. Spivey PS, Bradshaw WT. Recognition and management of the infant with Beckwith-Wiedemann Syndrome. *Adv Neonatal Care* 2009; 9(6):279-84.
18. MacFarland SP, Mostoufi-Moab S, Zelley K, et al. Management of adrenal masses in patients with Beckwith-Wiedemann syndrome. *Pediatr Blood Cancer* 2017; 64(8):26432.
19. Caza T, Manwaring J, Riddell J. Recurrent, bilateral, and metastatic pheochromocytoma in a young patient with Beckwith-Wiedemann syndrome: A genetic link? *Can Urol Assoc J* 2017; 11(5):e240-3.
20. Callea M, Yavuz I, Clarich G, et al. A case of Beckwith-Wiedemann syndrome with peculiar dental findings. *Eur J Paediatr Dent* 2016; 17(4):315-7.
21. Ferianec V, Bartova M. Beckwith-Wiedemann syndrome with overlapping Perlman syndrome manifestation. *J Matern Fetal Neonatal Med* 2014; 27(15):1607-9.
22. Mussa A, Russo S, de Crescenzo A, et al. Fetal growth patterns in Beckwith-Wiedemann syndrome. *Clin Genet* 2016; 90(1):21-7.
23. Mussa A, Ferrero GB. Serum alpha-fetoprotein screening for hepatoblastoma in Beckwith-Wiedemann syndrome. *Am J Med Genet A* 2017; 173(3):585-7.



Sociedad Argentina de Pediatría

Dirección de Congresos y Eventos

Comité Nacional de Pediatría General Ambulatoria



7° CONGRESO ARGENTINO de PEDIATRÍA GENERAL AMBULATORIA

7, 8 y 9 de noviembre de 2018

SEDE

Centro de Convenciones Salta • Av. Paraguay 2900 y Av. Kennedy • Ciudad de Salta • Provincia de Salta

INFORMES E INSCRIPCIÓN

Sociedad Argentina de Pediatría • Filial Salta

Adolfo Güemes 541 (4400) Ciudad de Salta

Tel: (0387)-4210558

E-mail: sociedadpediatriasalta@gmail.com

Web Site: <http://www.sapfilialsalta.com>

Sociedad Argentina de Pediatría • Entidad Matriz

Av. Coronel Díaz 1971 (1425) Ciudad de Buenos Aires

Tel: (011)-48218612 / Fax: (011)-4821-8612 Interno 101

E-mail: congresos@sap.org.ar

Web Site: www.sap.org.ar

Beckwith-Wiedemann syndrome. Clinical and etiopathogenic aspects of a model genomic imprinting entity

Prof. Francisco Cammarata-Scalisi^a, Prof. Andrea Avendaño^a, Frances Stock, M.D.^b, Michele Callea, M.D.^c, Angela Sparago, PhD^d and Prof. Andrea Riccio^{d,e}

ABSTRACT

The Beckwith-Wiedemann syndrome is the most common genetic entity in overgrowth, with an approximate incidence of 1 in 10 000-13700 births. Its broad clinical spectrum includes pre- and postnatal macrosomia, macroglossia, pinna abnormalities, abdominal wall defects, visceromegaly, and hyperinsulinemic hypoglycemia. This syndrome predisposes to childhood cancer and is caused by diverse genetic and/or epigenetic disorders that usually affect the regulation of genes imprinted on chromosome 11p15.5. The knowledge of (epi) genotype-phenotype correlations has prompted recommendations to propose different health care strategies, including tumor surveillance protocols based on molecular classification, aimed at standardizing clinical practice. The objective of this article is to describe the current status of the Beckwith-Wiedemann syndrome, a model of genomic imprinting.

Key words: Beckwith-Wiedemann syndrome, neoplasias, genetic predisposition to disease, genomic imprinting, genotype-phenotype correlations.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.368>

To cite: Cammarata-Scalisi F, Avendaño A, Stock F, et al. Beckwith-Wiedemann syndrome. Clinical and etiopathogenic aspects of a model genomic imprinting entity. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):368-373.

INTRODUCTION

The Beckwith-Wiedemann syndrome (BWS, OMIM #130650) is the most common genetic entity in overgrowth.¹⁻⁹ It was first described by Beckwith in 1963 and Wiedemann in 1964.⁵ It is a panethnic syndrome with a 1:1,² sex ratio and an approximate incidence of 1 in 10 000-13 700 births.^{1,2,8} Such incidence may be underestimated in mild phenotypes and most likely increases due to a positive correlation with assisted reproductive techniques.⁸

CLINICAL FEATURES AND FOLLOW-UP

The clinical spectrum is wide and varied and includes a history of polyhydramnios⁷ and prenatal macrosomia.²⁻⁷ At a later stage, it is characterized by postnatal overgrowth,⁵ hypotonia,⁷ hemangiomas, nevus flammeus of the forehead,^{1,4,5,8-11} infraorbital fold,¹¹ midfacial hypoplasia,^{8,11} macroglossia,¹⁻¹¹ cleft palate,^{4,8,9,11} ptyalism, prognathism,^{8,11} pinna abnormalities (ear lobe creases and posterior helical ear pits, *Figure 1*),^{1,4,8,11} dyspnea,⁸ heart anomalies⁴ (cardiomegaly and, rarely, long QT syndrome),⁸ supernumerary nipples,¹¹ abdominal wall defects (omphalocele, umbilical hernia,¹⁻⁹ and diastasis recti),^{8,10} visceromegaly^{3,5,8,10,12} (liver, pancreas, spleen or kidneys),^{3,12,13} medullary sponge kidney,¹² malformations of the kidney and ureter,^{3,4,5} whole-body hemihypertrophy,^{1-3,5,6,9,10,13} which is commonly evident at birth,⁸ polydactyly,^{4,11} and hyperinsulinemic hypoglycemia,^{8,10} among other phenotypic features,^{3,6,9} although psychomotor development is usually normal.¹¹

The diagnosis is based on clinical signs, and the presence of three major signs or two major and one minor sign may guide clinical diagnosis (*Table 1*).^{1,4,10,11}

In the presence of macrosomia, there may be a greater risk for trauma among newborn infants, such as cephalohematoma, brachial plexus injury, respiratory distress syndrome, and even death. Such potential complications increase the probability

- Unit of Medical Genetics, Department of Newborn Infant Care and Pediatrics, Universidad de Los Andes, Mérida, Venezuela.
- Unit of Pediatric Oncology, Instituto Autónomo Hospital Universitario de Los Andes, Mérida, Venezuela.
- Unit of Dentistry, Bambino Gesù Children's Hospital – IRCCS, Rome, Italy.
- Department of Environmental, Biological and Pharmaceutical Sciences and Technologies, University of Campania "Luigi Vanvitelli," Caserta, Italy.
- Institute of Genetics and Biophysics "Adriano Buzzati-Traverso," Consiglio Nazionale delle Ricerche (CNR), Naples, Italy.

E-mail address:

Prof. Francisco Cammarata-Scalisi: francocammarata19@gmail.com

Funding:

None.

Conflict of interest:

None.

Received: 10-18-2017

Accepted: 3-8-2018

of choosing to perform a cesarean section, and an association has been established with preterm birth.¹¹

On its side, macroglossia is the most common feature. It may be observed in up to 97% of patients (Table 1). It is the most easily identifiable feature of BWS¹¹ and a risk factor for obstructive sleep apnea. Surgical reduction management has been successful in macroglossia, although it is necessary to better understand which individuals may benefit from this procedure¹⁴ and its impact on breathing,¹⁵ language, and swallowing.^{14,15} It also involves other aesthetic aspects, such as open mouth posture, increased interdental space, and prognathism, which may have negative consequences in relation to body image and an altered psychological well-being.¹⁵ Infrequently, conductive hearing loss may occur, which should be managed to avoid learning disorders.⁸

In the case of hypoglycemia, hyperinsulinemia and nesidioblastosis should be ruled out, so an assessment by the Pediatric Endocrinology Service and an early drug treatment should be considered,¹⁶ in order to reduce seizures that may lead to developmental delay.¹⁷

BWS predisposes to childhood cancer, compared to the general population,^{1-3,5,7,9,10} with an estimated risk for malignancy of 4-21% (~7.5%).^{2,4,8} The risk is higher at birth and reaches the general population's baseline before

TABLE 1. Diagnostic criteria of Beckwith-Wiedemann syndrome^{1,4,10,11}

Findings	Frequency (%)
Major	
Abdominal wall defect	80
Macroglossia	97
Macrosomia	84
Embryonal tumors	~7.5
Outer ear malformations	63
Visceromegaly	41.4
Hemihypertrophy	63.8
Anomalies of the kidney and ureter	28-61
Positive family history of BWS	-
Cleft palate	5.5
Minor	
Prematurity	50
Neonatal hypoglycemia	> 50
Nevus flammeus of the forehead	54
Distinctive facies	-
Placentomegaly	50
Polihydramnios	50
Cardiomegaly, hypertrophic cardiomyopathy	20
Diastasis recti	27.6
Polydactyly	-
Supernumerary nipples	-
Advanced bone age	-

BWS: Beckwith-Wiedemann syndrome.

FIGURE 1. Macroglossia and pinna abnormalities (posterior helical ear pits)



puberty.¹ Tumors mainly include embryonal histiotypes, such as Wilms tumor^{1,2,4,6,8,13} and hepatoblastoma, among the most common ones,^{1,4} in addition to neuroblastoma,^{4,8} adrenocortical carcinoma,^{4,18} pheochromocytomas,¹⁹ and rhabdomyosarcomas.^{6,8} However, the risk for tumors is significantly different from the abnormal expression of a group of genes imprinted on chromosome 11p15.^{5,3,4}

The early recognition during the prenatal or neonatal period is critical because it facilitates medical-surgical interventions that may cover any observed complication, while starting long-term monitoring for the neoplasias mentioned above, which allows to educate parents on the different treatments available.

PRENATAL DIAGNOSIS

Prenatal assessment is recommended when there is a positive family history or certain BWS clinical features are diagnosed. It is confirmed by the presence of two major features (macroglossia, macrosomia, abdominal wall defects, such as omphalocele, placentomegaly) or one major and two minor features (polihydramnios, nephromegaly, adrenal dysplasia or cytomegaly). These may be explored by ultrasound around 18-20 weeks of gestation and then confirmed at 25-32 weeks of gestation.⁸ For this reason, it is necessary to consider performing a morphogenetic assessment of the fetus using ultrasound to establish the status of its abdominal and craniofacial regions, including the measurement of solid organs. In addition, high serum alpha-fetoprotein levels are associated with the presence of omphalocele.¹⁶

Chorionic villus sampling in the first trimester or an amniocentesis in the second trimester may help to determine the different molecular alterations that will become exposed subsequently. During gestation, there may be a higher risk for hypertension and proteinuria (suggestive of preeclampsia), and gestational diabetes mellitus.⁸

RISK FACTORS

The frequency of monozygotic twins among patients with BWS is higher than in the general population (2.5% compared to 0.3-0.4%)^{8,9} and it is more common in the monochorionic diamniotic type.⁹ It predominates among female individuals⁸ and twins, where one has the BWS phenotype and the other one has a normal or partial phenotype.⁹

Since the first BWS case conceived using

assisted reproductive techniques in 1995,¹⁰ it has been associated with a higher risk when using these tools and the presence of genomic imprinting defects.⁷ The incidence of BWS in the population conceived using these techniques is approximately 1 in 4000 births.¹ During early embryonic development, the epigenetic mechanism may alter methylation patterns, after the blastocyst implantation until the end of the embryo development, when deoxyribonucleic acid (DNA) methylation marks are added in regulation-susceptible regions. Without distinction, patients with fertility problems, either treated or not, have a higher frequency of imprinting disorders; for this reason, it has been suggested that these techniques are a risk factor.⁷

DIFFERENTIAL DIAGNOSES

There are other overgrowth entities, including the Sotos, Simpson-Golabi-Behmel, Costello,^{8,20,21} and Perlman syndromes,^{20,21} which may hinder the possibility of establishing the difference in the prenatal period. Other endocrine diseases, such as congenital hypothyroidism, metabolic alterations with facial dysmorphism, such as mucopolysaccharidosis (Hurler, Hunter, and Maroteaux-Lamy syndromes), besides gangliosidosis and Pompe disease, should be ruled out.¹

ETIOPATHOGENESIS

BWS is caused by a variety of genetic and/or epigenetic alterations that usually affect the regulation of genes imprinted on chromosome 11p15.^{5,6} which may result in a heterogeneous clinical spectrum. Therefore, it is a paradigm of congenital abnormalities associated with genomic imprinting,^{1,5} a process that consists in a specific gene expression of parental origin. Up to 90% of cases are caused by an alteration in the expression of genes involved in cell cycle progression and somatic growth control, regulated by two independent imprinting centers (IC1 and IC2),^{1,6,7,22} which cover approximately 1 Mb.⁷

Across the entire genome, there are approximately 120 imprinted genes associated with 44 imprinting centers. In addition to BWS, other disorders have been well characterized, such as the Prader-Willi, Angelman, Temple, Kagami-Ogata, and Silver-Russell syndromes, together with transient neonatal diabetes mellitus and pseudohypoparathyroidism.⁷

Imprinting refers to the preferential or

exclusive expression of the paternal or maternal allele of an imprinted gene. The imprinting gene expression is regulated by epigenetic mechanisms. The most common one is DNA methylation in the imprinting centers rich in CpG islands, which make up an important percentage of gene promoters.² IC1 and IC2 are characterized by different methylation patterns of the maternal and paternal alleles,¹ and, in normal conditions, IC1 of the paternal allele and IC2 of the maternal allele are methylated.⁵

The main cause is the loss of methylation in IC2 –in 50-60% of cases (Table 2)–, which is located centromeric to IC1.^{1,2,4,5,9,10,22} It results in a reduced expression of the cyclin dependent kinase inhibitor 1C (*CDKN1C*) gene,^{1,22} which works as a tumor suppressor gene and a negative regulator of fetal growth,² normally expressed by the maternal chromosome.^{1,22} Individuals who carry this genetic alteration tend to develop macroglossia,¹⁴ hepatoblastoma, neuroblastoma, and adrenal tumors.¹²

In addition, maternal point mutations in the *CDKN1C* gene account for 5-10% of cases^{1,4-6,9,10} and are responsible for 5% of sporadic cases^{1,4} and half of the cases with a positive family history,^{1,6,7} preferably maternal and with an

autosomal dominant inheritance pattern.²¹ For this reason, most BWS cases are rare.^{10,21} Polydactyly, supernumerary nipples, and cleft palate are most commonly observed in this type of gene alteration.¹¹

Omphalocele occurs more frequently in patients with hypomethylation of IC2^{2,6} or point mutations in the *CDKN1C* gene.^{2,6,13} However, the risk for tumors is significantly lower in these two situations,^{2,6} and multiple studies have concluded that the loss of methylation of IC2 does not imply a higher risk and, therefore, does not require screening for Wilms tumor.²

In addition, 5-10% of cases are caused by hypermethylation of IC1,^{1,4,5,10,17} which results in the regulation of the biallelic expression of the insulin-like growth factor 2 (*IGF2*), normally expressed in the paternal allele, and the non-coding ribonucleic acid (RNA) of the oncosuppressor *H19* gene, normally expressed in the maternal allele.^{1,2,4,22} The presence of macrosomia,⁴ omphalocele,¹³ and a higher risk for Wilms tumor is more commonly associated with this type of epigenetic alteration.^{4,13}

The alteration in IC1 and IC2 methylation is explained by mosaic paternal uniparental disomy, which occurs in 20-25% of cases^{1,2,5,6,9,10} and is

TABLE 2. Etiopathogenic factors in Beckwith-Wiedemann syndrome, frequency and associated findings^{1,2,4-7,9-13,17,31,32}

Mechanism	Frequency (%)	Related clinical findings
Hypomethylation of IC2	50-60	Macroglossia Omphalocele Hepatoblastoma Neuroblastoma Adrenal tumors Does not require screening for Wilms tumor
Mosaic paternal uniparental disomy	20-25	Hemihypertrophy Higher risk for tumor development: Wilms tumor Hepatoblastoma
Mutations in the <i>CDKN1C</i> gene*	5-10	Cleft palate Supernumerary nipples Omphalocele Polydactyly Lower risk for tumor
Hypermethylation of IC1	5-10	Macrosomia Omphalocele Increased risk for Wilms tumor
Chromosomal rearrangement	< 1	
Undetectable	10-15	

* Autosomal dominant.

IC1: independent imprinting center 1.

IC2: independent imprinting center 2.

associated with additional phenotypic features,¹ such as hemihypertrophy^{4,13} and a higher risk for tumor development, especially Wilms tumor^{2,6,12} and hepatoblastoma.^{13,23}

In general, less than 1% of cases are caused by chromosomal rearrangements, such as duplications, translocations, inversions, deletions, which encompass IC group genes,^{1,5,22} and approximately 10-15% of clinically diagnosed individuals do not have a detectable molecular defect, even if they have an evident phenotype.^{1,2,5,6}

TUMOR SURVEILLANCE PROTOCOLS

Although all these mechanisms play a role in the pathogenesis of BWS that remains unknown,⁶ the knowledge of (epi)genotype-phenotype correlations has prompted recommendations to propose different health care strategies, including tumor surveillance protocols based on molecular classification, aimed at standardizing clinical practice.^{5,11}

In view of the genetic findings described above, an abdominal ultrasound should be done (every 3-4 months during childhood to rule out Wilms tumor^{6,23} and neuroblastoma). Other studies that may be part of this screening include an annual chest X-ray and an abdominal computed tomography in the case of nephromegaly or any suspected observation.¹⁶ Besides, serum alpha-fetoprotein levels (every 2-3 months in the first 4 years) should be measured to screen for hepatoblastoma.^{6,16,23} Likewise, chorionic gonadotropin and catecholamine values should be determined to detect germ cell tumors and neuroblastoma, respectively. A urinalysis should also be done annually as part of the assessment. An early detection may warrant an adequate management of high-risk malignancies.¹⁶ Screening for tumors should be encouraged, especially for those with paternal uniparental disomy.²³

GENETIC COUNSELING

As discussed here, most cases of BWS are rare; therefore, the studied case is, in general, the only one affected in the family group. Except when a point mutation in the *CDKN1C* gene is observed, which shows an autosomal dominant inheritance pattern; those with this genetic alteration have a 50% risk for recurrence. The prognosis varies depending on the clinical presentation of this disease, which may be different even among family cases.

For this reason, follow-up and management of these patients should be done in an early and individual manner so as to minimize the complications that may arise and provide available treatment.

The objective of this article is to describe the current status of BWS, learn how to make a diagnosis based on clinical features, and rule out differential diagnoses. The etiopathogenic causes vary; it is necessary to understand them to guide interdisciplinary medical surveillance protocols, which should be customized to each patient and include timely family genetic counseling. ■

REFERENCES

- Mussa A, Russo S, De Crescenzo A, et al. (Epi)genotype-phenotype correlations in Beckwith-Wiedemann syndrome. *Eur J Hum Genet* 2016; 24(2):183-90.
- Brzezinski J, Shuman C, Choufani S, et al. Wilmstumor in Beckwith-Wiedemann syndrome and loss of methylation at imprinting centre 2: revisiting tumour surveillance guidelines. *Eur J Hum Genet* 2017; 25(9):1031-9.
- Giabicani É, Brioude F, Le Bouc Y, et al. Imprinted disorders and growth. *Ann Endocrinol (Paris)* 2017; 78(2):112-3.
- Lin HY, Chuang CK, Tu RY, et al. Epigenotype, genotype, and phenotype analysis of patients in Taiwan with Beckwith-Wiedemann syndrome. *Mol Genet Metab* 2016; 119(1-2):8-13.
- Luk HM. Clinical and molecular characterization of Beckwith-Wiedemann syndrome in a Chinese population. *J Pediatr Endocrinol Metab* 2017; 30(1):89-95.
- Maas SM, Vansenne F, Kadouch DJ, et al. Phenotype, cancer risk, and surveillance in Beckwith-Wiedemann syndrome depending on molecular genetic subgroups. *Am J Med Genet A* 2016; 170(9):2248-60.
- Tenorio J, Romanelli V, Martin-Trujillo A, et al. Clinical and molecular analyses of Beckwith-Wiedemann syndrome: Comparison between spontaneous conception and assisted reproduction techniques. *Am J Med Genet A* 2016; 170(10):2740-9.
- Zammit M, Caruana E, Cassar D, et al. Beckwith-Wiedemann Syndrome Review: A Guide for the Neonatal Nurse. *Neonatal Netw* 2017; 36(3):129-33.
- Inoue T, Nakamura A, Matsubara K, et al. Continuous hypomethylation of the *KCNQ1OT1:TSS-DMR* in monozygotic twins discordant for Beckwith-Wiedemann syndrome. *Am J Med Genet A* 2017; 173(10):2847-50.
- Mussa A, Molinatto C, Cerrato F, et al. Assisted reproductive techniques and risk of Beckwith-Wiedemann syndrome. *Pediatrics* 2017; 140(1):e20164311.
- Mussa A, Di Candia S, Russo S, et al. Recommendations of the Scientific Committee of the Italian Beckwith-Wiedemann Syndrome Association on the diagnosis, management and follow-up of the syndrome. *Eur J Med Genet* 2016; 59(1):52-64.
- Cheungpasitporn W, Erickson SB. Beckwith-Wiedemann syndrome and recurrent bilateral renal calculi. *Urol Ann* 2017; 9(1):113-4.
- Eggermann K, Blied J, Brioude F, et al. EMQN best practice guidelines for the molecular genetic testing and reporting of chromosome 11p15 imprinting disorders: Silver-Russell and Beckwith-Wiedemann syndrome. *Eur J Hum Genet* 2016; 24(10):1377-87.

14. Cielo CM, Duffy KA, Vyas A, et al. Obstructive sleep apnoea and the role of tongue reduction surgery in children with Beckwith-Wiedemann syndrome. *Paediatr Respir Rev* 2018; 25:58-63.
15. Maas SM, Kadouch DJ, Masselink AC, et al. Taste and speech following surgical tongue reduction in children with Beckwith-Wiedemann syndrome. *J Craniomaxillofac Surg* 2016; 44(6):659-63.
16. Lapunzina Badía P, del Campo Casanelles M, Delicado Navarro A, et al. Guía clínica para el seguimiento de pacientes con síndrome de Beckwith-Wiedemann. *An Pediatr (Barc)* 2006; 64(3):252-9.
17. Spivey PS, Bradshaw WT. Recognition and management of the infant with Beckwith-Wiedemann Syndrome. *Adv Neonatal Care* 2009; 9(6):279-84.
18. MacFarland SP, Mostoufi-Moab S, Zellely K, et al. Management of adrenal masses in patients with Beckwith-Wiedemann syndrome. *Pediatr Blood Cancer* 2017; 64(8):26432.
19. Caza T, Manwaring J, Riddell J. Recurrent, bilateral, and metastatic pheochromocytoma in a young patient with Beckwith-Wiedemann syndrome: A genetic link? *Can Urol Assoc J* 2017; 11(5):e240-3.
20. Callea M, Yavuz I, Clarich G, et al. A case of Beckwith-Wiedemann syndrome with peculiar dental findings. *Eur J Paediatr Dent* 2016; 17(4):315-7.
21. Ferianec V, Bartova M. Beckwith-Wiedemann syndrome with overlapping Perlman syndrome manifestation. *J Matern Fetal Neonatal Med* 2014; 27(15):1607-9.
22. Mussa A, Russo S, de Crescenzo A, et al. Fetal growth patterns in Beckwith-Wiedemann syndrome. *Clin Genet* 2016; 90(1):21-7.
24. Mussa A, Ferrero GB. Serum alpha-fetoprotein screening for hepatoblastoma in Beckwith-Wiedemann syndrome. *Am J Med Genet A* 2017; 173(3):585-7.

Evaluación gastrointestinal en los pacientes con fiebre mediterránea familiar con dolor abdominal crónico y tratados con colchicina: serie de casos

Gastrointestinal evaluation in colchicine-treated familial Mediterranean fever patients with chronic abdominal pain: Cases series

Dra. Sezin Akman^a, Dr. Selcuk Yazici^b y Dr. Can Ozturk^c

RESUMEN

El objetivo de este estudio fue evaluar a los pacientes con fiebre mediterránea familiar (*familial Mediterranean fever, FMF*) y dolor abdominal crónico resistentes al tratamiento con colchicina.

Se incluyó a 48 pacientes diagnosticados en nuestro consultorio de reumatología pediátrica que tenían dolor abdominal a pesar del tratamiento con colchicina. A todos los pacientes se los derivó a un gastroenterólogo pediátrico. Se registraron las características del dolor, tales como aparición, duración y frecuencia; se planificó una endoscopia digestiva para obtener un diagnóstico diferencial.

Se determinó la presencia de una mutación del gen *MEFV* en 46 pacientes. La mediana de la duración del tratamiento fue de 2,8 años. Aproximadamente el 60% de los pacientes tenían dolor abdominal todos los días o de dos a tres veces a la semana; en el 73% de los casos, duró menos de tres horas. A 41 pacientes se les realizó una endoscopia digestiva alta.

La gastroduodenitis es un hallazgo frecuente en los pacientes con FMF y dolor abdominal persistente a pesar del tratamiento. Los pacientes con los puntajes más altos de severidad de la enfermedad tenían inflamación digestiva grave.

Palabras clave: dolor abdominal, gastroenterología, diagnóstico, fiebre mediterránea familiar.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.e649>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.e649>

Cómo citar: Akman S, Yazici S, Ozturk C. Evaluación gastrointestinal en los pacientes con fiebre mediterránea familiar con dolor abdominal crónico y tratados con colchicina: serie de casos. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):e649-e654.

- Facultad de Medicina de Balikesir Üniversitesi, Departamento de Pediatría, Unidad de Gastroenterología Pediátrica, 10145 Balikesir, Turquía.
- Facultad de Medicina de Balikesir Üniversitesi, Departamento de Pediatría, 10145 Balikesir, Turquía.
- Ministerio de Salud de Esmirna, Hospital Universitario y de Investigación de Tepecik, Unidad de Inmunología y Reumatología Pediátricas, 35110 Esmirna, Turquía.

Correspondencia: Dra. Sezin Akman: aa.sezin@gmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 1-10-2017

Aceptado: 4-3-2018

INTRODUCCIÓN

La fiebre mediterránea familiar (*familial Mediterranean fever, FMF* por sus siglas en inglés) es la enfermedad autoinflamatoria más frecuente en las personas descendientes de pueblos del Mediterráneo oriental. El gen causante de la FMF (*MEFV*) se encuentra en el cromosoma 16; el estado homocigoto en la mutación M694V está asociado con una forma más grave de la enfermedad. Los síntomas característicos son la fiebre acompañada por dolor abdominal, torácico o articular y compromiso del escroto. La mayoría de los síntomas se resuelven de manera espontánea dentro de las 12-24 horas. La complicación más devastadora es la amiloidosis, que, en última instancia, causa insuficiencia renal terminal.¹⁻³ El peritoneo es la membrana serosa más comúnmente afectada. Por lo tanto, el dolor abdominal es el síntoma más frecuente en los pacientes. La mayor parte del tiempo, a los pacientes con FMF se los deriva a un gastroenterólogo antes del diagnóstico. El dolor abdominal podría ser secundario a enfermedades asociadas con la FMF, tales como enfermedad intestinal inflamatoria o amiloidosis.^{1,4,5} La colchicina es muy eficaz como tratamiento ya que previene el desarrollo de ataques y amiloidosis. En general, los síntomas desaparecen con el tratamiento debido al control de la inflamación. Sin embargo, en algunos casos, los síntomas podrían ser resistentes al tratamiento aunque se logre el control adecuado de los marcadores inflamatorios. Pueden presentarse dificultades en los pacientes que tienen enfermedades digestivas asociadas o que se superponen.^{1,3,4,6}

Nuestro objetivo fue evaluar a los pacientes con dolor abdominal crónico resistentes al tratamiento con colchicina.

MÉTODOS

Este estudio se realizó en 48 pacientes con FMF entre enero de 2011 y junio de 2012. El diagnóstico se determinó conforme a los criterios de Livneh.²

A todos los pacientes se los controló en la Unidad de Reumatología Pediátrica y se los trató con colchicina durante, al menos, seis meses. La dosis inicial de colchicina fue de 0,5-1 mg/día. Se aumentó la pauta posológica gradualmente hasta llegar a los 2 mg/día en los pacientes resistentes. En el grupo del estudio se incluyó a los pacientes con dolor abdominal crónico atendidos en la Unidad de Gastroenterología Pediátrica. Se calculó el puntaje de severidad de la enfermedad (*disease severity score, DSS*) de todos los pacientes según los criterios del estudio de Pras⁷ y Roma III⁸ para la evaluación del dolor abdominal.

El estudio fue aprobado por el Comité de Ética (14 de enero, 2011) y se obtuvo el consentimiento informado de todos los padres. Se excluyó del estudio a todos los niños con otra enfermedad indicativa de abdomen agudo. Se excluyó a los pacientes con infecciones, inmunodeficiencias y alergias alimentarias detectadas por coprocultivo, análisis inmunológico, prueba intraepidérmica y dieta de eliminación (*Figura 1*). Se evaluaron las características de los pacientes, las mutaciones del gen *MEFV*, la aparición, frecuencia y duración del dolor, los resultados de los análisis de laboratorio para infección por *Helicobacter pylori* (*H. pylori*) y celiacía.

Se obtuvo el ADN de sangre periférica mediante protocolos estándar (equipo Invisorb[®] Spin Blood, STRATEC, Alemania). Se realizaron análisis moleculares dentro del marco de los análisis genéticos habituales. Se estudió la

mutación del gen *MEFV* con el método de PCR por hibridación inversa. Se diagnosticó infección por *H. pylori* mediante endoscopia, prueba del aliento con urea marcada y detección del antígeno en heces. Se planificó la endoscopia para los pacientes con FMF resistentes a la colchicina. Cuarenta y una de las familias de los pacientes aceptaron que se realice este procedimiento. Se realizaron endoscopías digestivas altas y bajas con sedación, si estaba indicado, después de obtener el consentimiento informado. Se obtuvieron al menos dos piezas de biopsia del duodeno al esófago y se evaluaron las características histológicas.

Para eliminar el *H. pylori*, se administró un tratamiento triple con un inhibidor de la bomba de protones (IBP) más amoxicilina y claritromicina o metronidazol durante 7-14 días.⁹ Se administró el IBP a los pacientes con gastritis/esofagitis; y se agregó el metronidazol, además de antiácidos, para el tratamiento de la duodenitis. Se llamó a los pacientes de manera periódica para evaluar la respuesta al tratamiento durante seis meses.

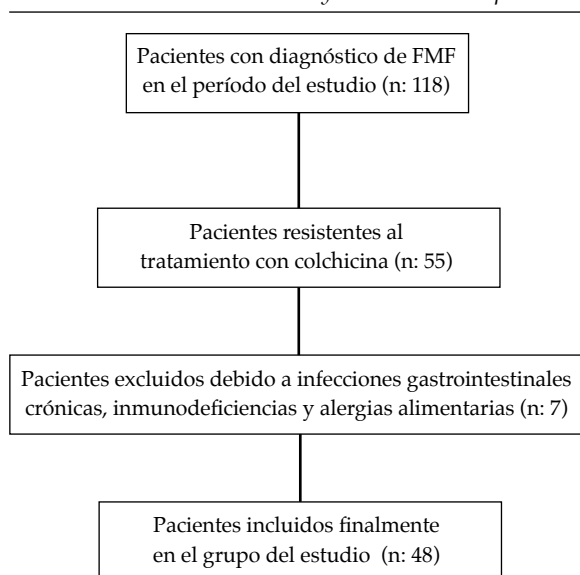
Se usó el programa SPSS (Chicago, EE. UU., versión 15.0) para identificar los datos demográficos y clínicos. Los valores del estudio se describen como media \pm desviación estándar, porcentaje (%) y número (n). Se utilizaron la mediana y los intervalos cuando no se disponía de datos con distribución normal.

RESULTADOS

En la *Figura 1*, se presenta el diagrama de flujo de los pacientes. La media de edad fue de $11,7 \pm 3,2$ años; 20/48 (41,7%) eran varones. La mediana de la duración del tratamiento con colchicina fue de 2,8 años, y el dolor apareció, en promedio, $3,3 \pm 1,8$ meses después del inicio de la colchicina. El dolor persistió en el 75% de los pacientes durante, al menos, tres meses; en el 90%, la frecuencia del dolor fue diaria o, al menos, tres veces a la semana; en aproximadamente el 75%, duró menos de tres horas; y en el 80%, la ubicación principal fue el abdomen completo o el epigastrio. El síntoma más frecuente que acompañó el dolor fueron las náuseas (56,2%). Los resultados de la prueba del aliento con urea marcada y la serología de la celiacía fueron positivos en nueve pacientes (18,7%) y en un paciente (2,1%), respectivamente (*Tabla 1*).

El 21% de los pacientes tenían antecedentes familiares de FMF; y se detectó una mutación del gen *MEFV* en 46 pacientes (95,8%). El DSS

FIGURA 1. Criterios de inclusión y exclusión de los pacientes



promedio fue de $6,8 \pm 2,1$. Cabe destacar que todos los pacientes con el DSS más alto tenían inflamación digestiva (Tabla 2). Se realizó una endoscopia digestiva alta en 41 pacientes (85,4%) y una colonoscopia en tres. El hallazgo histológico más prominente fue la gastroduodenitis (Figuras 2 y 3). Todos los resultados fueron normales en los pacientes sometidos a la colonoscopia. El 67% de los pacientes respondió al tratamiento.

DISCUSIÓN

En este estudio, se evaluó a los pacientes con FMF que recibieron dosis efectivas de colchicina con dolor abdominal persistente sin la presencia de otros hallazgos relacionados con la FMF durante el seguimiento. A estos pacientes se los derivó al Departamento de Gastroenterología Pediátrica para la evaluación del dolor abdominal. Aproximadamente cuatro de cada cinco pacientes requirió una endoscopia. Las patologías digestivas fueron más frecuentes en los niños con DSS alto.

Según la definición de los pacientes, el dolor abdominal no estaba acompañado por dolor articular o fiebre, a veces ocurría todos los días

y no se quejaron de dolor abdominal por FMF. Difería de los ataques de FMF "típicos", que podrían incluir peritonitis "real" o aumento de los parámetros de la fase aguda. En la mayoría de los pacientes, el dolor duró menos de lo esperado con la FMF. En estudios previos, se informó la dificultad para distinguir el dolor abdominal en el epigastrio o todo el abdomen de los ataques típicos. Dado que el dolor abdominal episódico afecta al 95% de los pacientes con FMF, la mayoría consulta a gastroenterólogos.^{1,4,10}

La cantidad de estudios que se centran en la investigación de la infección e inflamación digestivas en el diagnóstico diferencial del dolor abdominal en los pacientes con FMF, a pesar del tratamiento, es pequeña. Además de las publicaciones asociadas con enfermedad intestinal inflamatoria y mutación positiva del gen *MEFV*, se informó que algunos pacientes con colitis inflamatoria recibieron, en última instancia, el diagnóstico de FMF.^{6,11} En la bibliografía, no se cuenta con información suficiente sobre la evaluación de la mucosa digestiva en los niños con FMF. Se informó compromiso de la mucosa digestiva sin amiloidosis como manifestación relacionada con un ataque de FMF en el estudio

TABLA 1. Características de los pacientes y del dolor abdominal

Sexo (M/F, n [%])	20 (41,7) / 28 (58,3)		
Edad (media \pm DE) (años)	11,7 \pm 3,2		
Aparición del dolor (meses)	3,3 \pm 1,8		
Duración del tratamiento con colchicina (años)*	2,8 (1-4,9)		
Prueba positiva del aliento con urea marcada (n [%])	9 (18,7)		
Serología positiva para celiaquía (n [%])	1 (2,1)		
Características del dolor			
Frecuencia	n (%)	Ubicación	n (%)
Todos los días	13 (27)	Epigastrio	18 (37,5)
Dos o tres veces a la semana	17 (35,4)	Abdomen completo	19 (39,6)
Una vez a la semana	13 (27)	Mesogastrio	9 (18,7)
Una o dos veces al mes	5 (10,4)	Retroesternón	2 (4,2)
Duración		Signos concurrentes	
< 1 hora	24 (50,0)	Náuseas	27 (56,2)
1-3 horas	11 (22,9)	Vómitos	3 (6,2)
3-12 horas	5 (10,4)	Náuseas + vómitos	6 (12,5)
> 12 horas	8 (16,6)	Diarrea	5 (10,4)
		Ninguno	7 (14,5)

*mediana, intervalos

TABLA 2. Mutaciones del gen MEFV en relación con los hallazgos endoscópicos y puntajes de severidad de la enfermedad

Paciente	Mutación del gen MEFV en el exón 2	Mutación del gen MEFV en el exón 3	Mutación del gen MEFV en el exón 10	Hallazgos endoscópicos				DSS**
				O*	G*	B*	D*	
1	E148Q /-				+	+		5
2	E148Q /-						+	8
3	E148Q /-					+		6
4	E148Q /-			+		+		5
5	E148Q /-					+	+	6
6	E148Q /-			Sin endoscopia		7		
7	E148Q /-					+		6
8	E148Q /-			+		+		7
9	E148Q /-					+	+	8
10	E148Q /-					+		6
11			V726A /-	+		+		6
12			V726A /-			+		6
13			V726A /-	+			+	6
14			V726A /-	Sin endoscopia		5		
15	R202Q /-		V726A /-			+		7
16	R202Q /-					+		9
17	R202Q /-			+		+	+	8
18	R202Q /-			+		+		6
19	R202Q /-					+	+	7
20			M694V /-			+	+	8
21			M694V /-			+		5
22			M694V /-	Hallazgos endoscópicos normales		6		
23		P369S /-		Sin endoscopia		5		
24			K695R /-	Hallazgos endoscópicos normales		6		
25			R761H /-	Sin endoscopia		5		
26			R761H /-			+		6
27		R314R /-				+	+	7
28		R314R /-		+				6
29			P706P /-	+				5
30			P124P /-	+		+		7
31	R202Q /R202Q			Sin endoscopia		6		
32	R202Q /R202Q			Hallazgos endoscópicos normales		6		
33	R202Q /R202Q					+		5
34	R202Q /R202Q						+	6
35	R202Q /-		M694V /-	+		+	+	8
36	R202Q /-		M694V /-	+				5
37			M694V /M694V	+		+	+	12
38			M694V /M694V	+			+	8
39	R202Q /-		M680I /-			+		10
40	E148Q /-		M680I /-			+		5
41	R202Q /E148Q			Sin endoscopia		7		
42	L110P /E148Q						+	7
43	E148Q /E148Q		M694V /-	Sin endoscopia		6		
44	E148Q /E148Q		M694V /-	+		+	+	11
45	E148Q /E148Q		M694V /-	+		+	+	12
46	R202Q /R202Q		M694V /-	+		+	+	12
47	Mutación negativa, FMF					+	+	8
48	Mutación negativa, FMF			+		+		6

*E: esofagitis, G: gastritis, B: bulbitis, D: duodenitis.

**DSS: puntaje de severidad de la enfermedad.

realizado por Gurkan y col.¹² En su estudio, durante la evaluación endoscópica, se observó inflamación colónica y gástrica. Se ha explicado el compromiso digestivo debido a la proliferación bacteriana relacionada con la dismotilidad y la absorción insuficiente causadas por el depósito de amiloide. Sin embargo, en ese estudio, no se estableció una relación entre la inflamación de la mucosa y la amiloidosis.

La colchicina mejora los síntomas de la enfermedad, pero en el caso de síntomas digestivos relacionados con la FMF, se debe considerar la resistencia a este fármaco.¹³ Es posible determinar la presencia de características histológicas gástricas típicas, como pseudoproliferación epitelial, agotamiento de mucina y apoptosis, en los pacientes con FMF.¹⁴ En nuestro estudio, la endoscopia digestiva alta reveló esofagitis, gastritis, bulbitis y duodenitis en todos los pacientes, excepto por tres pacientes que tuvieron resultados normales. En la evaluación histológica de las biopsias, no se observaron cambios secundarios a la colchicina. En seis pacientes con DSS alto según Pras,⁷ se observó inflamación moderada o grave desde el esófago hasta el duodeno. Por otro lado, los pacientes con mutaciones homocigotas tenían DSS más altos. No obstante, debido a la falta de un grupo de referencia y a la cantidad pequeña de pacientes, esta diferencia no se consideró estadísticamente significativa y no pudo interpretarse. En la

bibliografía, se describe un estudio en adultos en el que se evaluaron los síntomas digestivos de la FMF mediante cápsula endoscópica. De manera similar a nuestro estudio, se observaron defectos pequeños en la mucosa intestinal, como erosiones y edema.¹⁵

En este estudio, se determinó por histología la presencia de infección por *H. pylori* en todos los pacientes con resultados positivos en la prueba del aliento con urea marcada. No se ha verificado que los hallazgos clínicos e histológicos en un paciente con serología positiva indiquen la presencia de celiaquía. En el 67% de los pacientes con inflamación digestiva se observó una respuesta positiva al tratamiento. Entre las limitaciones más importantes de este estudio, se deben mencionar la cantidad relativamente pequeña de pacientes y la falta de registro de los efectos secundarios de la colchicina.

Como resultado, a los pacientes que recibieron una dosis efectiva de colchicina y que tuvieron marcadores de inflamación normales en los análisis de laboratorio y con dolor abdominal con características clínicas diferentes a las de los ataques típicos de FMF, se los debe someter a una evaluación gastroenterológica. Las intervenciones endoscópicas cumplieron una función informativa en este grupo de pacientes. Debe verificarse la correlación positiva probable entre la inflamación digestiva histológicamente grave y el DSS más alto en una serie más amplia. ■

FIGURA 2. Hallazgos endoscópicos de esofagitis (paciente núm. 35)



Erosiones que afectan la región desde la porción distal del esófago hasta la línea Z de la unión gástroesofágica con un patrón rayado.

FIGURA 3. Alteraciones macroscópicas que varían de eritema a erosiones en la mucosa del duodeno.



Agradecimientos

Quisiéramos agradecer a Guzide Aksu por su apoyo y ánimo.

REFERENCIAS

1. Brydges S, Althreya B, Kastner DL. Periodic fever syndromes in children. En: Cassidy JT, Petty RE, Laxer RM, et al eds. *Textbook of pediatric rheumatology*. 5th ed. Philadelphia: Elsevier-Saunders; 2005. Págs.657-67.
2. Livneh A, Langevitz P, Zemer D, et al. Criteria for the diagnosis of familial Mediterranean fever. *Arthritis Rheum* 1997; 40(10):1879-85.
3. Ben-Chetrit E. Familial Mediterranean fever (FMF) and renal AA amyloidosis-phenotype-genotype correlation, treatment and prognosis. *J Nephrol* 2003; 16(3):431-4.
4. Mor A, Gal R, Livneh A. Abdominal and digestive system associations of familial Mediterranean fever. *Am J Gastroenterol* 2003; 98(12):2594-604.
5. Mor A, Shinar Y, Zaks N, et al. Evaluation of disease severity in familial Mediterranean fever. *Semin Arthritis Rheum* 2005; 35(1):57-64.
6. Sari S, Egritas O, Dalgic B. The familial Mediterranean fever (MEFV) gene may be a modifier factor of inflammatory bowel disease in infancy. *Eur J Pediatr* 2008; 167(4):391-3.
7. Pras E, Livneh A, Balow JE Jr, et al. Clinical differences between North African and Iraqi Jews with familial Mediterranean fever. *Am J Med Genet* 1998; 75(2):216-9.
8. Baber KF, Anderson J, Puzanovova M, et al. Rome II versus Rome III classification of functional gastrointestinal disorders in pediatric chronic abdominal pain. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2008; 47(3):299-302.
9. Abuhammour A, Dajani A, Nounou M, et al. Standard triple therapy versus sequential therapy for eradication of *Helicobacter pylori* in treatment naïve and retreat patients. *Arab J Gastroenterol* 2016; 17(3):131-6.
10. Ozturk C, Halicioglu O, Coker I, et al. Association of clinical and genetical features in FMF with focus on MEFV strip assay sensitivity in 452 children from western Anatolia, Turkey. *Clin Rheumatol* 2012; 31(3):493-501.
11. Kiss MH, Magalhães CS. Autoinflammatory diseases: mimics of autoimmunity or part of its spectrum? Case presentation. *J Clin Immunol* 2008; 28 Suppl 1:S84-9.
12. Gurkan OE, Dalgic B. Gastrointestinal mucosal involvement without amyloidosis in children with familial Mediterranean fever. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2013; 57(3):319-23.
13. Kallinich T, Haffner D, Niehues T, et al. Colchicine use in children and adolescents with familial Mediterranean fever: literature review and consensus statement. *Pediatrics* 2007; 119(2):e474-83.
14. Al-Daraji WI, Al-Mahmoud RM, Ilyas M. Gastric changes following colchicine therapy in patients with FMF. *Dig Dis Sci* 2008; 53(8):2079-82.
15. Demir A, Akyüz F, Göktürk S, et al. Small bowel mucosal damage in familial Mediterranean fever: results of capsule endoscopy screening. *Scand J Gastroenterol* 2014; 49(12):1414-8.

Gastrointestinal evaluation in colchicine-treated familial Mediterranean fever patients with chronic abdominal pain: Cases series

Sezin Akman M.D.^a, Selcuk Yazici M.D.^b and Can Ozturk M.D.^c

ABSTRACT

The aim of the study to evaluate familial mediterranean fever (FMF) patients with chronic abdominal pain unresponsive to colchicine treatment.

Forty-eight patients who diagnosed in our Pediatric Rheumatology clinics and suffering from abdominal pain despite colchicine treatment were include. All patients were referred to a pediatric gastroenterologist. The pain characteristics such as onset, duration and frequency were recorded; gastrointestinal (GI) endoscopy was planned for differential diagnosis.

MEFV mutation was determined in 46 patients. The median duration of treatment was 2.8 years. Approximately 60% of the patients suffered from abdominal pain every day or 2-3 times a week, in 73% of the cases it lasted less than three hours. Forty-one patients underwent upper GI endoscopy.

Gastroduodenitis is a common finding in persisting abdominal pain despite therapy of FMF patients. The patients with the highest disease severity scores had severe inflammation within the entire GI system.

Key words: abdominal pain - gastroenterology, diagnostic - familial mediterranean fever.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.e649>

To cite: Akman S, Yazici S, Ozturk C. Gastrointestinal evaluation in colchicine-treated familial Mediterranean fever patients with chronic abdominal pain: Cases series. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):e649-e654.

- Department of Pediatrics, Pediatric Gastroenterology Unit.
- Department of Pediatrics, Balikesir University Medical Faculty, Turkey.
- Ministry of Health Izmir Tepecik Training and Research Hospital, Pediatric Immunology and Rheumatology Unit, Turkey.

E-mail address:

Sezin Akman, M.D., Assoc. Prof.: aa.sezin@gmail.com

Funding: None.

Conflict of interest: None.

Received: 10-1-2017

Accepted: 3-4-2018

INTRODUCTION

Familial mediterranean fever (FMF) is the most common auto-inflammatory disease among people of Mediterranean descent. The gene causing FMF (MEFV) is located on the chromosome 16; homozygous state for M694V mutation is associated with a more severe form of the disease. Typical symptoms are fever, accompanied by abdominal, chest or joint pains and scrotal involvement. Most symptoms resolve spontaneously within 12-24 hours. The most devastating complication is amyloidosis and finally leading to end stage renal disease.¹⁻³ Periton is the most commonly affected serosal involvement. Thus abdominal pain is the most common complaint in patients. Most of the time, FMF patients have been referred to a gastroenterologist before the diagnosis. Abdominal pain may be secondary to FMF-associated diseases such as inflammatory bowel disease or amyloidosis.^{1,4,5} Colchicine is highly effective in the treatment by preventing the development of attacks and amyloidosis. The symptoms usually disappear following treatment due to the control of inflammation. However, in some cases, symptoms may not respond to treatment although adequate control of inflammatory markers are attained. Therapeutic difficulties may occur in patients who have overlapping or associated GI diseases.^{1,3,4,6}

Our aim was to evaluate patients with chronic abdominal pain unresponsive to colchicine treatment.

METHODS

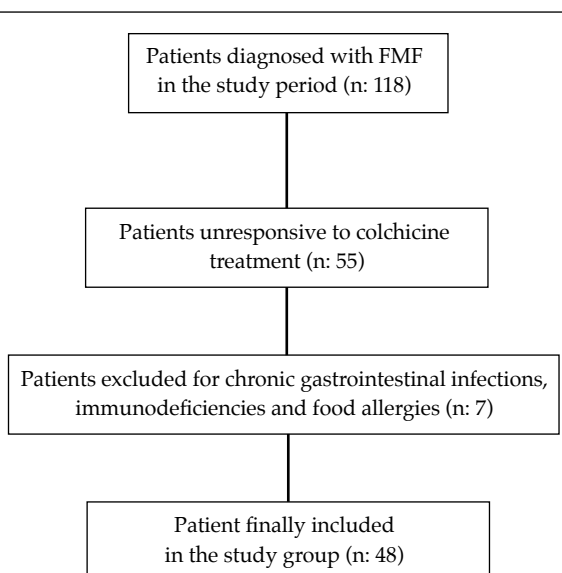
This study was conducted on 48 patients with FMF during the period January 2011 to June 2012. The diagnosis was determined according to Livneh criteria.² All patients were followed in Pediatric Rheumatology, and have been treated with colchicine for at least six months. Colchicine 0.5-1 mg/day was the initial dose. The dosage was gradually increased up to 2 mg/day for unresponsive patients. The study group involved patients with chronic abdominal pain who were consulted by Pediatric Gastroenterology. The

disease severity score (DSS) was calculated for all patients according to the Pras's study⁷ and Rome III criteria⁸ for the evaluation of abdominal pain.

The study has been approved by the Ethics Committee (Jan 14th, 2011), informed consent was obtained from all parents. Children with an accompanying illness suggestive of acute abdomen were excluded from the study. Infections, immunodeficiencies, food allergies were excluded by stool culture, immunologic analysis, skin prick test and elimination diets (Figure 1). Demographic characteristics of the patients, MEFV mutations, the onset, frequency and duration of pain, laboratory findings for *Helicobacter pylori* (*H. pylori*) infection and celiac disease were evaluated.

DNA was extracted from peripheral blood using standard protocols (Invisorb® Spin Blood Kit, STRATEC, Germany). Molecular analyses were performed within the framework of routine genetic testing. MEFV mutation was investigated by the PCR reverse hybridization method. *H. pylori* infection was diagnosed by methods such as endoscopy, urea breath test, and detection of antigen in stool. Endoscopic evaluation was planned to the FMF patients who did not respond to colchicine. Forty-one patients' families accepted endoscopic procedure. Upper and/or lower GI endoscopies were performed under sedation when indicated after informed consents were obtained. At least two biopsies were taken from duodenum to oesophagus and histological findings were evaluated.

FIGURE 1. Patient inclusion and exclusion criteria



As *H. pylori* eradication therapy, triple regimen with a proton pump inhibitor (PPI) plus amoxicillin and clarithromycin or metronidazole were administered for 7-14 days.⁹ PPI was given to patients with gastritis/oesophagitis; metronidazole was also added besides antacids for the treatment of duodenitis. Patients were called periodically for the evaluation of response to treatment, for 6 months.

SPSS (Chicago, USA, version 15.0) program was used for the identification of obtained demographic and clinical data. The numerical values in the study are shown as mean±standard deviation, percent (%) and number (n). Median and range values were used when data are not normally distributed.

RESULTS

The flowchart of patients is shown in the Figure 1. The mean age was 11.7 ± 3.2 years, 20/48 (41.7%) were male. The median duration of colchicine treatment was 2.8 years and the average onset of pain after the start of colchicine was 3.3 ± 1.8 months. The pain persisted in 75% of patients for at least three months, in 90%, the frequency was daily and/or at least 3 times per week, in approximately 75% it took less than three hours, and in 80% main localization was whole abdomen and/or epigastrium. The most common complaint accompanying pain was nausea (56.2%). The urea breath test and celiac serology were positive in nine (18.7%) and one (2.1%) patients, respectively (Table 1).

Twenty-one percent of patients had a history of FMF in the family, in 46 patients (95.8%) MEFV mutations were detected. Average DSS value was detected as 6.8 ± 2.1 . It was remarkable that all of the patients with the highest DSS had inflammation within the whole GI system (Table 2). Upper GI endoscopy was applied to forty-one patients (85.4%) and three patients underwent colonoscopy. Gastroduodenitis was the most prominent histologic finding (Figures 2 and 3). All findings were normal in patients who underwent colonoscopic intervention. Sixty-seven percent of patients responded to treatment.

DISCUSSION

In the present study, FMF patients receiving effective dosages of colchicine with persistent abdominal pain in the absence of other FMF-related findings during follow up were assessed. These patients were referred to the Pediatric Gastroenterology for evaluation of abdominal

pain. Approximately 4/5 of patients required endoscopic intervention. GI pathologies were found to be more common in children with a high DSS.

Characteristics of abdominal pain defined by our patients that were not accompanied by joint pain or fever, sometimes occurring every day, did not comply with the abdominal pain of FMF. It was differed from "typical" FMF attacks, which may include the findings of "true" peritonitis and/or increased acute phase parameters. In the majority of patients, the duration of pain was shorter than expecting in FMF. In previous studies, it is reported that it is difficult to distinguish abdominal pains in the epigastrium or the whole abdomen from typical attacks. Because episodic abdominal pain affects 95% of FMF patients, most of them are seen by gastroenterologists.^{1,4,10}

The number of studies that focus on the investigation of GI infection-inflammation in the differential diagnosis of abdominal pain, despite treatment in patients with FMF, is small. In addition to publications associated with inflammatory bowel diseases and MEFV mutation positivity, some patients that have presented

with inflammatory colitis clinic were reported to get FMF diagnosis ultimately.^{6,11} There is little knowledge on the evaluation of GI mucosa in children with FMF in the literature. Mucosal involvement of the GI tract without amyloidosis was established as an attack-related manifestation of the disease in the study conducted by Gurkan et al.¹² Their study showed that colonic and gastric inflammations were observed in the endoscopic evaluation. Gastrointestinal involvement has been explained by bacterial overgrowth related to dysmotility and malabsorption caused by amyloid deposition. However, mucosal inflammation was not related to amyloidosis in that study.

Colchicine improves disease symptoms, but in case of GI symptoms related FMF, unresponsiveness to colchicine should be a consideration.¹³ Typical gastric histological features of colchicine such as epithelial pseudoproliferation, mucin depletion, and apoptosis may be determined in FMF patients.¹⁴ In our study, all patients who underwent upper GI endoscopy, except for three who had normal findings; oesophagitis, gastritis, bulbitis, duodenitis were determined and, histological evaluation of biopsies did not display secondary

TABLE 1. Characteristics of patients and abdominal pain

Gender (M/F, n [%])	20 (41.7) / 28 (58.3)		
Age (mean \pm SD) (years)	11.7 \pm 3.2		
The onset of pain (months)	3.3 \pm 1.8		
Duration colchicine therapy (years)*	2.8 (1-4.9)		
Positive urea breath test (n [%])	9 (18.7)		
Positive celiac serology (n [%])	1 (2.1)		
Characteristics of the pain			
Frequency	n (%)	Localization	n (%)
Every day	13 (27)	Epigastric	18 (37.5)
Two or three per week	17 (35.4)	Whole abdomen	19 (39.6)
Once a week	13 (27)	Umbilical	9 (18.7)
Once or twice a month	5 (10.4)	Retrosternal	2 (4.2)
Duration		Accompanying signs	
Less than one hour	24 (50.0)	Nausea	27 (56.2)
One to three hours	11 (22.9)	Vomiting	3 (6.2)
Three to twelve hours	5 (10.4)	Nausea + vomiting	6 (12.5)
More than twelve hours	8 (16.6)	Diarrhea	5 (10.4)
		No	7 (14.5)

*median, range values

TABLE 2. MEFV mutations in relation to endoscopic findings and the disease severity scores

Patient	MEFV mutation exon 2	MEFV mutation exon 3	MEFV mutation exon 10	Endoscopic findings				DSS**
				O*	G*	B*	D*	
1	E148Q /-				+	+		5
2	E148Q /-				+		+	8
3	E148Q /-				+			6
4	E148Q /-			+	+			5
5	E148Q /-				+	+	+	6
6	E148Q /-		Missing endoscopy		7			
7	E148Q /-				+			6
8	E148Q /-			+	+			7
9	E148Q /-				+	+	+	8
10	E148Q /-				+			6
11			V726A /-	+	+			6
12			V726A /-		+			6
13			V726A /-	+		+		6
14			V726A /-	Missing endoscopy	5			
15	R202Q /-		V726A /-		+			7
16	R202Q /-				+			9
17	R202Q /-			+	+	+	+	8
18	R202Q /-			+	+			6
19	R202Q /-				+		+	7
20			M694V /-		+		+	8
21			M694V /-		+			5
22			M694V /-	Normal endoscopic findings	6			
23		P369S /-		Missing endoscopy	5			
24			K695R /-	Normal endoscopic findings	6			
25			R761H /-	Missing endoscopy	5			
26			R761H /-		+			6
27		R314R /-			+	+		7
28		R314R /-		+				6
29			P706P /-	+				5
30			P124P /-	+	+			7
31	R202Q /R202Q			Missing endoscopy	6			
32	R202Q /R202Q			Normal endoscopic findings	6			
33	R202Q /R202Q				+			5
34	R202Q /R202Q					+	+	6
35	R202Q /-		M694V /-	+	+	+	+	8
36	R202Q /-		M694V /-	+				5
37			M694V /M694V	+	+	+	+	12
38			M694V /M694V	+		+	+	8
39	R202Q /-		M680I /-		+			10
40	E148Q /-		M680I /-		+			5
41	R202Q /E148Q			Missing endoscopy	7			
42	L110P /E148Q						+	7
43	E148Q/E148Q		M694V /-	Missing endoscopy	6			
44	E148Q/E148Q		M694V /-	+	+	+	+	11
45	E148Q/E148Q		M694V /-	+	+	+	+	12
46	R202Q/R202Q		M694V /-	+	+	+	+	12
47	Mutation negative, FMF				+		+	8
48	Mutation negative, FMF			+	+			6

*O: Oesophagitis, G: Gastritis, B: Bulbitis, D: Duodenitis

**DSS: Disease severity score

changes to colchicine. In six patients with high DSS according to Pras,⁷ from severe to moderate inflammation continuing from oesophagus to duodenum was observed. On the other hand, the patients with homozygote mutations had showed higher levels of DSS. However, due to lack of a control group and the low number of the patients, this difference was not statistically significant and could not be interpreted. In the literature, there is an adult study which has evaluated GI symptoms in FMF by capsule endoscopy. Similar to our study, small bowel mucosal defects as erosions and edema had been determined.¹⁵

In the present study, *H. pylori* infection was histologically proven in all patients who had positive urea breath test. Clinical and histological findings in a patient with positive serology have not been verified in favor of celiac disease. A positive response to treatment was received in 67% of patients for GI inflammation. Relatively small number of patients and the lack of recorded the colchicine-side effects are major limitations of our study.

As a result, in patients receiving an effective dose of colchicine with normal laboratory markers of inflammation and who have abdominal pain with different clinical characteristics than typical FMF attacks, gastroenterologic evaluation should be performed. Endoscopic interventions have played an informative role in our patient group. The probable positive correlation of histologically

severe GI inflammation with higher DSS should be verified in more extensive series. ■

Acknowledgments

We thank Guzide Aksu for support and encouragement

REFERENCES

1. Brydges S, Althreya B, Kastner DL. Periodic fever syndromes in children. In: Cassidy JT, Petty RE, Laxer RM, et al eds. Textbook of pediatric rheumatology. 5th ed. Philadelphia: Elsevier-Saunders; 2005. Págs.657-67.
2. Livneh A, Langevitz P, Zemer D, et al. Criteria for the diagnosis of familial Mediterranean fever. *Arthritis Rheum* 1997; 40(10):1879-85.
3. Ben-Chetrit E. Familial Mediterranean fever (FMF) and renal AA amyloidosis-phenotype-genotype correlation, treatment and prognosis. *J Nephrol* 2003; 16(3):431-4.
4. Mor A, Gal R, Livneh A. Abdominal and digestive system associations of familial Mediterranean fever. *Am J Gastroenterol* 2003; 98(12):2594-604.
5. Mor A, Shinar Y, Zaks N, et al. Evaluation of disease severity in familial Mediterranean fever. *Semin Arthritis Rheum* 2005; 35(1):57-64.
6. Sari S, Egritas O, Dalgic B. The familial Mediterranean fever (MEFV) gene may be a modifier factor of inflammatory bowel disease in infancy. *Eur J Pediatr* 2008; 167(4):391-3.
7. Pras E, Livneh A, Balow JE Jr, et al. Clinical differences between North African and Iraqi Jews with familial Mediterranean fever. *Am J Med Genet* 1998; 75(2):216-9.
8. Baber KF, Anderson J, Puzanovova M, et al. Rome II versus Rome III classification of functional gastrointestinal disorders in pediatric chronic abdominal pain. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2008; 47(3):299-302.
9. Abuhammour A, Dajani A, Nounou M, et al. Standard triple therapy versus sequential therapy for eradication of

FIGURE 2. Endoscopic findings of oesophagitis (Patient No: 35)



Erosions involving the region from the distal oesophagus to the z-line with a streaky pattern.

FIGURE 3. Macroscopic alterations ranging from erythema to mucosal erosions in duodenum



- Helicobacter pylori in treatment naïve and retreat patients. *Arab J Gastroenterol* 2016; 17(3):131-6.
10. Ozturk C, Halicioglu O, Coker I, et al. Association of clinical and genetical features in FMF with focus on MEFV strip assay sensitivity in 452 children from western Anatolia, Turkey. *Clin Rheumatol* 2012; 31(3):493-501.
 11. Kiss MH, Magalhães CS. Autoinflammatory diseases: mimics of autoimmunity or part of its spectrum? Case presentation. *J Clin Immunol* 2008; 28 (Suppl 1):S84-9.
 12. Gurkan OE, Dalgic B. Gastrointestinal mucosal involvement without amyloidosis in children with familial Mediterranean fever. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2013; 57(3):319-23.
 13. Kallinich T, Haffner D, Niehues T, et al. Colchicine use in children and adolescents with familial Mediterranean fever: literature review and consensus statement. *Pediatrics* 2007; 119(2):e474-83.
 14. Al-Daraji WI, Al-Mahmoud RM, Ilyas M. Gastric changes following colchicine therapy in patients with FMF. *Dig Dis Sci* 2008; 53(8):2079-82.
 15. Demir A, Akyüz F, Göktürk S, et al. Small bowel mucosal damage in familial Mediterranean fever: results of capsule endoscopy screening. *Scand J Gastroenterol* 2014; 49(12):1414-8.

Importancia de la anamnesis exhaustiva ante una ginecomastia unilateral inexplicada en un niño

Importance of the exhaustive anamnesis to an unexplained unilateral gynecomastia in a child

Lic. Cristina Pérez-García^a, Dra. Ana B. Ariza Jiménez^a, Lic. Laura Camacho Lozano^a y Lic. Carmen de la Cámara Morañó^a

RESUMEN

La ginecomastia es el crecimiento de la mama por un desequilibrio hormonal entre estrógenos y andrógenos. Un crecimiento importante y unilateral requiere descartar patologías subyacentes. Una causa poco frecuente es la traumática, que provoca aumento de tamaño por estimulación repetida.

Se presenta el caso de un niño de 6 años con ginecomastia unilateral. Se destaca como único hallazgo en las pruebas complementarias hiperprolactinemia. Rehistoriando, se detecta una continua autoestimulación mamaria manual y oral a través de mordiscos de meses de evolución. Tras el cese del estímulo, se observa la involución de la mama y la normalización de los niveles de prolactina séricos.

Palabras clave: ginecomastia, prepuberal.

ABSTRACT

Gynecomastia consists of breast enlargement due to a hormonal imbalance between estrogens and androgens. Unilateral and important breast growth requires ruling underlying pathologic disorders out. Mechanical cause is uncommon, causing enlargement by repeated stimulation.

We report a 6-year-old boy with unilateral gynecomastia. Hyperprolactinemia is the only abnormal finding at laboratory tests. After repeated inquiries, a continuous breast self-stimulation is detected. Its relation with gynecomastia is verified because prolactin normalizes and breast regressed in further revisions, after stopping stimulus.

Key words: gynecomastia, prepubertal.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.e655>

Cómo citar: Pérez-García C, Ariza Jiménez AB, Camacho Lozano L, de la Cámara Morañó C. Importancia de la anamnesis exhaustiva ante una ginecomastia unilateral inexplicada en un niño. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):e655-e658.

a. Unidad de Endocrinología Pediátrica, Hospital Universitario Reina Sofía (Córdoba), España.

Correspondencia:

Lic. Cristina Pérez García: cris_pg91@hotmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 25-10-2017

Aceptado: 28-5-2018

INTRODUCCIÓN

La ginecomastia consiste en el crecimiento de la glándula mamaria en el varón y es un proceso relativamente frecuente.¹ Su presentación habitual es en el período neonatal y puberal.¹ Puede presentarse de forma bilateral o unilateral y asociarse o no a dolor, tensión local, rubor o secreción.² Es importante diferenciarla de la lipomastia, muy frecuente en la actualidad, debido a la gran prevalencia de obesidad infantil.³ La mayoría de estos casos son entidades benignas y autolimitadas, si bien un crecimiento importante y unilateral requiere el estudio endocrinológico e incluso oncológico para descartar causas patológicas subyacentes. Por el contrario, la ginecomastia de aparición prepuberal, especialmente, la unilateral, es rara, con pocos casos descritos en la literatura.

Las causas y mecanismos que influyen en la etiopatogenia de la ginecomastia en la edad pediátrica son las siguientes:⁴ causa idiopática (25%), puberal (25%), exposición sistémica o farmacológica a estrógenos (20%) (Tabla 1),⁵ cirrosis/malnutrición (8%), hipogonadismo primario (8%), tumoral (3%), hipogonadismo secundario (2%), alteraciones tiroideas (1,5%), insuficiencia renal (1%) o enfermedades locales, como mastitis.^{5,6} Se presenta el caso de un niño con una ginecomastia de causa traumática, infrecuente en la clínica.⁷

CASO CLÍNICO

Niño de 6 años que acudió a la consulta de Endocrinología Pediátrica por el aumento de tamaño de la mama izquierda, de 3 meses de evolución. Negaron traumatismo previo y uso de sustancias o fármacos inductores, en forma oral o tópica, en la familia o en el niño. En la exploración, presentó buen estado general, con peso de 25,3 kg (p59, 0,23 desvíos estándar -DE-) y talla de 122,5 cm (p59, 0,2 DE), con índice de masa corporal (IMC) de 16,86% (p57, 0,2 DE), con genitales masculinos normales, estadio G1P1 de

Tanner, botón mamario izquierdo de unos 3 cm de diámetro, sin hallazgos patológicos en la piel circundante ni galactorrea, sangrado, retracción, hiperemia, dolor ni adenopatías palpables en ningún nivel. La exploración de la mama derecha fue normal, sin hallazgos en el resto de la exploración. Indagando en la anamnesis, la madre refirió la autoestimulación manual y mordiscos continuos a modo de estereotipia del área afectada desde hacía tiempo. Se catalogó como ginecomastia de posible causa mecánica; se solicitó el estudio analítico y se citó para la revisión y la recogida de resultados en un mes. En esta consulta, aportó la radiografía de silla turca solicitada por otro especialista, sin hallazgos patológicos, y refirió que había cesado la estimulación de la mama, por lo que había disminuido su tamaño. En la analítica solicitada (Tabla 2), se destacó la elevación de niveles de 17-OH progesterona (valores

que se normalizaron en sucesivos controles analíticos) y prolactina de 25,52 $\mu\text{g/L}$ obtenida mediante el ensayo por quimioluminiscencia, con hemograma, gonadotropinas, hormonas sexuales, andrógenos, fracción beta de la gonadotropina coriónica humana ($\beta\text{-hCG}$), función hepática, renal y tiroidea normales. Se volvió a citar en 3 meses para control y se comprobó la desaparición de la ginecomastia y la normalización de los niveles de prolactina tras el cese del estímulo repetido, lo que confirmó la sospecha diagnóstica.

DISCUSIÓN

Se presenta el caso de un varón de 6 años, prepúber, con ginecomastia unilateral de causa mecánica, lo que supone una edad de presentación y etiología muy infrecuentes para este proceso.

La ginecomastia, aunque es, generalmente, un

TABLA 1. Principales fármacos y sustancias inductoras de ginecomastia

Hormonales	Estrógenos, esteroides anabólicos, testosterona, HCG, antiandrógenos, GH
Psicofármacos	Fenotiazinas, antidepresivos tricíclicos, haloperidol, diazepam
Fármacos cardiovasculares	Digoxina, calcioantagonistas, IECA, metildopa, reserpina, minoxidil
Quimioterápicos	Agentes alquilantes
Antiulcerosos	Omeprazol, ranitidina
Antibióticos	Isoniacida, fluconazol, metronidazol, ketoconazol, antirretrovirales
Drogas de abuso	Marihuana, alcohol, heroína, anfetaminas
Miscelánea	Difenilhidantoína, metoclopramida, ciclosporina

IECA: inhibidores de la enzima convertidora de angiotensina; HCG: gonadotropina coriónica humana; GH: hormona de crecimiento.

TABLA 2. Resultados analíticos del paciente presentado

Parámetro	Valor	Rango
Prolactina	25,52 $\mu\text{g/L}$	(2,10-17,7)
LH	< 0,0 U/L	(0,0-6,0)
FSH	1,9 mU/ml	(1,4-18,1)
Estradiol	1,7 pg/ml	(0-39)
Progesterona	0,45 $\mu\text{g/L}$	(0,26-1,22)
Testosterona	0,08 ng/ml	(2,41-8,27)
DHEA-S	32,97 $\mu\text{g/ml}$	(34,50-568,90)
17-OH progesterona	1,57 ng/ml	(0,20-0,90)
Androstendiona	0,36 ng/ml	(0,15-2,95)
$\beta\text{-hCG}$	< 2 mUI/ml	(2,00-10,00)
Tirotropina	4,29 mU/L	(0,35-5,50)
Aspartato aminotransferasa	29 U/L	(13-40)
Alanina aminotransferasa	20 U/L	(9-40)
Urea	50 mg/dl	(15-50)
Creatinina	0,49 mg/dl	(0,50-1,30)

Se destacan como hallazgos patológicos la elevación de los niveles de prolactina y 17-OH progesterona. LH: hormona luteinizante; FSH: hormona foliculoestimulante; DHEA-S: dehidroepiandrosterona sulfato; 17-OH progesterona: 17-hidroxiprogesterona; $\beta\text{-hCG}$: fracción beta gonadotropina coriónica humana.

proceso benigno y autolimitado,¹ es un motivo de preocupación en la consulta, en muchas ocasiones, acompañada de un componente emocional, ansiedad o incluso temor.²

Con un pico de incidencia entre los 12 y los 13 años, muy distante de la edad de nuestro paciente de 6, suele presentarse, por lo general, de forma bilateral y asintomática, concomitante con un estadio de Tanner II-III, 6-12 meses después del inicio clínico puberal, característica también ausente en nuestro caso, que presenta un estadio de Tanner I.² La prevalencia de la ginecomastia en la edad puberal varía entre el 4% y el 69%,⁸ en función de variables dependientes del observador. Sin embargo, se cree que estos datos están infravalorados. Por su parte, la ginecomastia neonatal se presenta hasta en un 70%.⁸ Fuera de estos períodos, su presencia es muy poco frecuente (5%),⁸ máxime cuando, como en nuestro paciente, aparece de forma unilateral.⁶ Las causas más frecuentes de ginecomastia en la edad prepupal son la administración de compuestos estrogénicos, tumores testiculares secretores de hormonas esteroideas o hCG, síndrome de exceso de aromatasa e hiperandrogenismo familiar, síndromes como Klinefelter, Carney o Peutz-Jeghers, pubertad precoz o tumores mamarios benignos, entre otros.⁴

Para llegar al diagnóstico, es primordial una exhaustiva anamnesis, clave en el caso presentado, e indagar en la forma de inicio, la evolución, los síntomas asociados, locales o sistémicos, la exposición a fármacos o sustancias (tópicos o sistémicos, por parte del paciente o por convivientes), los antecedentes familiares de ginecomastia y personales de patología de base que afecte la síntesis y el metabolismo hormonal masculino.^{7,9,10}

La adecuada exploración física conlleva palpar la glándula con el paciente en decúbito para diferenciar la ginecomastia real de la pseudoginecomastia. En caso de tumor irregular, de consistencia dura, adherido a los planos profundos, con afectación de la piel y/o los ganglios locorregionales, se debe descartar la causa oncológica. Además, se debe reseñar la antropometría y el estadio puberal.

En cuanto a las pruebas complementarias, no se deben realizar de rutina, sino solo en aquellos casos de gran tamaño, crecimiento rápido, evolución tórpida, períodos no fisiológicos, con signos de organicidad o patología sistémica, o si persisten dudas tras una detallada historia clínica.⁹ De ser preciso,

se recomienda pedir una analítica sanguínea¹¹ que recoja los datos solicitados en nuestro caso, así como el volumen de sedimentación globular (VSG) o proteína C reactiva (PCR) para descartar un proceso inflamatorio, cariotipo si existe hipogonadismo, o cortisol libre urinario y hormona adrenocorticotropa (*adrenocorticotropic hormone*; ACTH, por sus siglas en inglés) si existe obesidad. Como se ha comentado, en nuestro caso, solo se destaca una hiperprolactinemia, secundaria a la estimulación continua de la glándula, que justifica el aumento de tamaño mamario, que puede, en ocasiones, llegar a la producción láctea. En casos graves y, sobre todo, en la edad adulta, esta está implicada en la patogénesis por inducir hipogonadismo secundario y por la presencia de receptores de esta en el tejido mamario masculino,¹² que se cree que son corregulados y coexpresados con hormona de crecimiento (*growth hormone*; GH, por sus siglas en inglés) y progesterona. A su vez, la activación de receptores de progesterona reduce la expresión de los de andrógenos, y se dificulta la inhibición del crecimiento mamario por parte de estos últimos.¹²

Debe realizarse una ecografía mamaria o testicular si se sospecha neoplasia en el área y tomografía computarizada (TC) si existe la sospecha de lesiones suprarrenales u otra localización extragonadal. Las pruebas de imagen de silla turca¹² se plantean en caso de alteración de las hormonas hipofisarias para descartar procesos orgánicos en dicho nivel.

En nuestro paciente, una vez descartadas otras causas de hiperprolactinemia, podría plantearse la resonancia magnética (RM) o la TC (mucho menos efectiva). Sin embargo, este aportaba una radiografía lateral de cavum, prueba que solo podría mostrar hallazgos en casos de macroadenomas de gran tamaño causantes de expansión y erosión selar, por lo que no sería útil para un diagnóstico inicial, ya que, además de su radiación, presenta una muy alta tasa de falsos negativos. Además, en nuestro caso, en el que se sospechaba que la causa de la hiperprolactinemia y la ginecomastia secundaria era periférica, no habría sido necesaria, inicialmente, una prueba de imagen a nivel hipofisario.

En cuanto al tratamiento de la ginecomastia, consiste en corregir la causa subyacente, retirando el agente inductor o corrigiendo las alteraciones endocrinológicas responsables. Se debe tener en cuenta que la administración de testosterona en caso de hipogonadismo primario o secundario

podría ser incluso contraproducente y aumentar por aromatización de los andrógenos.⁶

Si bien el tratamiento debe individualizarse,¹¹ dado que la mayoría se resuelve espontáneamente, se reserva el manejo médico-quirúrgico para pacientes con causa orgánica o idiopática de peor pronóstico, como aquellos con antecedentes familiares positivos, macroginecomastia (> 4 cm), síntomas invalidantes y larga duración. Pasados los 12 meses de evolución, la mama se vuelve fibrótica, con menor respuesta al tratamiento médico.⁸ Este, de uso limitado y muy discutido, se basa en antiandrógenos, bloqueantes estrogénicos o inhibidores de la aromataza.^{8,9} Está contraindicado el tratamiento con testosterona, pues no ha demostrado mayor tasa de respuesta que en pacientes no tratados y conlleva riesgo de ser aromatizado a estradiol, lo que empeora el cuadro.¹

Sin embargo, en casos crónicos o graves, con mala respuesta al tratamiento farmacológico, se recurre a la cirugía, con aceptables resultados estéticos y funcionales.

Por su parte, el manejo de la ginecomastia mecánica, como en nuestro caso, es, generalmente, conservador,¹¹ salvo que presente infección subyacente, necrosis tisular o gran hematoma, que requeriría el desbridamiento quirúrgico.

CONCLUSIONES

- Es fundamental una buena historia clínica para detectar la etiología del cuadro.
- En caso de ginecomastia unilateral, con signos de gravedad o en edad no lactante ni púber, es necesario hacer el despistaje tumoral, a no ser que se detecte una causa clara.

- Una causa poco frecuente de ginecomastia es la hiperprolactinemia por estimulación continua de la glándula, la cual induce su crecimiento e incluso la secreción láctea.
- El tratamiento de la ginecomastia mecánica implica la eliminación del factor desencadenante. ■

REFERENCIAS

1. Braunstein GD. Gynecomastia. *N Engl J Med.* 1993; 328(7):490-5.
2. Comité Nacional de Endocrinología. Enfoque práctico del manejo de la ginecomastia. Seis preguntas que debe responderse el pediatra ante un paciente con ginecomastia. *Arch Argent Pediatr.* 2011; 109(4):365-8.
3. Sansone A, Romanelli F, Sansone M, et al. Gynecomastia and hormones. *Endocrine.* 2017; 55(1):37-44.
4. Demirbilek H, Bacak G, Baran RT, et al. Prepubertal Unilateral Gynecomastia: Report of 2 Cases. *J Clin Res Pediatr Endocrinol.* 2014; 6(4):250-3.
5. Kang M, Lee C, Hwang IT, et al. Prepubertal unilateral gynecomastia in the absence of endocrine abnormalities. *Ann Pediatr Endocrinol Metab.* 2014; 19(3):159-63.
6. Ferraro GA, De Francesco F, Romano T, et al. Clinical and surgical management of unilateral prepubertal gynecomastia. *Int J Surg Case Rep.* 2014; 5(12):1158-61.
7. Pellegrin MC, Naviglio S, Cattaruzzi E, et al. A Teenager with Sudden Unilateral Breast Enlargement. *J Pediatr.* 2017; 182:394.
8. Barasoain Millán A. Ginecomastia. *An Pediatr Contin.* 2012; 10(4):183-91.
9. Ma NS, Geffner ME. Gynecomastia in prepubertal and pubertal men. *Curr Opin Pediatr.* 2008; 20(4):465-70.
10. Erol S, Orhan E, Sevin A, et al. Trauma: a new pseudogynecomastia cause. *Aesthetic Plast Surg.* 2010; 34(3):404-5.
11. Warren R, Degnim AC. Uncommon benign breast abnormalities in adolescents. *Semin Plast Surg.* 2013; 27(1):26-8.
12. Fideleff H, Suárez M, Llano M, et al. Hiperprolactinemia en niños y adolescentes, conceptos e interrogantes actuales. *Rev Argent Endocrinol Metab.* 2007; 44(2):94-106.

Coinfección por astrovirus y *Neisseria meningitidis* serogrupo B en una niña

Coinfection by astrovirus and Neisseria B meningitidis in a girl

Dr. Alberto García-Salido^a, Dra. Aranzazu García-Brunet^b, Dra. Isabel Pérez-Sebastiána^a,
Dra. Elena Blanco-Iglesias^a, Dr. José L. Unzueta-Roch^a y Dra. Ana Serrano-González^a

RESUMEN

La infección meningocócica tiene una elevada morbimortalidad. Las coinfecciones virales han sido descritas, fundamentalmente, por virus herpes y respiratorios. Se presenta una paciente que ingresó al Servicio de Emergencia con convulsión tónico-clónica, hipotensión, taquicardia y escala de Glasgow posterior baja. En la Unidad de Cuidados Intensivos mantuvo alteración del nivel de conciencia y requirió estabilización hemodinámica. Se inició antibioterapia de amplio espectro. La paciente mostró deposiciones líquidas malolientes, sin sangre, que fueron cultivadas y estudiadas mediante reacción en cadena de la polimerasa. El líquido cefalorraquídeo fue normal. Las deposiciones resultaron positivas para astrovirus. Se confirmó, mediante reacción en cadena de la polimerasa en sangre, la presencia de *Neisseria meningitidis* serogrupo B. Se presenta el primer caso pediátrico de coinfección por astrovirus y *Neisseria meningitidis*. Este virus debería incluirse entre las causas de coinfección para descartar en caso de clínica abdominal predominante, vómitos o deposiciones líquidas.

Palabras clave: *Neisseria meningitidis* serogrupo B, astrovirus, gastroenteritis, convulsiones, sepsis.

ABSTRACT

Meningococcal infection associates high morbidity and mortality. Viral coinfection has been described mainly with herpes and respiratory virus. We describe a child who suffered a tonic-clonic seizure with hypotension, tachycardia and low Glasgow Coma Scale. She maintained an altered mental status and required hemodynamic stabilization in the Pediatric Intensive Care Unit. Wide spectrum antibiotherapy was initiated. She suffered large and foul-smelling liquid not bloody stools which were cultured and studied by polymerase chain reaction. The cerebrospinal fluid was normal. Later the polymerase chain reaction stools were positive to astrovirus, and the blood polymerase chain reaction was positive to *Neisseria meningitidis* group B. As far as we know, this is the first case

of astrovirus and *Neisseria meningitidis* coinfection described in children. This virus should be considered as new cause of viral coinfection to discard if unexplained abdominal pain or vomits and liquid stools are observed.

Key words: *Neisseria meningitidis* serogroup B, astrovirus, gastroenteritis, seizure, sepsis.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.e659>

Cómo citar: García-Salido A, García-Brunet A, Pérez-Sebastiána I, et al. Coinfección por astrovirus y *Neisseria meningitidis* serogrupo B en una niña. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):e659-e662.

INTRODUCCIÓN

La infección por meningococo es un cuadro de elevada morbimortalidad, por lo que el diagnóstico y el tratamiento empírico temprano son fundamentales en su abordaje.^{1,2} Existe evidencia en la literatura sobre coinfecciones con virus, y se destacan el herpesvirus simple y los virus respiratorios (principalmente, el virus de la influenza).^{3,4} Se describe, por vez primera en población pediátrica, un caso de coinfección demostrada por astrovirus y *Neisseria meningitidis* serogrupo B. Se realiza, posteriormente, una revisión de la literatura sobre coinfecciones de naturaleza semejante y se resume el diagnóstico diferencial y el tratamiento recomendado.

CASO CLÍNICO

Niña de 2 años, sana y correctamente vacunada (incluso con vacuna antineumocócica), que acudió al Servicio de Emergencia por fiebre de 20 horas (máximo de 39 °C). Se refirieron vómitos y deposiciones líquidas sin sangre ni mucosidad. Durante la evaluación inicial, coincidiendo con un pico febril, sufrió un episodio de rigidez generalizada con movimientos periorales, desconexión del medio y desviación de la mirada a la izquierda. Tras la apertura de vía aérea y la oxigenación, se canalizó un acceso venoso y se administró tratamiento antimicrobiano según el protocolo del Servicio (0,4 mg/kg de midazolam yugal; luego, 0,3 mg/kg de

a. Cuidados Intensivos Pediátricos, Hospital Infantil Universitario Niño Jesús, Madrid.

b. Hospital Universitario Insular Materno Infantil de Canarias, Las Palmas de Gran Canaria, España.

Correspondencia:
Dr. Alberto García Salido: citopensis@yahoo.es

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 11-12-2017

Aceptado: 11-5-2018

diazepam intravenoso y, finalmente, 20 mg/kg de fenitoína) y se logró el control de la crisis tras 20 minutos. Asoció, además, hipotensión arterial y taquicardia, que requirió la expansión con suero salino fisiológico (SSF, 30 ml/kg). Se extrajo el hemocultivo e inició el tratamiento con cefotaxima (300 mg/kg/día) y vancomicina (60 mg/kg/día) y se solicitó el traslado a la Unidad de Cuidados Intensivos Pediátricos (UCIP). En las pruebas complementarias solicitadas, se destacó: 1) Tiempo de protrombina de 41% con un tiempo de cefalina de 35,2 s para un control de 28 s; 2) Proteína C reactiva de 14,1 mg/dl con procalcitonina de 10,7 ng/ml; y 3) Acidosis metabólica con pH de 7,19 y ácido láctico de 4,7 mmol/L.

A su ingreso en la UCIP, se añadió la disminución del nivel de conciencia (Glasgow 12-11) y la tendencia al sueño sin signos meníngeos. Se realizó una tomografía computarizada craneal (normal) y se retrasó la punción lumbar hasta la normalización de la coagulación (recibió una dosis de vitamina K). A su vez, se logró la estabilización hemodinámica tras una nueva expansión de volemia (20 ml/kg de SSF) y 10 ml/kg de bicarbonato 1/6 M.

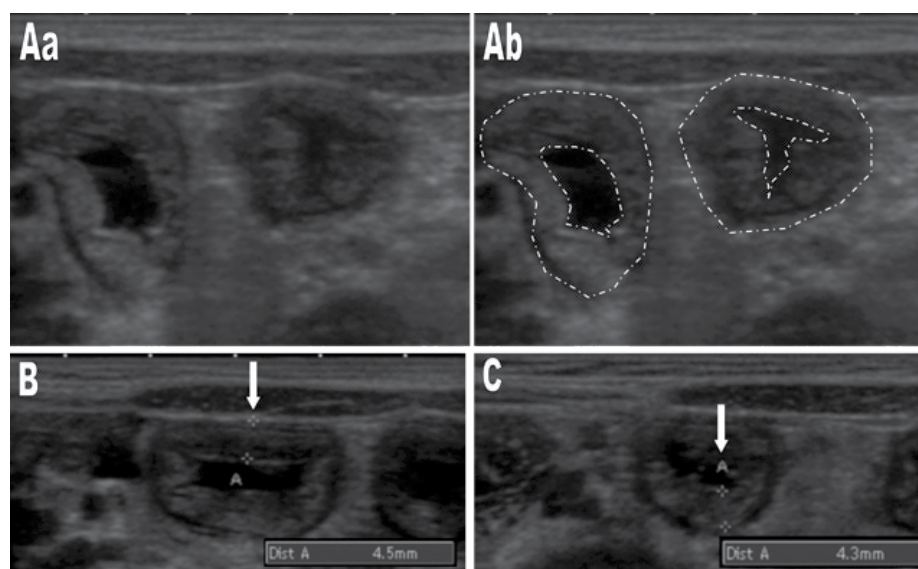
En las horas posteriores, la paciente mejoró de forma global y se normalizó el nivel de conciencia. Se destacaron las molestias abdominales de tipo cólico y cinco deposiciones líquidas abundantes

y malolientes. Se realizó una ecografía abdominal y se observaron signos de colitis, de predominio en el colon izquierdo y en el sigma (*Figura 1*). Se realizó un coprocultivo, determinación de la toxina en las heces de *Clostridium* (negativa) y test de diagnóstico rápido para rotavirus, adenovirus (negativos), junto con la recogida de la muestra para el estudio por reacción en cadena de la polimerasa (*polymerase chain reaction*; PCR, por sus siglas en inglés) de virus enteropatógenos.

Debido a la clínica neurológica inicial, y ya normalizada la coagulación, 48 horas después de su ingreso, se realizó la punción lumbar. El líquido cefalorraquídeo presentó 0 leucocitos con glucorraquia de 66 mg/dl. En la tinción de Gram, no se observaron microorganismos y se envió el líquido y la sangre periférica para cultivo y diagnóstico mediante PCR para microorganismos neurotípicos.

Antes del alta de la UCIP, se informó la PCR positiva en heces para astrovirus. Una vez en la planta, se recibió, a su vez, PCR positiva para *Neisseria meningitidis* serogrupo B en sangre. Se mantuvo el tratamiento antibiótico con cefotaxima hasta completar 10 días, se retiró la vancomicina y recibió el alta hospitalaria sin incidencias. La paciente fue seguida en consultas de pediatría con periodicidad mensual en dos ocasiones y mostró recuperación y ausencia de secuelas.

FIGURA 1. Ecografía abdominal



Aa/Ab: Imagen ecográfica con engrosamiento concéntrico y difuso de la pared del colon. Este aspecto se destaca en la figura Ab mediante líneas de rayas y puntos. B/C: Determinación del grosor de la pared colónica; su espesor máximo es 4,5 mm. Hallazgos compatibles con afectación inflamatoria en el contexto infeccioso.

DISCUSIÓN

Neisseria meningitidis es causa global de sepsis y meningitis; es máxima su incidencia en menores de 4 años y adolescentes. Es un diplococo Gram-negativo con 13 serogrupos. Los serogrupos A, B, C, Y y W135 son los más frecuentes productores de enfermedad.⁵ Además, el astrovirus es un virus ácido ribonucleico (ARN) sin envoltura causante de gastroenteritis de duración breve, en ocasiones, de adquisición nosocomial, y con mayor prevalencia en menores de 4 años.⁶ Actualmente, el astrovirus es el segundo agente vírico causal de gastroenteritis infantil tras el rotavirus (4,3% versus 9,6%).^{6,7}

Las formas clínicas más frecuentes de enfermedad meningocócica invasiva (EMI) son la meningitis y la sepsis. La presentación de petequias y alteraciones neurológicas son habituales signos de alarma (se han descrito artritis, neumonías o pericarditis por

meningococo).^{1,2} En niños, sobre todo en lactantes y preescolares, la sintomatología puede ser inespecífica y manifestarse como decaimiento, irritabilidad, llanto continuo, rechazo del alimento, etc. Nuestro caso se consideró, inicialmente, una sepsis de probable origen abdominal.^{1,2} El abordaje empírico tuvo por objeto, además, tratar una posible afectación del sistema nervioso central, con intención de reducir la terapia antimicrobiana en función de los resultados microbiológicos.

Las infrecuentes manifestaciones gastrointestinales en la meningococemia podrían ponerse en relación con la diseminación hematógena al territorio esplácnico del microorganismo.^{1,8,9} La hipoperfusión subyacente facilitaría este paso. La paciente presentó clínica gastrointestinal tras la estabilización que, en perspectiva, podría estar relacionada con la coinfección por astrovirus. También se describe,

TABLA 1. Revisión bibliográfica de los casos pediátricos previamente publicados con clínica predominante de dolor abdominal e infección meningocócica. Se describe el diagnóstico microbiológico y la disponibilidad de reacción en cadena de la polimerasa en todos ellos

Autor/año de publicación	Edad	Signos y síntomas	Tiempo hasta la consulta	Shock séptico	Cultivos	Disponibilidad de PCR para <i>Neisseria meningitidis</i>	Serogrupo	Evolución
Bannantyne RM et al. /1977 ¹⁰	4 años	Dolor abdominal	24 horas	Sí	P +	No	C	NE
Kunkel MJ et al. /1984 ¹¹	4 años	Dolor abdominal Fiebre Vómitos	NR	No	P +	No	C	Recuperación
Winrow AP /1999 ¹²	3 años	Dolor abdominal Cefalea Fiebre	2 horas	Sí	HC +	No	B	NE
	12 años	Dolor abdominal Fiebre Tos	10 horas	Sí	HC +	No	NE	NE
Héroult T et al. /2006 ¹³	14 años	Dolor abdominal Cefalea	NR	No	HC - P - PL -	Sí y positiva	C	Recuperación
De Souza AL et al. /2006 ¹⁴	6 años	Fiebre- Cefalea Mialgias Dolor abdominal	24 horas	Sí	P - PL +	Sí y positiva	C	Artritis
Tomezzoli S et al. /2008 ⁹	4 años	Dolor abdominal Fiebre Vómitos y diarrea	24 horas	Sí	HC +	No	B	Artritis
Hsia et al. /2009 ⁸	13 años	Fiebre Dolor abdominal Agitación	NR	Sí	HC +	No	C	Exitus
García-Brunet et al. /2015	2 años	Dolor abdominal Fiebre Vómitos y diarrea	20 horas	Sí	HC -PL -Orina -	Sí	B	Recuperación

P: líquido peritoneal; HC: hemocultivo; PL: punción lumbar; PCR: reacción en cadena de la polimerasa; NR: no referido; NE: no establecido.

de forma prevalente en ancianos, una probable entrada del meningococo por vía ascendente desde el tracto urogenital.⁵ Es por esto por lo que el uso de técnicas con alto rendimiento diagnóstico, como la PCR, facilita información útil con intención de comprender la fisiopatogenia de casos como el descrito (*Tabla 1*).

El tratamiento empírico de la sepsis en pediatría se basa en el uso de antibioterapia de amplio espectro (cefalosporinas de tercera generación), que asocia otros fármacos en función del paciente y la clínica acompañante.^{4,5} En caso de meningococemia no complicada, la duración del tratamiento será de 5-7 días. Se añadirán cuidados de soporte según los requerimientos del paciente, poniendo énfasis en la obtención de muestras biológicas que permitan el diagnóstico etiológico. En cuanto a la prevención de la enfermedad, en España, la vacuna contra el meningococo C forma parte del calendario vacunal desde hace más de veinte años.⁵ Al mismo tiempo, la nueva vacuna contra el serotipo B se encuentra restringida a uso hospitalario.

CONCLUSIÓN

Se describe, por primera vez en niños, la coinfección por astrovirus y *Neisseria meningitidis* serogrupo B. El tratamiento empírico inicial se vinculó a la situación clínica y fue, en este caso, una sepsis con afectación digestiva posterior. Ante signos y síntomas atípicos, resulta de gran interés el uso de nuevas técnicas diagnósticas que permitan el diagnóstico etiológico, lo que facilita tanto un tratamiento optimizado como una mejor comprensión fisiopatológica. ■

REFERENCIAS

1. Rafiq A. An unusual presentation of meningococcal meningitis--timely recognition can save lives!. *Am J Emerg Med* 2013; 31(6):1001.e3-4.
2. Hazelzet JA. Diagnosing meningococemia as a cause of sepsis. *Pediatr Crit Care Med* 2005; 6(3 Suppl):S50-4.
3. Castro-Rodríguez JA, Jakubson L, Padilla O, et al. Many respiratory viruses have temporal association with meningococcal disease. *Allergol Immunopathol (Madr)* 2015; 43(5):487-92.
4. Ali J, Walsh H, Sanapala S, et al. Concurrent meningococcal and herpes simplex infection in a non-immunocompromised child. *BMJ Case Rep* 2014; 2014:1-4.
5. Sabatini C, Bosis S, Semino M, et al. Clinical presentation of meningococcal disease in childhood. *J Prev Med Hyg* 2012; 53(2):116-9.
6. Bosch A, Pintó RM, Guix S. Human astroviruses. *Clin Microbiol Rev* 2014; 27(4):1048-74.
7. Dennehy PH. Viral gastroenteritis in children. *Pediatr Infect Dis J* 2011; 30(1):63-4.
8. Hsia RY, Wang E, Thanassi WT. Fever, abdominal pain, and leukopenia in a 13-year-old: a case-based review of meningococemia. *J Emerg Med* 2009; 37(1):21-8.
9. Tomezzoli S, Juárez Mdel V, Rossi SI, et al. Abdomen agudo como manifestación inicial de meningococemia. *Arch Argent Pediatr* 2008; 106(3):260-3.
10. Bannatyne RM, Lakdawalla N, Ein S. Primary meningococcal peritonitis. *Can Med Assoc J* 1977; 117(5):436.
11. Kunkel MJ, Brown LG, Bauta H, et al. Meningococcal mesenteric adenitis and peritonitis in a child. *Pediatr Infect Dis* 1984; 3(4):327-8.
12. Winrow AP. Abdominal pain as an atypical presentation of meningococcaemia. *J Accid Emerg Med* 1999; 16(3):227-9.
13. Hérault T, Stoller J, Liard-Zmuda A, et al. Péritonite révélatrice d'une méningite à méningocoque de type C. *Arch Pediatr* 2006; 13(5):456-8.
14. De Souza AL, Salgado MM, Alkmin MD, et al. Purulent pericarditis caused by *Neisseria meningitidis* serogroup C and confirmed through polymerase chain reaction. *Scand J Infect Dis* 2006; 38(2):143-5.

Tratamiento satisfactorio con fluconazol de la candidemia relacionada con el catéter por *Candida haemulonii*: informe sobre dos pacientes neonatales

Successful fluconazole treatment of catheter-related candidemia caused by Candida haemulonii: report of 2 neonatal cases

Dra. Fang-Qin Xia^a, Dr. Chu-Yuan Ye^a, Dra. Wei-Wei Xie^a, Dra. Neha-Devi Poonit^a y Dr. Yong-Hai, Zhou^a

RESUMEN

La *Candida haemulonii* forma parte de la especie *Candida albicans*. La candidemia por *C. haemulonii* es sumamente infrecuente, pero mortal, en los recién nacidos. Se informa sobre los dos primeros recién nacidos con candidemia por *C. haemulonii* en China tratados con fluconazol y se revisan dos artículos informados con anterioridad. Nuestro informe incrementa la sensibilización sobre la candidemia por *C. haemulonii* en recién nacidos críticos y resalta la importancia de un diagnóstico y un tratamiento tempranos de esta infección mortal.

Palabras clave: recién nacido; *Candida haemulonii*; candidemia.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.e663>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.e663>

Cómo citar: Xia FQ, Ye CY, Xie WW, et al. Tratamiento satisfactorio con fluconazol de la candidemia relacionada con el catéter por *Candida haemulonii*: informe sobre dos pacientes neonatales. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):e663-e666.

ANTECEDENTES

La *Candida haemulonii*, de la especie *Candida albicans*, se aisló por primera vez en un ser humano en 1984.¹ La candidemia por *C. haemulonii* es sumamente rara, aunque mortal, en la unidad de cuidados intensivos neonatales (UCIN).² Hasta el momento, Khan y col. y Silva y col. mencionaron los casos de cinco recién nacidos con candidemia por *C. haemulonii* (Tabla 1);^{3,4} dos de ellos fallecieron. Aquí informamos sobre los primeros dos recién nacidos con candidemia por *C. haemulonii* en China tratados con fluconazol y revisamos los cinco casos de los pacientes con esta infección notificados anteriormente en la bibliografía.

PRESENTACIÓN DE LOS CASOS

Caso 1

Un varón de 12 días de vida fue derivado a nuestra UCIN desde un hospital municipal con antecedentes de distensión abdominal de dos días de evolución. Este bebé había nacido por parto vaginal a las 30⁺⁵ semanas de gestación debido a rotura prematura de membranas. Pesó 1520 g y tuvo un puntaje de Apgar de 5 en el minuto 1 y de 9 en el minuto 5. La madre era una mujer de 23 años, desempleada y con antecedentes de atención prenatal normal. Al bebé prematuro

a. Departamento de Pediatría, Segundo Hospital Afiliado y Hospital de Niños Yuying del Colegio Médico Wenzhou, Wenzhou, China.

Correspondencia: Dr. Yong-Hai Zhou: zhouyonghai311@126.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 11-12-2017

Aceptado: 26-3-2018

TABLA 1. Casos de candidemia neonatal por *C. haemulonii*

Núm.	Sexo/ edad	País/ región	Desenlace	Año de publicación [Referencia]
1	M/35 sem.	Kuwait	Fallecimiento	2007 ³
2	M/26 sem.	Kuwait	Sobrevida	2007 ³
3	F/25 sem.	Kuwait	Sobrevida	2007 ³
4	F/31 sem.	Kuwait	Fallecimiento	2007 ³
5	F/26 sem.	Brasil	Sobrevida	2015 ⁴
6 Caso 1	M/30 ⁺⁵ sem.	China	Sobrevida	Nuestro caso
7 Caso 2	F/39 ⁺⁵ sem.	China	Sobrevida	Nuestro caso

se le realizó una intubación endotraqueal y se lo conectó a un respirador al momento de nacer debido a síndrome de dificultad respiratoria. Después de siete días, se interrumpió el uso del respirador y se inició la administración de presión positiva continua en las vías respiratorias por vía nasal. Al paciente se lo alimentaba por sonda nasogástrica y estaba creciendo adecuadamente. A los 10 días de vida, se observaron distensión abdominal y residuos de alimentos. En la radiografía, se detectó neumoperitoneo, y la proteína C-reactiva (PCR) había aumentado a 146 mg/L. Por lo tanto, se ingresó al bebé a nuestra unidad. Poco tiempo después, el paciente padeció insuficiencia respiratoria y fue necesario conectarlo a un respirador. Luego, se confirmó la presencia de enterocolitis necrosante neonatal (ENN). Se lo operó de emergencia y se le extirparon 40 cm de intestino delgado necrótico. Posteriormente, se inició la administración de meropenem (60 mg/kg/día, cada 8 horas) por vía intravenosa y alimentación parenteral por catéter central de inserción periférica (PICC, por sus siglas en inglés). Al quinto día de hospitalización en nuestra unidad, en el cultivo de líquido ascítico se observaron *Pseudomonas aeruginosa* y *Aerobacter cloacae*, pero el hemocultivo fue negativo y la temperatura era normal. Se desconectó al paciente del respirador al sexto día de la hospitalización y la PCR disminuyó a valores normales tras 29 días de hospitalización en la UCIN.

A los 36 días de hospitalización en nuestra unidad, la temperatura del bebé subió a 38,4 °C. En los análisis de laboratorio, se observaron una concentración de hemoglobina de 95 g/L, un recuento de leucocitos de $8,4 \times 10^9$ /L (60,1% de neutrófilos) y un recuento de plaquetas de 76×10^9 /L. La PCR aumentó a 33 mg/L. Se retiró la PICC. Se obtuvieron muestras de sangre y del extremo del catéter para realizar cultivos.

Después de 72 horas, en ambos cultivos se produjeron unidades formadoras de colonias indicativas de proliferación de levaduras, que luego se identificaron como *C. haemulonii* mediante tarjetas Vitek 2 Compact Yeast (bioMérieux, Francia). Se confirmó la identidad de la *C. haemulonii* por técnicas de biología molecular.³ En el fungigrama, se observó que la cepa de *Candida* aislada era sensible a la anfotericina B, al ketoconazol, al fluconazol, al itraconazol, al clotrimazol y a la nistatina. Se administró fluconazol en dosis de 6 mg/kg/día por vía intravenosa. Después de 30 días de tratamiento con fluconazol, la infección estaba

controlada y el bebé se recuperó. A los 88 días de hospitalización, el paciente podía digerir 50 ml de leche cada 3 horas y recibió el alta. En el seguimiento posterior, el bebé estaba creciendo normalmente.

Caso 2

Se presentó en nuestra UCIN una recién nacida con dificultad respiratoria y líquido amniótico meconial de grado III. Esta bebé había nacido a las 39⁺⁵ semanas de gestación por cesárea debido a sufrimiento fetal. Pesó 2650 g y tenía un puntaje de Apgar de 6 en el minuto 1 y de 8 en el minuto 5. La madre era una comerciante, de 27 años y con antecedentes de atención prenatal normal. Se conectó a la bebé al respirador y se inició la alimentación parenteral por catéter venoso umbilical.

A los 11 días de hospitalización, la temperatura de la bebé subió a 38,4 °C. En los análisis de laboratorio, se observaron una concentración de hemoglobina de 169 g/L, un recuento de leucocitos de $15,7 \times 10^9$ /L (57,9% de neutrófilos) y un recuento de plaquetas de 39×10^9 /L. La PCR aumentó a 17 mg/L. Por lo tanto, se retiró el catéter venoso umbilical. En los cultivos realizados en las muestras de sangre y del extremo del catéter se observaron algunas unidades formadoras de colonias indicativas de proliferación de levaduras, que luego se identificaron como *C. haemulonii* mediante tarjetas Vitek 2 Compact Yeast (bioMérieux, Francia). Se confirmó la identidad de la *C. haemulonii* por técnicas de biología molecular.³ En el fungigrama, se observó que la cepa de *Candida* aislada era resistente al clotrimazol y a la nistatina, pero sensible a la anfotericina B, al ketoconazol, al fluconazol y al itraconazol. Se administró fluconazol en dosis de 6 mg/kg/día por vía intravenosa. Se desconectó a la paciente del respirador a los 16 días de hospitalización. Después de 26 días de tratamiento con fluconazol, la bebé se recuperó. A los 38 días de hospitalización, recibió el alta después de que se obtuvieron resultados negativos en dos hemocultivos consecutivos. Durante el seguimiento posterior, la bebé estaba creciendo normalmente.

DISCUSIÓN

En los últimos años, se ha observado que las especies de *Candida* representan patógenos intrahospitalarios emergentes importantes. Se ha informado que la *Candida haemulonii*, un tipo de *Candida*, causa fungemia,³⁻¹¹ osteítis,¹² peritonitis¹³

y otitis media crónica.⁸ Hasta el momento, se describió candidemia por *C. haemulonii* en cinco recién nacidos, de los cuales, dos (40,0%) fallecieron. En la *Tabla 1*, se resumen las características relevantes de los cinco pacientes con candidemia por *C. haemulonii* informados. Los casos de dos recién nacidos con candidemia por *C. haemulonii* que describimos aquí son los primeros en China.

La fiebre es el signo inicial más frecuente. Es difícil diagnosticar la infección por *C. haemulonii* en las primeras etapas debido a los signos y síntomas inespecíficos. Cabe señalar que se detectó trombocitopenia en nuestros dos pacientes, lo que podría ser una indicación de candidemia por *C. haemulonii*.

Según los informes previos, los factores de riesgo probables de la candidemia por *C. haemulonii* incluyen el uso extendido de antibióticos de amplio espectro,⁶ el uso de dispositivos terapéuticos (por ej., catéteres y respiradores),⁶⁻¹⁰ haber sido prematuro,^{3,4} ser paciente oncológico,^{4,7,9,11} las técnicas quirúrgicas novedosas⁵ y la insuficiencia renal crónica.⁹

En este informe, el caso 1 corresponde a un bebé prematuro sometido a una cirugía por ENN que recibió antibióticos de amplio espectro. El paciente estuvo conectado al respirador y se le colocó un PICC. El período de permanencia en la UCIN fue prolongado. Estos fueron los factores de riesgo de candidemia por *C. haemulonii* en este paciente. A pesar de haber nacido a término, la paciente del caso 2 también tenía factores de riesgo de candidemia por *C. haemulonii*; se la conectó al respirador y se le colocó un catéter venoso umbilical. El uso a largo plazo de un catéter para hiperalimentación fue el factor de riesgo asociado para candidemia, y el cultivo positivo de los extremos del catéter era indicativo de una candidemia relacionada con el catéter.

La anfotericina B, el ketoconazol, el fluconazol, el itraconazol y el clotrimazol son los antibióticos comúnmente disponibles para el tratamiento de las micosis graves. No obstante, se ha informado que la *C. haemulonii* es resistente a la anfotericina B,^{3,4,6,11} al fluconazol,^{3,7-10} al itraconazol,^{3,7,8} a la flucitosina¹¹ y a la micafungina.⁵ Zia y col., describieron los casos de cuatro pacientes en quienes las cepas de *Candida* aisladas eran resistentes a la anfotericina B, al fluconazol y al itraconazol; dos de ellos fallecieron.³ En nuestro estudio, se trató a los pacientes con fluconazol y se recuperaron. Las cepas de *Candida* aisladas en nuestros pacientes eran sensibles a la

anfotericina B y al fluconazol. Con base en estos resultados, se sospechó que la multiresistencia, en especial, la resistencia a la anfotericina B, al fluconazol y al itraconazol, podría ser una de las causas más relevantes de muerte en los pacientes con candidemia por *C. haemulonii*. La resistencia de *C. haemulonii* representa un desafío en el tratamiento de la candidiasis.

A modo de conclusión, la candidemia por *C. haemulonii* es sumamente infrecuente, pero mortal, en la UCIN. Las manifestaciones clínicas de la candidemia por *C. haemulonii* en las primeras etapas son similares a las de las infecciones comunes. Según nuestros hallazgos, cuando se detectan fiebre y trombocitopenia en un recién nacido con una enfermedad subyacente o dispositivos terapéuticos invasivos (por ej., PICC o catéter venoso umbilical), se debe sospechar la presencia de candidemia por *C. haemulonii*. La resistencia de *C. haemulonii* representa un desafío en el tratamiento. Es fundamental la administración de antimicóticos a los que la cepa sea sensible y la remoción del PICC o del catéter venoso umbilical desde un principio. ■

REFERENCIAS

1. Lavarde V, Daniel F, Saez H, et al. Peritonite mycosique a *Torulopsis haemulonii*. *Bul Soc Fr Mycol Med* 1984; 13:173-6.
2. Panackal AA. Optimizing containment and control of *Candida parapsilosis* fungemia among neonates in the outbreak setting using a mathematical modeling approach. *J Mycol* 2013; 2013:413874.
3. Khan ZU, Al-Sweih NA, Ahmad S, et al. Outbreak of fungemia among neonates caused by *Candida haemulonii* resistant to amphotericin B, itraconazole, and fluconazole. *J Clin Microbiol* 2007; 45(6):2025-7.
4. Silva CM, Carvalho-Parahym AM, Macêdo DP, et al. Neonatal Candidemia Caused by *Candida haemulonii* Case Report and Review of Literature. *Mycopathologia* 2015; 180(1-2):69-73.
5. Muro MD, Motta Fde A, Burger M, et al. Echinocandin resistance in two *Candida haemulonii* isolates from pediatric patients. *J Clin Microbiol* 2012; 50(11):3783-5.
6. Rodero L, Cuenca-Estrella M, Córdoba S, et al. Transient fungemia caused by an amphotericin B-resistant isolate of *Candida haemulonii*. *J Clin Microbiol* 2002; 40(6):2266-9.
7. Giusiano G, Mangiaterra M, Garcia Saito V, et al. Fluconazole and itraconazole resistance of yeasts isolated from the bloodstream and catheters of hospitalized pediatric patients. *Chemotherapy* 2006; 52(5):254-9.
8. Kim MN, Shin JH, Sung H, et al. *Candida haemulonii* and closely related species at 5 university hospitals in Korea identification, antifungal susceptibility, and clinical features. *Clin Infect Dis* 2009; 48(6):e57-61.
9. Ruan SY, Kuo YW, Huang CT, et al. Infections due to *Candida haemulonii* species identification, antifungal susceptibility and outcomes. *Int J Antimicrob Agents* 2010; 35(1):85-8.
10. Kim S, Ko KS, Moon SY, et al. Catheter-related candidemia caused by *Candida haemulonii* in a patient in long-term hospital care. *J Korean Med Sci* 2011; 26(2):297-300.

11. Almeida JN Jr, Motta AL, Rossi F, et al. First report of a clinical isolate of *Candida haemulonii* in Brazil. *Clinics (Sao Paulo)* 2012; 67(10):1229-31.
12. Cruzet J, Sotto A, Picard E, et al. A case of *Candida haemulonii* osteitis clinical features, biochemical characteristics, and antifungal resistance profile. *Clin Microbiol Infect* 2011; 17(7):1068-70.
13. Yuvaraj A, Rohit A, Koshy PJ, et al. Rare occurrence of fatal *Candida haemulonii* peritonitis in a diabetic CAPD patient. *Ren Fail* 2014; 36(9):1466-7.

Successful fluconazole treatment of catheter-related candidemia caused by *Candida haemulonii*: report of 2 neonatal cases

Fang-Qin Xia, M.D.^a, Chu-Yuan Ye, M.D.^a, Wei-Wei Xie, M.D.^a, Neha-Devi Poonit, M.D.^a and Yong-Hai, Zhou, M.D.^a

ABSTRACT

Candida haemulonii forms part of the non-albicans *Candida* species. The candidemia caused by *C. haemulonii* is extremely rare but fatal in neonates. We reported the first two neonates with *C. haemulonii* candidemia in China which were treated with fluconazole and reviewed two papers previously reported. Our report adds further awareness on *C. haemulonii* candidemia in critical neonates and points out the importance of an early diagnosis and treatment of this fatal infection.

Key words: neonate; *Candida haemulonii*; candidemia.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.e663>

To cite: Xia FQ, Ye CY, Xie WW, et al. Successful fluconazole treatment of catheter-related candidemia caused by *Candida haemulonii*: report of 2 neonatal cases. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):e663-e666.

BACKGROUND

Candida haemulonii, a non-albicans *Candida* species, was first isolated from a human in 1984.¹ The candidemia caused by *C. haemulonii* is extremely rare but fatal in the Neonatal Intensive Care Unit (NICU).² So far, Khan et al and Silva et al mentioned five neonates with *C. haemulonii* candidemia (Table 1),^{3,4} and in two of the cases, the patient passed away. We reported the first two neonates with *C. haemulonii* candidemia in China treated with fluconazole and reviewed the 5 previously reported cases with this infection in the literature.

CASE PRESENTATION

Case 1

A 12-day-old-boy presented at our neonate intensive care unit from a township hospital with a history of abdominal distension for two days. This male baby was born at 30+5 weeks gestation because of premature rupture of membranes by vaginal delivery and weighed 1520 g with Apgar scores of 5 at 1 min and 9 at 5 min, respectively. The parturient is a 23 year old unemployed woman with normal history of prenatal examination. The premature baby was placed on tracheal intubation and mechanical ventilation at birth for the neonatal respiratory distress syndrome. After seven days the mechanical ventilation was stopped and the patient was put on nasal continuous positive airway pressure ventilation. The patient was fed by nasogastric tube and was thriving well. At the age of 10 days, he presented with abdominal distension and food residue. His X-ray displayed the pneumoperitoneum and C-reactive protein (CRP) was increased to 146 (mg/L). Therefore the baby was admitted to our unit. Soon after, the baby went into respiratory failure and required mechanical ventilation. Neonatal necrotizing enterocolitis (NEC) was subsequently confirmed. An emergency operation was carried out and a 40 cm long necrotic small intestine was removed. The patient was then started on meropenem (60 mg mg/kg/d, divided every 8 h)

a. Department of Pediatrics, The Second Affiliated Hospital & Yuying Children's Hospital of Wenzhou Medical University, Wenzhou, China

E-mail address:

Yong-Hai Zhou: zhouyonghai311@126.com

Funding: None.

Conflict of interest: None.

Received: 12-11-2017

Accepted: 3-26-2018

TABLE 1. Cases of neonatal *C. haemulonii* candidemia

NO.	Sex/age	Country/region	Outcome	Year of publication [Reference]
1	M/35 weeks(w)	Kuwait	Death	2007[3]
2	M/26w	Kuwait	Survival	2007[3]
3	F/25w	Kuwait	Survival	2007[3]
4	F/31w	Kuwait	Death	2007[3]
5	F/26w	Brazil	Survival	2015[4]
6 Case 1	M/30+5 w	China	Survival	Our
7 Case 2	F/39+5 w	China	Survival	Our

intravenously and parenteral nutrition were given by peripherally inserted central catheter (PICC). On the fifth day of hospitalization in our unit, an ascitic fluid culture revealed *Pseudomonas aeruginosa* and *Aerobacter cloacae* but blood culture was negative and the temperature was normal. Mechanical ventilation was stopped on the sixth day of hospitalization and CRP decreased to normal on the twenty-ninth day of hospitalization in our unit.

On the thirty-sixth day of hospitalization in our unit, the temperature of the baby rose to 38.4 °C. Laboratory findings revealed a hemoglobin concentration of 95 (g/L), a white blood cell count of 8.4×10^9 /L (60.1% neutrophil), and a platelet count of 76×10^9 /L. CRP was increased to 33 mg/L. The PICC was removed. Blood and catheter tip samples were collected for culture.

After 72 h, cultures of both blood and catheter tip produced several clonal formation units of yeast growth, which was subsequently identified as *C. haemulonii* by the Vitek 2 Compact Yeast cards (bioMérieux, France). The identity of *C. haemulonii* was confirmed by molecular biology methods.³ The antifungal susceptibility testing showed that *Candida* isolate was susceptible to amphotericin B, ketoconazole, fluconazole, itraconazole, clotrimazole and nystatin. Fluconazole was administered 6 (mg/kg/d) intravenously. After 30 days of fluconazole treatment, the infection was controlled and the baby recovered. On the eighty-eighth day of hospitalization, he was discharged when he could digest 50 ml milk q 3 h. In the subsequent follow-up, this baby grew well.

Case 2

A newborn with shortness of breath and III degrees meconium stained amniotic fluid presented to the neonatal intensive care unit. This female baby was born at 39+5 weeks gestation by cesarean section for fetal distress and weighed 2650 g with Apgar scores of 6 at 1 min and 8 at 5 min, respectively. The parturient is a 27 year old sales person and the prior prenatal examination history was normal. The baby was on mechanical ventilation and parenteral nutrition was given by umbilical venous catheter.

On the eleventh day of hospitalization, her body temperature rose to 38.4 °C. Laboratory findings revealed a hemoglobin concentration of 169g/L, a white blood cell count of 15.7×10^9 /L (57.9% neutrophil), and a platelet count of

39×10^9 /L. CRP was increased to 17 (mg/L). Therefore, the umbilical venous catheter was removed. Cultures of both blood and catheter tip produced some clonal formation units of yeast growth, which was subsequently identified as *C. haemulonii* by the Vitek 2 Compact Yeast cards (bioMérieux, France). The identity of *C. haemulonii* was confirmed by molecular biology methods.³ The antifungal susceptibility testing showed that *Candida* isolate was resistant to clotrimazole and nystatin, but susceptible to amphotericin B, ketoconazole, fluconazole and itraconazole. Fluconazole was administered 6 (mg/kg/d) intravenously. The mechanical ventilation was removed on the sixteenth day of hospitalization. After 26 days of fluconazole treatment, the patient recovered. On the thirty-eighth day of hospitalization, this baby was discharged after two repeat blood culture results were negative. In the subsequent follow-up, the baby grew well.

DISCUSSION

In the past years, *Candida* species have been found to be important emerging nosocomial pathogens. *Candida haemulonii*, a kind of *Candida* species, has been reported to cause fungaemia,³⁻¹¹ osteitis,¹² peritonitis¹³ and chronic otitis media.⁸ Up to now, the *C. haemulonii* candidemia has been described in five neonates, two (40.0%) of whom passed away. The relevant features of the 5 reported cases with candidemia caused by *C. haemulonii* are summarized in the Table 1. Our descriptions of two neonates suffering from *C. haemulonii* candidemia are the first two cases in China.

Fever is the most common first sign. It is difficult to diagnose the *C. haemulonii* infection at the early stage by the nonspecific symptoms and signs. It is to be noted that thrombocytopenia was detected in both our cases which may be an indication of *C. haemulonii* candidemia.

According to the past reports, the possible risk factors of *C. haemulonii* candidemia are the widespread use of broad-spectrum antimicrobial agents,⁶ the use of invasive therapeutic devices (eg. catheters and mechanical ventilation),⁶⁻¹⁰ premature patients,^{3,4} oncology patients,^{4,7,9,11} new surgical techniques⁵ and chronic kidney disease.⁹

In this report, Case 1, a premature who underwent an operation of NEC and who was on broad-spectrum antimicrobial agents. The baby was on mechanical ventilation and PICC support. The period of hospitalization in NICU was long. All these are risk factors of *C. haemulonii*

candidemia in this baby. In spite of being a term infant, Case 2 also had risk factors of *C. haemulonii* candidemia; patient was on mechanical ventilation and had an umbilical venous catheter. Long-term catheter for hyperalimentation was the associated risk factor for candidemia, and the positive culture of the catheter tips suggested the possibility of catheter-related candidemia.

Amphotericin B, ketoconazole, fluconazole, itraconazole and clotrimazole are the common available agents for the treatment of severe fungal infections. However, *C. haemulonii* has been reported to be resistant to amphotericin B,^{3,4,6,11} fluconazole,^{3,7-10} itraconazole,^{3,7,8} flucytosine¹¹ and micafungin.⁵ Zia et al. described four cases in which the candida isolates were all resistant to amphotericin B, fluconazole, and itraconazole and two of them passed away.³ In our study, the patients were treated with fluconazole and recovered. Both *Candida* isolates from our cases were susceptible to amphotericin B and fluconazole. From these results, we suspected that the multi-drug resistance, especially the resistance to amphotericin B, fluconazole, and itraconazole may be one of the important causes of death in *C. haemulonii* candidemia patients. The resistance of *C. haemulonii* represents a challenge in the treatment of candidiasis.

In conclusion, the candidemia caused by *C. haemulonii* is extremely rare but fatal in NICU. The clinical manifestations of *C. haemulonii* candidemia in the early stage are similar to those of common infection. From our findings, when fever and thrombocytopenia is detected in a neonate who has some underlying disease or invasive therapeutic devices (eg. PICC or umbilical venous catheter), the *C. haemulonii* candidemia should be suspected. The resistance of *C. haemulonii* represents a challenge in the treatment. It is the key point that the sensitive

antifungal agents should be given and the existing PICC or umbilical venous catheter should be removed at the early stage. ■

REFERENCES

1. Lavarde V, Daniel F, Saez H, et al. Peritonite mycosique a *Torulopsis haemulonii*. *Bul Soc Fr Mycol Med* 1984; 13:173-6.
2. Panackal AA. Optimizing containment and control of *Candida parapsilosis* fungemia among neonates in the outbreak setting using a mathematical modeling approach. *J Mycol* 2013; 2013:413874.
3. Khan ZU, Al-Sweih NA, Ahmad S, et al. Outbreak of fungemia among neonates caused by *Candida haemulonii* resistant to amphotericin B, itraconazole, and fluconazole. *J Clin Microbiol* 2007; 45(6):2025-7.
4. Silva CM, Carvalho-Parahym AM, Macêdo DP, et al. Neonatal Candidemia Caused by *Candida haemulonii* Case Report and Review of Literature. *Mycopathologia* 2015; 180(1-2):69-73.
5. Muro MD, Motta Fde A, Burger M, et al. Echinocandin resistance in two *Candida haemulonii* isolates from pediatric patients. *J Clin Microbiol* 2012; 50(11):3783-5.
6. Rodero L, Cuenca-Estrella M, Córdoba S, et al. Transient fungemia caused by an amphotericin B-resistant isolate of *Candida haemulonii*. *J Clin Microbiol* 2002; 40(6):2266-9.
7. Giusiano G, Mangiaterra M, Garcia Saito V, et al. Fluconazole and itraconazole resistance of yeasts isolated from the bloodstream and catheters of hospitalized pediatric patients. *Chemotherapy* 2006; 52(5):254-9.
8. Kim MN, Shin JH, Sung H, et al. *Candida haemulonii* and closely related species at 5 university hospitals in Korea identification, antifungal susceptibility, and clinical features. *Clin Infect Dis* 2009; 48(6):e57-61.
9. Ruan SY, Kuo YW, Huang CT, et al. Infections due to *Candida haemulonii* species identification, antifungal susceptibility and outcomes. *Int J Antimicrob Agents* 2010; 35(1):85-8.
10. Kim S, Ko KS, Moon SY, et al. Catheter-related candidemia caused by *Candida haemulonii* in a patient in long-term hospital care. *J Korean Med Sci* 2011; 26(2):297-300.
11. Almeida JN Jr, Motta AL, Rossi F, et al. First report of a clinical isolate of *Candida haemulonii* in Brazil. *Clinics (Sao Paulo)* 2012; 67(10):1229-31.
12. Crouzet J, Sotto A, Picard E, et al. A case of *Candida haemulonii* osteitis clinical features, biochemical characteristics, and antifungal resistance profile. *Clin Microbiol Infect* 2011; 17(7):1068-70.
13. Yuvaraj A, Rohit A, Koshy PJ, et al. Rare occurrence of fatal *Candida haemulonii* peritonitis in a diabetic CAPD patient. *Ren Fail* 2014; 36(9):1466-7.

Síndrome diencefálico en un niño con desnutrición crónica e hiperactividad

Diencephalic syndrome in a child with chronic malnutrition and hyperactivity

Dra. Florencia Palmieri^a, Dr. Ignacio Núñez^a, Dra. María V. Falcón^a, Dr. Nicolás Fortini Cabarcos^a,
Dr. Ariel Cheistwer^a, Dra. Lorena Mirón^a y Dr. Emilio Martínez Iriart^a

RESUMEN

El síndrome diencefálico es una causa infrecuente de desnutrición. Se produce por la disfunción del hipotálamo y está asociado a tumores del encéfalo. Los pacientes presentan una grave y progresiva pérdida de peso, aunque el apetito y la ingesta calórica son, por lo general, adecuados. Característicamente, los síntomas neurológicos son tardíos, lo que retrasa la sospecha diagnóstica.

Se presenta a un paciente de 2 años y 6 meses de edad con desnutrición crónica grado II, derivado con diagnóstico presuntivo de enfermedad celíaca con mala adherencia y fracaso del tratamiento. Durante la internación, se arribó al diagnóstico de síndrome diencefálico secundario a un astrocitoma pilocítico grado I.

Palabras clave: desnutrición, síndrome diencefálico, astrocitoma pilocítico.

ABSTRACT

Diencephalic syndrome is an infrequent cause of malnutrition. It is produced by a malfunctioning hypothalamus, and it is related to encephalic tumors. Patients present a serious and progressive weight loss although the appetite and calorie intake are, usually, adequate. Neurological symptoms typically have a late appearance, delaying diagnostic suspicion.

We present a patient aged 2 years and a half with grade II chronic malnutrition, referred with presumptive diagnosis of celiac disease, with poor adherence and treatment failure. During hospitalization, diagnosis of diencephalic syndrome secondary to grade I pilocytic astrocytoma was reached.

Key words: malnutrition, diencephalic syndrome, pilocytic astrocytoma.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.e667>

Cómo citar: Palmieri F, Núñez I, Falcón MV, et al. Síndrome diencefálico en un niño con desnutrición crónica e hiperactividad. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):e667-e670.

a. Unidad 6 de Clínica Pediátrica, Hospital de Niños R. Gutiérrez, Ciudad de Buenos Aires.

Correspondencia:
Dr. Ignacio Núñez: ignacio_25@hotmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 12-12-2017

Aceptado: 26-4-2018

INTRODUCCIÓN

El síndrome diencefálico (SD), síndrome de Russell o caquexia de Russell fue descrito por A. Russell en 1951.¹ Se produce por la disfunción del hipotálamo y está asociado a tumores del encéfalo. Se caracteriza por una marcada emaciación con ingesta calórica adecuada, levemente disminuida o, rara vez, aumentada,² con llamativa conservación de la talla y el perímetro cefálico. La asociación con hiperactividad es muy frecuente.³⁻⁷ Los signos neurológicos no suelen estar presentes en los primeros meses de evolución y, en caso de encontrarse, los más frecuentes son los oftalmológicos (50%) –nistagmus, alteración del campo visual y palidez de papila–,^{6,8} seguidos por cefalea y vómitos.⁴

CASO CLÍNICO

Paciente de sexo masculino de 2 años y 6 meses de edad, procedente de Paraguay, que consultó por la pérdida importante de peso de cinco meses de evolución, mala actitud alimentaria, hiperactividad y vómitos aislados.

Presentaba diagnóstico presuntivo de enfermedad celíaca a partir de anticuerpos inmunoglobulina G (IgG) e inmunoglobulina A (IgA) anti gliadina positivos, con anticuerpos antiendomiso y antitransglutaminasa negativos, realizados en su país de origen. Se encontraba en tratamiento con dieta libre de gluten, con mal cumplimiento.

Al ingresar, se lo evaluó de buen ánimo, hiperactivo y con buena actitud ante el juego; en contraposición con una marcada desnutrición, escaso tejido subcutáneo, piel flácida, abdomen levemente excavado y nalgas en bolsa de tabaco (*Figura 1*). Su desarrollo neuromadurativo era acorde a la edad y sus signos vitales se hallaban dentro de los límites normales. Valores antropométricos al ingresar: peso de 9,500 kg (percentilo < 3; puntaje z: -2,56); índice de masa corporal (IMC): 12 (percentilo < 3/puntaje z: -3); talla: 89,5 cm (percentilo 25); perímetro cefálico: 49,5 cm (percentilo 50-75); y peso/edad: 72%;

desnutrición grado II según la clasificación de Gómez; adecuación peso/talla: 74%, que correspondía, según la clasificación de Waterloo, a una desnutrición moderada (o déficit de un 26%). Se negaba a la ingesta, principalmente,

de alimentos sólidos y semisólidos, asociado a diarrea y vómitos ocasionales.

Los estudios de laboratorio realizados al ingresar y en el transcurso de la internación fueron normales e incluyeron evaluación hematológica, función renal y hepática, albúmina, amonio, ácido láctico y función tiroidea. Se descartaron causas malabsortivas, con estudio funcional de materia fecal normal. Fueron negativos los anticuerpos antiendomisio IgG e IgA, y los anticuerpos antitransglutaminasa. La IgA total estaba dentro de los límites normales. Se descartaron causas infectológicas, con serologías negativas para virus de la inmunodeficiencia humana (VIH), virus de la hepatitis B (VHB), virus de la hepatitis C (VHC), toxoplasmosis, Chagas y sífilis.

No se evidenciaron trastornos deglutorios ni alteraciones estructurales del aparato digestivo superior luego de la evaluación por medio de la seriada esófago-gastroduodenal y video-deglución.

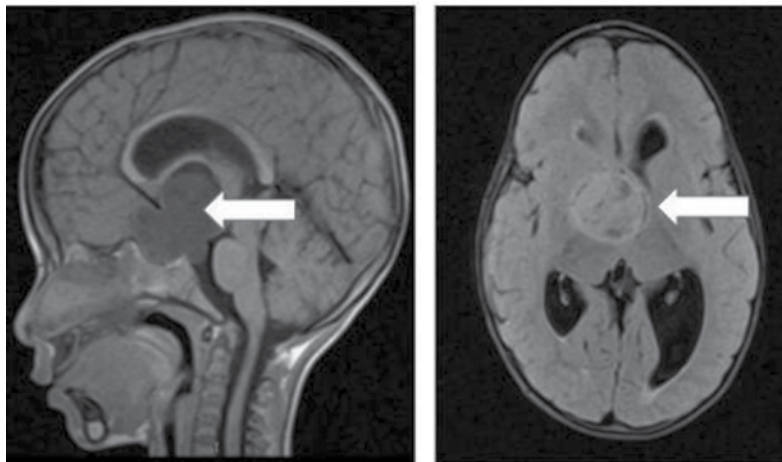
La madre y el niño fueron evaluados por el equipo de salud mental y se excluyeron causas psicoafectivas a través de las entrevistas periódicas y la evaluación del juego.

Se indicó la alimentación por vía enteral con gastroclisis continua con leche hidrolizada. Se incrementó su aporte calórico diario hasta llegar a 140 cal/kg/día en su octavo día de internación y se complementó con una dieta hipercalórica (tasa metabólica basal: 208 kcal/kg). El paciente evolucionó, durante los primeros 14 días, con un aumento de peso de 62 g/día y presentó un vómito diario, predominantemente matinal y, en ocasiones, de abundante cuantía.

FIGURA 1. Grado de emaciación del paciente, con nalgas en bolsa de tabaco



FIGURA 2. Resonancia magnética nuclear del sistema nervioso central, de corte sagital y axial, que evidencia una lesión ocupante de espacio en la región selar con edema perilesional y dilatación de los ventrículos laterales, sin desviación de la línea media



A las 2 semanas, por la normalidad de los estudios citados anteriormente y el patrón de vómitos observados ante la alimentación enteral, se decidió realizar una resonancia magnética nuclear (RMN) (Figura 2) y una tomografía axial computada (TAC) del sistema nervioso central (SNC). En dichos estudios, se evidenció una imagen ocupante de espacio en la región selar que se reforzó con la administración de gadolinio, con extensión hacia la región subfrontal y cisterna prepontina que invadió el tercer ventrículo, el seno cavernoso derecho, el quiasma óptico y las ramas del polígono de Willis. A estos hallazgos se asociaba la dilatación de ambos ventrículos laterales y la compresión talámica por la masa tumoral. No se realizó inicialmente una RMN de la médula espinal. Se efectuó exéresis tumoral macroscópicamente completa, con diagnóstico anatomopatológico de astrocitoma pilocítico de bajo grado.¹¹

Evolución

Luego de la realización de imágenes del SNC, en las que se constató hidrocefalia secundaria a la lesión ocupante de espacio, se colocó una válvula de derivación ventrículo-peritoneal. Después de la exéresis tumoral, el paciente presentó diabetes insípida con requerimientos de desmopresina reglada, hipotiroidismo medicado con levotiroxina, disautonomías en los miembros inferiores y disminución de la agudeza visual (alteraciones que persisten hasta la actualidad) y también alteraciones transitorias del ritmo sueño-vigilia e hipertermia central, diagnosticadas luego de haber descartado la patología infecciosa. Evolucionó con hiperorexia con posterior incremento de peso (peso al egreso, 50 días después de la cirugía, de 14,120 kg –PC 50-75–) (Figura 3), por lo que se modificó su dieta a normocalórica.

Actualmente, han pasado 10 meses desde el diagnóstico. El paciente regresó a su país de origen y se presentó en el Hospital para los controles periódicos en los Servicios de Oncología y Neurocirugía. De forma ambulatoria, ha realizado RMN de la columna y el cerebro sin evidencia de recaída. Por tratarse de un glioma de bajo grado, con exéresis macroscópicamente completa, y por la morbilidad asociada, no realizó quimioterapia ni radioterapia. Realiza el seguimiento clínico y con estudios de imágenes.

DISCUSIÓN

El SD es una causa infrecuente de desnutrición,

por lo que los reportes son esporádicos y las series estudiadas hacen referencia a un escaso número de pacientes.

Se presenta, por lo general, con ingesta normal, levemente disminuida⁴ o, rara vez, aumentada.² En el caso del paciente citado, el hallazgo distintivo fue la negativa a la ingesta, a pesar del grado de desnutrición.

La edad media de comienzo del compromiso nutricional es, aproximadamente, a los 7 meses de vida, y la edad media de diagnóstico es a los 18 meses.^{4,9} Los artículos consultados refieren una mayor gravedad del cuadro clínico cuanto menor es la edad del paciente al momento del hallazgo.¹⁰

Otra de las características llamativas del paciente fue la normalidad de los estudios de laboratorio nutricionales, metabólicos, hematológicos y endocrinológicos, coincidentes con lo encontrado en la bibliografía.⁴

Se desconocen con certeza los mecanismos asociados a la emaciación, pero las hipótesis incluyen niveles elevados de hormona de crecimiento (HC) con respuesta paradójica a la carga de glucosa,^{4,5,7-9} resistencia parcial a la acción de la HC y aumento de la secreción de β -lipotropina (péptido lipolítico), que resulta

FIGURA 3. Recuperación nutricional del paciente 45 días después de la exéresis tumoral



en el incremento de la lipólisis con consecuente pérdida del tejido adiposo.^{4,5,7,9} Otro mecanismo descrito es la desregulación en la liberación de leptina y grelina,^{3,7} ambas asociadas al mecanismo de apetito y saciedad.

En lo que respecta a los síntomas neurológicos, al ingresar, el paciente presentaba un examen neurológico normal, coincidente con otros reportes de casos. Durante la internación, evolucionó con vómitos matinales como único síntoma de hipertensión endocraneana.

Los tumores más frecuentemente encontrados corresponden a astrocitomas pilocíticos grado I,¹¹ localizados en el área hipotálamo-quiasma óptico.^{3,4,6,7} También se ha descrito su asociación con astrocitomas cerebelosos,ependimomas supraselares, espongioblastomas supraselares y tumores talámicos.⁸

Por causas aún no establecidas, el SD solo afecta al 20% de los pacientes con tumores localizados en esta región. Su asociación con SD los hace más agresivos y de peor pronóstico.^{9,10}

El tratamiento varía según los autores, con diferentes combinaciones de cirugía, radioterapia y quimioterapia.^{3-5,10} En el caso de los gliomas de bajo grado, es de elección la escisión completa, que, muchas veces, no se puede realizar por la ubicación del tumor.⁵ Permite lograr la resolución de los síntomas, pero suele asociarse a efectos adversos neurológicos y endocrinológicos.³ La radioterapia fue el tratamiento principal hasta la década de los ochenta, del Siglo XX, cuando perdió lugar por sus efectos adversos, sobre todo, en lactantes.^{4,5} Stival y Lucchesi citan que pueden obtenerse buenos resultados combinando bajas dosis de etopósido y cisplatino, con baja miel y neurotoxicidad.³

Sin tratamiento, la supervivencia es de 6 meses a 2 años.^{2,5,10}

En síntesis, la desnutrición secundaria obliga a descartar un amplio espectro de patologías orgánicas y psicoafectivas, y se debe evaluar cuidadosamente la oportunidad de cada intervención diagnóstica o terapéutica.

Si bien el SD es una rara causa de desnutrición crónica, se debe solicitar una neuroimagen en pacientes con emaciación, a pesar de una ingesta calórica normal, disminuida o aumentada, asociada con hiperactividad, en ausencia de síntomas neurológicos, una vez descartadas las causas más frecuentes. ■

REFERENCIAS

1. Russell A. A diencephalic syndrome of emaciation in infancy and childhood. *Arch Dis Child* 1951; 26:274.
2. Aguilar Moliner I, Costa Orvay JA, Juma K, et al. Astrocitoma de vías ópticas: una causa infrecuente de retraso ponderal en el lactante. *An Pediatr (Barc)* 2007; 66(6):622-4.
3. Stival A, Lucchesi M, Farina S, et al. An infant with hyperalertness, hyperkinesia, and failure to thrive: a rare diencephalic syndrome due to hypothalamic anaplastic astrocytoma. *BMC Cancer* 2015; 15:616.
4. Kim A, Moon JS, Yang HR, et al. Diencephalic syndrome: a frequently neglected cause of failure to thrive in infants. *Korean J Pediatr* 2015; 58(1):28-32.
5. Moreno Villares JM, Fernández Carrión F, Gallego Fernández ME, et al. Síndrome diencefálico: una causa poco común de malnutrición. *An Pediatr (Barc)* 2002; 56(2):466-71.
6. Gamstorp I, Kjellman B, Palmgren B. Diencephalic Syndromes of Infancy: Report of 3 Children with Emaciation Syndrome and Disproportionately Large Hands and Feet. *J Pediatr* 1967; 70(3):383-90.
7. Velasco P, Clemente M, Lorite R, et al. The Role of Leptin in Diencephalic Syndrome. *Pediatrics* 2014; 133(1):e263-6.
8. Poussaint TN, Barnes PD, Nichols K, et al. Diencephalic Syndrome: Clinical Features and Imaging Findings. *AJNR Am J Neuroradiol* 1997; 18(8):1499-505.
9. Fleischman A, Brue C, Poussaint TY, et al. Diencephalic Syndrome: A Cause of Failure to Thrive and a Model of Partial Growth Hormone Resistance. *Pediatrics* 2005; 115(6):e742-8.
10. Báez Seguro L, Jiménez García R, Piñero Fernández E, et al. Síndrome diencefálico como causa de desnutrición severa. *Rev Cubana Pediatr* 2013; 85(1):120-9.
11. Louis D, Perry A, Reifenberger G, et al. The 2016 World Health Organization Classification of Tumor of the Central Nervous System. *Acta Neuropathol* 2016; 131(6):803-20.
12. Chipkevitch E, Fernandes A. Hypothalamic tumor associated with atypical forms of anorexia nervosa and diencephalic syndrome. *Arq Neuropsiquiatr* 1993; 51(2):270-4.
13. Pires ME, Maranhão-Filho PA. Síndrome Diencefálica: Síndrome de Russel. *Rev Bras Neurol* 2010; 46(1):37.
14. Uher R, Treasure J. Brain lesions and eating disorders. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 2005; 76(6):852-7.
15. Gómez Santos F. Desnutrición. *Bol Med Hosp Infant Mex* 1946; 3(4):543-51.

Síndrome de Sweet en una niña preescolar

Sweet syndrome in a 5-year-old girl

Dra. Rocío P. Pereira-Ospina^a, Dr. Briam D. Beltrán-Hernández^b, Dr. José M. Suescún-Vargas^c y Dr. Javier Y. Pinzón-Salamanca^c

RESUMEN

El síndrome de Sweet, también conocido como dermatosis neutrofílica febril, es un trastorno dermatológico poco frecuente en pediatría. Clínicamente, se caracteriza por la aparición de lesiones papulares y/o nodulares de una coloración rojiza-violeta con hipersensibilidad local. Se reporta el caso de una paciente femenina de 5 años, quien consultó por un cuadro clínico de 10 días de evolución de aparición de lesión forunculosa en el arco nasal. Se realizó una biopsia de piel, que reportó dermatitis difusa con predominio de polimorfonucleares neutrófilos, necrosis epidérmica y ausencia de vasculitis. No se identificaron microorganismos. Se consideró el cuadro compatible con síndrome de Sweet. Es importante tener en cuenta este diagnóstico en cuadros clínicos similares y se deben descartar otros diagnósticos más frecuentes primero.

Palabras clave: síndrome de Sweet, dermatosis neutrofílica febril aguda, pediatría.

ABSTRACT

Sweet syndrome, also known as acute febrile neutrophilic dermatosis, is an infrequent dermatological disorder in pediatrics. Clinically it is characterized by the development of papular and/or nodular lesions of a reddish-violet coloration with local hypersensitivity. We report the case of a 5-year-old female who consulted 1 month after the appearance of the lesion in the nasal arch. A skin biopsy was performed and it reported diffuse dermatitis with a predominance of neutrophil polymorphonuclear cells, epidermal necrosis and absence of vasculitis. No microorganisms were identified. It was considered compatible with Sweet syndrome. It is important to consider this diagnosis in similar clinical cases and other more frequent diagnoses must be ruled out first.

Key words: Sweet syndrome, acute febrile neutrophilic dermatosis, pediatrics.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.e671>

Cómo citar Pereira-Ospina RP, Beltrán-Hernández BD, Suescún-Vargas JM, Pinzón-Salamanca JY. Síndrome de Sweet en una niña preescolar. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):e671-e674.

INTRODUCCIÓN

El síndrome de Sweet es un trastorno dermatológico poco frecuente en la población pediátrica. Fue descrito por primera vez por Robert Douglas Sweet en 1964, quien reportó el cuadro clínico en ocho mujeres.¹

La mayoría de los casos se presentan entre los 30 y los 50 años. Tiene una distribución global, sin predominio en ningún grupo étnico específico.^{2,3} Existen tres tipos clínicos del síndrome de Sweet; entre ellos, se encuentran el asociado a medicamentos, el asociado a malignidad y el síndrome de Sweet clásico (*véase la Tabla 2*).^{4,5}

Su presentación clínica incluye fiebre, lesiones eritematosas dolorosas distribuidas de forma irregular, que pueden ser pápulas, nódulos, placas o vesículas, que afectan el cuello, la cara y los miembros superiores.⁵ Las vesículas en esta patología en particular tienen la característica de parecer líquidas a la vista y ser sólidas cuando se palpan. Se diferencian de las vesículas que se presentan en la infección por herpes simple, ya que estas son vesículas milimétricas en ramilletes que siguen un tracto neural.^{3,6}

Las formas extracutáneas pueden ser muy variables. Se ha descrito la aparición de lesiones ulcerosas en las mucosas (desde la mucosa oral hasta el tracto respiratorio) y complicaciones más graves asociadas a la sobreinfección de las lesiones o el compromiso multisistémico. Cuando existe un compromiso del páncreas, del hígado y/o del pulmón, es frecuente que esté asociado a malignidad.^{7,9}

La forma clásica de la patología está asociada a un desencadenante infeccioso (generalmente, cuadros de origen viral respiratorio y/o gastrointestinal), que se asocia a la aparición de las lesiones papulares clásicas ya descritas. Entre las variantes del síndrome, se encuentra la asociada a malignidad, que aparece, principalmente, relacionada con tumores

- Departamento de Educación e Investigación, Instituto Roosevelt.
- Universidad del Rosario.
- Servicio de Pediatría del Instituto Roosevelt, Universidad del Rosario. Universidad de los Andes y Universidad de la Sabana. Bogotá, Colombia.

Correspondencia: Dra. Rocío P. Pereira Ospina: rochi_1547@hotmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 14-12-2017
Aceptado: 23-5-2018

hematológicos (leucemias y linfomas) o, en algunos casos, con tumores sólidos en el contexto de síndrome paraneoplásico. Esta variante ha venido en aumento dada la creciente prevalencia del cáncer tanto en la edad adulta como en la población pediátrica.^{7,8}

También se ha vinculado a la presencia de enfermedad secundaria a la administración de medicamentos, como carbamazepina, diazepam, hidralazina, nitrofurantoína y trimetoprima/sulfametoazol, entre otros. Existe un subtipo asociado al trastorno de origen autoinmune, aunque es exótica su presentación.⁷

CASO CLÍNICO

Paciente femenina de 5 años, quien fue remitida a un hospital de tercer nivel por un

cuadro clínico de un mes de evolución consistente en la aparición de una lesión en el ala nasal izquierda, sin antecedentes de trauma o picadura de insecto. Un familiar comentó que, al inicio del cuadro, la paciente había presentado fiebre no cuantificada (no se conocía la duración total) sin asociarse a otra sintomatología. La lesión había sido manipulada por los cuidadores de la paciente, con salida de material seroso escaso. Al día siguiente, presentó edema, eritema y dolor. Por lo anterior, fue llevada a la consulta médica, en la que iniciaron antibiótico oral por la sospecha clínica de celulitis con dicloxacilina por siete días sin mejoría de los síntomas. Ya que la paciente, dos días antes de la consulta, había presentado diarrea y se le había diagnosticado gastroenteritis de origen amebiano (según comentó la madre de la paciente), se le administró también metronidazol. Se trasladaron a la capital del Amazonas y fue llevada a un centro hospitalario, donde permaneció en observación con manejo antibiótico intravenoso con oxacilina y clindamicina (por cinco días), con evolución estacionaria, por lo que fueron derivados para una atención especializada.

Al ingresar al Servicio de Pediatría, la paciente se encontraba afebril, hidratada, en buenas condiciones generales. Se observó una lesión indurada en el ala nasal izquierda, con una superficie costrosa y leve eritema (*Figura 1*), sin otros hallazgos al momento del examen físico. Se consideró, como impresión diagnóstica, celulitis del ala nasal. Se hospitalizó para el manejo antibiótico intravenoso con vancomicina por sospecha de germen metilino resistente y se solicitaron análisis paraclínicos, que mostraron hemograma sin leucocitosis (10 000 mm³) ni

Tabla 1. Diagnósticos diferenciales^{1,2,13}

- Eritema exudativo multiforme
- Erisipela
- Celulitis
- Enfermedad de Behçet
- Púrpura de Henoch-Schönlein
- Piodermas gangrenosos atípicos
- Hidradenitis neutrofílica
- Síndrome del *by-pass* intestinal
- Eritema *elevatum diutinum*
- Eritema nodoso
- Vasculitis
- Hipersensibilidad a los medicamentos
- Dermatitis neutrofílica reumatoidea
- Infecciones por los siguientes:
 - Bacterias
 - Micobacterias
 - Hongos (profundas)

Tabla 2. Criterios diagnósticos del síndrome de Sweet clásico¹

Criterios mayores

- Aparición abrupta de placas o nódulos eritematosos o violáceos dolorosos, ocasionalmente, con vesículas, pústulas o ampollas.
- Infiltración predominantemente neutrofílica en la dermis sin vasculitis leucocitoclástica.

Criterios menores

- Precedido de infecciones no específicas en el tracto gastrointestinal o respiratorio, o vacunación o asociación con lo siguiente:
 - Enfermedades inflamatorias, como las autoinmunes o infecciones.
 - Enfermedades hemoproliferativas o tumores sólidos malignos.
 - Embarazo.
- Acompañado por períodos de fiebre o malestar general.
- Análisis de laboratorio durante la aparición
 - VSG: 20 mm; PCR positiva; neutrofilia (70%); leucocitosis: 8000 (tres de estos cuatro son necesarios).
- Buena respuesta al tratamiento con corticosteroides o yoduro de potasio.

* Para el diagnóstico, son necesarios dos criterios mayores y dos menores.

* VSG: velocidad de sedimentación globular.

* PCR: proteína C reactiva.

neutrofilia (59%) y proteína C reactiva (PCR) (0,8 mg/L) dentro de los parámetros normales.

La paciente fue evaluada por el Servicio de Infectología, quienes suspendieron el manejo antibiótico y ordenaron la biopsia de la lesión, ya que no era clara la etiología infecciosa del cuadro y se debían descartar otras posibles causas, entre ellas, las tumorales, enfermedades granulomatosas e infecciosas menos probables por micobacterias no tuberculosas, como *Mycobacterium leprae*. No hubo ninguna asociación a medicamentos, ya que la paciente solo tomó los mencionados en el relato del caso clínico y no tenía antecedentes medicamentosos previos a la aparición de la lesión.

Se tomó una tomografía axial computada (TAC) de los senos paranasales para evaluar el probable origen nasosinusal o lacrimal de la lesión, el cual mostró una imagen densa en el ala nasal izquierda, que realzaba con el medio de contraste y que podría estar en relación con un hemangioma. Se tomó la biopsia de la lesión, la cual también fue llevada a cultivo (en agar sangre y agar MacConkey), que mostró dermatitis difusa con predominio de polimorfonucleares neutrófilos, presencia de necrosis epidérmica y ausencia de vasculitis. No se identificaron microorganismos en la muestra ni en los cultivos.

Fue evaluada por Dermatología, quienes descartaron el origen infeccioso de la lesión y, según los resultados de la biopsia de la lesión y de la clínica, consideraron que la paciente tenía criterios para síndrome de Sweet, por lo que se inició el manejo con prednisona en dosis de 1 mg/kg/día (con terapia antiparasitaria previa).

La paciente recibió el manejo con corticoide de forma intrahospitalaria por siete días con una mejoría significativa de la lesión (véase la Figura 2). Se le dio el egreso con corticoide sistémico por un mes y control por el Servicio de Dermatología.

DISCUSIÓN

Los casos reportados en pediatría de síndrome de Sweet representan del 5% al 8% del total. La edad promedio es a los cinco años o más y, aproximadamente, en el 50% de los casos, la etiología es idiopática.¹⁰⁻¹²

Entre los casos que se encuentran en la literatura, el 60% son en niños. En menores de 3 años, la proporción es de 2:1 con predominancia del sexo masculino y, en los mayores de 3 años, se ve una distribución parecida en niños y niñas.¹¹ Aquí, vemos que se trata de una niña de cinco años, lo cual concuerda con la edad promedio de reporte en la literatura.

Las lesiones pueden ser de presentación variable. Sin embargo, suelen ser de color rojo vivo o violáceo con edema y pueden presentarse como vesículas o lesiones pustulosas.¹³ En el caso de nuestra paciente, según lo narrado por la madre, en un principio, la lesión fue pustulosa, drenada por uno de los familiares, y luego tomó las características de tumoración en el ala nasal izquierda, con dolor ante la palpación, asociada a una costra amarillenta friable en la superficie.

Esta enfermedad, histológicamente, se caracteriza por tener una predominancia de infiltrado neutrofílico asociado a edema subepidérmico y ausencia de vasculitis leucocitoclástica.¹² Hay varios diagnósticos

FIGURA 1. Lesión en el ala nasal izquierda



FIGURA 2. Mejoría de la lesión luego del tratamiento con corticoides



diferenciales para esta patología, los cuales podemos observar en la *Tabla 1*.^{1,2,13} Los que se consideraron para nuestro caso, en un principio, fueron celulitis del ala nasal, que fue descartada, y lesiones infecciosas, como la asociada a *M. leprae*. Luego de que fue aclarado el tiempo de evolución y en qué lugar se había iniciado el cuadro clínico asociado a la revisión de los síntomas, se consideró descartar un proceso tumoral. Con los paraclínicos e imágenes, se pensó en descartar el hemangioma o las patologías de origen granulomatoso.

Nuestra paciente cumplió con los criterios para síndrome de Sweet. Presentó una lesión pustulosa que, con la manipulación, se convirtió en una placa; las características de la biopsia fueron típicas de esta patología; presentó gastroenteritis amebiana manejada con antiparasitarios y respondió adecuadamente al manejo con esteroides. Es probable que, al inicio del cuadro, haya habido alteraciones en el hemograma que no se evidenciaron en la atención de la paciente luego de un mes.

El tratamiento de primera línea para esta patología son los corticoides en dosis de 1 mg/kg/día, que deben ser disminuidos paulatinamente entre dos y seis semanas desde su inicio, de acuerdo con la evolución clínica del paciente.^{14,15} En nuestro caso, la paciente respondió favorablemente al tratamiento instaurado con corticoides.

Es importante tener en cuenta este diagnóstico en la población pediátrica, aunque se presente con baja frecuencia. Como se ilustró en el caso y como se puede observar en la literatura, antes de llegar a este diagnóstico, se deben descartar otras patologías vinculadas a los síntomas, la situación geográfica, el motivo de consulta y la

enfermedad actual del paciente, pero, desde que se haga un buen enfoque clínico asociado a un manejo multidisciplinario, se podrá establecer el diagnóstico adecuado. ■

REFERENCIAS

- García-Romero MT, Ho N. Pediatric Sweet syndrome. A retrospective study. *Int J Dermatol*. 2015;54(5):518-22.
- Vashisht P, Hearsh Holmes M. Sweet Syndrome. Treasure Island, FL: StatPearls [Internet]; 2017.
- Prasad PV, Ambujam S, Priya K, et al. Sweet's syndrome in an infant--report of a rare case. *Int J Dermatol* 2002; 41(12):928-30.
- Contrucci RB, Martin DB. Sweet syndrome: A case report and review of the literature. *Ear Nose Throat J* 2015; 94(7):282-4.
- Villarreal-Villarreal CD, Ocampo-Candiani J, Villarreal-Martínez A. Sweet Syndrome: A Review and Update. *Actas Dermosifiliogr* 2016; 107(5):369-78.
- Valle LE. Infecciones virósicas. In *Dermatología pediátrica: enfoque práctico*. Buenos Aires: Dunken; 2014. Págs.331.
- Cohen PR, Kurzrock R. Sweet's syndrome revisited: A review of disease concepts. *Int J Dermatol* 2003; 42(10):761-78.
- Cohen PR. Sweet's syndrome--a comprehensive review of an acute febrile neutrophilic dermatosis. *Orphanet J Rare Dis* 2007; 2:34.
- Maalouf D, Battistella M, Bouaziz JD. Neutrophilic dermatosis: disease mechanism and treatment. *Curr Opin Hematol* 2015; 22(1):23-9.
- Klock JC, Oken RL. Febrile neutrophilic dermatosis in acute myelogenous leukemia. *Cancer* 1976; 37(2):922-7.
- Halpern J, Salim A. Pediatric sweet syndrome: case report and literature review. *Pediatr Dermatol* 2009; 26(4):452-7.
- Resende C, Santos R, Pereira T, et al. Sweet's syndrome associated with cellulitis - a challenging diagnosis. *An Bras Dermatol* 2016; 91(1):94-6.
- Ginarte M, Toribio J. Síndrome de Sweet. *Med Clin (Barc)* 2009; 133(1):31-5.
- Kasirye Y, Danhof RS, Epperla N, et al. Sweet's syndrome: one disease, multiple faces. *Clin Med Res* 2011; 9(3-4):134-6.
- Kulasekararaj AG, Kordasti S, Basu T, et al. Chronic relapsing remitting Sweet syndrome--a harbinger of myelodysplastic syndrome. *Br J Haematol* 2015; 170(5):649-56.

Estenosis de la arteria renal unilateral de diagnóstico neonatal

Neonatal diagnosis of unilateral renal artery stenosis

Dra. Sara M. Barbed Ferrández^a, Dra. Inés Martínez Redondo^a, Dra. Itziar Serrano Viñuales^a,
Dra. Cristina Fernández Espuelas^b, Dra. Yolanda Romero Salas^c y Dra. Cristina Gutiérrez Alonso^d

RESUMEN

La estenosis de la arteria renal es una causa rara de hipertensión arterial neonatal de origen renovascular. Hay muy pocos casos descritos en la literatura en esta etapa. La mayor parte de los pacientes con esta afectación permanecen asintomáticos, y la hipertensión se detecta en las revisiones pediátricas rutinarias. El diagnóstico puede realizarse mediante la combinación de hallazgos bioquímicos y radiológicos. El manejo inicial del paciente se basa en terapia farmacológica hasta alcanzar un crecimiento adecuado para evaluar la reparación definitiva de la lesión vascular o la nefrectomía en caso de supresión funcional del riñón afecto.

Se presenta a una paciente femenina recién nacida a término, con hipertensión arterial e importante falla cardíaca congestiva, originada por una estenosis unilateral de la arteria renal, con supresión funcional y atrofia del riñón afecto, que precisó importante soporte inotrópico y antihipertensivo durante los primeros días de vida, con importante mejoría clínica posterior. **Palabras clave:** estenosis de la arteria renal, hipertensión, hipertensión renovascular, recién nacido.

ABSTRACT

Renal artery stenosis represents a rare cause of neonatal arterial hypertension of renovascular origin, having been described few cases in the literature at this stage of life. Most patients with this disease remain asymptomatic; hypertension can be detected in routine pediatric revisions. Diagnosis can be performed by combining biochemical and radiological findings. The initial management consists of pharmacological therapy in order to achieve adequate growth. Subsequently, it is necessary to assess definitive repair of the vascular lesion or nephrectomy in the case of functional abolition of the affected kidney.

We present a term newborn female, with arterial hypertension and an important congestive heart failure, caused by a unilateral renal artery stenosis, with functional abolition and atrophy of the affected kidney, which required an important inotropic and antihypertensive support during her first days of life, with significant clinical improvement subsequently.

Key words: renal artery stenosis, hypertension, renovascular hypertension, infant newborn.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.e675>

Cómo citar: Barbed Ferrández SM, Martínez Redondo I, Serrano Viñuales I, et al. Estenosis de la arteria renal unilateral de diagnóstico neonatal. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):e675-e678.

INTRODUCCIÓN

La hipertensión arterial presenta una incidencia del 1-2,5% en recién nacidos ingresados en Unidades de Cuidados Intensivos,¹ por lo que se trata de una patología diagnosticada de forma infrecuente en esta etapa de la vida. Se han descrito numerosas causas en este período; en la mayor parte de los casos, son de origen posnatal. Las más frecuentemente descritas son enfermedad renovascular, displasia broncopulmonar, enfermedad renal parenquimatosa y la iatrogenia.

La estenosis de la arteria renal es una causa rara de hipertensión neonatal de origen renovascular. Se han descrito muy pocos casos en la literatura en esta etapa de la vida.^{2,3} Esto se debe a que la mayor parte de los pacientes con estenosis de la arteria renal permanecen asintomáticos, y la hipertensión se detecta como hallazgo casual en las revisiones pediátricas rutinarias.⁴

El diagnóstico de esta entidad puede llevarse a cabo mediante la combinación de hallazgos bioquímicos y radiológicos. La estenosis de la arteria renal es capaz de estimular de forma muy activa el sistema renina-angiotensina-aldosterona y se puede detectar en una muestra de sangre periférica. Sin embargo, esto se ha estimado que ocurre en un 50-80% de los pacientes.⁵ Además, la ultrasonografía renal con doppler, que constituye la modalidad de imagen de elección en el estudio de la hipertensión neonatal, presenta, para el diagnóstico de esta entidad, una sensibilidad del 50-98% y una especificidad del 60-98%. Permite visualizar directamente la arteria renal y examinar su permeabilidad mediante el modo doppler-color.⁶ Una vez detectada, hay que tener en cuenta que esta entidad puede asociarse con

a. Residencia de Pediatría.

b. Servicio de Neonatología.

c. Servicio de Nefrología Pediátrica.

d. Servicio de Radiología Pediátrica.

Hospital Universitario Materno-infantil Miguel Servet, Zaragoza, España.

Correspondencia:

Dra. Sara M. Barbed Ferrández: sarabarbed@gmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 18-12-2017

Aceptado: 24-5-2018

coartación aórtica media y estenosis vasculares cerebrales, que es preciso descartar.⁴ También es necesario tener en cuenta que esta alteración se ha descrito asociada a diversos síndromes (por ejemplo, neurofibromatosis, Williams, Klippel-Trenaunay-Weber), a ciertas infecciones, como la rubeola congénita, a compresión extrínseca o, de forma más frecuente, a displasia fibromuscular¹ y ha estado implicada, en un 65-95% de los casos, como causa de la lesión estenótica.⁴

En cuanto al tratamiento, inicialmente, suele ser necesario manejar al paciente con terapia farmacológica hasta alcanzar un crecimiento adecuado para evaluar la reparación definitiva de la lesión vascular o realizar la nefrectomía en caso de supresión funcional del riñón afecto.⁷

Se presenta el caso de una paciente femenina recién nacida a término, con hipertensión arterial e importante falla cardíaca congestiva, originada por una estenosis unilateral de la arteria renal.

EXPOSICIÓN DEL CASO CLÍNICO

Paciente femenina recién nacida, tras un parto vaginal instrumentado con ventosa por la no progresión, a las 37 semanas de edad gestacional, con peso de nacimiento de 3830 gramos (peso superior al percentil 95, elevado para su edad gestacional) y un puntaje en el test de Apgar 9 al minuto y 10 a los 5 minutos del nacimiento. Era la primera hija de padres no consanguíneos, cuya madre presentaba diabetes *mellitus* tipo 1. El embarazo fue controlado y se precisó el ingreso materno por un episodio de cetoacidosis diabética en la semana 30 de gestación, sin observarse riesgo de pérdida de bienestar fetal ni otras alteraciones.

Al nacer, ingresó en Cuidados Neonatales por hipoglucemias mantenidas, que precisaron el aporte de glucosa por vía intravenosa. Mientras permanecía hospitalizada, se detectaron cifras elevadas de presión arterial, de forma intermitente. Sin embargo, a los 9 días de vida, tuvo que ser referida a una Unidad de Cuidados Intensivos de un centro de referencia, debido a un empeoramiento clínico brusco, con elevación persistente de las cifras tensionales por encima del p95 para su edad gestacional (tensión arterial sistólica mayor de 90 mmHg y diastólica mayor de 60 mmHg) y signos clínicos de repercusión hemodinámica (taquicardia, mala perfusión periférica, reducción del ritmo de diuresis).

A su llegada, fue monitorizada y estabilizada, y se inició, posteriormente, la evaluación del grado de repercusión hemodinámica y el estudio

de su cuadro hipertensivo. Se realizó la analítica sanguínea y de orina completa, el estudio ecocardiográfico y la ecografía abdominal. En la ecocardiografía, presentó una fracción de eyección del ventrículo izquierdo del 30%, insuficiencia mitral y tricúspide moderadas e hipertensión pulmonar moderada-grave. En la ecografía abdominal, se observó estenosis de la arteria renal derecha, de aspecto crónico, acompañada de atrofia renal derecha y crecimiento renal izquierdo compensador (*Figura 1*). Los resultados obtenidos en el análisis de sangre apoyaron este diagnóstico, con un sistema renina-angiotensina-aldosterona con índices elevados (aldosterona: 1356 pg/ml; valores de referencia: 15-133 pg/ml; actividad de renina plasmática: 271,6 ng/ml/hora; valores de referencia: 0,32-1,84 ng/ml/hora) y cifras de prohormona N-terminal del péptido natriurético cerebral (NT-ProBNP; biomarcador de insuficiencia cardíaca y antagonista natural del sistema renina-angiotensina-aldosterona) elevadas, con una cifra máxima de 98000 pg/ml (valores de referencia: 0-300 pg/ml).

El estado clínico de la paciente requirió iniciar el soporte inotrópico con milrinona (inhibidor de la fosfodiesterasa III) y el tratamiento antihipertensivo con nitroprusiato (vasodilatador directo arteriolar y venoso), captopril (inhibidor de la enzima convertidora de angiotensina) y bolos puntuales de hidralazina (vasodilatador directo). Presentó un progresivo control de las cifras tensionales, con mejoría hemodinámica secundaria. A las 48 horas, se asoció amlodipina (antagonista selectivo de los canales de calcio) y se incrementó la dosis de captopril, por lo que se pudo retirar el soporte con milrinona y nitroprusiato.

Se realizaron controles ecocardiográficos seriados, con mejoría progresiva de la función ventricular hasta normalizarse, y presentó hipertrofia del ventrículo izquierdo residual.

Cuando la paciente se encontraba estable, se prosiguió el estudio etiológico y se realizó una gammagrafía renal, que mostró la supresión funcional del riñón derecho, con el riñón izquierdo moderadamente aumentado de tamaño, con captación de radiotrazador normal (*Figura 2*). Se realizó, asimismo, un estudio oftalmológico con el objetivo de mostrar la repercusión sistémica del cuadro, que mostró una retinopatía hipertensiva grado III.

Debido a su mejoría clínica, la paciente fue dada de alta a los 28 días de vida con un tratamiento antihipertensivo por vía oral y

controles ambulatorios en consultas de Nefrología Infantil y Neonatología.

A los 15 meses de vida, la paciente se

encontraba sin tratamiento antihipertensivo desde los 12 meses y mantenía cifras de tensión arterial dentro de los percentiles adecuados para su edad.

FIGURA 1. Asimetría renal manifiesta, con riñón derecho disminuido de tamaño (A. Riñón izquierdo; B. Riñón derecho). Arterias renales (C. Arteria renal izquierda; D. Arteria renal derecha) permeables en el origen, de calibre normal; la derecha presenta disminución de su calibre en el tercio medio (véase el calibre señalado con flechas blancas). Los hallazgos sugieren estenosis de la arteria renal derecha, de aspecto crónico, con atrofia renal derecha y crecimiento renal izquierdo compensador.

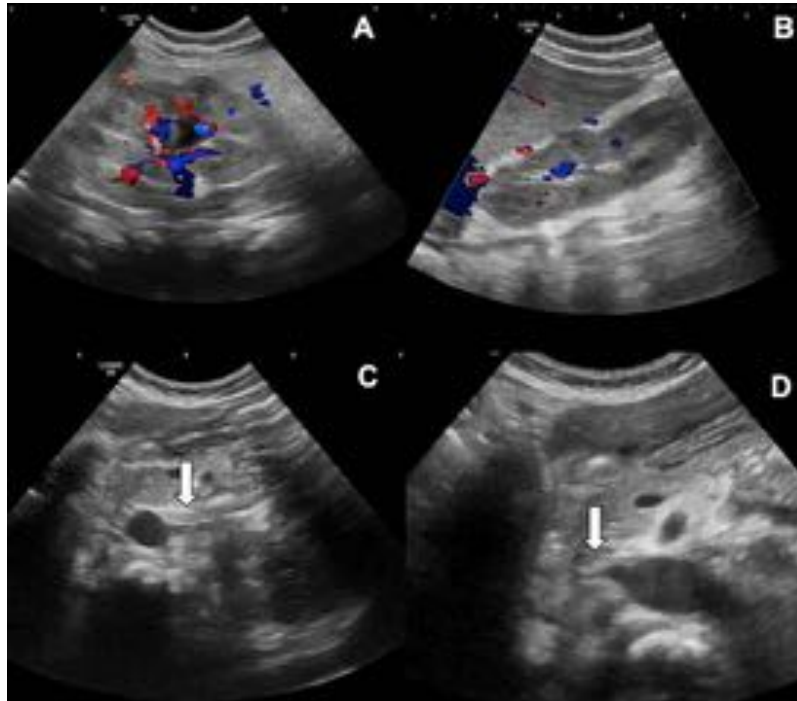
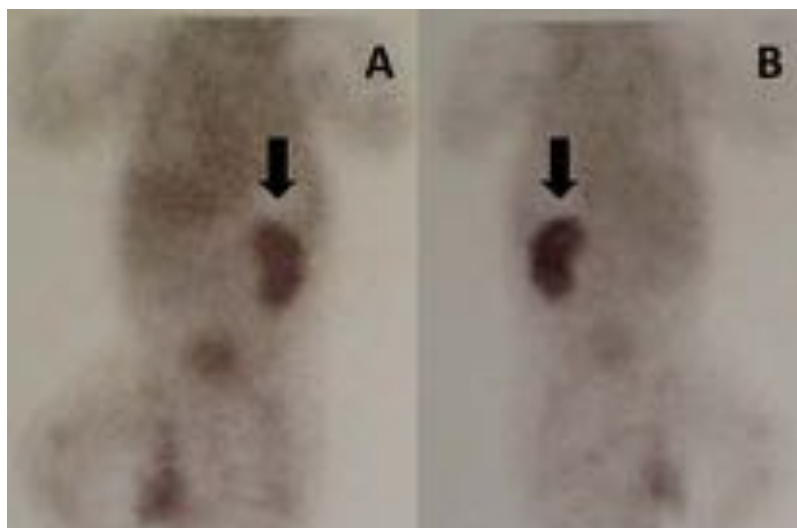


FIGURA 2. Supresión funcional del riñón derecho. Riñón izquierdo moderadamente aumentado de tamaño con captación normal de radiotrazador (flecha negra)



A. Imagen anteroposterior. B. Imagen posteroanterior.

Los controles ecocardiográficos revelaron una leve hipertrofia ventricular izquierda, sin repercusión en la actualidad, y la retinopatía hipertensiva se resolvió sin tratamiento. La ecografía abdominal seguía mostrando un riñón derecho atrófico, con señal doppler-color disminuida y registros de alta resistencia, por lo que continuaba siendo controlada de forma ambulatoria, pendiente de una posible nefrectomía unilateral derecha definitiva.

COMENTARIO FINAL

El caso de nuestra paciente presenta ciertas particularidades. Por una parte, el hecho de que se observaran cifras tensionales elevadas desde el primer momento en el que se monitorizó, junto con la importante repercusión hemodinámica y el hallazgo de hipertrofia ventricular izquierda, indica que el daño podría tener un origen crónico, posiblemente, como resultado de hipertensión arterial en la etapa fetal, como ocurre en algunos casos descritos previamente.^{2,3} A pesar de no haber encontrado una clara relación en la literatura, dentro de los pocos casos publicados de hipertensión arterial neonatal de causa renovascular, en algunos, existe el antecedente de diabetes materna, por lo que sería interesante continuar la investigación en estudios futuros.²

La presión arterial no se mide de forma rutinaria en los niños antes de la edad de 3 años. En consecuencia, la hipertensión arterial grave, raramente, se reconoce antes de esta edad, a menos que ocasione síntomas de forma temprana,⁸ como ocurrió con nuestra paciente, lo que facilitó la realización de un diagnóstico de forma precoz.

Por otra parte, la estenosis de la arteria renal, en esta etapa de la vida, presenta un particular reto debido al cuadro clínico de aparición brusca con empeoramiento progresivo y al difícil manejo antihipertensivo.

Un estudio publicado,⁸ en el que se realizó el seguimiento en una serie de 5 pacientes con diagnóstico de estenosis de la arteria renal durante su primer año de vida, muestra que todos ellos presentaron síntomas de falla cardíaca congestiva

con hipertrofia ventricular izquierda y fueron tratados con terapia farmacológica hasta los $4,4 \pm 0,9$ años, con corrección quirúrgica posterior en todos los casos. Se mantuvieron niveles tensionales por encima del percentil 95 para su edad durante el tratamiento farmacológico en 4 de los 5 casos, con posterior normalización en todos ellos tras la reparación vascular, durante un seguimiento de $9,4 \pm 2$ años.

Sin embargo, nuestra paciente se encontraba asintomática a los 15 meses de vida. Seguía con controles seriados en consultas de Nefrología para continuar el seguimiento tanto de la tensión arterial como de la función renal, con cifras tensionales mantenidas en percentiles adecuados, sin precisar el tratamiento farmacológico antihipertensivo y sin haber recibido tratamiento quirúrgico definitivo mediante nefrectomía de su riñón derecho con supresión funcional.

Esto contrasta con los casos previos publicados, en los que se precisó la administración del tratamiento farmacológico hasta la posibilidad de realizar la reparación vascular o la nefrectomía definitiva.^{2,3,8} ■

REFERENCIAS

1. Flynn JT. Etiology, clinical features, and diagnosis of neonatal hypertension. *UpToDate*. [Acceso: 13 de noviembre de 2017]. Disponible en: <https://www.uptodate.com/contents/etiology-clinical-features-and-diagnosis-of-neonatal-hypertension>.
2. Hegde S, Wright C, Shenoy M, et al. Renovascular hypertension commencing during fetal life. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed*. 2007; 92(4):F301-4.
3. Wilson DI, Appleton RE, Coulthard MG, et al. Fetal and infantile hypertension caused by unilateral renal arterial disease. *Arch Dis Child*. 1990; 65(8):881-4.
4. Robinson L, Gedroyc W, Reidy J, et al. Renal artery stenosis in children. *Clin Radiol*. 1991; 44(6):376-82.
5. Wilcox CS. Use of angiotensin-converting-enzyme inhibitors for diagnosing renovascular hypertension. *Kidney Int*. 1993; 44(6):1379-90.
6. Fernández Hernández CM, Sarabia Tirado F, Ocete Ocete, A et al. Estenosis de arteria renal, diagnóstico y tratamiento por imagen. *Radiología*. 2014; 56(Espec Cong):1280.
7. Flynn JT. Neonatal hypertension: diagnosis and management. *Pediatr Nephrol* 2000; 14(4):332-41.
8. Bendel-Stenzel M, Najarian JS, Sinaiko AR. Renal artery stenosis in infants: long-term medical treatment before surgery. *Pediatr Nephrol*. 1996; 10(2):147-51.

Osteomielitis crónica multifocal recurrente: caso clínico pediátrico

Chronic recurrent multifocal osteomyelitis: pediatric clinical case

Dra. Cristina G. Battagliotti^a, Dra. Daniela Rispolo Klubek^a y Dr. Luis Nobile^a

RESUMEN

La osteomielitis crónica multifocal recurrente fue recientemente clasificada dentro de las enfermedades autoinflamatorias, caracterizadas por episodios de inflamación sistémica, que incluyen indicadores serológicos de inflamación, en ausencia de autoanticuerpos o agentes patógenos.

La característica clínica es la aparición insidiosa de dolor, tumefacción y sensibilidad localizada sobre el hueso afectado, principalmente, en la metáfisis y epífisis de los huesos largos, clavícula y también vértebras. Son episodios autolimitados y recurrentes.

Se presenta a un paciente de 2 años y 2 meses con afectación ósea tipo osteolítica en dos focos aislados con un año de diferencia entre ambos episodios. La biopsia ósea fue compatible con osteomielitis crónica y se descartó patología de origen infeccioso, neoplásico y enfermedad proliferativa. Presentó buena respuesta al tratamiento con antiinflamatorios.

El conocimiento de esta entidad como diagnóstico diferencial evita el tratamiento antibiótico prolongado, estudios complementarios y biopsias óseas, considerando los criterios diagnósticos y recurrencia de los episodios.

Palabras clave: osteomielitis crónica multifocal recurrente.

ABSTRACT

Chronic recurrent multifocal osteomyelitis has recently been classified as an autoinflammatory disorder characterized by episodes of systemic inflammation including serological signs of inflammation occurring in the absence of autoantibodies or pathogen agents.

The insidious onset of pain with swelling and tenderness localized over the affected bones are the main manifestations. The metaphysis and epiphyses of the long bones, clavicle and vertebrae are affected.

We report a male patient aged 2 years and 2 months with osteomyelitis with lytic destruction in two different single sites with a year difference between the episodes.

Histological examination of the bone showed inflammation and chronic osteomyelitis, excluding the existence of infectious osteomyelitis, neoplasm and myeloproliferative disease.

Clinical symptoms improved under treatment with non-steroidal anti-inflammatory drugs.

Considering chronic recurrent multifocal osteomyelitis may shorten time to diagnosis in order to avoid potentially unnecessary prolonged courses of intravenous antibiotics, complementary studies and multiple biopsies.

Key words: chronic recurrent multifocal osteomyelitis.

a. Hospital de Niños Dr. Orlando Alassia, Santa Fe, Argentina.

Correspondencia:

Dra. Daniela Rispolo Klubek: danirispolok@gmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 3-1-2018

Aceptado: 24-4-2018

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.e679>

Cómo citar: Battagliotti CG, Rispolo Klubek D, Nobile L. Osteomielitis crónica multifocal recurrente: caso clínico pediátrico. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):e679-e683.

INTRODUCCIÓN

La osteomielitis crónica multifocal recurrente (CMRO) fue recientemente clasificada dentro de las enfermedades autoinflamatorias, caracterizadas por episodios de inflamación sistémica e indicadores serológicos de inflamación, en ausencia de autoanticuerpos o agentes patógenos.¹⁻³

Fue descrita por primera vez en 1972 por Giedion como una forma inusual de lesión ósea subaguda-crónica.¹ En la actualidad, hay alrededor de 400 casos publicados en la literatura, pero la verdadera prevalencia es difícil de aseverar, ya que es una patología subdiagnosticada.^{2,3}

La característica clínica es la aparición insidiosa de dolor con tumefacción y sensibilidad localizada sobre el hueso afectado, principalmente, la metáfisis y epífisis de huesos largos, la clavícula e incluso las vértebras.^{4,5}

Esta afección es desconocida muchas veces, por lo que el cuadro se interpreta, inicialmente, como osteomielitis infecciosa. El retraso en el diagnóstico conduce al uso prolongado de antibióticos, estudios por imágenes y múltiples biopsias.

El diagnóstico de CMRO es por exclusión de otras patologías que requieren biopsia, ya sean infecciosas, neoplásicas, metabólicas o procesos linfoproliferativos.^{4,5}

Se presenta a un paciente de 2 años y 2 meses con dos focos de osteomielitis activa y se enfatizan las dificultades diagnósticas del caso.

CASO CLÍNICO

Se trata de un varón de 2 años y 2 meses, con antecedente de haber padecido, al año de vida, un episodio de dolor y cojera del miembro inferior izquierdo, en el que se constató, por radiografía, una lesión osteolítica en el cuello

femoral, con imagen de hiperintensidad en la resonancia, compatible con un proceso inflamatorio (Figura 1). Se realizó una biopsia ósea, que informó osteomielitis ósea con focos de necrosis óseas con neoformación y médula ósea con infiltrado inflamatorio, predominantemente, linfocitos, histiocitos, algunas células plasmáticas y células gigantes multinucleadas. Los cultivos óseos fueron negativos y continuó el seguimiento ambulatorio.

Consultó nuevamente al año de este episodio por dolor y tumefacción en el hombro de una

FIGURA 1. Resonancia magnética nuclear de pelvis con contraste, que muestra una lesión en el cuello femoral izquierdo. Se evidencia un área de refuerzo de 6,6 mm, compatible con un proceso inflamatorio-infeccioso focal.



FIGURA 2. Radiografía de la escápula izquierda con múltiples imágenes radiolúcidas osteolíticas



semana de evolución. Al momento del examen físico, presentaba el miembro superior izquierdo en posición de flexión y aducción antiálgica con una tumoración roja dolorosa ante la palpación en la escápula izquierda. El resto del examen, sin particularidades.

En el análisis de laboratorio, glóbulos blancos: 11 700 cél./ml (40 neutrófilos 50 linfocitos); hematocrito: 31,9%; hemoglobina: 10,8 g/dl; velocidad de eritrosedimentación: 26 mm; proteína C reactiva (PCR): 5,63 mg/dl. En la radiografía y la tomografía axial computada (TAC) del miembro superior, se observaban lesiones osteolíticas en la escápula (Figuras 2 y 3). Tanto la prueba cutánea de derivado proteico purificado (*purified protein derivative*; PPD, por sus siglas en inglés) como los cultivos para tuberculosis y otras micobacterias fueron negativos, como así también la serología para brucelosis. Los niveles de gammaglobulina se encontraban acordes para la edad.

Al inicio, se medicó con clindamicina e ibuprofeno, con la toma previa de la biopsia y cultivos. Tanto los hemocultivos como los cultivos del tejido óseo fueron negativos, por lo que se suspendió el antibiótico. Recibió solo 5 días de clindamicina parenteral a razón de 40 mg/kg/día durante la internación y fue dado de alta con antiinflamatorios no esteroides por vía oral.

La biopsia ósea informó un cuadro histopatológico semejante al anterior, con

FIGURA 3. Tomografía axial computada del hombro y la escápula con reconstrucción 3D. Se observan lesiones de tipo osteolítico en el borde lateral y en la cara costal de la escápula



tejido fibroso y trabéculas óseas reticulares de reciente formación con aposición osteoblástica y reabsorción osteoclástica, separadas por médula fibrosa con infiltrados linfocitarios, tejidos de granulación con vasos de neoformación y acúmulos histiocitarios mono- y multinucleados. Obligó el diagnóstico diferencial con un cuadro osteomielítico activo y un granuloma eosinófilo (Figura 4).

La inmunomarcación por técnicas inmunohistoquímicas fue negativa para el CD1a y S100.

En ambos episodios, el paciente se recuperó completamente, con un mes de evolución desde el comienzo de los síntomas clínicos hasta su completa desaparición. Los síntomas y el proceso inflamatorio fueron autolimitados con buena respuesta a los antiinflamatorios.

DISCUSIÓN

La CMRO, también llamada osteomielitis crónica no bacteriana, es una rara enfermedad clasificada recientemente dentro de las enfermedades autoinflamatorias.⁴ Estas últimas se tratan de desórdenes clínicos caracterizados por episodios de inflamación sistémica, con exacerbaciones y remisiones, en ausencia de autoanticuerpos o agentes patógenos. En la última década, se han producido grandes avances al identificarse la base genética causal, que permite explicar la etiopatogenia de estas enfermedades. Debido a las mutaciones genéticas, se codifican proteínas anómalas, que son mediadoras de

las respuestas de inflamación y apoptosis, con desregulación y desarrollo de cuadros de características inflamatorias.^{6,7}

En el caso de la CMRO, puede presentarse aislada o asociada a lesiones cutáneas, como en el síndrome sinovitis, acné, pustulosis, hiperostosis, osteomielitis (SAPHO) o en el síndrome de Sweet, que se presenta con fiebre y lesiones dolorosas en la piel. También se ha descrito su coexistencia con enfermedades sistémicas, como granulomatosis de Wegener y enfermedad inflamatoria intestinal con base genética común.

Hay dos síndromes autoinflamatorios que acompañan la CMRO, el de Majeed (anemia diseritropoyética, sinovitis, artritis, acné) y la deficiencia en el antagonista del receptor de la interleuquina 1 (*deficiency of the interleukin-1 receptor antagonist*; DIRA, por sus siglas en inglés; que se presenta con lesiones cutáneas y óseas graves), en los que la causa genética es bien conocida, sin estar establecida aun cuando se presenta en la forma aislada.⁸

Afecta, principalmente, a niños y adolescentes, con una media de edad de 8 años y un ligero predominio en el sexo femenino.⁹

Su síntoma fundamental es el dolor óseo inflamatorio, insidioso, acompañado de edema, que asocia, en ocasiones, fiebre o astenia. Es frecuente la presentación multifocal y simétrica, aunque puede tener un solo foco óseo.⁵

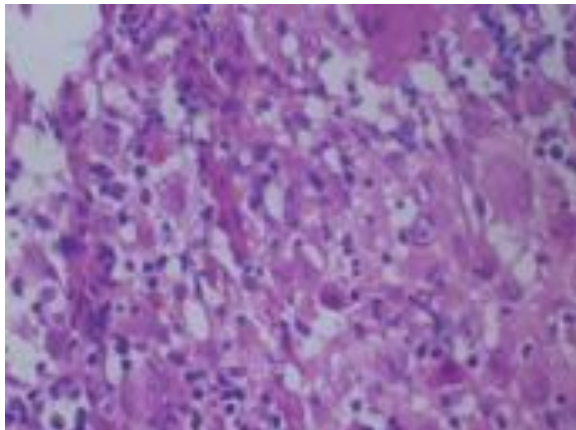
La localización más típica es la metáfisis de huesos largos, fémur, tibia, huesos pélvicos y clavícula, que afecta, en ocasiones, la mandíbula y la columna vertebral.^{4,5}

Nuestro caso fue un varón de 24 meses con dos focos con sintomatología de dolor e impotencia funcional del miembro afectado, afebril y sin síntomas sistémicos. La localización fue en el cuello del fémur y la escápula, con lesiones osteolíticas.

El diagnóstico de CMRO es de exclusión, especialmente, en las formas con foco único, basado en los síntomas clínicos y estudios complementarios, y es necesario el diagnóstico diferencial con osteomielitis infecciosa, granuloma eosinófilo y neoplasias, como sarcoma de Ewing y enfermedades proliferativas.⁴ Los resultados de laboratorio son inespecíficos, con aumento, en ocasiones, de los reactantes de fase aguda, VES y PCR.⁹

H. J. Girschick y col.,^{10,11} realizan una descripción de los hallazgos imagenológicos característicos de la enfermedad vistos en las radiografías, centellograma, TAC y resonancia

FIGURA 4 (HE: 10 X 10). Tejido óseo de la escápula, que muestra trabéculas reticulares con aposición osteoblástica y reabsorción osteoclástica reciente con infiltrado inflamatorio activo en la médula ósea, con acúmulo de linfocitos e histiocitos y células gigantes multinucleadas



magnética nuclear (RMN) de los huesos afectados. La radiografía es variable, y pueden presentarse lesiones osteolíticas, esclerosis o ambas. La destrucción ósea sin reacción perióstica o secuestro óseo es característica.

La RMN puede ser útil para evaluar la actividad de las lesiones e identificar el sitio apropiado para realizar la biopsia.¹⁰

La anatomía patológica con el estudio histopatológico a través de la biopsia ósea es necesaria y cobra importancia cuando no es posible descartar enfermedad neoplásica o infecciosa.^{10,11}

H. J. Girschick¹⁰ describe los hallazgos anatomopatológicos en 12 pacientes, que consisten en un proceso inflamatorio crónico de tipo linfocitario, con células plasmáticas e histiocitos. La inmunomarcación muestra predominancia de CD3 (+), CD45RO (+) y celular T, CD8 (+).

En nuestro caso, se volvieron a revisar las dos biopsias óseas, que tenían los mismos hallazgos de inflamación y necrosis con aumento del

número de células plasmáticas tipo histiocitos, lo que obligó al diagnóstico diferencial con histiocitosis. La inmunomarcación con CD 1a, que identificaba las células de Langerhans, fue negativa, lo que hizo poco probable el diagnóstico de histiocitosis.

Debido a no encontrarse definidos los hallazgos específicos para esta patología, el diagnóstico definitivo debe ser multidisciplinario a partir de la clínica y los métodos complementarios.¹²

Un estudio retrospectivo del Hospital de Niños Bristol Royal de Inglaterra, que incluyó a 41 pacientes, describe una media de edad de inicio de los síntomas a los 9 años (rango de 1 a 13 años) y una media de tiempo entre el inicio de los síntomas y el diagnóstico de 15 meses, con un rango de entre 1 y 92 meses. El estudio destaca que la aplicación de los criterios diagnósticos de Handrick (*Tabla 1*) disminuyó la necesidad de biopsia en algunos pacientes.⁹

El tratamiento de esta enfermedad no está bien definido. Los episodios de autoinflamación

TABLA 1. Criterios diagnósticos de Handrick

Hallazgos de síntomas clínicos:

- Buen estado general
- Afebril o fiebre leve
- Hallazgos de inflamación local (tumoración, rubor, calor)
- Algunas veces, multifocal
- Algunas veces, con afectación de la piel

Hallazgos de laboratorio:

- Incremento de la velocidad de eritrosedimentación
- Hemograma normal
- PCR, la mayoría de las veces, negativa
- Factor reumatoide, anticuerpos antinucleares, HLA-B27, la mayoría de las veces, indetectables
- Sin evidencia de agentes infecciosos

Hallazgos histológicos:

- Inflamación no específica (inicialmente, neutrofílica y luego linfomonocítica)

Hallazgos imagenológicos:

- Radiografía: inicialmente, osteólisis; luego, esclerosis (sobre todo, en metafisis de huesos largos)
- Gammagrafía: claro incremento focal de la actividad en las articulaciones afectadas
- RM: cambios que dependen del grado de actividad inflamatoria

Tratamiento, evolución y pronóstico:

- Los antibióticos no tienen efecto
- Mejoría con AINES
- Evolución recurrente y crónica
- Buen pronóstico

son limitados. Se utilizan antiinflamatorios no esteroides y, recientemente, bifosfonatos, como pamidronato en ciclos de 1 mg/kg/día por tres días, para controlar, de esta forma, los signos de inflamación.¹⁰⁻¹³

Algunos autores recomiendan el uso de azitromicina para el tratamiento de la CMRO por su efecto inmunomodulador y antiinflamatorio.¹⁴

El pronóstico de la enfermedad es bueno, con episodios autolimitados, sin secuelas en la mayoría de los casos. A. M. Huber y col.,¹⁵ presentan el seguimiento de pacientes con CMRO durante cinco años, con buen pronóstico a largo plazo, aunque un pequeño porcentaje persistió con actividad de la enfermedad y presentó riesgo de complicaciones físicas y psicológicas.

CONCLUSIÓN

Interesa el conocimiento de esta entidad autoinflamatoria como diagnóstico diferencial en niños con sintomatología ósea para evitar el uso innecesario de tratamiento antibiótico prolongado, estudios complementarios y biopsias óseas, teniendo en cuenta los criterios diagnósticos y la recurrencia de los episodios. ■

Agradecimientos

Los autores agradecen a los profesionales del laboratorio Araujo Santino por su interés en el estudio de las biopsias óseas y al Dr. Bernardo Abranson, jefe de Traumatología del Hospital de Niños Dr. Orlando Alassia.

REFERENCIAS

- Giedion A, Holthussen W, Masel LF, et al. Subacute and chronic "symmetrical" osteomyelitis. *Ann Radiol (Paris)* 1972; 15(3):329-42.
- Carr AJ, Cole WG, Robertson DM, et al. Chronic multifocal osteomyelitis. *J Bone Joint Surg Br* 1993; 75(4):582-591.
- Gamble JG, Rinsky LA. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis: a distinct clinical entity. *J Pediatr Orthop* 1986; 6(5):579-84.
- Estrada-Castrillón M, Ruiz-Zabaleta T. Osteomielitis crónica multifocal recurrente: presentación de un caso. *CES Med* 2011; 25(1):109-18.
- Ariza Jiménez A, Núñez Cuadros E, Galindo Zavala R, et al. Osteomielitis multifocal recurrente en niños: experiencia de un centro de tercer nivel. *Reumatol Clin*. 2017 [En prensa]. [Acceso: 2 de mayo de 2018]. Disponible en: <http://www.reumatologiaclinica.org/es/osteomielitis-multifocal-recurrente-ninos-experiencia/avance/S1699258X17300906/>.
- Federici S, Sormani MP, Ozen S, et al. Evidence-based provisional clinical classification criteria for autoinflammatory periodic fevers. *Ann Rheum Dis* 2015; 74(5):799-805.
- Jansson A, Renner ED, Ramser J, et al. Classification of non-bacterial osteitis: retrospective study of clinical, immunological and genetic aspects in 89 patients. *Rheumatology (Oxford)* 2007; 46(1):154-60.
- Cox A, Darbro B, Laxer R, et al. Recessive coding and regulatory mutations in FBLIM1 underlie the pathogenesis of chronic recurrent multifocal osteomyelitis (CRMO). *PLoS One* 2017; 12(3):e0169687.
- Roderick M, Shah R, Rogers V, et al. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis (CRMO)—advancing the diagnosis. *Pediatr Rheumatol Online J* 2016; 14(1):47.
- Girschick H, Huppertz H, Harmsen D, et al. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis in children: diagnostic value of histopathology and microbial testing. *Hum Pathol* 1999; 30(1):59-65.
- Kaiser D, Bolt I, Hofermm M, et al. Chronic nonbacterial osteomyelitis in children: a retrospective multicenter study. *Pediatr Rheumatol Online J* 2015; 13:25.
- Compeyrot-Lacassagne S, Rosenberg AM, Babyn P, et al. Pamidronate treatment of chronic noninfectious inflammatory lesions of the mandible in children. *J Rheumatol* 2007; 34(7):1585-9.
- Kufeji O, Withana K, Michaelis L. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis is a differential of childhood limp. *Arch Dis Child* 2006; 91(1):30.
- Schilling F, Wagner AD. Azithromycin: an anti-inflammatory effect in chronic recurrent multifocal osteomyelitis? A preliminary report. *Z Rheumatol* 2000; 59(5):352-3.
- Huber AM, Lam PY, Duffy CM, et al. Chronic recurrent multifocal osteomyelitis: Clinical outcomes after more than five years of follow-up. *J Pediatr* 2002; 141(2):198-203.

Escorbuto secundario a una dieta restrictiva en un niño con diagnóstico de trastorno del espectro autista. Reporte de un caso

Scurvy due to restrictive diet in a child with autism spectrum disorder.

Case report

Dra. Melina J. Saavedra^a, Dra. Julieta Aziz^a y Dr. Nicolás Cacchiarelli San Román^a

RESUMEN

Actualmente, el escorbuto es una entidad infrecuente en pediatría. Se han publicado reportes de casos que describen la enfermedad en lactantes alimentados con leche hervida, en pacientes con sobrecarga de hierro por enfermedades hematológicas y en niños con restricciones alimentarias por trastornos del neurodesarrollo.

Se reporta el caso de un paciente masculino de 4 años con diagnóstico de trastorno del espectro autista que desarrolló la enfermedad por un hábito alimentario selectivo de larga evolución, sin ingesta de frutas ni verduras.

La importancia del reporte radica en informar al pediatra y a otros profesionales dedicados a la atención primaria de salud acerca del desarrollo de escorbuto como potencial consecuencia de las dietas restrictivas en niños con trastornos del neurodesarrollo y de la trascendencia de la anamnesis alimentaria en pacientes con patología para evitar enfermedades asociadas a micronutrientes.

Palabras clave: escorbuto, ácido ascórbico, trastorno del espectro autista, trastornos de alimentación y de la ingestión de alimentos, deficiencia nutricional.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.e684>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.e684>

Cómo citar: Saavedra MJ, Aziz J, Cacchiarelli San Román N. Escorbuto secundario a una dieta restrictiva en un niño con diagnóstico de trastorno del espectro autista. Reporte de un caso. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):e684-e687.

a. Departamento de Pediatría, Servicio de Clínica Pediátrica, Hospital Italiano de Buenos Aires, Ciudad Autónoma de Buenos Aires.

Correspondencia:

Dra. Melina J. Saavedra: melina.saavedra@hiba.org.ar

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 13-1-2018

Aceptado: 18-4-2018

INTRODUCCIÓN

El escorbuto es la enfermedad causada por la deficiencia nutricional de ácido ascórbico (vitamina C). Los seres humanos, a diferencia de otros seres vivos, no pueden sintetizarla y, en consecuencia, dependen estrictamente de su aporte exógeno.¹

En la actualidad, el escorbuto es una entidad poco frecuente en la población pediátrica.² Se han publicado reportes de casos que describen la enfermedad en lactantes alimentados con leche hervida, así como en pacientes con sobrecarga de hierro secundaria a enfermedades, como anemia de células falciformes, talasemia y trasplantados de médula ósea, y en niños con restricciones alimentarias secundarias a trastornos del neurodesarrollo.²⁻¹¹

REPORTE DE CASO

Se reporta el caso de un paciente masculino de 4 años, que consultó por artralgias e imposibilidad para la bipedestación, asociado a petequias y equimosis en los miembros inferiores.

Presentaba el diagnóstico de trastorno del espectro autista desde los 27 meses y antecedente familiar de prima por herencia materna con igual diagnóstico.

El cuadro comenzó un mes antes de la internación con la claudicación de la marcha sin otros síntomas asociados. Al momento de la exploración, presentaba una limitación a la flexoextensión y a la rotación de ambas caderas. Se realizó una ecografía, compatible con sinovitis transitoria de la cadera derecha. Evolucionó con irritabilidad y afectación de la cadera contralateral. Las articulaciones no presentaban signos de flogosis. Las radiografías de ambas caderas fueron normales y la ecografía mostró un engrosamiento sinovial bilateral. Se consideró el cuadro como sinovitis transitoria bilateral de cadera y se reforzó el tratamiento con antiinflamatorios no esteroideos (AINES).

El niño persistió con los síntomas a pesar del tratamiento sintomático instaurado y fue referido

a Reumatología para continuar la evaluación. Sin cambios en la semiología, se solicitó un examen de laboratorio, que evidenció anemia microcítica e hipocrómica (hemoglobina: 10 mg/dl), eritrosedimentación levemente aumentada (33 mm/h), mientras que los glóbulos blancos, las plaquetas y el coagulograma se encontraban dentro de los límites normales.

Progresó con imposibilidad para deambular y aumento del dolor. No toleraba permanecer sentado o en decúbito; solo se calmaba en los brazos de su madre. Dado el empeoramiento clínico, se decidió su internación en nuestro Servicio. Al ingresar, se lo encontró con marcada

irritabilidad, posición de rana (ambas caderas y rodillas en flexión y abducción), ausencia de movilidad activa y limitación a la movilización pasiva secundaria al dolor en ambas caderas, las rodillas, el hombro y el codo derecho. Presentaba petequias distribuidas difusamente en los miembros inferiores y equimosis espontáneas en las rodillas (Figura 1). Se repitió el análisis de laboratorio, que no presentó cambios.

Las manifestaciones clínicas persistieron a pesar del tratamiento con AINES endovenosos, por lo que comenzaron a surgir diagnósticos presuntivos, tales como enfermedades reumatológicas u oncohematológicas. Se ordenó un centellograma óseo corporal total, que no mostró asimetrías en la captación.

Durante la internación luego de una exhaustiva anamnesis, se puso de manifiesto que el niño tenía alimentación selectiva, debido al rechazo de una amplia variedad de alimentos ofrecidos durante las comidas. El hábito restrictivo se había iniciado a los 18 meses de vida y consistía en el consumo preferentemente de sémola de trigo, yogur y postres de vainilla, sin ingesta de frutas y verduras.

El niño presentaba peso en el percentil 25 y talla en el percentil 90 con un puntaje Z de peso para la talla entre -2 y -3 desvíos estándar, basado en las tablas de la Organización Mundial de la Salud (OMS). Frente al antecedente de restricción alimentaria asociado al cuadro clínico, se sospechó escorbuto como posible diagnóstico.

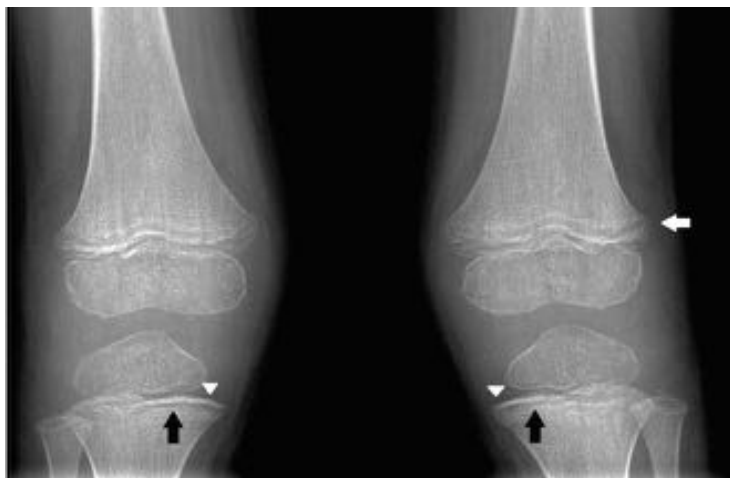
Se solicitaron radiografías de huesos largos, en las que se observaron hallazgos compatibles con escorbuto (Figura 2).

FIGURA 1. Lesiones hemorrágicas en la piel



A y B. Petequias distribuidas difusamente en los miembros inferiores asociadas a equimosis.

FIGURA 2. Lesiones óseas



Radiografía de ambas rodillas, de frente. Se observa la presencia de espolones metafisarios (flecha blanca), ensanchamiento de la zona de calcificación provisional (línea blanca de Frankl) (punta de flecha blanca) y una banda transversal radiolúcida en la metafisis (línea de escorbuto o zona de Trummerfeld) (flecha negra).

Se realizó el dosaje de vitamina C y se inició el tratamiento con 300 mg/día de ácido ascórbico. Posteriormente, se obtuvo el resultado, que se encontró por debajo del límite normal (0,5 mg/dl para valores de referencia entre 0,6 mg/dl y 2 mg/dl).

El paciente fue dado de alta con mejoría del dolor y recuperó la marcha a los 5 días de tratamiento.

Inició el seguimiento con un especialista en nutrición, con el objetivo de lograr una dieta equilibrada adecuada a sus gustos. Se estudiaron otros micronutrientes, como calcio y proteínas, que se hallaron dentro de los valores normales. Actualmente, continúa asintomático, en seguimiento con el pediatra de cabecera, con un aporte de ácido ascórbico de 100 mg por día.

DISCUSIÓN

El escorbuto es una enfermedad antigua de la que hay registro desde el año 1500 a. C. Su tratamiento fue descrito en el año 1753, cuando James Lind, médico de la marina inglesa, observó que los marinos con escorbuto mejoraban los síntomas 6 días después del inicio de la ingesta de cítricos.^{11,12}

El trastorno del espectro autista es un trastorno del desarrollo caracterizado por déficit en la interacción social y en la comunicación e intereses restringidos.^{13,14} Se ha reportado que entre el 46% y el 89% de estos pacientes presentan un hábito alimentario alterado caracterizado por una dieta selectiva con preferencia por los carbohidratos, *snacks* y comida procesada y por el rechazo a las frutas y verduras.¹⁰ Esta conducta puede llevar a un déficit de macro- y micronutrientes. La mayoría de estos casos fueron publicados como reportes o series de casos.³⁻⁹ En el metaanálisis de Sharp et al.,¹⁰ se describió un déficit nutricional de calcio y proteínas en estos pacientes y, si bien se observó menor ingesta de vitaminas A, C, D y E comparada con aquella en pares sanos, la diferencia para estos nutrientes no fue estadísticamente significativa.¹⁰ Con frecuencia, estos niños tienen un consumo energético adecuado, por lo que alcanzan a consumir el equivalente a su requerimiento calórico diario y logran un progreso pondoestatural dentro de los límites normales, de modo que el déficit nutritivo queda enmascarado hasta la aparición de los síntomas.¹⁰

El ácido ascórbico es un cofactor esencial en la hidroxilación del colágeno y la hidroxilación del neurotransmisor dopamina a noradrenalina.

El déficit de vitamina C produce defectos en la formación del colágeno y alteraciones en la producción de sulfato de condroitina, y se manifiesta clínicamente con síntomas dermatológicos y hemorragias subperiósticas, respectivamente.⁶ Tal como presentó nuestro paciente, el escorbuto se evidencia frecuentemente con hiperqueratosis y lesiones hemorrágicas en la piel, como equimosis y petequias con distribución perifolicular. Asimismo, se reportó hipertrofia gingival asociada a sangrados y áreas de encía necrótica.³⁻¹⁰ Las manifestaciones musculoesqueléticas constituyeron el motivo de consulta en nuestro caso y pueden presentarse con dolor generalizado y edema con predominio en los miembros inferiores, lo que determina la posición antiálgica de rana, la cojera o la negación a deambular.³⁻¹⁰

Está descrito que los signos y síntomas del escorbuto se desarrollan luego de 1 a 3 meses de ingesta inadecuada de vitamina C (menor de 10 mg/día).¹¹

El diagnóstico es clínico; sin embargo, algunos exámenes complementarios son orientativos. El hemograma suele presentar anemia leve y reactantes de fase aguda (eritrosedimentación y proteína C reactiva) ligeramente elevados. En nuestro caso, el paciente presentaba análisis de laboratorio y radiografías compatibles con el diagnóstico y un centellograma no concluyente.

En la actualidad, dado el bajo índice de sospecha de escorbuto, los pacientes son sometidos a múltiples estudios complementarios con el fin de descartar, principalmente, enfermedades oncohematológicas y reumatológicas.^{2-5,7,8}

La respuesta satisfactoria al aporte de ácido ascórbico constituye la confirmación diagnóstica. Luego de haber comenzado el tratamiento, la mejoría del estado general de los pacientes está descrita en las primeras 24 horas; la disminución del dolor, en 2 o 3 días, y los síntomas musculoesqueléticos, en algunas semanas.¹⁵ En este caso, nuestro paciente inició el tratamiento con ácido ascórbico a razón de 300 mg por día; a las 48 horas, disminuyó el requerimiento de analgésicos y, a los 5 días, logró la bipedestación.

Los niveles descendidos de ácido ascórbico pueden apoyar el diagnóstico. En la literatura, los pacientes con escorbuto a los que se les realizó el dosaje presentaron valores por debajo de 0,2 mg/dl, los cuales fueron menores que los hallados en nuestro paciente (0,5 mg/dl). Sin embargo, la signo-sintomatología desarrollada y

la pronta respuesta al tratamiento con vitamina C confirmaron la sospecha diagnóstica.

CONCLUSIÓN

La selectividad alimentaria por textura, tipo o presentación es uno de los desafíos que enfrentan los niños con trastornos del espectro autista.

La evaluación de las características de la nutrición debe formar parte del control de salud rutinario pediátrico, especialmente, en esta población y en niños con patologías, para evitar el desarrollo de enfermedades por déficit de micronutrientes.

Los pediatras deben considerar el diagnóstico de escorbuto cuando los pacientes se presentan con cojera, negación a deambular y/o petequias, equimosis o hipertrofia gingival. La sospecha pertinaz de esta enfermedad evitaría exámenes complementarios innecesarios y el tratamiento temprano ayudaría a revertir los síntomas y prevenir complicaciones. ■

Agradecimientos

A las doctoras Lucía Pérez y Celeste Puga por la revisión del manuscrito y su asesoramiento.

REFERENCIAS

- Levine M. New concepts in the biology and biochemistry of ascorbic acid. *N Engl J Med* 1986; 314(14):842-902.
- Weinstein M, Babyn P, Zlotkin S. An orange a day keeps the doctor away: scurvy in the year 2000. *Pediatrics* 2001; 108(3):e55.
- Niwa T, Aida N, Tanaka Y, et al. Scurvy in a child with autism: Magnetic Resonance Imaging and pathological findings. *J Pediatr Hematol Oncol* 2012; 34(6):484-7.
- Golriz F, Donnelly LF, Devaraj S, et al. Modern American Scurvy - Experience With Vitamin C Deficiency at a Large Children's Hospital. *Pediatr Radiol* 2016; 47(2):214-20.
- Ma NS, Thompson C, Weston S. Brief Report: Scurvy as a Manifestation of Food Selectivity in Children with Autism. *J Autism Dev Disord* 2015; 46(4):1464-70.
- Duggan CP, Westra SJ, Rosenberg AE. Case records of the Massachusetts General Hospital. Case 23-2007. A 9-year-old boy with bone pain, rash, and gingival hypertrophy. *N Engl J Med* 2007; 357(4):392-400.
- Gongidi P, Johnson C, Dinan D. Scurvy in an autistic child: MRI findings. *Pediatr Radiol* 2013; 43(10):1396-9.
- Kitcharoensakkul M, Schulz CG, Kassel R, et al. Scurvy revealed by difficulty walking: Three cases in young children. *J Clin Rheumatol* 2014; 20(4):224-8.
- Sharp WG, Berry RC, McCracken C, et al. Feeding problems and nutrient intake in children with autism spectrum disorders: A meta-analysis and comprehensive review of the literature. *J Autism Dev Disord* 2013; 43(9):2159-73.
- Larralde M, Santos Muñoz A, Boggio P, et al. Scurvy in a 10-month-old boy. *Int J Dermatol* 2007; 46(2):194-8.
- Hodges RE, Hood J, Canham JE, et al. Clinical manifestations of ascorbic acid deficiency in man. *Am J Clin Nutr* 1971; 24(4):432-43.
- Carpenter KJ. A short history of nutritional science: Part 1 (1785-1885). *J Nutr* 2003; 133(3):638-45.
- Developmental Disabilities Monitoring Network Surveillance Year 2010 Principal Investigators; Centers for Disease Control and Prevention (CDC). Prevalence of autism spectrum disorder among children aged 8 years - Autism and developmental disabilities monitoring network, 11 sites, United States, 2010. *MMWR Surveill Summ* 2014; 63(2):1-21.
- American Psychiatric Association. Diagnostic and statistical manual of mental disorders. 4th ed. Washington, DC: American Psychiatric Association; 2000.
- Hirschmann JV, Raugi GJ. Adult scurvy. *J Am Acad Dermatol* 1999; 41(16):895-906.

Scurvy due to restrictive diet in a child with autism spectrum disorder. Case report

Melina J. Saavedra M.D.^a, Julieta Aziz M.D.^a and Nicolás Cacchiarelli San Román M.D.^a

ABSTRACT

Scurvy is a very uncommon entity in pediatric population. Some case reports have been published in infants fed with boiled milk, in patients with iron overload secondary to hematological diseases and in children with food restrictions secondary to neurodevelopmental disorders.

We report a case of a 4-year-old male patient with a diagnosis of autism spectrum disorder, which developed scurvy secondary to a long-term selective eating habit without fruit or vegetable intake.

The objective of this case report is to announce the pediatrician and other professionals dedicated to primary health care about scurvy as a potential consequence of restrictive diets in children with autism spectrum disorders as well as the importance of dietary history in sick patients to prevent associated micronutrient deficiencies.

Key words: *scurvy, ascorbic acid, autism spectrum disorder, Feeding and Eating Disorders, Nutritional Deficiency.*

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.eng.e684>

To cite: Saavedra MJ, Aziz J, Cacchiarelli San Román N. Scurvy due to restrictive diet in a child with autism spectrum disorder. Case report. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):e684-e687.

INTRODUCTION

Scurvy is a disease caused by the nutritional deficiency of ascorbic acid (Vitamin C). Humans, unlike other living beings, cannot synthesize it. Consequently, they depend strictly on their exogenous contribution.¹

Currently, scurvy is a rare entity in the pediatric population.² There are few reports in the literature describing the development of the disease in infants fed with boiled milk, as well as in patients with iron overload secondary to conditions such as sickle cell disease, thalassemia and bone marrow transplant and also in children with dietary restrictions secondary to psychiatric or neurodevelopmental disorders.²⁻¹¹

CASE REPORT

We report a case of a 4-year-old male patient with a diagnosis of autism spectrum disorder. He was examined in our institution due to hip pain and refusal to walk, associated with petechiae and bruising of the lower limbs.

She has been diagnosed with autism spectrum disorder since age 27 months and she has a family history contributory with a cousin with the same diagnosis.

The symptoms began one month prior to admission with gait claudication without another symptom. The physical examination revealed limitation to flexion-extension and rotation of both hips. An ultrasound was performed and was compatible with transient synovitis of the right hip. The patient looked irritable and developed contralateral hip pain. The joints seemed normal. X-Rays of both hips were normal and the ultrasound showed bilateral synovial thickening. The clinical manifestations were assumed as bilateral transient synovitis of the hip, so we reinforced the treatment with nonsteroidal anti-inflammatory drugs (NSAID).

The child persisted with the symptoms despite the treatment indicated and was referred to Rheumatology for further evaluation. The physical examination remained the same. Some laboratory tests were requested, which showed microcytic and hypochromic anemia (hemoglobin 10 mg/dl), slightly increased erythrocytation (ESR) (33 mm/h) whereas white blood cells, platelets and coagulogram were within normal limits.

The patient progressed with inability to walk and increased hip pain. He could not remain sitting or lying down, he just could calm down

a. Department of Pediatrics. Division of Clinical Pediatrics. Hospital Italiano de Buenos Aires. Ciudad de Buenos Aires.

E-mail address:

Melina J. Saavedra M.D.: melina.saavedra@hiba.org.ar

Funding: None.

Conflict of interest: None.

Received: 1-13-2018

Accepted: 4-18-2018

in his mother's arms. Because of worsening of symptoms, we decided to admit him for further evaluation in our service. Higher irritability was observed, with frog position of lower limbs (hips and knees in flexion and abduction), absence of active mobility and limitation to passive mobilization secondary to bilateral hip, knee, shoulder and right elbow pain. Diffuse petechiae were found on the lower limbs, as well as spontaneous bruising on the knees. (Figure 1) The laboratory tests were repeated, with persistent mild anemia and slightly elevated ESR.

FIGURE 1. Skin hemorrhagic lesions



A y B. Diffuse petechiae in both lower limbs associated with ecchymosis.

Clinical manifestations persisted besides intravenously NSAID. Those symptoms raised concern about possible rheumatological or oncohematological diagnosis. Therefore, a total body bone scan was performed, which was non-conclusive.

During the hospitalization and after an exhaustive anamnesis it was revealed that the child had selective feeding habit, due to the rejection of a wide variety of foods offered during meals. The restrictive habit began at age 18 months with consumption preferably of wheat semolina and dairy snacks, without intake of fruits or vegetables.

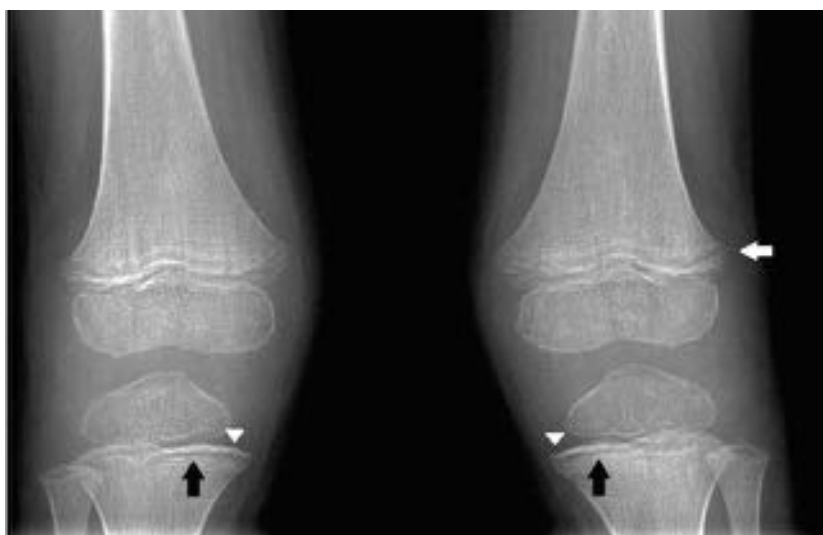
The patient weight was at the 25th percentile and his height at the 90th percentile. The weight for height Z score was between -2 and -3 standard deviations, based on WHO's standards. Scurvy was suspected as a possible diagnosis based on food restriction habits associated with the symptoms.

X-Rays of long bones were requested and findings compatible with scurvy were observed. (Figure 2)

Levels of Vitamin C in blood were measured and without waiting for results he started treatment with 300 mg per day of ascorbic acid. Subsequently, the result of the test was below the normal limit (0,5 mg/dl, normal range between 0,6 mg/dl - 2 mg/dl).

The patient was discharged after pain improvement, with gait recovery after 5 days of treatment.

FIGURE 2. Bone lesions



Anteroposterior radiograph of both knees shows metaphyseal irregularities with spurring (white arrow), a white line of Flankl in the zone of provisional calcification (white arrowheads) with metaphyseal lucent bands (Scurvy line or Trummerfeld zone) (black arrows).

The child started nutritional follow-up with the aim of achieving a balanced diet suited to the patient's tastes. Other micronutrients, such as calcium and proteins, were found to be within normal values. Currently, he continues asymptomatic in follow-up with a pediatrician with a supply of ascorbic acid 100 mg per day.

DISCUSSION

Scurvy is an ancient disease that has been recorded since 1500 BC. The treatment was described in 1753 by James Lind, an English naval doctor, when he observed that sailors with diagnosis of scurvy improved their symptoms 6 days after starting citrus ingestion.^{11,12}

Autism spectrum disorder is a developmental condition characterized by a deficit in social interaction and restricted communication and interests.^{13,14} It has been reported that between 46% and 89% of these patients have feeding problems characterized by a selective diet with preference for carbohydrates, snacks and processed foods while rejecting fruits and vegetables intake.¹⁰ This behavior can lead to a deficit of macro and micronutrients. Most of these cases were published as reports or series of cases.³⁻⁹ In Sharp et al.¹⁰ meta-analysis was described a nutritional deficit of calcium and proteins in children with autism spectrum disorder compared with healthy peers; in addition to a lower intake of vitamins A, C, D and E, nevertheless the difference for these nutrients was not statistically significant.¹⁰ Frequently these patients have adequate energy consumption, reaching the daily caloric requirement, so they achieve child growth standards. Consequently, the nutritional deficit is masked until the onset of symptoms.¹⁰

Ascorbic acid is an essential cofactor for the hydroxylation in collagen synthesis and for the hydroxylation of the neurotransmitter dopamine to noradrenaline. Many dermatological and musculoskeletal signs and symptoms are due to defects in collagen and chondroitin sulphate synthesis relate to vitamin C deficiency.⁶

As presented in our patient, scurvy frequently manifests with hyperkeratosis and hemorrhagic skin lesions, mostly as ecchymoses and petechiae with perifollicular distribution. Likewise, gingival hypertrophy associated with bleeding and areas of necrotic gingiva were reported.³⁻¹⁰ Musculoskeletal manifestations were the reason for the child's complaining in our case, the disease can progress with generalized pain and

edema, mostly in lower limbs determining the antalgic frog position, limping and/or refusal to walk.³⁻¹⁰

It is described that signs and symptoms of scurvy develop after 1 to 3 months of inadequate intake of vitamin C (less than 10 mg/day).¹¹

The diagnosis is based on clinical manifestations, however some diagnostic tests are helpful. Mild anemia and slightly increased acute phase reactants (erythrocyte sedimentation and C-reactive protein) is usually manifested. Our patient showed laboratory tests and X-Rays compatible with the diagnosis and a non-conclusive body bone scan.

Currently, given the scurvy low suspicion, patients undergo multiple diagnostic tests in order to rule out onco-hematological and rheumatological diseases.^{2-5,7,8}

Clinical manifestations were improved by treatment with acid ascorbic and scurvy was confirmed. After starting the treatment, the enhancement of general symptoms is described in the first 24 hours, while the decrease in pain in 2 or 3 days and the musculoskeletal symptoms improvement in a few weeks.¹⁵ Our patient started treatment with acid ascorbic 300 mg per day, consequently the analgesic requirement decreased and after 5 days he was able to stand and walk.

Decreased levels of ascorbic acid can support the diagnosis. In the literature, patients with scurvy who underwent dosing had values below 0.2 mg/dl, which are lower than those found in our patient (0.5 mg/dl), however the signs and symptoms developed and the prompt response to treatment with vitamin C confirmed the diagnostic suspicion.

CONCLUSIONS

Food selectivity by texture, type or presentation is one of the challenges faced by children with autism spectrum disorders.

A nutritional features assessment should be part of the pediatric check up, specially in this population and in sick patients, in order to avoid the development of micronutrient deficiency diseases.

Besides, pediatricians should consider the scurvy diagnosis in these patients, especially when they develop limping or refuse to walk and/or show petechiae, ecchymosis or gingival hypertrophy. Although a variety of initial tests are usually required to rule out other causes, proper suspicion of this disease would help to avoid unnecessary diagnostic tests and early

treatment can help to revert the symptoms and prevent complications. ■

Acknowledgements

To the medical doctors Lucía Pérez and Celeste Puga for the review of the manuscript and advice.

REFERENCES

1. Levine M. New concepts in the biology and biochemistry of ascorbic acid. *N Engl J Med* 1986; 314(14):842-902.
2. Weinstein M, Babyn P, Zlotkin S. An orange a day keeps the doctor away: scurvy in the year 2000. *Pediatrics* 2001; 108(3):e55.
3. Niwa T, Aida N, Tanaka Y, et al. Scurvy in a child with autism: Magnetic Resonance Imaging and pathological findings. *J Pediatr Hematol Oncol* 2012; 34(6):484-7.
4. Golriz F, Donnelly LF, Devaraj S, et al. Modern American Scurvy - Experience With Vitamin C Deficiency at a Large Children's Hospital. *Pediatr Radiol* 2016; 47(2):214-20.
5. Ma NS, Thompson C, Weston S. Brief Report: Scurvy as a Manifestation of Food Selectivity in Children with Autism. *J Autism Dev Disord* 2015; 46(4):1464-70.
6. Duggan CP, Westra SJ, Rosenberg AE. Case records of the Massachusetts General Hospital. Case 23-2007. A 9-year-old boy with bone pain, rash, and gingival hypertrophy. *N Engl J Med* 2007; 357(4):392-400.
7. Gongidi P, Johnson C, Dinan D. Scurvy in an autistic child: MRI findings. *Pediatr Radiol* 2013; 43(10):1396-9.
8. Kitcharoensakkul M, Schulz CG, Kassel R, et al. Scurvy revealed by difficulty walking: Three cases in young children. *J Clin Rheumatol* 2014; 20(4):224-8.
9. Sharp WG, Berry RC, McCracken C, et al. Feeding problems and nutrient intake in children with autism spectrum disorders: A meta-analysis and comprehensive review of the literature. *J Autism Dev Disord* 2013; 43(9):2159-73.
10. Larralde M, Santos Muñoz A, Boggio P, et al. Scurvy in a 10-month-old boy. *Int J Dermatol* 2007; 46(2):194-8.
11. Hodges RE, Hood J, Canham JE, et al. Clinical manifestations of ascorbic acid deficiency in man. *Am J Clin Nutr* 1971; 24(4):432-43.
12. Carpenter KJ. A short history of nutritional science: Part 1 (1785 - 1885). *J Nutr* 2003; 133(3):638-45.
13. Developmental Disabilities Monitoring Network Surveillance Year 2010 Principal Investigators; Centers for Disease Control and Prevention (CDC). Prevalence of autism spectrum disorder among children aged 8 years - Autism and developmental disabilities monitoring network, 11 sites, United States, 2010. *MMWR Surveill Summ* 2014; 63(2):1-21.
14. American Psychiatric Association. Diagnostic and statistical manual of mental disorders. 4th ed. Washington, DC: American Psychiatric Association; 2000.
15. Hirschmann JV, Raugi GJ. Adult scurvy. *J Am Acad Dermatol* 1999; 41(16):895-906.

Glomerulopatías combinadas: comunicación de 2 casos pediátricos

Combined glomerulopathies: two pediatric cases

Dra. Diana Di Pinto^a, Dra. Ziomara Balbarrey^b y Dra. Marta Adragna^a

RESUMEN

La combinación de glomerulopatías es infrecuente en la población pediátrica. Su presencia debe ser sospechada en aquellos pacientes con una enfermedad glomerular de curso clínico atípico. La influencia a largo plazo sobre el deterioro funcional renal permanece incierta. Se presentan dos niños con características histológicas de glomerulopatía combinada.

Palabras clave: glomerulopatía membranosa, glomerulonefritis por IgA, niño.

ABSTRACT

Combined glomerulopathy is infrequent in pediatric patients. Its presence should be suspected in those patients with glomerulopathies with atypical course. The influence on the long-term renal impairment remains uncertain. Here we report two children with histological findings of combined glomerulopathy.

Key words: membranous nephropathy, glomerulonephritis IgA, child.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2018.e688>

Cómo citar: Di Pinto D, Balbarrey Z, Adragna M. Glomerulopatías combinadas: comunicación de 2 casos pediátricos. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):e688-e691.

INTRODUCCIÓN

La glomerulopatía combinada (GC) es el hallazgo histológico de dos enfermedades glomerulares diferentes coexistentes o la superposición de una glomerulopatía secundaria dentro del curso de una original.¹ Se desconoce aún si la aparición de una segunda enfermedad glomerular no relacionada es una coincidencia

o si se trata de una entidad glomerular única diferente.^{1,2} Dado que existe limitada información sobre esta entidad en pediatría, se describe a dos niños con GC atendidos en el Hospital Nacional de Pediatría "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".

CASO 1

Niño de 4 años, previamente sano, que consultó por macrohematuria asintomática de 10 días de evolución posterior a un episodio febril por infección de las vías aéreas superiores. Al momento de la consulta, el examen físico y su tensión arterial eran normales (90/60 mmHg); la macrohematuria había cedido. Los exámenes de sangre mostraron leucocitos: 12 800/mm³ (neutrófilos: 45%; linfocitos: 47%); hemoglobina: 11 g/dl; hematocrito: 32%; plaquetas: 589 000/mm³; urea: 52 mg/dl; creatinina: 0,7 mg/dl (filtrado glomerular renal estimado -FGRe- por fórmula de Schwartz: 85 ml/min/1,73 m²); albúmina: 4,3 g/dl; colesterol total: 180 mg/dl; triglicéridos: 90 mg/dl; C3: 200 mg/dl (98-150 mg/dl); C4: 40 mg/dl (15-30 mg/dl); y antiestreptolisina O (ASTO): 53 UI/ml (< 240 UI/ml). El sedimento urinario presentaba > 100 glóbulos rojos por campo y 20 leucocitos y, en la orina de 24 horas, se encontraban 150 mg/kg/día de proteinuria (normal: < 5 mg/kg/día) y 3 mg/kg/día de calciuria (normal: < 4 mg/kg/día). La prueba rápida para estreptococo β-hemolítico de grupo A en fauces fue negativa. Por ecografía, ambos riñones eran de tamaño normal, hiperecogénicos y con disminución de la diferenciación corticomedular. Se aisló *Escherichia coli* en el urocultivo, por lo que recibió cefalexina. Luego de dicho tratamiento, normalizó el FGRe (125 ml/min/1,73 m²; creatinina: 0,47 mg/dl), la proteinuria (3 mg/kg/día) y la ecografía renal, por lo que se adoptó una conducta expectante.

En los meses siguientes, presentó episodios recurrentes de macrohematuria precedidos por infecciones respiratorias febriles y mantuvo normales sus parámetros de laboratorio y su presión arterial. A los 8 meses de evolución, repitió el episodio de macrohematuria con síndrome nefrótico humoral (albúmina: 2,3 g/l; proteinuria: 235 mg/kg/día; hipercolesterolemia:

a. Servicio de Nefrología.

b. Servicio de Anatomía Patológica.

Hospital Nacional de Pediatría "Prof. Dr. Juan P. Garrahan", Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.

Correspondencia:

Dra. Diana Di Pinto: dianadipinto@yahoo.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 23-1-2018

Aceptado: 23-5-2018

314 mg/dl; e hipertrigliceridemia: 163 mg/dl). Las determinaciones de C3 (204 mg/dl), C4 (22 mg/dl), ASTO (45 UI/ml) y creatinina (0,48 mg/dl) fueron normales. Se realizó una biopsia renal, y se observó, por microscopía óptica (25 glomérulos), una proliferación endocapilar segmentaria, engrosamiento de la membrana basal capilar glomerular con formación de espículas y burbujas, depósitos fucsínófilos lineales o granulares en la vertiente epitelial de la membrana basal glomerular (sugestivos de *humps*) y aislados leucocitos polimorfonucleares (Figura 1 y 2). La inmunofluorescencia mostraba depósitos de inmunoglobulina G (IgG) en la membrana basal capilar (++++/++++), de inmunoglobulina A (IgA) en el mesangio (trazas), de inmunoglobulina M (IgM) en el mesangio (+/++++), de C3 en la membrana basal capilar (+++/++++) y fibrinógeno negativo. El diagnóstico fue glomerulopatía membranosa estadio II con glomerulonefritis posinfecciosa superpuesta. Se descartaron causas secundarias de glomerulopatía membranosa (hepatitis B y C negativas y anti ácido desoxirribonucleico -anti-ADN- negativo) y se indicó enalapril a razón de 0,2 mg/kg/día con remisión del síndrome nefrótico al mes. El paciente no repitió los episodios de macrohematuria y, actualmente, se encuentra sin proteinuria ni microhematuria y con función renal normal, y recibe enalapril.

CASO 2

Niña de 2 años, previamente sana, que se internó por edemas periféricos y oliguria de 48 horas. Se encontraba normotensa (90/60 mmHg) y, en el laboratorio, presentaba leucocitos: 15 600/mm³; hemoglobina: 12,9 g/dl; hematocrito: 38,2%; plaquetas: 492 000/mm³; urea: 25 mg/dl; creatinina: 0,16 mg/dl; calcio: 7,8 mg/dl; albúmina: 1,3 g/dl; colesterol total: 347 mg/dl; y triglicéridos: 1079 mg/dl. En la orina, se detectó proteinuria masiva (cociente proteinuria/creatininuria: 17) sin hematuria. Los niveles de C3 (172 mg/dl) y C4 (25 mg/dl) fueron normales; anticuerpos antinucleares (FAN) y serologías negativas (virus de la inmunodeficiencia humana -VIH-, hepatitis B, hepatitis C y sífilis). La ecografía renal fue normal. Con diagnóstico de síndrome nefrótico primario, recibió metilprednisona oral a razón de 2 mg/kg/día en forma continua por 45 días y 1,5 mg/kg/día en forma alterna otros 45 días, sin remisión. Posteriormente, recibió 3 meses de ciclofosfamida (2 mg/kg/día) con enalapril (0,2 mg/kg/día) y, por corticorresistencia, simultáneamente, se realizó la biopsia renal. La microscopía óptica (22 glomérulos) presentaba un leve incremento de matriz y células mesangiales, engrosamiento de la membrana basal capilar con formación de burbujas y presencia de histiocitos xantomizados focales (Figura 3). La inmunofluorescencia

FIGURA 1. Se observan depósitos fucsínófilos lineales o granulares (*humps*) en la vertiente epitelial de la membrana basal capilar (microscopía óptica, tinción tricrómica de Masson)

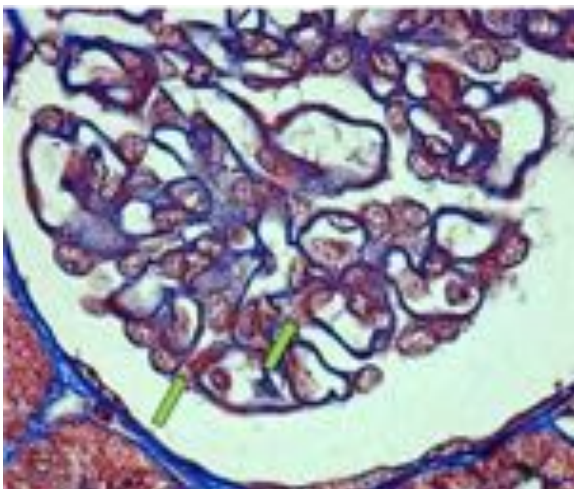
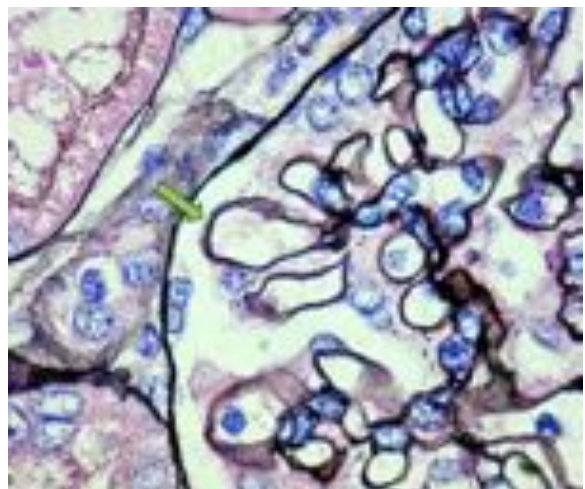


FIGURA 2. Se observa el engrosamiento de la membrana basal capilar con formación de espículas y burbujas (microscopía óptica, tinción metenamina de plata)



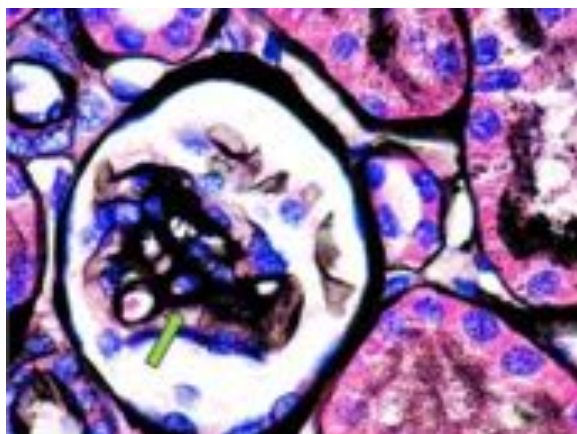
mostraba depósitos granulares de IgG en la membrana basal de los capilares glomerulares (+++-++++/++++) y de IgA en el mesangio (+++-++++/++++), C3 negativo, IgM en el mesangio (++-+++ /++++) y fibrinógeno negativo. Se diagnosticó glomerulopatía membranosa en estadio inicial con depósitos mesangiales de IgA. Por la falta de respuesta a la ciclofosfamida, recibió un nuevo ciclo de metilprednisona oral (2 mg/kg/día en forma continua durante 4 semanas y luego 1,5 mg/kg/día en forma alterna durante otras 4 semanas) y alcanzó la remisión completa. Actualmente, se encuentra sin proteinuria y recibe enalapril como renoprotección.

DISCUSIÓN

Nuestros pacientes con GC presentaron cuadros clínicos diferentes. El primer caso corresponde a un niño con macrohematuria recurrente que desarrolló síndrome nefrótico. Su biopsia renal reveló una glomerulopatía membranosa estadio II con una glomerulonefritis posinfecciosa superpuesta. Esta última se sospechó por la presencia de proliferación endocapilar e infiltrado de polimorfonucleares asociado a imágenes sugestivas de *humps*. Notablemente, sus niveles de C3 fueron normales. Este hallazgo se observó hasta en el 10% de las glomerulonefritis posinfecciosas en pediatría.³

En tanto que el otro corresponde a una niña con síndrome nefrótico resistente a esteroides y ciclofosfamida, con el hallazgo de glomerulopatía membranosa en estadio inicial, coexistente con nefropatía por IgA.

FIGURA 3. Se observa el engrosamiento de la membrana basal capilar con formación de burbujas aisladas (microscopía óptica, tinción metenamina de plata)



Existe escasa información sobre la GC, especialmente, en pediatría.^{1,2,4} Cheong et al. encontraron, en 294 niños, 9 casos de GC (3,1%).¹ En adultos, Monga y colaboradores hallaron 9 casos de GC entre 1715 biopsias de pacientes adultos (0,5%),⁵ y Bertani, 7 entre 105 biopsias renales (7%).⁶

La nefropatía por IgA es la glomerulopatía que, con mayor frecuencia, coexiste con otras, tanto original como superpuesta.¹ En la serie de Cheong, 4 de los 9 pacientes presentaban esta glomerulopatía como uno de sus componentes (45%),¹ mientras que, en la de Monga, se observó en 6 casos (65%).⁵ La nefropatía por IgA se asocia, en primer lugar, con la glomerulonefritis posinfecciosa¹ y, en segundo lugar, con la nefropatía membranosa, como ocurrió en uno de nuestros pacientes.^{1,2,7-11} Más raramente, se encontró junto con glomerulonefritis asociada a anticuerpos anticitoplasma de los neutrófilos (ANCA).^{1,12} Es interesante la observación de Jennette et al., quienes reportaron a dos hermanos con nefropatía membranosa con depósitos mesangiales de IgA y sugirieron que los factores genéticos podrían estar involucrados en estas dos afecciones.^{9,11}

La glomerulopatía membranosa es la segunda nefropatía que coexiste con otra enfermedad glomerular tanto original como superpuesta, más frecuentemente, con nefropatía por IgA.¹ Monga et al., la describieron como la segunda en frecuencia (4 pacientes, 44%).^{1,5} En la mayoría de los casos, era idiopática, pero existía la asociación con hepatitis B, enfermedades autoinmunes y un caso de artritis reumatoidea tratada con sales de oro y penicilamina.^{2,8,13} Hu et al., describieron la mayor serie de casos.⁸ Eran 9 pacientes adultos con proteinuria masiva, 7 de ellos con microhematuria y 6 con caída de FGR.⁸ Sus biopsias se caracterizaban por un engrosamiento difuso de la membrana basal glomerular, proliferación y expansión mesangial leve, depósitos granulares de IgG en los capilares glomerulares y de IgA en el mesangio, similar a nuestro segundo caso clínico.⁸ La microscopía electrónica confirmó la presencia de depósitos granulares electrodensos a nivel subepitelial y mesangial.⁸ En todos los casos, se constató la presencia del antígeno podocitario PLA2R (receptor de la fosfolipasa A2) en los glomérulos y niveles séricos elevados de anticuerpos IgM contra el receptor de la fosfolipasa A2 (anti-PLA2R), ambos considerados marcadores específicos para el diagnóstico de glomerulopatía

membranosa primaria.⁸ En nuestros dos pacientes, estos últimos estudios no fueron realizados.

Otras combinaciones descritas son con la nefritis anti membrana basal, glomerulonefritis con semilunas, glomeruloesclerosis focal y segmentaria, y glomerulonefritis asociada a ANCA.¹

Nuestros dos pacientes presentaron nefropatía membranosa como uno de sus componentes. Además, es remarcable que solo han sido descritos dos pacientes con nefropatía membranosa asociada a glomerulonefritis posinfecciosa, por lo que, en este trabajo, se comunica el tercer caso con dicha asociación.^{1,13,14}

No hay evidencia de que la presencia de GC empeore el pronóstico renal de los pacientes más allá de lo que se espera para cada entidad aislada.^{2,12,15} Se desconoce si la aparición de una segunda glomerulopatía es coincidencia o se trata de una entidad glomerular única diferente con un mecanismo patogénico común.^{2,12}

En conclusión, las GC son infrecuentes en los niños y su presentación es muy variable, por lo que es necesaria la biopsia renal para su diagnóstico definitivo. Pese a que la evolución a largo plazo de GC es incierta, nuestros pacientes mantuvieron la función renal normal a lo largo del seguimiento. ■

REFERENCIAS

- Cheong H, Cho HY, Moon KC, et al. Pattern of double glomerulopathy in children. *Pediatr Nephrol* 2007; 22(4):521-7.
- Stokes MB, Alpers CE. Combined membranous nephropathy and IgA nephropathy. *Am J Kidney Dis* 1998; 32(4):649-56.
- Trivedi M, Pasari A, Chowdhury, et al. The epidemiology, clinical Features, and outcome of infection-related glomerulonephritis from East India: A Single Center Experience. *Indian J Nephrol* 2017; 27(4):307-12.
- Nishida M, Kato R, Hamaoka K. Coexisting Membranous Nephropathy and IgA Nephropathy. *Fetal Pediatr Pathol* 2015; 34(6):351-4.
- Monga G, Mazzucco G, Barbiano di Belgiojoso G, et al. Pattern of double glomerulopathies. A clinicopathologic study in nine nondiabetic patients. *Nephron* 1990; 56(1): 73-80.
- Bertani T, Mecca G, Sacchi G, et al. Superimposed nephritis: a separate entity among glomerular diseases? *Am J Kidney Dis* 1986; 7(3):205-12.
- Chen X, Chen Y, Shi K, et al. Comparison of prognostic, clinical, and renal histopathological characteristics of overlapping idiopathic membranous nephropathy and IgA nephropathy versus idiopathic membranous nephropathy. *Sci Rep* 2017; 7(1):11468.
- Hu R, Xing G, Wu H, et al. Clinicopathological features of idiopathic membranous nephropathy combined with IgA nephropathy: a retrospective analysis of 9 cases. *Diagn Pathol* 2016; 11(1):86.
- Jennette JC, Newman WJ, Diaz-Buxo JA. Overlapping IgA and membranous nephropathy. *Am J Clin Pathol* 1987; 88(1):74-8.
- Doi T, Kanatsu K, Nagai H, et al. An overlapping syndrome of IgA nephropathy and membranous nephropathy? *Nephron* 1983; 35(1):24-30.
- Miyazaki K, Miyazaki M, Tsurutani H, et al. Development of IgA nephropathy 14 years after diagnosis of membranous nephropathy. *Nephrol Dial Transplant* 2002; 17(1):140-3.
- Wang SX, Zou WZ, Yang L, et al. Clinicopathologic features of membranous nephropathy coexisting with IgA nephropathy. *Zhonghua Bing Li Xue Za Zhi* 2007; 36(3):171-4.
- Matsuda J, Nagayama I, Yamaguchi Y, et al. A case of crescentic poststreptococcal acute glomerulonephritis (PSAGN) accompanied by membranous nephropathy. *Nihon Jinzo Gakkai Shi* 2013; 55(4):567-73.
- Wu MJ, Osanloo EO, Molnar ZV, et al. Poststreptococcal Crescentic Glomerulonephritis in a patient with preexisting membranous glomerulonephropathy. *Nephron* 1983; 35(1):62-5.
- Nishida M, Kato R, Hamaoka K. Coexisting Membranous Nephropathy and IgA Nephropathy. *Fetal Pediatr Pathol* 2015; 34(6):351-4.

Resolución del caso presentado en el número anterior

Liquen aureus

Lichen aurus

Lic. Verónica Fernández Cabo^a, Dra. Olalla Figueroa-Silva^a, Dra. Sandra Mateo^a y Dr. Benigno Monteagudo.^a

Resumen del caso clínico

Niña de 9 años de edad, sin antecedentes personales de interés, que acudió a consultas de Dermatología por la aparición en el tobillo derecho de máculas marrón-anaranjadas, asintomáticas, de un año de evolución. Se extendían desde el arco plantar del pie derecho y continuaban por la cara interna del tobillo ipsilateral hasta el tercio distal de la pierna. Su aparición no se relacionó con traumatismos, contacto con productos tópicos o plantas ni con la ingesta de fármacos. Al momento de la exploración, presentaba máculo-pápulas de color marrón-dorado/pardo-anaranjado con puntos purpúricos en su interior, no confluentes, que afectaban únicamente al miembro inferior derecho (Figura 1). Las lesiones no desaparecían con la vitropresión y, con dermatoscopia, podían observarse puntos y glóbulos purpúricos sobre un fondo cobrizo. Se realizaron análisis de laboratorio, que incluían una analítica de sangre con hemograma y bioquímica básicas y analítica de orina para el control de la función renal. Todos los parámetros estuvieron dentro de la normalidad. El diagnóstico de *liquen aureus* (LA) fue realizado sobre la base de la clínica: lesiones características dado su aspecto y coloración, sumado a ser no palpable y a la ausencia de otra sintomatología. Esto se corroboró al añadir como herramienta la dermatoscopia. No fue preciso realizar la confirmación histológica en este caso, ya que la exploración clínica y dermatoscópica fueron suficientemente contundentes.

Liquen aureus y sus diagnósticos diferenciales

El LA, también conocido como liquen purpúrico, púrpura simple o capilaritis, pertenece

al grupo de las dermatosis purpúricas pigmentarias (DPP), que constituyen un grupo de cuadros clínicos caracterizados por la aparición de púrpura y pigmentación que afecta mayoritariamente a las extremidades inferiores (EE. II.). Se caracterizan por su benignidad y evolución crónica en la mayoría de los casos. Aparte del LA, existen diferentes variantes:¹

- Púrpura pigmentaria progresiva o enfermedad de Schamberg: más frecuente en edad media en forma de máculas rojizas puntiformes “en pimienta de cayena” que afectan a las EE. II. Poco frecuente en niños y, probablemente, infradiagnosticada en esa franja de edad.²
- Púrpura anular telangiectóide o púrpura de Majocchi: máculas eritematosas de disposición anular con atrofia central en las EE. II., frecuente en adolescentes y adultos jóvenes.
- Púrpura pigmentaria liquenoide de Gougerot y Blum: pápulas purpúricas con tendencia a coalescer y formar placas pruriginosas. Más frecuente en adultos.
- Púrpura eczematoide de Doucas y Kapetanakis: se presenta con características de DPP y descamación típica de los eczemas. Se ha relacionado con la hipersensibilidad a textiles.

El LA se presenta como máculas unilaterales localizadas en las EE. II., aunque también se han descrito casos bilaterales y afectación de los brazos y el tronco. Su característica distintiva del resto de las DPP es el color “dorado, oro o cobrizo” que presenta. Suele ser asintomático, aunque hay descritos casos con intenso prurito.³ Las lesiones persisten varios años con progresivo crecimiento hasta su estabilización.

a. Complejo Hospitalario Universitario de Ferrol, Hospital Naval, A Coruña, España.

Correspondencia:

Dra. Olalla Figueroa-Silva, olalla.figueroa@gmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 30-7-2017

Aceptado: 11-12-2017

Cómo citar: Fernández Cabo V, Figueroa-Silva O, Mateo S, Monteagudo B. Lichen aurus. *Arch Argent Pediatr* 2018;116(5):374-375.

FIGURA 1. Máculas pardo-anaranjadas pequeñas, no confluentes; contienen áreas puntiformes pequeñas y rojizas en su interior, que no desaparecen con la vitropresión



Aunque su etiología permanece desconocida, se han considerado 3 teorías: fragilidad vascular, que explicaría la extravasación de eritrocitos, pero no otros hallazgos; la teoría de la inmunidad humoral en relación con los depósitos de inmunocomplejos observados en algunas biopsias; y la teoría de la inmunidad celular, por la presencia de un infiltrado inflamatorio perivascular que contribuiría al daño capilar. Se necesitan más estudios para dilucidar estos aspectos. Se han descrito casos inducidos por fármacos y otros desencadenantes, como el ejercicio físico intenso, estasis venosa, infecciones, etc.⁴

El diagnóstico de LA es clínico: pápulas que confluyen en placas de coloración amarillenta-anaranjada, clásicamente descritas como doradas, y, en ocasiones, con componente purpúrico, que se ponen de manifiesto mediante la diascopia.

Como apoyo diagnóstico en dermatología, se dispone de la dermatoscopia, un método accesible y no invasivo que permite visualizar estructuras anatómicas que no se aprecian a simple vista. En el LA, se observa una coloración cobriza de fondo con glóbulos color rojo y puntos grises^{5,6} (Figura 2).

Las DPP comparten características histológicas: infiltrado mononuclear perivascular, extravasación eritrocitaria y depósitos de hemosiderina. En el caso del LA, presenta un infiltrado en la dermis superficial en banda de linfocitos y macrófagos. Es la extravasación de hematíes y los depósitos de hemosiderina los que aportarán una coloración amarillenta-dorada típica, la cual hace referencia a su nombre.

El principal diagnóstico diferencial se establece con la púrpura traumática y el resto de las DPP descritas con anterioridad. En el caso de una púrpura traumática o hematoma, cobra importancia la historia clínica, que confirmará el antecedente traumático. Será también característica la resolución del cuadro en el transcurso de unas semanas, a diferencia de la cronicidad

característica de la mayoría de las DPP, y el cambio cromático evolutivo.

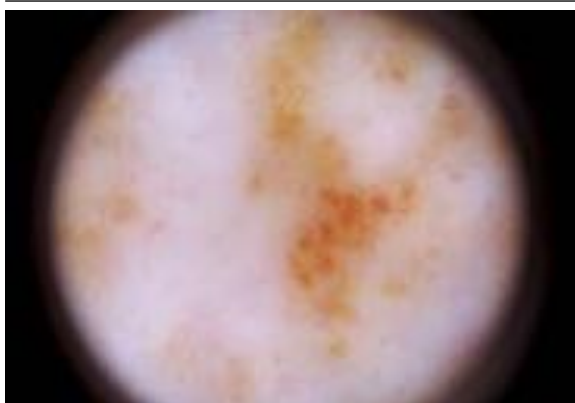
La dermatitis de estasis afecta también a las EE. II., pero se inicia de manera insidiosa en forma de placas de aspecto eczematoso, que puede coexistir, a veces, con una DPP. Suelen ser pacientes adultos con várices y edema. Se debe considerar también, en el diagnóstico diferencial, una dermatitis de contacto, en la que el prurito sería el signo cardinal y presentaría excelente respuesta al tratamiento con corticoides tópicos y a la supresión del contactante.

Por último, entre los principales diagnósticos diferenciales, está la vasculitis leucocitoclástica, que se debe investigar por el riesgo de afectación de otros órganos. Se presenta de manera aguda, generalmente en las EE. II., y se caracteriza por tratarse de una púrpura palpable, en contraposición al LA, en el que la púrpura es macular. La confirmación histopatológica es esencial para el diagnóstico, en la que se observaría un infiltrado inflamatorio en el interior de los vasos y necrosis fibrinoide de la pared vascular.

En relación con el tratamiento, es común la utilización de corticoides tópicos potentes. Sin embargo, los resultados raramente son satisfactorios. Lo más aceptado es no realizar ninguna intervención. Deben suprimirse los factores desencadenantes si se conocen. No existen alternativas terapéuticas con efectividad demostrada. Existe algún caso aislado descrito en el que el tratamiento con psoraleno y radiación ultravioleta A (PUVA) obtiene buena respuesta, así como casos tratados con colchicina, pentoxifilina, entre otros.⁷

Aunque su presentación es infrecuente en niños, el LA debe formar parte del diagnóstico diferencial de las lesiones purpúricas en la infancia. Se considera de interés el conocimiento de esta entidad, ya que su diagnóstico es eminentemente clínico y puede evitar la realización de pruebas invasivas innecesarias. ■

FIGURA 2. Imagen dermatoscópica: revela un patrón purpúrico moteado con fondo pardo-anaranjado o cobrizo, con glóbulos de color rojo



REFERENCIAS

- Garg A. Pigmented purpuric dermatoses (capillaritis). UpToDate on line. [Acceso: 19 de noviembre de 2017]. Disponible en: <https://www.uptodate.com/contents/pigmented-purpuric-dermatoses-capillaritis>.
- Torrelo A, Requena C, Mediero IG, et al. Schamberg's purpura in children: a review of 13 cases. *J Am Acad Dermatol* 2003;48(1):31-3.
- Graham RM, English JS, Emmerson RW. Lichen aureus, a study of twelve cases. *Clin Exp Dermatol* 1984;9(4):393-401.
- Reig del Moral C, Urbón Artero A, Moraleda Redecilla C, et al. Lesiones purpúricas en extremidades. *An Pediatr (Barc)* 2006;64(2):187-9.
- Zaballos P, Puig S, Malveyh J. Dermoscopy of pigmented purpuric dermatoses (lichen aureus): a useful tool for clinical diagnosis. *Arch Dermatol* 2004;140(10):1290-1.
- Fujimoto N, Nagasawa Y, Tachibana T, et al. Dermoscopy of lichen aureus. *J Dermatol* 2012;39(12):1050-2.
- Kim MJ, Kim BY, Park KC, et al. A case of childhood lichen aureus. *Ann Dermatol* 2009;21(4):393-5.

Presentación del nuevo caso clínico

En el próximo número se publicará el diagnóstico, manejo y tratamiento de este caso.

Adolescente de 13 años, previamente sana, que acude al Servicio de Urgencias durante la primavera, que coincide con días fríos pero soleados, por la aparición de lesiones cutáneas pruriginosas en ambos pabellones auriculares de 24 horas de evolución. La paciente niega haber detectado algún desencadenante para su aparición. Al margen de la clínica dermatológica, presenta muy buen estado general y niega cualquier otro síntoma.

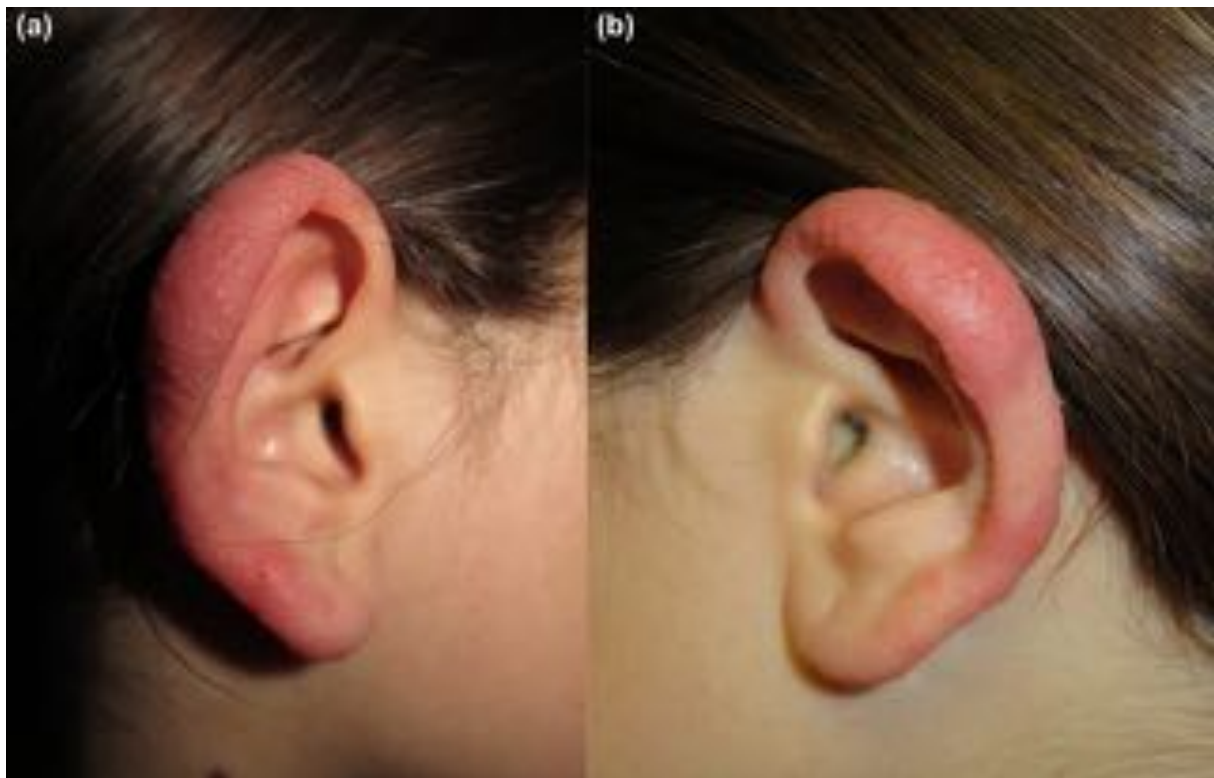
Al momento de la exploración física, se aprecian pequeñas pápulas eritematosas y vesículas dispersas de contenido claro, de

aspecto seroso, así como discretas costras sobre una base de eritema y edema a nivel del hélix de ambos pabellones auriculares. Dichos pabellones auriculares llaman la atención por ser prominentes y no estar cubiertos por el cabello de la paciente (*Figura 1*).

¿Cuál es su diagnóstico?

- Eritema multiforme fotodistribuido.
- Infección por virus herpes simple.
- Erupción primaveral juvenil.
- Dermatitis de contacto alérgica.
- Impétigo ampolloso.

FIGURA 1. (a) y (b) Lesiones papulovesiculosas sobre una base de eritema en ambos pabellones auriculares



PEDIATRICS 2018; 141(5):E20173674

Validación externa de la regla de predicción clínica del PediBIRN para trauma cefálico abusivo

External validation of the PediBIRN clinical prediction rule for abusive head trauma

Pfeiffer H, Smith A, Kemp AM, et al. Paediatric Research in Emergency Department International Collaborative (PREDICT)

Resumen

Objetivos. Una regla de predicción clínica (RPC) de 4 variables para trauma cefálico abusivo (TCA) (ver *Tabla 1*) fue validada para menores de 3 años por la investigación PediBIRN (*Pediatric Brain Injury Research Network*). Este estudio buscó validar externamente la regla en la población de internados en UTI (como el estudio PediBIRN) y amplió los criterios de inclusión a los internados por traumatismos encefalocraneales (TEC).

TABLA 1. RPC PediBIRD de 4 variables para TCA

Todo niño menor de 3 años ingresado en UTI por TEC agudo (excepto los traumas automovilísticos o las lesiones no intencionales) que presenta 1 o más de estos cuatro predictores deben ser evaluados por maltrato:

- Compromiso respiratorio antes de ingreso.
- Cualquier herida que tome oídos, cuello o torso.
- Cualquier hemorragia subdural y/o colección líquida que sea bilateral o interhemisférica.
- Cualquier fractura de cráneo excepto una fractura parietal lineal única, unilateral, no diastasada.

Participantes, diseño y escenario. Se realizó un análisis secundario de un estudio prospectivo de TEC pediátrico en 5 centros terciarios de Australia y Nueva Zelanda. Los posibles TCA fueron identificados por sospecha clínica, códigos epidemiológicos o como grupo de alto riesgo (menor de 3 años, internado, con resultados anormales en neuroimágenes). Los pacientes fueron asignados como positivos para TCA, negativos o indeterminado luego de la revisión multidisciplinaria, y se aplicó la RPC PediBIRN, ciegos al resultado, tanto a los internados en UTI como a los internados por TEC.

Resultados. Ingresaron 141 pacientes con resultados anormales en las neuroimágenes. El 20% (88) fueron positivos para TCA, 67% (94) fueron negativos y 13% (19) indeterminados. Excluyendo los casos indeterminados, en UTI (n= 28) la RPC fue 100% sensible y 11% específica,

en todos los internados (n= 141), la sensibilidad fue 96% y la especificidad del 43%.

Conclusión. Esta validación muestra que la RPC tiene alta sensibilidad y baja especificidad para los pacientes internados en UTI. La especificidad mejora moderadamente en el grupo más amplio de internados por TEC.

Comentario

El trauma cefálico abusivo (TCA), en inglés, Abusive Head Trauma, se define como las lesiones espinales, cerebrales o craneales que son resultado de injurias infligidas a un bebé o niño pequeño en la cabeza¹. Los TCA son la principal causa de muerte por maltrato. Cerca del 20% de los que sufre TCA mueren y más de la mitad quedan con secuelas². Suele ser difícil para los clínicos diferenciar el TCA, de las lesiones no intencionales, "accidentales", ya que los síntomas no difieren y el relato de los padres puede no revelar el traumatismo o ser un relato falso. Los TCA suelen ser subdiagnosticados. Las RPC son útiles en estas situaciones donde hay que tomar decisiones complejas, el riesgo es alto y la experiencia tiene valor limitado. La prevalencia de TCA en los internados por TEC grave (internados en UTI) es alta (43% en este estudio, 46% en PediBIRN) con lo cual uno se preguntaría si hace falta una RPC cuando casi la mitad han sufrido maltrato³. Habría que evaluar para maltrato a todos (salvo accidentes de tránsito).

Este estudio valida la RPC para niños ingresados por TEC con neuroimagen patológica también fuera de la UTI (13% prevalencia de TCA). Esta RPC tiene alta sensibilidad y baja especificidad, su utilidad radicaría en no evaluar para maltrato a los que tuvieran resultado negativo. El valor predictivo negativo es del 97,7%.

También los TCA suelen ser mal diagnosticados, un 30% ingresa con otro diagnóstico⁴. Por ejemplo, meningitis (convulsión y alteración del sensorio) y no se les realiza una neuroimagen de entrada. Por eso las RPC no reemplazan el criterio médico⁵.

Dr. Juan Pablo Mouesca

Pediatra de la Unidad de Violencia Familiar
Hospital General de Niños Dr. Pedro de Elizalde

Referencias

1. Christian CW, Block R, Committee on Child Abuse and Neglect. Abusive head trauma in infants and children. *Pediatrics*. 2009;123(5):1409–11.
2. Lind K, Toure H, Bruguel D, et al. Extended follow-up of neurological, cognitive, behavioral and academic outcomes after severe abusive head trauma. *Child Abuse Negl*. 2016;51:358–67.

3. Berger R, Mc Ginn T. Deciding whether to screen for abusive head trauma: do we need a clinical decision rule? *Pediatr Crit Care Med*. 2013;14(2):230-1.
4. Jenny C, Hymel KP, Ritzen A, et al. Analysis of missed cases of head abusive trauma. *JAMA*. 1999;281(7):621-6.
5. Ferrero F. Reglas de predicción clínica. *Arch Argent Pediatr*. 2010;108(1):6-7.

PEDIATRICS MAY 2018, Volume 141/Issue 5

Resultados neuroconductuales a 11 años después de la administración de cafeína en neonatos para la apnea de la prematuridad

Neurobehavioral outcomes 11 years after neonatal caffeine therapy for apnea of prematurity, for the Caffeine for Apnea of Prematurity (CAP) Trial Group

Mürner-Lavanchy IM, Doyle LW, Schmidt B, et al.

Resumen

Antecedentes y objetivos. La cafeína es efectiva en el tratamiento de la apnea del prematuro. Aunque la terapia con cafeína tiene un beneficio en las habilidades motoras gruesas en niños en edad escolar, los efectos en los resultados neuroconductuales no se han comprendido adecuadamente. Nuestro objetivo fue investigar los efectos de la terapia con cafeína neonatal en neonatos de muy bajo peso al nacer (500-1250 g) sobre los resultados neuroconductuales en los niños de 11 años de edad que participaron en el ensayo *Caffeine for Apnea of Prematurity*.

Métodos. Trece hospitales académicos en Canadá, Australia, Gran Bretaña y Suecia participaron en estos 11 años de seguimiento del ensayo doble ciego, aleatorizado, controlado con placebo. Se obtuvieron medidas de inteligencia general, atención, función ejecutiva, integración y percepción viso-motriz y comportamiento en 870 niños. Los efectos de la terapia con cafeína se evaluaron mediante el uso de modelos de regresión.

Resultados. Los resultados neuroconductuales fueron en general similares para ambos grupos, cafeína y placebo. El grupo con cafeína se desempeñó mejor que el grupo placebo en la coordinación motora fina (diferencia media [DM]= 2,9; intervalo de confianza [IC] del 95%: 0,7 a 5,1; $p=0,01$), integración viso-motora (DM= 1,8; IC del 95%: 0,0 a 3,7; $P<0,05$), percepción visual (DM= 2,0, IC 95%: 0,3 a 3,8; $P=0,02$), y organización viso-espacial (DM= 1,2; IC del 95%: 0,4 a 2,0; $P=0,003$).

Conclusiones. La terapia con cafeína para la apnea del prematuro mejoró las capacidades visomotoras, viso-perceptuales y viso-espaciales a la edad de 11 años.

Comentario

La cafeína es empleada en el tratamiento de la apnea del prematuro desde hace muchos años, cuando reemplazó a la teofilina por presentar mejor tolerancia y menos eventos adversos. La apnea del prematuro es muy frecuente, en especial en aquellos extremadamente pequeños, y puede ocasionar varios trastornos, que de no ser tratados, suelen ser muy perjudiciales en el período neonatal y también a largo plazo. La administración de cafeína es bien tolerada a las dosis habituales y tiene varios aspectos beneficiosos, a saber, una vida media más larga que permite indicar una sola toma diaria (al menos en las primeras semanas), escasos efectos colaterales y margen de seguridad muy amplio entre su acción terapéutica y la toxicidad. Los datos, en múltiples publicaciones comprobaron su eficacia en disminuir apneas, reducir la prevalencia de displasia broncopulmonar (DBP) y su demostrada seguridad a corto y largo plazo. El principal mecanismo de acción es el bloqueo de los receptores de adenosina, sustancia que incrementa la respiración irregular y la presencia de apneas en prematuros.¹⁻³ No obstante, sus resultados son variables según sea la dosis y el momento de su indicación. En una revisión sistemática reciente evaluaron los resultados de la cafeína con dosis estándar vs. dosis más elevadas. Estos últimos tuvieron menos mortalidad y DBP, sin diferencias en el neurodesarrollo. Los autores, con buen criterio, señalan que estos resultados no pueden ser recomendados ya que hay escasos estudios de cuál es la dosis óptima y conviene seguir con las dosis habituales.^{4,5} Asimismo, un estudio recién publicado observó que la indicación de cafeína en prematuros durante los primeros 7 días, redujo la incidencia y gravedad de la lesión renal aguda. Los autores enfatizan que los estudios próximos deberían centrarse en el momento y la dosificación de la cafeína para optimizar la prevención de la lesión renal.⁶

El estudio que ahora comentamos fue realizado por un muy destacado grupo en 33 hospitales en cuatro países en un ensayo doble ciego, aleatorizado, controlado con placebo, que evaluaron los resultados neuroconductuales de la cafeína en prematuros muy pequeños (500-1250 g) en la edad de 11 años. Observaron que las capacidades viso-motoras, viso-perceptuales y viso-espaciales eran significativamente superiores en el grupo que recibió cafeína.

Asimismo, es el primer estudio que evaluó a largo plazo la inteligencia general, la atención, y las

funciones ejecutivas. Si bien no detectaron diferencias entre los grupos, tampoco observaron efectos perjudiciales de la cafeína. Esto destaca la seguridad y eficacia a largo plazo de su administración en la apnea del prematuro en neonatos de muy bajo peso al nacer.

Seguramente, en años próximos tengamos nuevos estudios acerca de los resultados a muy largo plazo, lo cual es de suma importancia ya que la cafeína es muy empleada en prematuros y por lo tanto es necesario que tengamos seguridad que sus efectos tempranos y alejados no sean nocivos.

Dr. José M. Ceriani Cernadas
Hospital Italiano de Buenos Aires
Sociedad Argentina de Pediatría

Referencias

1. Bancalari E. Caffeine for apnea of prematurity. *N Engl J Med* 2006; 354(20):2179-81.
2. Rhein LM, Dobson NR, Darnall RA, et al. Effects of caffeine on intermittent hypoxia in infants born prematurely: a randomized clinical trial. *JAMA Pediatr* 2014; 168(3):250-7.
3. Schmidt B, Davis PG, Roberts RS. Timing of caffeine therapy in very low birth weight infants. *J Pediatr* 2014; 164(5):957-8.
4. Vliegthart R, Miedema M, Hutten GJ, et al. High versus standard dose caffeine for apnoea: a systematic review. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed.* 2008; Epub ahead of print on February 8, 2018.
5. Schmidt B, Roberts RS, Anderson PJ, et al. Academic performance, motor function, and behavior 11 years after neonatal caffeine citrate therapy for apnea of prematurity: an 11-year follow-up of the CAP randomized clinical trial. *JAMA Pediatr* 2017; 171(6):564-72.
6. Harer MW, Askenazi DJ, Boohaker LJ, et al. Association Between Early Caffeine Citrate Administration and Risk of Acute Kidney Injury in Preterm Neonates. Results From the AWAKEN Study. *JAMA Pediatr* 2018;172 (6):e180322. doi:10.1001/jamapediatrics.

PEDIATRICS 2018 APR;141(4)

Lesiones por "hoverboard" y patineta en pediatría

Pediatric hoverboard and skateboard injuries
Bandzar S, Funsch DG, Hermansen R, Gupta S, Bandzar A.

Resumen

Objetivo. Comparar las características de las lesiones por el uso de *hoverboard* y patineta en niños asistidos en los Departamentos de

Emergencia de EE. UU.

Métodos. Se obtuvieron los datos de lesiones asociadas al uso de *hoverboard* y patineta en niños <18 años en el Sistema Nacional Electrónico de Vigilancia de Lesiones de los años 2015 y 2016. Se incluyeron datos demográficos, regiones corporales lesionadas y derivación del Departamento de Emergencia.

Resultados. Hubo una estimación de 26 854 lesiones por *hoverboard* y 121 398 por patineta. La media y mediana de edad para las lesiones por *hoverboard* y patineta fueron 11 y 13 años respectivamente. En ambos grupos los varones se lesionaron con mayor frecuencia. La mayoría de las lesiones por *hoverboard* ocurrieron en el hogar mientras que las relacionadas con la patineta fueron en la calle. Las muñecas fueron la parte del cuerpo más comúnmente lesionadas y las fracturas fueron el diagnóstico más frecuente en ambos grupos. La mayoría de los pacientes egresaron del hospital. Aproximadamente el 3% permanecieron internados.

Conclusiones. La distribución de las lesiones por el uso de *hoverboard* y patineta fue similar. Las fracturas, contusiones y esguinces y/o distensiones fueron las lesiones más frecuentes en ambos grupos. Sin embargo, hubo mayor número de esguinces y/o distensiones con el uso de patineta. Esta diferencia puede atribuirse a la forma en que se utilizan estas tablas. Las fracturas fueron la causa más común de hospitalización. Al conocer las características de las lesiones por *hoverboard* se pueden implementar medidas preventivas para disminuir la incidencia de estas lesiones y las visitas a los Departamentos de Emergencia.

Comentario

El *hoverboard* (aún no tiene traducción) es un dispositivo de dos ruedas y una plataforma para apoyar los pies, accionado a baterías, que mediante sensores de movimiento puede ser dirigido, girar y aumentar o disminuir la velocidad, pudiendo alcanzar hasta 20 km por hora.

Su portabilidad, agilidad y diseño atractivo lo han transformado en un juguete muy popular en todo el mundo.¹

El *hoverboard* fue lanzado al mercado en 2015, y alcanzó gran difusión. En Argentina se comercializa a través de plataformas digitales y también en comercios de artículos deportivos.

Se podría medir de alguna manera su popularidad mediante el Google trends.² Durante los últimos 2 años

en nuestro país su popularidad fue en aumento (medido en búsquedas en la web) y superó a las patinetas.³

Este estudio, analiza una completísima base de datos del National Electronic Injury Surveillance System, NEISS (Sistema Nacional de Vigilancia Electrónica de Lesiones), que constituye una muestra probabilística de hospitales en todo el territorio de los Estados Unidos. La información recoge lesiones atendidas en servicios de emergencia relacionadas con diferentes productos y a partir de allí estiman cifras nacionales confiables. Utilizando los datos del NEISS los autores recortan dos dispositivos que se encuentran codificados, patinetas, que hace ya tiempo se utilizan en el mercado, como juguete y también para actividades deportivas, y hoverboards.

Las lesiones por ambos productos presentan similitudes, y también algunas diferencias.

La media de edad para lesiones de hoverboard es de 11 años y la de patineta, 13 años. La mayoría de las lesiones por hoverboard ocurrieron en la casa, y las de patineta en la calle. La muñeca es el lugar del cuerpo que más se lesionó, y el tipo de lesión más común fue la fractura.

Algunas diferencias entre ambos productos se deben a que la patineta permite saltos y acrobacias, se utiliza en la calle y a edades mayores; tiene un uso más deportivo. El hoverboard se usa mayormente en el hogar; por su diseño permite menos trucos y juegos, y es utilizado por niños de menor edad.

El interés de este trabajo y otros similares reside en un llamado de atención acerca de las lesiones que producen estos nuevos dispositivos. Resalta la importancia de que los pediatras estén actualizados respecto a las nuevas tendencias para mejor aconsejar a sus pacientes, y la necesidad de implementar medidas de seguridad para prevenirlos, tales como legislación sobre el uso, lugares adecuados para su utilización, y el uso de muñequeras y cascos para protección.^{2,4}

Dra. Ingrid Waisman

Médica Pediatra Neonatóloga
Comité de Prevención de Lesiones de la
Sociedad Argentina de Pediatría

Referencias

1. Raimondi P. *Hoverboard*: el juguete de moda. Clarín. Sociedad. 14 de mayo de 2017. [Acceso: 7 de junio de 2018]. Disponible en: https://www.clarin.com/sociedad/hoverboard-juguete-moda_0_B1k8XjQxW.html
2. Siracuse BL, Ippolito JA, Gibson PD, Beebe KS. Hoverboards: A new cause of pediatric morbidity. *Injury* 2017; 48(6):1110-4.
3. Google trends. [Acceso: 7 de junio de 2018]. Disponible en: www.google.com/trends.
4. Do MT, McFaul S, Cheesman J, et al. Emergency department presentations for hoverboard-related injuries: the electronic Canadian Hospitals Injury Reporting and Prevention Program, 2015 to 2016. *Health Promot Chronic Dis Prev Can* 2016;36(12):316-7.

*Cátedra de Clínica Pediátrica. Universidad Nacional de Córdoba
Profesor: Dr. José M. Valdés*

ANATOMIA PATOLOGICA DE ENCEFALITIS EPIDEMICA OBSERVADA EN LA CIUDAD DE CORDOBA (1)

POR EL

DR. ALFREDO FERRARIS

Hemos reunido como encefalitis estos casos que, a más de tener clínicamente un síndrome neurológico indiscutible, presentan desde el punto de vista histológico todas las características de la inflamación: exudación, degeneración y proliferación.

Pero estos fenómenos se distribuyen y comportan de una manera tal que les prestan una característica bastante especial, siendo posible en los casos más propicios crear una nueva entidad nosológica.

Describiremos en conjunto el tipo de la lesión, su asiento y extensión, tanto en las formas agudas como en las que por su evolución y cuadro anatómopatológico pueden considerarse crónicas.

Hemos empleado para la exploración del sistema nervioso los métodos comunes, junto a los tan expresivos de Río Hortega para la macro, micro y oligodendroglía, el de Spielmeyer para la mielina, las improntas sobre el material fresco para la búsqueda de inclusiones celulares, etc.

Sistemáticamente se han abierto peñascos y mastoides excluyendo los casos con lesiones inflamatorias agudas del aparato auditivo, a menos de tener la seguridad que estas lesiones aparecieron posteriormente en el curso de la encefalitis.

Para ser más precisos también hemos desechado aquellos casos de encefalitis agudas curadas, que fallecieron posteriormente de otra enfermedad y que el estudio microscópico del sistema nervioso demostró solamente ligeras alteraciones, representadas por un discreto infiltrado redondo celular de las mallas aracnoideas, algún quiste seroso entre cerebro y meninges, etc.

Con más razón, no incluimos tampoco muchos casos que clínicamente fueron encefalopatías primarias, de muy rápida evolución y que el examen histológico sólo demostró lesiones de edema, congestión y tumefacción turbia de las células nerviosas, aunque tenemos la convicción de su naturaleza encefalítica especial.

(1) Este trabajo corresponde a la epidemia descrita por el doctor José M. Valdés y comunicada a la Sociedad Argentina de Pediatría, en sesión extraordinaria, realizada el día 6 de julio de 1945.

Así depurados, presentamos los siguientes casos autopsiados:

162/1940. 37/1941. 144/1941. 150/1941. 151/1941. 36/1942. 37/1942. 40/1942. 49/1942. 80/1942. 91/1942. 93/1942. 122/1942. 132/1942. 139/1942. 150/1942. 155/1942. 161/1942. 1/1943. y 35/1943, haciendo en primer lugar la descripción general macro y microscópica y colocando después, al final de cada historia clínica, un resumen de su correspondiente protocolo de autopsia (*).

FORMAS AGUDAS.—Fueron las más numerosas, caracterizadas por un auge primario al sistema nervioso; anatómopatológicamente las lesiones son groseras en él y menos acusadas en los otros órganos.

Aspecto macroscópico: La masa encefálica se presenta anormalmente blanda, edematosa, congestiva en grado extremo.

Las meninges blandas participan de estos fenómenos, sus vasos ingurgitados al máximo, especialmente las venas, llegan a tener el calibre de un lápiz (ver Fig. 1). Entre la duramadre y leptomeninges abunda el líquido cefalorraquídeo a veces en cantidad extraordinaria, casi siempre claro, raramente xantocrónico, excepcionalmente sanguinolento.

Las meninges blandas están lucientes, tensas por el edema, tomando un aspecto gelatinoso, temblón, donde destacan los vasos ectásicos y serpenteantes, que no es capaz de borrar por compresión el transudado, a pesar de su habitual cantidad.

Pequeñas manchas opacas de aracnoiditis serosa suelen tachonar el brillo de las meninges.

La duramadre no acusa lesiones macroscópicas. Comúnmente no se observa trombosis de los senos; cuando las hubo, interesaban especialmente el seno longitudinal y los laterales.

Después de endurecer el cerebro por la fijación, se practican los grandes cortes, observándose aquí también los fenómenos de edema y resaltando especialmente los congestivos: los vasos ectásicos seccionados salpican como un petequismo difuso la totalidad de la masa encefálica, siendo naturalmente más exagerado el cuadro en el centro oval por el fondo blanco de contraste. Es del todo excepcional encontrar focos hemorrágicos o de reblandecimiento de la sustancia cerebral.

Los ventrículos laterales, agujeros de Monro, tercer ventrículo, acueducto de Silvio y cuarto ventrículo por lo común sólo se encuentran moderadamente dilatados, a veces al parecer normales, contrastando en muchas ocasiones este hecho con la imagen radioventriculográfica, que denota en vida alteraciones muy groseras en el tamaño y forma de los mismos.

La médula participa en menor grado de los fenómenos antes citados;

(1) Estos protocolos pueden consultarse en el trabajo del profesor Dr. José M. Valdés titulado: "Estudios de encefalitis infantil realizados en Córdoba", en pág. 321 de esta revista.

los fenómenos congestivos son más marcados en la médula cervical alta y bulbo raquídeo.

Aspecto microscópico: La lesión dominante es del tipo de la encefalitis en foco, subcortical, en general de moderada intensidad, que toma especialmente la sustancia blanca, justamente en los límites de la gris, a la que interesa en muchos casos en sus porciones profundas, siendo el lóbulo orbitario y el frontal, alrededor de la zona motriz pero particularmente el área 4a y 4b de Brodmann los sitios de preferencia atacados (ver esquema y microfotografía 1).

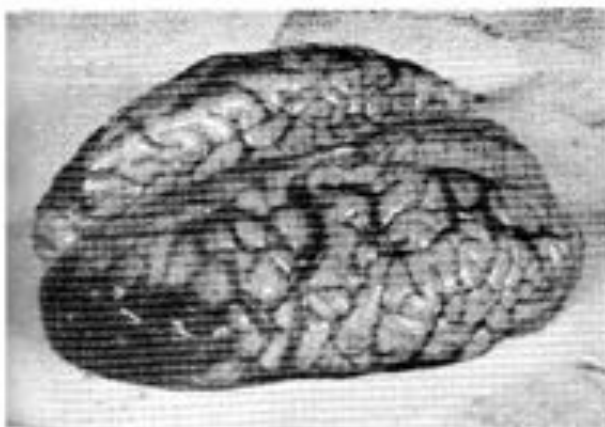
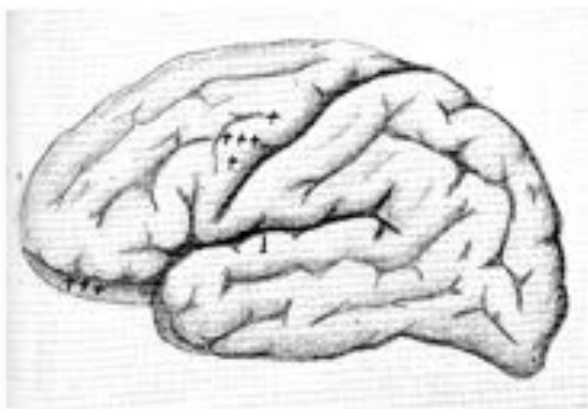


Figura 1

Cerebro edematoso congestivo de la encefalitis aguda; foco hemorrágico del lóbulo frontal izquierdo a raíz de una trepanación reciente



Esquema donde las cruces señalan el asiento predilecto de las lesiones

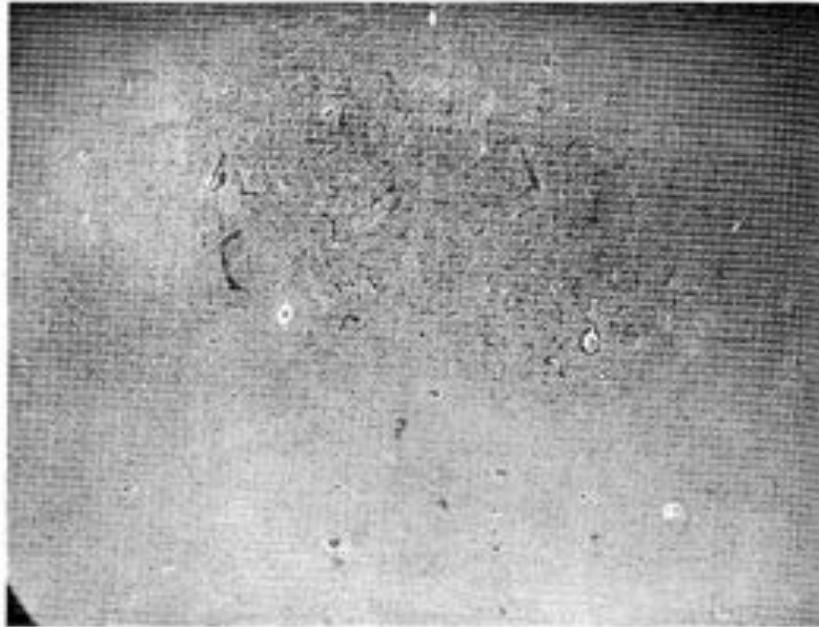
del tipo de la encefalitis en foco, subcortical, en general de moderada intensidad, que toma especialmente la sustancia blanca, justamente en los límites de la gris, a la que interesa en muchos casos en sus porciones profundas, siendo el lóbulo orbitario y el frontal, alrededor de la zona motriz pero particularmente el área 4a y 4b de Brodmann los sitios de preferencia atacados (ver esquema y microfotografía 1).

Mas en los casos agudísimos el proceso puede lesionar cualquier punto del encéfalo, pudiendo perder su carácter de focal y hacerse difuso.

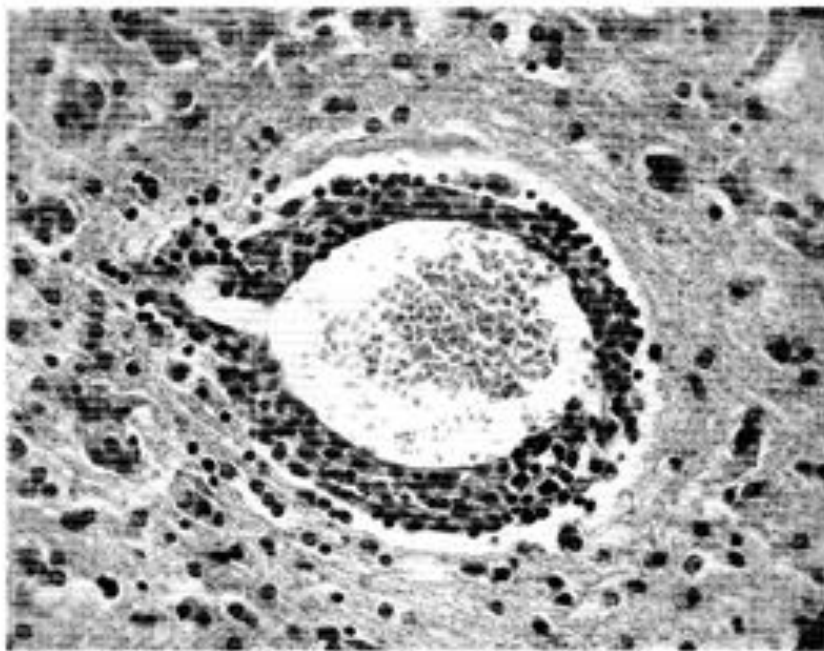
Sin embargo, aun en estos casos, se percibe que la intensidad de la lesión es mayor en las zonas ya citadas, degradando a medida que nos alejamos de ellas: núcleos grises centrales, pedúnculos cerebrales, protuberancia, cerebelo y bulbo para ser menos marcada en la médula espinal.

Edema, congestión, manguitos inflamatorios perivasculares y reacción de la gliona, constituyen el cuadro más típico de esta enfermedad, mientras las alteraciones de las células nerviosas impresionan más bien como lesiones comitantes así como los de atrofia retrógrada y desmielinización

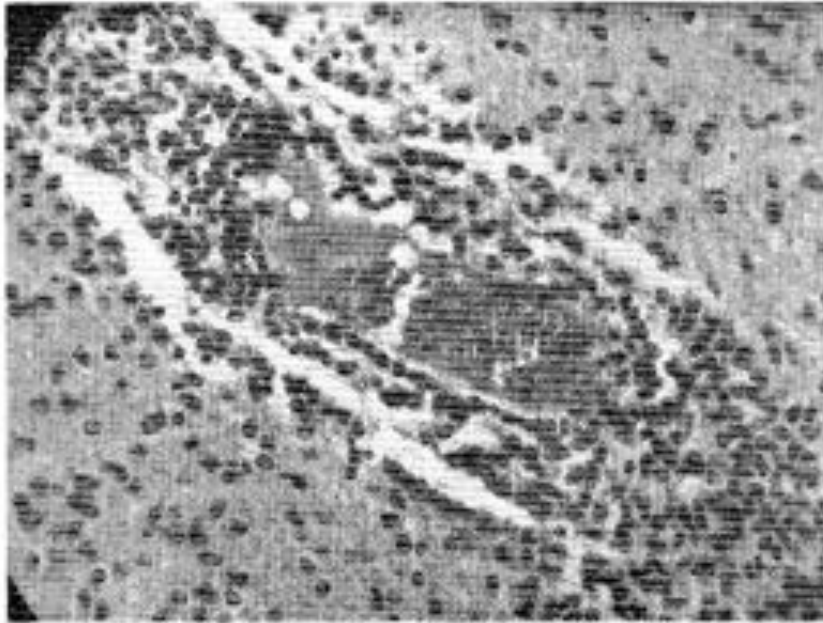
Edema, congestión, manguitos inflamatorios perivasculares y reacción de la gliona, constituyen el cuadro más típico de esta enfermedad, mientras las alteraciones de las células nerviosas impresionan más bien como lesiones comitantes así como los de atrofia retrógrada y desmielinización



Microfotografía 1.—Vista panorámica de un gran foco inflamatorio situado entre la sustancia gris y la blanca subcortical. Zona meseta de la corteza cerebral. Oc. 8. Obj. 6. Mét. común



Microfotografía 2.—Manguito inflamatorio estrictamente perivascular. Oc. 12. Obj. 62. Mét. común



Microfotografía 3.—Otro manguito perivascular con mayor difusión del proceso inflamatorio. Oc. 12. Obj. 62. Mét. común

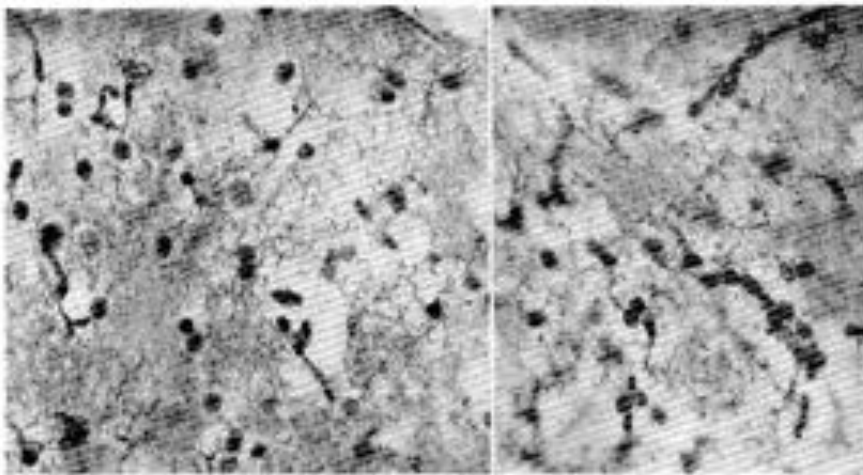


Microfotografía 4.—Tres manguitos de infiltración inflamatoria perivascular, observándose una leve difusión de los elementos inflamatorios al tejido ambiente. Oc. 10. Obj. 12. Mét. común

— 334

son ciertamente secundarios. El edema es tan intenso que células y fibras quedan fuertemente separadas entre sí por grandes halos claros, mientras la congestión muy marcada ingurgita los vasos multiplicando el volumen de los capilares, los que generalmente mantienen íntegras sus paredes, sin formarse verdaderas hemorragias. Los espacios linfáticos participan también del éstasis y dilatación. Los fenómenos de infiltración inflamatoria se mantienen regularmente alrededor de los vasos, formando manguitos continuos o discontinuos y sin afectar a todos los de un mismo sector; así es común que a la par de los vasos con coronas infiltrativas perivasculares, se encuentren otros totalmente exentos de ellas.

Los manguitos de infiltración inflamatoria se forman especialmente en torno de los capilares sanguíneos ingurgitados, más raramente alrededor de los linfáticos, arteriolas y vénulas (Microfotografía 2).



Microfotografía 5.—Movilización de la microglía en zonas vecinas a los focos inflamatorios. Oc. 10. Obj. 62. Téc. Río Hortega para microglía

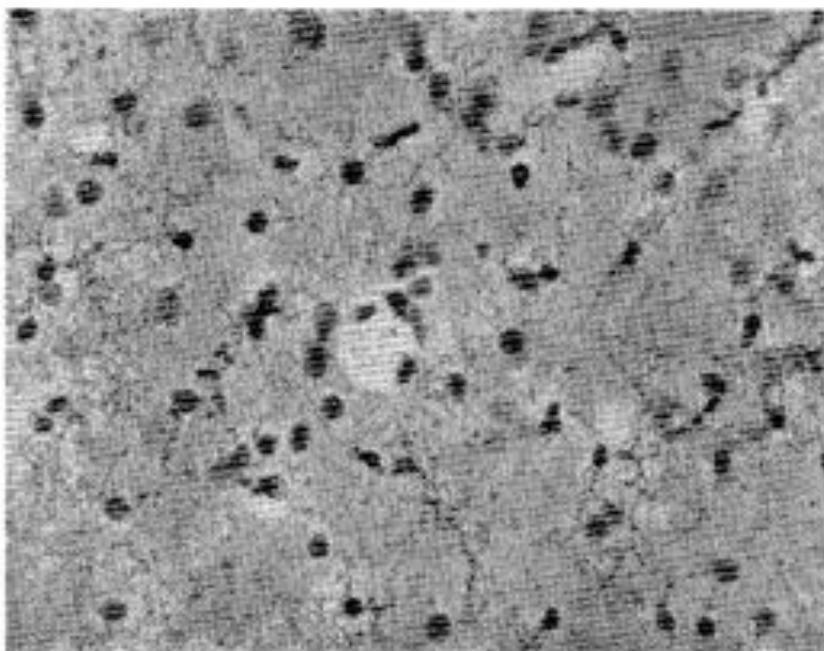
Ellos están constituidos principalmente por linfocitos a los que se entremezclan algunas células plasmáticas, uno que otro leucocito neutrófilo o elementos endoteliales y periteliales proliferados (1).

Este halo inflamatorio si bien es generalmente perivascular, en los casos en que la inflamación es intensa se expande a la sustancia cerebral próxima (Microfotografía 3), pero casi siempre es posible frente a un infiltrado difuso, reconocer el vaso con su manguito que le dió origen (2).

(1) En estas células algunas veces, ha sido posible discernir incluidos en su masa protoplasmática, corpúsculos basófilos en forma de bastón o a veces configurados de tal manera que recuerdan diplococos rodeados por un halo claro.

(2) Para encontrar estos focos inflamatorios con sus manguitos perivasculares, es a veces menester practicar centenares de cortes; esta insistencia en la búsqueda, al principio reiteradamente negativa, se hace naturalmente en los casos que clínicamente había fuerte sospecha de encefalitis.

La infiltración inflamatoria del tejido nervioso, lejos de los vasos es siempre mezquina, siendo del tipo linfococitario. A la par de estas lesiones es posible observar en la proximidad de los capilares menos lesionados, esférulas de sustancia homogénea, de aspecto mucóide, fuertemente basófila y que a veces se extiende al tejido nervioso ambiente, aunque aquí es de aspecto lacunar. Donde existe sustancia mucóide, los núcleos de la oligodendroglia parecen multiplicados y nos da la impresión de tratarse de restos de mielina patológica, no totalmente solubilizada en los solventes ordinarios.



Microfotografía 6.—Otros campos similares a la microfotografía anterior. Oc. 10. Obj. 62. Mét. Río Hortega para microglia

El comportamiento de los elementos neuróglícos y microgliales (gentileza del Prof. Río Hortega), es el siguiente: "en relación con los infiltrados linfococitarios perivasculares, existe una gran movilización de la microglia, la cual presenta formas abultadas del tipo correspondiente a la fase de actuación macrofágica activa. Lejos de los focos inflamatorios no ofrece grandes cambios que la separen de lo normal"

Con respecto a los astrocitos, se aprecia una moderada reacción que se manifiesta en ellos por ligeros fenómenos de hipertrofia en la proximidad de los focos inflamatorios.

Las meninges blandas espesadas por sitios, presentan infiltración linfococitaria difusa, este aspecto particular considerado como lesiones de

aracnoiditis serosa, la encontramos con relativa frecuencia y a menudo también esta imagen se observa en profundidad, es decir, que las meninges infiltradas, al invaginarse acompañando los vasos, dibujan en torno a ellos y en pleno encéfalo, manguitos inflamatorios, que difieren de los anteriormente citados por la perfecta nitidez de sus límites y la ausencia de infiltración de la sustancia cerebral allegada, además de que todos los vasos de la región dependiente de la placa de aracnoiditis están tomados.

En cuanto a las células nerviosas, en el sitio que ostentan los focos, sufren lesiones de carácter alterativo hasta llegar a la atrofia; sin embargo, estas lesiones no son muy pronunciadas, lo mismo que los focos de necrosis y la aparición de cuerpos granulosos, aunque en uno de nuestros casos estas lesiones predominaron sobre las demás. Las áreas de desmielinización halladas siguiendo las vías emparentadas a los focos inflamatorios, guardan relación con la intensidad y extensión del proceso morboso, no existiendo a este nivel mayor congestión e infiltración perivascular, hechos que caracterizan a las zonas directamente afectadas por la reacción inflamatoria.

Esto nos exime de la persecución sistemática, topográfica de los fenómenos degenerativos a lo largo de las vías de asociación o proyección, que es problema de orden fisiopatológico.

FORMAS PROLONGADAS Y CRÓNICAS.—Son los casos que desde su iniciación hasta el exitus transcurre mucho tiempo; después del ataque agudo han quedado o no secuelas siguiendo la enfermedad su evolución.

Macroscópico: Duramadre, aracnoides y pia engrosadas, reunidas por abundantes tractos fibrosos, que es menester seccionar a tijera para liberar el cerebro. El espesamiento de la duramadre es marcado en forma de placas circunscriptas, a cuyo nivel los huesos de la bóveda están adelgazados en forma de depresiones circulares u ovaladas que recuerdan la impresión del godet. Este espesamiento general de las meninges, interesa también naturalmente la tienda del cerebelo, meninges espinales, etc.

Habitualmente es muy pronunciada la hidrocefalia externa; el líquido es claro y está repartido en estancos incompletos por la abundancia de las bridas mencionadas entre la duramadre y la aracnoides.

El cerebro en las partes no fijadas por los tractos fibrosos se deprime y aquí el líquido cefalorraquídeo se acumula en mayor cantidad.

Estos hechos dibujan imágenes radiográficas especialísimas.

En el cerebro, (ver Fig. 2), que guarda mayor consistencia que en las formas agudas, predominan los fenómenos de edema crónico sobre los congestivos.

Es más pequeño que lo normal, de forma irregularmente lobulosa, las depresiones a veces interesan a todo un lóbulo que parece atrófico y esto se observa especialmente en los lóbulos frontales.

La médula espinal por ser anormalmente delgada da la impresión de estar alojada en un nicho óseo excesivamente grande para albergarla.

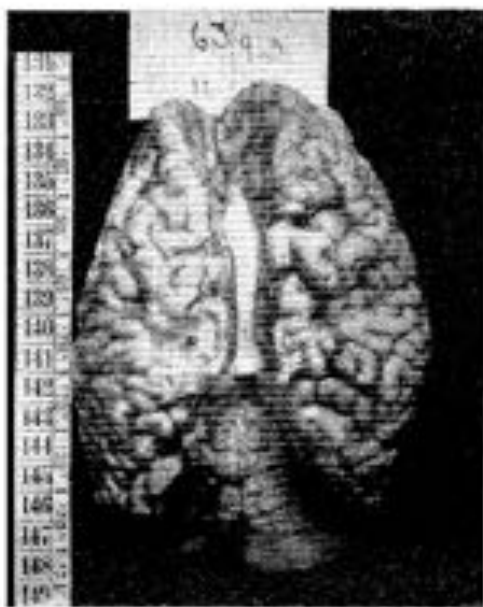


Figura 2

Típico caso de encefalitis crónica. Atrofia parcial del hemisferio cerebral izquierdo especialmente en la parte media y vecina al surco interhemisférico, donde existe una extensa área de aracnoiditis de aspecto lechoso. Los vasos sanguíneos se presentan ingurgitados, algunos trombosados.

Se suelen encontrar algunos focos degenerativos subcorticales de aspecto opaco y contornos irregulares, generalmente en el lóbulo frontal o parietal, pero aquí como en las formas agudas tampoco se ven focos hemorrágicos, al menos recientes.

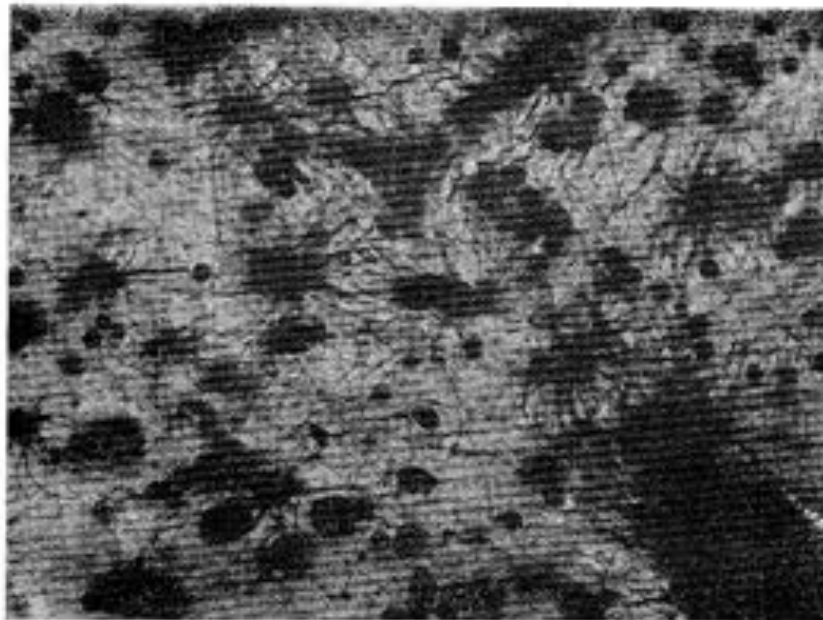
Microscópico: Las meninges, particularmente aracnoides y piamadre están engrosadas, infiltradas de elementos parvicelulares, edematosas y congestivas. A veces recuerdan un tejido de granulación banal muy vascularizado que penetra en anchas cuñas disociando y separando las circunvoluciones, afinándose en punta al llegar a las vecindades de la sustancia blanca y envuelto en este magma inflamatorio discurren los vasos cuyas paredes suelen estar ligeramente espesadas. En alguna oportunidad hemos encontrado también verdaderas laminillas óseas engastadas en las leptomeninges.

En el cerebro las lesiones reaccionales corresponden en primer lugar a las de la angiogliona. Así hemos podido comprobar que ella está hiper-

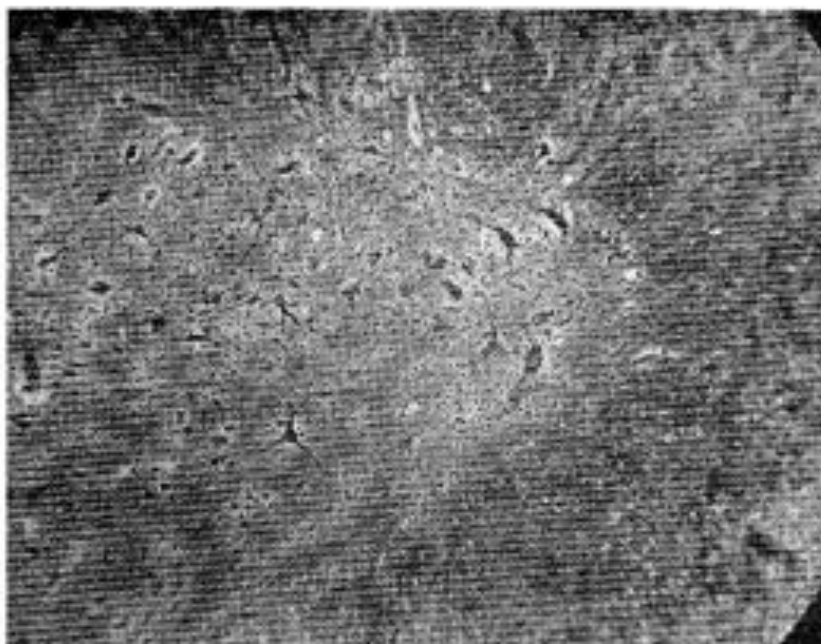
Los grandes cortes, después de fijado, demuestran que la sustancia cerebral ha tomado un tinte amarillento muy uniforme, por lo que la diferenciación entre sustancia gris y blanca es más difícil de discernir.

Los ventrículos, especialmente los laterales, no solamente están alterados en su volumen y forma, sino también disimétricos, comprimiendo uno más que otro los núcleos grises del lado correspondiente, siendo fácil percibir su deformación.

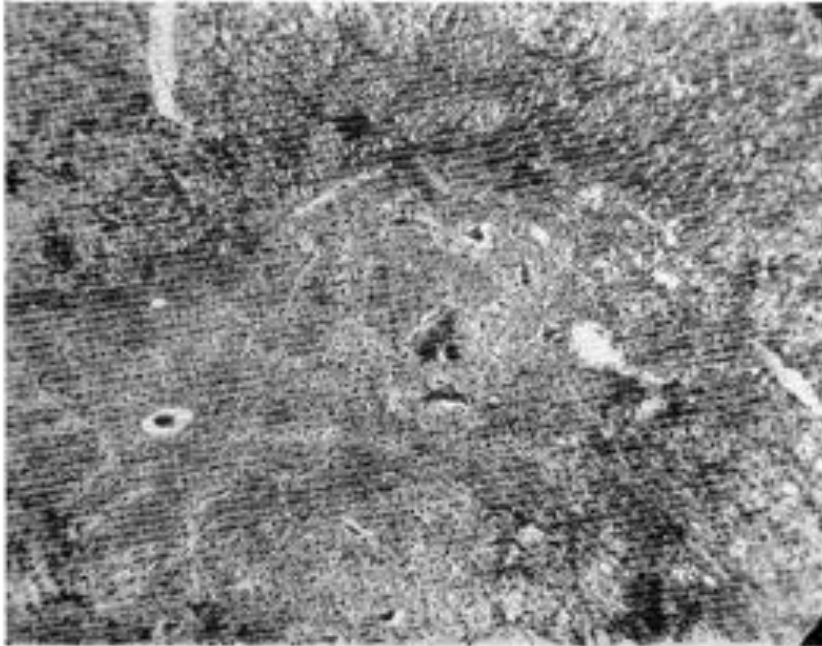
Las formaciones pedunculares así como la médula espinal también presentan lesiones macroscópicas groseras; a veces, sin embargo, es necesario ayudarse de un lente para percibir las. En esta última suerte suele verse falta de simetría en la sustancia gris: uno de los cuernos anteriores por ejemplo se muestra atrófico y deforme en comparación con el opuesto, etc.



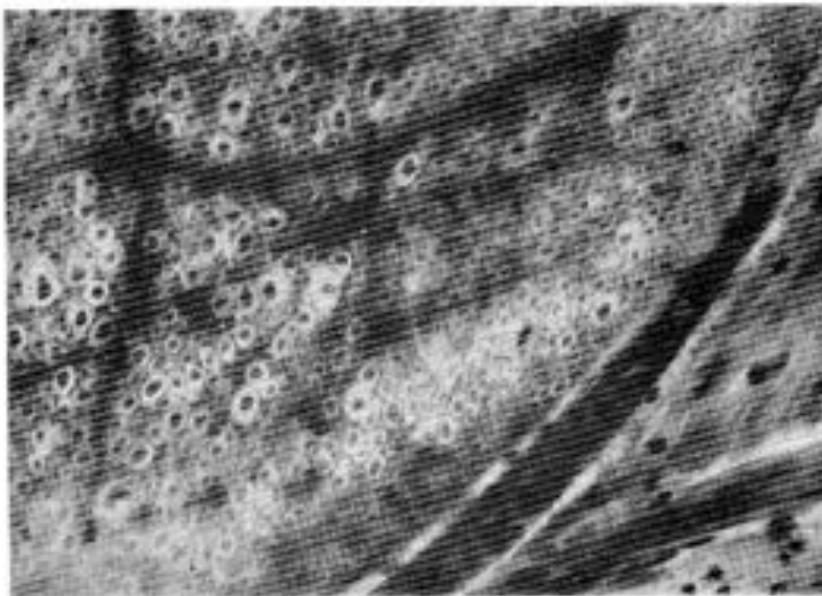
Microfotografía 7.—Hiperplasia e hipertrofia astrocitaria. Mét. Rio Hortega para la neuroglia. Oc. 12. Obj. 62



Microfotografía 8.—Uno de los cuernos anteriores de la médula espinal relativamente conservado. Oc. 8. Obj. 12. Téc. Rio Hortega para microglia



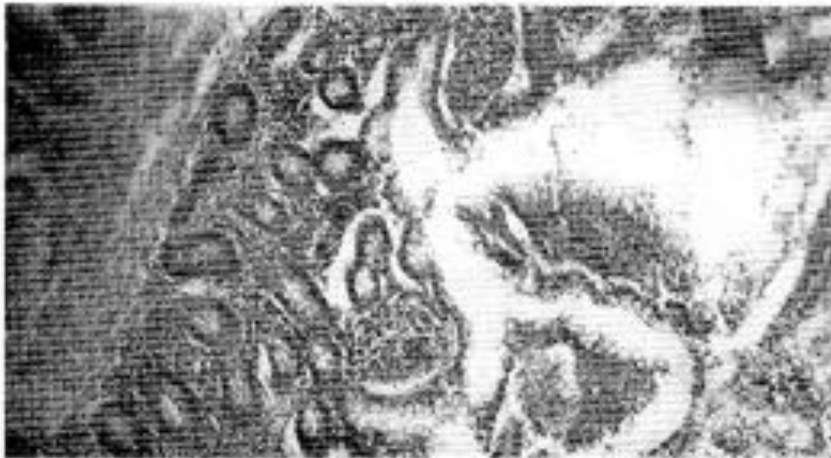
Microfotografía 9.—El otro cuerno anterior de la misma médula con graves lesiones de atrofia y destrucción de las grandes células motoras. El mismo método y aumento que en la microfotografía anterior



Microfotografía 10.—Red de neuroglia hiperplasiada abrazando los cilindros medulares. Médula espinal. Oc. 12. Obj. 62. Téc. Río Hortega para microglia

— 340

plasiada en general, siendo estos materiales muy adecuados para el estudio de los astrocitos protoplasmáticos y fibrosis (2) (ver microfotografía 7). La microglia se moviliza y prolifera cuando existen empujes agudos, que se reconocen fácilmente por la aparición de los manguitos inflamatorios



Microfotografías 11 y 12.—Material de ileón. Arriba lesiones de enteritis folicular con hipertrofia e hiperplasia del aparato linfoideo. Abajo catarro de la mucosa con transformación total de su epitelio de revestimiento en células caliciformes. Mét. osina-hemat. Or. 8. Obj. 12

perivasculariales como los citados en los casos agudos; en sus proximidades raras veces se encuentran depósito de pigmento ocre.

También son frecuentes las lesiones de hidrocefalia interna y de

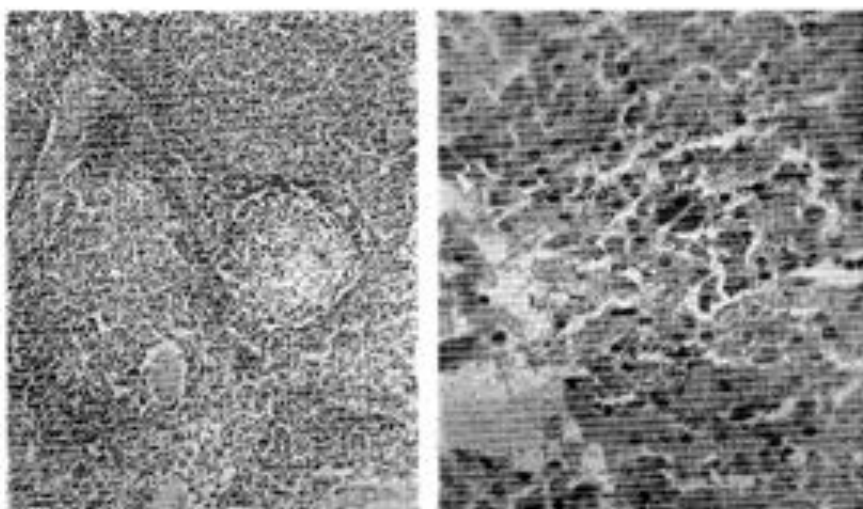
(3) Estas lesiones no llegan a ser tan intensas que pueda hablarse de una esclerosis diseminada hipertrofica, tampoco de una lobulillar atrofica, dado el carácter en focos aislados que presentan nuestras encefalitis.

poroencefalia que degradan lo mismo que las formas agudas, llegando hasta interesar la médula.

En ésta hemos encontrado a veces graves destrucciones de las grandes células motoras de una de las astas, mientras la neuroglia especialmente de los cordones anterolaterales está proliferada, formando un espeso enrejado, entre cuyas mallas discurren los cilindros al parecer normales y rodeados de una gruesa capa de mielina (véase las microfotografías 8, 9 y 10).

LESIONES EN LOS OTROS ORGANOS

Sobre todo en los casos agudos, se ha observado un estado catarral de las vías digestivas, particularmente del intestino delgado, con notable aumento de los corpúsculos linfoides (ver microfotografías 11 y 12).

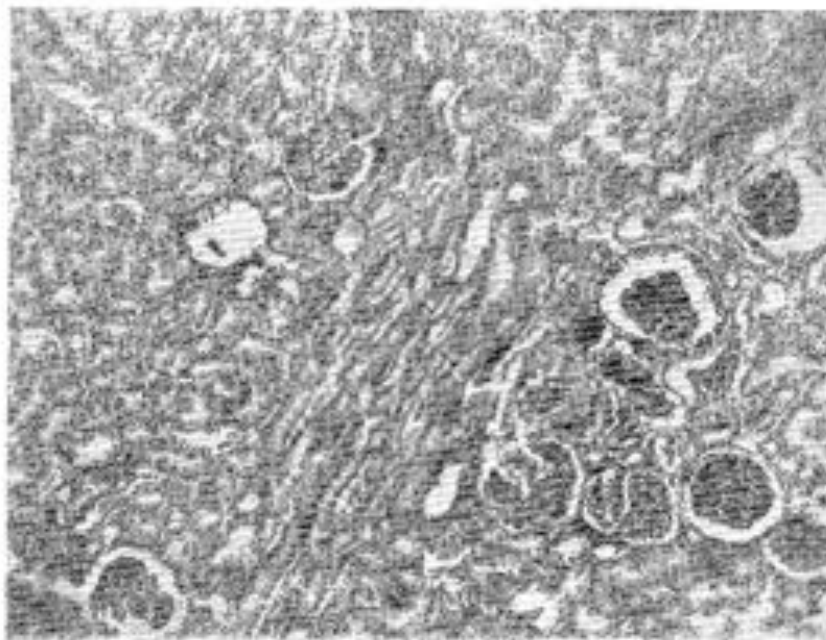


Microfotografías 13 y 14.—A la derecha hígado con tumefacción turbia. A la izquierda bazo congestivo con aumento de la pulpa roja. Mét. común, Oc. 10. Obj. 62 y 12

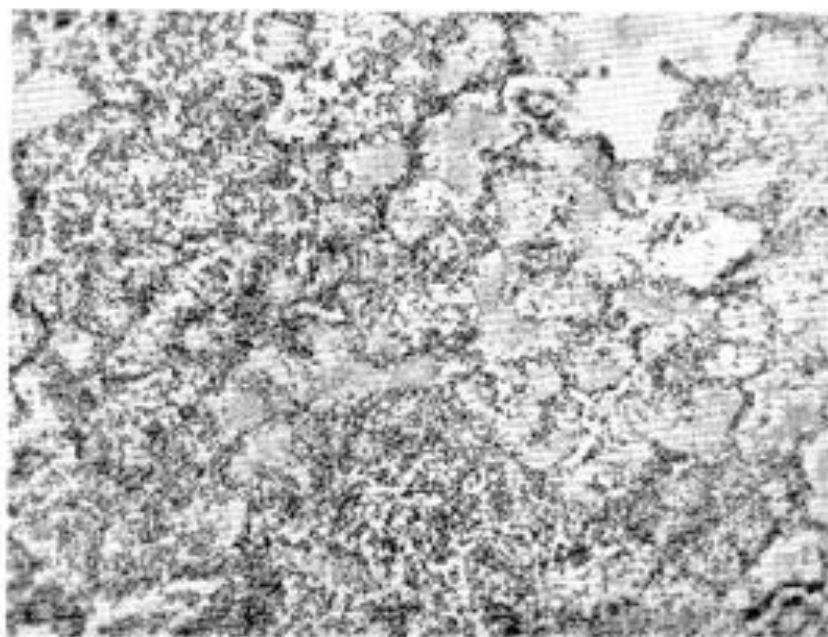
Este catarro se hace también presente en mastoides y antro, donde se encuentra un líquido claro y filante en abundante cantidad.

En hígado, bazo y riñones priman los fenómenos congestivos, en el primero además suelen encontrarse fenómenos de carácter alterativo: tumefacción turbia, degeneración grasa, etc. (ver microfotografías 13, 14 y 15).

En los pulmones, a la par de fenómenos congestivos y catarrales se suelen observar focos neumónicos, no más frecuentes que los hallados en autopsias de otra índole. En los lactantes estos focos se disponen especialmente en los canales costovertebrales adoptando el tipo de las neumonías focales dístelectáticas. En los de más edad las lesiones son



Microfotografía 15.—Congestión renal con hemorragias dentro de las dos hojas de la cápsula de Bowman. Oc. 10. Obj. 12, eosina-hematoxilina

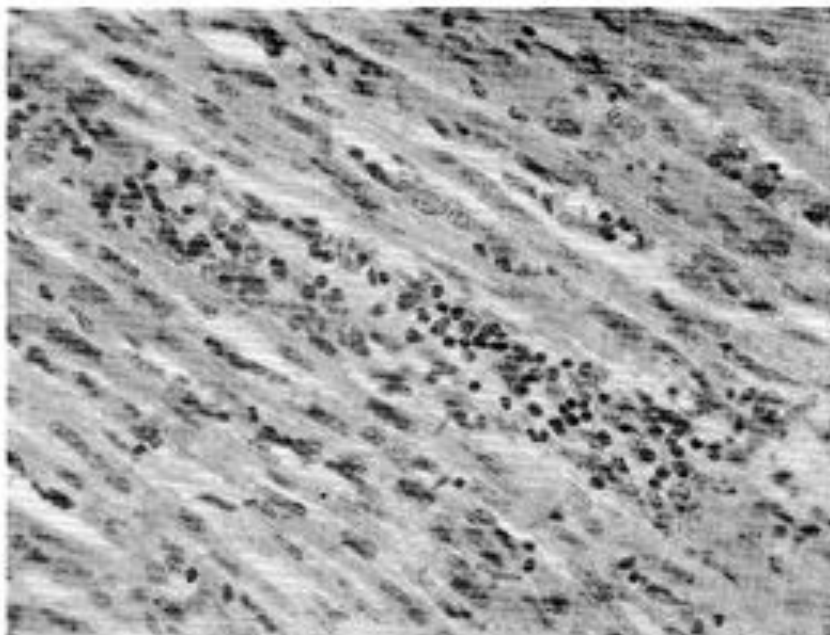


Microfotografía 16.—Lesiones de neumonía focal. Oc. 12. Obj. 12

comúnmente del tipo lobulillar, predominando el factor hemorrágico, más raras son las de carácter peribronquico (ver microfotografía 16).

En el corazón, por lo general no se encuentran lesiones, aunque en uno de nuestros casos se desarrolló concomitantemente a la encefalitis una miocarditis de tipo predominantemente intersticial, con infiltrados de tipo linfoplasmocitario muy marcados (ver microfotografía 17).

Nada de especial en otros órganos y glándulas de secreción interna, ausencia en general de los manguitos perivasculares que dominan en cambio en el cuadro histológico del sistema nervioso.



Microfotografía 17.—Miocarditis predominantemente intersticial con infiltrados linfoplasmocitarios. Mét. común. Oc. 10. Obj. 62

Se trata, pues, de un cuadro infeccioso atenuado, con una especial reacción general de tipo catarral y pérdida consiguiente de la inmunidad de las mucosas.

Apéndice: Incluimos también dos casos de estas encefalitis en adultos, cuyas autopsias nos tocó practicar, para dejar constancia de su existencia y que se aprecien las particularidades que las diferencian de las de los niños.

Rodríguez Bartolo. Sala VII, Hospital de Clínicas, 41 años, comerciante. Sector: Prof. Dr. Luis Ferraris. Autopsia N° 34/1941.

Aspecto externo: Sujeto bien constituido y con buen estado de nutrición. Cráneo: Ingurgitación, edema y sobre todo hemorragia difusa de los espacios subaracnoideos que en forma de sábana oculta las circunvoluciones

subyacentes, extendiéndose a toda la convexidad del cerebro, acentuándose especialmente a lo largo de las cisuras rolándica y silviana y alcanzando mayor intensidad en correspondencia de los grandes lagos de la base, extendiéndose también sobre la cara superior de ambos hemisferios cerebelosos y rodeando al bulbo en forma de un grueso anillo cruórico.

Las meninges se desprenden con facilidad, son gruesas y opacas.

Los cortes de Pitres revelan considerable dilatación de los ventrículos, especialmente de los laterales y en particular del tercero, los que se encuentran ocupados por gruesos coágulos cruóricos.

La sustancia cerebral (cortical), está edematosa, espesada y con pequeños focos hemorrágicos en los lóbulos frontales y parietales.

Los núcleos grises a semejanza de lo que acontece en la cortical, son más oscuros y de límites más definidos, no presentando otras particularidades. El cerebro pesa 1450 gramos.

Tórax: Pleuras: Adherencias laxas en pleura derecha. Pulmones: hipóstasis y antracosis. Corazón: peso 520 gramos. Hipertrofia del ventrículo izquierdo, el miocardio es consistente, de color rojo oscuro, deja ver en las superficies creadas por los cortes tangenciales frecuentes estrías y aun pequeñas placas de esclerosis. Aorta: Ligero espesamiento de sus válvulas; numerosas placas de esclerosis, especialmente en el cayado.

Abdomen: Hígado pesa 1400 gramos, pálido, amarillento, algo duro. Vesícula y vías biliares normales. Bazo: 90 gramos, es blando, con su cápsula arrugada y denota aumento de la pulpa blanca. Riñones: (250 gramos c/u.), descapsulan con facilidad presentando numerosas estrellas vasculares. Al corte intensa congestión difusa y quistes de retención. Conducto gastrointestinal: Sufusiones hemorrágicas en la mucosa.

Microscópico: Sistema nervioso. Meninges blandas: intensa ingurgitación y dilatación de los vasos de la pia con hemoeragia difusa que ocupa todo el espacio subaracnoideo e infiltración perivascular formada particularmente por linfocitos, células plasmáticas, etc. Abundan los histiocitos con pigmento ocre y los vasos trombosados.

Corteza, especialmente frontal y parietal: infiltrados linfocitarios perivascularares, focos productivos con proliferación de endotelios y peritelios formándose un tejido de granulación donde están ausentes los elementos nerviosos que sólo se conservan en la periferia y zonas adventiciales con toda la gama de lesiones regresivas hasta llegar a la desintegración y tornándose apenas reconocibles al transformarse en masas redondeadas, con el núcleo picnótico, el protoplasma retraído e intensamente basófilo, las expansiones nerviosas atróficas o ausentes. Concomitando con las alteraciones regresivas anotadas, se observa una moderada proliferación de la glía que se extiende bastante lejos de los focos descriptos, donde se encuentran además en infiltración difusa, linfocitos, células plasmáticas y algunos polinucleares neutrófilos.

Dilatación e ingurgitación de los capilares, con sus vainas distendidas por la linfa coagulada e intensamente basófila, homogénea o formando finos grumos y encerrando escasos elementos formes.

A más de los focos productivo-exudativos, se encuentran pequeños focos hemorrágicos.

Tálamo óptico y núcleo lenticular: Congestión y ligeros manguitos perivascularares. Región infundíbulo talámica: exudado meníngeo con abundante fibrina localizado en las proximidades de un vaso de grueso calibre. Infiltrado perivascular, congestión y edema. Locus niger: no presenta lesiones.

Cerebelo: persiste la congestión y dilatación de los vasos piales; la hemorragia subaracnoidea es pronunciada pero los fenómenos inflamatorios muy escasos. La corteza cerebelosa y sustancia blanca sólo acusan fenómenos congestivos, moderado edema, estando ausentes los manguitos perivasculares y demás fenómenos inflamatorios.

Bulbo y médula: Sólo existe congestión de los vasos meníngeos y hemorragias de los espacios subaracnoideos. La sustancia nerviosa no presenta alteraciones apreciables.

Corazón: La porción parietal del ventrículo izquierdo no presenta lesiones dignas de nota. **Higado:** En los espacios y fisuras de Kiernan intensa infiltración perivascular.

Riñones: Dominan los fenómenos congestivos que ingurgitan los capilares glomerulares e intertabulares. Los tubos contorneados de primer orden con el epitelio tumefacto, en general bien conservado y con su luz distendida frecuentemente por un líquido albuminoso que incluye escasos elementos celulares.

Esteban Pérez César. Sala IX. Hospital de Clínicas, 64 años, agricultor. Sector: Dr. Alfredo Ferrarís. Autopsia N° 35/1941.

Cráneo: Dolicocefalo, más bien pequeño, aserrado se comprueba un notable engrosamiento de la duramadre, las meninges blandas edematosas y fuertemente inyectadas; el cerebro es muy blando y en conjunto es de color rojizo por la intensa vascularización que presenta. El mismo aspecto lo tienen cerebelo, puente, bulbo y médula.

Se practica un corte vérticotransversal que pasa por los tubérculos mamilares con el objeto de una mejor fijación, observándose que las cavidades ventriculares están dilatadas, repletas de líquido cefalorraquídeo ligeramente teñido por la sangre.

El centro oval está reducido de tamaño y los núcleos grises centrales están más colorados que lo normal. También destacan en estas partes la intensa inyección vascular ya citada, encontrándose en el lóbulo parietal izquierdo una pequeña zona hemorrágica del tamaño de un grano de maíz, en plena cortical. La exploración de los senos venosos y troncos arteriales no descubre macroscópicamente lesiones de trombosis.

Tórax: Pulmones con adherencias costales a nivel de ambas bases. Se presentan congestiones, edematosas y con foquitos de condensación parenquimal. Pronunciadas antracosis.

Corazón: Nada de particular, grandes vasos: ídem.

Abdomen. Estómago, intestino grueso y delgado: Solamente discretos fenómenos congestivos a nivel de la mucosa.

Higado y bazo: Algo disminuidos de tamaño, de aspecto normal.

Riñones y cápsulas suprarrenales: Nada de especial.

Microscópico: Meninges blandas muy congestionadas pero sin infiltrados ni hemorragias.

Cerebro: Lesiones corticales y subcorticales de infiltración linfocitaria perivascular, observándose en el punto ya citado macroscópicamente una hemorragia en anillo alrededor del vaso lesionado (ver microfotografía 18).

Los fenómenos congestivos y de edema son generales, pero los focos infiltrativos y degenerativos sólo se los encuentra en la superficie del cerebro, tomando sustancia gris y sustancia blanca próxima.

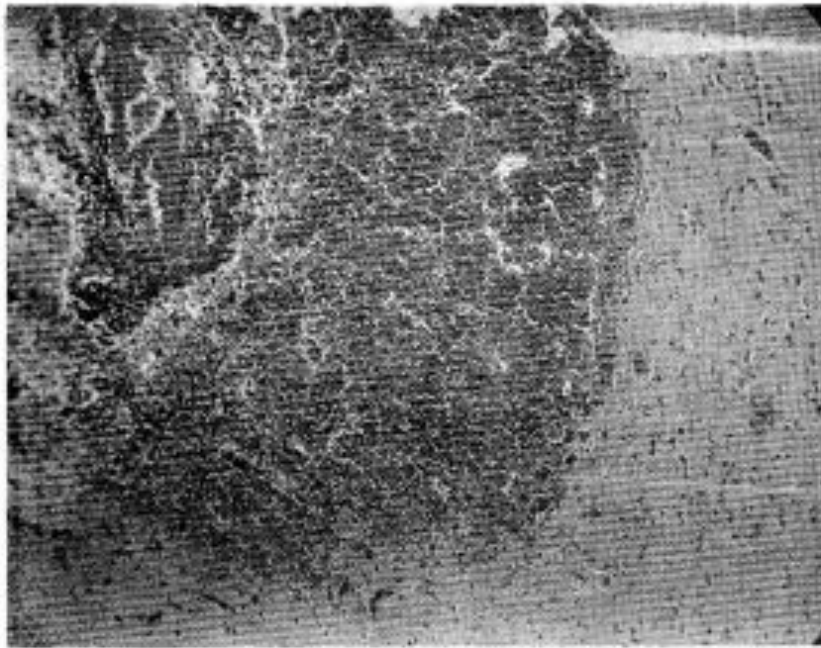
La reacción de la glía es sólo discreta en las vecindades de los focos inflamatorios.

— 346

Tubo gastrointestinal: Las lesiones están circunscriptas a la mucosa donde se observan extensas infiltraciones hemorrágicas.

Pulmones: Escasos fenómenos de condensación parenquimal (focos neumónicos), rodeados de zonas edematoso-congestivas.

En las restantes vísceras examinadas no se observan particularidades dignas de mención.



Microfotografía 18.—Extensa hemorragia cerebral (subcortical) formando un anillo en torno a un vaso sanguíneo rodeado por su manguito inflamatorio linfocitario.
Mét. común. Oc. 10. Obj. 12

Resumen: La lesión encefalítica en los adultos tiene un carácter marcadamente hemorrágico; las hemorragias interesan meninges blandas y cavidades ventriculares, o bien se producen en plena sustancia cerebral por efracción de la pared de un vaso que presenta manguitos inflamatorios.

El asiento de las lesiones y su degradación desde la corteza cerebral hasta la médula es similar a la que ocurre en los niños, aunque en los adultos los focos inflamatorios toman tanto la corteza gris como la sustancia blanca subcortical.

Pólipo rectal juvenil con metaplasia ósea en una niña: a propósito de un caso

Metaplastic ossification in a juvenile rectal polyp in a girl: a case report

Sr. Editor:

En la edad pediátrica, la consulta por rectorragia intermitente no relacionada con la defecación, sin moco ni coágulos, obliga a un estudio detallado para arribar al diagnóstico. Este estudio incluye los antecedentes familiares, la analítica del paciente, la exploración física en busca de lesiones anales que justifiquen la rectorragia (hemorroides o fisuras), y los estudios de endoscopia alta y colónica con la toma de las biopsias correspondientes. Un posible hallazgo es el pólipo rectal conocido como pólipo juvenil con metaplasia ósea, cuya extirpación se acompañó de excelente evolución en un caso atendido por nosotros.

El pólipo juvenil con metaplasia ósea es un hallazgo extremadamente raro. En la literatura inglesa, solo han sido reportados 21 casos.¹ El número de casos corresponde a 13 mujeres, 6 hombres y 2 casos de sexo no especificado. La media de edad fue de 69 años, correspondiendo 7 casos a niños.¹ La localización más frecuente fue recto-rectosigma con un tamaño medio de 16,3 mm,¹ siendo, en el caso de los niños, ninguno de ellos displásico (pólipos inflamatorios, pólipos juveniles y pólipos de

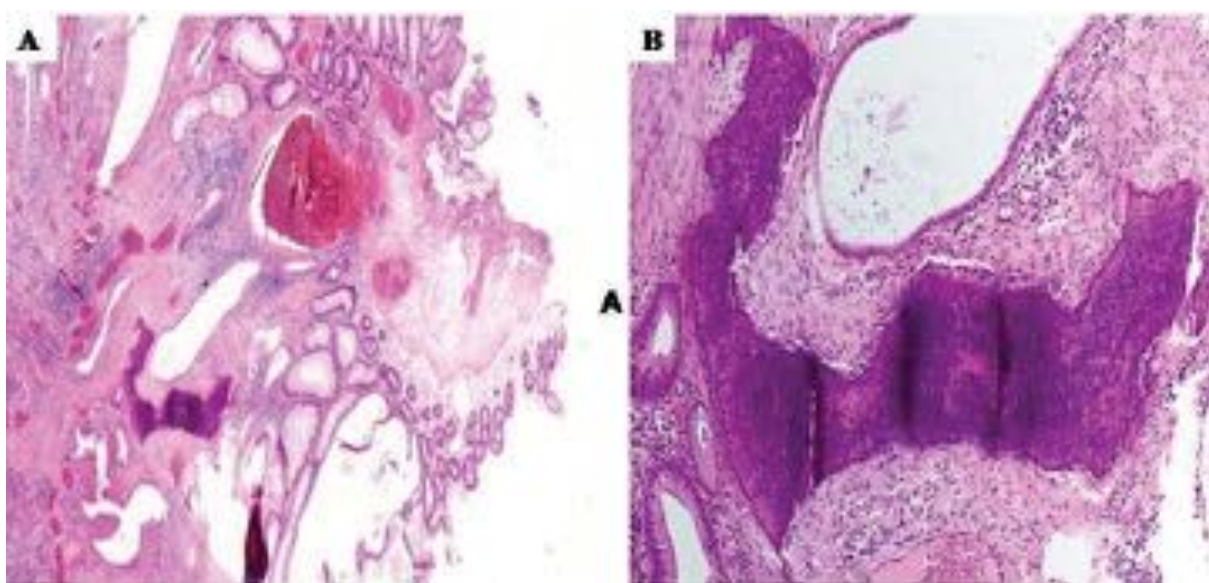
retención) como fue en nuestro caso.

La metaplasia ósea puede ser vista en procesos benignos y malignos. La patogenia de la metaplasia ósea es desconocida. Marks, en 1964, fue el primero en describir la formación ósea dentro de un pólipo rectal.² Existen varias teorías sobre el mecanismo patogénico de este curioso hallazgo. La estimulación osteogénica fue considerada resultado de un proceso inflamatorio. Necrosis, inflamación, calcificación preexistente, vascularización incrementada

FIGURA 1. Imagen endoscópica de la formación polipoide de 10 mm, pediculada, a 10 cm del margen anal



FIGURA 2. A) A poco aumento se observa una formación polipoide con glándulas dilatadas, rellenas de mucina, inflamación y hemorragia, destacando tejido óseo heterotópico (HE, 4x). B) A mayor aumento se aprecia con detalle el tejido óseo entremezclado con glándulas intestinales e inflamación (HE, 20x)



y depósito de mucina extracelular se han asociado con formación ósea heterotópica en tumores.³ También es frecuente ver lesiones benignas con metaplasia ósea con inflamación crónica o ulceración.^{3,6} Marks et al.² sugieren que la metaplasia ósea puede ser resultado de la transformación de fibroblastos en otros tipos de tejidos mesodérmicos, especialmente osteoblastos. Estudios recientes sugieren el rol de la expresión de proteínas morfogenéticas óseas (BMPs) en la patogenia de la metaplasia ósea.⁴

El diagnóstico requiere la realización de una colonoscopia con polipectomía. Los hallazgos histológicos incluyen una formación polipoide cubierta en su superficie por material fibrinopurulento con glándulas dilatadas, elongadas, llenas de mucina, dispersas en un estroma compuesto por inflamación aguda y crónica y tejido de granulación. En dicho estroma, llaman la atención pequeños focos de neoformación ósea cubiertos por mucosa intacta.⁵ Es una característica morfológica muy inusual pero no se ha encontrado significancia clínica ni pronóstica,⁶ como ha sido visto en nuestro caso. Con respecto al tratamiento, está indicada la polipectomía curativa.

En definitiva, aportamos un nuevo caso de un pólipo rectal con metaplasia ósea, una entidad extremadamente rara pero sin relevancia clínica ni pronóstica. ■

Álvaro Gutiérrez-Domínguez,
Sebastián Umbría-Jiménez,
Juan L. Gutiérrez-Cierco^a

Servicio de Anatomía Patológica,
Hospital Universitario Virgen Macarena, Sevilla, España.

REFERENCIAS

1. Zemheri E, Toprak M, Engin Zerk P, et al. Inflammatory rectal polyp with osseous metaplasia. *Med Med J*. 2015;30(3):143-6.
2. Marks MM, Atkinson KG. Heterotopic bone in a juvenile rectal polyp: case report. *Dis Colon Rectum*. 1964;7:345-7.
3. Cavazza A, Sassatelli R, De Marco L. Bone metaplasia in adenomatous intestinal polyp. Report of a case and review of the literature. *Pathologica* 1996;88(6):511-3.
4. Liu K, Tripp S, Layfield LJ. Heterotopic ossification: review of histologic findings and tissue distribution in a 10-year experience. *Pathol Res Pract* 2007;203(9):633-40.
5. Garg M, Kaur J, Bindroo S, et al. Metaplastic Ossification in a Juvenile Rectal Polyp: A rare histological finding. *J Clin Diagn Res* 2013;7(5):908-10.
6. Onoo Y, Fu KL, Nakamura H, et al. Bone formation in a rectal inflammatory polyp. *World J Gastrointest Endosc* 2010;2(3):104-6.

El caso del "Spinner": accidentes ocasionados por juguetes y recomendaciones para su prevención

The case of the "Spinner": accidents caused by toys and recommendations for their prevention

Sr. Editor:

El *Fidget Spinner* es un juguete del tamaño de la palma de la mano, con un eje central y dos o tres prolongaciones, según el caso. Este eje contiene un rulemán, que permite que sus extremos giren sobre el mismo velozmente ("spin" en inglés) y por tiempo prolongado, al moverlo repetidamente con los dedos (del inglés "fidget"). Algunas versiones tienen luces que funcionan con pilas botón, alojadas en un compartimiento de plástico, una en cada extremo del juguete. En esta breve descripción se identifican diversos elementos de riesgo para los niños (*Figura 1*) cuando no cumplen con parámetros de seguridad, pudiendo estos ser ingeridos o aspirados. Ejemplos de estos accidentes, atendidos en hospitales de Buenos Aires, se describen a continuación.

FIGURA 1. Partes componentes básicas del Fidget Spinner



FIGURA 2A. Congestión y mucosidad abundante en fosa nasal derecha, donde se encontraba la pila. La flecha señala el eritema en la mucosa nasal



Un niño de 4 años fue llevado a una guardia con la pila botón de un *Spinner* en la nariz. Se encontraron lesiones en la mucosa septal y congestión generalizada en la mucosa nasal y el ojo homolateral (Figuras 2A y 2B). Una radiografía de cráneo mostró el signo del “doble halo” y la imagen del “escalón”,¹ compatibles con una pila botón y confirmó la posición de la misma en la fosa nasal (Figura 3). Luego de extraer la pila en la sala de guardia se realizó lavado profuso de las lesiones, para evitar el daño de los tejidos por las sustancias químicas que permanecen en ellos, incluso una vez retirada la batería.²

Otro hospital de Buenos Aires recibió dos casos en un periodo de 3 meses. El primer paciente diagnosticado erróneamente con faringitis, resultó tener una pila botón proveniente de un *Spinner* en el esófago. La pila se extrajo

bajo anestesia general; se evidenciaron a su vez lesiones esofágicas causadas por la batería, que luego se resolvieron sin secuelas. El segundo caso requirió intervención bajo anestesia general por gastroenterología para extraer la pila de un *Spinner* alojada en el estómago.

Dentro de los elementos involucrados en estos accidentes, es destacable la posibilidad de aspiración o ingestión de las pilas botón, uno de los elementos más peligrosos de la vía aéreo-digestiva, por su mecanismo de daño y las consecuencias que genera al lesionar estos órganos.

El conflicto con el *Fidget Spinner* se produce con las versiones que no cumplen con las reglas del Mercosur para la seguridad de los juguetes. Según refiere Matías Furió, presidente de la Cámara Argentina de la Industria del Juguete

FIGURA 2B. Congestión ocular homolateral secundaria



FIGURA 3. Radiografía de cráneo perfil que evidencia la pila en la fosa nasal



(CAIJ), en una entrevista telefónica, dicho organismo cuenta con un laboratorio que ensaya los juguetes, tanto los importados como los nacionales, antes de su certificación para que puedan ser comercializados. El resultado de esta evaluación se informa a los organismos certificadores: el Instituto Nacional de Tecnología Industrial (INTI) o el Instituto Argentino de Normalización y Certificación (IRAM), donde finalmente se aprueban o no los artículos.

Los primeros *Spinners* comercializados en el país ingresaron por dos vías que no cumplieron con este proceso: por contrabando o como plástico de materia prima. Así, ingresaron al mercado rápida y masivamente, pero sin cumplir con las medidas de seguridad necesarias. Actualmente, hay *Spinners* aprobados para su comercialización. Para acceder a versiones certificadas de éste y otros juguetes se recomienda no comprar ejemplares en la vía pública. Además, la etiqueta debe detallar los siguientes datos del producto: fabricante, importador, sello de Administración Federal de Ingresos Públicos (AFIP), rango de edad al que está destinado y si está prohibido para menores de 3 años, requerimiento de compañía de un adulto para su uso, detallar si contiene bolsas que impliquen riesgo de ahogo, el símbolo "S" como certificación de normas de seguridad. Por último, los negocios que comercializan las versiones aprobadas cuentan con la documentación comprobatoria de la certificación del juguete, disponible para su consulta.

El riesgo de accidentes por inhalación o aspiración de las partes de juguetes como el *Spinner* está validado por estadísticas internacionales y, a nivel local, desde hospitales de nuestro país. El proyecto *Susy Safe* (<http://www.susysafe.org>) recopila la casuística sobre accidentes por cuerpos extraños en la vía aéreo-digestiva. Surgió en 2004 como una iniciativa desde la Unidad de Bioestadística, Epidemiología y Salud Pública de la Universidad de Padua, en Italia y ha llegado a más de 43 países, incluido Argentina.³ La recopilación de esta información se orienta a mejorar tanto los diseños de productos y envases, como las normas de seguridad de estos, para disminuir así la incidencia de accidentes por estos elementos.

En Argentina, el proyecto *Susy Safe* ha comunicado que los casos de obstrucción de la vía aérea por cuerpos extraños producen el 7% de las muertes en menores de 4 años.⁴ Por otro lado, la mayoría de los accidentes por ingestión

o aspiración de cuerpos extraños ocurren en niños de 1 a 3 años, por objetos tanto orgánicos como inorgánicos. Dentro de estos últimos, los juguetes son los segundos en frecuencia en estar involucrados.³ Es importante, por lo tanto, seguir generando estas estadísticas localmente, para detectar y prevenir los riesgos de este tipo de accidentes a los que se expone nuestra población.

El *Fidget Spinner* ha sido un juguete de moda. Debido a las versiones sin controles de seguridad, distintos elementos que lo componen ocasionaron accidentes por cuerpos extraños en la vía aérea y digestiva. Las pilas botón que estos portan pueden ocasionar eventos de especial gravedad, debido a su mecanismo de daño.

Así como ha sucedido con el *Spinner*, otros juguetes han estado y estarán involucrados en este tipo de accidentes. Al tratarse de objetos de juego este riesgo puede pasar inadvertido, por eso debemos estar atentos a que estos puedan contener partes peligrosas. El reporte de estos casos desde la comunidad y los profesionales de la salud es importante para conocer este problema y tomar las medidas para solucionarlo.⁵ Por último, padres y cuidadores deben ser informados para elegir juguetes seguros y adecuados a la edad de los niños, como también para evitar el contacto de estos con otros objetos que porten piezas que puedan ser inhaladas o ingeridas. ■

*Dra. Ana I. Legris^a, Dra. Pía Martínez Corvalán^a,
Dr. Juan Razetti^a, Dr. Hugo Rodríguez^b,
Dra. María L. Scatolini^b, Dra. Giselle Cuestas^c,
Dr. Patricio Bellia Munzón^c, Dra. Verónica Rodríguez^c,
Dr. Gastón Bellia Munzón^c y Dra. Flavia Doormann^{cc}*

- a. Servicio Otorrinolaringología, Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA.
- b. Servicio de Endoscopia Respiratoria, Hospital de Pediatría "Prof. Dr. Juan P. Garrahan". CABA.
- c. Sección de Endoscopia Respiratoria, División de Otorrinolaringología, Hospital General de Niños "Dr. Pedro de Elizalde". CABA.

Correspondencia: Dra. Ana I. Legris:
ana.legris@hospitalitaliano.org.ar

REFERENCIAS

1. Ninomiya I, Riga C, Aliverti G, et al. Consenso Nacional de Urgencias Endoscópicas en Pediatría 2016. *Arch Argent Pediatr* 2017; 115(Supl 1):S1-26.
2. Litovitz T, Whitaker N, Clark L, et al. Emerging Battery-Ingestion Hazard: Clinical Implications. *Pediatrics* 2010; 125(6):1168-77.
3. IntraMed. Riesgo de muerte en niños por alimentos y objetos cotidianos. Buenos Aires, 2013. [Acceso: 16 de junio de 2018]. Disponible en: <http://www.intramed.net/contenido.asp?contenidoID=81986>

- Rodriguez H, Cuestas G, Gregori D, et al. Recomendaciones sobre la prevención de la aspiración de cuerpos extraños orgánicos. *Arch Argent Pediatr* 2017; 115(5):512-6.
- Khalaf RT, Gurevich Y, Marwan AI, et al. Button battery powered fidget spinners: a potentially deadly new ingestion hazard for children. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* 2018; 66(4):595-7.

Comentario sobre el artículo "A propósito de un caso: enfermedad de Kawasaki incompleta en un niño con hipogammaglobulinemia"

Comment about the article "A case report: incomplete Kawasaki disease in a hypogammaglobulinemic child"

Estimado Editor:

He leído con sumo interés el artículo "A propósito de un caso: enfermedad de Kawasaki incompleta en un niño con hipogammaglobulinemia", publicado en el Vol. 116 Nro. 2 de su revista.

Considero pertinente realizar algunas consideraciones respecto al citado artículo. En primer lugar, disiento con la definición de enfermedad autoinmune según aparece en el epítome. Hasta la actualidad no es considerada con certeza una enfermedad autoinmune, existiendo consenso generalizado en asumirla como de etiología indefinida. Luego aparece como sinónimo de la enfermedad una denominación que supongo obedece a una irregular traducción, donde dice "Síndrome de los ganglios linfáticos mucocutáneos" (?) debiera figurar "Síndrome linfomucocutáneo ganglionar" que fue la descripción semiológica que dio T. Kawasaki a la entidad en la descripción original. Con respecto a la afirmación de que es la causa más frecuente de cardiopatía adquirida, esto resulta cierto para países del primer mundo, no siendo la misma realidad en los países emergentes como el nuestro, donde la fiebre reumática y la enfermedad de Chagas siguen siendo prevalentes. Coincido con los autores respecto en que la enfermedad de Kawasaki es infrecuentemente descrita en pacientes con trastornos inmunitarios. Sin embargo, he visto más veces asumir temporalmente como enfermedad de Kawasaki a pacientes que luego terminan con diagnóstico de trastornos inmunitarios, por ejemplo Enfermedad Granulomatosa Crónica, Takayasu o TRAPS (Síndrome de fiebre periódica asociado al receptor TNF).

Remitiéndonos al caso clínico concreto, he visto niños con "lengua aframbuesada" sin el resto del cuadro clínico característico de la enfermedad de Kawasaki que presentan infección por *Mycoplasma pneumoniae* (en este caso no se hizo serología). Por otro lado, si bien el dosaje

de inmunoglobulina G bajo, asociadas o no a déficits de A o M, en niños mayores de 6 meses y hasta 2-4 años definen el grupo etario de pacientes con hipogammaglobulina transitoria de la infancia, se asume que la respuesta inmune a la producción de anticuerpos a las vacunas (y por extensión a las infecciones) es normal o casi normal. Apoyados en esto, no resulta inadecuado pensar que la enfermedad de Kawasaki no debiera tener mucha variación con respecto a la presentada en individuos con inmunidad normal. Para los valores de laboratorios presentados, llama la atención la hiperplaquetosis al 7° día de evolución. Usualmente observamos este aumento en la segunda semana, en nuestra serie más precisamente a partir del día 11° del comienzo de la enfermedad. También llama la atención el valor de la velocidad de sedimentación, 20 es un valor bajo, inclusive en las publicaciones internacionales fijan este valor como significativo por encima de 60-70 mm de Hg en la primera hora. No queda explicitado en el artículo en qué momento se indico la gammaglobulina. Si al sexto día dejó de tener fiebre y ésta no reapareció luego de 48 horas, el paciente fue mejorando los parámetros clínicos y de laboratorio, no pasamos gammaglobulina y solo tratamos la hiperplaquetosis, usualmente a los dos meses se normaliza, en ese momento suspendemos la dosis antiagregante de aspirina. Debe recordarse que si el ecocardiograma descarta dilatación/aneurisma al momento de la desaparición de la fiebre, difícilmente aparecerán éstos en estudios posteriores. ■

Dr. Luis Eduardo Urrutia
Coordinador General de Guardias
Hospital "Prof. Dr. Juan P. Garrahan"
Buenos Aires, Argentina

REFERENCIAS

- Urrutia L, Roccatagliata G, Pierini A. Enfermedad de Kawasaki. En: Paganini H, ed. *Infectología Pediátrica*. Buenos Aires: Interamericana; 2007:285-92.
- Trabajos seleccionados: resúmenes y comentarios. *Arch Argent Pediatr*. 2012;110(6):534-40.

¿Por qué la interrupción electiva del embarazo por anomalía fetal no es eugenesia?

En la discusión por la legalización de la interrupción del embarazo en Argentina, han surgido algunos malentendidos con la posible relación entre eugenesia e interrupción del embarazo por anomalía fetal. Me propongo explicar estos conceptos y sus diferencias.

¿Qué es la eugenesia?

La genética se constituyó como disciplina científica a principios del siglo XX. Rápidamente se articuló con el darwinismo y sirvió de justificación para un movimiento biopolítico y demográfico denominado “eugenesia”, iniciado a fines del siglo XIX en Inglaterra. Entre 1920 y 1940 la eugenesia dio lugar a políticas sanitarias que proponían mejorar la descendencia humana, promoviendo la reproducción de algunas personas y limitando la de otras. Los pilares del movimiento eugenésico fueron básicamente dos: 1) las diferencias entre las personas están determinadas hereditariamente, con escasa influencia del medio ambiente. 2) la medicina y los planes de asistencia, tienden a impedir la influencia de la selección natural, por lo cual se había iniciado un proceso de degeneración de la especie humana. Se planteaba entonces la necesidad de que el Estado implementara políticas, biopolíticas de control, para contrarrestar esta situación.

La eugenesia actuó tanto impidiendo la reproducción de “personas indeseables”, como promoviendo la reproducción de personas consideradas “más ventajosas”. Algunas de las medidas implementadas fueron la esterilización de “débiles mentales, criminales, invertidos sexuales y deformes” y las restricciones a la inmigración, entre otras. Estas medidas fueron consideradas como una obligación del Estado, que asumía un rol de defensa social y de promoción de la “pureza de la raza”¹. Como señala Palma² la eugenesia no fue un movimiento lateral o paracientífico, sino un proyecto multidisciplinario, en el que estuvo comprometida la comunidad científica internacional. Se extendió a EE. UU., Inglaterra, Suecia, Alemania, entre otros países, debilitándose luego de la Segunda Guerra Mundial, tras la experiencia del exterminio nazi.

Durante la segunda postguerra se revalorizó la influencia ambiental en la causalidad de las enfermedades. Simultáneamente, la genética médica se fue configurando como una especialidad clínica, orientada a la atención de personas afectadas con condiciones congénitas, discapacidad intelectual, parejas con trastornos reproductivos, entre otras afecciones. Se definió por entonces el concepto de “asesoramiento genético”, entendido como un proceso de comunicación no directivo sobre los factores asociados a la ocurrencia, o al riesgo de recurrencia, de una condición genética en una familia. Este proceso consiste en explicar al

paciente, o a sus padres, las características, causas, modo de herencia, riesgo de recurrencia y opciones reproductivas.

¿Qué ocurre con la interrupción electiva por anomalías fetales en el mundo y por qué no es eugenesia?

La interrupción electiva del embarazo es legal para la mayoría de los habitantes de Asia, Europa, Oceanía y América del Norte, mientras que está restringida en América Latina y África. Cuando se realiza una interrupción voluntaria en un embarazo afectado por un defecto congénito, lleva el nombre de “interrupción electiva del embarazo por anomalía fetal” (en inglés se utiliza la sigla ETOFPA – *Elective Termination of Pregnancy for Fetal Anomaly*)

En los países donde la interrupción del embarazo es legal, las decisiones que las mujeres y personas gestantes toman frente a un embarazo afectado son variables, dependiendo de sus creencias y valores. Por ejemplo, el Registro de Vigilancia de defectos congénitos de Texas (EE. UU.), en el año 2012 reportó que en los embarazos afectados por anencefalia, una anomalía invariablemente letal, solo el 37,6% de las mujeres decidieron la interrupción. Por otro lado, según el Registro de Rhône Alpes, Francia, en el mismo año, el 100% las mujeres decidieron la interrupción de los embarazos con esa patología³. Esta variabilidad se relaciona con el carácter electivo y voluntario de la interrupción; suponer que el diagnóstico prenatal y la interrupción electiva representan una nueva eugenesia, desconoce el principio no directivo del asesoramiento genético.

La interrupción del embarazo por anomalía fetal no implica un juicio de valor sobre las personas que nacen con una anomalía congénita

Cuando el Estado impide la interrupción voluntaria, el resultado es el aborto clandestino, con el concomitante aumento de la morbimortalidad para las mujeres. Además, si la interrupción voluntaria fuera por la existencia de anomalías fetales, la clandestinidad a su vez impide el acceso a un establecimiento de salud, imposibilitando el diagnóstico certero y limitando el acceso al asesoramiento genético para prevenir anomalías semejantes en un futuro embarazo. La interrupción del embarazo por anomalías fetales no implica un juicio de valor sobre las personas que nacen con anomalías congénitas, pero, en cambio, permite a las mujeres decidir de manera

informada. Se debe garantizar este derecho de manera voluntaria, individual y legal, y a la vez se debe garantizar la atención de las mujeres que deciden continuar con su embarazo y los cuidados de su descendencia afectada. Aún en países con aborto ilegal, se ha visto que entre las mujeres que acceden a estudios prenatales, la mayoría refiere considerar la interrupción de embarazo si el resultado de los estudios es adverso, tal como mostraron Paolini y colaboradores, en una encuesta realizada en 2009 en Argentina y Uruguay en mujeres que acudieron a centros privados de diagnóstico prenatal⁴.

La legalización de la interrupción del embarazo por anomalías fetales debe acompañarse de otras acciones de prevención primaria, que, como la literatura demuestra ampliamente, pueden evitar la ocurrencia de embarazos afectados. Es fundamental garantizar la equidad en el acceso a medidas de prevención, tales como el aporte suficiente de nutrientes y el adecuado nivel de ácido fólico, el control de enfermedades crónicas como la diabetes pregestacional, la prevención y control de infecciones durante el embarazo, y evitar la exposición a teratógenos (medicamentos, drogas de abuso, etc.) y a contaminantes ambientales. Sin embargo, los beneficios de estas acciones de prevención frecuentemente no alcanzan a las mujeres de las clases sociales menos favorecidas, debido a que diferentes barreras culturales, socioeconómicas o geográficas limitan su acceso al sistema de salud y en consecuencia, a la información oportuna y la atención precoz de su embarazo.

Legalizar la interrupción del embarazo en nuestro país favorece la equidad

El diagnóstico prenatal temprano y la posibilidad de interrupción del embarazo frente a anomalías fetales, es una práctica extendida en los grupos sociales más privilegiados de nuestro país, pero restringida para la mayoría de la población. Un estudio realizado por nuestro grupo hace algunos años observó que la proporción de casos con anencefalia ocurridos durante 5 años en una maternidad pública, era 8 veces mayor que dicha proporción en una maternidad privada. La explicación fue que la población más favorecida accedía a la detección prenatal temprana de esta malformación y, consecuentemente, a la posibilidad de interrumpir los embarazos afectados, probablemente bajo supervisión médica aunque en el marco de la legalidad⁵.

La interrupción del embarazo por anomalías fetales debe ser una decisión voluntaria, libre y privativa de la mujer, acompañada por la posibilidad de acceder a la información adecuada y oportuna en el marco de un proceso de asesoramiento prenatal. Junto con el limitado alcance de las medidas de prevención primaria de anomalías fetales, la falta de acceso al diagnóstico precoz de anomalías fetales y al concomitante derecho a interrumpir un embarazo afectado si esa fuera la decisión libre de la mujer, refuerza la inequidad existente entre sectores sociales, perjudicando doblemente a los más desfavorecidos.

En coincidencia con las recomendaciones de la Federación Internacional de Ginecología y Obstetricia⁶ consideramos que la presencia de anomalías fetales severas tiene sustento ético para interrumpir el embarazo, si esa es la decisión informada de la mujer.

*Dr. Pablo Barbero, Dra. Rosa Liascovich,
Estud. Agustina Piola, Dra. María P. Bidondo,*

Dr. Boris Groisman

Red Nacional de Anomalías Congénitas
de Argentina (RENAC).

Centro Nacional de Genética Médica "E. Castilla".

ANLIS. Buenos Aires

Correspondencia: Dr. Pablo Barbero:
pablobarbero63@hotmail.com

REFERENCIAS

1. Miranda M, Vallejo G. Presentación. En Miranda M, Vallejo G. Darwinismo social y eugenesia en el mundo latino. Buenos Aires: Siglo XXI; 2005:11-19.
2. Palma HA. Consideraciones historiográficas, epistemológicas y prácticas acerca de la eugenesia. En Miranda M, Vallejo G. Darwinismo social y eugenesia en el mundo latino. Buenos Aires: Siglo XXI; 2005:115-145.
3. International Clearinghouse for Birth Defects Surveillance and Research. Reporte anual, 2014. Roma: ICBDSR; 2015. [Consulta: 15 de julio de 2018]. Disponible en: http://www.icbdsr.org/wp-content/annual_report/Report2014.pdf
4. Paolini CI, Gadow A, Petracchi F, et al. Prenatal screening for chromosome abnormalities in a region with no access to termination of pregnancy. *Prenat Diagn.* 2009;29(7):659-63.
5. Barbero P, Liascovich R, Rittler M, et al. Frecuencias de anencefalia y espina bífida en dos maternidades con poblaciones de diferente nivel socioeconómico. XXXII Congreso Argentino de Genética; 21-24 Sep 2003; Córdoba, Argentina; 2003.
6. International Federation of Gynecology and Obstetrics Committee. Ethical issues in obstetrics and gynecology. London: FIGO, 2012. [Consulta: 15 de julio de 2018]. Disponible en: <https://www.figo.org/sites/default/files/uploads/wg-publications/ethics/English%20Ethical%20Issues%20in%20Obstetrics%20and%20Gynecology.pdf>