



Por un niño sano
en un mundo mejor

Archivos Argentinos de Pediatría

Publicación oficial de la Sociedad Argentina de Pediatría

ACCESO ABIERTO

ISSN 0325-0075

Editorial

La importancia del pensamiento en la práctica médica

J. M. Ceriani Cernadas

Artículos originales

Estrategias de preparación en unidades de neonatología durante la pandemia de COVID-19:

Encuesta en maternidades de la Argentina

S. C. Geffner, et al.

Distintos enfoques adoptados por los médicos para tratar la nefrolitiasis en pediatría: estudio basado en una encuesta

B. Önal, et al.

Reproductibilidad de pruebas de competencia motriz y percentiles para niños y adolescentes que viven a altitud moderada del Perú

M. Cossio-Bolaños, et al.

Influencia familiar sobre el exceso de peso infantil en la Región de Murcia, España

M. I. Jiménez Candell, et al.

El uso excesivo de pantallas está asociado con labilidad emocional en niños preescolares

A. Oflu, et al.

Asociación entre el espesor de la grasa subcutánea abdominal y la esteatosis hepática, las enzimas hepáticas y los lípidos séricos en niños obesos

L. Soydan, et al.

Comunicación breve

Conocimiento del derecho al servicio de interpretación de Lengua de Señas Argentina por pediatras que ejercen en la Ciudad Autónoma de Buenos Aires

L. A. Walz, et al.

Artículos especiales

Dignidad de la persona e interés superior del niño

C. M. Sotelo

Hepatitis B crónica en pediatría: tratar o no tratar, esa es la pregunta

F. Álvarez, et al.

Actualización

Nuevas recomendaciones para el cuidado de los pacientes con mucopolisacaridosis tipo I

L. Bay, et al.

Presentación de casos clínicos

Epidemiología

Dengue en los inicios de la pandemia de COVID-19 en la Argentina

G. Berberian

¿Cuál es su diagnóstico?

Miofibromatosis infantil

M. Squitín Tasende, et al.

Artículos seleccionados

Resúmenes y comentarios

Archivos hace 75 años

Enfisema mediastínico y subcutáneo en el curso de una crisis asmática. Observación clínica

A. E. Larguía, et al.

Revisores de los trabajos recibidos durante el año 2020

Colaboradores de la sección Artículos seleccionados, año 2020

Cartas al editor

SUPLEMENTO 2

Subcomisiones, Comités y Grupos de Trabajo

Recomendaciones para el diagnóstico y tratamiento de la urticaria en pediatría

Comité Nacional de Alergia

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

COMISIÓN DIRECTIVA

Presidente

Dr. Omar Leonardo Tabacco

Vicepresidente 1°

Dr. Rodolfo Pablo Moreno

Vicepresidente 2°

Dra. María Eugenia Cobas

Secretaria General

Dra. Verónica Sabina Giubergia

Prosecretaria General

Dra. Elizabeth Patricia Bogdanowicz

Tesorero

Dr. Miguel Javier Indart De Arza

Secretaria de

Educación Continua

Dra. Lucrecia Georgina Arpí

Secretario de

Actas y Reglamentos

Dr. Alejandro Eugenio Pace

Secretario de

Medios y Relaciones Comunitarias

Dr. Juan Bautista Dartiguelongue

Secretario de

Relaciones Institucionales

Dr. Manuel Rocca Rivarola

Secretaria de Subcomisiones,

Comités y Grupos de Trabajo

Dra. Rosa Inés Pappolla

Secretaria de

Regiones, Filiales y Delegaciones

Dra. Fabiana Gabriela Molina

Vocal 1°

Dr. Gonzalo Luis Mariani

Vocal 2°

Dr. Eduardo Federico Cáceres Collantes

Vocal 3°

Dra. Cristina Iris Gatica

Director del Consejo de Publicaciones y Biblioteca:

Dr. José M. Ceriani Cernadas

Producción gráfica

IDEOGRAFICA
SERVICIOS EDITORIALES

☎ 4327-1172

ideografica1988@gmail.com

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. Adolfo Aguirre Correa (Hospital Pediátrico Dr. Humberto Notti, Mendoza)

Dr. Luis Alberto Ahumada (Hospital Misericordia Nuevo Siglo, Córdoba)

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

Dr. Marcelo Boer (Hospital Ramón Carrillo, Bariloche, Río Negro)

Dra. Miriam Edith Bruno (Hospital General Carlos G. Durand, Ciudad de Buenos Aires)

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

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

Dra. Alicia Mistchenko (Hospital de Niños Dr. Ricardo Gutiérrez, Ciudad de Buenos Aires)

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): \$ 1150. Instituciones: \$ 3500.

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

- 74 **La importancia del pensamiento en la práctica médica**
José M. Ceriani Cernadas

Artículos originales

- 76 **Estrategias de preparación en unidades de neonatología durante la pandemia de COVID-19: Encuesta en maternidades de la Argentina**
Sofía C. Geffner, Aldana S. Ávila, M. Luz Etcharrán, Ariel L. Fernández, Gonzalo L. Mariani y Néstor E. Vain
- 83 **Distintos enfoques adoptados por los médicos para tratar la nefrolitiasis en pediatría: estudio basado en una encuesta**
Bülent Önal, Elif A. Kırılı, Nur Canpolat, Mehmet Taşdemir, Ahmet Gürbüüz, Oktay Özman, Lale Sever, İlmay Bilge y Salim Çalıřkan
- 91 **Reproductibilidad de pruebas de competencia motriz y percentiles para niños y adolescentes que viven a altitud moderada del Perú**
Marco Cossio-Bolaños, Rubén Vidal-Espinoza, Felipe Castelli Correia de Campos, José Sullá-Torres, Wilbert Cossio-Bolaños, Camilo Urra-Albornoz y Rossana Gómez-Campos
- 99 **Influencia familiar sobre el exceso de peso infantil en la Región de Murcia, España**
María I. Jiménez Candell, José Mondéjar Jiménez, Antonio J. Gómez Navarro y Ana B. Monreal Tomás
- 106 **El uso excesivo de pantallas está asociado con labilidad emocional en niños preescolares**
Ayşe Oflu, Ozlem Tezol, Songul Yalcin, Deniz Yıldız, Nilgun Caylan, Dilsad F. Ozdemir, Seyma Cicek y Meryem E. Nergiz
- 114 **Asociación entre el espesor de la grasa subcutánea abdominal y la esteatosis hepática, las enzimas hepáticas y los lípidos séricos en niños obesos**
Levent Soydan, Narin Akıcı y Yesim Coskun

Comunicación breve

- 123 **Conocimiento del derecho al servicio de interpretación de Lengua de Señas Argentina por pediatras que ejercen en la Ciudad Autónoma de Buenos Aires**
Lucas A. Walz, Adrián M. Cutri, Fernando A. Torres, Claudio C. Riquelme, Verónica Gatto Bellora y Fernando C. Ferrero

Artículos especiales

- e113 **Dignidad de la persona e interés superior del niño**
Catrian M. Sotelo
- e117 **Hepatitis B crónica en pediatría: tratar o no tratar, esa es la pregunta**
Fernando Álvarez, Miriam L. Cuarterolo y Mirta Ciocca

Actualización

- e121 **Nuevas recomendaciones para el cuidado de los pacientes con mucopolisacaridosis tipo I**
Luisa Bay, Hernán Amartino, Alejandra Antacle, Claudia Arberas, Adriana Berretta, Hugo Botto, Mariana Cazalas, Adriana Copiz, Carmen De Cunto, Guillermo Drelichman, Graciela Espada, Hernán Eiroa, Alejandro Fainboim, Virginia Fano, Norberto Guelber, Alberto Maffey, Claudio Parisi, Marcela Pereyra, Rodrigo Remondino, Andrea Schenone, Norma Spécola, Raquel Staciuk y Graciela Zuccaro

Presentación de casos clínicos

e129-e175

Epidemiología

- 131 **Dengue en los inicios de la pandemia de COVID-19 en la Argentina**
Griselda Berberian

¿Cuál es su diagnóstico?

- 139 **Miofibromatosis infantil**
Magalí Squitín Tasende y Paula Arighi

Artículos seleccionados

e176 **Resúmenes y comentarios**

Archivos hace 75 años

- e181 **Enfisema mediastínico y subcutáneo en el curso de una crisis asmática. Observación clínica**
Alfredo E. Larguía y Ernesto T. Sojo

141 **Revisores de los trabajos recibidos durante el año 2020**

143 **Colaboradores de la sección Artículos seleccionados, año 2020**

Cartas al editor

e186-e192

SUPLEMENTO 2

Subcomisiones, Comités y Grupos de Trabajo

- S54 **Recomendaciones para el diagnóstico y tratamiento de la urticaria en pediatría**
Comité Nacional de Alergia

Editorial (full text in e-version)

- 74 The importance of thought in medical practice**
José M. Ceriani Cernadas

Original articles (full text in e-version)

- 76 Preparedness strategies in neonatology units during the COVID-19 pandemic: A survey conducted at maternity centers in Argentina**
Sofía C. Geffner, Aldana S. Ávila, M. Luz Etcharrán, Ariel L. Fernández, Gonzalo L. Mariani and Néstor E. Vain
- 83 Different approaches among physicians to treat pediatric stone disease: a survey-based study**
Bülent Önal, Elif A. Kırılı, Nur Canpolat, Mehmet Taşdemir, Ahmet Gürbüç, Oktay Özman, Lale Sever, İlmay Bilge and Salim Çalışkan
- 91 Reproducibility of motor competence tests and percentiles for children and adolescents living at moderate altitude in Peru**
Marco Cossio-Bolaños, Rubén Vidal-Espinoza, Felipe Castelli Correia de Campos, José Sulla-Torres, Wilbert Cossio-Bolaños, Camilo Urra-Albornoz and Rossana Gómez-Campos
- 99 Family influence on childhood excess weight in the Region of Murcia, Spain**
María I. Jiménez Candell, José Mondéjar Jiménez, Antonio J. Gómez Navarro and Ana B. Monreal Tomás
- 106 Excessive screen time is associated with emotional lability in preschool children**
Ayşe Oflu, Ozlem Tezol, Songül Yalcin, Deniz Yıldız, Nilgun Caylan, Dilsad F. Ozdemir, Seyma Cicek and Meryem E. Nergiz
- 114 Association of abdominal subcutaneous fat thickness with hepatic steatosis, liver enzymes, and serum lipids in obese children**
Levent Soydan, Narin Akıcı and Yesim Coskun
- Brief report** (full text in e-version)
- 123 Awareness of the right to Argentine Sign Language interpretation services among pediatricians practicing in the Autonomous City of Buenos Aires**
Lucas A. Walz, Adrián M. Cutri, Fernando A. Torres, Claudio C. Riquelme, Verónica Gatto Bellora and Fernando C. Ferrero

Special articles (full text in e-version)

- e113 Human dignity and the best interest of the child**
Catrian M. Sotelo
- e117 Chronic hepatitis B in pediatrics: To treat or not to treat, that is the question**
Fernando Álvarez, Miriam L. Cuarterolo and Mirta Ciocca

Review (full text in e-version)

- e121 New recommendations for the care of patients with mucopolysaccharidosis type I**
Luisa Bay, Hernán Amartino, Alejandra Antacle, Claudia Arberas, Adriana Berretta, Hugo Botto, Mariana Cazalas, Adriana Copiz, Carmen De Cunto, Guillermo Drelichman, Graciela Espada, Hernán Eiroa, Alejandro Fainboim, Virginia Fano, Norberto Guelber, Alberto Maffey, Claudio Parisi, Marcela Pereyra, Rodrigo Remondino, Andrea Schenone, Norma Spécola, Raquel Staciuk and Graciela Zuccaro

Case reports

e129-e175

Epidemiology

- 131 Dengue at the beginning of the COVID-19 pandemic in Argentina**
Griselda Berberian

What is your diagnosis?

- 139 Infantile myofibromatosis**
Magalí Squitín Tasende and Paula Arighi

Selected papers from current literature

e176 Abstracts and commentaries

Archivos 75 years ago

- e181 Mediastinal and subcutaneous emphysema in the course of an asthmatic attack. Clinical observation**
Alfredo E. Larguía and Ernesto T. Sojo

141 List of reviewers 2020

141 List of contributors of comments of selected papers from current literature, 2020

Letters

e186-e192

SUPPLEMENT 2

Commissions, Committees and Working Groups

- S54 Recommendations for the diagnosis and treatment of urticaria in children**
National Committee on Allergy

La importancia del pensamiento en la práctica médica

The importance of thought in medical practice

Ya desde hace varios siglos, los buenos médicos generaban aspectos relacionados al pensamiento, para lograr una mejor salud. Galeno, un gran maestro nacido en Grecia, luego estuvo en Roma, en una época donde ocurrían graves pandemias. Él trabajó como médico y filósofo, y habitualmente abordaba a los médicos para decirles que siempre mantuvieran la necesidad de pensar, ante las enfermedades.

Con el pasar del tiempo, ya en los años del siglo XVII, los médicos comenzaron a generar el pensamiento en grupos; y de esa forma se fue logrando algo de suma importancia en el cuidado de la salud. Era una oportunidad para que trabajasen juntos y generasen sus pensamientos, especialmente en la presencia de pacientes con trastornos difíciles y graves. Esto fue creciendo progresivamente para que pudieran resolver diversos problemas en la salud.

Desde los muchos cambios que ocurrieron en Medicina, en los años 1950 y posteriormente, cada vez más rápidos, lamentablemente, el pensamiento ya no era lo que solían efectuar los médicos desde aquellos años que han pasado. Actualmente, la gran mayoría actúan de otra forma, tal como atienden a los pacientes en unos pocos minutos, usan mucho las computadoras y abordan cada vez más la tecnología, que aumenta intensamente y sin frenar. Asimismo, están trabajando en presencia del mercantilismo, que ha ido apabullando a la medicina con factores inadecuados, y, por lo tanto, estamos contribuyendo a la pérdida de los valores éticos y morales de nuestra profesión.

El pensamiento es una acción sujeta a reglas, a menudo plagada de estereotipos sobre los que no se reflexionan, y suele no estar presente en nuestra conciencia. Es imprescindible que reflexionemos para que podamos conducirnos adecuadamente, ya que la conciencia del pensamiento es lo único que nos protege contra la insensatez y la frustración.

No obstante, el pensamiento médico se ha vuelto mucho más complejo, en especial por los cambios en el cuidado de los pacientes. Otros efectos, ocurren con las diferencias en los sistemas de la atención médica, y dejan de lado los conocimientos de la ciencia médica, y, asimismo, no abordan el humanismo. La complejidad de la medicina, ahora puede exceder

nuestras capacidades, y, por lo tanto, deberíamos generar las acciones más adecuadas en el cuidado de los pacientes.

En este tiempo que estamos pasando, es frecuente ver que los médicos dicen que no tienen tiempo para pensar, en sus rutinas diarias. Esto es justamente lo que no deberían hacer, y, asimismo, es el momento de la necesidad de pensar profundamente, y eso es más urgente que nunca, y los llevará a no tolerar la incertidumbre. Para evitar eso, es absolutamente necesario cultivar una actitud crítica, aprender notablemente las acciones que realizamos, y tener en cuenta que somos falibles en nuestros errores. Si los seguimos realizando en muchas acciones, serán cada vez más frecuentes, y de mayor riesgo. De ser así, la incertidumbre a menudo estará silenciada bajo el ropaje del profesionalismo, y otros recursos que llevan a que los médicos no tengan en cuenta la importancia de esta realidad.

La información, que puede ser inadecuada, hace imprescindible que probemos nuestras capacidades de pensar activamente, tal como lo realizan los buenos médicos. Ellos deben enseñar, principalmente a los de menor edad, tanto aquellos que están estudiando en las universidades, como los que ya están en la residencia. De no ocurrir así, hemos visto que muchos médicos jóvenes, solamente leen el resumen de los artículos. Siendo esto algo lamentable, deben saber que esas acciones no deben ocurrir en todo momento, ya que muchas veces son muy inadecuadas y peligrosas. Las decisiones médicas deberían generar diversas acciones adecuadas, mediante el pensamiento y, asimismo, con la ayuda de colegas que tengan mayor conocimiento.

En la profesión médica, también están experimentando cambios sociales rápidos, junto con la importancia en los fundamentos científicos y tecnológicos de la práctica médica. A través de nuestras acciones, cada vez más debemos generar el pensamiento.

Todos los médicos deberían saber que el pensamiento es una acción sujeta a reglas, que están llenas de cortocircuitos automáticos, de estereotipos y, asimismo, la mayoría no reflexiona ante lo que les dicen los pacientes. La reflexión es lo que nos lleva al pensamiento, y debemos tener nuestra conciencia, acorde con la ética.

En los próximos años, la ciencia seguirá acumulando nuevas acciones diferentes a las actuales, y, por lo tanto, sería adecuado que tuviéramos mejores médicos, mediante las condiciones y necesidades de los pacientes. Esto se podría lograr, si en las Escuelas de Medicina enseñaran los avances en el cuidado de la salud, y será necesario que los futuros médicos puedan generar los pensamientos apropiados en todas las actividades que deben realizar.

La habilidad cognitiva es propiamente única de los seres humanos, mediante la habilidad de tener el conocimiento. Para entender otras acciones que realizan los médicos, es importante que sepan cómo generar lo que se denomina el pensamiento narrativo. Hay muchos médicos que realizan el pensamiento narrativo, que fue el núcleo central del arte de la medicina hasta el siglo XIX. Sería de suma importancia, que nuevamente estuviera presente el pensamiento narrativo porque sería de mucho valor en la actividad médica.

Nosotros solemos abordar muchos desafíos relacionados a las acciones médicas muy complicadas, y, por lo tanto, es muy poco probable que las soluciones sean simples. Si se les pide a los médicos que piensen ante estas situaciones, suelen decir que trabajan intensamente, y realmente están trabajando inadecuadamente. Entre otros aspectos, no es sorprendente que tomemos muchas decisiones equivocadas, y entre otras acciones que realizamos, están presentes los errores de diagnóstico que, sin duda, van a aumentar marcadamente.

El Dr. Alberto Agrest, que fue un excelente médico, nos dejó muchas palabras que fueron sumamente notorias, como esta que nos presenta “*Es probable que hoy las verdades cuantitativas estén ocultando falsedades cualitativas. La dificultad con los números es que generan una sensación de certeza; algo que la realidad médica no admite, y es imprescindible aprender a tolerar la incertidumbre. En la medicina, la certeza es un certificado de ignorancia o insensatez*”.

Finalmente, debemos ver que la medicina del siglo XXI requerirá cambios fundamentales, acerca de cómo consideramos el pensamiento, en la estructura de la educación médica, la investigación y el humanismo. ■

José María Ceriani Cernadas
Editor en Jefe

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.74>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.74>

Cómo citar: Ceriani Cernadas JM. La importancia del pensamiento en la práctica médica. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):74-75.

REFERENCIAS

- Obermeyer Z, Lee TH. Lost in Thought - The Limits of the Human Mind and the Future of Medicine. *N Engl J Med.* 2017; 377(13):1209-11.
- Naylor CD. The evolution of schools of thought in medicine: Healthy tensions. *JAMA.* 2020; 323(11):1035-6.
- De León J. Enseñando a pensar a los Estudiantes de Medicina: El Pensamiento Narrativo, Mecanicista y Matemático. *Actas Esp Psiquiatr.* 2018; 46(4):133-45.
- Casino G. Pensamiento científico. Barcelona: IntraMed/ Fundación Esteve; 2018.

The importance of thought in medical practice

For several centuries, good physicians generated aspects related to thought in order to achieve a better health. Galen was a great Greek master later stationed in Rome, in a time when severe pandemics took place. He was a physician and a philosopher and used to talk to physicians by approaching and telling them to always have the need to think when facing a disease.

Over the years, in the 17th century, physicians started generating thoughts in groups; this way, something extremely important in health care was initially achieved. It was an opportunity for physicians to work together and generate their thoughts, especially in the presence of patients with difficult and severe disorders. This increased progressively until they were able to address different health problems.

Given the many changes that have taken place in the field of medicine since the 1950s, and the fact that these changes have occurred increasingly rapidly, thought unfortunately no longer resembles what physicians used to do in the past. Currently, most physicians behave in a different manner: they see patients in just a few minutes, use computers a lot, and have a broader approach to technology, which increases strongly and without slowing down. In addition, physicians work in the presence of commoditization, which has overwhelmed medicine with inadequate factors; therefore, we are contributing to a loss of ethical and moral values in our profession.

Thinking is an action governed by rules, usually riddled with stereotypes which are not subject to reflection and is not generally present in our consciousness. It is indispensable to reflect so that we may act in an adequate manner, because the consciousness of thought is our only weapon against nonsense and frustration.

However, medical thought has become much more complex, especially due to the changes in patient care. Other effects take place in the differences observed in health care systems, leaving medical science knowledge aside and failing to approach humanism. The complexity of medicine may now exceed our capacity; therefore, we should generate the most adequate actions for patient care.

In the times we are living, it is common to hear physicians say that they have no time to think in their daily routine. This is exactly what they should not do. In addition, these times call

for deep thinking, now more urgently than ever, and this will lead them to become intolerant of uncertainty. To prevent this, it is absolutely imperative to cultivate a critical attitude, significantly learn the actions we implement, and take into account that we are capable of errors. If many of our actions keep having errors, they will become more frequent and riskier. If so, uncertainty will often be silenced under the embellishments of professionalism and other resources that lead physicians to forget about considering this reality.

Information may be inadequate, and it is indispensable that we test our ability to think actively, as good physicians do. They should teach younger individuals, both those who are studying in universities and those who are already undertaking a residency program. If this is not the case, many young physicians usually end up reading only the abstracts of articles. This is deplorable, and physicians should know that these actions cannot take place at all times because, many times, they are highly inadequate and dangerous. Medical decisions should lead to several adequate actions through thought and also with the help of colleagues who have a broader knowledge.

The medical profession is also going through rapid social changes, in addition to the importance of scientific and technological foundations in medical practice. By means of our actions, we should increasingly generate thought.

All physicians should know that thinking is regulated by rules with automatic short circuits and stereotypes, but most fail to reflect on what their patients tell them. Reflection leads us to thought, and our consciousness should be consistent with ethics.

In future years, science will continue accumulating actions that differ from current ones; therefore, it would be adequate to have better physicians based on patients' conditions and needs. This could be achieved if medical schools taught the advances made in health care; and future physicians will require to develop thoughts suitable to all the activities they have to do.

Cognitive skills are exclusive to human beings thanks to their ability to develop knowledge. To understand other actions carried out by physicians, it is important to know how to

generate what is known as narrative thought. Many physicians conduct narrative thought, which was the main core of the art of medicine until the 19th century. It would be of utmost importance to have narrative thought back because it would be really valuable in medical activity.

We usually approach many challenges related to highly complicated medical actions; therefore, we are very unlikely to find simple solutions. When asking physicians to think in these situations, they say that they work very hard, but they are actually working inadequately. Among other aspects, it is not surprising that we make many wrong decisions and that, in the midst of the many actions we carry out, diagnostic errors occur, which will certainly increase significantly.

Alberto Agrest, M.D., was an excellent physician who left us with well-known phrases, such as *“Most likely, a quantitative truth is hiding a qualitative falsehood. The problem with numbers is that they generate a feeling of certainty; something that medical reality does not admit; it is essential to learn to tolerate uncertainty. In the field of medicine, certainty is a certificate of ignorance or folly.”*

Finally, we should bear in mind that 21st century medicine will require critical changes in how we conceive thinking, the structure of medical education, research, and humanism. ■

José María Ceriani Cernadas
Editor-in-chief

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.74>

To cite: Ceriani Cernadas JM. The importance of thought in medical practice. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):74-75.

REFERENCES

- Obermeyer Z, Lee TH. Lost in Thought — The Limits of the Human Mind and the Future of Medicine *NEJM* September 28, 2017.
- Naylor CD. The evolution of medical schools of thought. Healthy tensions., *JAMA* Posted online February 24, 2020.
- De Leon J. Enseñando a pensar a los Estudiantes de Medicina: El Pensamiento Narrativo, Mecanístico y Matemático. *Actas Españolas de Psiquiatría* 2018;46 (4): 133-145.
- Casino G. Pensamiento científico. *IntraMed / Fundación Esteve*; 2018.

Estrategias de preparación en unidades de neonatología durante la pandemia de COVID-19: Encuesta en maternidades de la Argentina

Preparedness strategies in neonatology units during the COVID-19 pandemic: A survey conducted at maternity centers in Argentina

Dra. Sofía C. Geffner^a, Lic. Aldana S. Ávila^{b,c}, Dra. M. Luz Etcharrán^b,
Mg. Ariel L. Fernández^d, Dr. Gonzalo L. Mariani^{a,e} y Dr. Néstor E. Vain^{b,f}

RESUMEN

Introducción. El objetivo de este estudio fue analizar recursos disponibles, guías utilizadas y preparación para la atención de neonatos en maternidades de Argentina durante la pandemia de COVID-19.

Método. Estudio transversal mediante una encuesta enviada a equipos médicos y de enfermería. En mayo de 2020, se contactaron instituciones de más de 500 nacimientos anuales en la Argentina, el 58 % del sector público.

Resultados. Respondieron 104/147 instituciones (el 71 %). Todas contaban con guías para la atención durante la pandemia, y un 93 % refirió haber recibido capacitación para su uso. No autorizaban la presencia de acompañante en el parto el 26 % de instituciones privadas y el 60 % de las públicas ($p < 0,01$). El 87 % recomendaba ligadura oportuna del cordón, el 62 % promovía internación conjunta en neonatos asintomáticos, un 70 % recomendaba la puesta al pecho con medidas de protección, y el 23 %, leche materna mediante biberón. El 94 % restringía el ingreso de familiares a Neonatología.

Las dificultades incluyeron imposibilidad de contar con habitaciones individuales para neonatos sintomáticos y potencial limitación del personal de salud y equipos de protección personal.

Conclusiones. Todas las instituciones conocen las guías nacionales para enfrentar la pandemia. La mayoría cuenta con recursos para respetar las medidas de protección recomendadas. Existe incertidumbre sobre si, ante un aumento significativo en el número de casos, serán suficientes los elementos de protección personal, el personal y el espacio físico disponible en los distintos centros.

Palabras clave: recién nacido, COVID-19, grupo de atención al paciente, equipo de protección personal, Argentina.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.76>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.76>

- Servicio de Neonatología, Hospital Italiano de Buenos Aires.
- Servicio de Neonatología, Sanatorios de la Trinidad Ramos Mejía, Palermo y San Isidro.
- Dirección de Salud Perinatal y Niñez, Ministerio de Salud de la Nación.
- FUNDASAMIN.
- Instituto Universitario del Hospital Italiano de Buenos Aires.
- Facultad de Medicina, Universidad de Buenos Aires.

Correspondencia:
Dr. Néstor E. Vain:
nestorvain@gmail.com

Financiamiento:
Ninguno.

Conflicto de intereses:
Ninguno que declarar.

Recibido: 24-8-2020
Aceptado: 22-10-2020

INTRODUCCIÓN

La pandemia causada por el coronavirus de tipo 2 causante del síndrome respiratorio agudo grave (*severe acute respiratory syndrome coronavirus 2*; SARS-CoV-2, por sus siglas en inglés) afecta, primariamente, a adultos y, con más gravedad, a los de mayor edad.¹ Es llamativa la menor afectación de los recién nacidos (RN), en quienes se han planteado las vías de transmisión transplacentaria, a través de la leche materna y horizontal posnatal.^{2,3} Los dos primeros mecanismos parecen ser excepcionales. La mayoría de los RN hijos de madres con enfermedad por coronavirus 19 (*coronavirus disease*; COVID-19, por sus siglas en inglés) son asintomáticos.⁴⁻⁶

La transmisión nosocomial es presuntamente responsable de la infección del 29 % de los profesionales de la salud afectados y del 12 % de los pacientes hospitalizados.⁷ Las medidas de protección personal son un factor clave en la minimización del riesgo de diseminación intrahospitalaria del virus.

La inequidad en el sistema de salud se puede hacer evidente en la disponibilidad de recursos en distintos ámbitos, como instituciones públicas y privadas, diferentes provincias o distritos de cada país. Un estudio reciente exploró la preparación para la atención neonatal en 20 países y mostró gran variabilidad de manejo.⁸ En mayo de 2020, las recomendaciones para la Argentina desarrolladas por el Ministerio de Salud de la Nación (MSN) y un grupo colaborativo

Cómo citar: Geffner SC, Ávila AS, Etcharrán ML, Fernández AL, et al. Estrategias de preparación en unidades de neonatología durante la pandemia de COVID-19: Encuesta en maternidades de la Argentina. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):76-82.

de especialistas en Neonatología sentó bases para un abordaje consensuado en todo el país.⁹ Recientemente, un estudio internacional exploró la preparación para la atención neonatal en 58 países de ingresos bajos o medianos.¹⁰

OBJETIVOS

1. Analizar las medidas de protección que se establecieron en maternidades de la Argentina.
2. Conocer qué guías se utilizaban, las prácticas que se propusieron implementar y las posibles diferencias entre los subsistemas de salud público y privado.
3. Comparar la visión médica con la de enfermería.
4. Evaluar la potencial disminución de personal y consultores.

MÉTODOS

Estudio de corte transversal a través de una encuesta, con versión traducida y modificada por autores del presente estudio, del cuestionario "COVID-19 Neonatal Guidelines Survey".^{8,10} Dicha encuesta relevaba información acerca de las instituciones, de las recomendaciones y de las medidas generales, de recepción del RN de madres con sospecha o confirmación de COVID-19, de manejo del RN ingresado a la Unidad de Cuidados Intensivos Neonatales (UCIN) con y sin sospecha de COVID-19, y también de disponibilidades de elementos de protección personal (EPP) y de personal de salud en la Unidad.

La primera versión fue distribuida a cuatro neonatólogas/os para evaluar la estructura y sugerir modificaciones. Posteriormente, otros cuatro profesionales evaluaron la segunda versión para detectar dificultades para su comprensión, si el lenguaje era preciso, el orden en el que las preguntas eran presentadas y el tiempo necesario para responder. Entre las variables para analizar, se incluyeron las guías utilizadas por las instituciones, el conocimiento de elementos de protección, la disponibilidad de materiales y de personal, el entrenamiento para la aplicación y otras variables que se detallan en la versión definitiva de la encuesta (*Anexo 1 en formato electrónico*).

Mecanismo de distribución

Se invitó a participar a maternidades públicas con más de 500 nacimientos anuales según la base de datos del MSN del año 2017, de las que se contaba con un contacto del área médica y/o uno de enfermería del Servicio de Neonatología.

También se distribuyó a instituciones privadas por conveniencia, según la posibilidad de contacto, sin contar con información previa acerca del número anual de nacimientos.

Se seleccionaron representantes de cada institución, uno de enfermería y otro del equipo médico. En caso de no poseer ambos contactos, se envió únicamente a un representante por institución. Cada participante recibía un enlace a la encuesta localizada en la web. Los datos anonimizados fueron exportados para su análisis.

Análisis estadístico

Las variables cuantitativas se describieron utilizando media (desvío estándar) o mediana (rango) de acuerdo con su distribución. Las variables categóricas se expresaron mediante frecuencias y porcentajes. Se empleó la prueba de Student para la comparación de variables continuas si su distribución era normal y χ^2 para variables categóricas. Se consideró significativo el valor de $p < 0,05$. Se expresó la fuerza de la asociación mediante *odds ratio* (OR) e intervalo de confianza (IC) del 95 %. Se utilizó el *software* Stata R versión 11.

Aspectos éticos

El protocolo fue aprobado por el Comité de Ética en Protocolos de Investigación del Hospital Italiano de Buenos Aires. Se registró también en la Plataforma de Registro Informatizado de Investigaciones en Salud de Buenos Aires de acuerdo con la Resolución 2019/1679 del Gobierno de la Ciudad Autónoma de Buenos Aires-Ministerio de Salud del Gobierno de la Ciudad (GCABA-MSGC).

Todos los participantes fueron informados sobre los objetivos del trabajo antes de completar la encuesta. Se mantuvo la confidencialidad de los datos en cumplimiento de la Ley Nacional N° 25326 de Protección de Datos Personales del Ministerio de Justicia, Seguridad y Derechos Humanos de la Argentina.

RESULTADOS

La encuesta fue enviada entre el 24/5 y el 9/6 de 2020 a representantes del sector médico y de enfermería de 147 maternidades. Se obtuvieron respuestas de 104 maternidades (tasa de respuesta del 71 %) de todo el país, excepto Tierra del Fuego, Chubut, Jujuy, Catamarca y Formosa.

Del total de respuestas, 42 correspondieron a personal de enfermería, y 91, al equipo médico (de 13 instituciones, se recibieron respuestas solo

TABLA 1. Características de las instituciones participantes

Número anual de partos	
> 1500	59 (65 %)
≤ 1500	32 (35 %)
Tipo de institución	
Pública	53 (58 %)
Privada	38 (42 %)
Disponibilidad de asistencia respiratoria mecánica	
Sí	91 (100 %)
No	0 (0 %)
Disponibilidad de cirugía neonatal	
Sí	64 (70 %)
No	27 (30 %)

de enfermería). Para la mayoría de los análisis, se presentaron los resultados de las 91 instituciones con respuestas del equipo médico. De estas, 53 pertenecían al sector público (el 58 %), y 38, al privado (el 42 %) (Tabla 1).

El 100 % del personal encuestado refirió que contaban con guías para el manejo de RN hijos de pacientes con COVID-19. El 83 % usaba las recomendaciones nacionales en conjunto con guías internas de cada institución. El 93 % refirió haber recibido capacitación sobre el manejo de estos pacientes de acuerdo con las guías utilizadas. En un 94 % de las instituciones,

TABLA 2. Grado de acuerdo con respecto a la siguiente frase: "En nuestro Servicio, consideramos los deseos de la madre y acordamos con ella si su hijo se alimentará con leche materna y de qué manera"

Grado de acuerdo	Respuestas del personal de enfermería	Respuestas del personal médico	Global*
De acuerdo, n (%)	31 (74 %)	71 (78 %)	102 (77 %)
En desacuerdo/indistinto, n (%)	11 (26 %)	20 (22 %)	31 (23 %)

* p: 0,59.

TABLA 3. Organización, manejo de pacientes y disponibilidad de insumos y personal durante la pandemia

	Privado (n = 38) n (%)	Público (n = 53) n (%)	Total (n = 91) n (%)	p
Organización				
Restricción del ingreso de familiares a la UCIN	36 (95)	50 (94)	86 (94)	0,93
Permiso de acompañante en el nacimiento, en mujeres con sospecha/confirmación de COVID-19	28 (74)	21 (40)	49 (54)	< 0,001
Sala especial de partos para COVID-19	35 (92)	50 (94)	85 (93)	0,67
Realización de PCR de rutina al RN de madre con sospecha/confirmación de COVID-19	11 (29)	22 (42)	33 (36)	0,22
PCR: el resultado demora ≤ 24 h	22 (58)	14 (26)	36 (40)	< 0,001
RN asintomáticos				
Internación conjunta con la madre	23 (61)	33 (62)	56 (62)	0,87
Decisión compartida	33 (87)	47 (89)	80 (88)	0,79
Lactancia directa	27 (71)	37 (70)	64 (70)	0,90
Decisión compartida	35 (92)	47 (89)	82 (90)	0,59
RN que requieren UCIN				
Habitación individual	23 (60)	21 (40)	44 (48)	0,05
Disponibilidad de insumos*				
PCR	35 (92)	46 (87)	81 (89)	0,42
Guantes	38 (100)	53 (100)	91 (100)	NS
Barbijo quirúrgico/mascarilla	38 (100)	53 (100)	91 (100)	NS
Barbijo N95	38 (100)	50 (94)	88 (97)	0,14
Antiparras	38 (100)	48 (91)	86 (95)	0,05
Máscara facial	37 (97)	50 (94)	87 (96)	0,49
Camisolín hidrorrepelente	38 (100)	52 (98)	90 (99)	0,39
Filtros HEPA (+)	32 (84)	44 (83)	76 (83)	0,88
Alcohol en gel	38 (100)	53 (100)	91 (100)	NS
Disponibilidad de personal				
Disminución en enfermería	3 (8)	23 (43)	26 (29)	< 0,001
Disminución en el equipo médico	10 (26)	24 (45)	34 (37)	0,07

* Disponible (acceso limitado + sin límite significativo) vs. no disponible.

+ HEPA: High Efficiency Particle Arresting.

UCIN: Unidad de Cuidados Intensivos Neonatales; RN: recién nacido; NS: no significativo.

PCR: reacción en cadena de la polimerasa (por las siglas en inglés de *polymerase chain reaction*).

se implementaron restricciones al ingreso de familiares a la UCIN durante la pandemia, tanto en número de personas (el 91 %) como en tiempo de visita (el 44 %).

Con respecto a la alimentación del RN hijo de madre con COVID-19 que no requería cuidados intensivos neonatales, el 70 % recomendaba la puesta al pecho con medidas de protección (uso de barbijo quirúrgico/mascarilla, higiene de manos y piel); el 23 %, leche de la madre administrada mediante biberón, y un 7 %, la administración de fórmula. En la mayoría de las instituciones, médicos y enfermeros refirieron involucrar a la madre en la toma de la decisión acerca de la alimentación de su hijo (Tabla 2). En cuanto al sitio de internación de estos niños, un 20 % recomendaba la internación conjunta; un 42 %, internación conjunta con la madre, pero a cargo de otro cuidador; un 21 %, el ingreso a la UCIN, y un 17 %, en un sector de aislamiento (el 38 % recomendaba la separación del binomio).

En la Tabla 3, se muestran los resultados de las distintas variables y la comparación de respuestas entre instituciones públicas y privadas. En el 46 % de las instituciones evaluadas, no se permitía el acceso de un acompañante a mujeres con sospecha/confirmación de COVID-19, y, si se autorizaba, un 30 % no autorizaba el acceso del

conviviente, aun si estaba asintomático, por ser contacto estrecho.

El uso de EPP para la intubación se muestra en la Tabla 4, y la disponibilidad de personal de salud en las maternidades, en la Tabla 5. El 16 % refirió una disminución de concurrencia de consultores a la UCIN. Un 30 % de los encuestados señaló que, en caso de haber un aumento significativo de casos de COVID-19, en su institución, podría resultar imposible respetar las medidas de protección recomendadas.

DISCUSIÓN

En el contexto de la actual pandemia por SARS-CoV-2, se realizó un estudio transversal a través de una encuesta a profesionales de maternidades de la Argentina para evaluar las estrategias de preparación en la atención neonatal. En las maternidades participantes, ocurrían, aproximadamente, el 21 % de los nacimientos de la Argentina.¹¹

Al analizar las respuestas del equipo médico de 91 instituciones, se encontró gran similitud entre ellas con relación a las recomendaciones por seguir. En la mayoría de los nacimientos, se realizaba la ligadura oportuna del cordón umbilical, se favorecía la internación conjunta del binomio y se promovía la lactancia materna, lo

TABLA 4. Elementos de protección personal recomendados en la intubación de recién nacidos SIN sospecha y CON sospecha de COVID-19

	% de recomendación en pacientes SIN sospecha de COVID-19	% de recomendación en pacientes CON sospecha de COVID-19	<i>p</i>
Guantes	89 %	96 %	0,24
Barbijo quirúrgico/mascarilla*	77 %	47 %	< 0,001
Barbijo N95*	31 %	99 %	< 0,001
Antiparras	56 %	93 %	< 0,001
Máscara facial	38 %	88 %	< 0,001
Camisolín hidrorrepelente	38 %	98 %	< 0,001

* En algunas instituciones, usan ambos barbijos juntos.

TABLA 5. Disminución de personal de salud en maternidades

	Respuestas del personal médico (n: 91)	Respuestas del personal de enfermería (n: 42)	<i>p</i>
Porcentaje que ha notado la disminución de personal médico por turno	37 %	52 %	0,10
Porcentaje que ha notado la disminución de personal de enfermería por turno	29 %	57 %	< 0,001
Porcentaje que ha notado la disminución de personal de otras especialidades médicas	17 %	12 %	0,49
Porcentaje que ha notado la disminución de oftalmólogos	3 %	3 %	0,77
Porcentaje que considera que la disminución ha tenido impacto en el cumplimiento de normativas de la institución	5 %	6 %	0,86

que coincidía con las recomendaciones nacionales actuales.^{9,12,13} Estas tres conductas resultaron ser más frecuentes en nuestra investigación que en dos estudios internacionales recientes.^{8,10} Es probable que la diferencia se deba, en parte, a que estos trabajos involucran distintos países, lo cual puede explicar una mayor variabilidad. Las dificultades evidenciadas incluyen potenciales limitaciones en la disponibilidad de EPP, imposibilidad de contar con habitaciones individuales para neonatos sintomáticos y disminución en el personal de salud de la UCIN.

En la Argentina, se implementaron tempranamente disposiciones de aislamiento, distanciamiento social y otras medidas que dieron tiempo a reforzar el sistema de salud. De esta manera, se logró un ritmo de aumento más gradual en el número de casos en comparación con otros países.^{14,15} Esto permitió mayor tiempo para el desarrollo de recomendaciones nacionales. En las etapas iniciales de la pandemia, existió gran diversidad entre las guías propuestas. Actualmente, se cuenta con mayor información sobre las formas de contagio, prevención y posibles manifestaciones clínicas de la enfermedad, por lo cual hay mayor uniformidad en las recomendaciones brindadas por organizaciones internacionales.¹⁶⁻¹⁹

La totalidad de las maternidades que contestaron seguían las recomendaciones del MSN, en asociación con guías de cada institución, que adaptaban las normas al contexto local. Esto se puede explicar por la amplia difusión de guías nacionales e internacionales a través de sociedades científicas y foros de discusión de la especialidad. Una amplia mayoría refirió haber tenido capacitaciones para el manejo de estos pacientes.

Con respecto al manejo de hijos de madres con sospecha de *COVID-19*, hay escasa evidencia acerca de la posibilidad del contagio transplacentario al RN y existen estudios que demuestran que, respetando las medidas higiénicas, es poco frecuente la transmisión horizontal.^{16,20} La mayoría de las instituciones realizan la ligadura oportuna del cordón umbilical en madres con *COVID-19*, en acuerdo con las recomendaciones actuales. Si bien, en las etapas tempranas de la pandemia, en algunas guías, se indicaba realizar la ligadura inmediata, esto ha sido modificado.^{9,16} Se priorizan los beneficios demostrados de esta práctica, frente a la remota posibilidad de aumentar el riesgo de contagio al RN.

Una gran mayoría de las instituciones manifestaron poseer un quirófano destinado exclusivamente al nacimiento de hijos de madres con diagnóstico o sospecha de *COVID-19*. Por una parte, si bien es ideal que esto ocurra, su factibilidad se ve comprometida ante la presencia de embarazadas positivas asintomáticas no testeadas que llegan en trabajo de parto. Por otra, contar con un lugar único puede llevar a aumentar el número de cesáreas, ya que no resulta sencillo sostener un trabajo de parto prolongado en un sitio diferente con personal equipado con EPP nivel 3.²¹

Casi la mitad de las maternidades restringe el ingreso de un acompañante dentro del quirófano o sala de partos y esto resulta más prevalente dentro de los hospitales públicos. Es preocupante, en vistas del derecho de la persona gestante de contar con alguien elegido por ella para esa instancia (Ley 25929). Probablemente, este porcentaje se explique por el requisito de evitar que el acompañante sea un contacto estrecho, una persona con factores de riesgo y/o sintomática. Resulta difícil encontrar un acompañante que reúna estas características.

Respecto al sitio de internación del RN que no requiere cuidados intensivos, si bien las guías iniciales recomendaban la separación del binomio, en la actualidad, la evidencia sugiere que el riesgo de contagio del RN es extremadamente bajo, siempre que se tomen las precauciones adecuadas, es decir, uso de barbijo quirúrgico/mascarilla por parte de la madre y el acompañante, mantenimiento de una distancia mayor de un metro y medio entre la cama de la madre y la cuna, amamantar fuera de la cama de la madre y medidas de higiene: lavado de manos e higiene local de la piel de la mama al momento de la alimentación.^{9,22}

Un 62 % de las instituciones permite la internación conjunta (con la madre o con ella y otro cuidador a cargo del RN). Es posible que el 38 % que indica la separación del binomio se explique por la dificultad en determinadas instituciones para cumplir la recomendación debido a aspectos edilicios y/o logísticos. Algunos países aún recomiendan la internación separada de la madre y el RN.⁸

Con relación a la lactancia, si bien existen comunicaciones de detección de material genético de *SARS-CoV-2* en leche humana,^{23,24} no se ha demostrado el contagio a través de esta vía, por lo que la recomendación continúa siendo la puesta al pecho directo o la administración

de leche humana por biberón u otros métodos alternativos.^{9,15,17} En esta encuesta, una gran mayoría promueve la lactancia y, en un 90 % de las maternidades, se afirma que la manera de alimentar al RN es consensuada con la madre.

El hisopado del RN hijo de madre con diagnóstico de infección por COVID-19 está indicado en caso de que sea sintomático según las guías de recomendación nacional del MSN. Un 54 % de las instituciones encuestadas realiza el hisopado del RN ante la presencia de síntomas y un 36 % lo realiza de rutina. Esto difiere de un estudio en países de altos ingresos, donde la mayoría recomienda el hisopado universal a los RN hijos de madres con diagnóstico de COVID-19.⁸

Con respecto al uso de EPP, es destacable que la mayoría de los encuestados recomiendan el uso de EPP nivel 3 al momento de la intubación de estos pacientes, con un mínimo porcentaje que no recomienda el uso de barbijo N95 o antiparras. Si bien la encuesta fue realizada en la Argentina cuando la circulación viral comunitaria era limitada, es amplia la recomendación de distintas asociaciones profesionales y autoridades nacionales e internacionales acerca del uso de EPP, aun en RN sin sospecha de exposición a COVID 19.

La mayoría respondió que consideraba que se podrían respetar las recomendaciones brindadas por las guías del MSN.⁹ Dentro de los principales problemas de los que no tenían certeza de lograr cumplirlas, se incluían la disponibilidad de EPP (barbijo N95, camisolín hidrorrepelente y antiparras), limitación en la accesibilidad a filtros *High Efficiency Particle Arresting* (HEPA, por sus siglas en inglés), falta de espacio físico para el aislamiento de los pacientes y recortes en el número de personal de salud disponible. Es importante contar con todo el EPP. En todo el mundo, una gran proporción del personal de salud se infectó, por lo que debe ser considerado como un factor de riesgo de primer orden.

La disminución de recurso humano se debe no solo a licencias preventivas (en grupos de riesgo) y a profesionales contagiados, sino también a la redistribución de personal hacia otras especialidades con aumento de número de pacientes, como emergencias y clínica médica. Esto último fue más notable con enfermería.

Dentro de las limitaciones del estudio, se debe mencionar que, al no existir un registro nacional de maternidades privadas, se accedió a ellas de acuerdo con la disponibilidad de contactos,

con el consiguiente sesgo de selección. Otra limitación es no haber logrado obtener respuestas pareadas médico-enfermero en la mayoría de las instituciones participantes, lo que restringió la posibilidad de realizar un análisis comparativo suficiente entre perspectivas profesionales.

Como fortaleza, se obtuvieron datos de un gran número de maternidades públicas y privadas pertenecientes a la mayoría de las provincias del país, evaluadas en un momento epidemiológico común antes de la circulación viral masiva. No se encontró otro estudio con dichas características a nivel nacional.

La posibilidad de enlentecer la curva de contagio mediante la decisión de aislamiento social ha permitido desarrollar normativas propias de cada institución teniendo en cuenta las recomendaciones del MSN y la posibilidad de entrenamiento del personal. Es indispensable, en el contexto de la pandemia, lograr un balance entre las medidas de protección del personal de salud, la prevención de la diseminación de la enfermedad a otros pacientes, la disponibilidad limitada de EPP y el cuidado individualizado y centrado en la familia de pacientes con sospecha de COVID-19.

CONCLUSIONES

Todas las instituciones refieren tener conocimiento y respetar las indicaciones presentes en las guías nacionales. La mayoría de las maternidades cuenta con recursos materiales para respetar las medidas de protección. Sin embargo, se plantea la incertidumbre sobre si, frente a un aumento significativo en el número de casos, serán suficientes los elementos de protección, el personal y el espacio físico disponible.

Agradecimientos

Los autores agradecen la colaboración y revisión de la encuesta original al grupo ROP Argentina y al Área de Neonatología de la Dirección de Salud Perinatal y Niñez del Ministerio de Salud de la Nación, y a María Elina Serra por su supervisión en la redacción del protocolo inicial. Se agradece a los participantes en la encuesta (*Anexo 2 en formato electrónico*). ■

REFERENCIAS

1. World Health Organization. Coronavirus disease (COVID-19) pandemic. [Acceso: 18 de Agosto de 2020]. Disponible en: <https://www.who.int/emergencies/diseases/novel-coronavirus-2019>.
2. Chen H, Guo J, Wang C, Luo F, et al. Clinical characteristics and intrauterine vertical transmission potential of COVID-19

- infection in nine pregnant women: a retrospective review of medical records. *Lancet*. 2020; 395(10226):809-15.
3. Walker K, O'Donoghue K, Grace N, Dorling J, et al. Maternal transmission of SARS-CoV-2 to the neonate, and possible routes for such transmission: A systematic review and critical analysis. *BJOG*. 2020; 127(11):1324-36.
 4. Lu Q, Shi Y. Coronavirus disease (COVID-19) and neonate: What neonatologist need to know. *J Med Virol*. 2020; 92(6):564-7.
 5. Zimmermann P, Curtis N. COVID-19 in Children, Pregnancy and Neonates: A Review of Epidemiologic and Clinical Features. *Pediatr Infect Dis J*. 2020; 39(6):469-77.
 6. Kallem VR, Sharma D. COVID 19 in neonates. *J Matern Fetal Neonatal Med*. 2020 May 18;1-9. [Online ahead of print].
 7. Wang D, Hu B, Hu C, Fangfang Z, et al. Clinical characteristics of 138 hospitalized patients with 2019 novel coronavirus-infected pneumonia in Wuhan, China. *JAMA*. 2020; 323(11):1061-9.
 8. Lavizzari A, Klingenberg C, Profit J, Zupancic J, et al. International comparison of guidelines for managing neonates at the early phase of the SARS-CoV-2 pandemic. *Pediatr Res*. 2020 Jun 15. [Online ahead of print].
 9. Argentina. Ministerio de Salud. COVID-19. Estrategias para la atención en la UCIN del recién nacido hijo de madre con sospecha o confirmación de la Enfermedad. [Acceso: 18 de agosto de 2020]. Disponible en: <https://bancos.salud.gob.ar/sites/default/files/2020-08/covid-19-estrategias-atencion-ucin-recien-nacido-de-madre-con-sospecha-o-confirmacion.pdf>.
 10. Klingenberg C, Tembulkar S, Lavizzari A, Roehr C, et al. COVID-19 Preparedness - A Survey among Neonatal Care Providers in Low and Middle Income Countries. 2020. En: revisión.
 11. Argentina. Ministerio de Salud. Estadísticas vitales. Información básica 2017. Dirección de Estadísticas e Información en Salud. [Acceso: 18 de agosto de 2020]. Disponible en: <http://www.deis.msal.gov.ar/wp-content/uploads/2019/01/Serie5Nro61.pdf>.
 12. Comité de Estudios Feto Neonatales (CEFEN). Recomendaciones para el manejo del recién nacido hijo de madre con sospecha de infección por SARS-CoV-2. *Arch Argent Pediatr*. 2020; (Supl COVID-19):c67-75.
 13. Área de Trabajo en Reanimación Cardiopulmonar Neonatal; Comité de Estudios Feto Neonatales (CEFEN). Recomendaciones en Reanimación Cardiopulmonar Neonatal (RCP) en la pandemia por SARS-CoV-2. *Arch Argent Pediatr*. 2020; (Supl COVID-19):c79-89.
 14. World Health Organization. Situation by Country, Territory and Area. [Acceso: 18 de agosto de 2020]. Disponible en: <https://covid19.who.int/table>.
 15. Argentina. Ministerio de Salud. Situación de Coronavirus Online. [Acceso: 18 de agosto de 2020]. Disponible en: <https://www.argentina.gob.ar/salud/coronavirus-COVID-19/sala-situacion>.
 16. American Academy of Pediatrics. Management of Infants Born to Mothers with Suspected or Confirmed COVID-19. [Acceso: 20 de agosto de 2020]. Disponible en: <https://services.aap.org/en/pages/2019-novel-coronavirus-covid-19-infections/clinical-guidance/faqs-management-of-infants-born-to-covid-19-mothers/>.
 17. Centers for Disease Control and Prevention. Care for Breastfeeding Women. Interim Guidance on Breastfeeding and Breast Milk Feeds in the Context of COVID-19. [Acceso: 18 de agosto de 2020]. Disponible en: <https://www.cdc.gov/coronavirus/2019-ncov/hcp/care-for-breastfeeding-women.html>.
 18. Centers for Disease Control and Prevention. Pregnancy, Breastfeeding and caring for newborns. Coronavirus Disease 2019. [Acceso: 18 de agosto de 2020]. Disponible en: <https://www.cdc.gov/coronavirus/2019-ncov/need-extra-precautions/pregnancy-breastfeeding.html>.
 19. World Health Organization. Clinical management of severe acute respiratory infection (SARI) when COVID-19 disease is suspected. [Acceso: 18 de agosto de 2020]. Disponible en: <https://apps.who.int/iris/handle/10665/331446>.
 20. Salvatore C, Han JH, Acker K, Tiwari P, et al. Neonatal management and outcomes during the COVID-19 pandemic: an observation cohort study. *Lancet Child Adolesc Health*. 2020; 4(10):721-7.
 21. Fundación Cuidados Críticos Hospital Italiano de Buenos Aires. Equipo de protección personal. [Acceso: 18 de agosto de 2020]. Disponible en: <https://www.fcchi.org.ar/wp-content/uploads/2020/03/Equipo-de-proteccion-personal-1.0-COVID19.pdf>.
 22. Wang L, Shi Y, Xiao T, Fu J, et al. Chinese expert consensus on the perinatal and neonatal management for the prevention and control of the 2019 novel coronavirus infection (First edition). *Ann Transl Med*. 2020; 8(3):47.
 23. Yang N, Che S, Zhang J, Wang X, et al. Breastfeeding of infants born to mothers with COVID-19: a rapid review. *Ann Transl Med*. 2020; 8(10):618.
 24. Groß R, Conzelmann C, Müller JA, Stenger S, et al. Detection of SARS-CoV-2 in human breast milk. *Lancet*. 2020; 395(10239):1757-8.

ANEXO 1
ENCUESTA COVID-19 PERINATAL ARGENTINA

LISTA DE PREGUNTAS

A. DATOS DE LA INSTITUCIÓN:

1. Nombre de quien completa la encuesta:
2. *Email* de quien completa la encuesta:
3. Profesión:
 - a. Médica.
 - b. Enfermería.
 - c. Otro.
4. Nombre de la institución:
5. Localidad:
6. Provincia:
7. Número anual de nacimientos en su hospital (por favor, indique un rango estimado):
 - a. 0.
 - b. 1-500.
 - c. 501-1500.
 - d. 1501-3000.
 - e. 3001-6000.
 - f. > 6000.
8. Número anual de pacientes ingresados a la UCIN en su hospital (por favor, indique un rango estimado):
 - a. < 101.
 - b. 101-500.
 - c. 501-1000.
 - d. 1001-2000.
 - e. > 2000.
9. Tipo de institución:
 - a. Pública i.
 Nivel III B (alta) II.
 Nivel III A (mediana) III.
 Nivel II (baja)
 - b. Privada.
10. Nivel de complejidad asistencial:
 - a. Cuenta con ARM.
 - b. Cuenta con CPAP-ventilación no invasiva.
 - c. Cuenta con soporte de oxígeno.
 - d. Cuenta con cirugía neonatal.

B. EN SU INSTITUCIÓN:

11. Se han brindado guías de recomendación sobre manejo de pacientes *COVID-19* (marque solo una respuesta):
 - a. Sí.
 - b. No.
12. Las guías utilizadas son (marque todas las que correspondan):
 - a. Guías del Ministerio de Salud de la Nación.
 - b. Guías del CEFEN.
 - c. Guías internas de su institución.
 - d. Otra.
13. Han recibido entrenamiento para manejo de pacientes *COVID-19* acorde a las guías de recomendación (marque solo una respuesta):
 - a. Sí.
 - b. No.

14. En el contexto de la pandemia, se han realizado restricciones al ingreso de familiares de los pacientes ingresados a UCIN (marque todas las que correspondan):
 - a. Sí.
 - I. Restricción en el número de familiares.
 - II. Restricción en el tiempo de las visitas.
 - b. No.

C. MANEJO DEL RECIÉN NACIDO CON MADRE CON SOSPECHA O COVID-19 CONFIRMADO:

15. Al momento del nacimiento (cesárea o parto).
 - a. ¿Se permite el ingreso de un acompañante? (Marque sólo una respuesta).
 - I. Sí.
 - II. No.
 - b. En caso de respuesta afirmativa, el acompañante, si está asintomático, ¿puede ser conviviente de la madre (contacto cercano de la madre con sospecha de COVID-19)? (Marque sólo una respuesta)
 - I. Sí.
 - II. No.
16. ¿Qué se recomienda sobre el clampeo de cordón? (Marque solo una respuesta):
 - a. Inmediato.
 - b. Diferido.
 - c. Ordeño.
17. Lugar donde ocurren los nacimientos con madre sospechosa/confirmada (Marque solo una respuesta):
 - a. Sala de parto/quirófano habitual.
 - b. Sala de parto/quirófano destinado a paciente COVID-19.
18. Lugar de reanimación del recién nacido (marque solo una respuesta):
 - a. En la misma habitación a donde se ha realizado el nacimiento.
 - b. En otra habitación destinada a nacimientos de pacientes con sospecha de COVID-19.
 - c. En el sector "reanimación" (el mismo que se usa para la reanimación de los RN deprimidos sin sospecha/riesgo de COVID-19).
19. En caso de que el recién nacido no requiera cuidados intensivos (marque solo una respuesta):
 - a. Es atendido en internación conjunta (*rooming in*) junto con su madre.
 - b. Es atendido en internación conjunta (*rooming in*) con otro cuidador no sospechoso de COVID-19, a 2 metros de la cabecera de la cama de la madre.
 - c. Es internado en UCIN neonatales hasta descartar o confirmar diagnóstico en la madre.
 - d. Es internado en un sector de aislamiento fuera de UCIN.
20. En RN asintomáticos hijos de madres con sospecha o diagnóstico de COVID-19, señale el grado de acuerdo con la siguiente oración: "En nuestra Institución, se consideran los deseos de la madre y se acuerda con ella el lugar de permanencia de su hijo después del nacimiento" (marque solo una respuesta):
 - a. Totalmente de acuerdo.
 - b. Algo de acuerdo.
 - c. Ni de acuerdo ni en desacuerdo.
 - d. Algo en desacuerdo.
 - e. Totalmente en desacuerdo.
21. Con relación a la lactancia, en caso de que el recién nacido no requiera cuidados intensivos neonatales (marque solo una respuesta).
 - a. No hay recomendación específica.
 - b. Se recomienda la lactancia materna por pecho directo con la madre con barbijo quirúrgico colocado.
 - c. Se recomienda la lactancia materna por pecho directo sin cuidados adicionales.
 - d. Se recomienda extracción de leche de la madre y que sea administrada por otra persona por biberón.
 - e. Se recomienda fórmula.

22. En RN asintomáticos hijos de madres con sospecha o confirmación de COVID-19, señale el grado de acuerdo con la siguiente oración: "En nuestro Servicio consideramos los deseos de la madre y acordamos con ella si su hijo se alimentará con leche materna y de qué manera" (marque solo una respuesta).
 - a. Totalmente de acuerdo.
 - b. Algo de acuerdo.
 - c. Ni de acuerdo ni en desacuerdo.
 - d. Algo en desacuerdo.
 - e. Totalmente en desacuerdo.
23. En la institución en la que Ud. trabaja existe la posibilidad de realizar testeo para COVID-19 mediante pruebas PCR (marque solo una respuesta).
 - a. Sí.
 - b. No.
24. En caso de ser afirmativa la respuesta anterior, cuánto demora el resultado (marque solo una respuesta).
 - a. Menos de 24 h.
 - b. 24-72 h.
 - c. Más de 72 h.
25. Testeo con PCR en recién nacido hijo de madre COVID-19 positiva (marque solo una respuesta).
 - a. Se realiza de rutina.
 - b. Se realiza ante la presencia de síntomas.
 - c. No se realiza.
26. En caso de realizar testeo de rutina en recién nacido, lo solicitan (marque **todas** las que corresponda):
 - a. Al nacer.
 - b. A las 24 h.
 - c. A las 48 h.
 - d. A las 72 h.
 - e. > 72 h.

D. MANEJO DEL RECIÉN NACIDO INGRESADO A LA UCIN CON SOSPECHA DE COVID-19:

27. ¿Qué elementos de protección personal (EPP) se recomiendan para utilizar para realizar ventilación a presión positiva en caso de ser necesaria? (Marque todas las que correspondan).
 - a. No hay recomendación específica.
 - b. Guantes.
 - c. Barbijo quirúrgico.
 - d. Barbijo N95.
 - e. Antiparras.
 - f. Camisolín hidrorrepelente.
 - g. Máscara facial transparente.
28. ¿Qué elementos de protección personal se recomiendan para realizar intubación? (Marque todas las que correspondan).
 - a. No hay recomendación específica.
 - b. Guantes.
 - c. Barbijo quirúrgico.
 - d. Barbijo N95.
 - e. Antiparras.
 - f. Camisolín hidrorrepelente.
 - g. Máscara facial transparente.

29. Posibilidad de aislamiento en su unidad (marque solo una respuesta):
 - a. Existen habitaciones individuales para aislamiento dentro de la unidad.
 - b. Existen habitaciones individuales para aislamiento en otras unidades que quedan a disponibilidad de neonatología.
 - c. Existen habitaciones de aislamiento para cohortes de pacientes.
 - d. No hay habitaciones y se realiza aislamiento dentro de la unidad cohortizando y tomando en cuenta distancias recomendadas.
 - e. No es posible realizar aislamiento.
30. Egreso hospitalario de recién nacidos hijos de madres con *COVID-19* (marque solo una respuesta):
 - a. Sin diferencias con respecto a lo habitual.
 - b. Se recomienda mayor estadía hospitalaria para control clínico.

E. MANEJO HABITUAL DEL RECIÉN NACIDO INGRESADO A LA UCIN SIN SOSPECHA DE *COVID-19*:

31. ¿Qué elementos de EPP se recomiendan para utilizar para realizar ventilación a presión positiva en caso de ser necesaria? (Marque **todas** las que correspondan):
 - a. No hay recomendación específica.
 - b. Guantes.
 - c. Barbijo quirúrgico.
 - d. Barbijo N95.
 - e. Antiparras.
 - f. Camisolín hidrorrepelente.
 - g. Máscara facial transparente.
32. ¿Qué elementos de EPP se recomiendan para realizar intubación? (Marque **todas** las que correspondan):
 - a. No hay recomendación específica.
 - b. Guantes.
 - c. Barbijo quirúrgico.
 - d. Barbijo N95.
 - e. Antiparras.
 - f. Camisolín hidrorrepelente.
 - g. Máscara facial transparente.

F. DISPONIBILIDAD DE MATERIALES EN SU UNIDAD:

33. Material para testeo de *COVID-19* por PCR (marque solo una respuesta):
 - a. No disponible.
 - b. Disponible de forma limitada.
 - c. Disponible sin límite significativo.
34. Guantes (marque solo una respuesta):
 - a. No disponible.
 - b. Disponible de forma limitada.
 - c. Disponible sin límite significativo.
35. Barbijo quirúrgico (marque solo una respuesta):
 - a. No disponible.
 - b. Disponible de forma limitada.
 - c. Disponible sin límite significativo.
36. Barbijo N95 (marque solo una respuesta):
 - a. No disponible.
 - b. Disponible de forma limitada.
 - c. Disponible sin límite significativo.

37. Antiparras (marque solo una respuesta):
 - a. No disponible.
 - b. Disponible de forma limitada.
 - c. Disponible sin límite significativo.
38. Máscara facial, cobertura plástica transparente (marque solo una respuesta):
 - a. No disponible.
 - b. Disponible de forma limitada.
 - c. Disponible sin límite significativo.
39. Camisolín hidrorrepelente (marque solo una respuesta):
 - a. No disponible.
 - b. Disponible de forma limitada.
 - c. Disponible sin límite significativo.
40. Filtros *HEPA* (filtros de alta eficacia para partículas finas) para ventilación invasiva o no invasiva (marque solo una respuesta):
 - a. No disponible.
 - b. Disponible de forma limitada.
 - c. Disponible sin límite significativo.
41. Alcohol para higiene de manos (marque solo una respuesta).
 - a. No disponible.
 - b. Disponible de forma limitada.
 - c. Disponible sin límite significativo.
42. ¿Cree usted que en su Institución se lograrán respetar las recomendaciones previamente mencionadas en caso de aumento significativo en el número de casos de *COVID-19* en los próximos meses? (Marque solo una respuesta).
 - a. Sí.
 - b. No.
43. ¿Por qué? (respuesta abierta).

G. DISPONIBILIDAD DE PERSONAL

44. El número de enfermeras por turnos se ha visto reducido (marque una respuesta).
 - a. Sí.
 - b. No.
45. El número de neonatólogos se ha visto reducido (marque una respuesta):
 - a. Sí.
 - b. No.
46. En caso de que algunas de las respuestas fueran Sí, ¿esto ha afectado el cumplimiento de normativas del servicio como control de infecciones, manejo de oxígeno, nutrición, etc.? (Marque una respuesta):
 - a. Sí.
 - b. No.

En caso afirmativo, por favor describa cómo ha sido afectado el cumplimiento de las normativas del servicio (texto libre).
47. ¿Se ha disminuido o suspendido la asistencia de oftalmólogos para la pesquisa de ROP o su eventual tratamiento en la Unidad? (marque una respuesta).
 - a. Sí.
 - b. No.
48. ¿Ha disminuido la asistencia de otros especialistas en la UCIN? (Marque una respuesta):
 - a. Sí.
 - b. No.

En caso afirmativo, por favor describa qué otros especialistas han disminuido la asistencia en la UCIN (texto libre).

H. COMENTARIOS: Por favor, escriba aquí cualquier comentario adicional que desee realizar:

----- FIN DE LA ENCUESTA-----

ANEXO 2

Apellido y nombre

Acevedo, Alberto David
 Acosta, Elizabeth
 Acosta, María Inés
 Agüero, Jorge
 Ahumada, Luis
 Alda, Ernesto
 Alegre, Gastón Gabriel
 Álvarez, Alina María
 Allende, Alejandra
 Amdreussi, Lorna
 Arimany, Marcela
 Bahamondes, Anabella
 Banin, Natalia
 Barresi, Mónica
 Barrionuevo, Laura S.
 Barrionuevo, Mercedes Graciela
 Barros Sosa, Julio
 Barthe, Manuel
 Bas, José Ignacio
 Becerra, Marina Fabiana
 Bernaldo de Quirós, Ignacio González
 Bianchi, Evelyn
 Bogado, Carina del Valle
 Boichetta, Gustavo
 Borrás, Lucas
 Brizuela, Priscila
 Bruno, Silvia Patricia
 Caram, Edgardo Daniel Fernando
 Cardetti, Marcelo
 Casall, Roberto Osvaldo
 Casas, Ofelia
 Cassatti, Fernanda
 Castillo, Fabiana
 Celotto, Marcela Elina
 Chara, José
 Chávez Zuárez, Patricia
 Colantonio, Guillermo
 Concaro, Norma Beatriz
 Contrera, Pamela Judith
 Cracco, Lionel
 De Abrantes, Lorena
 De Risio, Karina
 Delarosa, Valeria
 Del Barco, Mario
 Di Tullio, Adriana Graciela
 Díaz Arguello, Claudia
 Díaz Gabelotta, Daniela
 Díaz, Juan Matías
 Dip, Viviana
 Dudkevich, Julia
 Espinoza, Eva
 Ezquer, Analía
 Fernández Jonusas, Silvia
 Ferreyra, Alejandra
 Ferreyra, Mirta
 Finotti, Gabriela
 García, Cecilia
 García Fiorini, María Inés
 Gigli, Mariel Vivian
 Goldsmit, Gustavo
 Gómez, Noemí Aida
 González, Alejandra Verónica
 González, Brígida
 Gordillo, Esteban
 Grethelm, Ferrufino

Institución

Hospital López Lima
 Hospital General de Agudos Dalmacio Vélez Sarsfield
 Hospital Julio C. Perrando
 Hospital Iturraspe
 Hospital Misericordia
 Hospital Privado del Sur
 Sanatorio de La Trinidad San Isidro
 Policlínico Neuquén
 Hospital Dr. Arturo Oñativia
 Maternidad Martín
 Sanatorio de la Trinidad Palermo
 HIGA Gandulfo
 Hospital Oñativia
 Sanatorio Finochietto
 Hospital Interzonal General Dr. J. Penna
 Hospital Descentralizado Dr. Guillermo Rawson
 Clínica Mayo de Urgencias Médicas Cruz Blanca SRL
 Clínica Yunes
 Hospital Privado Universitario de Córdoba
 HIGA Abraham Piñeyro
 Sanatorio San Lucas
 Hospital Dr. Gutiérrez
 Hospital Materno-neonatal E. T. de Vidal
 Hospital Durand
 Hospital Roque Sáenz Peña
 Hospital de la Madre y el Niño
 Sanatorio Güemes
 Hospital Antonio J. Scaravelli
 Clínica y Maternidad CERHU
 Hospital General de Agudos Dalmacio Vélez Sarsfield
 Maternidad Otoño
 Hospital Antonio J. Scaravelli
 H. I. G. Dr. José Penna
 Hospital Argerich
 Hospital Regional Ramón Carrillo
 Hospital Municipal Raúl F. Larcade
 Sanatorio Finochietto
 Clínica Delta
 Sanatorio de la Trinidad San Isidro
 Instituto Maternidad Santa Rosa
 Hospital Durand
 Hospital Iriarte de Quilmes
 Hospital Reconquista
 Hospital Público Materno Infantil
 Sanatorio Boratti
 Hospital Italiano Regional del Sur
 Hospital Dr. Lucio Molas
 Hospital Provincial de Neuquén Dr. Castro Rendón
 Hospital Nicolás Avellaneda
 Hospital Municipal Raúl F. Larcade
 Hospital Materno Infantil de Tigre
 Hospital Virgen de la Misericordia
 Hospital Italiano
 Hospital de la Madre y el Niño
 Sanatorio del Salvador
 Clínica Pasteur
 Sanatorio de la Trinidad Palermo
 Clínica Colón
 Hospital Provincial de Rosario
 Hospital Británico
 Hospital Julio C. Perrando
 Hospital Iriarte de Quilmes
 Maternidad San Lucas
 Maternidad de Tucumán
 Hospital Nacional Alejandro Posadas

Hermida, Agustina	Sanatorio Mater Dei
Hernández Blanco, María	Hospital Área Programa Francisco López Lima
Hernández, María Gabriela	Hospital Piñero
Herrero, Ernesto Ángel	Sanatorio Güemes
Ilera, Sebastián	Sanatorio San Carlos
Ingrassia, Guillermo	Sanatorio de la Mujer
Irazabal, Daniel	Hospital Gobernador Centeno
Israilev, Adriana	Hospital Álvarez
Juárez, Marisa	Hospital Orán
Lapiente, María Belén	Hospital Provincial de Rosario
Larcade, Ramón	Sanatorio Trinidad Ramos Mejía
Levinson, Laura	Hospital Provincial del Centenario
Liva, Carlos Daniel	Hospital Ángela Iglesia de Llano
Luna, Graciela Silvina	Hospital Evita Pueblo
Manzolido, Silvana	Hospital Churrucá-Visca
Marinero, Silvia	Hospital D. F. Santojanni
Martin, Yamila	Casa Hospital San Juan de Dios
Martínez, Liliana	HUMN-UNC
Martínez, Marina	Instituto Maternidad Santa Rosa
Martocchia, Juan Carlos	Hospital Zonal Caleta Olivia
Mato, Ivana	Hospital Provincial de Neuquén Dr. Castro Rendón
Maubett, María Delcys Albas	CEMIC
Mazzitelli, Yanina Gisela	Hospital Italiano
Meléndez, Norma Elena	Hospital Materno Infantil de Tigre
Mertes, Jorgelina Andrea	Hospital J. M. Cullen
Miranda, Inés Roxana	Hospital Fernández
Morcillo, María Marta	Maternidad San Lucas
Moretta, Sonia E.	HIGA Abraham Piñeyro
Mortarotti, Norma	Sanatorio 9 de Julio
Nemer, Patricia Elena	Hospital Diego Paroissien
Ortiz, Silvina Verónica	Hospital Rawson
Pagniez, María Eugenia	Clínica Colón
Palacios, Laura Lilian	Hospital Ángela Iglesia de Llano
Re, Silvina	Hospital Lucio Molas
Riffo, Néstor Teobaldo	Policlínico Neuquén
Rivarola, Victoria	Hospital Iturraspe
Rodríguez, María Gabriela	Hospital Zonal Dr. Antranik Eurnekian
Rubio, Soraya	Hospital Regional Dr. Alejandro Gutiérrez, Venado Tuerto, Santa Fe
Ruiz, Claudia	Sanatorio Trinidad Ramos Mejía
Saa, Gladys	Hospital Fernández
Sabatelli, Débora	Sanatorio Mater Dei
Salas, Guillermo	Hospital Español de La Plata
Salazar, Natalia	Hospital Regional Goya
Salvatierra, Adriana María	Hospital Eva Perón
Savorani, Mónica	Casa Hospital San Juan de Dios
Schavlovsky, Graciela Beatriz	H. I. G. A. Evita, Lanús
Seminario Gómez, Blas E.	H. D. C. Masvernat
Sexer, Héctor	Sanatorio Anchorena, Recoleta
Solana, Claudio	Maternidad Sardá
Soler, Liliana	Hospital Diego Paroissien
Sotomayor, Mayra	Hospital Materno Neonatal Nuestra Señora del Pilar
Steinberg, Diego Ariel	Hospital Ramón Carrillo
Subotovsky, Patricia	Clínica y Maternidad Suizo Argentina
Svriz Wucherer, Natalia Elizabeth	Sanatorio Argentino
Tirigay, Lucas	Hospital Municipal de Morón (Ostaciana Lavignolle)
Trujillo, Natalia	Hospital Piñero
Turturici, Mariana	Hospital Materno Infantil de San Isidro
Valdés, Martín	Sanatorio Altos de Salta
Valdez Pérez, María Florencia	Hospital Descentralizado Dr. Guillermo Rawson
Vecchiarelli, Carmen	Sanatorio Otamendi
Vega, Patricia	Sanatorio Allende Cero
Vera, Gabriel	Hospital Español de La Plata
Vidal, Juan Carlos	HEMI Ana Goitía
Viñales, Viviana	Hospital Materno Neonatal, Misiones
Wittbecker, Patricia Liria	HZGA Héroes de Malvinas
Zambosco, Guillermo	Hospital Italiano de La Plata
Zanetti, Ana	Hospital Jaime Ferré

Preparedness strategies in neonatology units during the COVID-19 pandemic: A survey conducted at maternity centers in Argentina

Sofía C. Geffner, M.D.^a, Aldana S. Ávila, B.S.^{b,c}, M. Luz Etcharrán, M.D.^b, Ariel L. Fernández, Magister^d, Gonzalo L. Mariani, M.D.^{a,e} and Néstor E. Vain, M.D.^{b,f}

ABSTRACT

Introduction. The objective of this study was to analyze available resources, guidelines in use, and preparedness to care for newborn infants at maternity centers in Argentina during the COVID-19 pandemic.

Method. Cross-sectional study based on a survey administered to medical and nursing staff. In May 2020, Argentine facilities with more than 500 annual births were contacted; 58 % of these were from the public sector.

Results. In total, 104/147 facilities answered (71 %). All had guidelines for care during the pandemic, and 93 % indicated they had been trained on how to use them. A companion was not allowed during childbirth in 26 % of private facilities and in 60 % of public ones ($p < 0.01$). Deferred cord clamping was recommended in 87 %; rooming-in with asymptomatic newborns was promoted in 62 %; breastfeeding using protective measures was recommended in 70 %; and breast milk using a bottle, in 23 %. In 94 %, family visiting in the Neonatology Unit was restricted.

Difficulties included the unavailability of individual rooms for symptomatic newborn infants and a potential shortage of health care staff and personal protective equipment.

Conclusions. All facilities are aware of the national guidelines to fight the pandemic. Most have the resources to comply with the recommended protective measures. There is uncertainty as to whether personal protective equipment, staff, and physical space available at the different facilities would be enough if cases increased significantly.

Keywords: newborn, COVID-19, patient care team, personal protective equipment, Argentina.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.76>

To cite: Geffner SC, Ávila AS, Etcharran ML, Fernández AL, et al. Preparedness strategies in neonatology units during the COVID-19 pandemic: A survey conducted at maternity centers in Argentina. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):76-82.

- a. Department of Neonatology, Hospital Italiano de Buenos Aires.
- b. Department of Neonatology, Sanatorio de la Trinidad (Ramos Mejía, Palermo and San Isidro locations).
- c. Division of Perinatal Health and Childhood, National Ministry of Health of Argentina.
- d. FUNDASAMIN.
- e. Instituto Universitario del Hospital Italiano de Buenos Aires.
- f. School of Medicine, Universidad de Buenos Aires, Argentina

E-mail address:
Néstor E. Vain, M.D.:
nestorvain@gmail.com

Funding:
None.

Conflict of interest:
None.

Received: 8-24-2020
Accepted: 10-22-2020

INTRODUCTION

The pandemic caused by severe acute respiratory syndrome coronavirus 2 (SARS-CoV-2) affects mainly adults and is more severe among older adults.¹ It is striking how newborn infants (NBIs) are less affected, in whom transplacental, breast milk, and postnatal horizontal transmission have been reported.^{2,3} The former two mechanisms appear to be an exception. Most NBIs from mothers with coronavirus disease 2019 (COVID-19) are asymptomatic.⁴⁻⁶

Nosocomial transmission is presumably responsible for the infection of 29 % of affected health care providers and of 12 % of hospitalized patients.⁷ Personal protective measures play a key role in minimizing the risk of intra-hospital virus transmission.

Health system inequalities may become evident in terms of resource availability in different settings, as is the case of public versus private facilities and among provinces or districts in each country. A recent study explored the preparedness for neonatal care in 20 countries and showed a great variability in management.⁸ In May 2020, the recommendations developed by the National Ministry of Health (MoH) of Argentina and a working group made up of neonatology specialists laid the basis for a consensual approach across the country.⁹ A recent international study investigated the preparedness for neonatal care in 58 low- and middle-income countries.¹⁰

OBJECTIVES

1. To analyze the protective measures implemented in maternity centers in Argentina.

2. To know which guidelines were used, which practices were proposed for implementation, and the potential differences between the public and private health sub-systems.
3. To compare the perspective of physicians and nurses.
4. To assess the potential shortage of staff and consultants.

METHODS

This was a cross-sectional study based on a survey translated and modified by the authors of this study from the "COVID-19 Neonatal Guidelines Survey" questionnaire.^{8,10} That survey asked about facilities, recommendations, and general measures for the admission of NBIs from mothers with suspected or confirmed COVID-19, the management of NBIs admitted to the neonatal intensive care unit (NICU) with or without suspected COVID-19, and also the availability of personal protective equipment (PPE) and health care staff at the unit.

The first version was administered to four neonatologists to assess its structure and suggest modifications. Afterwards, four other providers assessed the second version for comprehension problems, language accuracy, question order, and the time required to complete it. The outcome measures for analysis included the guidelines in use at the institutions, knowledge of protective items, material and staff availability, training on their implementation, and other outcome measures detailed in the final version of the survey (*Annex 1*).

Distribution mechanism

Public maternity centers were invited to participate if they had more than 500 annual births, according to the MoH's database for 2017, and had a contact from the medical and/or nursing areas of the Department of Neonatology. The survey was also distributed to private facilities by convenience, based on the possibility of contacting them, but not on prior information about the number of annual births.

Representatives from each facility (one nurse and one physician) were selected. If both contacts were not available, the survey was sent only to one representative per facility. Each participant received a link to the online survey. Anonymized data were exported for analysis.

Statistical analysis

Quantitative outcome measures were

described as mean (standard deviation) or as median (range), based on their distribution. Categorical outcome measures were expressed as frequency and percentage. Student's test was used to compare continuous outcome measures if they had a normal distribution, whereas the χ^2 test was used for categorical outcome measures. A value of $p < 0.05$ was considered significant. The strength of the association was described using an odds ratio (OR) and a 95 % confidence interval (CI). The Stata/R software, version 11, was used.

Ethical aspects

The protocol was approved by the Research Protocol Ethics Committee of Hospital Italiano de Buenos Aires. It was also registered in the Computerized Health Research Registry Platform of Buenos Aires as per Resolution 2019/1679 by the Government of the Autonomous City of Buenos Aires (CABA)-Ministry of Health of CABA (GCABA-MSGC).

All participants were informed of the study objectives before completing the survey. Data were maintained confidential in compliance with National Law no. 25326 for the Protection of Personal Information by the National Ministry of Justice, Security, and Human Rights of Argentina.

RESULTS

The survey was sent between May 24th and June 9th, 2020 to the medical and nursing staff representatives of 147 maternity centers. In total, 104 maternity centers replied (response rate: 71 %) from across the country, except for the provinces of Tierra del Fuego, Chubut, Jujuy, Catamarca, and Formosa.

Among all answers, 42 corresponded to nursing staff and 91, to medical staff (from 13 facilities, only nurses replied). For most analyses, the results corresponded to the 91 facilities with answers from the medical staff. Of these, 53 were from the public sector (58 %) and 38, from the private sector (42 %) (*Table 1*).

One hundred percent of survey respondents referred that they had guidelines for the management of NBIs from mothers with COVID-19. Eighty-three percent used the national recommendations together with their facility's internal guidelines. Ninety-three percent stated that they had received training on the management of these patients based on the guidelines in use. In 94 % of facilities, family visiting in the NICU was restricted during the pandemic, both in terms of the number of visitors

TABLE 1. Characteristics of participating facilities

Number of annual births	
> 1500	59 (65 %)
≤ 1500	32 (35 %)
Type of facility	
Public	53 (58 %)
Private	38 (42 %)
Availability of mechanical ventilation	
Yes	91 (100 %)
No	0 (0 %)
Availability of neonatal surgery	
Yes	64 (70 %)
No	27 (30 %)

(91 %) and the duration of the visit (44 %).

In relation to feeding in NBIs from mothers with COVID-19 who did not require neonatal intensive care, 70 % of facilities recommended breastfeeding with protective measures (face mask/surgical mask, skin and hand hygiene); 23 % recommended breast milk using a bottle; and 7 %, formula feeding. In most facilities, physicians and nurses said that they involved the mother in the decision-making in relation to their baby's feeding (Table 2). Regarding the hospitalization of these babies, 20 % of facilities recommended rooming-in; 42 %, rooming-in, but

TABLE 2. Level of agreement with the following statement: "In our Department, the mother's wishes are taken into consideration and the decision whether to breastfeed and how is made with the mother."

Level of agreement	Answers from nursing staff	Answers from medical staff	Overall*
Agree, n (%)	31 (74 %)	71 (78 %)	102 (77 %)
Disagree/unknown, n (%)	11 (26 %)	20 (22 %)	31 (23 %)

* p : 0.59.

TABLE 3. Organization, patient management, and availability of supply and staff during the pandemic

	Private (n = 38) n (%)	Public (n = 53) n (%)	Total (n = 91) n (%)	p
Organization				
Restricted family visiting in NICU	36 (95)	50 (94)	86 (94)	0.93
Allowed companion during childbirth for women with suspected/confirmed COVID-19	28 (74)	21 (40)	49 (54)	< 0.001
Special delivery room for COVID-19	35 (92)	50 (94)	85 (93)	0.67
Routine PCR test in the NBI of a mother with suspected/confirmed COVID-19	11 (29)	22 (42)	33 (36)	0.22
PCR: results are available in ≤ 24 h	22 (58)	14 (26)	36 (40)	< 0.001
Asymptomatic NBIs				
Rooming-in	23 (61)	33 (62)	56 (62)	0.87
Shared decision	33 (87)	47 (89)	80 (88)	0.79
Direct breastfeeding	27 (71)	37 (70)	64 (70)	0.90
Shared decision	35 (92)	47 (89)	82 (90)	0.59
NBIs requiring admission to NICU				
Individual room	23 (60)	21 (40)	44 (48)	0.05
Supply availability*				
PCR	35 (92)	46 (87)	81 (89)	0.42
Gloves	38 (100)	53 (100)	91 (100)	NS
Surgical mask/face mask	38 (100)	53 (100)	91 (100)	NS
N95 mask	38 (100)	50 (94)	88 (97)	0.14
Goggles	38 (100)	48 (91)	86 (95)	0.05
Face shield	37 (97)	50 (94)	87 (96)	0.49
Water-repellent gown	38 (100)	52 (98)	90 (99)	0.39
HEPA filters (+)	32 (84)	44 (83)	76 (83)	0.88
Alcohol-based hand gel	38 (100)	53 (100)	91 (100)	NS
Staff availability				
Less nursing staff	3 (8)	23 (43)	26 (29)	< 0.001
Less medical staff	10 (26)	24 (45)	34 (37)	0.07

* Available (limited access + no significant limit) versus not available.

+ HEPA: high efficiency particulate arresting.

NICU: neonatal intensive care unit; PCR: polymerase chain reaction; NBI: newborn infant; NS: not significant

in the care of another caregiver; 21 %, admission to the NICU; and 17 %, hospitalization in an isolated area (38 % recommended separating mother and child).

Table 3 shows the results of the different outcome measures and the comparison of answers from the public and the private sectors. In 46 % of assessed facilities, no companion was allowed for pregnant women with suspected or confirmed COVID-19; if authorized, 30% did not allow the access of the woman's living partner, even if they were asymptomatic, for being a close contact.

PPE use for intubation is shown in Table 4, and health care staff availability at maternity centers, in Table 5. A reduction in the attendance from NICU consultants was mentioned by 16 %. In case of a significant increase in the number of COVID-19 cases, 30 % of survey participants said that, at their facility, it would not be possible to comply with the recommended protective measures.

DISCUSSION

In the setting of the current SARS-CoV-2 pandemic, a cross-sectional study was done using a survey among health care providers

working in maternity centers in Argentina to assess preparedness strategies in neonatal care. Participating maternity centers accounted for approximately 21 % of births in Argentina.¹¹

The analysis of the answers from the medical team of 91 facilities showed a great similarity with the recommendations. In most births, deferred umbilical cord clamping was done, rooming-in with the baby was encouraged, and breastfeeding was promoted, which is consistent with the current national recommendations.^{9,12,13} These three measures were more common in our study than in two other recent international studies.^{8,10} Most probably, the difference is partially due to the fact that those studies were done in different countries, which may account for such greater variability. Difficulties observed included potential limitations in PPE availability, the unavailability of individual rooms for symptomatic NBIs, and a shortage of NICU staff.

In Argentina, isolation, social distancing, and other measures were implemented early, which made it possible to strengthen the health care system. This way, the number of cases increased at a more progressive rate compared to other countries.^{14,15} This allowed more time to develop

TABLE 4. Personal protective equipment recommended for the intubation of newborn infants WITH and WITHOUT suspected COVID-19

	% of recommendation for patients WITHOUT suspected COVID-19	% of recommendation for patients WITH suspected COVID-19	<i>p</i>
Gloves	89 %	96 %	0.24
Surgical mask/ face mask*	77 %	47 %	< 0.001
N95 mask*	31 %	99 %	< 0.001
Goggles	56 %	93 %	< 0.001
Face shield	38 %	88 %	< 0.001
Water-repellent gown	38 %	98 %	< 0.001

* In some facilities, both masks are worn together.

TABLE 5. Shortage of health care staff in maternity centers

	Answers from medical staff (n: 91)	Answers from nursing staff (n: 42)	<i>p</i>
Percentage that has noticed a reduction in medical staff by shift	37 %	52 %	0.10
Percentage that has noticed a reduction in nursing staff by shift	29 %	57 %	< 0.001
Percentage that has noticed a reduction in staff from other medical specialties	17 %	12 %	0.49
Percentage that has noticed a reduction in ophthalmologists	3 %	3 %	0.77
Percentage that considers that such reduction has impacted on the facility's compliance with regulations	5 %	6 %	0.86

national recommendations. In the initial stages of the pandemic, proposed guidelines varied greatly. There is currently more information about the modes of transmission, prevention, and potential clinical manifestations of COVID-19, so the current recommendations provided by international organizations are rather uniform.¹⁶⁻¹⁹

All maternity centers whose staff completed the survey followed the MoH's recommendations together with the guidelines proposed by their facility, which adapted the standards to their local setting. This may be explained by the wide dissemination of national and international guidelines through scientific societies and specialty discussion forums. A great majority of survey respondents referred that they had received training for the management of these patients.

In relation to the management of NBIs from mothers with suspected COVID-19, there is little evidence about the possibility of transplacental dissemination to the baby; some studies have demonstrated that, if hygiene measures are taken, horizontal transmission is uncommon.^{16,20} Most facilities conduct deferred umbilical cord clamping in mothers with COVID-19, in accordance with current recommendations. Although in the early stages of the pandemic some guidelines indicated immediate cord clamping, this has been modified.^{9,16} The proven benefits of this practice are now prioritized against the remote possibility of increasing the NBI's risk of transmission.

Most facilities indicated that they had an operating room exclusively designated for the birth of children from mothers with suspected or confirmed COVID-19. On the one side, although this is ideal, its feasibility is affected in the presence of positive, asymptomatic pregnant women who did not have a test done before the onset of labor. On the other side, having a single site may increase the number of C-sections because it is not easy to maintain a prolonged labor in a different place with the staff wearing level 3 PPE.²¹

Almost half of maternity centers did not allow a companion in the operating room or delivery room, and this was more prevalent in public hospitals. This is concerning in the light of pregnant people's right to be accompanied by someone of their choice during childbirth (Law no. 25929). Such percentage is probably explained by the requirement of not allowing the companion to be a close contact or a person with risk factors or symptoms. It is difficult to find a

companion who meets all these requirements.

In relation to the hospitalization of NBIs who do not require intensive care, although the initial guidelines recommended keeping the baby and the mother apart, the current evidence suggests that the risk of transmission for the NBI is extremely low, as long as the suitable precautions are taken: the mother and companion have to wear a surgical mask/face mask, a distance of more than 1.5 m should be kept between the mother's bed and the cradle, breastfeeding has to be done outside the mother's bed, and hygiene measures, including hand washing and local skin hygiene during feeding, have to be implemented.^{9,22}

Approximately 62 % of facilities allow rooming-in (with the mother or with the mother and another caregiver in charge of the NBI). Most likely, the 38 % of facilities that indicate to keep the mother and the baby apart do so because they cannot comply with the recommendations due to infrastructure and/or logistics characteristics. Some countries still recommend the separate hospitalization of the mother and the baby.⁸

In relation to breastfeeding, although some reports suggest that SARS-CoV-2 genetic material has been found in breast milk,^{23,24} this route of dissemination has not been demonstrated, so the recommendation remains direct breastfeeding or the administration of breast milk using a bottle or other methods.^{9,15,17} According to our survey, most facilities promote breastfeeding and, in 90 % of maternity centers, NBI feeding is agreed upon with the mother.

According to the national MoH's guidelines, a nasal swab in NBIs from mothers diagnosed with COVID-19 is indicated if they are symptomatic. Among surveyed facilities, 54 % performed a nasal swab in NBIs if they had symptoms and 36 %, as part of routine care. This is different from what has been observed in a study conducted in high-income countries, where most recommendations indicate a universal nasal swab in NBIs from mothers diagnosed with COVID-19.⁸

In relation to PPE use, it is worth noting that most survey respondents recommended using level 3 PPE during intubation of these patients, and a very small percentage did not recommend using a N95 mask or goggles. Although the survey was administered in Argentina at a time when the virus community circulation was limited, different professional societies and national and international authorities have made broad recommendations about PPE use, even in

NBIs without suspected COVID-19 exposure.

Most survey respondents indicated that they considered that the MoH's recommendation guidelines could be complied with.⁹ The main difficulties among those who believed that guidelines could not be adhered to included PPE availability (N95 mask, water-repellent gown, and goggles), limited access to high efficiency particle arresting (HEPA) filters, lack of physical space for patient isolation, and shortage of available health care staff. It is important to have all PPE available. Worldwide, a large number of health care staff got COVID-19, so being a staff member should be considered a primary risk factor.

The shortage of human resources is due not only to preventive leaves (for staff members in risk groups) and sick health care providers, but also to the redistribution of staff members to other specialty departments where the number of patients has increased, such as the emergency and general medicine departments. The latter was more evident among nurses.

One of the limitations of this study is that, since there is no national registry of private maternity centers, our access to those facilities depended on contact availability, with the resulting selection bias. Another limitation is that we were not able to obtain paired physician-nurse answers from most participating facilities, which restricted the possibility of performing an analysis to adequately compare professional perspectives.

A strength of this study is that data were collected from a large number of public and private maternity centers from most provinces for assessment during a common epidemiological moment before massive virus circulation. No other study of these characteristics has been done at a national level.

The possibility of slowing the contagion curve through social isolation has enabled each facility to develop their own standards based on the MoH's recommendations and potential staff training. In the setting of the pandemic, it is essential to achieve a balance between protective measures for the health care staff, the prevention of COVID-19 dissemination to other patients, limited PPE availability, and an individualized, family-centered approach to patients with suspected COVID-19.

CONCLUSIONS

All facilities claim that they know and comply with the indications of national guidelines. Most maternity centers have the material resources to

comply with protective measures. However, there is uncertainty as to whether protective equipment, staff, and physical space would be enough if the number of cases increased significantly. ■

Acknowledgments

The authors would like to thank the Argentine ROP Group and the Area of Neonatology of the Division of Perinatal Health and Childhood from the National Ministry of Health for the collaboration and review of the original survey, and María Elina Serra for supervising the initial protocol writing. They would also like to thank survey respondents (*Annex 2*).

REFERENCES

1. World Health Organization. Coronavirus disease (COVID-19) pandemic. [Accessed on: August 18th, 2020]. Available at: <https://www.who.int/emergencies/diseases/novel-coronavirus-2019>.
2. Chen H, Guo J, Wang C, Luo F, et al. Clinical characteristics and intrauterine vertical transmission potential of COVID-19 infection in nine pregnant women: a retrospective review of medical records. *Lancet*. 2020; 395(10226):809-15.
3. Walker K, O'Donoghue K, Grace N, Dorling J, et al. Maternal transmission of SARS-CoV-2 to the neonate, and possible routes for such transmission: A systematic review and critical analysis. *BJOG*. 2020; 127(11):1324-36.
4. Lu Q, Shi Y. Coronavirus disease (COVID-19) and neonate: What neonatologist need to know. *J Med Virol*. 2020; 92(6):564-7.
5. Zimmermann P, Curtis N. COVID-19 in Children, Pregnancy and Neonates: A Review of Epidemiologic and Clinical Features. *Pediatr Infect Dis J*. 2020; 39(6):469-77.
6. Kallem VR, Sharma D. COVID 19 in neonates. *J Matern Fetal Neonatal Med*. 2020 May 18;1-9. [Online ahead of print].
7. Wang D, Hu B, Hu C, Fangfang Z, et al. Clinical characteristics of 138 hospitalized patients with 2019 novel coronavirus-infected pneumonia in Wuhan, China. *JAMA*. 2020; 323(11):1061-9.
8. Lavizzari A, Klingenberg C, Profit J, Zupancic J, et al. International comparison of guidelines for managing neonates at the early phase of the SARS-CoV-2 pandemic. *Pediatr Res*. 2020 Jun 15. [Online ahead of print].
9. Argentina. Ministerio de Salud. COVID-19. Estrategias para la atención en la UCIN del recién nacido hijo de madre con sospecha o confirmación de la Enfermedad. [Accessed on: August 18th, 2020]. Available at: <https://bancos.salud.gob.ar/sites/default/files/2020-08/covid-19-estrategias-atencion-ucin-recien-nacido-de-madre-con-sospecha-o-confirmacion.pdf>.
10. Klingenberg C, Tembulkar S, Lavizzari A, Roehr C, et al. COVID-19 Preparedness - A Survey among Neonatal Care Providers in Low and Middle Income Countries. 2020. In review.
11. Argentina. Ministerio de Salud. Estadísticas vitales. Información básica 2017. Dirección de Estadísticas e Información en Salud. [Accessed on: August 18th, 2020]. Available at: <http://www.deis.msal.gov.ar/wp-content/uploads/2019/01/Serie5Nro61.pdf>.
12. Comité de Estudios Feto Neonatales (CEFEN). Recomendaciones para el manejo del recién nacido hijo de madre con sospecha de infección por SARS-CoV-2. *Arch Argent Pediatr*. 2020; (Supl COVID-19):c67-75.

13. Área de Trabajo en Reanimación Cardiopulmonar Neonatal; Comité de Estudios Feto Neonatales (CEFEN). Recomendaciones en Reanimación Cardiopulmonar Neonatal (RCP) en la pandemia por SARS-CoV-2. *Arch Argent Pediatr.* 2020; (Supl COVID-19):c79-89.
14. World Health Organization. Situation by Country, Territory and Area. [Accessed on: August 18th, 2020]. Available at: <https://covid19.who.int/table>.
15. Argentina. Ministerio de Salud. Situación de Coronavirus Online. [Accessed on: August 18th, 2020]. Available at: <https://www.argentina.gob.ar/salud/coronavirus-COVID-19/sala-situacion>.
16. American Academy of Pediatrics. Management of Infants Born to Mothers with Suspected or Confirmed COVID-19. [Accessed on: August 20th, 2020]. Available at: <https://services.aap.org/en/pages/2019-novel-coronavirus-covid-19-infections/clinical-guidance/faqs-management-of-infants-born-to-covid-19-mothers/>.
17. Centers for Disease Control and Prevention. Care for Breastfeeding Women. Interim Guidance on Breastfeeding and Breast Milk Feeds in the Context of COVID-19. [Accessed on: August 18th, 2020]. Available at: <https://www.cdc.gov/coronavirus/2019-ncov/hcp/care-for-breastfeeding-women.html>.
18. Centers for Disease Control and Prevention. Pregnancy, Breastfeeding and caring for newborns. Coronavirus Disease 2019. [Accessed on: August 18th, 2020]. Available at: <https://www.cdc.gov/coronavirus/2019-ncov/need-extra-precautions/pregnancy-breastfeeding.html>.
19. World Health Organization. Clinical management of severe acute respiratory infection (SARI) when COVID-19 disease is suspected. [Accessed on: August 18th, 2020]. Available at: <https://apps.who.int/iris/handle/10665/331446>.
20. Salvatore C, Han JH, Acker K, Tiwari P, et al. Neonatal management and outcomes during the COVID-19 pandemic: an observation cohort study. *Lancet Child Adolesc Health.* 2020; 4(10):721-7.
21. Fundación Cuidados Críticos Hospital Italiano de Buenos Aires. Equipo de protección personal. [Accessed on: August 18th, 2020]. Available at: <https://www.fcchi.org.ar/wp-content/uploads/2020/03/Equipo-de-proteccion-personal-1.0-COVID19.pdf>.
22. Wang L, Shi Y, Xiao T, Fu J, et al. Chinese expert consensus on the perinatal and neonatal management for the prevention and control of the 2019 novel coronavirus infection (First edition). *Ann Transl Med.* 2020; 8(3):47.
23. Yang N, Che S, Zhang J, Wang X, et al. Breastfeeding of infants born to mothers with COVID-19: a rapid review. *Ann Transl Med.* 2020; 8(10):618.
24. Groß R, Conzelmann C, Müller JA, Stenger S, et al. Detection of SARS-CoV-2 in human breast milk. *Lancet.* 2020; 395(10239):1757-8.

ANNEX 1
Survey on perinatal COVID-19 in Argentina
List of questions

A. FACILITY INFORMATION:

1. Name of individual completing the survey:
2. E-mail address of individual completing the survey:
3. Position:
 - a. Physician.
 - b. Nurse.
 - c. Other.
4. Facility name:
5. City:
6. Province:
7. Annual number of births in your hospital (please provide an estimated range):
 - a. 0.
 - b. 1-500.
 - c. 501-1500.
 - d. 1501-3000.
 - e. 3001-6000.
 - f. > 6000.
8. Annual number of patients admitted to your hospital's NICU (please provide an estimated range):
 - a. < 101.
 - b. 101-500.
 - c. 501-1000.
 - d. 1001-2000.
 - e. > 2000.
9. Type of facility:
 - a. Public.
Level IIIB (high) II.
Level IIIA (middle) III.
Level II (low).
 - b. Private.
10. Level of care:
 - a. Availability of MV.
 - b. Availability of CPAP / non-invasive ventilation.
 - c. Availability of oxygen support.
 - d. Availability of neonatal surgery.

B. IN YOUR FACILITY:

11. Recommendation guidelines about COVID-19 patient management have been provided (select only one answer):
 - a. Yes.
 - b. No.
12. The guidelines used in your facility are the ones provided by (select all the answers that apply):
 - a. The National Ministry of Health.
 - b. The CEFEN (Committee for Fetal and Neonatal Studies).
 - c. Your facility for internal use.
 - d. Other.
13. You have received training on COVID-19 patient management in accordance with the recommendation guidelines (select only one answer):
 - a. Yes.
 - b. No.

14. In the setting of the pandemic, family visiting in the NICU has been restricted (select all the answers that apply):
- a. Yes.
 - I. Restriction in the number of family visitors.
 - II. Restricted duration of visits.
 - b. No.

C. MANAGEMENT OF NEWBORN INFANTS FROM MOTHERS WITH SUSPECTED OR CONFIRMED COVID-19:

15. At the time of childbirth (C-section or natural birth)
- a. Is a companion allowed inside? (Select only one answer)
 - I. Yes.
 - II. No.
 - b. If yes, and if the companion is asymptomatic, could it be the mother's living partner (close contact of the mother with suspected COVID-19)? (Select only one answer)
 - I. Yes.
 - II. No.
16. What are the recommendations regarding cord clamping? (Select only one answer)
- a. Immediate.
 - b. Delayed.
 - c. Milking.
17. Area where women with suspected or confirmed COVID-19 give birth (select only one answer):
- a. Usual delivery room/operating room.
 - b. Delivery room/operating room designated for COVID-19 patients.
18. Area where NBIs could be resuscitated (select only one answer):
- a. In the same room where childbirth occurred.
 - b. In a different room designated for the birth of babies from women with suspected COVID-19.
 - c. In the "resuscitation" area (the same area used for the resuscitation of depressed NBIs without suspicion or risk of COVID-19).
19. If the NBI does not require intensive care (select only one answer):
- a. They are allowed to rooming-in with their mother.
 - b. They are allowed to rooming-in with their mother, but in the care of a caregiver without suspected COVID-19, 2 meters apart from their mother's bed.
 - c. They are admitted to the NICU until their mother's diagnosis is confirmed or ruled out.
 - d. They are kept in isolation outside the NICU.
20. In relation to asymptomatic NBIs from mothers with suspected or confirmed COVID-19, indicate your agreement with the following statement: "In our facility, the mother's wishes are taken into account and the decision about where the baby will stay after birth is made with her." (Select only one answer)
- a. Strongly agree.
 - b. Somewhat agree.
 - c. Neither agree nor disagree.
 - d. Somewhat disagree.
 - e. Strongly disagree.
21. In relation to breastfeeding, if the NBI does not require neonatal intensive care (select only one answer):
- a. There is no specific recommendation.
 - b. The recommendation is direct breastfeeding with the mother wearing a surgical mask.
 - c. The recommendation is direct breastfeeding with no additional precautions.
 - d. The recommendation is pumping milk to be given by another person using a bottle.
 - e. The recommendation is formula feeding.

22. In relation to asymptomatic NBIs from mothers with suspected or confirmed COVID-19, indicate your agreement with the following statement: "In our Department, the mother's wishes are taken into consideration and the decision whether to breastfeed and how is made with the mother." (Select only one answer)
 - a. Strongly agree.
 - b. Somewhat agree.
 - c. Neither agree nor disagree.
 - d. Somewhat disagree.
 - e. Strongly disagree.
23. In the facility where you work, there is a possibility to perform a PCR test for COVID-19 (select only one answer).
 - a. Yes.
 - b. No.
24. If you answered yes to the previous question, how long does the result take? (Select only one answer)
 - a. Less than 24 h.
 - b. 24-72 h.
 - c. More than 72 h.
25. PCR testing in NBIs from mothers positive for COVID-19 (select only one answer):
 - a. It is done routinely.
 - b. It is done in case of symptoms.
 - c. It is not done.
26. If the PCR test is done routinely in NBIs, it is requested (select **all** the answers that apply):
 - a. At birth.
 - b. At 24 h.
 - c. At 48 h.
 - d. At 72 h.
 - e. > 72 h.

D. MANAGEMENT OF NEWBORN INFANTS ADMITTED TO THE NICU WITH SUSPECTED COVID-19:

27. What personal protective equipment (PPE) is recommended to perform positive pressure ventilation, if necessary? (Select all the answers that apply)
 - a. There is no specific recommendation.
 - b. Gloves.
 - c. Surgical mask.
 - d. N95 mask.
 - e. Goggles.
 - f. Water-repellent gown.
 - g. Transparent face shield.
28. What PPE is recommended to intubate a patient? (Select all the answers that apply)
 - a. There is no specific recommendation.
 - b. Gloves.
 - c. Surgical mask.
 - d. N95 mask.
 - e. Goggles.
 - f. Water-repellent gown.
 - g. Transparent face shield.

29. Possibility of isolation in your unit (select only one answer):
 - a. There are individual rooms available for isolation inside the unit.
 - b. There are individual rooms available for isolation in other units designated for neonatology.
 - c. There are individual rooms available for patient cohorts.
 - d. There are no rooms available and isolation is done inside the unit establishing cohorts and keeping the recommended distance.
 - e. There is no possibility for isolation.
30. Hospital discharge of NBIs from mothers with COVID-19 (select only one answer):
 - a. No differences in relation to routine care.
 - b. The recommendation is a longer hospital stay for clinical control.

E. ROUTINE MANAGEMENT OF NEWBORN INFANTS ADMITTED TO THE NICU WITHOUT SUSPECTED COVID-19:

31. What PPE is recommended to perform positive pressure ventilation, if necessary? (Select **all** the answers that apply)
 - a. There is no specific recommendation.
 - b. Gloves.
 - c. Surgical mask.
 - d. N95 mask.
 - e. Goggles.
 - f. Water-repellent gown.
 - g. Transparent face shield.
32. What PPE is recommended to intubate a patient? (Select **all** the answers that apply)
 - a. There is no specific recommendation.
 - b. Gloves.
 - c. Surgical mask.
 - d. N95 mask.
 - e. Goggles.
 - f. Water-repellent gown.
 - g. Transparent face shield.

F. AVAILABILITY OF MATERIALS IN YOUR UNIT:

33. PCR testing materials for COVID-19 (select only one answer):
 - a. Not available.
 - b. Limited availability.
 - c. Available with no significant limitations.
34. Gloves (select only one answer):
 - a. Not available.
 - b. Limited availability.
 - c. Available with no significant limitations.
35. Surgical mask (select only one answer):
 - a. Not available.
 - b. Limited availability.
 - c. Available with no significant limitations.
36. N95 mask (select only one answer):
 - a. Not available.
 - b. Limited availability.
 - c. Available with no significant limitations.
37. Goggles (select only one answer):
 - a. Not available.
 - b. Limited availability.
 - c. Available with no significant limitations.

38. Face shield, transparent plastic shield (select only one answer):
 - a. Not available.
 - b. Limited availability.
 - c. Available with no significant limitations.
39. Water-repellent gown (select only one answer):
 - a. Not available.
 - b. Limited availability.
 - c. Available with no significant limitations.
40. HEPA (high efficiency particulate air) filters for invasive or non-invasive ventilation (select only one answer):
 - a. Not available.
 - b. Limited availability.
 - c. Available with no significant limitations.
41. Alcohol for hand hygiene (select only one answer):
 - a. Not available.
 - b. Limited availability.
 - c. Available with no significant limitations.
42. Do you think your facility would manage to comply with the recommendations mentioned above if the number of COVID-19 cases increased significantly in the following months? (Select only one answer)
 - a. Yes.
 - b. No.
43. Why? (Open answer)

G. STAFF AVAILABILITY:

44. The number of nurses per shift has decreased (select only one answer).
 - a. Yes.
 - b. No.
45. The number of neonatologists has decreased (select only one answer).
 - a. Yes.
 - b. No.
46. If you answered yes to any of the previous questions, has this affected compliance with the department's rules, such as infection control, oxygen management, nutrition, etc.? (Select only one answer)
 - a. Yes.
 - b. No.

If yes, please describe how compliance with the department's rules has been affected (free text).
47. Have ophthalmologists stopped attending or reduced their attendance to the NICU to screen for ROP or administer an eventual treatment? (Select only one answer)
 - a. Yes.
 - b. No.
48. Have other specialists reduced their attendance to the NICU? (Select only one answer)
 - a. Yes.
 - b. No.

If yes, please describe what other specialists have reduced their attendance to the NICU (free text).

H. REMARKS: Please write here any additional remark you may have:

-----END OF SURVEY-----

ANNEX 2

Last and first names

Acevedo, Alberto David
 Acosta, Elizabeth
 Acosta, María Inés
 Agüero, Jorge
 Ahumada, Luis
 Alda, Ernesto
 Alegre, Gastón Gabriel
 Álvarez, Alina María
 Allende, Alejandra
 Amdreussi, Lorna
 Arimany, Marcela
 Bahamondes, Anabella
 Banin, Natalia
 Barresi, Mónica
 Barrionuevo, Laura S.
 Barrionuevo, Mercedes Graciela
 Barros Sosa, Julio
 Barthe, Manuel
 Bas, José Ignacio
 Becerra, Marina Fabiana
 Bernaldo de Quirós, Ignacio González
 Bianchi, Evelyn
 Bogado, Carina del Valle
 Boichetta, Gustavo
 Borrás, Lucas
 Brizuela, Priscila
 Bruno, Silvia Patricia
 Caram, Edgardo Daniel Fernando
 Cardetti, Marcelo
 Casali, Roberto Osvaldo
 Casas, Ofelia
 Cassatti, Fernanda
 Castillo, Fabiana
 Celotto, Marcela Elina
 Chara, José
 Chávez Suárez, Patricia
 Colantonio, Guillermo
 Concaro, Norma Beatriz
 Contrera, Pamela Judith
 Cracco, Lionel
 De Abrantes, Lorena
 De Risio, Karina
 Delarosa, Valeria
 Del Barco, Mario
 Di Tullio, Adriana Graciela
 Díaz Arguello, Claudia
 Díaz Gabellotta, Daniela
 Díaz, Juan Matías
 Dip, Viviana
 Dudkevich, Julia
 Espinoza, Eva
 Ezquer, Analía
 Fernández Jonusas, Silvia
 Ferreyra, Alejandra
 Ferreyra, Mirta
 Finotti, Gabriela
 García, Cecilia
 García Fiorini, María Inés
 Gigli, Mariel Vivian
 Goldsmit, Gustavo
 Gómez, Noemí Aida
 González, Alejandra Verónica
 González, Brígida
 Gordillo, Esteban

Facility

Hospital López Lima
 Hospital General de Agudos Dalmacio Vélez Sarsfield
 Hospital Julio C. Perrando
 Hospital Iturraspe
 Hospital Misericordia
 Hospital Privado del Sur
 Sanatorio de La Trinidad San Isidro
 Policlínico Neuquén
 Hospital Dr. Arturo Oñativia
 Maternidad Martin
 Sanatorio de la Trinidad Palermo
 HIGA Gandulfo
 Hospital Oñativia
 Sanatorio Finochietto
 Hospital Interzonal General Dr. J. Penna
 Hospital Descentralizado Dr. Guillermo Rawson
 Clínica Mayo de Urgencias Médicas Cruz Blanca SRL
 Clínica Yunes
 Hospital Privado Universitario de Córdoba
 HIGA Abraham Piñeyro
 Sanatorio San Lucas
 Hospital Dr. Gutiérrez
 Hospital Materno-neonatal E. T. de Vidal
 Hospital Durand
 Hospital Roque Sáenz Peña
 Hospital de la Madre y el Niño
 Sanatorio Güemes
 Hospital Antonio J. Scaravelli
 Clínica y Maternidad CERHU
 Hospital General de Agudos Dalmacio Vélez Sarsfield
 Maternidad Otoño
 Hospital Antonio J. Scaravelli
 H. I. G. Dr. José Penna
 Hospital Argerich
 Hospital Regional Ramón Carrillo
 Hospital Municipal Raúl F. Larcade
 Sanatorio Finochietto
 Clínica Delta
 Sanatorio de la Trinidad San Isidro
 Instituto Maternidad Santa Rosa
 Hospital Durand
 Hospital Iriarte de Quilmes
 Hospital Reconquista
 Hospital Público Materno Infantil
 Sanatorio Boratti
 Hospital Italiano Regional del Sur
 Hospital Dr. Lucio Molas
 Hospital Provincial de Neuquén Dr. Castro Rendón
 Hospital Nicolás Avellaneda
 Hospital Municipal Raúl F. Larcade
 Hospital Materno Infantil de Tigre
 Hospital Virgen de la Misericordia
 Hospital Italiano
 Hospital de la Madre y el Niño
 Sanatorio del Salvador
 Clínica Pasteur
 Sanatorio de la Trinidad Palermo
 Clínica Colón
 Hospital Provincial de Rosario
 Hospital Británico
 Hospital Julio C. Perrando
 Hospital Iriarte de Quilmes
 Maternidad San Lucas
 Maternidad de Tucumán

Grethelm, Ferrufino	Hospital Nacional Alejandro Posadas
Hermida, Agustina	Sanatorio Mater Dei
Hernández Blanco, María	Hospital Área Programa Francisco López Lima
Hernández, María Gabriela	Hospital Piñero
Herrero, Ernesto Ángel	Sanatorio Güemes
Ilera, Sebastián	Sanatorio San Carlos
Ingrassia, Guillermo	Sanatorio de la Mujer
Irrazabal, Daniel	Hospital Gobernador Centeno
Israilev, Adriana	Hospital Álvarez
Juárez, Marisa	Hospital Orán
Lapuente, María Belén	Hospital Provincial de Rosario
Larcade, Ramón	Sanatorio Trinidad Ramos Mejía
Levinson, Laura	Hospital Provincial del Centenario
Liva, Carlos Daniel	Hospital Ángela Iglesia de Llano
Luna, Graciela Silvina	Hospital Evita Pueblo
Manzolido, Silvana	Hospital Churrucá-Visca
Marinero, Silvia	Hospital D. F. Santojanni
Martin, Yamila	Casa Hospital San Juan de Dios
Martínez, Liliana	HUMN-UNC
Martínez, Marina	Instituto Maternidad Santa Rosa
Martocchia, Juan Carlos	Hospital Zonal Caleta Olivia
Mato, Ivana	Hospital Provincial de Neuquén Dr. Castro Rendón
Maubett, María Delcys Albas	CEMIC
Mazzitelli, Yanina Gisela	Hospital Italiano
Meléndez, Norma Elena	Hospital Materno Infantil de Tigre
Mertes, Jorgelina Andrea	Hospital J. M. Cullen
Miranda, Inés Roxana	Hospital Fernández
Morillo, María Marta	Maternidad San Lucas
Moretta, Sonia E.	HIGA Abraham Piñeyro
Mortarotti, Norma	Sanatorio 9 de Julio
Nemer, Patricia Elena	Hospital Diego Paroissien
Ortiz, Silvina Verónica	Hospital Rawson
Pagniez, María Eugenia	Clínica Colón
Palacios, Laura Lilian	Hospital Ángela Iglesia de Llano
Re, Silvina	Hospital Lucio Molas
Riffo, Néstor Teobaldo	Policlínico Neuquén
Rivarola, Victoria	Hospital Iturraspe
Rodríguez, María Gabriela	Hospital Zonal Dr. Antranik Eurnekian
Rubio, Soraya	Hospital Regional Dr. Alejandro Gutiérrez, Venado Tuerto, Santa Fe
Ruiz, Claudia	Sanatorio Trinidad Ramos Mejía
Saa, Gladys	Hospital Fernández
Sabatelli, Débora	Sanatorio Mater Dei
Salas, Guillermo	Hospital Español de La Plata
Salazar, Natalia	Hospital Regional Goya
Salvatierra, Adriana María	Hospital Eva Perón
Savorani, Mónica	Casa Hospital San Juan de Dios
Schavlovsky, Graciela Beatriz	H. I. G. A. Evita, Lanús
Seminario Gómez, Blas E.	H. D. C. Masvernat
Sexer, Héctor	Sanatorio Anchorena, Recoleta
Solana, Claudio	Maternidad Sardá
Soler, Liliana	Hospital Diego Paroissien
Sotomayor, Mayra	Hospital Materno Neonatal Nuestra Señora del Pilar
Steinberg, Diego Ariel	Hospital Ramón Carrillo
Subotovsky, Patricia	Clínica y Maternidad Suizo Argentina
Svriz Wucherer, Natalia Elizabeth	Sanatorio Argentino
Tirigay, Lucas	Hospital Municipal de Morón (Ostaciana Lavignolle)
Trujillo, Natalia	Hospital Piñero
Turturici, Mariana	Hospital Materno Infantil de San Isidro
Valdés, Martín	Sanatorio Altos de Salta
Valdez Pérez, María Florencia	Hospital Descentralizado Dr. Guillermo Rawson
Vecchiarelli, Carmen	Sanatorio Otamendi
Vega, Patricia	Sanatorio Allende Cero
Vera, Gabriel	Hospital Español de La Plata
Vidal, Juan Carlos	HEMI Ana Goitía
Viñales, Viviana	Hospital Materno Neonatal, Misiones
Wittbecker, Patricia Liria	HZGA Héroes de Malvinas
Zambosco, Guillermo	Hospital Italiano de La Plata
Zanetti, Ana	Hospital Jaime Ferré

Distintos enfoques adoptados por los médicos para tratar la nefrolitiasis en pediatría: estudio basado en una encuesta

Different approaches among physicians to treat pediatric stone disease: a survey-based study

Prof. Dr. Bülent Önal^a, Dra. Elif A. Kırılı^a, Prof. Asoc. Dra. Nur Canpolat^b, Prof. Asoc. Dr. Mehmet Taşdemir^c, Dr. Ahmet Gürbüz^a, Dr. Oktay Özman^a, Prof. Dra. Lale Sever^b, Prof. Dra. Ilay Bilge^d y Prof. Dr. Salim Çalışkan^b

RESUMEN

Introducción. Los pediatras, cirujanos y subespecialistas, como urólogos y nefrólogos pediátricos, participan en el diagnóstico y tratamiento de la nefrolitiasis pediátrica. El objetivo fue determinar los enfoques de distintas disciplinas y evaluar las diferencias en sus protocolos de diagnóstico y tratamiento habituales.

Población y métodos. Cuestionario administrado a participantes de sesiones sobre nefrolitiasis en congresos nacionales en 2017 para evaluar las rutinas de diagnóstico y tratamiento de la nefrolitiasis entre distintas especialidades (cirujanos y pediatras) y subespecialidades (nefrólogos pediátricos y urólogos pediátricos).

Resultados. Se analizaron 324 cuestionarios de 88 pediatras, 121 urólogos, 23 cirujanos pediátricos, 54 nefrólogos pediátricos y 38 urólogos pediátricos. Ambos grupos coincidieron en la necesidad de una evaluación metabólica. Para los cálculos ureterales distales ≥ 6 mm, los cirujanos preferían una ureteroscopia; los pediatras, una litotricia por ondas de choque (LOC) ($p < 0,001$); y los subespecialistas, una ureteroscopia ($p = 0,636$). Para los cálculos en la parte inferior de los cálculos renales < 1 cm, los cirujanos y los subespecialistas preferían la LOC y los pediatras, la hidratación ($p < 0,001$; $p = 0,371$). Para los cálculos de entre 1,1 cm y 2 cm, los cirujanos preferían la cirugía retrógrada intrarrenal (CRIR) y la LOC, y los pediatras, la LOC ($p = 0,001$). Para los cálculos más grandes, los cirujanos y subespecialistas preferían la nefrolitotomía percutánea (NLP) y los pediatras, la LOC ($p = 0,458$; $p = 0,001$).

Conclusión. Existen diferencias entre las disciplinas que participan activamente en el diagnóstico y tratamiento de la nefrolitiasis.

Palabras clave: urolitiasis, niño, ureteroscopia, educación, tratamientos.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.83>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.83>

- Departamento de Urología, Facultad de Medicina de Cerrahpaşa, İstanbul Üniversitesi, Cerrahpaşa, Estambul, Turquía.
- División de Nefrología Pediátrica, Departamento de Pediatría, Facultad de Medicina de İstanbul Üniversitesi, Cerrahpaşa, Estambul, Turquía.
- División de Nefrología Pediátrica, Departamento de Pediatría, Hospital de Koç Üniversitesi, Estambul, Turquía.
- División de Nefrología Pediátrica, Departamento de Pediatría, Facultad de Medicina de Koç Üniversitesi, Estambul, Turquía.

Correspondencia:
Prof. Dr. Bülent Önal:
bulonal@yahoo.com

Financiamiento:
Ninguno.

Conflicto de intereses:
Ninguno que declarar.

Recibido: 16-5-2020
Aceptado: 10-9-2020

INTRODUCCIÓN

Si bien la nefrolitiasis pediátrica en general se considera una enfermedad relativamente rara, es endémica en algunas partes del mundo.¹ Los pediatras, cirujanos y otros subespecialistas, como urólogos y nefrólogos pediátricos, participan en el diagnóstico y tratamiento de la nefrolitiasis.¹ Según nuestra experiencia clínica, si bien todas las disciplinas que tienen una función activa en el tratamiento de la nefrolitiasis siguen los mismos lineamientos, nomogramas y manuales, en la práctica diaria, se observan diferencias. Aún no se han evaluado tales diferencias en los procedimientos diagnósticos y los enfoques de tratamiento según las distintas disciplinas. Sin embargo, las diferencias sustanciales en el conocimiento y la práctica pueden afectar, a su vez, la tasa de requisitos de intervención y resultados.

El objetivo de este estudio era determinar los enfoques de diagnóstico y tratamiento de las distintas disciplinas que tratan la nefrolitiasis y evaluar si existen diferencias en sus protocolos de diagnóstico y tratamiento habituales.

POBLACIÓN Y MÉTODOS

Una vez obtenida la aprobación institucional de este estudio (núm. 1456-822), se elaboró un cuestionario de 13 preguntas destinado a los médicos de distintas disciplinas que participan activamente en el

Cómo citar: Önal B, Kırılı EA, Canpolat N, Taşdemir M, et al. Distintos enfoques adoptados por los médicos para tratar la nefrolitiasis en pediatría: estudio basado en una encuesta. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):83-90.

diagnóstico, el tratamiento y el seguimiento de la nefrolitiasis pediátrica.

Antes de elaborar las preguntas de la encuesta, se revisó la bibliografía actual referida a la nefrolitiasis pediátrica y se determinaron las principales diferencias significativas. Dos urólogos (OÖ, AG), dos urólogos pediátricos (BÖ, EAK) y dos nefrólogos pediátricos (SÇ, NC) elaboraron las preguntas y los escenarios. Antes del estudio, un grupo de especialistas (pediatras y cirujanos) y subespecialistas (nefrólogos pediátricos y urólogos pediátricos) con distintos años de experiencia respondieron las preguntas en una división de nefrolitiasis de una sesión conjunta (2017, Estambul, Turquía). Luego los autores revisaron si quienes respondieron el cuestionario habían comprendido y completado las preguntas.

El cuestionario se administró a los participantes de las divisiones de nefrolitiasis pediátrica del Congreso Nacional de Urología (2017, Antalya, Turquía), el Congreso Nacional de Pediatría (2017, Estambul, Turquía) y el Congreso Nacional de Cirugía Pediátrica (2017, Antalya, Turquía).

Los participantes se agruparon en pediatras

y cirujanos (urólogos, cirujanos pediátricos) para determinar la diferencia entre las especialidades. Los urólogos y cirujanos pediátricos que habían recibido formación oficial en urología pediátrica se consideraron urólogos pediátricos. De manera similar, los pediatras que habían recibido instrucción formal en nefrología pediátrica se consideraron nefrólogos pediátricos. Los urólogos pediátricos y los nefrólogos pediátricos tienen programas educativos comunes en cuanto a la nefrolitiasis (reuniones conjuntas de rutina, sesiones bibliográficas y clases magistrales) durante el internado posterior a la residencia.

Las primeras nueve preguntas buscaban determinar las características generales de los participantes en ambos grupos; las restantes empleaban escenarios típicos con los cuales los médicos podrían encontrarse en sus prácticas diarias para evaluar los métodos diagnósticos, terapéuticos y de seguimiento.

Los escenarios correspondían a tres situaciones diferentes relacionadas con la nefrolitiasis. El primer escenario consultaba sobre el enfoque adoptado para la microlitiasis renal (MR) (manchas de < 3 mm de diámetro detectadas en ecografía renal se han descrito como MR).

TABLA 1. Características demográficas de los participantes

		Sexo, n (%)			
		Femenino	Masculino		
1.					
Especialidades	Pediatras	51 (58)	37 (42)		
	Cirujanos	126 (88)	18 (12)		
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	28 (52)	26 (48)		
	Urólogos pediátricos	21 (55)	17 (45)		
		Ocupación actual, n (%)			
		Residente	Interno	Planta	Superior
2.					
Especialidades	Pediatras	15 (17)	0 (0)	48 (54)	25 (28)
	Cirujanos	10 (7)	0 (0)	96 (67)	38 (26)
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	0 (0)	18 (33)	16 (30)	20 (37)
	Urólogos pediátricos	0 (0)	7 (18)	12 (32)	19 (50)
		Años de experiencia, n (%)			
		0-5	6-10	11-15	≥ 15
3.					
Especialidades	Pediatras	17 (19)	22 (25)	21 (24)	28 (32)
	Cirujanos	12 (8)	66 (46)	21 (15)	45 (31)
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	7 (13)	11 (20)	16 (30)	20 (37)
	Urólogos pediátricos	4 (11)	3 (8)	12 (32)	19 (50)
		Institución, n (%)			
		Universitaria	Hospital público	Consultorio privado	
4.					
Especialidades	Pediatras	49 (56)	37 (42)	2 (2)	
	Cirujanos	73 (51)	61 (42)	10 (7)	
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	40 (74)	14 (26)	0 (0)	
	Urólogos pediátricos	20 (53)	11 (29)	7 (18)	

Los otros dos escenarios se establecieron según distintos tamaños de cálculos ubicados en la parte inferior de los cálices renales y en la parte distal de los uréteres.

Se incluyeron los cuestionarios completados con una única respuesta por pregunta y se excluyeron aquellos con varias respuestas por pregunta.

Los análisis estadísticos se hicieron con el programa SPSS, versión 13.0 (IBM Corp., Armonk, NY, EE. UU.). Se usaron la prueba χ^2 y la prueba de Kruskal-Wallis (para la comparación de múltiples grupos) para la evaluación estadística. Un valor de $p < 0,05$ se definió como estadísticamente significativo.

RESULTADOS

En total, de los 348 médicos que participaron en la encuesta, se analizaron 324 cuestionarios (después de la exclusión). Los especialistas fueron 88 pediatras (27 %), 121 urólogos (37 %) y 23 cirujanos pediátricos (7 %). Los subespecialistas fueron 54 nefrólogos pediátricos (17 %) y 38 urólogos pediátricos (12 %) (Figura 1). Las especialidades se dividieron en dos grupos: pediatras ($n = 88$) y cirujanos ($n = 144$); sus respuestas se evaluaron según su especialización. También se compararon las respuestas por subespecialidad. En la Tabla 1, se resumen las características demográficas de los participantes.

Preguntas sobre la evaluación metabólica

Si bien la evaluación diagnóstica de los participantes varió en la práctica diaria, los especialistas y los subespecialistas estuvieron

de acuerdo en la necesidad de una evaluación metabólica. Si bien los pediatras hacían más evaluaciones metabólicas que los cirujanos (el 83 % frente al 53 %), esta tasa fue similar entre los subespecialistas (el 98 % frente al 95 %). Una mayor cantidad de cirujanos preferían el análisis de orina de 24 horas antes que los análisis de orina con dos muestras puntuales, en comparación con los pediatras (el 44 % frente al 66 %, $p: 0,032$). Los subespecialistas coincidieron en realizar el análisis de orina de 24 horas (el 72 % frente al 76 %, $p: 0,299$). Los participantes que no hacían una evaluación metabólica indicaron mayormente como motivo la falta de capacitación. Además, los pediatras recomendaban que los niños con nefrolitiasis debían recibir seguimiento por parte de nefrólogos pediátricos (el 52 % frente al 19 %, $p: 0,001$), mientras que los subespecialistas coincidieron en que el seguimiento debía estar a cargo de un equipo multidisciplinario (el 73 % frente al 74 %, $p: 0,657$) (Tabla 2).

Preguntas sobre los escenarios clínicos

Se preguntó a los participantes cómo abordaban la MR infantil. La mayoría de los especialistas preferían no hacer la prueba de nitroprusiato sódico en la evaluación de la MR (el 87 % frente al 81 %, $p: 0,113$). Por el contrario, los subespecialistas estuvieron de acuerdo en hacer la prueba de nitroprusiato sódico en la evaluación de la MR (el 85 % frente al 74 %, $p: 0,252$). La evaluación radiológica de la MR no difirió entre los grupos, mientras que la ecografía fue la herramienta más preferida tanto por los especialistas (el 76 % frente al 67 %, $p: 0,09$) como

FIGURA 1. Diagrama de flujo de los participantes

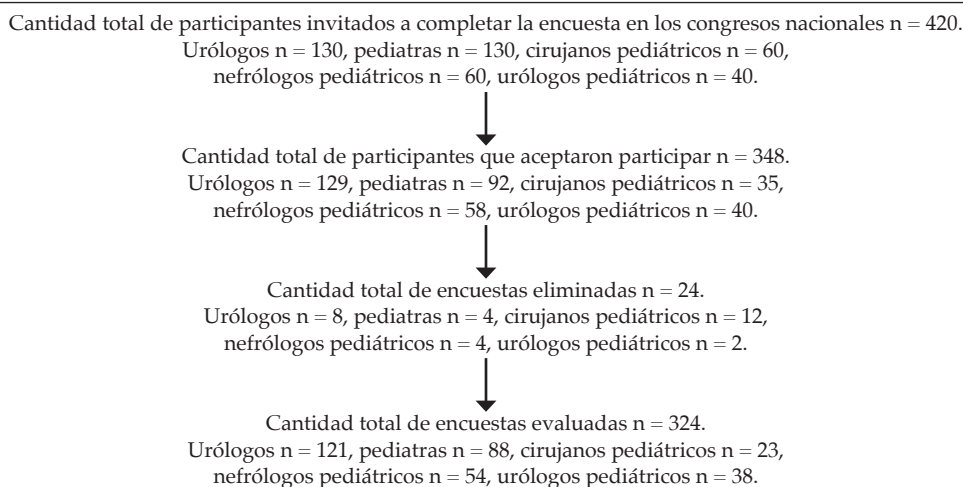


TABLA 2. Enfoque de la elaboración del diagnóstico según las especialidades

5. ¿Considera que es necesaria una evaluación metabólica en la nefrolitiasis pediátrica?		Sí N (%)	No N (%)	p				
Especialidades	Pediatras	86 (98)	2 (2)	ND				
	Cirujanos	139 (96)	5 (4)					
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	53 (98)	1 (2)	ND				
	Urólogos pediátricos	36 (95)	2 (5)					
6. ¿Usted realiza una evaluación metabólica para detectar la nefrolitiasis pediátrica como parte de su práctica habitual?		Sí N (%)	No N (%)	p				
Especialidades	Pediatras	73 (83)	15 (17)	0,001				
	Cirujanos	76 (53)	68 (47)					
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	53 (98)	1 (2)	ND				
	Urólogos pediátricos	36 (95)	2 (5)					
7. Si respondió sí, ¿qué pruebas usa? (n %)		AO de 24 horas	AO con 2 muestras puntuales	AO con una muestra puntual	p			
Especialidades	Pediatras	38 (44)	25 (28)	25 (28)	0,032			
	Cirujanos	95 (66)	27 (19)	22 (15)				
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	39 (72)	12 (22)	3 (6)	0,229			
	Urólogos pediátricos	29 (76)	4 (11)	5 (13)				
8. Si respondió no, ¿por qué? (n %)		Carezo de conocimientos técnicos	Carezo de capacitación	p				
Especialidades	Pediatras	5 (33)	10 (66)	0,578				
	Cirujanos	26 (38)	42 (58)					
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	1 (100)	0 (0)	ND				
	Urólogos pediátricos	2 (100)	0 (0)					
9. En su opinión, ¿qué especialidad debería brindar seguimiento a estos pacientes? (n %)		Pediatra	N	U	CP	UP	MD	p
Especialidades	Pediatras	1 (1)	46 (52)	1 (1)	2 (2)	11(13)	27 (31)	0,001
	Cirujanos	1 (1)	27 (19)	9 (6)	1 (1)	50 (35)	56 (39)	
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	0 (0)	10 (19)	0 (0)	0 (0)	3 (8)	41 (73)	0,675
	Urólogos pediátricos	0 (0)	8 (21)	0 (0)	0 (0)	2 (5)	28 (74)	

MD: multidisciplinario; N: nefrólogo; CP: cirujano pediátrico; UP: urólogo pediátrico; U: urólogo; AO: análisis de orina; ND: no disponible.

TABLA 3. Enfoque de la evaluación y la modalidad de tratamiento de la microlitiasis renal (MR) según la especialidad

10. A un bebé de 3 meses de edad se le diagnosticó MR por ecografía.							
10a ¿Evalúa al bebé mediante una prueba de nitroprusiato sódico en orina?		Sí, n (%)		No, n (%)		p	
Especialidades	Pediatras	11 (13)		77 (87)		0,113	
	Cirujanos	27 (19)		117 (81)			
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	46 (85)		8 (15)		0,252	
	Urólogos pediátricos	29 (74)		9 (26)			
10b ¿Qué método radiológico prefiere a continuación?		TC	PIV	UD Ecografía	Ecografía	UD	p
Especialidades	Pediatras	4 (3)	1 (1)	26 (18)	3 (2)	108 (76)	0,09
	Cirujanos	13 (7)	5 (3)	38 (21)	4 (2)	122 (67)	
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	0 (0)	0 (0)	9 (17)	0 (0)	45 (83)	0,672
	Urólogos pediátricos	0 (0)	0 (0)	8 (21)	0 (0)	30 (79)	
10c ¿Qué modalidad de tratamiento prefiere para este bebé?		Abordaje quirúrgico	Ecografía Seguimiento	Hidratación Seguimiento	Multi	Ignorar	p
Especialidades	Pediatras	1 (1)	42 (48)	36 (41)	8 (9)	1 (1)	0,956
	Cirujanos	6 (4)	70 (49)	53 (37)	14 (10)	1 (1)	
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	0 (0)	25 (46)	24 (44)	5 (9)	0 (0)	0,732
	Urólogos pediátricos	0 (0)	17 (45)	19 (50)	2 (5)	0 (0)	

TC: tomografía computada; UD: urografía directa; PIV: pielografía intravenosa.

por los subespecialistas (el 83 % frente al 79 %, $p: 0,672$). Ambos grupos estuvieron de acuerdo en las modalidades de tratamiento, y las tasas de seguimiento mediante ecografía y con hidratación fueron casi idénticas (Tabla 3).

Asimismo, a los participantes se les consultó sobre su abordaje de los cálculos sintomáticos ureterales distales sin complicaciones. La mayoría de los participantes de ambos grupos elegían un procedimiento similar para los cálculos en la parte distal de los uréteres con un diámetro de 3 mm a 5 mm. Entre los especialistas, las opciones de tratamiento de los cálculos en la parte distal de los uréteres que medían ≥ 6 mm variaban: mientras que los cirujanos (52 %) preferían la ureteroscopía; los pediatras (36 %), la litotricia por ondas de choque (LOC) ($p < 0,001$; Tabla 4). Sin embargo, los subespecialistas preferían la ureteroscopía como tratamiento (el 66 % frente al 68 %, $p: 0,636$).

Se preguntó a los participantes sobre el tratamiento de los cálculos de distintos tamaños en la parte inferior de los cálices renales. Si el cálculo medía < 1 cm, la primera opción de los cirujanos era la LOC, mientras que los pediatras optaban por la hidratación (el 54 % frente al 40 %, $p < 0,001$). Los subespecialistas preferían la LOC como tratamiento de primera línea (el 55 % frente al 55 %, $p: 0,371$). Si un cálculo medía

entre 1,1 cm y 2 cm, los cirujanos preferían la cirugía retrógrada intrarrenal (CRIR) (33 %) y la LOC (33 %) casi por igual, pero la mayoría de los pediatras prefería la LOC (40 %) ($p: 0,001$). Si un cálculo medía > 2 cm, la mayoría de los cirujanos prefería la nefrolitotomía percutánea (NLP) (78 %), mientras que los pediatras preferían la LOC (51 %) como primera opción y la NLP (33 %) como segunda opción ($p: 0,001$). Los subespecialistas preferían la NLP como tratamiento (el 56 % frente al 63 %, $p: 0,458$).

También se observó esta diferencia en la selección de los métodos radiológicos de diagnóstico por imagen. Los participantes de ambas especialidades preferían la radiografía simple de riñones, uréteres y vejiga (RUV) más una ecografía en lugar de la ecografía sola. Sin embargo, la mitad de los urólogos pediátricos (53 %) optaban por la tomografía computada (TC) de baja dosis y los nefrólogos pediátricos preferían la urografía directa (UD) y la ecografía (46 %) como instrumento de diagnóstico ($p: 0,029$) (Tabla 5).

DISCUSIÓN

El manejo de la nefrolitiasis pediátrica abarca múltiples disciplinas. Los estudios previos encontrados en la bibliografía se centraron principalmente en los enfoques diagnósticos y las

TABLA 4. Modalidades de diagnóstico y tratamiento según los distintos tamaños de los cálculos en la parte distal de los uréteres

11. Cálculo sintomático ureteral distal sin complicaciones en un niño de 5 años

11a. ¿Qué modalidad de tratamiento prefiere si el cálculo mide 3 mm?		Endoprótesis	Ureteroscopía	LOC	Hidratación + TME	n (%) Hidratación	p
Especialidades	Pediatras	1 (1)	1 (1)	2 (2)	10 (11)	74 (84)	0,545
	Cirujanos	2 (1)	5 (3)	3 (2)	50 (35)	83 (59)	
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	0 (0)	0 (0)	1(1)	18(33)	35 (66)	0,583
	Urólogos pediátricos	0 (0)	0 (0)	0 (0)	14 (37)	24 (63)	
11b. ¿Qué modalidad de tratamiento prefiere si el cálculo mide 5 mm?		Endoprótesis	Ureteroscopía	LOC	Hidratación + TME	n (%) Hidratación	p
Especialidades	Pediatras	4 (5)	3 (3)	21 (24)	46 (52)	14 (16)	0,112
	Cirujanos	1 (1)	28 (19)	17 (12)	60 (42)	38 (26)	
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	2 (4)	11 (20)	3 (6)	25 (46)	13 (24)	0,641
	Urólogos pediátricos	0 (0)	14 (37)	1 (3)	13 (34)	10 (26)	
11c. ¿Qué modalidad de tratamiento prefiere si el cálculo mide ≥ 6 mm?		Endoprótesis	Ureteroscopía	LOC	Hidratación + TME	n (%) Hidratación	p
Especialidades	Pediatras	19 (22)	15 (17)	32 (36)	20 (23)	2 (2)	$< 0,001$
	Cirujanos	11 (8)	75 (52)	28 (19)	17 (12)	13 (9)	
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	5 (13)	36 (66)	6 (11)	6 (11)	2 (6)	0,636
	Urólogos pediátricos	6 (16)	26 (68)	1 (3)	3 (8)	2 (5)	

TME: terapia médica de expulsión; LOC: litotricia por ondas de choque.

opciones de tratamiento médico y quirúrgico que mejoran los resultados. No obstante, este estudio se centró en las diferencias en los enfoques de diagnóstico y tratamiento adoptados por las distintas disciplinas. Cabe destacar el resultado del estudio, que demuestra que los pediatras y cirujanos parecen tener enfoques diagnósticos y terapéuticos diferentes. Otra implicancia notable de este estudio es que los nefrólogos y los urólogos pediátricos adoptan enfoques diagnósticos y terapéuticos similares asociados con la nefrolitiasis.

La mayoría de los participantes de este estudio tenían más de cinco años de experiencia, lo que implica que conocen los lineamientos existentes sobre el manejo de la nefrolitiasis y, por lo tanto, están capacitados para tratar la urolitiasis complicada.

Según los lineamientos actuales, debido a la elevada incidencia de los factores predisponentes y a las altas tasas de recurrencia de litiasis, cada niño con urolitiasis debe someterse a una

evaluación metabólica completa.^{1,3,6} A pesar de las diferencias en la práctica diaria, todos los participantes coincidieron en la importancia de la evaluación metabólica. Si bien los pediatras la hacen con mayor frecuencia que los cirujanos, prefieren el análisis de muestras puntuales de orina. Los subespecialistas y los cirujanos prefirieron el análisis de orina de 24 horas. El análisis de muestras puntuales de orina es sencillo en los niños, pero los resultados pueden ser engañosos. Esta orientación permitirá una mayor complejidad diagnóstica. Un punto importante mencionado por los especialistas es la falta de capacitación durante su formación, como motivo para omitir la evaluación metabólica; sin embargo, entre los subespecialistas, la falta de conocimientos técnicos suficientes fue el único motivo para no hacer las pruebas metabólicas. Asimismo, la disponibilidad de métodos diagnósticos y tratamientos podría variar entre el sector público y el privado y, en consecuencia, afectar el proceso de toma de

TABLA 5. Modalidades de diagnóstico y tratamiento según los distintos tamaños de los cálculos en los cálculos renales

12. Cálculo asintomático en la parte inferior de los cálculos renales sin complicaciones en un niño de 5 años.

12a. ¿Qué modalidad de tratamiento prefiere si el cálculo mide menos de 1 cm?		NLP	CRIR	LOC	Hidratación + TME	n (%) Hidratación	p
Especialidades	Pediatras	2 (2)	3 (3)	13 (15)	23 (26)	47 (54)	0,001
	Cirujanos	1 (1)	14 (10)	57 (40)	26 (18)	46 (32)	
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	2 (4)	1 (2)	30 (55)	11 (20)	10 (19)	0,371
	Urólogos pediátricos	3 (8)	5 (13)	21 (55)	4 (11)	5 (13)	
12b. ¿Qué modalidad de tratamiento prefiere si el cálculo mide entre 1,1 cm y 2 cm?		NLP	CRIR	LOC	Hidratación + TME	n (%) Hidratación	p
Especialidades	Pediatras	7 (8)	9 (10)	35 (40)	32 (36)	5 (6)	0,001
	Cirujanos	36 (25)	48 (33)	44 (31)	12 (8)	4 (3)	
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	7 (13)	7 (13)	33 (61)	5 (9)	2 (4)	0,246
	Urólogos pediátricos	6 (16)	7 (18)	23 (60)	1 (3)	1 (3)	
12c. ¿Qué modalidad de tratamiento prefiere si el cálculo mide más de 2 cm?		NLP	CRIR	LOC	Hidratación + TME	n (%) Hidratación	p
Especialidades	Pediatras	29 (33)	8 (9)	45 (51)	4 (5)	2 (2)	0,001
	Cirujanos	112 (78)	17 (12)	14 (9)	2 (1)	0 (0)	
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	30 (56)	12 (19)	10 (22)	2 (2)	0 (0)	0,458
	Urólogos pediátricos	24 (63)	10 (26)	4 (11)	0 (0)	0 (0)	

13. Niño de 10 años ingresado a la sala de emergencias con síntomas de cólico renal. ¿Qué método de diagnóstico por imagen prefiere?		n (%)				p
		TC	UD Ecografía	UD	Ecografía	
Especialidades	Pediatras	4 (5)	42 (48)	3 (3)	39 (44)	0,057
	Cirujanos	26 (18)	68 (47)	1 (1)	49 (34)	
Subespecialidades	Nefrólogos pediátricos	5 (9)	25 (46)	3 (6)	21 (39)	0,029
	Urólogos pediátricos	20 (53)	9 (24)	2 (5)	7 (18)	

TC: tomografía computada; UD: urografía directa; TME: terapia médica de expulsión; NLP: nefrolitotomía percutánea; CRIR: cirugía retrógrada intrarrenal.

decisiones al seleccionar uno u otro método. Todos los motivos son factores de riesgo de un retraso en el diagnóstico de un trastorno metabólico subyacente.

Se han presentado pocos informes sobre el diagnóstico, la evaluación, el tratamiento, el seguimiento a largo plazo y los resultados de la MR en la bibliografía. Debido a la falta de estudios controlados, es poco clara la información sobre la incidencia real y los pasos que seguir en el diagnóstico y el tratamiento.^{8,9} En nuestro estudio, quedó demostrada esta falta de claridad, ya que ambos grupos prefirieron distintas evaluaciones diagnósticas y tratamientos conservadores para la MR, como la hidratación y el seguimiento estrecho mediante ecografía. La mayoría de los pacientes pediátricos con MR tienen uno o más trastornos metabólicos subyacentes que son similares a aquellos con nefrolitiasis.^{8,9} Si bien los subespecialistas estuvieron de acuerdo en que la prueba de nitroprusiato sódico es útil para la evaluación metabólica de primera línea, los especialistas coincidieron en que la evaluación metabólica no es un requisito. Este resultado podría ser alarmante porque este tema no ha sido lo suficientemente aclarado en la bibliografía y requiere que los médicos tomen precauciones.

La terapia médica de expulsión (TME), mayormente con bloqueantes α , se recomendó para los cálculos sin complicaciones que medían < 10 mm ubicados en la parte distal de los uréteres.⁵ A modo de reflexión, los participantes coincidieron en la TME y la hidratación como modalidades de tratamiento de los cálculos pequeños en la parte distal de los uréteres, aunque en la bibliografía existen conflictos sobre el uso de la TME para una indicación no autorizada.¹⁰ Los especialistas también difirieron en el enfoque del tratamiento de los cálculos en la parte distal de los uréteres que miden ≥ 6 mm. La LOC se ha utilizado para tratar los cálculos ureterales con tasas de éxito inferiores para los cálculos ureterales distales, y los pediatras tienden a insistir en el uso de la LOC o el manejo conservador; sin embargo, los cirujanos y ambos grupos de subespecialistas prefieren la ureteroscopia. Esta orientación se correlaciona con los lineamientos clínicos.^{1,11,12}

Si bien la LOC se recomienda como primera línea de tratamiento para los cálculos < 10 mm en los cálices renales,¹ los pediatras prefieren el tratamiento con hidratación, mientras que los cirujanos y los subespecialistas, la LOC. Este enfoque explica por qué la LOC no se aceptó

completamente como tratamiento no invasivo entre los pediatras debido a la necesidad de sedoanalgesia o anestesia general en los niños. Recientemente, la CRIR se ha popularizado más debido a la mayor tasa de ausencia de litiasis en comparación con la LOC.^{1,13} Los cirujanos prefirieron la CRIR (33 %) y la LOC (31 %) casi por igual para el tratamiento de los cálculos que miden entre 1,1 cm y 2 cm. La mayoría de los cirujanos y subespecialistas prefirieron la NLP, pero los pediatras prefirieron igualmente, la LOC como primera opción para los cálculos de más de 2 cm. Esta observación puede explicarse por el hecho de que los pediatras tienden a actuar en forma más conservadora que los cirujanos. Otra posible explicación es que la mayoría de los pediatras no están lo suficientemente familiarizados con estos procedimientos mínimamente invasivos.

Los especialistas y los nefrólogos pediátricos prefirieron la ecografía o la radiografía de RUV por igual en los niños con cólicos renales. Este resultado podría ser secundario al seguimiento de un protocolo de radiación –tan baja como sea razonable– (ALARA, sigla correspondiente en inglés) en los niños.¹⁴ Recientemente, en algunos estudios se informó que una TC de baja dosis es mejor que una ecografía para detectar los cálculos y clasificar la anatomía renal.¹⁵ Por lo tanto, la mitad de los urólogos pediátricos prefieren usar la TC de baja dosis para el diagnóstico. Esta preferencia entre los cirujanos podría deberse a que desean observar la anatomía renal y la carga y ubicación de la litiasis para facilitar el procedimiento quirúrgico.

Si bien los pediatras recomiendan que los nefrólogos pediátricos deben realizar el seguimiento de los niños con nefrolitiasis, los subespecialistas coinciden en un seguimiento con un enfoque multidisciplinario con más disciplinas especializadas, como urología y nefrología pediátricas.

A modo de resumen, los departamentos que se ocupan del tratamiento de la nefrolitiasis podrían tener distintos enfoques en relación con el diagnóstico y los protocolos de tratamiento. Esta diferencia podría relacionarse con la falta de evidencia o de lineamientos adecuados y la rápida evolución de la tecnología. Además, el conflicto de intereses inherente que un especialista podría tener para preferir cierta modalidad diagnóstica y terapéutica podría ser otro motivo de las distintas elecciones. También podría estar relacionada con la carga asistencial. Una mayor cantidad

de pacientes con litiasis llevan a una mayor experiencia y familiaridad con la bibliografía actual. En esta encuesta, los subespecialistas dieron respuestas similares a los escenarios clínicos y las preguntas sobre la evaluación metabólica. Tal similitud podría ser resultado de los programas de formación comunes, que ofrecen un manejo integral de la nefrolitiasis pediátrica por parte de estas disciplinas y les permiten trabajar como un equipo especializado en litiasis.

Una de las limitaciones de este estudio es que los datos se obtuvieron de un cuestionario de respuestas múltiples y los participantes se vieron obligados a adaptar sus conceptos a las opciones preparadas en forma simplificada. Por lo tanto, los resultados tal vez no reflejen la práctica diaria con precisión. Otra limitación es que el cuestionario no estaba validado, lo que podría generar un sesgo potencial entre los encuestados. Además, los hallazgos corresponden solamente a los encuestados a disposición de los autores. Estos podrían ser representativos de la población del estudio, pero tal vez no sea adecuado generalizar los resultados del estudio a otras poblaciones. A pesar de estas limitaciones, nuestros resultados revelan las diferencias en los enfoques de diagnóstico, tratamiento y seguimiento de los médicos de distintas disciplinas que podrían tener una participación activa en la nefrolitiasis pediátrica. La preferencia de distintas modalidades de diagnóstico y tratamiento entre las disciplinas podría afectar los procedimientos diagnósticos y las modalidades de tratamiento y llevar a una menor tasa de ausencia de litiasis y una mayor tasa de recurrencia.

CONCLUSIÓN

Existen diferencias entre las disciplinas que participan activamente en el diagnóstico y tratamiento de la nefrolitiasis.

La integración de las disciplinas en el tratamiento de la nefrolitiasis pediátrica y el establecimiento de equipos dedicados a las litiasis podrían ayudar a reducir los conflictos en los enfoques de diagnóstico y tratamiento. ■

REFERENCIAS

1. Tekgül S, Doğan HS, Hoebcke P, Kocvara R, et al. Urinary stone disease. En: EAU Guidelines on Pediatric Urology. 2016;58-65. [Fecha de acceso: 10 de septiembre de 2020]. Disponible en: <https://uroweb.org/wp-content/uploads/EAU-Guidelines-Paediatric-Urology-2016.pdf>.
2. Assimos D, Krambeck A, Miller N.L, Monga M, et al. Surgical management of stones: American Urological Association/Endourological Society guideline. Part I. *J Urol*. 2016; 196(4):1153-60.
3. Radmayr C, Bogaert G, Doğan HS, Nijman JM, et al. Urinary Stone disease. En: EAU Guidelines on Pediatric Urology. 2020: 65-74. [Fecha de acceso: 10 de septiembre de 2020]. Disponible en: <https://uroweb.org/guideline/paediatric-urology/>
4. Schneck FX, Ost M. Surgical management of pediatric stone disease. En: Wein AJ, Kavoussi LR, Partin AW, Peter CA. *Cambell-Walsh Urology*. 11th ed. Philadelphia: Elsevier; 2016.p.3102-20.
5. Türk C, Petrik A, Sarica K, Seitz C et al. EAU guidelines on diagnosis and conservative management of urolithiasis. *Eur Urol*. 2016; 69(3):468-74.
6. Straub, M, Strohmaier WL, Berg W, Beck B et al. Diagnosis and metaphylaxis of stone disease. Consensus concept of the National Working Committee on Stone Disease for the upcoming German Urolithiasis Guideline. *World J Urol*. 2005; 23(5):309-23.
7. Liu W, Esler SJ, Kenny BJ, Goh RH, et al. Low-dose nonenhanced helical CT of renal colic: assessment of ureteric stone detection and measurement of effective dose equivalent. *Radiology*. 2015; (1):51-4.
8. Fallahzade MA, Hassanzadeh J, Fallahzadeh MH. What do we know about pediatric renal microlithiasis? *J Renal Inj Prev*. 2017; (6):70-5.
9. Bilge I, Yılmaz A, Kayıran SM, Emre S, et al. Clinical importance of renal calyceal microlithiasis in children. *Pediatr Int*. 2013; 55(6):731-6.
10. Knoll T, Türk C. The role of medical expulsive therapy for ureteral stones: pro MET. *Eur Urol Focus*. 2017; 3(1):3-4.
11. Onal, B, Demirkesen O, Tansu N, Kalkan M, et al. The impact of caliceal pelvic anatomy on stone clearance after shock wave lithotripsy for pediatric lower pole stones. *J Urol*. 2004; 172(3):1082-6.
12. Hochreiter WW, Danuser H, Perrig M, Studer UE. Extracorporeal shock wave lithotripsy for distal ureteral calculi: what a powerful machine can achieve. *J Urol*. 2003; 169(3):878-80.
13. Ateş F, Zor M, Yılmaz O, Tuncer M, et al. Management behaviors of the urology practitioners to the small lower calyceal stones: the result of a web-based survey. *Urolithiasis*. 2016; 44(3):277-81.
14. Sodhi KS, Krishna S, Saxena AK, Sinha A, et al. Clinical application of 'justification' and 'optimization' principle of ALARA in pediatric CT imaging: "How many children can be protected from unnecessary radiation?" *Eur J Radiol*. 2015; 84(9):1752-7.
15. Passerotti C, Chow JS, Silva A, Schoettler CL, et al. Ultrasound versus computerized tomography for evaluating urolithiasis. *J Urol*. 2009; 182(4 Suppl):1829-34.

Different approaches among physicians to treat pediatric stone disease: a survey-based study

Bülent Önal, M.D., Prof.^a, Elif A. Kırılı, M.D.^a, Nur Canpolat, M.D. Assoc. Prof.^b, Mehmet Taşdemir, M.D., Assoc. Prof.^c, Ahmet Gürbüüz, M.D.^a, Oktay Özman, M.D.^a, Lale Sever, M.D., Prof.^b, Ilmay Bilge, M.D., Prof.^d and Salim Çalıřkan, M.D., Prof.^b

ABSTRACT

Introduction. Pediatricians, surgeons and subspecialties as pediatric urology and nephrology are involved in the diagnosis and treatment of pediatric renal stone disease (RSD). The aim of this study was to determine diagnostic and treatment approaches, of different disciplines, and to assess differences in their routine diagnostic and treatment protocols.

Population and methods. A questionnaire was designed and administered to the participants of the RSD sessions in national congresses of all disciplines in 2017 to evaluate the diagnostic and treatment routines of specialties (surgeons and pediatricians) and subspecialties (pediatric nephrologists and pediatric urologists) for RSD.

Results. A total, of 324 questionnaires were analyzed, from 88 pediatricians (27 %), 121 urologists (37 %), 23 pediatric surgeons (7 %), 54 pediatric nephrologists (17 %), and 38 pediatric urologists (12 %). Both groups agreed on the necessity of metabolic evaluation. For distal ureter stones that were ≥ 6 mm; surgeons preferred ureteroscopy (URS), pediatricians preferred shock wave lithotripsy (SWL) ($p < 0.001$) and subspecialties preferred URS for the treatment ($p = 0.636$). For lower calix stones less than 1 cm surgeons and subspecialists preferred SWL, while pediatricians preferred hydration ($p < 0.001$, $p = 0.371$). For the stone between 1.1 and 2 cm, surgeons preferred intrarenal surgery (RIRS) and SWL, pediatricians preferred SWL ($p = 0.001$). For larger stones, surgeons and subspecialists preferred percutaneous nephrolithotomy (PCNL), and pediatricians preferred SWL ($p = 0.458$ $p = 0.001$). Pediatric urologist chose low-dose computerized tomography as a diagnostic radiologic evaluation ($p = 0.029$).

Conclusion. There are differences between the disciplines who take an active role in diagnosis and treatment of RSD.

Key words: urolithiasis, child, ureteroscopy, education, therapeutics.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.83>

- Department of Urology, Cerrahpařa School of Medicine, Istanbul University-Cerrahpařa, Istanbul, Turkey.
- Division of Pediatric Nephrology, Department of Pediatrics, School of Medicine, Istanbul University-Cerrahpařa, Istanbul, Turkey.
- Division of Pediatric Nephrology, Department of Pediatrics, Koç University Hospital, Istanbul, Turkey.
- Division of Pediatric Nephrology, Department of Pediatrics, Koç University School of Medicine, Istanbul, Turkey.

E-mail address:
Bülent Önal M.D.
Professor:
bulonal@yahoo.com

Funding:
None.

Conflict of interest:
None.

Received: 5-16-2020
Accepted: 9-10-2020

To cite: Önal B, Kırılı EA, Canpolat N, Taşdemir M, et al. Different approaches among physicians to treat pediatric stone disease: a survey-based study. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):83-90.

INTRODUCTION

Although pediatric renal stone disease (RSD) is generally considered a relatively rare disease, it is endemic in some parts of the world.¹ Pediatricians, surgeons and subspecialties as pediatric urology and nephrology are all involved in the diagnosis and treatment of RSD.¹ According to our clinical experience although all disciplines play active role in RSD treatment follow the same guidelines, nomograms, and textbooks, differences are observed in daily practice.¹⁻⁷ These differences in diagnostic procedures and treatment approaches by different disciplines have not been assessed yet. However, substantial differences in knowledge and practice can in turn affect the rate of intervention requirements and outcomes.

The aim of this study, was to determine diagnostic and treatment approaches of different disciplines who manage RSD and to assess whether there are differences in their routine diagnostic and treatment protocols.

POPULATION AND METHODS

After the institutional approval was obtained for this study (number:1456-822) a questionnaire consisting of 13 questions was prepared to answer by physicians from different disciplines who play active roles in the diagnosis, treatment, and follow up of pediatric RSD.

Prior to the preparation of the questions for the survey, the current literature related to pediatric renal stone disease was reviewed and the main issues that differ significantly

were determined. Two urologists (OÖ, AG), two pediatric urologists (BÖ, EAK) and two pediatric nephrologists (SÇ, NC) prepared the questions and scenarios. Before the study, the questions were answered by a group of specialists (pediatricians and surgeons) and subspecialist (pediatric nephrologists and pediatric urologists) with different years of experience in a renal stone disease section of a joint meeting (2017, İstanbul/Turkey). The authors then reviewed whether the respondents understood and answered the questions.

The questionnaire was administered to the participants of the pediatric RSD sections in National Congress of Urology (2017, Antalya/Turkey), National Congress of Pediatrics (2017, İstanbul/Turkey) and National Congress of Pediatric Surgery (2017, Antalya/Turkey).

The participants were grouped as pediatricians and surgeons (urologists, pediatric surgeons) for determining the difference between the specialties. Urologists and pediatric surgeons who were officially trained in pediatric urology were considered pediatric urologists. Similarly, pediatricians who were formally trained in pediatric nephrology were considered pediatric nephrologists. Pediatric urologist and

nephrologist have common educational programs about RSD (routine joint meetings, journal clubs and lectures) during their fellowship.

The first nine questions aimed to determine the general characteristics of the participants in the two groups, and the remaining questions used classical scenarios that physicians might encounter in their daily routines to assess diagnostic, therapeutic, and follow up methods.

Scenarios were about three different situations related to RSD. First scenario asked the approach to renal microlithiasis (RM) (spot detected < 3 mm in diameter on renal ultrasound (US) have been described as RM). The other two scenarios were arranged on the different size of stones located in lower calyx and distal ureter.

Completed questionnaires with single response for one question were included; multiple responses for one question were excluded.

Statistical analyses were carried out by SPSS, version 13.0 software (IBM Corp., Armonk, NY, U.S.A.). The Chi-square and Kruskal-Wallis H test (for multiple group comparison) were used for statistical evaluation. Statistical significance was defined as $p < 0.05$.

TABLE 1. Demographic features of the participants

		Gender, n (%)			
1.		Female	Male		
Specialties	Pediatricians	51 (58)	37 (42)		
	Surgeons	126 (88)	18 (12)		
Subspecialties	Pediatric nephrologists	28 (52)	26 (48)		
	Pediatric urologists	21 (55)	17 (45)		
		Current occupation, n (%)			
2.		Resident	Fellows	Staff	Senior
Specialties	Pediatricians	15 (17)	0 (0)	48 (54)	25 (28)
	Surgeons	10 (7)	0 (0)	96 (67)	38 (26)
Subspecialties	Pediatric nephrologists	0 (0)	18 (33)	16 (30)	20 (37)
	Pediatric urologists	0 (0)	7 (18)	12 (32)	19 (50)
		Year of experience, n (%)			
3.		0-5	6-10	11-15	≥ 15
Specialties	Pediatricians	17 (19)	22 (25)	21 (24)	28 (32)
	Surgeons	12 (8)	66 (46)	21 (15)	45 (31)
Subspecialties	Pediatric nephrologists	7 (13)	11 (20)	16 (30)	20 (37)
	Pediatric urologists	4 (11)	3 (8)	12 (32)	19 (50)
		Institution, n (%)			
4.		University	Public hospital	Private practice	
Specialties	Pediatricians	49 (56)	37 (42)	2 (2)	
	Surgeons	73 (51)	61 (42)	10 (7)	
Subspecialties	Pediatric nephrologists	40 (74)	14 (26)	0 (0)	
	Pediatric urologists	20 (53)	11 (29)	7 (18)	

RESULTS

A total, of 348 physicians participated in the survey, and after exclusion, 324 questionnaires were analyzed. The specialists were 88 pediatricians (27 %), 121 urologists (37 %), 23 pediatric surgeons (7 %). The subspecialists were 54 pediatric nephrologists (17 %), and 38 pediatric urologists (12 %) (Figure 1). Specialties were divided into two groups: pediatricians (n = 88) and surgeons (n = 144); their responses were evaluated based on their specializations. Subspecialties' answers were also compared. The demographic characteristics of the participants are summarized in Table 1.

Questions for metabolic evaluations

Although the evaluation workups of participants varied in daily routine, the specialties and subspecialties agreed on the necessity of metabolic evaluation. While pediatricians performed metabolic evaluation more than the surgeons (83 % vs. 53 %), this rate was similar between subspecialists (98 % vs. 95 %). More surgeons preferred the 24-hour urine test to two spot urine analyses, as compared to pediatricians (44 % vs. 66 %, p: 0.032). Subspecialties agreed on performing 24-hour urine test (72 % vs. 76 %, p: 0.299). The participants who did not perform metabolic evaluation indicated the most lack of education as a reason. Moreover, pediatricians recommended children with RSD should be followed by pediatric nephrologists (52 % vs. 19 %, p: 0.001), while the subspecialties agreed that a multidisciplinary team should follow up (73 % vs. 74 %, p: 0.657) (Table 2).

Questions about clinical scenarios

Participants were asked in terms of their approaches to infantile RM. The majority of specialists preferred not to perform the sodium nitroprusside test in the evaluation of RM (87 % vs. 81 %, p: 0.113). In contrast, subspecialists agree on nitroprusside test in evaluation of RM (85 % vs. 74 %, p: 0.252). Radiological evaluation for RM did not differ between the groups, and US was the most preferred tool for both specialties (76 % vs. 67 %, p: 0.09) and subspecialties (83 % vs. 79 %, p: 0.672). Both groups agreed on treatment modalities, and the rates of follow up with US and follow up with hydration were almost identical (Table 3).

The participants were also asked about their approach to symptomatic non-complicated distal ureter stones. Most of participants in both groups chose a similar procedure for distal ureter stones that are 3 to 5 mm in diameter. The specialists differed in their treatment options for distal ureter stones that are ≥ 6 mm; while surgeons (52 %) preferred ureteroscopy (URS), pediatricians (36 %) preferred shock wave lithotripsy (SWL) (p < 0.001; Table 4). However, subspecialists both preferred URS for the treatment (66 % vs. 68 %, p: 0.636).

Participants were asked about the treatment of lower calix stones of different sizes. If a stone was less than 1 cm, the first choice for surgeons was SWL, while that for pediatricians was hydration (54 % vs. 40 %, p < 0.001). Subspecialists both preferred SWL for the first line treatment (55 % vs. 55 %, p: 0.371). If a stone was between 1.1 and

FIGURE 1. The flowchart diagram of participants

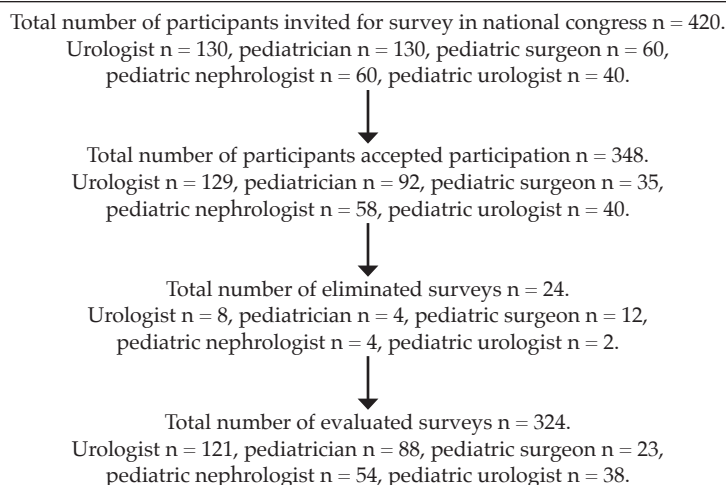


TABLE 2. Approach to diagnostic workup between the specialties

5. Do you think metabolic evaluation is necessary in childhood renal stone disease?		Yes N (%)	No N (%)	<i>p</i>				
Specialties	Pediatricians	86 (98)	2 (2)	N/A				
	Surgeons	139 (96)	5 (4)					
Subspecialties	Pediatric nephrologists	53 (98)	1 (2)	N/A				
	Pediatric urologists	36 (95)	2 (5)					
6. Do you perform metabolic evaluation for childhood renal stone disease in your daily routine?		Yes N (%)	No N (%)	<i>p</i>				
Specialties	Pediatricians	73 (83)	15 (17)	0.001				
	Surgeons	76 (53)	68 (47)					
Subspecialties	Pediatric nephrologists	53 (98)	1 (2)	N/A				
	Pediatric urologists	36 (95)	2 (5)					
7. If yes, which test do you use? (n %)		24 hour UA	2 times spot UA	Spot UA	<i>p</i>			
Specialties	Pediatricians	38 (44)	25 (28)	25 (28)	0.032			
	Surgeons	95 (66)	27 (19)	22 (15)				
Subspecialties	Pediatric nephrologists	39 (72)	12 (22)	3 (6)	0.229			
	Pediatric urologists	29 (76)	4 (11)	5 (13)				
8. If no, why? (n %)		Not have technical background	Not have enough education	<i>p</i>				
Specialties	Pediatricians	5 (33)	10 (66)	0.578				
	Surgeons	26 (38)	42 (58)					
Subspecialties	Pediatric nephrologists	1 (100)	0 (0)	N/A				
	Pediatric urologists	2 (100)	0 (0)					
9. In your opinion, which specialty should follow these patients up?		(n %)					<i>p</i>	
		Pediatrics	N	U	PS	PU	MD	
Specialties	Pediatricians	1 (1)	46 (52)	1 (1)	2 (2)	11(13)	27 (31)	0.001
	Surgeons	1 (1)	27 (19)	9 (6)	1 (1)	50 (35)	56 (39)	
Subspecialties	Pediatric nephrologists	0 (0)	10 (19)	0 (0)	0 (0)	3 (8)	41 (73)	0.675
	Pediatric urologists	0 (0)	8 (21)	0 (0)	0 (0)	2 (5)	28 (74)	

MD: Multidisciplinary N: nephrologist PS: pediatric surgeon PU: pediatric urologist U: urologist UA: urine analysis N/A: not available.

TABLE 3. Approach to evaluation and treatment modality of renal microlithiasis (RM) between the specialties

10. 3-month-old baby was diagnosed to have RM with US evaluation.		10a Do you evaluate this baby with urine sodium nitroprusside test?		Yes, n (%)	No, n (%)	<i>p</i>	
Specialties	Pediatricians			11 (13)	77 (87)	0.113	
	Surgeons			27 (19)	117 (81)		
Subspecialties	Pediatric nephrologists			46 (85)	8 (15)	0.252	
	Pediatric urologists			29 (74)	9 (26)		
10b Which radiological method do you prefer next?		CT	IVP	DUSG US	US	DUSG	<i>p</i>
Specialties	Pediatricians	4 (3)	1 (1)	26 (18)	3 (2)	108 (76)	0.09
	Surgeons	13 (7)	5 (3)	38 (21)	4 (2)	122 (67)	
Subspecialties	Pediatric nephrologists	0 (0)	0 (0)	9 (17)	0 (0)	45 (83)	0.672
	Pediatric urologists	0 (0)	0 (0)	8 (21)	0 (0)	30 (79)	
10c Which treatment modality do you prefer for this baby?		Surgical approach	USG Follow-up	Hydration Follow-up	Multi	Ignore	<i>p</i>
Specialties	Pediatricians	1 (1)	42 (48)	36 (41)	8 (9)	1 (1)	0.956
	Surgeons	6 (4)	70 (49)	53 (37)	14 (10)	1 (1)	
Subspecialties	Pediatric nephrology	0 (0)	25 (46)	24 (44)	5 (9)	0 (0)	0.732
	Pediatric urologists	0 (0)	17 (45)	19 (50)	2 (5)	0 (0)	

CT: computed tomography; DUSG: direct urinary system graphy; IVP: intravenous pyelography; US: ultrasonography.

2 cm, surgeons preferred intrarenal surgery (RIRS) (33 %) and SWL (33 %) almost equally, but most of pediatricians preferred SWL (40 %), (p: 0.001). If a stone was larger than 2 cm, most of surgeons preferred percutaneous nephrolithotomy (PCNL) (78 %), and pediatricians preferred SWL (51 %) as a first option and PCNL (33 %) as a second option (p: 0.001). Subspecialists preferred PCNL for the treatment (56 % vs. 63 %, p: 0.458).

This difference was also seen in the selection of radiological imaging methods. Participants of both specialties preferred plain film kidney, ureter, and bladder (KUB) radiography plus US evaluation rather than US alone. However, half of the pediatric urologist (53 %) chose low-dose computerized tomography (CT) and pediatric nephrologists chose DUSG and US (46 %) as a diagnostic tool (p: 0.029) (Table 5).

DISCUSSION

The management of pediatric RSD involves multiple disciplines. Previous studies in the literature have mostly focused on diagnostic approaches, medical and surgical treatment options that improve outcomes. The present study however focused on the differences in diagnostic and treatment approaches by different disciplines. The remarkable result of the study shows that pediatricians and surgeons may have

different diagnostic and therapeutic approaches. Another notable implication of this study is that pediatric nephrologist and urologist adopt similar diagnostic and therapeutic approaches associated with RSD.

Most participants in this study have more than 5 years of experience, implying that they know the existing guidelines on the management of RSD and therefore are equipped to handle complicated urinary stones.

According to current guidelines, due to the high incidence of predisposing factors and high stone recurrence rates, every child with a urinary stone should undergo complete metabolic evaluation.^{1,3,6} Despite the differences in the daily practice, all participants agreed on the importance of metabolic evaluation. Although the pediatricians perform metabolic evaluation more frequently than the surgeons do, they prefer spot urine analysis. Subspecialists and surgeons preferred the 24-hour urine test. Spot urine analysis is easy to perform in children, but the results can be misleading. This orientation will lead to increased diagnostic complexity. An important point indicated by the specialties is lack of capacitation during their training, as reason for omitting to perform metabolic evaluation, however, for the subspecialties not having enough technical background is the only reason not to perform the

TABLE 4. Diagnostic and treatment modalities for different stone sizes in distal ureter

11. Symptomatic non-complicated distal ureter stone in 5-year-old child.							
11a. Which treatment modality do you prefer if the stone size is 3 mm?							
		Stenting	URS	SWL	Hydration + MET	n (%)	p
		Hydration					
Specialties	Pediatricians	1 (1)	1 (1)	2 (2)	10 (11)	74 (84)	0.545
	Surgeons	2 (1)	5 (3)	3 (2)	50 (35)	83 (59)	
Subspecialties	Pediatric nephrologists	0 (0)	0 (0)	1(1)	18(33)	35 (66)	0.583
	Pediatric urologists	0 (0)	0 (0)	0 (0)	14 (37)	24 (63)	
11b. Which treatment modality do you prefer if the stone size is 5 mm?							
		Stenting	URS	SWL	Hydration + MET	n (%)	p
		Hydration					
Specialties	Pediatricians	4 (5)	3 (3)	21 (24)	46 (52)	14 (16)	0.112
	Surgeons	1 (1)	28 (19)	17 (12)	60 (42)	38 (26)	
Subspecialties	Pediatric nephrologists	2 (4)	11 (20)	3 (6)	25 (46)	13 (24)	0.641
	Pediatric urologists	0 (0)	14 (37)	1 (3)	13 (34)	10 (26)	
11c. Which treatment modality do you prefer if the stone size is ≥6 mm?							
		Stenting	URS	SWL	Hydration + MET	n (%)	p
		Hydration					
Specialties	Pediatricians	19 (22)	15 (17)	32 (36)	20 (23)	2 (2)	< 0.001
	Surgeons	11 (8)	75 (52)	28 (19)	17 (12)	13 (9)	
Subspecialties	Pediatric nephrologists	5 (13)	36 (66)	6 (11)	6 (11)	2 (6)	0.636
	Pediatric urologists	6 (16)	26 (68)	1 (3)	3 (8)	2 (5)	

MET: medical expulsive therapy; URS: ureteroscopy; SWL: shock wave lithotripsy.

metabolic tests. Additionally, the availability of diagnostic methods and treatments, which could vary between the public and private sectors, and consequently influence the decision-making process when choosing or preferring one or another method. All reasons are the risk factors for delay diagnosis of underlying metabolic disorder.

There are few reports on the diagnosis, evaluation, management, long-term follow up, and outcomes of RM in the literature. Due to the lack of controlled studies, the real incidence, and the steps to be followed in diagnosis and treatment are unclear.^{8,9} This lack of clarity was demonstrated in our study, as both groups preferred different diagnostic evaluations and conservative management, such as hydration and close follow up with USG, for RM. Most of pediatric patients with RM have one or more underlying metabolic disorders which are similar to those with renal stones.^{8,9} Although subspecialists agreed on performing sodium

nitroprusside test is useful for the first-line metabolic evaluation, specialists agreed on there is no requirement of metabolic evaluation. This result may be alarming because this subject has not been sufficiently clarified in the literature and requires physicians to be careful.

Medical expulsive therapy (MET), mostly with alpha-blockers, was recommended for uncomplicated distal ureteral stones < 10 mm.⁵ As a reflection of this, participants agreed on MET and hydration treatment modalities for small distal ureteral stones although there are conflicts in the literature about off-label use of MET.¹⁰ The specialists also differed in their treatment approaches for distal ureter stones that are ≥ 6 mm. SWL has been used to treat ureteral calculi with lower success rates for distal ureteric stones, and pediatricians tend to insist on SWL treatment or conservative management; however, surgeons and both subspecialists prefer URS. This orientation is correlated with the clinical guidelines.^{1,11,12}

TABLE 5. Diagnostic and treatment modalities for different stone size in renal calyx

12. Asymptomatic non-complicated lower caliceal stone in 5-year-old child.							
12a. Which treatment modality do you prefer if the stone size is under 1 cm?							n (%)
		PCNL	RIRS	SWL	Hydration MET	Hydration	p
Specialties	Pediatricians	2 (2)	3 (3)	13 (15)	23 (26)	47 (54)	0.001
	Surgeons	1 (1)	14 (10)	57 (40)	26 (18)	46 (32)	
Subspecialties	Pediatric nephrologists	2 (4)	1 (2)	30 (55)	11 (20)	10 (19)	0,371
	Pediatric urologists	3 (8)	5 (13)	21 (55)	4 (11)	5 (13)	
12b. Which treatment modality do you prefer if the stone size is between 1.1 and 2 cm?							n (%)
		PCNL	RIRS	SWL	Hydration MET	Hydration	p
Specialties	Pediatricians	7 (8)	9 (10)	35 (40)	32 (36)	5 (6)	0.001
	Surgeons	36 (25)	48 (33)	44 (31)	12 (8)	4 (3)	
Subspecialties	Pediatric nephrologists	7 (13)	7 (13)	33 (61)	5 (9)	2 (4)	0.246
	Pediatric urologists	6 (16)	7 (18)	23 (60)	1 (3)	1 (3)	
12c. Which treatment modality do you prefer if the stone size is above 2 cm?							n (%)
		PCNL	RIRS	SWL	Hydration MET	Hydration	p
Specialties	Pediatricians	29 (33)	8 (9)	45 (51)	4 (5)	2 (2)	0.001
	Surgeons	112 (78)	17 (12)	14 (9)	2 (1)	0 (0)	
Subspecialties	Pediatric nephrologists	30 (56)	12 (19)	10 (22)	2 (2)	0 (0)	0.458
	Pediatric urologists	24 (63)	10 (26)	4 (11)	0 (0)	0 (0)	
13. 10-year-old child admitted to ER with the complaint of renal colic. Which imaging method do you prefer? n (%)							p
		CT	DUSG US	DUSG	US		
Specialties	Pediatricians	4 (5)	42 (48)	3 (3)	39 (44)	0.057	
	Surgeons	26 (18)	68 (47)	1 (1)	49 (34)		
Subspecialties	Pediatric nephrologists	5 (9)	25 (46)	3 (6)	21 (39)	0.029	
	Pediatric urologists	20 (53)	9 (24)	2 (5)	7 (18)		

CT: computerized tomography; DUSG: direct urinary system graphy; ER: emergency room; MET: medical expulsive therapy; PCNL: percutaneous nephrolithotomy; RIRS: retrograde intrarenal surgery; URS: ureteroscopy; US: ultrasonography.

Although SWL is recommended as a first-line treatment modality for caliceal stones smaller than 10 mm,¹ pediatricians prefer hydration therapy, while surgeons and subspecialists prefer SWL. This approach can explain by SWL was not completely accepted as a noninvasive treatment by pediatricians due to the need for sedo-analgesia or general anesthesia in children. RIRS has recently become more popular due to its higher stone-free rate compared to SWL.^{1,13} Due to fact that surgeons preferred RIRS (33 %) and SWL (31 %) almost equally for the treatment of stone sized 1.1 and 2 cm. Most of surgeons and subspecialists preferred PCNL, but pediatricians preferred still SWL as a first option for stones larger than 2 cm. This observation can be explained by the fact that pediatricians tend to act more conservatively than surgeons. Another possible explanation is that most of pediatricians are not familiar enough with these minimally invasive procedures.

Specialists and pediatric nephrologists equally preferred USG and/or KUB for children presenting with renal colic. This result could be secondary to following an as low as reasonably achievable (ALARA) protocol in children.¹⁴ Recently, some studies reported that low-dose CT scan was better than USG at detecting stone and qualifying renal anatomy.¹⁵ Therefore, half of pediatric urologists prefer to use low-dose CT in diagnosis. This preference among surgeons may be because surgeons want to observe the renal anatomy and stone burden and location, in order to facilitate the surgical procedure.

Although pediatricians recommended children with RSD should be followed by pediatric nephrologist, the subspecialists agreed that a multidisciplinary approach involving more specialized disciplines, such as pediatric urology and nephrology should follow up these patients.

In summary, departments treating RSD may have different approaches related to diagnosis and the treatment protocols. This difference may be related with the lack of evidence or appropriate guidelines and the rapid evolution of technology. Additionally, the inherent conflict of interest that a specialist might have to prefer a certain diagnostic and therapeutic modality may be another reason of the different choses. It may also be related to caseload. A larger number of patients with stones lead to better experience and familiarity with current literature. In this survey, subspecialties gave similar answers to clinical scenarios and questions about the metabolic

evaluation. This similarity may be the result of common educational programs provides the integrity of these disciplines in the management of pediatric RSD and lead them to work as a stone-team.

One of the limitations of this study is that the data were obtained from a multiple-choice questionnaire, and participants were forced to adapt their ideas to the options that were prepared in simplified forms. Therefore, the results may not perfectly reflect their daily practices. Another limitation is that our questionnaire was not validated, which may create potential bias for responders. Additionally, the findings were only from respondents available to the authors. They may be representative of the study population, but it may not be appropriate to generalize the results of the study to other populations. Despite these limitations, our results reveal the differences in diagnostic, treatment, and follow up approaches of physicians from different disciplines who play active roles in pediatric RSD. The preference of different diagnostic and treatment modalities across disciplines may affect diagnostic procedures and treatment modalities and result in lower stone-free rate and increased recurrence rate.

CONCLUSION

There are differences between the disciplines who take an active role in diagnosis and treatment of RSD.

The integration of disciplines in the management of pediatric RSD and generating a stone teams may lead to decrease the conflicts in diagnostic and treatment approaches. ■

REFERENCES

1. Tekgül S, Doğan HS, Hoebcke P, Kocvara R, et al. Urinary stone disease. In: EAU Guidelines on Pediatric Urology. 2016;58-65. [Accessed on: Sept 10, 2020]. Available in: <https://uroweb.org/wp-content/uploads/EAU-Guidelines-Paediatric-Urology-2016.pdf>.
2. Assimos D, Krambeck A, Miller N.L, Monga M, et al. Surgical management of stones: American Urological Association/ Endourological Society guideline. Part I. *J Urol*. 2016; 196(4):1153-60.
3. Radmayr C, Bogaert G, Doğan HS, Nijman JM, et al. Urinary Stone disease. In: EAU Guidelines on pediatric Urology. 2020: 65-74. [Accessed on: Sept 10, 2020]. Available in: <https://uroweb.org/guideline/paediatric-urology/>
4. Schneck FX, Ost M. Surgical management of pediatric stone disease. In: Wein AJ, Kavoussi LR, Partin AW, Peter CA. *Cambell-Walsh Urology*. 11th ed. Philadelphia: Elsevier; 2016.p.3102-20.
5. Türk C, Petrik A, Sarica K, Seitz C et al. EAU guidelines on diagnosis and conservative management of urolithiasis. *Eur Urol*. 2016; 69(3):468-74.

6. Straub, M, Strohmaier WL, Berg W, Beck B et al. Diagnosis and metaphylaxis of stone disease. Consensus concept of the National Working Committee on Stone Disease for the upcoming German Urolithiasis Guideline. *World J Urol.* 2005; 23(5):309-23.
7. Liu W, Esler SJ, Kenny BJ, Goh RH, et al. Low-dose nonenhanced helical CT of renal colic: assessment of ureteric stone detection and measurement of effective dose equivalent. *Radiology.* 2015; (1):51-4.
8. Fallahzade MA, Hassanzadeh J, Fallahzadeh MH. What do we know about pediatric renal microlithiasis? *J Renal Inj Prev.* 2017; (6):70-5.
9. Bilge I, Yılmaz A, Kayıran SM, Emre S, et al. Clinical importance of renal calyceal microlithiasis in children. *Pediatr Int.* 2013; 55(6):731-6.
10. Knoll T, Türk C. The role of medical expulsive therapy for ureteral stones: pro MET. *Eur Urol Focus.* 2017; 3(1):3-4.
11. Onal, B, Demirkesen O, Tansu N, Kalkan M, et al. The impact of caliceal pelvic anatomy on stone clearance after shock wave lithotripsy for pediatric lower pole stones. *J Urol.* 2004; 172(3):1082-6.
12. Hochreiter WW, Danuser H, Perrig M, Studer UE. Extracorporeal shock wave lithotripsy for distal ureteral calculi: what a powerful machine can achieve. *J Urol.* 2003; 169(3):878-80.
13. Ateş F, Zor M, Yılmaz O, Tuncer M, et al. Management behaviors of the urology practitioners to the small lower calyceal stones: the result of a web-based survey. *Urolithiasis.* 2016; 44(3):277-81.
14. Sodhi KS, Krishna S, Saxena AK, Sinha A, et al. Clinical application of 'justification' and 'optimization' principle of ALARA in pediatric CT imaging: "How many children can be protected from unnecessary radiation?" *Eur J Radiol.* 2015; 84(9):1752-7.
15. Passerotti C, Chow JS, Silva A, Schoettler CL, et al. Ultrasound versus computerized tomography for evaluating urolithiasis. *J Urol.* 2009; 182(4 Suppl):1829-34.

Reproductibilidad de pruebas de competencia motriz y percentiles para niños y adolescentes que viven a altitud moderada del Perú

Reproducibility of motor competence tests and percentiles for children and adolescents living at moderate altitude in Peru

Dr. Marco Cossio-Bolaños^a, Mg. Rubén Vidal-Espinoza^b,
Dr. Felipe Castelli Correia de Campos^c, Dr. José Sulla-Torres^d,
Dr. Wilbert Cossio-Bolaños^e, Mg. Camilo Urra-Albornoz^f y Dra. Rossana Gómez-Campos^a

RESUMEN

Objetivo. Evaluar la reproductibilidad de las pruebas de competencia motriz (CM) de transposición lateral y salto lateral, y estimar percentiles por edad y sexo para niños que viven a altitud moderada del Perú.

Método. Se efectuó un estudio descriptivo transversal en la provincia de Arequipa (Perú). Se evaluó el peso, la estatura y la circunferencia de cintura. Se calculó el índice de masa corporal e índice ponderal. Se evaluó la prueba de transposición lateral y salto lateral (ambas de la batería *Kopfer test für Kinder*).

Resultados. La muestra estuvo constituida por 885 niñas y 897 niños de 6,0 a 16,9 años. El error técnico de medida intraevaluador para ambas pruebas de CM oscilaron entre 1,75 y 3,9 repeticiones en ambos sexos, mientras que el coeficiente de correlación intraclase fue de 0,77 a 0,99. Los límites de acuerdo oscilaron entre -7,3 y 6,8 repeticiones en ambas pruebas. Se estimaron percentiles 5°, 15°, 50°, 85° y 95° por el método *Least-Mean-Square algorithm*. Los puntos de corte adoptados para las pruebas CM fueron bajo: < p15; regular: de p15 a p85; y alto: > p85.

Conclusión. Las pruebas de transposición lateral y salto lateral mostraron una elevada capacidad de reproductibilidad. Los percentiles propuestos pueden servir para valorar la CM y podrían ser incluidos y adaptados como indicadores de desempeño en la educación física.

Palabras clave: destreza motora, estándares de referencia, niño, adolescente.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.91>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.91>

- Universidad Católica del Maule, Talca, Chile.
- Universidad Católica Silva Henríquez, Santiago, Chile.
- Universidad del Bio-Bio, Chillán, Chile.
- Universidad Nacional de San Agustín de Arequipa, Arequipa, Perú.
- Universidad Privada San Juan Bautista, Lima, Perú.
- Escuela de Kinesiología, Facultad de Salud, Universidad Santo Tomás, Chile.

Correspondencia:

Dra. Rossana Gómez-Campos:
rossaunicamp@gmail.com.

Financiamiento:

Ninguno.

Conflicto de intereses:

Ninguno que declarar.

Recibido: 22-5-2020

Aceptado: 26-10-2020

INTRODUCCIÓN

El desarrollo de la competencia motriz (CM) es una de las bases del comportamiento motor humano: sirve como bloque de construcción directa e indirecta de una cantidad de actividades durante la vida.¹ La CM es indispensable para muchas tareas funcionales diarias, como el trabajo, el deporte, las actividades recreativas,² entre otras. Se conceptualiza como la capacidad para ejecutar diferentes actos motores, que incluyen las habilidades motrices finas y gruesas,³ y patrones de movimientos de manera eficiente.⁴ En general, el desarrollo de la CM no ocurre de forma natural; requiere práctica y experiencia para expresarla con éxito en las diversas actividades que requieren su aplicación inherente.⁵

De hecho, la educación física (EF) juega un papel relevante en el desarrollo de las habilidades motoras y, consecuentemente, en la CM.⁶ Los programas curriculares de los sistemas educativos incluyen una variedad de dominios de la CM (habilidades básicas, coordinación, equilibrio, balance, entre otras), los que permiten participar con éxito a los niños y a los adolescentes durante las clases de EF (juegos, deportes, danzas, actividades recreativas, entre otras), ya que, durante su desarrollo, necesitan de un determinado grado de CM.

En ese contexto, varios estudios han demostrado que la CM se relaciona con los patrones de actividad física, aptitud física y con

Cómo citar: Cossio-Bolaños M, Vidal-Espinoza R, Castelli Correia de Campos F, Sulla-Torres J, et al. Reproducibilidad de pruebas de competencia motriz y percentiles para niños y adolescentes que viven a altitud moderada del Perú. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):91-98.

el peso corporal.^{7,10} Estas evidencias apoyan el interés por incluirla en la evaluación de la EF, ya que elevados niveles, por lo general, influyen en la participación de programas de AF y en la promoción de trayectorias positivas de salud a lo largo de la vida.¹

Actualmente, la literatura describe pruebas cuantitativas y cualitativas para evaluar la CM; sin embargo, muchas de las pruebas cuantitativas son difíciles de aplicar, son engorrosas y requieren de material sofisticado y entrenamiento específico, puesto que varias han sido desarrolladas con fines clínicos y médicos, y, por lo general, se utilizan para identificar a niños con discapacidad motriz.¹¹ Esto dificulta una rápida evaluación e integración de variables motrices que se suelen medir cotidianamente durante las clases de EF.

Basados en esas premisas, este estudio buscó un método que se adaptara mejor a los fines de la evaluación de la EF. Por ello, se eligieron dos de las cuatro pruebas que proponía la batería de *Körper koordinations test Für Kinder (KTK)*.¹² Estas pruebas de transposición lateral (TL) y salto lateral (SL) evalúan la CM. Aparentemente, ambas son las más sencillas y fáciles de aplicar, por lo que su inclusión dentro de la evaluación de EF podría ser una alternativa relevante.

En consecuencia, esta investigación presupone que ambas pruebas podrían reflejar elevada capacidad de reproductibilidad, y, al mismo tiempo, la propuesta de percentiles puede servir como indicador de desempeño para la evaluación de la CM en niños y adolescentes. Por lo tanto, los objetivos del trabajo son evaluar la capacidad de reproductibilidad de las pruebas motoras de TL y SL, y estimar percentiles por edad y sexo para niños que viven a altitud moderada del Perú.

MÉTODOS

Muestra y tipo de estudio

Se efectuó un estudio transversal en adolescentes de la ciudad de Arequipa, localizada al sur del Perú y ubicada a 2320 metros sobre el nivel del mar. Los escolares pertenecían a colegios públicos de la zona urbana y abarcaban el nivel primario y secundario. La ciudad tenía alrededor de 30 colegios referentes, distribuidos en dos zonas: sur y norte. Se seleccionaron aleatoriamente dos colegios por zona. Estos totalizaron 17 200 alumnos (población). La selección de la muestra fue probabilística (estratificada), y correspondió al 10,3 % (intervalo de confianza -IC- del 95 %).

Criterios de inclusión y exclusión

Se incluyeron, en el estudio, los niños y adolescentes cuyos padres y/o tutores firmaron el consentimiento informado, los que asistieron el día de la evaluación. Previamente, se había informado a los padres y apoderados sobre el procedimiento para evaluar la CM de sus hijos. Fueron excluidos los que presentaban algún tipo de discapacidad física que impedía realizar las pruebas motrices y los que no llegaron a completar dos evaluaciones.

La dirección de cada colegio autorizó la realización de la investigación. Todo el estudio se llevó a cabo de acuerdo con la Declaración de Helsinki para seres humanos y con las sugerencias del Comité de Ética local (UNSA-2017-15).

Técnicas y procedimientos

Las mediciones antropométricas y pruebas de CM se efectuaron en las instalaciones de cada colegio durante el horario escolar (8:00-12:30 horas) de lunes a viernes y durante los meses de abril a julio de 2017. Se realizaron, inicialmente, las mediciones antropométricas y luego las pruebas de CM.

Las mediciones antropométricas se evaluaron siguiendo las recomendaciones de Ross & Marfell-Jones.¹³ Se evaluó el peso corporal (kg) usando una balanza electrónica (Tanita, Reino Unido) con escala de 0 a 150 kg y con precisión de 100 g. La estatura de pie, con un estadiómetro portátil (Seca GmbH & Co. KG, Hamburgo, Alemania) con precisión de 0,1 mm. La circunferencia de la cintura (CC) se midió con una cinta métrica de metal (Seca) en milímetros con precisión de 0,1 cm. Se calculó el índice de masa corporal (IMC) utilizando la fórmula $IMC = \text{peso (kg)} / \text{estatura}^2 \text{ (m)}$, y el índice ponderal (IP) = $\text{peso (kg)} / \text{estatura}^3 \text{ (m)}$.

Las pruebas de CM (TL y SL) se evaluaron con el calentamiento previo de 10 minutos. Un investigador efectuó las evaluaciones en su totalidad, con el apoyo de dos auxiliares. Las evaluaciones se desarrollaron en dos oportunidades con el mismo evaluador y con un intervalo de 7 días (intraevaluador).

Ambas pruebas de CM pertenecían a la batería del *KTK*.¹² La batería involucraba componentes de CM, como el equilibrio, el ritmo, la fuerza, la lateralidad, la velocidad y la agilidad.¹⁴ La TL permitía probar su lateralidad y estructura espacio-tiempo. El niño se ubicaba sobre una plataforma de madera (25 cm x 25 cm x 1,5 cm, con 4 pies de 3,7 cm de altura) y, simultáneamente,

debía sostener una segunda plataforma con las manos en dirección al piso. A la señal de inicio, se debía colocar la segunda plataforma junto a la primera y pisarla; la secuencia continuaba por 20 segundos. Se contabilizaba el número de transposiciones realizadas (en repeticiones).

El SL consistía en saltar lateralmente con los pies juntos, lo más rápido posible de lado a lado sobre una viga pequeña (60 cm, 4,0 cm x 2,0 cm) durante 15 segundos. Se contabilizaba el número de saltos (en repeticiones). El tiempo se controló con un cronómetro manual Casio (HS-70W-8EF).

Los resultados fueron informados a los padres. Los casos extremos de bajo desempeño motriz y elevados niveles de peso corporal fueron derivados a profesionales especialistas para su posible tratamiento.

Estadística

Se exploró la normalidad de datos por medio de la prueba de bondad de ajuste de Kolmogorov-Smirnov (KS). La estadística descriptiva se calculó (promedio, desviación estándar y porcentaje).

Para comparar entre ambos sexos, se utilizó el test *t* para muestras independientes. Las tres categorías de las pruebas motoras fueron comparadas usando el análisis de varianza (*analysis of variance*; ANOVA, por sus siglas en inglés) y la prueba de especificidad de Tukey. Se calculó el error técnico de medida (ETM) absoluto para el test y re-test ($ETM = \sqrt{\sum d^2 / 2n}$) como sugerían Norton y Olds.¹⁵ Para facilitar la interpretación de los ETM absolutos, se estimó el ETM relativo ($ETM\% = (ETM / Mv) \times 100$), en que Mv era la media general entre test y re-test. Se consideraron valores de ETM % menores del 5 % como aceptables.¹⁶ Se utilizó también el coeficiente de correlación intraclase (CCI) y los diagramas de Bland-Altman¹⁷ para evaluar la concordancia entre test y re-test para el SL y TL. Los cálculos se efectuaron por medio de Spss 18.0. Se consideró significativa $p < 0,05$.

Se desarrollaron percentiles para la TL y SL por edad y sexo. Se aplicó el método *Least-Mean-Square algorithm* (LMS).¹⁸ Las curvas L, M y S representaban asimetría (lambda), mediana (mu)

TABLA 1. Características antropométricas, motrices y nivel educativo de la muestra estudiada por sexo

N	Peso			Estatura (cm)			CC (cm)			Transposición lateral (repeticiones)			Salto lateral (repeticiones)			IMC (kg/m ²)			IP (kg/m ³)			
	X	DE	K-S	X	DE	K-S	X	DE	K-S	X	DE	K-S	X	DE	K-S	X	DE	K-S	X	DE	K-S	
<i>Niños</i>																						
6	56	25,5	6,0	0,189	124,8	5,2	0,116	63,5	8,6	0,168	18,6	4,1	0,120	29,3	9,4	0,099	16,3	2,9	0,163	12,8	2,1	0,171
7	77	31,8	8,5	0,169	134,9	8,7	0,163	67,6	10,2	0,135	21,6	4,7	0,109	33,3	12,5	0,129	17,3	3,3	0,118	12,9	2,3	0,168
8	70	35,4	10,0	0,130	136,9	5,8	0,123	71,5	12,8	0,099	22,3	4,6	0,139	33,3	11,1	0,086	18,9	4,1	0,116	13,0	2,7	0,105
9	80	40,1	9,9	0,110	146,0	8,1	0,056	71,8	11,8	0,096	22,0	5,0	0,155	37,8	10,0	0,150	19,4	3,7	0,128	13,0	2,5	0,077
10	61	42,6	14,8	0,150	146,2	9,1	0,132	72,1	11,7	0,075	22,8	5,6	0,126	37,6	9,9	0,122	19,6	4,7	0,126	13,0	2,9	0,148
11	85	43,5	8,9	0,094	147,1	7,6	0,075	74,0	9,1	0,124	18,0	6,3	0,196	36,3	11,3	0,113	19,8	3,5	0,067	13,1	2,4	0,068
12	86	46,3	10,9	0,086	152,2	7,2	0,059	74,2	9,8	0,120	15,2	5,4	0,212	35,7	11,7	0,146	20,2	3,7	0,112	13,1	2,2	0,129
13	92	51,7	11,2	0,105	158,2	6,9	0,086	75,8	10,9	0,093	15,0	7,8	0,207	35,1	12,6	0,099	20,6	3,8	0,087	13,4	2,4	0,092
14	95	58,4	12,1	0,095	164,3	7,0	0,064	77,1	8,6	0,113	15,2	6,7	0,237	37,3	13,5	0,102	21,4	3,6	0,115	13,4	2,1	0,099
15	89	59,0	9,0	0,071	165,9	5,5	0,058	78,3	7,7	0,090	14,8	7,5	0,222	37,9	15,1	0,106	21,5	2,8	0,083	13,8	1,7	0,089
16	94	62,4	12,1	0,118	166,9	6,2	0,082	80,2	10,4	0,114	14,8	6,7	0,163	40,0	15,5	0,112	22,4	4,0	0,139	13,9	2,4	0,133
<i>Niñas</i>																						
6	57	23,6	4,9	0,157	120,9	5,4	0,114	58,8*	8,8	0,114	18,2	4,5	0,140	30,5	10,0	0,128	15,6	3,0	0,170	12,6	2,5	0,172
7	81	32,5	9,1	0,125	134,8	7,8	0,064	66,0	9,6	0,086	21,5	3,3	0,091	33,5	10,4	0,173	17,6	3,5	0,118	12,7	2,3	0,097
8	80	35,0	9,0	0,086	139,9	8,2	0,086	67,9*	18,8	0,203	22,7	5,3	0,162	35,0	12,3	0,067	17,7	3,6	0,095	13,0	2,4	0,089
9	85	37,7	9,3	0,133	143,9	8,1	0,107	68,2*	9,7	0,108	22,7	4,5	0,118	40,1	11,0	0,142	18,1	3,5	0,120	13,0	2,3	0,120
10	74	41,8	9,1	0,091	146,8	7,1	0,119	70,2	12,0	0,088	22,9	7,3	0,113	41,3	13,2	0,135	19,2	3,4	0,123	13,1	2,3	0,128
11	82	42,9	9,1	0,122	147,2	6,5	0,065	71,5*	8,9	0,092	17,5	6,9	0,205	35,0	14,2	0,127	19,8	3,4	0,098	13,4	2,3	0,084
12	91	48,9	11,8	0,129	151,6	6,4	0,109	72,2	8,6	0,065	13,7	6,6	0,279	31,3*	14,3	0,207	21,2	4,4	0,109	13,7	2,8	0,131
13	82	51,4*	9,6	0,105	154,4*	5,2	0,077	73,3	7,4	0,099	13,5	5,3	0,178	33,5*	12,6	0,141	21,5	3,6	0,071	13,9	2,3	0,081
14	83	53,1*	9,8	0,115	156,3*	5,8	0,121	74,5*	7,8	0,072	14,7	9,0	0,242	29,2*	12,9	0,139	21,5	3,7	0,098	14,0	2,4	0,077
15	82	54,0*	8,3	0,108	157,0*	5,5	0,068	75,1*	6,9	0,074	14,4	6,3	0,211	30,1*	11,5	0,088	22,1	3,1	0,097	14,1	2,1	0,115
16	100	55,5*	8,0	0,111	158,2*	4,6	0,138	75,4*	7,9	0,085	14,8	7,4	0,189	29,1*	14,0	0,075	22,2	3,1	0,072	14,1	2,1	0,061

X: promedio; DE: desviación estándar; CM: competencia motora; IMC: índice de masa corporal; IP: índice ponderal; CC: circunferencia de la cintura (*: diferencia significativa en relación con los hombres, $p < 0,05$); K-S: Kolmogorov-Smirnov.

y coeficiente de variación (sigma). Los parámetros L, M y S se calcularon de acuerdo con la máxima penalización.¹⁹ Los percentiles calculados fueron p5, p15, p50, p85 y p95. El procesamiento de datos se realizó con el software LMS Chartmaker (The Institute of Child Health, Londres, Reino Unido).²⁰

RESULTADOS

Fueron evaluados 1882 escolares (885 niños y 897 niñas). Las características de la muestra estudiada y los valores de normalidad de las variables por grupo de edad y sexo se observan en la *Tabla 1*. Las variables antropométricas y motrices presentaron distribución normal en ambos sexos y en todas las edades. En el peso corporal y estatura, las niñas presentaron valores inferiores desde los 13 hasta los 16 años en relación con los niños ($p < 0,05$); en las demás edades, no hubo diferencias significativas. En la CC, los niños presentaron valores superiores respecto a las niñas a los 6, 8, 9, 11, 14, 15 y 16 años ($p < 0,05$), mientras que, a los 7, 10, 12 y 13 años, no hubo diferencias ($p > 0,05$). No hubo diferencias significativas en ambos sexos en el IMC, IP y TL ($p > 0,05$). En el SL, los niños presentaron valores superiores desde los 12 hasta los 16 años frente a las niñas ($p < 0,05$). A edades iniciales, desde los 6 a los 11 años, no hubo diferencias significativas ($p > 0,05$).

Los valores de reproductibilidad expresados en ETM % se observan en la *Tabla 2*. En la prueba de TL, los rangos del ETM % oscilaron entre 1,75 % y 3,38 % en los niños y entre 1,85 % y 3,64 % en las niñas. Las correlaciones reflejaban valores entre 0,77 y 0,98, respectivamente. En la

prueba de SL, los valores del ETM %, en los niños, oscilaron entre 2,94 % y 3,97 % y, en las niñas, entre 2,90 % y 3,99 %. El CCI, en los niños, osciló entre 0,88 y 0,98, mientras que, en las niñas, fue ligeramente superior, entre 0,91 y 0,99.

Además, la concordancia por medio de Bland-Altman (véase la *Figura 1*) mostró que las diferencias de promedios entre el test y re-test para la TL en niños fue de $1,02 \pm 2,39$ rep., y sus límites oscilaron entre -5,7 y 3,7 rep. En las niñas, la diferencia de promedios fue de $0,78 \pm 2,54$ rep., y sus límites, entre -5,8 y 4,2 rep. Para la prueba de SL, los niños mostraron un promedio de $0,34 \pm 3,57$ rep., con rango entre -7,3 y 6,7 rep. Mientras que, en las niñas, la diferencia de promedios fue ligeramente superior ($0,48 \pm 3,54$ rep.), con límites entre -5,8 y 4,2 rep. En todos los casos, los valores fueron aceptables.

La distribución de percentiles (p5, p15, p50, p85, p95) para ambas pruebas por edad y sexo se pueden observar en la *Tabla 3*. La *Figura 2* permite observar la distribución percentilar de ambas pruebas de CM (TL y SL) por edad y sexo.

Las comparaciones de los indicadores de adiposidad corporal (IMC, IP y CC) en función de las categorías de la CM se observan en la *Tabla 4*. En la TL, se observaron diferencias significativas entre las tres categorías (bajo, medio y alto), tanto en el IMC como en el IP ($p < 0,05$), mientras que, en la CC, no hubo diferencias entre la categoría alto y medio, pero sí estas dos difirieron con la categoría bajo ($p < 0,05$).

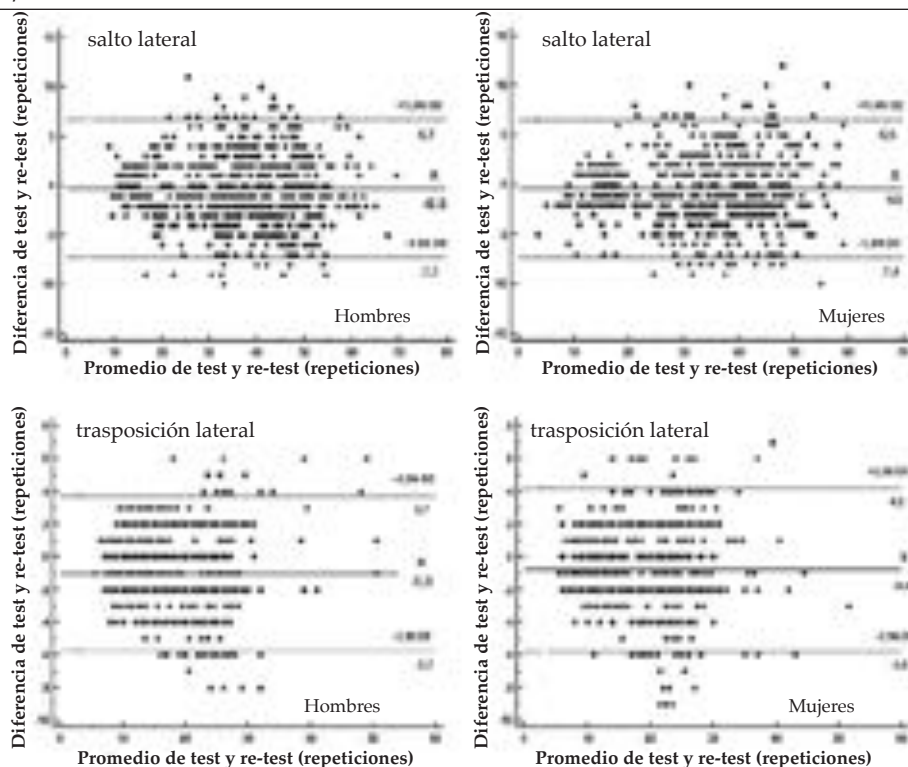
En el SL, no hubo diferencias entre la categoría alto y medio en el IMC, IP y CC ($p > 0,059$). Sin embargo, estas dos categorías difirieron

Tabla 2. Valores de reproductibilidad del test y re-test, expresados en error técnico de medida (%) y correlación en pruebas de competencia motriz por edad y sexo

Edades (años)	Transposición lateral (repeticiones)						Salto lateral (repeticiones)					
	Niños			Niñas			Niños			Niñas		
	ETM (%)	CCI	p	ETM (%)	CCI	p	ETM (%)	CCI	p	ETM (%)	CCI	p
6,0-6,9	2,16	0,90	0,0036	2,92	0,85	0,0047	3,57	0,90	0,0037	3,99	0,92	0,0035
7,0-7,9	3,38	0,77	0,0054	2,74	0,80	0,0046	3,92	0,95	0,0014	3,57	0,95	0,0014
8,0-8,9	3,17	0,80	0,0051	3,27	0,83	0,0039	3,90	0,94	0,0020	3,96	0,96	0,0013
9,0-9,9	2,91	0,87	0,0030	3,28	0,77	0,0049	3,97	0,88	0,0045	3,68	0,91	0,0030
10,0-10,9	2,90	0,90	0,0035	3,64	0,87	0,0036	3,80	0,93	0,0027	3,98	0,97	0,0010
11,0-11,9	2,75	0,93	0,0016	3,13	0,94	0,0014	3,84	0,94	0,0016	3,84	0,96	0,0010
12,0-12,9	2,12	0,95	0,0013	2,05	0,95	0,0010	3,27	0,97	0,0012	3,05	0,99	0,0004
13,0-13,9	1,75	0,98	0,0005	1,85	0,94	0,0017	3,06	0,98	0,0006	3,27	0,96	0,0013
14,0-14,9	2,14	0,96	0,0009	1,90	0,98	0,0006	3,62	0,97	0,0008	3,80	0,98	0,0009
15,0-15,9	2,12	0,96	0,0010	2,02	0,98	0,0007	2,95	0,98	0,0005	2,90	0,97	0,0008
16,0-16,9	2,53	0,96	0,0012	2,02	0,97	0,0008	2,94	0,98	0,0004	3,83	0,94	0,0047
Total	2,60	0,94	0,0001	2,66	0,94	0,0001	3,58	0,96	0,0001	3,59	0,962	0,0001

ETM (%): error técnico de medida relativo; r: Pearson; p: significancia; CCI: coeficiente de correlación intraclase.

FIGURA 1. Concordancia entre valores de test y re-test de las pruebas de competencia motriz ploteados por el diagrama de Bland-Altman para ambos sexos



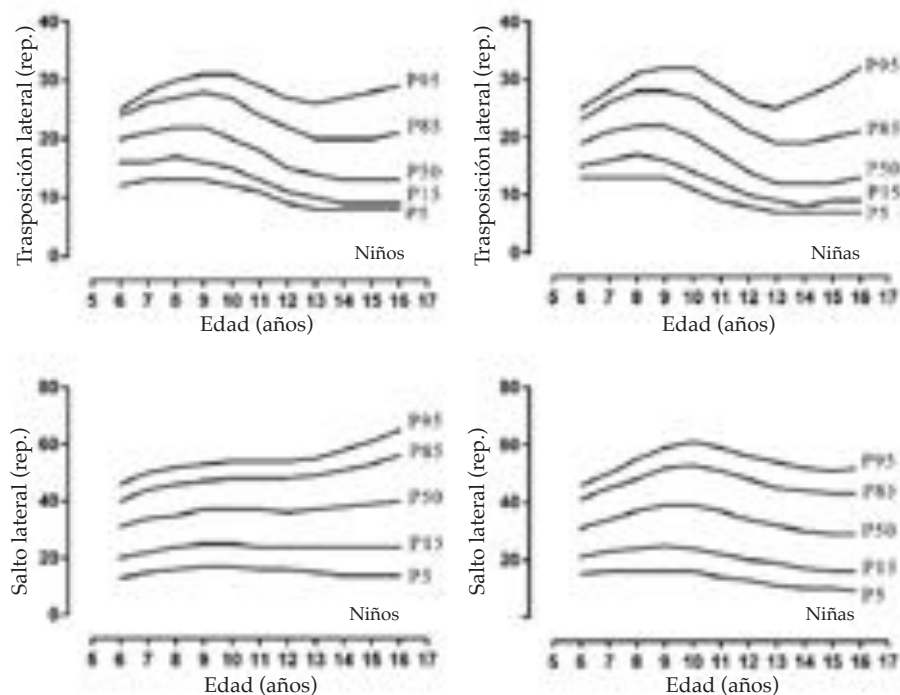
La línea punteada (---) indica los límites de concordancia al 95 %, determinados por el promedio de las diferencias (test y re-test) $\pm 1,96$ veces la desviación estándar de las diferencias; Y = 0 es la línea de concordancia perfecta.

TABLA 3. Percentiles para la prueba de transposición lateral y salto lateral para niños por edad y sexo

Edades (años)	Transposición lateral (repeticiones)								Salto lateral (repeticiones)							
	L	M	S	P5	P15	P50	P85	P95	L	M	S	P5	P15	P50	P85	P95
Niños																
6,0-6,9	1,86	19,84	0,19	12	16	20	24	25	1,29	30,71	0,32	13	20	31	40	46
7,0-7,9	1,52	21,35	0,21	13	16	21	26	28	1,32	33,56	0,31	15	22	34	44	50
8,0-8,9	1,18	22,03	0,23	13	17	22	27	30	1,34	35,44	0,30	16	24	35	46	52
9,0-9,9	0,81	21,65	0,26	13	16	22	28	31	1,35	36,60	0,30	17	25	37	47	53
10,0-10,9	0,43	20,09	0,28	12	15	20	27	31	1,36	36,90	0,30	17	25	37	48	54
11,0-11,9	0,08	17,53	0,31	11	13	18	24	29	1,34	36,63	0,30	16	24	37	48	54
12,0-12,9	-0,22	15,07	0,33	9	11	15	22	27	1,30	36,34	0,31	16	24	36	48	54
13,0-13,9	-0,41	13,57	0,35	8	10	14	20	26	1,25	36,60	0,33	15	24	37	49	55
14,0-14,9	-0,51	13,09	0,37	8	9	13	20	27	1,20	37,56	0,35	14	24	38	51	58
15,0-15,9	-0,54	13,02	0,38	8	9	13	20	28	1,17	38,86	0,36	14	24	39	53	61
16,0-16,9	-0,54	13,16	0,39	8	9	13	21	29	1,14	40,31	0,38	14	24	40	56	65
Niñas																
6,0-6,9	1,53	19,42	0,19	13	15	19	23	25	1,22	31,30	0,29	15	21	31	41	46
7,0-7,9	1,26	21,07	0,21	13	16	21	26	28	1,21	34,01	0,31	16	23	34	45	50
8,0-8,9	0,98	22,07	0,24	13	17	22	28	31	1,18	36,67	0,32	16	24	37	48	55
9,0-9,9	0,69	21,75	0,28	13	16	22	28	32	1,14	38,62	0,33	16	25	39	52	59
10,0-10,9	0,38	19,87	0,31	11	14	20	27	32	1,09	38,64	0,35	16	24	39	53	61
11,0-11,9	0,07	16,75	0,34	9	12	17	24	29	1,02	36,50	0,37	14	22	37	51	59
12,0-12,9	-0,20	13,86	0,36	8	10	14	21	26	0,95	33,79	0,39	13	20	34	48	56
13,0-13,9	-0,40	12,33	0,38	7	9	12	19	25	0,88	31,62	0,41	11	19	32	45	54
14,0-14,9	-0,54	11,96	0,39	7	8	12	19	27	0,84	29,97	0,43	10	17	30	44	52
15,0-15,9	-0,64	12,33	0,40	7	9	12	20	29	0,83	29,08	0,44	10	16	29	43	51
16,0-16,9	-0,71	12,79	0,41	7	9	13	21	32	0,84	28,67	0,46	9	16	29	43	52

P: percentil; M: mediana; S: coeficiente de variación; L: poder de transformación de Box-Cox.

FIGURA 2. Percentiles seleccionados de los puntajes de las pruebas de competencia motriz de niños de Arequipa (Perú) por edad y sexo



Rep.: repeticiones.

TABLA 4. Valores promedio \pm desvío estándar de indicadores de adiposidad corporal, clasificados con bajo, normal y elevado nivel de competencia motriz en ambos sexos

Pruebas/categorías	n	IMC (kg/m ²)		IP (kg/m ³)		CC (cm)	
		X	DE	X	DE	X	DE
Trasposición lateral							
Niños							
Bajo (< p15)	143	21,3	4,5	14	2,7	76,6	12,2
Medio (de p15 a p85)	612	19,9	3,9 ^a	13,2	2,3 ^a	73,7	10,3 ^a
Alto (> p85)	130	18,9	3,3 ^{ab}	12,6	1,9 ^{ab}	72,3	9,4 ^a
Total	885	20	4,0	13,2	2,3	74,0	10,5
Niñas							
Bajo (< p15)	139	21,3	4,3	14,5	2,6	73,5	10,9
Medio (de p15 a p85)	628	19,9	4,1 ^a	13,4	2,4 ^a	70,8	10,8 ^a
Alto (> p85)	130	18,3	3,0 ^{ab}	12,4	1,8 ^{ab}	69,1	8,2 ^a
Total	897	19,9	4,0	13,5	2,4	71,0	10,5
Salto lateral							
Niños							
Bajo (< p15)	172	21,8	4,7	14,2	2,8	78,0	12,5
Medio (de p15 a p85)	565	19,6	3,7 ^a	13	2,2 ^a	73,2	10,1 ^a
Alto (> p85)	148	19,1	3,6 ^a	12,7	2,1 ^a	71,7	8,9 ^a
Total	885	20,0	4,0	13,2	2,4	73,9	10,6
Niñas							
Bajo (< p15)	195	22,0	4,9	14,9	3,0	75,7	13,8
Medio (de p15 a p85)	562	19,1	3,6 ^a	13,0	2,0 ^a	69,6	9,1 ^a
Alto (> p85)	140	19,7	3,4 ^a	13,3	2,0 ^a	69,5	9,6 ^a
Total	897	19,8	4,0	13,5	2,4	70,9	10,6

X: promedio; DE: desviación estándar; IMC: índice de masa corporal; IP: índice ponderal; CC: circunferencia de la cintura;

a: diferencia significativa ($p < 0,05$) en relación con la categoría de bajo;b: diferencia significativa ($p < 0,05$) en relación con la categoría de medio.

significativamente con los clasificados como bajo en los tres indicadores de adiposidad corporal ($p < 0,05$).

DISCUSIÓN

Los resultados han evidenciado valores apropiados de reproductibilidad, expresados tanto en el ETM como en el CCI. Estos hallazgos son similares a los resultados del estudio original en niños alemanes para el puntaje bruto¹² y en niños portugueses con las mismas pruebas.²¹ Inclusive, en ambas pruebas, el ETM % de este estudio fue inferior al 3,9 % y presentó una alta concordancia entre ambas evaluaciones.

La reproductibilidad del test y re-test con intervalo de 7 días proporcionó estimaciones confiables para ambas pruebas motrices. Este intervalo de tiempo entre ambas evaluaciones es ampliamente recomendado en la literatura²² para garantizar una correcta interpretación de los resultados.²³

En esencia, tanto la TL como el SL son pruebas altamente fiables para el uso cotidiano en el sistema educativo escolar, ya que reflejaron límites razonables de acuerdo. La aplicación y uso durante la etapa del crecimiento y del desarrollo²⁴ podría ser relevante, pues otros protocolos de evaluación de CM, por lo general, tienen criterios complejos y, a menudo, requieren de instrumental sofisticado e inversión de tiempo para la medición.

En consecuencia, basados en los resultados obtenidos, se cree que los percentiles estimados para las pruebas de TL y SL por edad y sexo pueden ser usados en forma generalizada en escolares con similares características a las del presente estudio. Esta información es necesaria para una correcta evaluación de los valores obtenidos, cuyos puntajes de un alumno pueden ser comparados con los de la población general para conocer la posición relativa en la que se encuentra.

Los percentiles propuestos pueden ayudar a establecer umbrales de rendimiento entre los niños y los adolescentes, identificando niveles de CM como bajo, medio y alto. Estos puntos de corte, basados en el estudio original propuesto por Kiphard, Schilling²⁵ ($< p15$, de $p15$ a $p85$ y $> p85$).

De hecho, tras las comparaciones entre categorías señaladas, los resultados indican que los niños clasificados con pobre CM reflejaron mayor IMC, IP y CC que sus contrapartes con mejor o elevado nivel de CM. Estos hallazgos son consistentes con otros estudios.²⁹

En consecuencia, que los niños presenten un bajo nivel en la CM y/o habilidades motoras podría deberse a múltiples factores, por ejemplo, que no hayan recibido enseñanzas adecuadas de habilidades motrices y/o suficiente práctica como tal.²⁶ Además, la falta de interés y condiciones del medio en que se desarrollan pueden limitar su rendimiento. Como resultado, podría tener efectos adversos en las actividades de la vida diaria, como el ocio o el deporte,²⁷ y reflejar un bajo nivel de motivación para participar en programas de actividad física.²⁸

Por el contrario, los niños con mayor coordinación motora tienden a ser más aptos físicamente y son más activos,²⁹⁻³¹ ya que este comportamiento influye en su capacidad de participar en programas de actividad física y en la promoción positiva de la salud a lo largo de la vida.¹ La brecha entre los niveles de desempeño entre niños podría aumentar, puesto que los que presentan un mejor rendimiento, aparentemente, podrían lograr un mayor nivel de CM y participación en tareas físicas más exigentes,³² aunque estos aspectos podrían depender de la capacidad de motivación y del medio sociocultural en el que se desenvuelven los niños y los adolescentes.

En consecuencia, los percentiles propuestos en este estudio pueden ser aplicados en programas de salud, de deportes y de EF de Arequipa (Perú), pues proporcionan información relevante para la identificación de individuos con niveles variados de desempeño motriz, hasta la selección de talentos deportivos.³³

Este estudio tiene algunas limitaciones, ya que no fue posible evaluar los patrones de actividad física y de aptitud física, puesto que hubieran proporcionado información relevante a la hora de analizar los resultados. Además, únicamente, se evaluó el ETM intraevaluador, por lo que los hallazgos deben ser analizados con precaución.

Sin desmedro de lo anterior, es necesario destacar que este estudio es uno de los primeros que abarca un gran tamaño de muestra y rango etario. Puede ser utilizado como línea de base para futuras comparaciones. Además, los cálculos pueden ser efectuados en el siguiente link: http://www.reidebihu.net/comp_mot-pe.php.

En conclusión, las pruebas de TL y SL mostraron una elevada capacidad de reproductibilidad y los percentiles propuestos pueden permitir agrupar a los niños según sus perfiles de desempeño motriz, así como la inclusión y adaptación en los programas de EF. ■

REFERENCIAS

1. Hulteen RM, Morgan PJ, Barnett LM, Stodden DF, et al. Development of foundational movement skills: A conceptual model for physical activity across the lifespan. *Sports Med.* 2018; 48(7):1533-40.
2. Lima RA, Bugge A, Ersbøll AK, Stodden DF, et al. The longitudinal relationship between motor competence and measures of fitness and fitness from childhood into adolescence. *J Pediatr (Rio J).* 2019; 95(4):482-8.
3. Henderson SE, Sugden D, Psychological Corporation. Movement assessment battery for children. Sidcup: Psychological Corp; 1992.
4. Hands B, Rose E, Chivers P, McIntyre F, et al. The relationships between motor competence, physical activity, fitness and self-concept in children and adolescents with DCD. *Curr Dev Disord Rep.* 2020; 7:35-42.
5. Stodden DF, Goodway JD, Langendorfer SJ, Robertson MA, et al. A developmental perspective on the role of motor skill competence in physical activity: An emergent relationship. *Quest.* 2008; 60(2):290-306.
6. Cardon GM, De Bourdeaudhuij IMM. Physical education and physical activity in elementary schools in Flanders. *Eur J Phys Educ.* 2002; 7:5-18.
7. Hands B, Larkin D, Parker H, Straker L, et al. The relationship among physical activity, motor competence and health-related fitness in 14-year-old adolescents. *Scand J Med Sci Sports.* 2009; 19(5):655-63.
8. Stodden D, Langendorfer S, Robertson MA. The association between motor skill competence and physical fitness in young adults. *Res Q Exerc Sport.* 2009; 80(2):223-9.
9. Lopes VP, Stodden DF, Bianchi MM, Maia JA, et al. Correlation between BMI and motor coordination in children. *J Sci Med Sport.* 2012; 15(1):38-43.
10. Stodden DF, Gao Z, Goodway JD, Langendorfer SJ. Dynamic relationships between motor skill competence and health-related fitness in youth. *Pediatr Exerc Sci.* 2014; 26(3):231-41.
11. Tidén A, Lundqvist C, Nyberg M. Development and initial validation of the NyTid test: A movement assessment tool for compulsory school pupils. *Meas Phys Educ Exerc Sci.* 2015; 19(1):34-43.
12. Kiphard EJ, Schilling F. Körper-kordinations-test für kinder. Ktk. Weihen: Beltz Test GmbH; 1974.
13. Ross WD, Marfell-Jones MJ. Kinanthropometry. In MacDougall JD, Wenger HA, Geen HJ (eds.). *Physiological testing of elite athlete.* London: Human Kinetics. 1991; 223:308-14.
14. Scordella A, Di Sano S, Aureli T, Cerratti P, et al. The role of general dynamic coordination in the handwriting skills of children. *Front Psychol.* 2015; 6:580.
15. Norton K, Olds T (eds.). *Anthropometrica: a textbook of body measurement for sports and health courses.* Sydney: UNSW press; 1996.
16. Lohman TG. Dual energy X-ray absorptiometry. In Roche AF, Heymsfield SB, Lohman TG (eds.). *Human Body Composition.* Champaign, IL: Human Kinetics; 1996. Págs.63-78.
17. Bland JM, Altman DG. Statistical methods for assessing agreement between two methods of clinical measurement. *Lancet.* 1986; 1(8476):307-10.
18. Cole TJ, Bellizzi MC, Flegal KM, Dietz WH. Establishing a standard definition for child overweight and obesity worldwide: international survey. *BMJ.* 2000; 320(7244):1240-3.
19. Cole TJ, Green PJ. Smoothing reference centile curves: the LMS method and penalized likelihood. *Stat Med.* 1992; 11(10):1305-19.
20. Pan H, Cole TJ. LMS Chartmaker. 2006. [Acceso: 28 de marzo de 2015]. Disponible en: <http://www.healthforallchildren.co.uk>.
21. Antunes AM, Maia JA, Stasinopoulos MD, Gouveia ÉR, et al. Gross motor coordination and weight status of Portuguese children aged 6–14 years. *Am J Hum Biol.* 2015; 27(5):681-9.
22. Lander N, Morgan PJ, Salmon J, Logan SW, et al. The reliability and validity of an authentic motor skill assessment tool for early adolescent girls in an Australian school setting. *J Sci Med Sport.* 2017; 20(6):590-4.
23. Palisano R, Rosenbaum P, Walter S, Russell D, et al. Development and reliability of a system to classify gross motor function in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol.* 1997; 39(4):214-23.
24. Hardy LL, Barnett L, Espinel P, Okely AD. Thirteen-year trends in child and adolescent fundamental movement skills: 1997-2010. *Med Sci Sports Exerc.* 2013; 45(10):1965-70.
25. Kiphard EJ, Schilling F. Körperkoordinationstest für kinder: KTK. Weinheim; Beltz-Test; 2007.
26. Goodway JD, Branta CF. Influence of a motor skill intervention on fundamental motor skill development of disadvantaged preschool children. *Res Q Exerc Sport.* 2003; 74(1):36-46.
27. Summers J, Larkin D, Dewey D. Activities of daily living in children with developmental coordination disorder: dressing, personal hygiene, and eating skills. *Hum Mov Sci.* 2008; 27(2):215-29.
28. Haga M. Physical fitness in children with high motor competence is different from that in children with low motor competence. *Phys Ther.* 2009; 89(10):1089-97.
29. Fransen J, Pion J, Vandendriessche J, Vandorpe B, et al. Differences in physical fitness and gross motor coordination in boys aged 6–12 years specializing in one versus sampling more than one sport. *J Sports Sci.* 2012; 30(4):379-86.
30. Cattuzzo MT, Henrique RDS, Ré AHN, De Oliveira IS, et al. Motor competence and health related physical fitness in youth: a systematic review. *J Sci Med Sport.* 2016; 19(2): 123-9.
31. Jaakkola T, Yli-Piipari S, Huotari P, Watt A, et al. Fundamental movement skills and physical fitness as predictors of physical activity: A 6-year follow-up study. *Scand J Med Sci Sports.* 2016; 26(1):74-81.
32. Wall AT. The developmental skill-learning gap hypothesis: Implications for children with movement difficulties. *Adapt Phys Activ Q.* 2004; 21(3):197-218.
33. Hoeboer J, De Vries S, Krijger-Hombergen M, Wormhoudt R, et al. Validity of an Athletic Skills Track among 6-to 12-year-old children. *J Sports Sci.* 2016; 34(21):2095-105.

Reproducibility of motor competence tests and percentiles for children and adolescents living at moderate altitude in Peru

Marco Cossio-Bolaños, M.D.^a, Rubén Vidal-Espinoza, Magister^b, Felipe Castelli Correia de Campos, M.D.^c, José Sulla-Torres, M.D.^d, Wilbert Cossio-Bolaños, M.D.^e, Camilo Urra-Albornoz, Magister^f and Rossana Gómez-Campos, M.D.^a

ABSTRACT

Objective. To assess the reproducibility of two motor competence (MC) tests: moving sideways and jumping sideways, and to estimate age and sex percentiles for children living at moderate altitude in Peru.

Method. This was a descriptive, cross-sectional study conducted in the province of Arequipa, Peru. Weight, height, and waist circumference were assessed. Body mass index and ponderal index were estimated. The moving sideways and jumping sideways tests were assessed (both from the *Körper test für Kinder* test battery).

Results. The sample was made up of 885 girls and 897 boys aged 6.0-16.9 years. The intra-evaluator technical error of measurement for both MC tests ranged between 1.75 and 3.9 repetitions in both males and females, whereas the intraclass correlation coefficient was 0.77-0.99. Agreement limits ranged between -7.3 and 6.8 repetitions for both tests. The 5th, 15th, 50th, 85th, and 95th percentiles were estimated using the Least-Mean-Square algorithm. The cut-off points for MC tests were low: < p15; medium: p15-p85; and high: > p85.

Conclusion. Moving sideways and jumping sideways showed a high capacity for reproducibility. The proposed percentiles may be useful to assess MC and could be included and adapted as performance indicators in physical education.

Key words: motor skills, reference standards, child, adolescent.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.91>

To cite: Cossio-Bolaños M, Vidal-Espinoza R, Castelli Correia de Campos F, Sulla-Torres J, et al. Reproducibility of motor competence tests and percentiles for children and adolescents living at moderate altitude in Peru. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):91-98.

- Universidad Católica del Maule, Talca, Chile.
- Universidad Católica Silva Henríquez, Santiago, Chile.
- Universidad del Bio-Bio, Chillán, Chile.
- Universidad Nacional de San Agustín de Arequipa, Arequipa, Perú.
- Universidad Privada San Juan Bautista, Lima, Perú.
- School of Kinesiology, School of Health, Universidad Santo Tomás, Chile.

E-mail address:
Rossana Gómez Campos, M.D:
rossaunicamp@gmail.com.

Funding:
None.

Conflict of interest:
None.

Received: 5-22-2020
Accepted: 10-26-2020

INTRODUCTION

The development of motor competence (MC) is one of the bases of human motor behavior: it works, as a direct and indirect building block for a number of activities throughout life.¹ MC is essential for many daily functional tasks, including work, sports, recreational activities,² among others. MC is defined as the ability to proficiently perform different motor actions, including fine and gross motor skills,³ and movement patterns.⁴ In general, the development of MC does not occur naturally; it requires practice and experience to successfully express it in different activities requiring its inherent implementation.⁵

Actually, physical education (PE) plays a key role in the development of motor skills and, subsequently, in MC.⁶ Education curricular programs include different dimensions of MC (basic skills, coordination, balance, stability, etc.), which allow children and adolescents to successfully take part in PE classes (games, sports, dancing, recreational activities, etc.) given that their performance requires certain level of MC.

In this setting, several studies have demonstrated that MC is related to physical activity, physical fitness, and body weight patterns.^{7,10} Such evidence supports the interest to include it in PE assessments, because high MC levels will generally have an impact on physical activity (PA) programs and on the promotion of positive health trajectories throughout life.¹

The current bibliography describes quantitative and qualitative tests to

assess MC. However, many quantitative tests are difficult to implement and tiresome and require sophisticated materials and specific training, given that many of them have been developed for clinical and medical purposes; in general, they are used to identify children with motor disabilities.¹¹ This hinders the possibility of a rapid assessment and integration of motor outcome measures that are routinely measured during PE classes.

Under these premises, this study sought to find a method that better adapted to PE assessments. Therefore, two of the four tests proposed in the *Körperkoordinationstest Für Kinder* (KTK) test battery¹² were selected. Both moving sideways (MS) and jumping sideways (JS) assess MC. These are apparently the simplest and most easily implemented tests, so their use to assess PE may be a relevant option.

As a consequence, this study proposes that both tests may have a high capacity for reproducibility and, at the same time, the use of percentiles may serve as an indicator of performance for the assessment of MC among children and adolescents. Therefore, the objectives of this study were to assess the capacity for reproducibility of the MS and JS motor tests and to estimate age and sex percentiles for children and adolescents living at moderate altitude in Peru.

METHODS

Sample and type of study

This was a cross-sectional study conducted in children and adolescents in the city of Arequipa, located in the south of Peru at 2320 meters above sea level. Participants were primary and secondary school students from public schools in the urban area. Arequipa had approximately 30 reference schools distributed into two areas: south and north. Two schools were randomly selected per area. These accounted for 17 200 students (population). The sample was selected in a probabilistic (stratified) fashion and corresponded to 10.3 % (95 % confidence interval [CI]).

Inclusion and exclusion criteria

The study included children and adolescents whose parents and/or legal guardians signed the informed consent and who attended school on the assessment day. Parents and legal guardians had been informed, in advance, of the procedure to assess their children's MC. Children and adolescents with a physical disability that prevented them from performing motor tests

and those who did not complete two assessments were excluded.

The board of each school authorized the study conduct. The study was carried out in accordance with the Declaration of Helsinki for human subjects and the recommendations of the local Ethics Committee (UNSA-2017-15).

Procedures and techniques

Anthropometric measurements and MC tests were carried out in the school facilities during school hours (8:00 am-12:30 pm) Mondays through Fridays between April and July 2017. Anthropometric measurements were done first, followed by MC tests.

Anthropometric measurements were assessed in accordance with Ross & Marfell-Jones' recommendations.¹³ Body weight (kg) was measured using an electronic scale (Tanita, United Kingdom) with a 100 g precision and a range from 0 to 150 kg. Standing height was measured using a portable stadiometer (Seca GmbH & Co. KG, Hamburg, Germany), with a 0.1 mm precision. Waist circumference (WC) was measured using a Seca metal tape measure graduated in millimeters with a 0.1 cm precision. The following formulas were used to estimate body mass index (BMI): $BMI = \text{weight (kg)} / \text{height}^2 \text{ (m)}$, and the ponderal index (PI): $PI = \text{weight (kg)} / \text{height}^3 \text{ (m)}$.

MC tests (MS and JS) were assessed upon a 10-minute warm-up. An investigator performed all assessments, supported by two assistants. Assessments were carried twice by the same evaluator seven days apart (intra-evaluator).

Both MC tests were part of the KTK test battery,¹² which included MC components, such as balance, rhythm, strength, laterality, speed, and agility.¹⁴ The MS test allowed to assess participants' laterality and space-time structure. The child stood on a wooden platform (25 cm x 25 cm x 1.5 cm, with 4 legs 3.7 cm high) while holding a second platform in their hands, facing the floor. At the start signal, the child had to place the second platform next to the one where they were standing on and move on to it; the sequence continued over 20 seconds. The number of relocations was recorded (as repetitions).

The JS test consisted in jumping on both feet as fast as possible from side to side over a small beam (60 cm, 4.0 cm x 2.0 cm) over 15 seconds. The number of jumps was recorded (as repetitions). Time was controlled using a Casio stopwatch (HS-70W-8EF).

Results were reported to parents. Extreme cases of low motor performance and high body weight levels were referred to specialists for potential treatment.

Statistics

Data normality was verified using the Kolmogorov-Smirnov (KS) goodness-of-fit test. Descriptive statistics (average, standard deviation, and percentage) were estimated. The comparison between sexes was obtained using the t test for independent samples. The three categories of the motor tests were compared using an analysis of variance (ANOVA) and Tukey’s specificity test. The absolute technical error of measurement (TEM) for test and re-test ($TEM = \sqrt{\sum d^2 / 2n}$) was estimated as suggested by Norton and Olds.¹⁵ For an easier interpretation of absolute TEM values, the relative TEM (%TEM) was estimated as $(TEM / Mv) \times 100$, where Mv was the overall mean between the test and re-test. %TEM values below 5 % were considered acceptable.¹⁶ The intraclass correlation coefficient (ICC) and Bland-Altman plots¹⁷ were also used

to assess the agreement between the test and re-test for JS and MS. Estimations were done using the SPSS 18.0 software. A *p* value < 0.05 was considered as significant.

Age and sex percentiles were developed for the MS and JS tests. The Least-Mean-Square algorithm (LMS) was applied.¹⁸ The L, M, and S curves accounted for asymmetry (lambda), median (mu), and coefficient of variation (sigma). The L, M, and S parameters were estimated based on the maximum penalty.¹⁹ The following percentiles were calculated: p5, p15, p50, p85, and p95. Data were processed using the LMS Chartmaker software (The Institute of Child Health, London, United Kingdom).²⁰

RESULTS

A total of 1882 school children and adolescents (885 boys and 897 girls) were assessed. The characteristics of the studied sample and normality values for the outcome measures by age and sex are shown in Table 1. Anthropometric and motor outcome measures showed a normal distribution in both males and females and across

TABLE 1. Anthropometric, motor, and education characteristics of the study sample by sex

N	Weight			Height (cm)			WC (cm)			Moving sideways (repetitions)			Jumping sideways (repetitions)			BMI (kg/m ²)			PI (kg/m ³)			
	X	SD	K-S	X	SD	K-S	X	SD	K-S	X	SD	K-S	X	SD	K-S	X	SD	K-S	X	SD	K-S	
Boys																						
6	56	25.5	6.0	0.189	124.8	5.2	0.116	63.5	8.6	0.168	18.6	4.1	0.120	29.3	9.4	0.099	16.3	2.9	0.163	12.8	2.1	0.171
7	77	31.8	8.5	0.169	134.9	8.7	0.163	67.6	10.2	0.135	21.6	4.7	0.109	33.3	12.5	0.129	17.3	3.3	0.118	12.9	2.3	0.168
8	70	35.4	10.0	0.130	136.9	5.8	0.123	71.5	12.8	0.099	22.3	4.6	0.139	33.3	11.1	0.086	18.9	4.1	0.116	13.0	2.7	0.105
9	80	40.1	9.9	0.110	146.0	8.1	0.056	71.8	11.8	0.096	22.0	5.0	0.155	37.8	10.0	0.150	19.4	3.7	0.128	13.0	2.5	0.077
10	61	42.6	14.8	0.150	146.2	9.1	0.132	72.1	11.7	0.075	22.8	5.6	0.126	37.6	9.9	0.122	19.6	4.7	0.126	13.0	2.9	0.148
11	85	43.5	8.9	0.094	147.1	7.6	0.075	74.0	9.1	0.124	18.0	6.3	0.196	36.3	11.3	0.113	19.8	3.5	0.067	13.1	2.4	0.068
12	86	46.3	10.9	0.086	152.2	7.2	0.059	74.2	9.8	0.120	15.2	5.4	0.212	35.7	11.7	0.146	20.2	3.7	0.112	13.1	2.2	0.129
13	92	51.7	11.2	0.105	158.2	6.9	0.086	75.8	10.9	0.093	15.0	7.8	0.207	35.1	12.6	0.099	20.6	3.8	0.087	13.4	2.4	0.092
14	95	58.4	12.1	0.095	164.3	7.0	0.064	77.1	8.6	0.113	15.2	6.7	0.237	37.3	13.5	0.102	21.4	3.6	0.115	13.4	2.1	0.099
15	89	59.0	9.0	0.071	165.9	5.5	0.058	78.3	7.7	0.090	14.8	7.5	0.222	37.9	15.1	0.106	21.5	2.8	0.083	13.8	1.7	0.089
16	94	62.4	12.1	0.118	166.9	6.2	0.082	80.2	10.4	0.114	14.8	6.7	0.163	40.0	15.5	0.112	22.4	4.0	0.139	13.9	2.4	0.133
Girls																						
6	57	23.6	4.9	0.157	120.9	5.4	0.114	58.8*	8.8	0.114	18.2	4.5	0.140	30.5	10.0	0.128	15.6	3.0	0.170	12.6	2.5	0.172
7	81	32.5	9.1	0.125	134.8	7.8	0.064	66.0	9.6	0.086	21.5	3.3	0.091	33.5	10.4	0.173	17.6	3.5	0.118	12.7	2.3	0.097
8	80	35.0	9.0	0.086	139.9	8.2	0.086	67.9*	18.8	0.203	22.7	5.3	0.162	35.0	12.3	0.067	17.7	3.6	0.095	13.0	2.4	0.089
9	85	37.7	9.3	0.133	143.9	8.1	0.107	68.2*	9.7	0.108	22.7	4.5	0.118	40.1	11.0	0.142	18.1	3.5	0.120	13.0	2.3	0.120
10	74	41.8	9.1	0.091	146.8	7.1	0.119	70.2	12.0	0.088	22.9	7.3	0.113	41.3	13.2	0.135	19.2	3.4	0.123	13.1	2.3	0.128
11	82	42.9	9.1	0.122	147.2	6.5	0.065	71.5*	8.9	0.092	17.5	6.9	0.205	35.0	14.2	0.127	19.8	3.4	0.098	13.4	2.3	0.084
12	91	48.9	11.8	0.129	151.6	6.4	0.109	72.2	8.6	0.065	13.7	6.6	0.279	31.3*	14.3	0.207	21.2	4.4	0.109	13.7	2.8	0.131
13	82	51.4*	9.6	0.105	154.4*	5.2	0.077	73.3	7.4	0.099	13.5	5.3	0.178	33.5*	12.6	0.141	21.5	3.6	0.071	13.9	2.3	0.081
14	83	53.1*	9.8	0.115	156.3*	5.8	0.121	74.5*	7.8	0.072	14.7	9.0	0.242	29.2*	12.9	0.139	21.5	3.7	0.098	14.0	2.4	0.077
15	82	54.0*	8.3	0.108	157.0*	5.5	0.068	75.1*	6.9	0.074	14.4	6.3	0.211	30.1*	11.5	0.088	22.1	3.1	0.097	14.1	2.1	0.115
16	100	55.5*	8.0	0.111	158.2*	4.6	0.138	75.4*	7.9	0.085	14.8	7.4	0.189	29.1*	14.0	0.075	22.2	3.1	0.072	14.1	2.1	0.061

X: average; SD: standard deviation; MC: motor competence; BMI: body mass index; PI: ponderal index; WC: waist circumference (*: significant difference in relation to boys, *p* < 0.05); K-S: Kolmogorov-Smirnov.

all age groups. In relation to body weight and height, girls had lower values from 13 to 16 years compared to boys ($p < 0.05$); across the other age groups, there were no significant differences. In relation to WC, boys showed higher values than girls at 6, 8, 9, 11, 14, 15, and 16 years ($p < 0.05$), whereas no differences were observed at 7, 10, 12, and 13 years ($p > 0.05$). No significant differences were observed between males and females in terms of BMI, PI, and MS ($p > 0.05$). In relation to the JS test, boys had higher values from 12 to 16 years compared to girls ($p < 0.05$). No significant differences were observed in the initial age groups, from 6 to 11 years ($p > 0.05$).

Reproducibility values described as %TEM are shown in Table 2. In the MS test, the %TEM ranged between 1.75 % and 3.38 % among boys and between 1.85 % and 3.64 % among girls. The correlations ranged between 0.77 and 0.98, respectively. In the JS test, the %TEM for boys ranged between 2.94 % and 3.97 % and for girls, between 2.90 % and 3.99 %. The ICC for boys ranged between 0.88 and 0.98, whereas for girls it was slightly higher (between 0.91 and 0.99).

In addition, the agreement established using the Bland-Altman plot (see Figure 1) showed that the difference in averages between the test and re-test for MS among boys was 1.02 ± 2.39 repetitions, and limits ranged between -5.7 and 3.7 repetitions. In the case of girls, the difference in averages was 0.78 ± 2.54 repetitions, and limits ranged between -5.8 and 4.2 repetitions. For the JS test, boys showed an average of 0.34 ± 3.57 repetitions, with a range between -7.3 and 6.7 repetitions. However, girls showed a difference

in averages that was slightly higher (0.48 ± 3.54 repetitions), with limits that ranged between -5.8 and 4.2 repetitions. In all cases, values were acceptable.

The percentile distribution (p5, p15, p50, p85, p95) for both tests based on age and sex is shown in Table 3. The percentile distribution for both MC tests (MS and JS) by age and sex is observed in Figure 2.

The comparisons of body fat indicators (BMI, PI, and WC) based on MC categories are shown in Table 4. The MS showed significant differences between the three categories (low, medium, and high), both in relation to BMI and PI ($p < 0.05$), whereas no differences were observed in WC between the medium and high categories; this was not the case of the low category ($p < 0.05$).

No differences between the medium and high categories were observed in the JS test in terms of BMI, PI, and WC ($p > 0.059$). However, these two categories showed significant differences with those classified as low in the three body fat indicators ($p < 0.05$).

DISCUSSION

Results have evidenced adequate reproducibility values, as expressed by the TEM and the ICC. These findings are similar to those of the original study in German children for the raw score¹² and in Portuguese children with the same tests.²¹ Even for both tests; the %TEM of this study was lower than 3.9 % and showed a high level of agreement between both assessments.

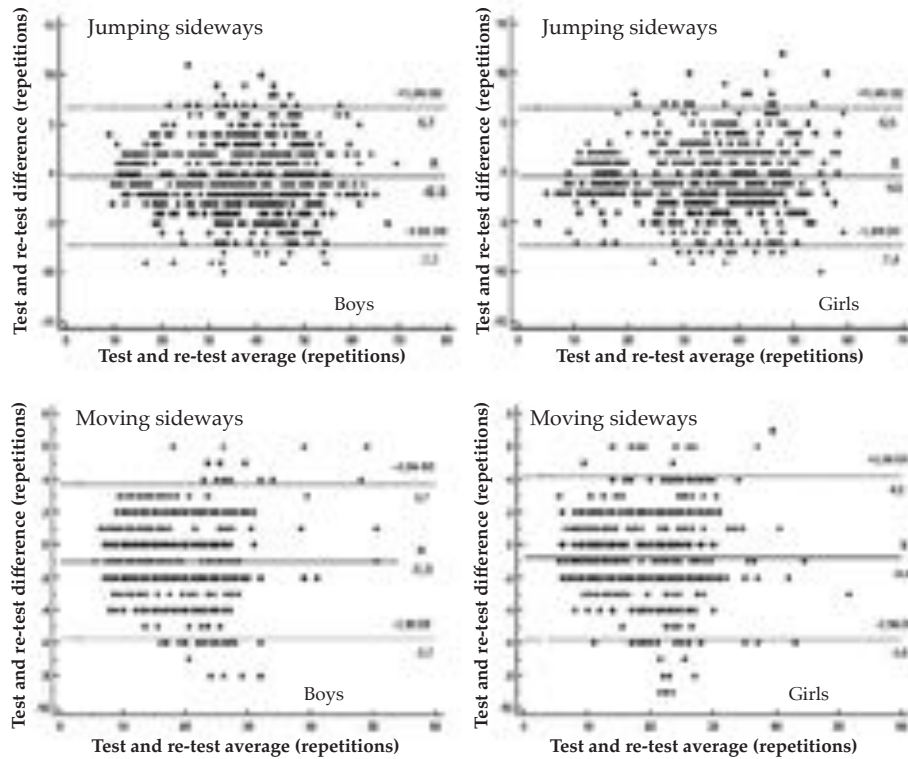
Test and re-test reproducibility with a 7-day interval provided reliable estimations for both

TABLE 2. Test and re-test reproducibility values, described as technical error of measurement (%) and motor competence test correlation by age and sex

Age (años)	Moving sideways (repetitions)						Jumping sideways (repetitions)					
	Boys			Girls			Boys			Girls		
	TEM (%)	ICC	p	TEM (%)	ICC	p	TEM (%)	ICC	p	TEM (%)	ICC	p
6.0-6.9	2.16	0.90	0.0036	2.92	0.85	0.0047	3.57	0.90	0.0037	3.99	0.92	0.0035
7.0-7.9	3.38	0.77	0.0054	2.74	0.80	0.0046	3.92	0.95	0.0014	3.57	0.95	0.0014
8.0-8.9	3.17	0.80	0.0051	3.27	0.83	0.0039	3.90	0.94	0.0020	3.96	0.96	0.0013
9.0-9.9	2.91	0.87	0.0030	3.28	0.77	0.0049	3.97	0.88	0.0045	3.68	0.91	0.0030
10.0-10.9	2.90	0.90	0.0035	3.64	0.87	0.0036	3.80	0.93	0.0027	3.98	0.97	0.0010
11.0-11.9	2.75	0.93	0.0016	3.13	0.94	0.0014	3.84	0.94	0.0016	3.84	0.96	0.0010
12.0-12.9	2.12	0.95	0.0013	2.05	0.95	0.0010	3.27	0.97	0.0012	3.05	0.99	0.0004
13.0-13.9	1.75	0.98	0.0005	1.85	0.94	0.0017	3.06	0.98	0.0006	3.27	0.96	0.0013
14.0-14.9	2.14	0.96	0.0009	1.90	0.98	0.0006	3.62	0.97	0.0008	3.80	0.98	0.0009
15.0-15.9	2.12	0.96	0.0010	2.02	0.98	0.0007	2.95	0.98	0.0005	2.90	0.97	0.0008
16.0-16.9	2.53	0.96	0.0012	2.02	0.97	0.0008	2.94	0.98	0.0004	3.83	0.94	0.0047
Total	2.60	0.94	0.0001	2.66	0.94	0.0001	3.58	0.96	0.0001	3.59	0.962	0.0001

TEM (%): relative technical error of measurement; r: Pearson; p: significance; ICC: intraclass correlation coefficient.

FIGURE 1. Agreement between test and re-test values of motor competence tests using a Bland-Altman plot for both males and females



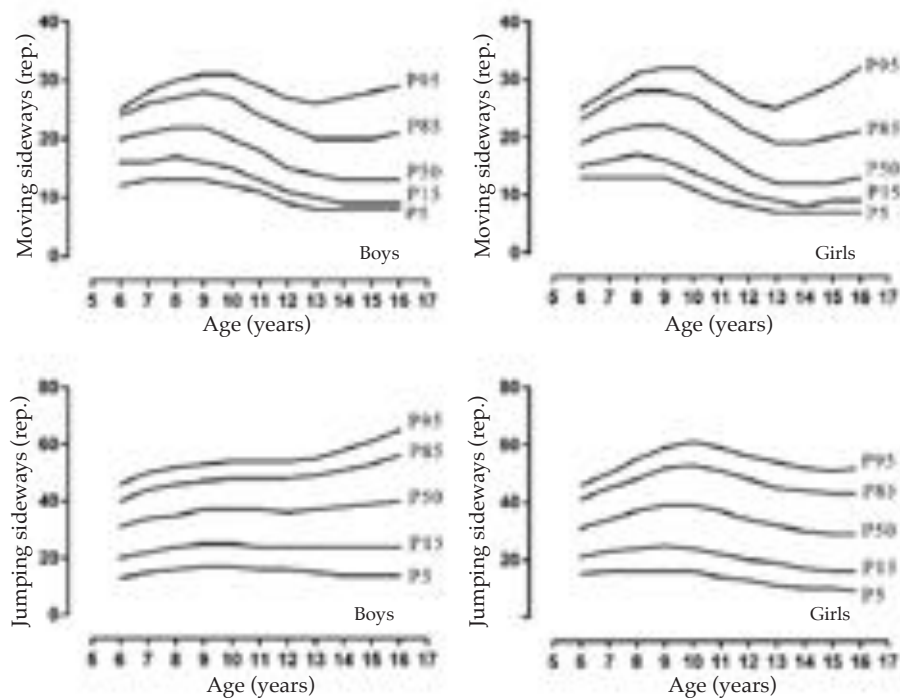
The dotted line (---) indicates the 95% limits of agreement as determined by the average difference (test and re-test) ± 1.96 times the standard deviation of the differences; Y = 0 indicates the optimal agreement line.

TABLE 3. Percentiles for the moving sideways and jumping sideways tests among children by age and sex

Age (years)	Moving sideways (repetitions)								Jumping sideways (repetitions)							
	L	M	S	P5	P15	P50	P85	P95	L	M	S	P5	P15	P50	P85	P95
Boys																
6.0-6.9	1.86	19.84	0.19	12	16	20	24	25	1.29	30.71	0.32	13	20	31	40	46
7.0-7.9	1.52	21.35	0.21	13	16	21	26	28	1.32	33.56	0.31	15	22	34	44	50
8.0-8.9	1.18	22.03	0.23	13	17	22	27	30	1.34	35.44	0.30	16	24	35	46	52
9.0-9.9	0.81	21.65	0.26	13	16	22	28	31	1.35	36.60	0.30	17	25	37	47	53
10.0-10.9	0.43	20.09	0.28	12	15	20	27	31	1.36	36.90	0.30	17	25	37	48	54
11.0-11.9	0.08	17.53	0.31	11	13	18	24	29	1.34	36.63	0.30	16	24	37	48	54
12.0-12.9	-0.22	15.07	0.33	9	11	15	22	27	1.30	36.34	0.31	16	24	36	48	54
13.0-13.9	-0.41	13.57	0.35	8	10	14	20	26	1.25	36.60	0.33	15	24	37	49	55
14.0-14.9	-0.51	13.09	0.37	8	9	13	20	27	1.20	37.56	0.35	14	24	38	51	58
15.0-15.9	-0.54	13.02	0.38	8	9	13	20	28	1.17	38.86	0.36	14	24	39	53	61
16.0-16.9	-0.54	13.16	0.39	8	9	13	21	29	1.14	40.31	0.38	14	24	40	56	65
Girls																
6.0-6.9	1.53	19.42	0.19	13	15	19	23	25	1.22	31.30	0.29	15	21	31	41	46
7.0-7.9	1.26	21.07	0.21	13	16	21	26	28	1.21	34.01	0.31	16	23	34	45	50
8.0-8.9	0.98	22.07	0.24	13	17	22	28	31	1.18	36.67	0.32	16	24	37	48	55
9.0-9.9	0.69	21.75	0.28	13	16	22	28	32	1.14	38.62	0.33	16	25	39	52	59
10.0-10.9	0.38	19.87	0.31	11	14	20	27	32	1.09	38.64	0.35	16	24	39	53	61
11.0-11.9	0.07	16.75	0.34	9	12	17	24	29	1.02	36.50	0.37	14	22	37	51	59
12.0-12.9	-0.20	13.86	0.36	8	10	14	21	26	0.95	33.79	0.39	13	20	34	48	56
13.0-13.9	-0.40	12.33	0.38	7	9	12	19	25	0.88	31.62	0.41	11	19	32	45	54
14.0-14.9	-0.54	11.96	0.39	7	8	12	19	27	0.84	29.97	0.43	10	17	30	44	52
15.0-15.9	-0.64	12.33	0.40	7	9	12	20	29	0.83	29.08	0.44	10	16	29	43	51
16.0-16.9	-0.71	12.79	0.41	7	9	13	21	32	0.84	28.67	0.46	9	16	29	43	52

P: percentile; M: median; S: coefficient of variation; L: Box-Cox power transformation.

FIGURE 2. Selected percentiles of motor competence test scores for children in Arequipa, Peru, by age and sex



Rep.: repetitions.

TABLE 4. Average ± standard deviation values of body fat indicators, classified into low, normal, and high level of motor competence for both males and females

Tests/categories	n	BMI (kg/m ²)		PI (kg/m ³)		WC (cm)	
		X	SD	X	SD	X	SD
Moving sideways							
Boys							
Low (< p15)	143	21.3	4.5	14	2.7	76.6	12.2
Medium (p15-p85)	612	19.9	3.9 ^a	13.2	2.3 ^a	73.7	10.3 ^a
High (> p85)	130	18.9	3.3 ^{ab}	12.6	1.9 ^{ab}	72.3	9.4 ^a
Total	885	20	4.0	13.2	2.3	74.0	10.5
Girls							
Low (< p15)	139	21.3	4.3	14.5	2.6	73.5	10.9
Medium (p15-p85)	628	19.9	4.1 ^a	13.4	2.4 ^a	70.8	10.8 ^a
High (> p85)	130	18.3	3.0 ^{ab}	12.4	1.8 ^{ab}	69.1	8.2 ^a
Total	897	19.9	4.0	13.5	2.4	71.0	10.5
Jumping sideways							
Boys							
Low (< p15)	172	21.8	4.7	14.2	2.8	78.0	12.5
Medium (p15-p85)	565	19.6	3.7 ^a	13	2.2 ^a	73.2	10.1 ^a
High (> p85)	148	19.1	3.6 ^a	12.7	2.1 ^a	71.7	8.9 ^a
Total	885	20.0	4.0	13.2	2.4	73.9	10.6
Girls							
Low (< p15)	195	22.0	4.9	14.9	3.0	75.7	13.8
Medium (p15-p85)	562	19.1	3.6 ^a	13.0	2.0 ^a	69.6	9.1 ^a
High (> p85)	140	19.7	3.4 ^a	13.3	2.0 ^a	69.5	9.6 ^a
Total	897	19.8	4.0	13.5	2.4	70.9	10.6

X: average; SD: standard deviation; BMI: body mass index; PI: ponderal index; WC: waist circumference;

a: significant difference (p < 0.05) in relation to the low category;

b: significant difference (p < 0.05) in relation to the medium category.

motor tests. Such interval of time between both assessments has been widely recommended in the literature²² to warrant an adequate result interpretation.²³

Basically, both the MS and the JS tests are highly reliable for routine use in the school education system because they have evidenced reasonable agreement limits. Their implementation and use during growth and development²⁴ may be relevant, because other MC assessment protocols generally include complex criteria, often require sophisticated instruments, and measurement is time-consuming.

Therefore, based on our results, it is believed that the age and sex percentiles estimated for the MS and JS tests may be used in a generalized manner in school children and adolescents whose characteristics are similar to those in this study. This information is necessary for an adequate assessment of obtained values; the scores obtained in one schoolchild may be compared to those of the general population to establish their relative position.

The proposed percentiles may help to establish performance thresholds between children and adolescents identifying MC levels as low, medium, and high. These cut-off points are based on the original study proposed by Kiphard, Schilling²⁵ (< p15, p15-p85, and > p85).

Actually, after comparing the mentioned categories, results indicate that children classified as having a poor MC had a higher BMI, PI, and WC than their peers with a better or higher MC level. These findings are consistent with those of other studies.²⁹

Therefore, a low MC level and/or poor motor skills in children may be the result of multiple factors, such as not having received adequate motor skill training and/or not practicing them enough.²⁶ In addition, a lack of interest and the conditions of the setting where they grow may limit their performance. As a result, this may have adverse effects on daily life activities, including leisure and sports,²⁷ and reflect a low level of motivation to take part in physical activity programs.²⁸

On the contrary, children with a better motor coordination tend to have a better physical fitness and be more active²⁹⁻³¹ because such behavior has an impact on their ability to participate in physical activity programs and encourages a positive health promotion for life.¹ The gap in performance levels among children may be even higher because those with a better performance

may apparently achieve a better MC level and take part in more demanding physical activities,³² although such aspects may depend on motivation and the sociocultural setting where children and adolescents live.

As a consequence, the percentiles proposed in this study may be used in health, sports, and PE programs in Arequipa (Peru) since they provide relevant information to identify subjects with varied motor performance levels and even help with sport talent scouting.³³

This study poses certain limitations because it was not possible to assess physical activity and physical fitness patterns which would have provided relevant information for result analysis. In addition, only the intra-evaluator TEM was assessed, so findings should be analyzed with caution.

Notwithstanding the preceding, it is worth noting that this study is one of the first ones with such a large sample and broad age range. It may be used as the baseline for future comparisons. In addition, estimations may be done in the following link: http://www.reidebihu.net/comp_mot-pe.php.

To conclude, the MS and JS tests demonstrated a high capacity for reproducibility and the proposed percentiles may allow to group children and adolescents based on their motor performance profiles and to adapt and use them in PE programs. ■

REFERENCES

1. Hulteen RM, Morgan PJ, Barnett LM, Stodden DF, et al. Development of foundational movement skills: A conceptual model for physical activity across the lifespan. *Sports Med.* 2018; 48(7):1533-40.
2. Lima RA, Bugge A, Ersbøll AK, Stodden DF, et al. The longitudinal relationship between motor competence and measures of fatness and fitness from childhood into adolescence. *J Pediatr (Rio J).* 2019; 95(4):482-8.
3. Henderson SE, Sugden D, Psychological Corporation. Movement assessment battery for children. Sidcup: Psychological Corp; 1992.
4. Hands B, Rose E, Chivers P, McIntyre F, et al. The relationships between motor competence, physical activity, fitness and self-concept in children and adolescents with DCD. *Curr Dev Disord Rep.* 2020; 7:35-42.
5. Stodden DF, Goodway JD, Langendorfer SJ, Robertson MA, et al. A developmental perspective on the role of motor skill competence in physical activity: An emergent relationship. *Quest.* 2008; 60(2):290-306.
6. Cardon GM, De Bourdeaudhuij IMM. Physical education and physical activity in elementary schools in Flanders. *Eur J Phys Educ.* 2002; 7:5-18.
7. Hands B, Larkin D, Parker H, Straker L, et al. The relationship among physical activity, motor competence and health-related fitness in 14-year-old adolescents. *Scand J Med Sci Sports.* 2009; 19(5):655-63.

8. Stodden D, Langendorfer S, Robertson MA. The association between motor skill competence and physical fitness in young adults. *Res Q Exerc Sport*. 2009; 80(2):223-9.
9. Lopes VP, Stodden DF, Bianchi MM, Maia JA, et al. Correlation between BMI and motor coordination in children. *J Sci Med Sport*. 2012; 15(1):38-43.
10. Stodden DF, Gao Z, Goodway JD, Langendorfer SJ. Dynamic relationships between motor skill competence and health-related fitness in youth. *Pediatr Exerc Sci*. 2014; 26(3):231-41.
11. Tidén A, Lundqvist C, Nyberg M. Development and initial validation of the NyTid test: A movement assessment tool for compulsory school pupils. *Meas Phys Educ Exerc Sci*. 2015; 19(1):34-43.
12. Kiphard EJ, Schilling F. *Körper-koordinations-test für kinder*. Ktk. Weihen: Beltz Test GmbH; 1974.
13. Ross WD, Marfell-Jones MJ. Kinanthropometry. In: MacDougall JD, Wenger HA, Geen HJ (eds.). *Physiological testing of elite athlete*. London: Human Kinetics. 1991; 223:308-14.
14. Scordella A, Di Sano S, Aureli T, Cerratti P, et al. The role of general dynamic coordination in the handwriting skills of children. *Front Psychol*. 2015; 6:580.
15. Norton K, Olds T (eds.). *Anthropometrica: a textbook of body measurement for sports and health courses*. Sydney: UNSW press; 1996.
16. Lohman TG. Dual energy X-ray absorptiometry. In: Roche AF, Heymsfield SB, Lohman TG (eds.). *Human Body Composition*. Champaign, IL: Human Kinetics; 1996. Pages 63-78.
17. Bland JM, Altman DG. Statistical methods for assessing agreement between two methods of clinical measurement. *Lancet*. 1986; 1(8476):307-10.
18. Cole TJ, Bellizzi MC, Flegal KM, Dietz WH. Establishing a standard definition for child overweight and obesity worldwide: international survey. *BMJ*. 2000; 320(7244):1240-3.
19. Cole TJ, Green PJ. Smoothing reference centile curves: the LMS method and penalized likelihood. *Stat Med*. 1992; 11(10):1305-19.
20. Pan H, Cole TJ. LMS Chartmaker. 2006. [Accessed on: March 28th, 2015]. Available at: <http://www.healthforallchildren.co.uk>.
21. Antunes AM, Maia JA, Stasinopoulos MD, Gouveia ÉR, et al. Gross motor coordination and weight status of Portuguese children aged 6–14 years. *Am J Hum Biol*. 2015; 27(5):681-9.
22. Lander N, Morgan PJ, Salmon J, Logan SW, et al. The reliability and validity of an authentic motor skill assessment tool for early adolescent girls in an Australian school setting. *J Sci Med Sport*. 2017; 20(6):590–4.
23. Palisano R, Rosenbaum P, Walter S, Russell D, et al. Development and reliability of a system to classify gross motor function in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol*. 1997; 39(4):214-23.
24. Hardy LL, Barnett L, Espinel P, Okely AD. Thirteen-year trends in child and adolescent fundamental movement skills: 1997-2010. *Med Sci Sports Exerc*. 2013; 45(10):1965-70.
25. Kiphard EJ, Schilling F. *Körperkoordinationstest für kinder*: KTK. Weinheim; Beltz-Test; 2007.
26. Goodway JD, Branta CF. Influence of a motor skill intervention on fundamental motor skill development of disadvantaged preschool children. *Res Q Exerc Sport*. 2003; 74(1):36-46.
27. Summers J, Larkin D, Dewey D. Activities of daily living in children with developmental coordination disorder: dressing, personal hygiene, and eating skills. *Hum Mov Sci*. 2008; 27(2):215-29.
28. Haga M. Physical fitness in children with high motor competence is different from that in children with low motor competence. *Phys Ther*. 2009; 89(10):1089-97.
29. Fransen J, Pion J, Vandendriessche J, Vandorpe B, et al. Differences in physical fitness and gross motor coordination in boys aged 6–12 years specializing in one versus sampling more than one sport. *J Sports Sci*. 2012; 30(4):379-86.
30. Cattuzzo MT, Henrique RDS, Ré AHN, De Oliveira IS, et al. Motor competence and health related physical fitness in youth: a systematic review. *J Sci Med Sport*. 2016; 19(2):123-9.
31. Jaakkola T, Yli-Piipari S, Huotari P, Watt A, et al. Fundamental movement skills and physical fitness as predictors of physical activity: A 6-year follow-up study. *Scand J Med Sci Sports*. 2016; 26(1):74-81.
32. Wall AT. The developmental skill-learning gap hypothesis: Implications for children with movement difficulties. *Adapt Phys Activ Q*. 2004; 21(3):197-218.
33. Hoeboer J, De Vries S, Krijger-Hombergen M, Wormhoudt R, et al. Validity of an Athletic Skills Track among 6-to 12-year-old children. *J Sports Sci*. 2016; 34(21):2095-105.

Influencia familiar sobre el exceso de peso infantil en la Región de Murcia, España

Family influence on childhood excess weight in the Region of Murcia, Spain

Lic. María I. Jiménez Candel^a, Cat. José Mondéjar Jiménez^b,
Dipl. Antonio J. Gómez Navarro^c y Dipl. Ana B. Monreal Tomás^c

Colaborador: Lic. Pedro J. Carpena Lucas^a

RESUMEN

Introducción. La obesidad infantil en España es preocupante y el entorno familiar puede influir en su desarrollo. Los objetivos fueron determinar la prevalencia de exceso de peso en adolescentes, evaluar variables familiares que pudieran condicionarla y determinar la percepción corporal de los padres.

Población y métodos. Estudio transversal; se incluyeron alumnos de cinco centros de secundaria del Área V de Murcia. Se registró antropometría de los alumnos y se administró una encuesta a los padres con variables de peso, talla, ejercicio, estudios, tipo de familia y percepción corporal. Se realizó el análisis mediante tablas de contingencia y asociación con *d* de Somers.

Resultados. Participaron 421 alumnos (edad: $12,8 \pm 0,6$ años); el 21,1 % tenían sobrepeso, y el 19,5 %, obesidad. Existió asociación entre padres e hijos con sobrecarga ponderal (*d* de Somers con $p < 0,05$). Si ambos padres eran sedentarios, sus hijos realizaban menos ejercicio. A mayor nivel de estudios parental, menor tasa de sobrepeso infantil ($p < 0,05$). El sobrepeso-obesidad en los hijos fue mayor en familias separadas o monoparentales. El 32 % de los padres no percibía el exceso de peso de sus hijos ni el 53 % en sí mismos.

Conclusiones. La prevalencia de exceso de peso en esta muestra fue del 40,6 %. El estado nutricional de los padres, el nivel de estudios y el tipo de familia se asociaron con la obesidad infantil. Influyó en mayor medida la figura materna. Existió una infraconsideración de la obesidad por parte de los padres.

Palabras clave: adolescente, sobrepeso, estilo de vida, ejercicio físico, familia.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.99>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.99>

- Hospital Virgen del Castillo, Murcia, España.
- Universidad de Castilla-La Mancha, Facultad de Ciencias Sociales de Cuenca, España.
- Servicio de Pediatría, Hospital Virgen del Castillo, Murcia, España.

Correspondencia:

Lic. María I.
Jiménez Candel:
mjimenezcandel@gmail.com

Financiamiento:

Ninguno.

Conflicto de intereses:

Ninguno que declarar.

Recibido: 12-6-2020

Aceptado: 4-11-2020

INTRODUCCIÓN

En nuestro país, las cifras de sobrepeso y obesidad infantil (OI) suponen hasta un 20 % y más de un 10 %, respectivamente, y están a la cabeza de los países europeos.^{1,2} Dada su magnitud, el abordaje de la OI y el sedentarismo en países desarrollados es un problema prioritario para la salud pública.^{1,3} Las estrategias de prevención van dirigidas, principalmente, a disminuir la morbimortalidad en la edad adulta, aumentar la calidad de vida y disminuir el gasto sanitario. Las comorbilidades asociadas en la actualidad predicen, en Europa, un gasto sanitario de unos 10 billones de euros anuales.⁴

Asimismo, la infancia y la adolescencia son las etapas más vulnerables para el aumento de peso, por lo que son decisivas en el desarrollo humano.⁵ Un adolescente obeso tiene hasta cinco veces más riesgo de ser un adulto obeso³ y la persistencia de la obesidad en estas generaciones podría implicar una menor esperanza de vida que la de sus padres.⁶ Estos períodos implican múltiples cambios fisiológicos, psicológicos y conductuales, lo que condiciona, a su vez, el desarrollo de hábitos saludables.⁷ Una correcta base nutricional en la infancia puede prevenir enfermedades cardiovasculares, problemas ortopédicos, respiratorios, metabólicos, inflamatorios e incluso algunos tipos de cáncer.⁸

La obesidad es un problema multifactorial en el que intervienen

Cómo citar: Jiménez Candel MI, Mondéjar Jiménez J, Gómez Navarro AJ, Monreal Tomás AB. Influencia familiar sobre el exceso de peso infantil en la Región de Murcia, España. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):99-105.

determinantes genéticos, metabólicos, psicosociales, familiares y ambientales.⁹ Estos últimos cobran cada vez mayor importancia dado que han sido, en parte, responsables del aumento exponencial de la OI. Se trata de cambios dietéticos cada vez más alejados de la dieta mediterránea, baja actividad física (AF), aumento de horas de pantalla o menor tiempo de sueño.

El núcleo familiar condiciona, desde etapas tempranas, la adquisición de hábitos que van a influir directamente en la salud.^{10,11} De ahí la importancia de determinar la percepción e implicación que los padres tienen en el estado nutricional y los hábitos de sus hijos para evitar un ambiente familiar obesogénico. La existencia de obesidad en uno de los padres duplica el riesgo de que esta se presente en sus hijos y, en más de la mitad de los niños con obesidad, uno de sus progenitores es obeso.¹² Además, los padres no suelen reconocer dicho problema y, según estudios nacionales, hasta el 42,3 % tiene una percepción equivocada del peso de sus hijos,¹³ lo que conlleva una mayor probabilidad de obesidad en sus descendientes y la falta de implicación en resolver el problema. Otras investigaciones muestran que más de un tercio de los padres no se informa sobre hábitos de alimentación o lo hace inadecuadamente.^{13,14}

Dado el problema y la probable influencia familiar con el exceso de peso en los hijos, el objetivo principal fue determinar la prevalencia de sobrepeso y obesidad en una muestra de adolescentes y evaluar las variables familiares que pudieran condicionarlo. El objetivo secundario fue establecer la percepción de los padres respecto a su propio peso y al de sus hijos.

POBLACIÓN Y MÉTODOS

Estudio observacional y transversal en el que se incluyeron alumnos de 1.º de educación secundaria de 12-14 años. Se propuso participar en el estudio a los siete centros del Área de Salud V de la Región de Murcia mediante una reunión con sus directores, de los cuales cuatro aceptaron colaborar (tres públicos y uno concertado) y dos rechazaron justificando falta de tiempo en el calendario académico. El otro centro restante, participó en otra parte del estudio. Teniendo en cuenta la población del área en ese rango de edad, se calculó un tamaño muestral mínimo de 350 niños para un error máximo del 4,92 % con una confianza del 95 %. Los participantes se seleccionaron respetando la proporcionalidad según los centros.

Se entregó a los padres información referente al estudio, los objetivos, el carácter voluntario, el anonimato y la confidencialidad según la Ley Orgánica de Protección de Datos (13/1999), una breve encuesta y un consentimiento informado para cumplimentar en el domicilio. En dicha encuesta, se recogía información referente a variables familiares, como peso y talla de los padres, práctica de ejercicio físico según las recomendaciones de la Organización Mundial de la Salud, nivel de estudios, tipo de núcleo familiar y percepción corporal. Los criterios de exclusión fueron tener una patología crónica grave, enfermedades endocrinológicas, trastorno de la conducta alimentaria o rechazo de los padres a participar. El estudio fue aprobado por el Comité Ético de Investigación Clínica del Hospital Universitario Virgen de la Arrixaca de Murcia.

El trabajo de campo se llevó a cabo durante los cursos escolares 2017-2018 y 2018-2019. Un equipo sanitario se desplazó hasta los centros para realizar la somatometría de los participantes con el asentimiento previo. Se llevó a cabo con los alumnos descalzos y con ropa ligera. Se utilizó una báscula Seca® homologada para medir el peso, y la estatura fue medida con la cabeza situada en el plano de Frankfurt perpendicular al cuerpo con un tallímetro homologado portátil de base fija. Todas las mediciones se realizaron dos veces por el mismo observador y se obtuvo la media. Una vez obtenidos los datos, se calculó el índice de masa corporal, y se clasificaron según la puntuación z en sobrepeso valores entre +1 desvío estándar (DE) y +2 DE, y obesidad, valores por encima de +2 DE de la Organización Mundial de la Salud.¹⁵

El análisis estadístico incluyó el análisis descriptivo y tablas de contingencia, y, dentro de las medidas de asociación para datos ordinales, se utilizó la d de Somers, basada en el número de concordancias y discordancias que aparecían en un conjunto de datos, teniendo en cuenta que las variables podían ser simétricas o dependientes. Se consideró significación una $p < 0,05$. Dicho análisis se llevó a cabo mediante el *Statistical Package for the Social Sciences*®.

RESULTADOS

De una muestra elegible de 567 participantes, se reclutaron un total de 421 alumnos, con una edad media de $12,8 \pm 0,62$ años, de los cuales un 52 % fueron mujeres. Se obtuvo una tasa de participación del 74,2 %. Se excluyeron 5 niños por patología crónica (síndrome de Turner, hipotiroidismo, síndrome tricorinofalángico,

diabetes tipo *Maturity Onset Diabetes of the Young –MODY–*, y un alumno con movilidad reducida) y 146 no participaron, ya que no dieron el consentimiento informado. El 82 % de las encuestas fueron contestadas por las madres (Tabla 1). De acuerdo con la somatometría, se dividió la muestra en dos grupos: normopeso (el 59,2 %) y exceso de peso (el 40,8 %). De este último, un 21,1 % tenían sobrepeso, y un 19,5 %, obesidad, con ligero predominio de varones en el primero y de mujeres en el segundo. Además, se reclutaron datos de somatometría del 90,4 % de los padres y del 97 % de las madres, de los que un 58 % presentaban exceso de peso. Se puede apreciar la distribución según grupo en la Figura 1.

TABLA 1. Características demográficas de los participantes

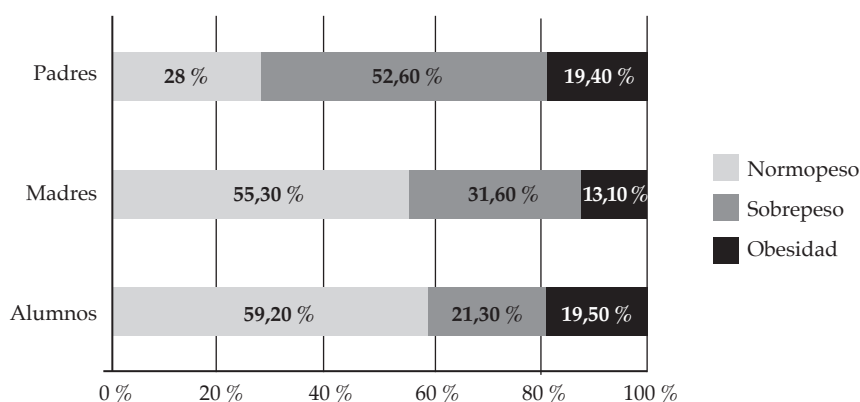
Alumnos n: 416. Padres n: 376. Madres n: 404.		
Sexo		
Femenino: 216 (52 %)	Masculino: 200 (48 %)	
Edad		
12 años: 279 (67 %)	13-14 años: 137 (33 %)	
Centro escolar		
Público: 395 (95 %)	Concertado: 21 (5 %)	
Persona que cumplimenta el cuestionario		
Madre: 341 (82 %)	Padre: 62 (14,9 %)	
Ambos: 4 (0,9 %)	Otro cuidador: 9 (2,2 %)	
Tipo de familia		
Biparental: 320 (76,9 %)	Monoparental: 25 (6 %)	
Separados: 60 (14,5 %)	Otros modelos: 11 (2,6 %)	
Nivel de estudios		
	Madres	Padres
Sin estudios:	14 (3,3 %)	20 (4,8 %)
E. primarios:	169 (40,6 %)	169 (40,6 %)
E. secundarios:	137 (33 %)	145 (35 %)
E. superiores:	95 (22,9 %)	66 (15,9 %)
Sin datos:	1 (0,2 %)	16 (3,8 %)

La primera variable estudiada mediante el análisis de Somers fue la influencia del exceso de peso de los progenitores en el estado ponderal de sus hijos. Se apreció como el 60,2 % de las madres y el 44,6 % de los padres con sobrecarga ponderal tenían hijos con sobrepeso u obesidad, lo que demostró una relación estadísticamente significativa (Tabla 2). En la Figura 2, se muestra que, a mayor número de miembros con sobrepeso-obesidad en una familia, mayor proporción de hijos con exceso de peso.

En cuanto a la influencia de la AF familiar sobre el estado nutricional de sus hijos, se observó un mayor porcentaje de exceso ponderal infantil en los núcleos en los que ambos padres eran sedentarios frente a las familias en las que ambos padres practicaban ejercicio con regularidad (el 47,8 % vs. el 34 %, respectivamente), aunque de forma no significativa en las estadísticas. Se apreció una cifra apenas inferior si era la figura materna la que practicaba ejercicio (Tabla 2). Asimismo, en los hogares en los que ambos progenitores practicaban ejercicio, las cifras de AF en sus hijos eran superiores a aquellas en las que solo uno o ninguno lo realizaba (Figura 3). Igualmente, existía mayor influencia en la realización de ejercicio en los hijos si era la madre la que lo practicaba (el 62,3 % vs. el 51 % para el padre). Otra de las variables estudiadas fue el estilo de vida activo familiar (caminar, andar en bicicleta, etc.) y, en ellos, también existía menor tasa de sobrepeso (el 38,8 %) frente a un 53,4 % en el resto de las familias.

La tercera variable estudiada fue el tipo de núcleo familiar. La mayoría de las familias eran biparentales (Tabla 1). El sobrepeso-obesidad en los hijos estuvo más presente en el grupo de

FIGURA 1. Relación del estado nutricional de los participantes y sus progenitores según el índice de masa corporal



familias con padres separados o monoparentales (Tabla 2). En cuanto al nivel de estudios de los progenitores, se observó que, a mayor nivel, menor tasa de exceso de peso en los hijos, ambos de forma significativa (Tabla 2).

Por último, en relación con la percepción que los padres tenían del peso de sus hijos, el 32 % no percibía el exceso de peso en estos y creía que sus hijos tenían una situación ponderal normal. Respecto a la autopercepción sobre su propio

peso, más de la mitad de aquellos con sobrepeso-obesidad (el 53,3 %) creían estar en normopeso, y era más infraconsiderado por los padres que por las madres (el 60,2 % y el 43 %). Hasta un 15,8 % de los progenitores obesos creía tener un peso normal.

DISCUSIÓN

En las últimas décadas, se ha producido un aumento exponencial de la prevalencia de OI

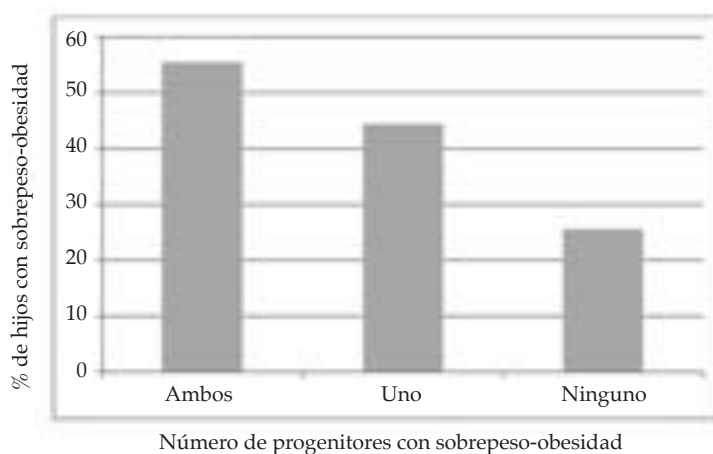
Tabla 2. Influencia de las variables familiares en el sobrepeso-obesidad de sus hijos

Alumnos n: 416. Padres n: 376. Madres n: 404.

Variable	Hijos con sobrepeso u obesidad	* Valor de p
Exceso de peso familiar		
Madre:	60,2 %	p < 0,001
Padre:	44,6 %	p = 0,030
Actividad física		
Madre:	39,6 %	p = 0,432
Padre:	42,8 %	p = 0,457
Nivel de estudios		
Madre		p = 0,010
Sin estudios:	51,7 %	
Primarios:	46,1 %	
Secundarios:	38,2 %	
Superiores:	32,6 %	
Padre		p = 0,050
Sin estudios:	35 %	
Primarios:	49 %	
Secundarios:	38 %	
Superiores:	32,6 %	
Tipo de familia		p = 0,045
Biparental:	38,2 %	
Separados:	50 %	
Monoparental:	52 %	
Otros:	45,4 %	

* D de Somers.

Figura 2. Relación de exceso de peso entre padres e hijos



en nuestro país.^{15,16} Las cifras detectadas son similares a las de estudios recientes, como el estudio ALADINO (el 23,2 % de obesidad y el 18,1 % de sobrepeso).¹⁷ A pesar de que se habla de estabilización en la incidencia de la OI en países desarrollados, en España y Portugal, la tendencia parece seguir en aumento.^{2,18} En el presente estudio, se obtuvieron cifras de obesidad superiores a estudios previos en Murcia, como el estudio de cuatro provincias en el año 2000,¹⁹ con un 14 %, o el de Espín et al., en 2013, con un 18 %.²⁰ Dado que existen múltiples variables ambientales intrínsecas a cada población, dependientes de la geografía, los recursos, el nivel socioeconómico, los hábitos y costumbres o el ambiente social y el acceso a las zonas de recreo, deberían realizarse estudios estandarizados, comparables y que utilizaran medidas objetivas de somatometría para poder realizar estrategias de prevención y tratamiento.

La mayoría de las investigaciones, hasta el momento, han relacionado el nivel económico y académico parental con el estado ponderal de los hijos, pero no hay que olvidar que el estado nutricional de los padres, sus hábitos, el tipo de núcleo familiar y la percepción corporal juegan un papel crucial. Por lo general, dichas variables son estudiadas de forma meramente demográfica, y se olvida la influencia que estas pueden llegar a tener en la salud.

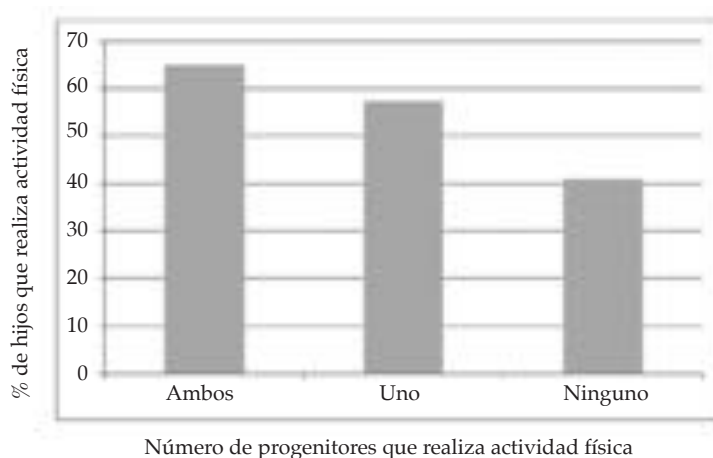
Se encontró una marcada asociación entre el peso de los padres y el de sus descendientes, y existía el doble de sobrepeso infantil en las familias en las que ambos padres lo presentaban, probablemente, derivado de una doble carga

genética y también el resultado de una exposición ambiental familiar común de mayor gravedad en la promoción del aumento de peso.²¹ Esta relación fue más acusada en el caso de la madre, posiblemente, condicionada por factores genéticos, prenatales y perinatales, como la obesidad durante el embarazo, ya descritos,^{5,11,22} pero que no fueron observados en este estudio. En la sociedad actual, la mayoría de las madres adquieren la figura de cuidador principal y, en consecuencia, intervienen con mayor fuerza en los hábitos de sus hijos.

En el presente estudio, la realización de ejercicio físico por los progenitores condicionó el de sus hijos e influyó en su estado ponderal, de forma más marcada cuando era la madre la que menor ejercicio practicaba, aunque no fue estadísticamente significativo. A pesar de que dicha asociación ha sido descrita en otros estudios nacionales,^{9,17,23} en nuestro caso, no lo ha sido, probablemente, por el tamaño o tipo de muestra. Así, los propios comportamientos, estilos de crianza y hábitos de vida que los progenitores inculcan a sus hijos deben ser tenidos en cuenta en el abordaje del exceso de peso infantil.^{11,24,25} De hecho, determinados patrones alimentarios, estilos de vida sedentarios y otros rasgos de comportamiento pueden transmitirse fácilmente de padres a hijos a través del proceso de socialización familiar.²¹

Debido a la globalización, los hábitos de alimentación han cambiado; las dietas basadas en comida rápida y ultraprocesada forman ya una nueva realidad.^{13,26} Tanto es así que, a pesar de las características que diferencian las regiones

FIGURA 3. Relación de la realización de actividad física entre padres e hijos



de España, los análisis muestran gran similitud entre todas las zonas, debido al deterioro que se ha producido en la llamada “dieta mediterránea” en los últimos años.²⁷ Este hecho es compartido por la mayoría del resto de los países de Europa o EE. UU.²⁸ La creación de un clima obesogénico promueve un aumento del consumo energético y una disminución de la AF, sin olvidar que los progenitores españoles realizan menos ejercicio en comparación con los de otros países europeos y que la mayoría de los niños obesos presentan una inadecuada condición física.¹¹

En este estudio, se encontró mayor tasa de obesidad en las familias monoparentales o con padres separados, posiblemente, por disponer de menor número de recursos y tiempo disponible para establecer prácticas saludables. Otros autores también han determinado cómo la disfunción de la dinámica familiar puede ser un factor de riesgo para la presencia de OI.^{29,30} Algunas investigaciones muestran mayor número de conflictos familiares en las familias con niños obesos. Estos favorecen un estrés adicional, además de fomentar ambientes poco saludables que contribuyen a una mala regulación energética en los niños. Asimismo, la disfunción familiar predice una peor adherencia al tratamiento, entendiendo la OI como una enfermedad crónica.³¹

El nivel de educación de los progenitores se asoció de modo significativo con el estado nutricional de sus hijos, probablemente, debido a que los padres más cualificados se informan más, son más conscientes del problema y realizan más AF.^{14,25,32} A la inversa, el nivel de estudios inferior o las clases sociales inferiores parecen ser factores de riesgo de OI.^{11,14,17} Todo ello es condicionado por factores como menor poder adquisitivo y mayores limitaciones para accesos a actividades deportivas o menor acceso a establecimientos de fruta y verdura.

Por último, se observa que existe una tendencia a infraconsiderar el sobrepeso-obesidad de forma general, tanto el propio como el de los hijos, ya que más de un tercio de los padres no reconoció el problema de peso en ellos. Cifras superiores en estudios como el ALADINO¹⁷ con un 50 %, un 55 % según Díez-Gañán³³ y hasta un 60 % en el estudio periódico de Salcedo et al.,³⁴ no percibían el exceso de peso de los hijos. La obesidad suele tener una forma de instauración lenta y progresiva; de ahí que la mayoría de veces no sea motivo de consulta. Además, en muchas ocasiones, se tiene la creencia de que un niño con

sobrepeso es sinónimo de un niño sano.³² Existe un problema de percepción o de tolerancia al exceso de peso en el que hay que tener en cuenta variables familiares y sociodemográficas para abordarlo.

A diferencia de otros estudios en los que solo se estudia la imagen corporal de los adolescentes, la novedad de este trabajo ha sido incluir, además, la autopercepción de los padres, que se confirma que también es errónea. A la luz de los resultados, se ve que existe una infraconsideración general del peso y que es preciso que los padres sean conscientes del problema para establecer medidas de prevención y tratamiento. Existe evidencia de que, al incluir a los padres en los programas para tratar la obesidad, se obtienen mejores resultados.⁵ Por todo esto, sería necesario plantear estudios longitudinales y multicéntricos para establecer los factores parentales que más condicionan la aparición y perpetuación del sobrepeso infantil.

Las limitaciones de este estudio fueron la reducción de la muestra a un área de salud concreta, así como la obtención de datos subjetivos de la somatometría de los padres con el posible sesgo de información. Una de las fortalezas del estudio fue la objetividad de la somatometría de los alumnos.

CONCLUSIONES

La prevalencia de exceso de peso en esta muestra fue del 40,6 %. Se detectó una asociación entre el estado nutricional de los padres, su nivel de estudios y el tipo de familia con la OI. A pesar de que la figura materna parece influir más en el estado ponderal de los hijos, la cifra de sobrepeso infantil fue el doble en las familias en las que ambos padres tenían exceso de peso. Existe un grave problema de percepción y de tolerancia al exceso de peso entre los progenitores. ■

REFERENCIAS

1. Nishida C, Uauy R, Kumanyika S, Shetty P. The joint WHO/FAO expert consultation on diet, nutrition and the prevention of chronic diseases: process, product and policy implications. *Public Health Nutr.* 2004; 7(1A):245-50.
2. Garrido-Miguel M, Caverro-Redondo I, Álvarez-Bueno C, Rodríguez-Artalejo F, et al. Prevalence and Trends of Overweight and Obesity in European Children from 1999 to 2016: A Systematic Review and Meta-analysis. *JAMA Pediatr.* 2019; 173(10):e192430.
3. Simmonds M, Llewellyn A, Owen CG, Woolacott N. Predicting adult obesity from childhood obesity: A systematic review and meta-analysis. *Obes Rev.* 2016; 17(2):95-107.
4. Müller-Riemenschneider F, Reinhold T, Berghöfer A, Willich SN. Health-economic burden of obesity in Europe. *Eur J Epidemiol.* 2008; 23(8):499-509.

5. Lurbe E, Redon P. Nuevos elementos en la obesidad infantil. *Endocrinol Diabetes Nutr.* 2019; 66(3):137-9.
6. Patrick H, Hennessy E, McSpadden K, Oh A. Parenting styles and practices in children's obesogenic behaviors: scientific gaps and future research directions. *Child Obes.* 2013; 9 (Suppl 1):S73-86.
7. González-Gross M, Castillo MJ, Moreno L, Nova E, et al. Alimentación y valoración del estado nutricional de los adolescentes españoles (Estudio AVENA). Evaluación de riesgos y propuesta de intervención. I. Descripción metodológica del proyecto. *Nutr Hosp.* 2003; 18(1):15-28.
8. Medrano MJ, Cerrato E, Boix R, Delgado-Rodríguez M. Factores de riesgo cardiovascular en la población española: metaanálisis de estudios transversales. *Med Clin (Barc).* 2005; 124(16):606-12.
9. Yáñez-Ortega JL, Arrieta-Cerdán E, Lozano-Alonso JE, Gil-Costa M, et al. Prevalencia de sobrepeso y obesidad infantil. Estudio de una cohorte en Castilla y León, España. *Endocrinol Diabetes Nutr.* 2019; 66(3):173-80.
10. Pérez-Ríos M, Santiago-Pérez MI, Leis R, Martínez A, et al. Exceso ponderal y obesidad abdominal en niños y adolescentes gallegos. *An Pediatr (Barc).* 2018; 89(5):302-8.
11. Miqueleiz E, Te Velde S, Regidor E, Van Lippevelde W, et al. Hábitos de vida y estilos de cuidado de los progenitores relacionados con la obesidad infantil. Comparación de una población española con poblaciones de países del Norte de Europa: ENERGY-Project. *Rev Esp Salud Pública.* 2015; 89(5):523-32.
12. Magge SN, Goodman E, Armstrong SC, Daniels S, et al. The metabolic syndrome in children and adolescents: Shifting the focus to cardiometabolic risk factor clustering. *Pediatrics.* 2017; 140(2):e20171603.
13. Coronel Rodríguez C, González Zorzano E, Hernández Hernández A, Escolar Jurado M, et al. Encuesta epidemiológica sobre la percepción y hábitos de salud de las familias españolas sobre nutrición infantil. *Pediatr Integral.* 2017; 21(3):221.e1-12.
14. González Jiménez E, Aguilar Cordero MJ, García García CJ, García López P, et al. Influencia del entorno familiar en el desarrollo del sobrepeso y la obesidad en una población de escolares de Granada (España). *Nutr Hosp.* 2012; 27(1):177-84.
15. De Onis M, Garza C, Onyango AW, Martorell R (eds.). WHO child growth standards. *Acta Paediatr.* 2006; 95(Suppl 450):5-101.
16. Toledano Marín, Aznar Lain S, Cortés Rico O, Ferreira Montero I, et al. 1.ª Conferencia de Prevención y Promoción de la Salud en la Práctica Clínica en España. Prevención de la obesidad infantil y juvenil. Madrid: Ministerio de Sanidad y Consumo; 2007. [Acceso: 4 de noviembre de 2020]. Disponible en: <https://www.mscols.gob.es/profesionales/saludPublica/prevPromocion/docs/PrevencionObesidad.pdf>.
17. Ortega Anta R, López-Sobalner A, Aparicio Vizuete A, González Rodríguez L, et al. Estudio ALADINO 2015: Estudio de Vigilancia del Crecimiento, Alimentación, Actividad Física, Desarrollo Infantil y Obesidad en España 2015. Madrid: Agencia Española de Consumo, Seguridad Alimentaria y Nutrición. Ministerio de Sanidad, Servicios Sociales e Igualdad; 2016. [Acceso: 25 de octubre de 2020]. Disponible en: https://www.aesan.gob.es/AECOSAN/docs/documentos/nutricion/observatorio/Estudio_ALADINO_2015.pdf.
18. Rokholm B, Baker JL, Sørensen TI. The levelling off of the obesity epidemic since the year 1999 - a review of evidence and perspectives. *Obes Rev.* 2010; 11(12):835-46.
19. Garcés C, Lasunción MA, Ortega H, López Cubero L, et al. Factores metabólicos en la población escolar asociados a mortalidad cardiovascular en los adultos. Estudio Cuatro Provincias. *Med Clin (Barc).* 2002; 118(20):767-70.
20. Espín Ríos MI, Pérez Flores D, Sánchez Ruíz JF, Salmerón Martínez D. Prevalencia de obesidad infantil en la Región de Murcia, valorando distintas referencias para el índice de masa corporal. *An Pediatr (Barc).* 2013; 78(6):374-81.
21. Wang Y, Min J, Khuri J, Li M. A Systematic Examination of the Association between Parental and Child Obesity across Countries. *Adv Nutr.* 2017; 8(3):436-48.
22. Mora-Urda AI, Espinoza A, López-Ejeda N, Acevedo Cantero P, et al. Indicadores de riesgo cardiovascular, patrones de lactancia y estilo de vida de la madre durante el proceso de crecimiento y desarrollo fetal e infantil. *Nutr Clin Diet Hosp.* 2015; 35(2):91-100.
23. Martínez-Villanueva J, González-Leal R, Argente J, Martos-Moreno GÁ. La obesidad parental se asocia con la gravedad de la obesidad infantil y de sus comorbilidades. *An Pediatr (Barc).* 2019; 90(4):224-31.
24. Ariza C, Ortega-Rodríguez E, Sánchez-Martínez F, Valmayor S, et al. La prevención de la obesidad infantil desde una perspectiva comunitaria. *Aten Primaria.* 2015; 47(4):246-55.
25. Pérez-Rodrigo C, Gil Á, González-Gross M, Ortega RM, et al. Clustering of dietary patterns, lifestyles, and overweight among Spanish children and adolescents in the ANIBES study. *Nutrients.* 2015; 8(1):11.
26. García-Contiente X, Allué N, Pérez-Giménez A, Ariza C, et al. Hábitos alimentarios, conductas sedentarias y sobrepeso y obesidad en adolescentes de Barcelona. *An Pediatr (Barc).* 2015; 83(1):3-10.
27. Chocarro Egüaras R. Hábitos alimentarios y comparación con las diferentes zonas españolas. Quinto Congreso de Economía de Navarra. [Acceso: 2 de noviembre de 2020]. Disponible en: <http://www.navarra.es/NR/rdonlyres/D82C4DCB-5DBC-401B-920E-58808A6DEEF7/79829/17RAQUELCHOCARRO.pdf>.
28. Liberali R, Kupe E, Altenburg de Asis MA. Dietary Patterns and Childhood Obesity Risk: A Systematic Review. *Child Obes.* 2020; 16(2):70-85.
29. Moens E, Braet C, Bosmans G, Rosseel Y. Unfavourable family characteristics and their associations with childhood obesity: A cross-sectional study. *Eur Eat Disord Rev.* 2009; 17(4):315-23.
30. Sánchez-Martínez F, Torres Capcha P, Serral Cano G, Valmayor Safont S, et al. Factores asociados al sobrepeso y la obesidad en escolares de 8 a 9 años de Barcelona. *Rev Esp Salud Pública.* 2016; 90:e40027.
31. Warnick JL, Stromberg SE, Krietsch KM, Janicke DM. Family functioning mediates the relationship between child behavior problems and parent feeding practices in youth with overweight or obesity. *Transl Behav Med.* 2019; 9(3):431-9.
32. Leech RM, McNaughton SA, Timperio A. The clustering of diet, physical activity and sedentary behavior in children and adolescents: A review. *Int J Behav Nutr Phys Act.* 2014; 11:4.
33. Díez-Gañán L, Galán Labaca I, León Domínguez CM, Zorrilla Torras B. Encuesta de Nutrición Infantil de la Comunidad de Madrid. Madrid: Consejería de Sanidad de la Comunidad y Madrid; 2008.
34. Salcedo V, Gutiérrez-Fisac JL, Guallar-Castillón P, Rodríguez-Artalejo F. Trends in overweight and misperceived overweight in Spain from 1987 to 2007. *Int J Obes (Lond).* 2010; 34(12):1759-65.
35. Jain A, Sherman SN, Chamberlin LA, Carter Y, et al. Why don't low-income mothers worry about their preschoolers being overweight? *Pediatrics.* 2001; 107(5):1138-46.

Family influence on childhood excess weight in the Region of Murcia, Spain

María I. Jiménez Candel, B.S.^a, Professor José Mondéjar Jiménez^b,
Antonio J. Gómez Navarro, Graduate^c and Ana B. Monreal Tomás, Graduate^c
Collaborator: Pedro J. Carpena Lucas, B.S.^a

ABSTRACT

Introduction. In Spain, childhood obesity is worrying, and its development might be influenced by the family setting. The objectives were to determine the prevalence of excess weight among adolescents, evaluate family variables that could affect it, and determine parents' body perception.

Population and methods. Cross-sectional study; students from five secondary schools in health area V of the Region of Murcia were included. Students' anthropometric measurements were recorded and a survey was administered to parents, including variables such as weight, height, exercise, level of education, family structure, and body perception. The analysis was done using contingency tables and the association with Somers' D measures.

Results. Four hundred and twenty one students participated (age: 12.8 ± 0.6 years old); 21.1 % were overweight and 19.5 %, obese. There was an association between parent and child excess weight (Somers' D with a p value < 0.05). If both parents had a sedentary lifestyle, their children would exercise less. The higher the level of parental education, the lower the rate of childhood overweight ($p < 0.05$). Overweight-obesity among children was higher in separated or single-parent families. In total, 32 % of parents misperceived their children's excess weight and 53 %, their own.

Conclusions. In this sample, the prevalence of excess weight was 40.6 %. Parents' nutritional status, level of education, and family structure were associated with childhood obesity. Mothers had a greater influence on the development of their children's overweight. Parents underestimated obesity.

Keywords: adolescent, overweight, lifestyle, physical activity, family.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.99>

To cite: Jiménez Candel MI, Mondéjar Jiménez J, Gómez Navarro AJ, Monreal Tomás AB. Family influence on childhood excess weight in the Region of Murcia, Spain. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):99-105.

- a. Hospital Virgen del Castillo, Murcia, Spain.
- b. Universidad de Castilla-La Mancha, School of Social Sciences of Cuenca, Spain.
- c. Division of Pediatrics, Hospital Virgen del Castillo, Murcia, Spain.

E-mail address:

María I. Jiménez Candel, B.S.:
mjimenezcandel@gmail.com

Funding:

None.

Conflict of interest:

None.

Received: 6-12-2020

Accepted: 11-4-2020

INTRODUCTION

In our country, childhood overweight and childhood obesity (CO) are up to 20 % and over 10 %, respectively, and these figures are at the forefront of European countries.^{1,2} Given its magnitude, the approach to childhood obesity and sedentary lifestyle is a public health priority in developed countries.^{1,3} Prevention strategies are mainly focused on decreasing morbidity and mortality in the adult age, improving quality of life, and diminishing health care expenditure. In Europe, at present, it is estimated that associated comorbidities account for a health care expenditure of about 10 billion euros yearly.⁴

Likewise, childhood and adolescence are the most vulnerable stages for weight gain, hence they are decisive in human development. An obese adolescent is up to five times more likely to be an obese adult,³ and the persistence of obesity in these generations could imply a shorter life expectancy than that of their parents.⁶ These periods entail multiple physiological, psychological, and behavioral changes, which, in turn, affect the development of healthy habits.⁷ A proper nutritional basis in childhood can prevent cardiovascular diseases, orthopedic, respiratory, metabolic, and inflammatory disorders, and even some types of cancer.⁸

Obesity is a multifactorial problem in which genetic, metabolic, psychosocial, family, and environmental determinants are involved.⁹ The latter are becoming increasingly important as they have been, in part, responsible for the

exponential increase of childhood obesity. This problem involves dietary changes deviating further and further away from the Mediterranean diet, a low level of physical activity (PA), increased screen time or reduced sleep time.

The family nucleus governs, from early stages, the adoption of habits that will have a direct impact on health.^{10,11} Hence the importance of determining the perception and involvement that parents have in their children's nutritional status and habits to avoid an obesogenic family environment. The presence of obesity in one of the parents doubles the risk of their children becoming obese and, in more than half of the children with obesity, one of their parents is obese.¹² In addition, parents often overlook this problem and, according to national studies, up to 42.3 % misperceive their children's weight status,¹³ leading to a higher probability for their children to be obese and a lack of involvement in solving the problem. Other research studies show that more than one third of parents are not interested in getting information on eating habits or do so inadequately.^{13,14}

Given the problem and the likely influence of the family on their children's excess weight, the main objective was to determine overweight and obesity prevalence in a sample of adolescents and evaluate family variables that could affect them. The secondary objective was to establish parents' perception of their own and their children's weight.

POPULATION AND METHODS

Observational and cross-sectional study in which first-year secondary school students aged 12-14 years were included. Meetings were held with the directors of the seven health care centers of health area V of the Region of Murcia to invite them to participate in the study. Four out of the seven accepted to collaborate (three public and one state-contracted facility) and two did not accept because of lack of time in the academic calendar. Taking into account the population of the area in that age range, a minimum sample size of 350 children was calculated for a maximum error of 4.92 %, with a 95 % confidence interval. Participants were selected taking into account the proportionality in each health care center.

Parents were provided with information about the study, objectives, voluntary nature, anonymity, and confidentiality in accordance with Organic Law 15/1999 of December 13 on Protection of Personal Data, a brief survey,

and an informed consent to be completed at home. In this survey, information was collected regarding family variables, such as parents' weight and height, practice of physical activity as per the recommendations of the World Health Organization, education level, family structure, and body perception. The exclusion criteria were having a severe chronic condition, an endocrine disease, an eating behavior disorder, or the parents' refusal to participate. The study was approved by the Clinical Research Ethics Committee of Hospital Universitario Virgen de la Arrixaca of Murcia.

The field work was carried out during the school years 2017-2018 and 2018-2019. A health team went to the centers to perform somatometric measurements on the participants once they had given their consent. Measurements were taken with students barefoot and in light clothing. Weight was measured with an approved Seca® scale and height was measured with the head adjusted to the Frankfurt plane perpendicular to the body with a portable approved stadiometer with a fixed base plate. All measurements were taken twice by the same observer, and the mean value was calculated. Once data were obtained, the body mass index was calculated. Values between +1 standard deviation (SD) and +2 SD were classified as overweight and values above +2 SD, as obesity, according to the World Health Organization Z-score classification.¹⁵

The statistical analysis included a descriptive analysis and contingency tables, and, within the measures of association for ordinal data, Somers' D was used, based on the number of concordances and discordances in a data set, considering that the variables could be symmetric or dependent. A *p* value <0.05 was regarded as significant. This analysis was conducted using the Statistical Package for the Social Sciences®.

RESULTS

From an eligible sample of 567 participants, a total of 421 students, with a mean age of 12.8 ± 0.62 years, were recruited, of whom 52 % were girls. The participation rate was 74.2 %. Five children were excluded due to chronic conditions (Turner's syndrome, hypothyroidism, trichorhinophalangeal syndrome, Maturity Onset Diabetes of the Young [MODY], and one student with reduced mobility), and 146 did not participate because they did not give the informed consent. A total of 82 % of the surveys were answered by mothers (Table 1). According

to the somatometric measurements, the sample was divided into two groups: normal weight (59.2 %) and excess weight (40.8 %). Of the latter, 21.1 % were overweight and 19.5 %, obese, with a slight predominance of males in the former and females in the latter. In addition, somatometric data were collected from 90.4 % of fathers and 97 % of mothers, 58 % of whom had excess weight. The distribution by group can be seen in *Figure 1*.

The first variable studied by Somers' analysis was the influence of parental excess weight on their children's weight status. It was observed that 60.2 % of mothers and 44.6 % of fathers with excess weight had overweight or obese

children, which showed a statistically significant relationship (*Table 2*). *Figure 2* shows that the higher the number of overweight-obese members in a family, the greater the rate of children with excess weight.

As for the influence of family PA on the nutritional status of their children, a higher percentage of childhood excess weight was observed in families where both parents were sedentary compared to families where both parents exercised on a regular basis (47.8 % versus 34 %, respectively), although this difference was not statistically significant. A slightly lower figure was seen if it was the mother who exercised (*Table 2*). Also, in households where both parents exercised, the level of PA in their children was higher than in those where only one or none of the parents exercised (*Figure 3*). Likewise, there was a greater influence on a child being physically active if it was the mother who exercised (62.3 % versus 51 % of fathers). Another of the variables studied was the family's active lifestyle (walking, cycling, etc.) and, among them, there was also a lower rate of overweight (38.8 %) compared to 53.4 % in the rest of the families.

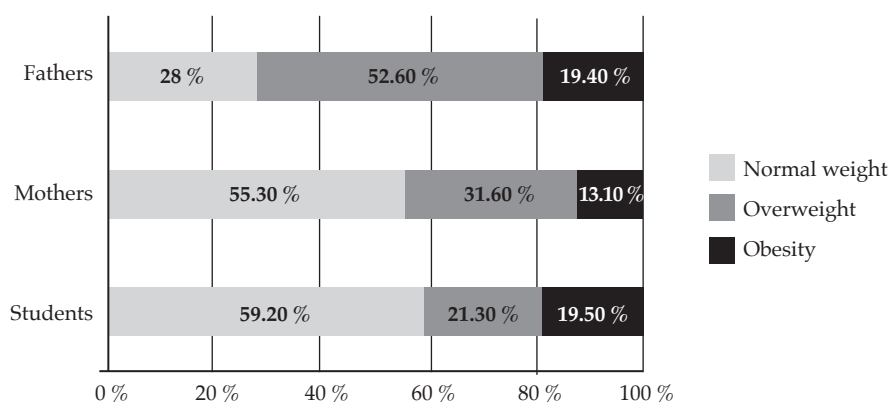
The third variable studied was the family structure. Most were two-parent families (*Table 1*). Overweight and obesity among children were higher in the group of separated or single-parent families (*Table 2*). Concerning the level of education of parents, it was observed that the higher the level, the lower the excess weight rate in their children, both significantly (*Table 2*).

Finally, in relation to parents' perception on their children's weight, 32 % did not perceive their children had excess weight and believed that their weight was normal. Regarding their

TABLE 1. Demographic characteristics of participants

Students n: 416. Fathers n: 376. Mothers n: 404.		
Sex		
Female: 216 (52 %)	Male: 200 (48 %)	
Age		
12 years old: 279 (67 %)	13-14 years old: 137 (33 %)	
School		
Public 395 (95 %)	State-funded private: 21 (5 %)	
Person filling in the questionnaire		
Mother: 341 (82 %)	Father: 62 (14.9 %)	
Both: 4 (0.9 %)	Another caregiver: 9 (2.2 %)	
Family structure		
Two-parent family: 320 (76.9 %)	Single-parent family: 25 (6 %)	
Separated: 60 (14.5 %)	Other models: 11 (2.6 %)	
Education level		
	Mothers	Fathers
No education:	14 (3.3 %)	20 (4.8 %)
Primary education:	169 (40.6 %)	169 (40.6 %)
Secondary education:	137 (33 %)	145 (35 %)
Higher education:	95 (22.9 %)	66 (15.9 %)
No data:	1 (0.2 %)	16 (3.8 %)

FIGURE 1. Relationship between the nutritional status of participants and that of their parents according to the body mass index



self-perception of their own weight, more than half of parents with overweight and obesity (53.3 %) believed their weight was normal, with fathers more likely to underestimate their weight than mothers (60.2 % and 43 %). Up to 15.8 % of obese parents believed that their weight was normal.

DISCUSSION

During recent decades, in our country there has been an exponential increase in the prevalence of childhood obesity.^{15,16} Figures detected are similar to those found in recent studies, such as the ALADINO study (23.2 % of children were obese and 18.1 %, overweight).¹⁷

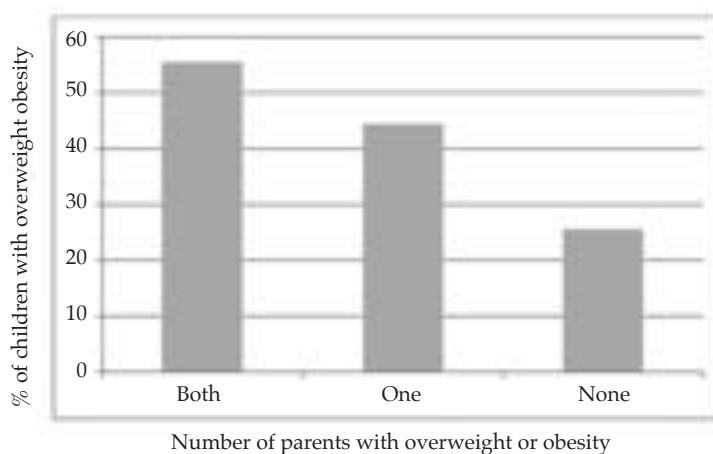
TABLE 2. Influence of family variables on their children's overweight and obesity

Students n: 416. Fathers n: 376. Mothers n: 404.

Variable	Children with overweight or obesity	* p value
Family excess weight		
Mother:	60.2 %	$p < 0.001$
Father:	44.6 %	$p = 0.030$
Physical activity		
Mother:	39.6 %	$p = 0.432$
Father:	42.8 %	$p = 0.457$
Education level		
Mother		
No education:	51.7 %	$p = 0.010$
Primary education:	46.1 %	
Secondary education:	38.2 %	
Higher education:	32.6 %	
Father		
No education:	35 %	$p = 0.050$
Primary education:	49 %	
Secondary education:	38 %	
Higher education:	32.6 %	
Family structure		
Two-parent family:	38.2 %	$p = 0.045$
Separated:	50 %	
Single-parent family:	52 %	
Other:	45.4 %	

* Somers' D.

FIGURE 2. Relationship between parents' and children's excess weight



Although several developed countries have recently reported stabilization in the prevalence of childhood obesity, in Spain and Portugal the trend seems to continue increasing.^{2,18} In the present study, obesity rates obtained were higher than in previous studies conducted in Murcia, such as the Four Provinces Study in 2000,¹⁹ with a rate of 14 %, or that of Espín et al., in 2013, with a rate of 18 %.²⁰ Since there are multiple environmental variables intrinsic to each population, depending on the geographic characteristics, resources, socioeconomic level, habits and customs or the social environment and access to recreational areas, standardized, comparative studies should be conducted using objective somatometric measurements so as to be able to develop prevention and treatment strategies.

Most research studies conducted so far have related parental economic and academic levels to children's weight status, but it is important to take into account that parents' nutritional status, habits, family structure, and body perception play a critical role. In general, these variables are studied in a merely demographic way, and the influence they might have on health is overlooked.

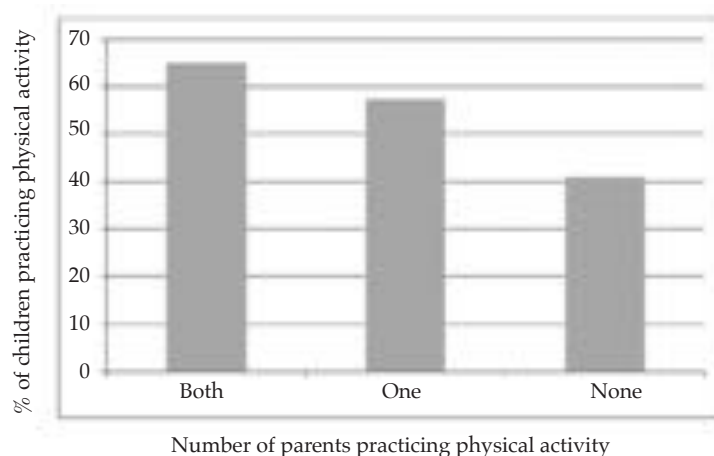
A strong association between parents' and their children's weight was found, and childhood overweight was twice higher in families where both parents were overweight. This finding might be a consequence of the double genetic burden from two overweight or obese parents, or a result of common family environmental exposure of greater severity in promoting a family's

unhealthy weight gain.²¹ This relationship was more pronounced in the case of mothers, likely affected by genetic, prenatal, and perinatal factors, such as being obese during pregnancy; these factors were already described,^{5,11,22} but not observed in this study. In today's society, most mothers are usually the primary caregivers and, consequently, have a greater influence on their children's habits.

In the present study, the practice of physical activity by parents conditioned that of their children's and influenced their weight status, more markedly when it was the mother who exercised less, although it was not statistically significant. Although described in other national studies,^{9,17,23} in our case, this association has not been observed possibly because of the sample size or type. Thus, behaviors, parenting styles, and lifestyles passed down from parents to children must be taken into account when addressing childhood excess weight.^{11,24,25} In fact, certain eating patterns, sedentary lifestyles, and other behavioral traits can be easily passed down from parents to children through the family socialization process.²¹

Due to globalization, eating habits have changed; diets based on fast and ultra-processed foods are now a new reality.^{13,26} So much so that, despite the characteristics that differentiate the regions of Spain, analyses show great similarity between all areas, due to the deterioration that has occurred in the so-called "Mediterranean diet" in recent years.²⁷ This fact is shared by most other countries in Europe or the USA.²⁸ The development of an obesogenic environment

FIGURE 3. Relationship between parents' and children's physical activity



promotes an increase in energy consumption and a decrease in PA, without forgetting that Spanish parents practice less PA compared to those in other European countries and that most obese children have a poor physical fitness level.¹¹

In this study, a higher rate of obesity was found in separated or single-parent families, possibly because of having fewer resources and less time available to establish healthy practices. Other authors have also determined how dysfunction in family dynamics can be a risk factor for the presence of child obesity.^{29,30} Some research studies show a greater number of family conflicts in families with obese children. These will, in turn, lead to additional stress, apart from promoting unhealthy environments contributing to the poor energy regulation capabilities of children. Likewise, family dysfunction predicts worse adherence to treatment, considering child obesity a chronic disease.³¹

Parents' education level was significantly associated with their children's nutritional status, probably due to the fact that the most qualified parents are better informed, more aware of the problem, and practice more PA.^{14,25,32} Conversely, a lower educational level or lower social classes appear to be risk factors for child obesity.^{11,14,17} All of this is conditioned by factors such as less purchasing power and greater limitations to practice sports activities or less access to fruit and vegetables.

Lastly, it is observed that, in general, there is a tendency to underestimate overweight and obesity, both one's own and one's children's, since more than one third of parents underestimated their children's weight problem. In studies such as ALADINO¹⁷ with 50 %, Díez-Gañán³³ with 55 %, and up to 60 % in the periodic study by Salcedo et al.,³⁴ the number of parents who did not perceive their children's excess weight was even higher. Obesity is usually a slow and progressive condition; therefore, most of the times it is not a reason for consultation. Additionally, many times an overweight child is perceived as indicative of a healthy child.³² There is a problem of perception or tolerance of excess weight in which family and sociodemographic variables must be taken into account in order to address it.

Unlike other studies in which only the body image of adolescents is studied, the novelty of this study has been to include parents' self-perception, which is also confirmed as being wrong. In the light of these findings, it can be seen that there is a general underestimation of

weight and that parents need to be aware of the problem so as to establish prevention and treatment strategies. There is evidence that, by including parents in programs to treat obesity, better results are obtained.⁵ Based on the above mentioned, it would be necessary to conduct longitudinal and multicenter studies to find out those parental factors that most condition the onset and perpetuation of childhood overweight.

The limitations of this study were the small sample size because participants were from a specific health area, and the collection of subjective data from parents' somatometric measurements, with a likely information bias. One of the strengths of the study was the objectivity of students' somatometric measurements.

CONCLUSIONS

In this sample, the prevalence of excess weight was 40.6 %. An association was detected between childhood obesity and parents' nutritional status, their level of education, and the family structure. Although mothers seem to have more influence on their children's weight status, childhood overweight was twice higher in families where both parents had excess weight. There is a serious problem of perception and tolerance to excess weight among parents. ■

REFERENCES

1. Nishida C, Uauy R, Kumanyika S, Shetty P. The joint WHO/FAO expert consultation on diet, nutrition and the prevention of chronic diseases: process, product and policy implications. *Public Health Nutr.* 2004; 7(1A):245-50.
2. Garrido-Miguel M, Cavero-Redondo I, Álvarez-Bueno C, Rodríguez-Artalejo F, et al. Prevalence and Trends of Overweight and Obesity in European Children from 1999 to 2016: A Systematic Review and Meta-Analysis. *JAMA Pediatr.* 2019; 173(10):e192430.
3. Simmonds M, Llewellyn A, Owen CG, Woolacott N. Predicting adult obesity from childhood obesity: A systematic review and meta-analysis. *Obes Rev.* 2016; 17(2):95-107.
4. Müller-Riemenschneider F, Reinhold T, Berghöfer A, Willich SN. Health-economic burden of obesity in Europe. *Eur J Epidemiol.* 2008; 23(8):499-509.
5. Lurbe E, Redon P. Nuevos elementos en la obesidad infantil. *Endocrinol Diabetes Nutr.* 2019; 66(3):137-9.
6. Patrick H, Hennessy E, McSpadden K, Oh A. Parenting styles and practices in children's obesogenic behaviors: scientific gaps and future research directions. *Child Obes.* 2013; 9 (Suppl 1):S73-86.
7. González-Gross M, Castillo MJ, Moreno L, Nova E, et al. Alimentación y valoración del estado nutricional de los adolescentes españoles (Estudio AVENA). Evaluación de riesgos y propuesta de intervención. I. Descripción metodológica del proyecto. *Nutr Hosp.* 2003; 18(1):15-28.
8. Medrano MJ, Cerrato E, Boix R, Delgado-Rodríguez M. Factores de riesgo cardiovascular en la población española: metaanálisis de estudios transversales. *Med Clin (Barc).* 2005; 124(16):606-12.

9. Yáñez-Ortega JL, Arrieta-Cerdán E, Lozano-Alonso JE, Gil-Costa M, et al. Prevalencia de sobrepeso y obesidad infantil. Estudio de una cohorte en Castilla y León, España. *Endocrinol Diabetes Nutr.* 2019; 66(3):173-80.
10. Pérez-Ríos M, Santiago-Pérez MI, Leis R, Martínez A, et al. Exceso ponderal y obesidad abdominal en niños y adolescentes gallegos. *An Pediatr (Barc).* 2018; 89(5):302-8.
11. Miqueleiz E, Te Velde S, Regidor E, Van Lippevelde W, et al. Hábitos de vida y estilos de cuidado de los progenitores relacionados con la obesidad infantil. Comparación de una población española con poblaciones de países del Norte de Europa: ENERGY-Project. *Rev Esp Salud Pública.* 2015; 89(5):523-32.
12. Magge SN, Goodman E, Armstrong SC, Daniels S, et al. The metabolic syndrome in children and adolescents: Shifting the focus to cardiometabolic risk factor clustering. *Pediatrics.* 2017; 140(2):e20171603.
13. Coronel Rodríguez C, González Zorzano E, Hernández A, Escolar Jurado M, et al. Encuesta epidemiológica sobre la percepción y hábitos de salud de las familias españolas sobre nutrición infantil. *Pediatr Integral.* 2017; 21(3):221.e1-12.
14. González Jiménez E, Aguilar Cordero MJ, García CJ, García López P, et al. Influencia del entorno familiar en el desarrollo del sobrepeso y la obesidad en una población de escolares de Granada (España). *Nutr Hosp.* 2012; 27(1):177-84.
15. De Onis M, Garza C, Onyango AW, Martorell R (eds.). WHO child growth standards. *Acta Paediatr.* 2006; 95(Suppl 450):5-101.
16. Toledano Marín, Aznar Lain S, Cortés Rico O, Ferreira Montero I, et al. 1.a Conferencia de Prevención y Promoción de la Salud en la Práctica Clínica en España. Prevención de la obesidad infantil y juvenil. Madrid: Ministerio de Sanidad y Consumo; 2007. [Accessed on: November 4th, 2020]. Available at: <https://www.mschs.gob.es/profesionales/saludPublica/prevPromocion/docs/PrevencionObesidad.pdf>.
17. Ortega Anta R, López-Sobalñer A, Aparicio Vizuet A, González Rodríguez L, et al. Estudio ALADINO 2015: Estudio de Vigilancia del Crecimiento, Alimentación, Actividad Física, Desarrollo Infantil y Obesidad en España 2015. Madrid: Agencia Española de Consumo, Seguridad Alimentaria y Nutrición. Ministerio de Sanidad, Servicios Sociales e Igualdad; 2016. [Accessed on: October 25th, 2020]. Available at: https://www.aesan.gob.es/AECOSAN/docs/documentos/nutricion/observatorio/Estudio_ALADINO_2015.pdf.
18. Rokholm B, Baker JL, Sørensen TI. The levelling off of the obesity epidemic since the year 1999 - a review of evidence and perspectives. *Obes Rev.* 2010; 11(12):835-46.
19. Garcés C, Lasunción MA, Ortega H, López Cubero L, et al. Factores metabólicos en la población escolar asociados a mortalidad cardiovascular en los adultos. Estudio Cuatro Provincias. *Med Clin (Barc).* 2002; 118(20):767-70.
20. Espín Ríos MI, Pérez Flores D, Sánchez Ruíz JF, Salmerón Martínez D. Prevalencia de obesidad infantil en la Región de Murcia, valorando distintas referencias para el índice de masa corporal. *An Pediatr (Barc).* 2013; 78(6):374-81.
21. Wang Y, Min J, Khuri J, Li M. A Systematic Examination of the Association between Parental and Child Obesity across Countries. *Adv Nutr.* 2017; 8(3):436-48.
22. Mora-Urda AI, Espinoza A, López-Ejeda N, Acevedo Cantero P, et al. Indicadores de riesgo cardiovascular, patrones de lactancia y estilo de vida de la madre durante el proceso de crecimiento y desarrollo fetal e infantil. *Nutr Clin Diet Hosp.* 2015; 35(2):91-100.
23. Martínez-Villanueva J, González-Leal R, Argente J, Martos-Moreno GÁ. La obesidad parental se asocia con la gravedad de la obesidad infantil y de sus comorbilidades. *An Pediatr (Barc).* 2019; 90(4):224-31.
24. Ariza C, Ortega-Rodríguez E, Sánchez-Martínez F, Valmayor S, et al. La prevención de la obesidad infantil desde una perspectiva comunitaria. *Aten Primaria.* 2015; 47(4):246-55.
25. Pérez-Rodrigo C, Gil Á, González-Gross M, Ortega RM, et al. Clustering of dietary patterns, lifestyles, and overweight among Spanish children and adolescents in the ANIBES study. *Nutrients.* 2015; 8(1):11.
26. García-Continente X, Allué N, Pérez-Giménez A, Ariza C, et al. Hábitos alimentarios, conductas sedentarias y sobrepeso y obesidad en adolescentes de Barcelona. *An Pediatr (Barc).* 2015; 83(1):3-10.
27. Chocarro Egüaras R. Hábitos alimentarios y comparación con las diferentes zonas españolas. Quinto Congreso de Economía de Navarra. [Accessed on: November 2nd, 2020]. Available at: <http://www.navarra.es/NR/rdonlyres/D82C4DCB-5DBC-401B-920E-58808A6DEEF7/79829/17RAQUELCHOCARRO.pdf>.
28. Liberali R, Kupek E, Altenburg de Asis MA. Dietary Patterns and Childhood Obesity Risk: A Systematic Review. *Child Obes.* 2020; 16(2):70-85.
29. Moens E, Braet C, Bosmans G, Rosseel Y. Unfavourable family characteristics and their associations with childhood obesity: A cross-sectional study. *Eur Eat Disord Rev.* 2009; 17(4):315-23.
30. Sánchez-Martínez F, Torres Capcha P, Serral Cano G, Valmayor Safont S, et al. Factores asociados al sobrepeso y la obesidad en escolares de 8 a 9 años de Barcelona. *Rev Esp Salud Pública.* 2016; 90:e40027.
31. Warnick JL, Stromberg SE, Krietsch KM, Janicke DM. Family functioning mediates the relationship between child behavior problems and parent feeding practices in youth with overweight or obesity. *Transl Behav Med.* 2019; 9(3):431-9.
32. Leech RM, McNaughton SA, Timperio A. The clustering of diet, physical activity and sedentary behavior in children and adolescents: A review. *Int J Behav Nutr Phys Act.* 2014; 11:4.
33. Díez-Gañán L, Galán Labaca I, León Domínguez CM, Zorrilla Torras B. Encuesta de Nutrición Infantil de la Comunidad de Madrid. Madrid: Consejería de Sanidad de la Comunidad y Madrid; 2008.
34. Salcedo V, Gutiérrez-Fisac JL, Guallar-Castillón P, Rodríguez-Artalejo F. Trends in overweight and misperceived overweight in Spain from 1987 to 2007. *Int J Obes (Lond).* 2010; 34(12):1759-65.
35. Jain A, Sherman SN, Chamberlin LA, Carter Y, et al. Why don't low-income mothers worry about their preschoolers being overweight? *Pediatrics.* 2001; 107(5):1138-46.

El uso excesivo de pantallas está asociado con labilidad emocional en niños preescolares

Excessive screen time is associated with emotional lability in preschool children

- Departamento de Pediatría, Facultad de Medicina de Afyonkarahisar Sağlık Bilimleri Üniversitesi, Afyonkarahisar, Turquía.
- Departamento de Pediatría, Facultad de Medicina de Mersin Üniversitesi, Mersin, Turquía.
- Departamento de Pediatría, Facultad de Medicina de Hacettepe Üniversitesi, Ankara, Turquía.
- Departamento de Pediatría, Hospital Pediátrico Dr. Sami Ulus, Ankara, Turquía.
- Departamento de Salud Infantil y Adolescente, Ministerio de Salud, Ankara, Turquía.
- Departamento de Psiquiatría Infantil y Adolescente, Facultad de Medicina de Hacettepe Üniversitesi, Ankara, Turquía.
- Departamento de Pediatría, Hospital Etimesgut Sağlık Sait Ertürk, Ankara, Turquía.
- Departamento de Pediatría, Yıldırım Beyazıt Üniversitesi, Hospital de Investigación Yenimahalle, Ankara, Turquía.

Dra. Ayşe Oflu, Profesora ayudante^a, Dra. Ozlem Tezol, Profesora ayudante^b, Dra. Songul Yalcin, PhD y Profesora^c, Dra. Deniz Yildiz^d, Dra. Nilgun Caylan^e, Dra. Dilsad F. Ozdemir, Profesora^f, Dra. Seyma Cicek^g y Dra. Meryem E. Nergiz^h

RESUMEN

Introducción. En estudios anteriores, el uso excesivo o la exposición temprana a pantallas se asoció con atención deficiente, falta de control de la conducta, retraso del lenguaje y déficit en la función ejecutiva. El objetivo de este estudio fue investigar la relación entre el tiempo de uso de pantallas y la regulación emocional, que afecta las relaciones sociales de los niños de 2 a 5 años.

Población y métodos. Estudio descriptivo transversal en un hospital universitario del 1.º de enero al 1.º de marzo de 2018. Se incluyó a madres de niños sanos de 2 a 5 años con un uso de pantallas inferior a 1 hora o superior a 4 horas. A quienes aceptaron participar se les administró una encuesta estructurada y la *Emotion Regulation Checklist* para padres.

Resultados. De los 240 niños participantes, 98 (el 40,8 %) tenían un uso de pantallas ≥ 4 horas. Ser cuidado por la madre, tener 12 meses o más durante la primera exposición y no estar acompañado por los padres al usarlas se asociaron con ≥ 4 horas de uso de pantallas ($p = 0,002$; $p = 0,002$; $p = 0,012$, respectivamente). La proporción de participantes con una puntuación alta de labilidad/negatividad (L/N) fue significativamente mayor entre los niños con ≥ 4 horas de uso de pantallas y que no estaban acompañados por sus padres al usarlas ($p = 0,004$; $p = 0,033$, respectivamente).

Conclusiones. Este estudio determinó que un uso excesivo de pantallas se asocia con labilidad emocional durante esta etapa temprana de la infancia.

Palabras clave: regulación emocional, uso de pantallas, niño.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.106>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.106>

Cómo citar: Oflu A, Tezol O, Yalcin S, Yildiz D, et al. El uso excesivo de pantallas está asociado con labilidad emocional en niños preescolares. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):106-113.

INTRODUCCIÓN

En los últimos años, hubo un aumento notable en la diversidad y el uso de los medios de comunicación. Los medios tradicionales (la televisión) y nuevos (los teléfonos celulares, los teléfonos inteligentes, las tabletas y las redes sociales) pasaron a dominar la vida y el tiempo libre de muchos niños.¹ Esta diversidad y este aumento en el uso de los medios de comunicación también afectó a los niños en edad preescolar. Hoy en día, para los niños preescolares, el uso de pantallas no solo implica ver televisión, sino también usar computadoras y dispositivos móviles con pantalla táctil.² Según las recomendaciones de la Academia Estadounidense de Pediatría, los niños menores de 2 años no deben estar expuestos a pantallas, y un uso de pantallas de 1 hora o más al día se considera excesivo para los niños de entre 2 y 5 años. Además, se debe limitar el uso de los medios digitales en los niños durante las comidas o una hora antes de acostarse, para que puedan crecer y desarrollarse correctamente.³ Recientemente, la Academia Estadounidense de Pediatría ha publicado nuevas recomendaciones para los hábitos de consumo de medios durante la pandemia de COVID-19, donde se establece una rutina diaria estructurada para los niños y los adolescentes y se limita el uso de pantallas para entretenimiento. Durante la crisis de la COVID-19, se suele permitir un mayor uso de pantallas para entretenimiento. Sin

Correspondencia:

Dra. Ayşe Oflu:
ayseoflu@gmail.com

Financiamiento:
Ninguno.

Conflicto de intereses:
Ninguno que declarar.

Recibido: 23-5-2020
Aceptado: 11-9-2020

embargo, también se recomienda que estas no ocupen la mayor parte de las horas de vigilia de los niños ni interfieran en el sueño.⁴

Los resultados de investigaciones previas sobre el efecto que tiene el tiempo de uso de pantallas en los procesos cognitivos varían en los niños preescolares. El uso excesivo o la exposición temprana a pantallas se asocia con atención deficiente, falta de control de la conducta, retraso del lenguaje y déficit en la función ejecutiva.⁵ También se ha informado que el uso excesivo de pantallas produce cambios neuroanatómicos relacionados con una menor empatía y un control de los impulsos y un procesamiento emocional deficientes.⁶ En algunos estudios, se observó que el tiempo de uso de pantallas no es un factor de predicción sólido de problemas en estas habilidades cognitivas.⁷ Se informó que, a partir de los 2 años, los programas de televisión bien planificados y adecuados a la edad, con objetivos educativos específicos, pueden ser una fuente adicional para el temprano desarrollo del lenguaje y de la alfabetización de los niños. Los programas de calidad también promueven aspectos relacionados con el desarrollo cognitivo, como las actitudes raciales positivas y el juego creativo.⁸

La regulación emocional (RE) se define como los procesos extrínsecos e intrínsecos responsables de controlar, evaluar y modificar las reacciones emocionales. La RE comprende la gestión y la organización de varios sistemas y componentes, como los sistemas internos y componentes sociales y conductuales.⁹ La RE ofrece comportamientos estratégicos más adaptativos y fomenta respuestas adecuadas y flexibles en diferentes contextos emocionales.¹⁰ La RE se desarrolla gradualmente a lo largo del tiempo, con una serie de habilidades adquiridas tras el nacimiento.¹¹ Este proceso de desarrollo supone un desarrollo neurobiológico (desarrollo del lóbulo frontal), un desarrollo conceptual (comprensión de los procesos emocionales) y habilidades de socialización. Se trata de un proceso muy importante, ya que, a partir de este, se desarrollan las diferencias individuales en las habilidades de regulación emocional de los adultos. Los niños interactúan más con el mundo exterior, y los contextos sociales se amplían en la etapa preescolar. Durante este período, los niños adquieren más habilidades de regulación emocional a medida que se dan cuenta de que tienen la posibilidad de acercarse, alejarse o cambiar las emociones que pueden atraer la

atención emocional.¹²

Teniendo presente la importancia de las interacciones sociales para adquirir la habilidad de la RE, el objetivo de este estudio fue evaluar las asociaciones entre el tiempo de uso de pantallas y la RE de los niños de entre 2 y 5 años.

MATERIALES Y MÉTODOS

Diseño del estudio

Se trató de un estudio descriptivo transversal realizado en un hospital universitario entre el 1.º de enero de 2018 y el 1.º de marzo de 2018. Se incluyó en el estudio a las madres de niños sanos de entre 2 y 5 años con un tiempo de uso de pantallas inferior a 1 hora o superior a 4 horas. Se excluyó a los niños con antecedentes de prematuridad y peso insuficiente al nacer, a quienes no habían sido amamantados y a quienes tenían un retraso en el desarrollo del lenguaje y enfermedades físicas y psiquiátricas crónicas. Se determinaron estos criterios de exclusión para evitar el efecto de ciertas características que podrían ocasionar problemas conductuales. A las madres que aceptaron participar se les administró una encuesta estructurada y el cuestionario *Emotion Regulation Checklist* (ERC) (Lista de verificación de la regulación emocional) para padres.

El comité de ética local otorgó la autorización para llevar a cabo el estudio. Todos los procedimientos del estudio se realizaron de acuerdo con la Declaración de Helsinki.

Recolección de datos

En función de los registros de meses anteriores, se calculó que 1570 madres acudían a los consultorios pediátricos externos cada mes. En un estudio multicéntrico realizado anteriormente en Turquía, se observó que la proporción de niños con un uso de pantallas superior a 4 horas era del 19,7%.¹³ Según estos datos, el tamaño mínimo de la muestra se calculó en 226 con un intervalo de confianza del 95% con la calculadora de OpenEpi (<https://www.openepi.com/SampleSize/SSPropor.Htm>) a partir de la siguiente ecuación: $n = [DEFF * Np(1-p)] / [(d^2 / Z_{1-\alpha/2}^2 * (N-1) + p * (1-p)]$. Los parámetros se establecieron como tamaño de la población (N): 3140, % de frecuencia de (p): 19,7% +/-5, límites de confianza como %(d): 5%.

Al igual que en otros estudios,¹⁴ solo se incluyó a parejas de madre e hijo. El sesgo potencial sería mínimo, ya que es posible obtener información más confiable y precisa sobre los niños por

parte de las madres. En segundo lugar, en esta región, la mayoría de los niños acudían al hospital acompañados por sus madres. Dado que el hospital donde se realizó el estudio es una institución de salud a la que acuden personas de todos los niveles socioculturales, se determinó que la muestra era suficientemente representativa. Se informó a las parejas de madres e hijos que estaban en la sala de espera antes de la consulta acerca del contenido y el objetivo del estudio; se obtuvo su consentimiento, pero no se les informó cuál era el tiempo ideal de uso de pantallas. Luego se les solicitó a las madres que rellenaran una encuesta estructurada y la ERC. Las encuestas y las escalas se recolectaron durante la consulta. Se proporcionó asesoramiento para los puntos en los que se detectaron problemas y se planificó una supervisión.

Encuesta estructurada

La encuesta estructurada en papel contaba con 24 preguntas que debían responder las madres. La edad y el sexo del niño, la edad y el nivel educativo de los padres, la condición laboral de la madre, la estructura familiar, la cantidad de hijos en la familia, el tipo de familia, el cuidador del niño (la madre u otra persona) y el nivel de ingresos formaron parte de las preguntas relativas a los datos sociodemográficos. En función del uso diario de pantallas, se dividió a los participantes en uso bajo (≤ 1 h/día) o alto (≥ 4 h/día). También se indagó acerca de la edad que tenía el niño la primera vez que estuvo expuesto a una pantalla, si los padres lo acompañaban al usar pantallas, si reaccionaba ante las limitaciones del tiempo de uso de pantallas y si posponía las necesidades diarias.

Emotion Regulation Checklist (ERC)

La ERC fue desarrollada en 1997 por Shields y Cicchetti.¹⁵ La validez, la fiabilidad y la adaptación de la escala para niños turcos fueron estudiadas por Batum en 2007.¹⁶ La ERC puede ser respondida por adultos que conocen bien al niño, como el padre, la madre o el cuidador. La ERC tiene 24 ítems que se evalúan en una escala Likert de 4 puntos (1 = nunca; 2 = alguna vez; 3 = frecuentemente; 4 = casi siempre). La ERC incluye dos subescalas: la subescala de labilidad/negatividad (S-L/N) y la subescala de regulación emocional (S-RE). La S-RE está compuesta por 10 ítems que pretenden determinar la autoconciencia emocional y la expresión emocional constructiva del niño. La S-L/N está compuesta por 13 ítems

que evalúan la falta de flexibilidad, la activación emocional, la reactividad, la desregulación de la ira y la labilidad emocional. Se determinó que la coherencia interna de ambas subescalas es adecuada (L/N: $\alpha = 0,96$; RE: $\alpha = 0,83$). Una puntuación alta en la escala indica que el niño tiene un gran nivel de habilidades de regulación emocional.

Análisis estadístico

Las estadísticas descriptivas se presentaron como números y porcentajes para los datos categóricos. La prueba de χ^2 se utilizó para comparar las frecuencias de las variables categóricas. Se realizó un análisis multivariado de regresión logística para determinar qué factores están asociados con el tiempo de uso de pantallas por parte de los niños luego de ajustar en función del sexo, la educación materna, la educación paterna, la ocupación de la madre, el cuidador, la cantidad de hijos, el orden de nacimiento, la edad durante la primera exposición a una pantalla y ver pantallas en compañía de los padres. Las razones de posibilidades ajustadas se calcularon con intervalos de confianza del 95 %. La puntuación total de ERC, la puntuación de RE y la puntuación de L/N se dividieron en cuartiles, y la proporción de participantes con los cuartiles más altos se utilizó para la comparación. El nivel de significancia estadística se estableció en $p < 0,05$. El análisis estadístico se realizó con el programa SPSS, versión 22.0 (IBM Corp., Armonk, NY, EE. UU.).

RESULTADOS

De los 240 niños que participaron en el estudio, en 98 (el 40,8 %) se observó un uso de pantallas ≥ 4 horas. En la *Tabla 1*, se muestran las asociaciones entre los factores sociodemográficos y el tiempo de uso de pantallas. En la *Tabla 2*, se observa el análisis de regresión logística de los factores asociados con el tiempo de uso de pantallas en los niños. Ser cuidado por la madre, tener 12 meses o más durante la primera exposición a pantallas y no estar acompañado por los padres al usar pantallas se asociaron con ≥ 4 horas de uso de pantallas.

En la *Tabla 3*, se muestran las asociaciones entre las características sociodemográficas y los participantes con puntuaciones altas de ERC. En la *Tabla 4*, se muestran las asociaciones entre las características del tiempo de uso de pantallas y las puntuaciones altas de ERC. La proporción de participantes con una puntuación alta de L/N

TABLA 1. Relaciones entre los factores sociodemográficos y el tiempo de uso de pantallas en los niños*

		Tiempo de uso de pantallas		p
		≤ 1 hora n = 142 (58,2 %)	≥ 4 horas n = 98 (40,8 %)	
Edad	< 48 meses	95 (63,3 %)	55 (36,7 %)	0,090
	≥ 48 meses	47 (52,2 %)	43 (47,8 %)	
Sexo	Femenino	78 (66,1 %)	40 (33,9 %)	0,032
	Masculino	64 (52,5 %)	58 (47,5 %)	
Edad materna, media ± DE	Años	31,8 ± 5,0	32,1 ± 5,3	0,865
Edad paterna, media ± DE	Años	34,2 ± 4,8	35,7 ± 6,0	0,214
Educación materna	Escuela secundaria o inferior	58 (46,8 %)	66 (53,2 %)	< 0,001
	Superior a la escuela secundaria	84 (72,4 %)	32 (27,6 %)	
Educación paterna	Escuela secundaria o inferior	63 (51,6 %)	59 (48,4 %)	0,016
	Superior a la escuela secundaria	79 (66,9 %)	39 (33,1 %)	
Ocupación de la madre	Ama de casa	61 (50,0 %)	61 (50,0 %)	0,003
	Trabaja fuera de la casa	81 (68,6 %)	37 (31,4 %)	
Cuidador	Madre	58 (46,8 %)	66 (53,2 %)	< 0,001
	Abuelos/niñera	45 (66,2 %)	23 (33,8 %)	
	Jardín de infantes	39 (81,3 %)	9 (18,8 %)	
Cantidad de hijos	1	65 (71,4 %)	26 (28,6 %)	0,003
	≥ 2	77 (51,7 %)	72 (48,3 %)	
Orden de nacimiento	1	88 (66,7 %)	44 (33,3 %)	0,009
	≥ 2	54 (50,0 %)	54 (50,0 %)	
Edad durante la 1ª exposición a pantallas	< 12 meses	39 (45,3 %)	47 (54,7 %)	0,001
	≥ 12 meses	103 (66,9 %)	51 (33,1 %)	
Uso de pantallas con los padres	Sí	114 (64,8 %)	62 (35,2 %)	0,003
	No	28 (43,8 %)	36 (56,3 %)	

*n (%)/media ± DE

TABLA 2. Análisis de regresión logística de los factores asociados con el tiempo de uso de pantallas en los niños*

		Tiempo de uso de pantallas (≥ 4 horas)			p
		AOR ^a	Inferior	Superior	
Sexo	Femenino	0,574	0,32	1,04	0,067
	Masculino	1			
Educación materna	Escuela secundaria o inferior	1,67	0,74	3,84	0,217
	Superior a la escuela secundaria	1			
Educación paterna	Escuela secundaria o inferior	2,01	0,87	4,62	0,101
	Superior a la escuela secundaria	1			
Ocupación de la madre	Ama de casa	4,84	0,87	26,91	0,071
	Trabaja fuera de la casa	1			
Cuidador	Madre	16,88	2,85	99,96	0,002
	Abuelos/niñera	2,05	0,81	5,19	
	Jardín de infantes	1			
Cantidad de hijos	1	1,08	0,43	2,71	0,866
	≥ 2	1			
Orden de nacimiento	1	0,52	0,22	1,21	0,130
	≥ 2	1			
Edad durante la 1ª exposición a pantallas	< 12 meses	2,62	1,43	4,80	0,002
	≥ 12 meses	1			
Uso de pantallas con los padres	Sí	0,42	0,21	0,82	0,012
	No	1			

* Ajustado en función del sexo, la educación materna, la educación paterna, la ocupación de la madre, el cuidador, la cantidad de hijos, el orden de nacimiento, la edad durante la primera exposición a una pantalla y ver pantallas en compañía de los padres.

** Categoría de referencia: ≤ 1 hora.

^a Razón de posibilidades ajustada.^b Intervalo de confianza.

fue significativamente mayor entre los niños con un uso de pantallas ≥ 4 horas y que no estaban acompañados por sus padres al usar pantallas ($p = 0,004$; $p = 0,033$, respectivamente).

DISCUSIÓN

Los avances en las tecnologías de la información y la comunicación han incrementado

el uso de los dispositivos tecnológicos. Como consecuencia de este aumento en el uso, a los niños preescolares les resulta más fácil familiarizarse con dispositivos como tabletas y teléfonos inteligentes antes de adquirir habilidades básicas.¹⁷ Con el objetivo de revelar los posibles efectos de la exposición a pantallas, en este estudio se compararon los grupos con

TABLA 3. Asociación entre las características sociodemográficas y la proporción de cuartiles más altos de puntuaciones en la escala de regulación emocional*

		Total n	Puntuación de RE 4° cuartil	p	Puntuación de L/N 4° cuartil	p	Puntuación total 4° cuartil	p
Edad	< 48 meses	150	50 (33,3 %)	0,369	38 (25,3 %)	0,131	45 (30,0 %)	0,088
	≥ 48 meses	90	25 (27,8 %)		31 (34,4 %)		18 (20,0 %)	
Sexo	Femenino	118	41 (34,7 %)	0,251	29 (24,6 %)	0,160	34 (28,8 %)	0,375
	Masculino	122	34 (27,9 %)		40 (32,8 %)		29 (23,8 %)	
Edad materna	< 30 años	103	32 (31,1 %)	0,958	29 (28,2 %)	0,860	25 (24,3 %)	0,546
	≥ 30 años	137	43 (31,4 %)		40 (29,2 %)		38 (27,7 %)	
Edad paterna	< 30 años	53	20 (37,7 %)	0,248	14 (26,4 %)	0,670	13 (24,5 %)	0,747
	≥ 30 años	187	55 (29,4 %)		55 (29,4 %)		50 (26,7 %)	
Educación materna	Escuela secundaria o inferior	67	25 (37,3 %)	0,207	16 (23,9 %)	0,300	21 (31,3 %)	0,264
	Superior a la escuela secundaria	173	50 (28,9 %)		53 (30,6 %)		42 (24,3 %)	
Educación paterna	Escuela secundaria o inferior	58	22 (37,9 %)	0,207	19 (32,8 %)	0,439	14 (24,1 %)	0,675
	Superior a la escuela secundaria	152	53 (29,1 %)		50 (27,5 %)		49 (26,9 %)	
Ocupación de la madre	Ama de casa	122	36 (29,5 %)	0,554	36 (29,5 %)	0,792	32 (26,2 %)	0,994
	Trabaja fuera de la casa	118	39 (33,1 %)		33 (28,0 %)		31 (26,3 %)	
Cuidador	Madre	125	36 (28,8 %)	0,338	40 (32,0 %)	0,504	31 (24,8 %)	0,867
	Abuelos/niñera	65	25 (38,5 %)		16 (24,6 %)		18 (27,7 %)	
	Jardín de infantes	50	14 (28,0 %)		10 (26,0 %)		14 (28,0 %)	
Cantidad de hijos	1	91	24 (26,4 %)	0,203	22 (24,2 %)	0,221	23 (25,3 %)	0,788
	≥ 2	149	51 (34,2 %)		47 (31,5 %)		40 (26,8 %)	
Orden de nacimiento	1	132	39 (29,5 %)	0,529	37 (28,0 %)	0,785	31 (23,5 %)	0,282
	≥ 2	108	36 (33,3 %)		32 (29,6 %)		32 (29,6 %)	

* n (%).

TABLA 4. Asociación entre las características del tiempo de uso de pantallas y la proporción de cuartiles más altos de puntuaciones en la escala de regulación emocional*

		Total n	Puntuación de RE 4.º cuartil	p	Puntuación de L/N 4.º cuartil	p	Puntuación total 4.º cuartil	p
Tiempo de uso de pantallas	< 1 hora	142	50 (35,2 %)	0,111	31 (21,8 %)	0,004	37 (26,1 %)	0,935
	≥ 4 horas	98	25 (25,5 %)		38 (38,8 %)		26 (26,5 %)	
Edad durante la 1ª exposición a pantallas	< 12 meses	86	25 (29,1 %)	0,586	28 (32,6 %)	0,330	23 (26,7 %)	0,897
	≥ 12 meses	154	50 (32,5 %)		41 (26,6 %)		40 (26,0 %)	
Uso de pantallas con los padres	Sí	176	61 (34,7 %)	0,059	44 (25,0 %)	0,033	49 (27,8 %)	0,353
	No	64	14 (21,9 %)		25 (39,1 %)		14 (21,9 %)	
Reacciona ante las limitaciones del tiempo de uso de pantallas	Sí	93	25 (26,9 %)	0,246	31 (33,3 %)	0,212	22 (23,7 %)	0,468
	No	147	50 (34,0 %)		38 (25,9 %)		41 (27,9 %)	
Pospone las necesidades diarias	Sí	121	35 (28,9 %)	0,433	39 (32,2 %)	0,230	29 (24,0 %)	0,418
	No	119	40 (33,6 %)		30 (25,2 %)		34 (29,6 %)	

*n (%)

el menor tiempo de uso de pantallas y aquellos que superaban ampliamente el tiempo de uso de pantallas recomendado.

Es posible que pasar tiempo usando pantallas e interactuando con ellas en lugar de con los padres u otros seres humanos reduzca el tiempo en que los niños pueden practicar sus habilidades para reconocer las emociones de los demás y experimentar las emociones suscitadas al interactuar con otros. Skalická y cols.,¹⁸ sugirieron que la exposición prolongada a pantallas podría afectar los procesos de socialización de los niños pequeños y derivar en una menor capacidad para comprender las emociones. La RE se plantea como la capacidad de modulación emocional que permite que las personas establezcan la relación más adecuada con el entorno. Es fundamental para iniciar, motivar y organizar la conducta adaptativa y necesaria para prevenir niveles estresantes de emociones negativas. La labilidad emocional/negatividad se describe como la rapidez que tiene un niño para responder a emociones que provocan estímulos y la dificultad simultánea para recuperarse de reacciones emocionales negativas.¹⁹ Se informó que los niños con una mayor labilidad emocional/negatividad tenían un menor funcionamiento social adecuado.²⁰ Además, los niños con una elevada emotividad negativa, como la ira, eran más propensos a tener problemas interiorizados y exteriorizados durante la niñez y la adolescencia.²¹

Dado que se trata de un factor presente en la vida de los niños que compite con el comportamiento de los padres y cuyos efectos aumentan día a día, la pregunta es la siguiente: “¿Hasta qué punto el tiempo de uso de pantallas afecta la RE?”. El uso excesivo de pantallas (p. ej., más de 2 a 3 h de exposición a medios electrónicos) puede afectar el cerebro en desarrollo, con importantes consecuencias en el desarrollo cognitivo y motriz, el aprendizaje y la memoria, la RE y la salud en general. En las investigaciones se sugiere que la exposición temprana y prolongada a medios electrónicos está asociada con un mayor riesgo de tener síntomas psiquiátricos, en especial problemas de atención e hiperactividad, trastornos de ansiedad y depresión.²² También se demostró que una elevada exposición a la televisión de fondo en menores de 5 años reduce la cantidad y la calidad de las interacciones entre padres e hijos y les quita tiempo de juego, afecta negativamente el uso y la adquisición del lenguaje, la atención, el desarrollo cognitivo y la función ejecutiva.²³

En la bibliografía existente relativa a niños más grandes y adolescentes, hay posturas divididas sobre la relación entre el uso de pantallas y el bienestar: en algunos estudios se observaron efectos perjudiciales y en otros, correlaciones de daño desdeñables y no significativas. Hay poco conocimiento sobre cómo el tiempo de uso de pantallas se vincula con el bienestar psicológico, en especial en menores de 5 años.²⁴ En un estudio reciente, se observó que los niños y adolescentes de 2 a 17 años que pasaban más tiempo delante de una pantalla tenían menor bienestar psicológico que aquellos que pasaban menos tiempo. Se observó que los usuarios intensivos de las pantallas eran significativamente más propensos a tener una regulación emocional deficiente, que implicaba perder la calma, discutir en exceso y tener dificultades para llevarse bien con otras personas.²⁵ En este estudio, también se observó que los niños con un uso excesivo de pantallas eran más inestables y negativos emocionalmente. Además, no se halló una relación entre el componente de la RE y el tiempo de uso de pantallas. La Academia Estadounidense de Pediatría también recomienda que los padres acompañen a sus hijos mientras usan pantallas y los ayuden a comprender lo que están viendo.³ En este estudio, se logró justificar esta propuesta en relación con la regulación emocional, ya que se determinó que los niños que estaban solos delante de pantallas eran más inestables emocionalmente. Por lo tanto, dado que muchas madres no tienen suficientes conocimientos sobre el uso adecuado de pantallas en sus hijos, como el uso acompañado por los padres, es importante indagar sobre los hábitos de uso de los medios e informarlas del uso correcto. Durante la pandemia, el tiempo de uso de pantallas entre los niños se vio afectado. Incluso en estas condiciones, se debe hacer hincapié en la importancia de la vida familiar y la actividad física para los niños. En estudios anteriores se informaron resultados discordantes sobre la relación existente entre la educación materna, la educación paterna, el sexo del niño y el tiempo de uso de pantallas.^{26,27} De forma similar a los resultados expuestos por Trinh y cols.,²⁸ en este estudio se demostró una relación inversa entre el nivel de educación de los padres y el tiempo de uso de pantallas en los niños, y también se observó que el sexo masculino estaba asociado con un mayor tiempo de uso de pantallas. Además, Maatta y cols.,²⁹ demostraron que los padres con un mayor nivel de educación imponían menos normas descriptivas, usaban

menos pantallas delante de sus hijos y le daban más importancia a limitar el tiempo de uso de pantallas en los niños en comparación con los padres con un nivel educativo menor.

Los hallazgos relacionados con la ocupación de la madre, la presencia de hermanos y el tiempo de uso de pantallas en los niños difirieron en estudios anteriores.²⁸ Hinkley y cols.,³⁰ no hallaron ninguna asociación entre el trabajo de la madre, la presencia de hermanos y el tiempo de uso de pantallas en niños preescolares. Por el contrario, Wu y cols.,³¹ informaron que los niños cuyas madres eran amas de casa usaban dispositivos electrónicos con mayor frecuencia que aquellos cuyas madres trabajaban fuera del hogar. De conformidad con estos hallazgos, en un estudio anterior, se observó que los niños que recibían cuidado en sus hogares eran más propensos a estar expuestos a la televisión que aquellos que acudían a un jardín de infantes.³² En este estudio, se observó que el hecho de que la madre fuera ama de casa y la presencia de hermanos eran determinantes positivos para el tiempo de uso de pantallas. También se observó que el tiempo de uso de pantallas de los niños que acudían a un jardín de infantes era significativamente menor. Es posible que la presencia de hermanos aumente la carga de trabajo de la madre y disminuya el tiempo de calidad que el niño pasa con ella, por lo que el tiempo de uso de pantallas aumenta cuando los niños son cuidados en sus hogares. Otro posible motivo es que los hermanos son modelos en lo que respecta al uso de las pantallas.

La fortaleza de este estudio es que es el primero en examinar la asociación entre la RE y el uso excesivo de pantallas en niños preescolares con una escala estandarizada. En este estudio, también hay algunas limitaciones que deben tenerse en cuenta. En primer lugar, las madres informaron el tiempo de uso de pantallas, por lo que es posible que se lo haya subestimado. No obstante, se espera que las madres tengan una noción acerca del tiempo ideal de uso de pantallas para tomar partido al responder el cuestionario. En este estudio, es posible considerar que la probabilidad de sesgo disminuye por la gran proporción de madres que informaron que sus hijos pasan más de 4 horas delante de pantallas. En segundo lugar, si bien las madres participantes no tenían un diagnóstico de enfermedades psiquiátricas, su bienestar psicológico puede constituir un factor de confusión. Esto debería tenerse en cuenta en estudios futuros. En tercer lugar, no se indagó sobre la cantidad total de

horas que los niños permanecían en el jardín de infantes. No obstante, independientemente de cuánto permanecían en el jardín de infantes, el hecho de que los niños acudieran a uno se asoció con poco tiempo de uso de pantallas.

CONCLUSIONES

En este estudio, donde se investigó la relación entre las habilidades de regulación emocional y el uso de pantallas, se observó que un uso excesivo de pantallas se asocia con labilidad emocional durante esta etapa temprana de la infancia. ■

REFERENCIAS

1. Sevcikova A. Two sides of the same coin: communication technology, media use, and our kids' health. *Int J Public Health*. 2015; 60(2):129-30.
2. Radesky JS, Schumacher J, Zuckerman B. Mobile and interactive media use by young children: the good, the bad, and the unknown. *Pediatrics*. 2015; 135(1):1-3.
3. Council on Communications and Media. Media and young minds. *Pediatrics*. 2016; 138(5):e20162591.
4. American Academy of Child & Adolescent Psychiatry. Media Habits During COVID-19: Children & Teens on Screens in Quarantine. AACAP. 2020. [Fecha de acceso: 14 de septiembre de 2020]. Disponible en: https://www.aacap.org/App_Themes/AACAP/Docs/resource_libraries/covid-19/Screen-Time-During-COVID.pdf
5. Kostyrka-Allchome K, Cooper NR, Simpson A. The relationship between television exposure and children's cognition and behaviour: A systematic review. *Dev Rev*. 2017; 44:19-58.
6. Lissak G. Adverse physiological and psychological effects of screen time on children and adolescents: literature review and case study. *Environ Res*. 2018; 164:149-57.
7. Schmidt ME, Rich M, Rifas-Shiman SL, Oken E, et al. Television viewing in infancy and child cognition at 3 years of age in a US cohort. *Pediatrics*. 2009; 123(3):e370-5.
8. Linebarger DL, Vaala SE. Screen media and language development in infants and toddlers: An ecological perspective. *Dev Rev*. 2010; 30(2):176-202.
9. Thompson R. Emotion regulation: a theme in search of a definition. En: Fox NA, ed. *Emotion Regulation: Biological and Behavioral Considerations*. Monographs of the Society for Research in Child Development. Chicago: University of Chicago Press; 1994; 59:25-52.
10. Roque L, Verissimo M, Fernandes M, Rebelo A. Emotion regulation and attachment: Relationships with children's secure base, during different situational and social contexts in naturalistic settings. *Infant Behav Dev*. 2013; 36(3):298-306.
11. Garber J, Dodge KA. *Cambridge studies in social and emotional development. The development of emotion regulation and dysregulation*. Cambridge: University Press; 1991.
12. Akçay D, Özcebe H. Evaluation of Computer Game Playing Habits of Children at Pre-School Education Levels and Their Families. *J Child*. 2012; 12:66-71.
13. Yalçın S, Yıldız Yahşi D, Oflu A, Tezol Ö, et al. Multi-centered investigation of pre-school children's screen time and digital game playing habits. Fulltext paper. International Child and Information Safety Congress "Digital Games". April 11-13, 2018. Ankara.
14. Waisman I, Hidalgo E, Rossi ML. Uso de pantallas en niños pequeños en una ciudad de Argentina. *Arch Argent Pediatr*. 2018; 116(2):186-95.

15. Shields A, Cicchetti D. Emotion regulation among school-age children: The development and validation of a new criterion Q-sort scale. *Dev Psychol.* 1997; 33(6):906-16.
16. Batum P, Yağmurlu B. What counts in externalizing behaviors? The contributions of emotion and behavior regulation. *Curr Psychol.* 2007; 25:272-94.
17. Ergüney M. İnternetin Okul Öncesi Dönemdeki Çocuklar Üzerindeki Etkileri Hakkında Bir Araştırma. *Ulakbilge.* 2017; 5(17):1917-38.
18. Skalická V, Wold Hygen B, Stenseng F, Kårstad SB, et al. Screen time and the development of emotion understanding from age 4 to age 8: A community study. *Br J Dev Psychol.* 2019; 37:427-43.
19. Kim-Spoon J, Cicchetti D, Rogosch FA. A longitudinal study of emotion regulation, emotion lability-negativity, and internalizing symptomatology in maltreated and nonmaltreated children. *Child Dev.* 2013; 84(2):512-27.
20. Eisenberg N, Fabes RA, Murphy B, Maszk P, et al. The role of emotionality and regulation in children's social functioning: A longitudinal study. *Child Dev.* 1995; 66(5):1360-84.
21. Kim J, Deater-Deckard K. Dynamic changes in anger linking to developmental trajectories of internalizing and externalizing problems: The moderating role of attention. *J Child Psychol Psychiatry.* 2011; 52(2):156-66.
22. Neophytou E, Manwell L, Eikelboom R. Effects of Excessive Screen Time on Neurodevelopment, Learning, Memory, Mental Health, and Neurodegeneration: a Scoping Review. *Int J Ment Health Addict.* 2019; [En prensa].
23. Canadian Paediatric Society, Digital Health Task Force, Ottawa, Ontario. Screen time and young children: Promoting health and development in a digital world. *Paediatr Child Health.* 2018; 23(1):83.
24. Przybylski AK, Weinstein N. Digital screen time limits and young children's psychological well-being: Evidence from a population-based study. *Child Dev.* 2019; 90(1):e56-65.
25. Twenge JM, Campbell WK. Associations between screen time and lower psychological well-being among children and adolescents: Evidence from a population-based study. *Prev Med Rep.* 2018; 12:271-83.
26. Duch H, Fisher EM, Ensari I, Harrington A. Screen time use in children under 3 years old: a systematic review of correlates. *Int J Behav Nutr Phys Act.* 2013; 10:102.
27. Carson V, Janssen I. Associations between factors within the home setting and screen time among children aged 0-5 years: a cross-sectional study. *BMC Public Health.* 2012; 12:539.
28. Trinh MH, Sundaram R, Robinson SL, Lin TC, et al. Association of Trajectory and Covariates of Children's Screen Media Time. *JAMA Pediatr.* 2019; 174(1):71-8.
29. Määttä S, Kaukonen R, Vepsäläinen H, Lehto E, et al. The mediating role of the home environment in relation to parental educational level and preschool children's screen time: a cross-sectional study. *BMC Public Health.* 2017; 17(1):688.
30. Hinkley T, Salmon J, Okely AD, Trost SG. Correlates of sedentary behaviours in preschool children: a review. *Int J Behav Nutr Phys Act.* 2010; 7:66.
31. Wu CST, Fowler C, Lam WYY, Wong HT, et al. Parenting approaches and digital technology use of preschool age children in a Chinese community. *Ital J Pediatr.* 2014; 40:44.
32. Christakis DA, Garrison MM. Preschool-aged children's television viewing in child care settings. *Pediatrics.* 2009; 124(6):1627-32.

Artículos seleccionados

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

Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed. 2020 Sep 28;fetalneonatal-2020-319767.

Incidencia de retinopatía del prematuro en Alemania: evaluación de los criterios actuales de detección (Larsen PP, et al. *Incidence of retinopathy of prematurity in Germany: evaluation of current detection criteria*)

Comentario: Dr. José María Ceriani Cernadas. Editor *Archivos Argentinos de Pediatría*.

BMJ. 2020 Nov 25;371:m4075.

Edad gestacional e ingresos hospitalarios durante la infancia: estudio con base poblacional de vinculación de registros en Inglaterra (estudio TIGAR) (Coathup V, et al. *Gestational age and hospital admissions during childhood: population based, record linkage study in England (TIGAR study)*)

Comentario: Dr. Néstor E. Vain. Sanatorios de la Trinidad Palermo, San Isidro y Ramos Mejía.
Dra. Fabiana Herbón. Sanatorios de la Trinidad Palermo y Ramos Mejía.

JAMA Pediatr. 2020 Sep 28;174(11):1-7.

Introducción temprana de gluten y enfermedad celíaca en el estudio EAT: un análisis preespecificado del estudio clínico aleatorizado EAT (Logan K, et al. *Early gluten introduction and celiac disease in the eat study: a prespecified analysis of the eat randomized clinical trial*)

Comentario: Dra. María del Carmen Toca. Hospital Nacional Alejandro Posadas. Buenos Aires.

Excessive screen time is associated with emotional lability in preschool children

Ayşe Oflu, M.D., Assistant Professor^a, Özlem Tezol, M.D., Assistant Professor^b, Songul Yalcin, M.D., PhD, Professor^c, Deniz Yildiz, M.D.^d, Nilgun Caylan, M.D.^e, Dilsad F. Ozdemir, M.D., Professor^f, Seyma Cicek, M.D.^g and Meryem E. Nergiz, M.D.^h

ABSTRACT

Introduction. Previous studies have found that excessive screen time or early screen exposure is associated with poor attention, lack of behavioral control, delayed language and deficit in executive functions. The aim of this study was to investigate the relationship between screen time and emotion regulation skills, which is one of the important life components affecting the social relations of children aged 2 to 5 years.

Population and methods. This cross-sectional descriptive study was carried out in a university hospital between January 1, 2018 and March 1, 2018. Mothers of healthy children aged 2-5 years with a daily screen time of less than 1 hour or over 4 hours were included in the study. A structured survey and the Emotion Regulation Checklist for parents were applied to the mothers who agreed to participate.

Results. Of 240 children participating in the study, 98 (40.8 %) had ≥ 4 hours of screen time. Caring by mother, age at first screen exposure 12 months and older, not co-viewing with parents were found to be associated with ≥ 4 hours of screen time ($p = 0.002$, $p = 0.002$, $p = 0.012$, respectively). The ratio of participants with high-lability / negativity (L/N) score was significantly higher in children with screen time of ≥ 4 hours and not co-viewing with parents ($p = 0.004$, $p = 0.033$, respectively).

Conclusions. This study investigating the relationship between the emotion regulation skill and screen time revealed that excessive screen time is associated with emotional lability in this early childhood period.

Key words: emotional regulation, screen time, child.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.106>

To cite: Oflu A, Tezol O, Yalcin S, Yildiz D, et al. Excessive screen time is associated with emotional lability in preschool children. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):106-113.

- a. Department of Pediatrics, Afyonkarahisar Health Sciences University, Faculty of Medicine, Afyonkarahisar.
- b. Department of Pediatrics, Mersin University, Faculty of Medicine, Mersin.
- c. Department of Pediatrics, Hacettepe University, Faculty of Medicine; Ankara.
- d. Department of Pediatrics, Dr. Sami Ulus Child Hospital, Ankara.
- e. Department of Child and Adolescents Health, Ministry of Health, Ankara.
- f. Department of Child and Adolescents Psychiatry, Hacettepe University, Faculty of Medicine, Ankara.
- g. Department of Pediatrics, Etimesgut Sahit Sait Ertürk Hospital, Ankara.
- h. Department of Pediatrics, Yıldırım Beyazıt University, Yenimahalle Research Hospital, Ankara.

E-mail address:

Ayşe Oflu, M.D.:
ayseoflu@gmail.com

Funding:

None.

Conflict of interest:

None.

Received: 5-23-2020

Accepted: 9-11-2020

INTRODUCTION

In recent years, there has been a marked increase in media diversity and usage. Traditional (television) and new media (mobile phones, smartphones, tablets, and social media) have come to dominate the lives and leisure time of many children.¹ This diversity and increase use of media has also affected the pre-schoolers. Now for pre-schoolers, screen time not only includes watching television, but also the use of computers and mobile devices with touchscreen.² According to the American Academy of Pediatrics (AAP) guidelines, children below the age of two years should not have any screen exposure, and screen time of ≥ 1 hour per day is defined as excessive among children aged 2-5 years. In addition the use of digital media should be restricted for children while eating or one hour before sleeping, in order to grow and develop properly.³ Nowadays, the American Academy of Pediatrics released new recommendations for media habits during COVID-19 pandemic, setting a structured daily routine for children and teens, limiting screen entertainment. A greater allowance is often warranted for screen entertainment during the COVID-19 crisis but it is also recommended not to take up the majority of any child's waking hours or interfere with sleep.⁴

The results of previous researches on the effect of screen time on cognitive processes vary in preschool children. Excessive screen time or early screen exposure is associated with poor attention, lack of behavioural control, delayed

language and deficits in executive functions.⁵ Excessive screen use is also reported to result in neuroanatomical changes which are related to decreased empathy, poor impulse control, and emotional processing.⁶ Some studies have shown that screen time is not a strong predictor of problems in these cognitive skills.⁷ It has been reported that beginning at about 2 years, well-designed, age-appropriate TV programs with specific educational goals can provide an additional route to early language and literacy for children. Quality programs also promote cognitive development aspects, including positive racial attitudes and creative play.⁸

Emotional regulation (ER) is defined as the extrinsic and intrinsic processes responsible for monitoring, evaluating, and modifying emotional reactions. ER covers the management and organization of various systems and components, such as the internal systems, social and behavioral components.⁹ ER supplies more adaptive strategic behaviors and encourages appropriate and flexible responses in different emotional contexts.¹⁰ Emotional regulation has a gradual development over time with a series of skills gained following birth.¹¹ This developmental process involves neurobiological development (development of the frontal lobe), conceptual development (understanding emotional processes) and socializing skills. It is very important as a process in which individual differences in emotional regulation skills of adults develop. Children interact more with the outside world, and social contexts expand in the preschool period. During this period, children become more skilled in terms of emotional regulation as they realize that there are possibilities of approaching, moving away or changing emotions that may attract emotional attention.¹²

Considering the importance of social interactions in gaining the ability of ER, the purpose of this study is to examine the associations between screen time and ER of children aged 2 to 5 years.

MATERIAL AND METHODS

Study design

This study was designed as a cross-sectional descriptive study and carried out in a university hospital between January 1, 2018 and March 1, 2018. Mothers of healthy children aged 2-5 years with a daily screen time of less than 1 hour or over 4 hours were included in the study. Children having a history of prematurity and insufficient

birth weight, not breastfed at all, those with a delay in language development and having chronic physical and psychiatric illness were excluded. The reason for determining these exclusion criteria was to exclude the effect of resume features that could cause behavioural problems. A structured survey and the Emotion Regulation Checklist (ERC) for parents were applied to the mothers who agreed to participate.

Permission to carry out the study was approved by the local ethics committee. All study procedures were performed in accordance with the Declaration of Helsinki.

Data collection

The number of mothers who applied to pediatric outpatient clinic, was calculated as 1570/month, based on previous months' records. In Turkey, the ratio of children using screens for over four hours was found to be as 19.7 % in a previous multicenter study.¹³ Accompanied by these data, the minimum sample size was calculated as 226 with a 95 % confidence interval using 'OpenEpi (<https://www.openepi.com/SampleSize/SSPropor.Htm>) calculator' according to $n = [DEFF * Np(1-p)] / [(d^2 / Z^2_{1-\alpha/2} * (N-1) + p * (1-p)]$ equation. The parameters were sustained as population size (N): 3140, % frequency of (p): 19.7 % +/-5, confidence limits as % (d): 5 %.

As in other studies¹⁴ only mother-child couples were included in this study. The potential bias would be negligible because more reliable and accurate information about children could be obtained from mothers; secondly, children were mostly brought to the hospital by mothers in this region. Since the hospital where the study was conducted is a health institution that people of all sociocultural levels apply, the representative power of the sample was accepted to be sufficient. The mother-child couple waiting in the waiting room before the examination were informed about the content and purpose of the study, consent was obtained, but they were not informed about the ideal screen time. Then, mothers were asked to fill a structured survey and ERC. The surveys and scales were collected during the examination. Counseling was made at the points where problems were detected and monitoring was planned.

Structured survey

The structured paper survey consisted of twenty-four questions that were fulfilled by the mothers. Age, gender, parental ages and

educational levels, mother's working status, family structure, number of children in the family, family type, caregiver of the child (mother or else), the income level were questioned as socio-demographic data. Participants were grouped according to daily screen time as low (≤ 1 h/day) or high (≥ 4 h/day). Child's first age of exposure to the screen, co-viewing with parents, reacting to the limitation of the screen time, delaying daily needs was also questioned.

Emotion Regulation Checklist (ERC)

ERC was developed in 1997 by Shields and Cicchetti.¹⁵ The validity, reliability, and adaptation of the scale for Turkish children were studied by Batum in 2007.¹⁶ The ERC can be answered by adults who know the child well, such as a father, mother or caregiver. The ERC contains 24 items that are assessed on a four-point Likert scale (1 = never; 2 = sometimes; 3 = often; 4 = almost always). The ERC includes two subscales: lability/negativity subscale (L/N-S) and Emotion Regulation subscale (ER-S). ER-S consists of 10 items to elicit the child's emotional self-awareness and constructive emotional expressiveness; and the L/N-S consist of 13 items that measure lack of flexibility, emotional activation, reactivity, anger dysregulation, and mood lability. The internal consistency of both subscales has been shown to be adequate (L/N $\alpha = 0.96$; ER $\alpha = 0.83$). High scores from the scale indicate that the child has a high level of emotion regulation skills.

Statistical analysis

Descriptive statistics were presented as numbers and percentages for categorical data. The χ^2 test was used to compare the frequencies of categorical variables. Multivariate logistic regression analysis was performed to determine the factors associated with screen time of children after adjusting for the gender, maternal education, paternal education, maternal occupation, caregiver, number of children, birth order, age at first screen exposure, co-viewing with parents. Adjusted ORs were calculated at 95 % confidence intervals. The total ERC score, ER score and L/N scores were divided into quartiles and ratio of participants having the highest quartiles were used in the analyse for comparison. The level of statistical significance was set at $P < 0.05$. Statistical analysis was performed with SPSS version 22.0 (IBM Corp., Armonk, NY, USA).

RESULTS

Of the 240 children participating in the study, 98 (40.8 %) had ≥ 4 hours of screen time. *Table 1* shows the associations between socio-demographic factors and screen time. Logistic regression analysis on factors associated with screen time of children are shown in *Table 2*. Caring by mother; age at first screen exposure 12 months and older; not co-viewing with parents were found to be associated with ≥ 4 hours of screen time.

Associations between socio-demographic characteristics and participants with high-ERC scores are given in *Table 3*. *Table 4* shows the associations between screen time characteristics and high-ERC scores. The ratio of participants with high-L/N score was significantly higher in children with screen time of ≥ 4 hours and not co-viewing with parents ($p = 0.004$, $p = 0.033$, respectively).

DISCUSSION

Progress in information and communication technologies has increased the use of technological devices. This increase made it easier for preschool children to get acquainted with devices such as tablets and smartphones before acquiring basic skills.¹⁷ The present study, in order to reveal the possible effects of the screen exposure, compared the groups with the least screen time and those that were far above the recommended screen time.

Spending time on screen and interacting with a screen rather than parents or other humans may reduce the amount of time in which children can practice their ability to recognize emotions in others, experience the emotions of interacting with others. Skalická et al.,¹⁸ suggested that extended screen time exposure might impair young child's socialization processes and result in a lower ability to understand emotions. ER is conceptualized as the emotional modulation ability that enables the person to establish the most appropriate relationship with the environment. It is critical both in initiating, motivating, and organizing adaptive behavior, and need for the prevention of stressful levels of negative emotions. Emotion lability/negativity is described as child's rapidity in responding to emotion eliciting stimuli and simultaneous difficulty in recovering from negative emotional reactions.¹⁹ Children with higher emotion lability/negativity were reported to show lower levels of competent social functioning.²⁰ Furthermore,

TABLE 1. Relations of sociodemographic factors with screen time of children*

		Screen time		p
		≤ 1 hours n = 142 (58.2 %)	≥ 4 hours n = 98 (40.8 %)	
Age	< 48 months	95 (63.3 %)	55 (36.7 %)	0.090
	≥ 48 months	47 (52.2 %)	43 (47.8 %)	
Gender	Female	78 (66.1 %)	40 (33.9 %)	0.032
	Male	64 (52.5 %)	58 (47.5 %)	
Maternal age, mean ± SD	Years	31.8 ± 5.0	32.1 ± 5.3	0.865
Paternal age, mean ± SD	Years	34.2 ± 4.8	35.7 ± 6.0	0.214
Maternal education	≤ high school	58 (46.8 %)	66 (53.2 %)	<0.001
	> high school	84 (72.4 %)	32 (27.6 %)	
Paternal education	≤ high school	63 (51.6 %)	59 (48.4 %)	0.016
	> high school	79 (66.9 %)	39 (33.1 %)	
Maternal occupation	Housewife	61 (50.0 %)	61 (50.0 %)	0.003
	Working	81 (68.6 %)	37 (31.4 %)	
Caregiver	Mother	58 (46.8 %)	66 (53.2 %)	<0.001
	Grandparents/Nursemaid	45 (66.2 %)	23 (33.8 %)	
	Nursery	39 (81.3 %)	9 (18.8 %)	
Number of children	1	65 (71.4 %)	26 (28.6 %)	0.003
	≥ 2	77 (51.7 %)	72 (48.3 %)	
Birth order	1.	88 (66.7 %)	44 (33.3 %)	0.009
	≥ 2.	54 (50.0 %)	54 (50.0 %)	
Age at first screen exposure	< 12 months	39 (45.3 %)	47 (54.7 %)	0.001
	≥ 12 months	103 (66.9 %)	51 (33.1 %)	
Co-viewing with parents	Yes	114 (64.8 %)	62 (35.2 %)	0.003
	No	28 (43.8 %)	36 (56.3 %)	

*n (%) / mean ± SD

TABLE 2. Logistic regression analysis on factors associated with screen time of children*

		Screen time (≥ 4 hours)	95 % CI ^b		p		
		AOR ^a	Lower	Upper			
Gender	Female	0.574	0.32	1.04	0.067		
	Male	1					
Maternal education	≤ high school	1.67	0.74	3.84	0.217		
	> high school	1					
Paternal education	≤ high school	2.01	0.87	4.62	0.101		
	> high school	1					
Maternal occupation	Housewife	4.84	0.87	26.91	0.071		
	Working	1					
Caregiver	Mother	16.88	2.85	99.96	0.002		
	Grandparents/Nursemaid	2.05				0.81	5.19
	Nursery	1					
Number of children	1	1.08	0.43	2.71	0.866		
	≥ 2	1					
Birth order	1.	0.52	0.22	1.21	0.130		
	≥ 2.	1					
Age at first screen exposure	< 12 months	2.62	1.43	4.80	0.002		
	≥ 12 months	1					
Co-viewing with parents	Yes	0.42	0.21	0.82	0.012		
	No	1					

* Adjusted for gender, maternal education, paternal education, maternal occupation, caregiver, number of children, birth order, age at first screen exposure, co-viewing with parents.

** Reference category: ≤ 1 hours.

^a Adjusted Odds Ratio.^b Confidence interval.

children with high negative emotionality such as anger more inclined to develop both internalizing and externalizing problems in childhood and youth.²¹

As a factor that has a place in the life of children that competes with parental behavior

and whose effect is increasing day by day, the question is “To what extent does screen time affect ER?”. Excessive screen time (e.g., more than 2-3 h exposure to electronic media) can affect the developing brain which has important consequences for cognitive and motor

TABLE 3. The association between socio-demographic characteristics and the ratio of having the highest quartiles of emotional regulation scale scores*

		Total n	ER Score 4 th quartile	p	L/N Score 4 th quartile	p	Total Score 4 th quartile	p	
Age	< 48 months	150	50 (33.3 %)	0.369	38 (25.3 %)	0.131	45 (30.0 %)	0.088	
	≥ 48 months	90	25 (27.8 %)		31 (34.4 %)		18 (20.0 %)		
Gender	Female	118	41 (34.7 %)	0.251	29 (24.6 %)	0.160	34 (28.8 %)	0.375	
	Male	122	34 (27.9 %)		40 (32.8 %)		29 (23.8 %)		
Maternal age	< 30 years	103	32 (31.1 %)	0.958	29 (28.2 %)	0.860	25 (24.3 %)	0.546	
	≥ 30 years	137	43 (31.4 %)		40 (29.2 %)		38 (27.7 %)		
Paternal age	< 30 years	53	20 (37.7 %)	0.248	14 (26.4 %)	0.670	13 (24.5 %)	0.747	
	≥ 30 years	187	55 (29.4 %)		55 (29.4 %)		50 (26.7 %)		
Maternal education	≤ high school	67	25 (37.3 %)	0.207	16 (23.9 %)	0.300	21 (31.3 %)	0.264	
	> high school	173	50 (28.9 %)		53 (30.6 %)		42 (24.3 %)		
Paternal education	≤ high school	58	22 (37.9 %)	0.207	19 (32.8 %)	0.439	14 (24.1 %)	0.675	
	> high school	152	53 (29.1 %)		50 (27.5 %)		49 (26.9 %)		
Maternal occupation	Housewife	122	36 (29.5 %)	0.554	36 (29.5 %)	0.792	32 (26.2 %)	0.994	
	Working	118	39 (33.1 %)		33 (28.0 %)		31 (26.3 %)		
Caregiver	Mother	125	36 (28.8 %)	0.338	40 (32.0 %)	0.504	31(24.8 %)	0.867	
	Grandparent/								
	Nursemaid/	65	25 (38.5 %)		16 (24.6 %)		18 (27.7 %)		
	Nursery	50	14 (28.0 %)		10 (26.0 %)		14 (28.0 %)		
Number of children	1	91	24 (26.4 %)	0.203	22 (24.2 %)	0.221	23 (25.3 %)	0.788	
	≥ 2	149	51 (34.2 %)		47 (31.5 %)		40 (26.8 %)		
Birth order	1.	132	39 (29.5 %)	0.529	37 (28.0 %)	0.785	31 (23.5 %)	0.282	
	≥ 2.	108	36 (33.3 %)		32 (29.6 %)		32 (29.6 %)		

*n (%)

TABLE 4. The association between screen time characteristics and the ratio of having the highest quartiles of emotional regulation scale scores*

		Total n	ER Score 4 th quartile	p	L/N Score 4 th quartile	p	Total Score 4 th quartile	p
Screen time	< 1 hours	142	50 (35.2 %)	0.111	31 (21.8 %)	0.004	37 (26.1 %)	0.935
	≥ 4 hours	98	25 (25.5 %)		38 (38.8 %)		26 (26.5 %)	
Age at first screen exposure	< 12 months	86	25 (29.1 %)	0.586	28 (32.6 %)	0.330	23 (26.7 %)	0.897
	≥ 12 months	154	50 (32.5 %)		41 (26.6 %)		40 (26.0 %)	
Co-viewing with parents	Yes	176	61 (34.7 %)	0.059	44 (25.0 %)	0.033	49 (27.8 %)	0.353
	No	64	14 (21.9 %)		25 (39.1 %)		14 (21.9 %)	
Reacting to the limitation of the screen time	Yes	93	25 (26.9 %)	0.246	31 (33.3 %)	0.212	22 (23.7 %)	0.468
	No	147	50 (34.0 %)		38 (25.9 %)		41 (27.9 %)	
Delaying daily needs	Yes	121	35 (28.9 %)	0.433	39 (32.2 %)	0.230	29 (24.0 %)	0.418
	No	119	40 (33.6 %)		30 (25.2 %)		34 (29.6 %)	

*n (%)

development, learning and memory, ER, and overall health. Research suggests that earlier and longer exposure to electronic media is associated with an increased risk of psychiatric symptomatology, particularly those of attentional problems and hyperactivity, anxiety disorders, and depression.²² It has been also found that high background exposure to television in children under 5 years of age reduces the amount and quality of parent-child interaction and takes them away from play, negatively affects language use and acquisition, attention, cognitive development, and executive function.²³ Existing literature with older children and adolescents put forth mixed support for the relation between screen use and well-being, with some studies showing harmful effects and others showing negligibly small and nonsignificant correlations indicating harm. There is limited knowledge of how screen time links to psychological well-being, especially in young children aged 5 years or under.²⁴ A recent study found out that children and adolescents aged 2 to 17 years who spent more time using screen media were lower in psychological well-being than low users. High users of screens were significantly more likely to display poor emotion regulation which was not staying calm, arguing too much, being difficult to get along with.²⁵ The present study also showed that children with excessive screen time were more labile and negative in terms of emotions. Besides, there was no relationship between ER component and screen time. AAP also recommends parents coview with their children and help them to understand what they see.³ Present study reveals the justification of this proposal in terms of emotional regulation. Because we determined that, the children who were alone in front of the screen were more emotionally labile. Therefore, given that most mothers have insufficient knowledge of proper screen usage for their children, like coviewing, it is important to question media use habits and educate them about proper use. During the pandemic, children's screen time has also changed compared to before. Even under these conditions, the importance of children's family life and physical activities should be emphasized. In previous studies, conflicting results were reported about the relationship between maternal education, paternal education, gender of the child, and screen time.^{26,27} Similar to Trinh and his colleagues,²⁸ the present study demonstrated an inverse relationship between parental education

level and screen time of children and also found that male gender was associated with increased screen time. In addition, Maatta et al.,²⁹ showed that parents with high education have lower descriptive norms, use fewer screens in front of children, and place greater importance on limiting children's screen time compared to parents with low education.

Findings related to maternal occupation, presence of siblings and the child's screen time differed in past studies.²⁸ Hinkley et al.,³⁰ identified no association between maternal employment, the presence of siblings, and screen time for preschool children. On the contrary, Wu et al.,³¹ reported that screening devices were used more frequently in children whose mothers were housewives compared to working mothers. Accordingly, in a prior study, children receiving home care are found to be more likely to be exposed to television than children who receive care at nurseries.³² In this study, mothers being a housewife and the presence of sibling were found to be positive determinants on screen time. It was also shown that the screen time of children cared at nurseries was significantly lower. The presence of siblings may increase the workload of the mother and decrease the quality time that the child spends with the mother, causing the screen time to increase at home care. Another reason may be that siblings are role models in terms of screen contact.

The strength of the study is that it is the first study to examine the associations of ER and children's excessive-screen time in preschool period with a standardized scale. There are also some limitations to be taken into account in our study. First, screen time was reported by mothers, and this may result in underestimates of screen time. However, mothers are expected to have an idea about the ideal screen time to take sides when answering the questionnaire. In our study, it can be thought that the probability of bias decreases with the high ratio of mothers reporting that their children have screen time over 4 hours. Second, although participant mothers do not have diagnosed psychiatric diseases, their psychological well-being can be a confounding factor. This should be taken into consideration in further studies. Third, the total length of stay in the nursery was not questioned in hours. Nevertheless, regardless of the duration of their stay in the nursery, the fact that the child attended the nursery was associated with low screen time.

CONCLUSIONS

This study investigating the relationship between the emotion regulation skill and screen time revealed that excessive screen time is associated with emotional lability in this early childhood period. ■

REFERENCES

1. Sevcikova A. Two sides of the same coin: communication technology, media use, and our kids' health. *Int J Public Health*. 2015; 60(2):129-30.
2. Radesky JS, Schumacher J, Zuckerman B. Mobile and interactive media use by young children: the good, the bad, and the unknown. *Pediatrics*. 2015; 135(1):1-3.
3. Council on Communications and Media. Media and young minds. *Pediatrics*. 2016; 138(5):e20162591.
4. American Academy of Child & Adolescent Psychiatry. Media Habits During COVID-19: Children & Teens on Screens in Quarantine. AACAP. 2020. [Accessed on: Sept 14, 2020]. Available in: https://www.aacap.org/App_Themes/AACAP/Docs/resource_libraries/covid-19/Screen-Time-During-COVID.pdf
5. Kostyrka-Allchorne K, Cooper NR, Simpson A. The relationship between television exposure and children's cognition and behaviour: A systematic review. *Dev Rev*. 2017; 44:19-58.
6. Lissak G. Adverse physiological and psychological effects of screen time on children and adolescents: literature review and case study. *Environ Res*. 2018; 164:149-57.
7. Schmidt ME, Rich M, Rifas-Shiman SL, Oken E, et al. Television viewing in infancy and child cognition at 3 years of age in a US cohort. *Pediatrics*. 2009; 123(3):e370-5.
8. Linebarger DL, Vaala SE. Screen media and language development in infants and toddlers: An ecological perspective. *Dev Rev*. 2010; 30(2):176-202.
9. Thompson R. Emotion regulation: a theme in search of a definition. In: Fox NA, ed. *Emotion Regulation: Biological and Behavioral Considerations*. Monographs of the Society for Research in Child Development. Chicago: University of Chicago Press; 1994; 59:25-52.
10. Roque L, Verissimo M, Fernandes M, Rebelo A. Emotion regulation and attachment: Relationships with children's secure base, during different situational and social contexts in naturalistic settings. *Infant Behav Dev*. 2013; 36(3):298-306.
11. Garber J, Dodge KA. *Cambridge studies in social and emotional development. The development of emotion regulation and dysregulation*. Cambridge: University Press; 1991.
12. Akçay D, Özcebe H. Evaluation of Computer Game Playing Habits of Children at Pre-School Education Levels and Their Families. *J Child*. 2012; 12:66-71.
13. Yalçın S, Yıldız Yahşi D, Oflu A, Tezol Ö, et al. Multi-centered investigation of pre-school children's screen time and digital game playing habits. Fulltext paper. International Child and Information Safety Congress "Digital Games". April 11-13, 2018. Ankara.
14. Waisman I, Hidalgo E, Rossi ML. Uso de pantallas en niños pequeños en una ciudad de Argentina. *Arch Argent Pediatr*. 2018; 116(2):186-95.
15. Shields A, Cicchetti D. Emotion regulation among school-age children: The development and validation of a new criterion Q-sort scale. *Dev Psychol*. 1997; 33(6):906-16.
16. Batum P, Yağmurlu B. What counts in externalizing behaviors? The contributions of emotion and behavior regulation. *Curr Psychol*. 2007; 25:272-94.
17. Ergüney M. İnternetin Okul Öncesi Dönemdeki Çocuklar Üzerindeki Etkileri Hakkında Bir Araştırma. *Ullakbilge*. 2017; 5(17):1917-38.
18. Skalická V, Wold Hygen B, Stenseng F, Kårstad SB, et al. Screen time and the development of emotion understanding from age 4 to age 8: A community study. *Br J Dev Psychol*. 2019; 37:427-43.
19. Kim-Spoon J, Cicchetti D, Rogosch FA. A longitudinal study of emotion regulation, emotion lability-negativity, and internalizing symptomatology in maltreated and nonmaltreated children. *Child Dev*. 2013; 84(2):512-27.
20. Eisenberg N, Fabes RA, Murphy B, Maszk P, et al. The role of emotionality and regulation in children's social functioning: A longitudinal study. *Child Dev*. 1995; 66(5):1360-84.
21. Kim J, Deater-Deckard K. Dynamic changes in anger linking to developmental trajectories of internalizing and externalizing problems: The moderating role of attention. *J Child Psychol Psychiatry*. 2011; 52(2):156-66.
22. Neophytou E, Manwell L, Eikelboom R. Effects of Excessive Screen Time on Neurodevelopment, Learning, Memory, Mental Health, and Neurodegeneration: a Scoping Review. *Int J Ment Health Addict*. 2019; [In Press].
23. Canadian Paediatric Society, Digital Health Task Force, Ottawa, Ontario. Screen time and young children: Promoting health and development in a digital world. *Paediatr Child Health*. 2018; 23(1):83.
24. Przybylski AK, Weinstein N. Digital screen time limits and young children's psychological well-being: Evidence from a population-based study. *Child Dev*. 2019; 90(1):e56-65.
25. Twenge JM, Campbell WK. Associations between screen time and lower psychological well-being among children and adolescents: Evidence from a population-based study. *Prev Med Rep*. 2018; 12:271-83.
26. Duch H, Fisher EM, Ensari I, Harrington A. Screen time use in children under 3 years old: a systematic review of correlates. *Int J Behav Nutr Phys Act*. 2013; 10:102.
27. Carson V, Janssen I. Associations between factors within the home setting and screen time among children aged 0-5 years: a cross-sectional study. *BMC Public Health*. 2012; 12:539.
28. Trinh MH, Sundaram R, Robinson SL, Lin TC, et al. Association of Trajectory and Covariates of Children's Screen Media Time. *JAMA Pediatr*. 2019; 174(1):71-8.
29. Määttä S, Kaukonen R, Vepsäläinen H, Lehto E, et al. The mediating role of the home environment in relation to parental educational level and preschool children's screen time: a cross-sectional study. *BMC public health*. 2017; 17(1):688.
30. Hinkley T, Salmon J, Okely AD, Trost SG. Correlates of sedentary behaviours in preschool children: a review. *Int J Behav Nutr Phys Act*. 2010; 7:66.
31. Wu CST, Fowler C, Lam WYY, Wong HT, et al. Parenting approaches and digital technology use of preschool age

children in a Chinese community. *Ital J Pediatr.* 2014; 40:44.
32. Christakis DA, Garrison MM. Preschool-aged children's

television viewing in child care settings. *Pediatrics.* 2009;
124(6):1627-32.

Asociación entre el espesor de la grasa subcutánea abdominal y la esteatosis hepática, las enzimas hepáticas y los lípidos séricos en niños obesos

Association of abdominal subcutaneous fat thickness with hepatic steatosis, liver enzymes, and serum lipids in obese children

Dr. Levent Soydan^a, Dra. Narin Akıcı^b y Dra. Yesim Coskun^c

RESUMEN

Introducción. La obesidad infantil puede causar hiperlipidemia y esteatosis hepática y complicaciones crónicas. Nuestro objetivo fue evaluar la relación entre el espesor de la grasa subcutánea abdominal (GSA) y la esteatosis hepática, las transaminasas y los lípidos séricos en niños obesos.

Población y métodos. Estudio retrospectivo en niños (4-18 años) que acudieron a los consultorios externos. Se evaluaron las asociaciones entre el espesor de la GSA mediante ecografía y la esteatosis hepática, alanina aminotransferasa (ALT), aspartato aminotransferasa (AST) y el perfil lipídico sérico.

Resultados. Se identificaron 95 niños con esteatosis hepática; el grado 1 fue el más frecuente (73,6 %, n: 70), seguido del grado 2 (21,1 %) y del 3 (5,3 %). El espesor medio (en mm) de la GSA de línea media y flancos fue 38,48 ± 11,53 y 20,91 ± 8,00 en grado 1; 41,23 ± 10,03 y 19,84 ± 6,75 en grado 2, y 63,12 ± 12,08 y 23,22 ± 5,92 en grado 3, respectivamente. El espesor de la GSA de línea media y flancos se correlacionó positivamente con triglicéridos en grado 3; el espesor de la GSA de línea media se correlacionó con el índice de masa corporal, colesterol total, colesterol LDL y AST (r: 0,9; p: 0,037; r: 0,648; p: 0,001; r: 0,387; p: 0,001; r: 0,406; p: 0,001; r: 0,463; p: 0,001; respectivamente) en grado 1.

Conclusión. El espesor de la GSA mediante ecografía puede predecir hiperlipidemia en niños obesos con esteatosis hepática de grado 3 e hipercolesterolemia en grado 1.

Palabras clave: grasa subcutánea abdominal, obesidad infantil, esteatosis hepática, metabolismo lipídico.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.114>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.114>

Cómo citar: Soydan L, Akıcı N, Coskun Y. Asociación entre el espesor de la grasa subcutánea abdominal y la esteatosis hepática, las enzimas hepáticas y los lípidos séricos en niños obesos. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):114-122.

GLOSARIO

ALT: alanina aminotransferasa.

AST: aspartato aminotransferasa.

C-HDL: colesterol de las lipoproteínas de alta densidad.

C-LDL: colesterol de las lipoproteínas de baja densidad.

CT: colesterol total.

EHNA: esteatosis hepática no alcohólica.

GSA: grasa subcutánea abdominal.

IMC: índice de masa corporal.

RM: resonancia magnética.

TC: tomografía computada.

TG: triglicéridos.

INTRODUCCIÓN

La obesidad infantil es un importante problema de salud que se caracteriza por un exceso de adiposidad o grasa corporal. Es uno de los factores responsables de problemas médicos, físicos y emocionales durante la niñez que pueden ocasionar una elevada morbilidad en la adultez. Según la Organización Mundial de la Salud, la prevalencia de la obesidad aumentó en las últimas tres décadas con un incremento anual del 0,5 % al 1 %.^{2,3} La obesidad es una enfermedad multifactorial que se ve afectada por factores genéticos y no genéticos.^{1,2} Se define en función del índice de masa corporal (IMC), que tiene una fuerte correlación con la adiposidad.⁴

La obesidad infantil frecuentemente persiste en la edad adulta, y esto se relaciona en gran medida con la resistencia a la insulina, la diabetes de tipo 2, la hipertensión, la dislipidemia, la esteatosis hepática,

- Departamento de Radiología, Hospital de Formación e Investigación Haydarpaşa Numune. Estambul, Turquía.
- Departamento de Pediatría, Hospital de Formación e Investigación Haydarpaşa Numune. Estambul, Turquía.
- Departamento de Pediatría, Hospital Medical Park Göztepe de la Facultad de Medicina de Bahçeşehir Üniversitesi. Estambul, Turquía.

Correspondencia:
Dr. Levent Soydan:
levent.soydan@gmail.com

Financiamiento:
Ninguno.

Conflicto de intereses:
Ninguno que declarar.

Recibido: 21-4-2020
Aceptado: 30-9-2020

el asma, la apnea del sueño y los problemas ortopédicos.⁵⁻⁸ La obesidad puede asociarse a alteraciones bioquímicas que se inician durante la niñez. El perfil lipídico sérico, en especial la concentración de triglicéridos y de colesterol total (CT) y la concentración sérica de alanina / aspartato aminotransferasa (ALT / AST), puede estar por encima del intervalo normal en los niños obesos.^{9,10} La obesidad infantil también puede asociarse al esteatosis hepática, que se define como la acumulación de grasa en el hígado, especialmente en forma de triglicéridos. Si bien la esteatosis hepática suele ser una enfermedad autolimitada, puede evolucionar a esteatosis hepática no alcohólica (EHNA) y cirrosis hepática.^{11,12}

La cantidad y la distribución del tejido adiposo en el cuerpo están estrechamente asociadas a la obesidad; se realizaron varios intentos para evaluar el tejido adiposo visceral y subcutáneo mediante ecografía, radioabsorciometría de doble energía, tomografía computada (TC) y resonancia magnética (RM).¹³ Con el objetivo de estudiar la asociación entre la adiposidad corporal y los factores de riesgo relacionados con la obesidad, varios estudios se enfocaron particularmente en las medidas antropométricas y la adiposidad visceral. Aún no se ha establecido claramente la capacidad que tiene el espesor de la grasa subcutánea abdominal (GSA) como parámetro único para reflejar el grado de esteatosis hepática e hiperlipidemia. La ecografía puede utilizarse

para diagnosticar la esteatosis hepática y para medir el espesor de la GSA.¹⁴⁻¹⁶ Si el espesor de la GSA permite predecir estos parámetros relacionados con la obesidad en niños obesos, entonces es posible agregar la evaluación ecográfica del espesor de la GSA a los estudios diagnósticos iniciales de los niños obesos, ya que la ecografía es un método de diagnóstico por imágenes seguro, no invasivo, fácil de usar y ampliamente disponible.¹³

El objetivo de este estudio fue evaluar la asociación entre el espesor de la GSA y la esteatosis hepática, el perfil lipídico sérico y la concentración de transaminasas en niños obesos.

POBLACIÓN Y MÉTODOS

Este estudio retrospectivo se realizó en niños que acudieron a los consultorios pediátricos externos por obesidad entre mayo de 2016 y abril de 2018, en el Hospital de Formación e Investigación Haydarpaşa Numune. Se definió que un paciente pediátrico era obeso si su IMC se encontraba en el percentilo 95 o más.¹⁷ Se excluyó a los niños obesos con hepatopatías crónicas, hepatopatías infecciosas, hepatomegalia, dislipidemias congénitas o metabolopatías.

Los datos relativos a la estatura y el peso de los niños se habían tomado de forma inmediata en el ingreso. Luego se combinaron estos datos con la edad y el sexo de los niños para calcular el IMC mediante la fórmula matemática del índice de peso por estatura. La concentración de

FIGURA 1. Medición del espesor de la grasa subcutánea abdominal de los flancos desde la superficie de la piel (entre los cursores)



transaminasas y lípidos séricos (CT, colesterol de las lipoproteínas de baja densidad [C-LDL], colesterol de las lipoproteínas de alta densidad [C-HDL], triglicéridos [TG]) se obtuvieron en ayunas mediante venopunción en el transcurso de los 7 días posteriores al ingreso en los consultorios externos.

Un único radiólogo, que tenía información sobre la presentación clínica del paciente, pero desconocía los datos de laboratorio, realizó una ecografía convencional. El procedimiento se llevó a cabo con un ecógrafo Aplio 500 (Toshiba/Canon, Japón) con transductores lineales y convexos (ancho de banda de frecuencia: 18 MHz y 3,5-6 MHz, respectivamente) de forma estandarizada: el espesor de la GSA se midió aplicando una presión mínima con el transductor mientras el paciente respiraba normalmente en decúbito supino. El espesor de la GSA de la línea media se midió en el plano transversal, un centímetro por debajo del ombligo, y el espesor de la GSA de los flancos se midió dentro del mismo plano transversal, tanto en el flanco izquierdo como el derecho, aproximadamente al nivel de ambas espinas ilíacas anterosuperiores. El valor medio entre los dos lados se utilizó para el espesor de la GSA de los flancos. El espesor de la grasa subcutánea se definió como la distancia entre la superficie de la piel y el borde externo de la capa muscular del abdomen (*Figuras 1 y 2*).

El grado de esteatosis hepática se determinó mediante ecografía convencional de la siguiente

manera: se definió como grado 1 un aumento leve y difuso de los ecos finos del parénquima con una visualización normal del diafragma y de los bordes de la vena porta; se definió como grado 2 un aumento moderado y difuso de los ecos finos con una visualización ligeramente deficiente de los bordes de la vena porta y del diafragma; y se definió como grado 3 la presencia de ecos finos con mala visualización o falta de visualización de los bordes de la vena porta, del diafragma y del segmento posterior del lóbulo derecho.¹⁸

Consideraciones éticas: el protocolo del estudio fue aprobado por el Comité de Ética del Hospital de Formación e Investigación en Enfermedades Materno Infantiles Zeynep Kamil (aprobación n° 2018-84). El estudio se llevó a cabo conforme a los principios establecidos en la Declaración de Helsinki.

Análisis estadístico: el análisis estadístico se realizó con el programa NCSS (Number Cruncher Statistical System) 2007 (Kaysville, Utah, EE. UU.). Los datos descriptivos se expresaron como número y porcentaje o media, desviación estándar, mediana, intervalo y puntaje Z, según correspondiera. Se utilizaron la prueba de Kruskal-Wallis y la prueba de la U de Mann-Whitney con la corrección de Bonferroni para comparar tres grupos o más con distribución anormal. Se utilizó la prueba de Fisher-Freeman-Halton para comparar las variables categóricas. La correlación entre las variables paramétricas se evaluó con la prueba de correlación de Spearman.

FIGURA 2. Medición del espesor de la grasa subcutánea abdominal de la línea media desde la superficie de la piel (entre los cursores)



TABLA 1. Características demográficas y clínicas de los pacientes

Edad (años)	Mín.-máx. (mediana)	4-18 (11)
	Media ± desviación estándar	11,8 ± 3,9
Sexo, n (%)	Femenino	40 (42,1)
	Masculino	55 (57,9)
IMC (kg/m ²)	Media	28,02
	Puntaje Z medio	-1,7
TG (mg/dl)	Mín.-máx. (mediana)	35-292 (93)
	Media ± desviación estándar	102,03 ± 44,43
CT (mg/dl)	Mín.-máx. (mediana)	74-279 (166)
	Media ± desviación estándar	166,41 ± 37,59
C-HDL (mg/dl)	Mín.-máx. (mediana)	23-144 (45)
	Media ± desviación estándar	47,78 ± 18,38
C-LDL (mg/dl)	Mín.-máx. (mediana)	32-154 (105)
	Media ± desviación estándar	101,31 ± 27,85
AST (UI/l)	Mín.-máx. (mediana)	11-94 (22)
	Media ± desviación estándar	24,72 ± 11,84
ALT (UI/l)	Mín.-máx. (mediana)	9-109 (21)
	Media ± desviación estándar	26,22 ± 17,13
Espesor de la GSA de la línea media (cm)	Mín.-máx. (mediana)	16-80 (40,60)
	Media ± desviación estándar	40,36 ± 12,43
Espesor de la GSA de los flancos (cm)	Mín.-máx. (mediana)	7-44,4 (20,50)
	Media ± desviación estándar	20,80 ± 7,63
Esteatosis hepática, n (%)	Grado 1	70 (73,7)
	Grado 2	20 (21,1)
	Grado 3	5 (5,3)

IMC: índice de masa corporal; TG: triglicéridos; CT: colesterol total; C-HDL: colesterol de las lipoproteínas de alta densidad; C-LDL: colesterol de las lipoproteínas de baja densidad; AST: aspartato aminotransferasa; ALT: alanina aminotransferasa; GSA: grasa subcutánea abdominal.

TABLA 2. Características demográficas y clínicas de los grupos según el grado de esteatosis hepática

		Esteatosis hepática			Valor de la prueba
		Grado 1 (n = 70)	Grado 2 (n = 20)	Grado 3 (n = 5)	p
Edad (años)	Mín.-máx. (mediana)	4-18 (10)	8-18 (12)	13-16 (14)	χ^2 : 6,833
	Media ± desviación estándar	11,19 ± 3,99	13,05 ± 3,2	14,6 ± 1,34	^a 0,033*
Sexo, n (%)	Femenino	35 (87,5)	3 (7,5)	2 (5,0)	χ^2 : 8,165
	Masculino	35 (63,6)	17 (30,9)	3 (5,5)	^b 0,013*
IMC (kg/m ²)	Media	26,7	30,9	34,8	χ^2 : 14,487
	Puntaje Z medio	-0,2	0,5	1,2	^a 0,001**
TG (mg/dl)	Mín.-máx. (mediana)	35-292 (89,5)	43-208 (110)	83-142 (102)	χ^2 : 3,529
	Media ± desviación estándar	97,44 ± 43,65	115,45 ± 49,08	112,6 ± 26,03	^a 0,171
CT (mg/dl)	Mín.-máx. (mediana)	74-279 (168)	100-219 (166)	122-201 (157)	χ^2 : 0,753
	Media ± desviación estándar	167,46 ± 38,84	164,75 ± 36,35	158,4 ± 28,11	^a 0,686
C-HDL (mg/dl)	Mín.-máx. (mediana)	23-144 (47)	25-56 (39,5)	30-48 (40)	χ^2 : 11,745
	Media ± desviación estándar	50,79 ± 20,12	39,25 ± 8,17	39,8 ± 6,5	^a 0,003**
C-LDL (mg/dl)	Mín.-máx. (mediana)	32-154 (106,5)	60-145 (103,5)	66-131 (98)	χ^2 : 0,312
	Media ± desviación estándar	101,39 ± 29,38	102,2 ± 24,12	96,6 ± 23,37	^a 0,856
AST (UI/l)	Mín.-máx. (mediana)	11-49 (20)	20-75 (27)	17-94 (29)	χ^2 : 18,875
	Media ± desviación estándar	21,76 ± 6,95	31,75 ± 13,18	38 ± 31,89	^a 0,001**
ALT (UI/l)	Mín.-máx. (mediana)	9-55 (18)	19-109 (37)	18-70 (37)	χ^2 : 35,707
	Media ± desviación estándar	19,86 ± 8,94	45,1 ± 22,43	39,8 ± 20,07	^a 0,001**

^a Prueba de Kruskal-Wallis. ^b Fisher-Freeman. * p < 0,05. ** p < 0,01.

IMC: índice de masa corporal; TG: triglicéridos; CT: colesterol total; C-HDL: colesterol de las lipoproteínas de alta densidad; C-LDL: colesterol de las lipoproteínas de baja densidad; AST: aspartato aminotransferasa; ALT: alanina aminotransferasa.

Se estableció un error de tipo I del 5 % global para inferir la significación estadística.

RESULTADOS

Se identificó a 95 niños obesos (varones: 57,9 %); la edad media era 11,8 años \pm 3,9 años (intervalo: 4 años-18 años). El IMC medio era de 28,0 con un puntaje Z medio de -1,7 kg/m² (Tabla 1).

Se detectó esteatosis hepática en todos los niños, y el tipo más frecuente fue el grado 1 (73,6 %, n: 70), seguido del grado 2 (21,1 %, n: 20) y del grado 3 (5,3 %, n: 5). La edad media de los pacientes con esteatosis de grado 2 fue significativamente mayor que la de aquellos que tenían grado 1 (p : 0,041). La esteatosis de grados 1 y 2 fue más frecuente en los varones que en las

mujeres (p : 0,027 y p : 0,018, respectivamente). Los pacientes con esteatosis de grado 2 tenían un IMC significativamente mayor que aquellos con esteatosis de grado 1 (p : 0,001). Las concentraciones medias de AST y ALT fueron menores en los pacientes con esteatosis de grado 1 en comparación con aquellos que tenían esteatosis de grado 2 (p : 0,0035 y p < 0,0001). Si bien las concentraciones de CT y TG no difirieron según los grados de esteatosis, los pacientes con esteatosis de grado 1 tenían una concentración media de C-HDL mayor que aquellos con grado 2 (p : 0,0003) y grado 3 (p : 0,0141).

Se observó un mayor espesor de la GSA de la línea media en los pacientes con esteatosis de grado 3 en comparación con aquellos con esteatosis de grado 1 (p : 0,0086) o grado 2

TABLA 3. Evaluación del espesor de la GSA de la línea media y de los flancos según el grado de esteatosis hepática

		Esteatosis			Valor de la prueba p
		Grado 1 (n = 70)	Grado 2 (n = 20)	Grado 3 (n = 5)	
Espesor de la GSA de la línea media (mm)	Mín.-máx. (mediana)	16-61 (38,5)	25-57 (42,5)	46,6-80 (64)	χ^2 : 11,762
	Media \pm desviación estándar	38,48 \pm 11,53	41,23 \pm 10,03	63,12 \pm 12,08	^a 0,003**
Espesor de la GSA de los flancos (mm)	Mín.-máx. (mediana)	7-44,4 (20,5)	11-37,4 (18,95)	17-33 (22)	χ^2 : 1,449
	Media \pm desviación estándar	20,91 \pm 8,00	19,84 \pm 6,75	23,22 \pm 5,92	^a 0,485

a Prueba de Kruskal-Wallis. ** p < 0,01.

GSA: grasa subcutánea abdominal.

TABLA 4. Asociación entre el espesor de la GSA de la línea media y de los flancos y el IMC, los TG, el CT, el C-HDL, el C-LDL, la AST y la ALT según el grado de esteatosis hepática

		Espesor de la GSA de la línea media Esteatosis hepática			Espesor de la GSA de los flancos Esteatosis hepática		
		Grado 1	Grado 2	Grado 3	Grado 1	Grado 2	Grado 3
IMC	r	0,648	0,558	0,000	0,233	0,149	0,300
	p	0,001**	0,011*	1,000	0,052	0,531	0,624
TG	r	0,009	0,148	0,900	0,154	0,048	0,900
	p	0,938	0,534	0,037*	0,202	0,840	0,037*
CT	r	0,387	0,041	0,700	0,089	0,080	0,800
	p	0,001**	0,862	0,188	0,464	0,738	0,104
C-HDL	r	0,216	0,412	0,200	0,198	0,067	0,300
	p	0,072	0,071	0,747	0,101	0,780	0,624
C-LDL	r	0,406	0,375	1,000	0,099	0,025	0,700
	p	0,001**	0,104	0,001**	0,415	0,917	0,188
AST	r	0,463	0,133	0,500	0,431	0,126	0,900
	p	0,001**	0,575	0,391	0,001**	0,598	0,037*
ALT	r	0,080	0,232	0,700	0,039	0,047	0,800
	p	0,513	0,325	0,188	0,750	0,845	0,104

r : coeficiente de correlación de Spearman. * p < 0,05. ** p < 0,01.

GSA: grasa subcutánea abdominal; IMC: índice de masa corporal; TG: triglicéridos; CT: colesterol total;

C-HDL: colesterol de las lipoproteínas de alta densidad; C-LDL: colesterol de las lipoproteínas de baja densidad;

AST: aspartato aminotransferasa; ALT: alanina aminotransferasa.

($p: 0,0114$). El espesor de la GSA de los flancos fue similar entre los diferentes grados de esteatosis hepática (Tabla 3).

También se observó una correlación positiva entre el IMC y el espesor de la GSA de la línea media en los pacientes con esteatosis de grado 1 ($r: 0,648$; $p: 0,001$) y grado 2 ($r: 0,558$; $p: 0,011$). Respecto a las transaminasas, la AST se correlacionó con el espesor de la GSA de la línea media y de los flancos en la esteatosis hepática de grado 1 ($r: 0,463$; $p: 0,001$; y $r: 0,431$; $p: 0,001$; respectivamente) y con el espesor de la GSA de los flancos en la de grado 3 ($r: 0,900$; $p: 0,037$). También se observó una correlación positiva entre el espesor de la GSA de la línea media y las concentraciones de C-LDL y CT en los pacientes con esteatosis de grado 1 ($r: 0,406$; $p: 0,001$; y $r: 0,387$; $p: 0,001$; respectivamente). En los pacientes con esteatosis de grado 3, se halló una correlación positiva entre el espesor de la GSA de la línea media y las concentraciones de TG ($r: 0,900$; $p: 0,037$) y de C-LDL ($r: 1,000$; $p: 0,001$). El espesor de la GSA de los flancos también tuvo una correlación positiva con la concentración de TG en los pacientes con esteatosis de grado 3 ($r: 0,900$; $p: 0,037$; Tabla 4).

DISCUSIÓN

La obesidad infantil es un factor de riesgo potencial de enfermedades cardiovasculares como la hipertensión, la dislipidemia, la diabetes o la apnea del sueño en la adultez. Por lo tanto, es importante identificar cualquier afección relacionada con la obesidad durante la niñez que pueda empeorar o generar complicaciones cardiometabólicas posteriormente.^{1,2,19,20} En este estudio, se proporciona información importante sobre la asociación entre el espesor de la GSA y varios biomarcadores de dichas enfermedades relacionadas con la obesidad, los cuales podrían utilizarse para predecir el riesgo de complicaciones en niños obesos. De conformidad con esto, nuestros resultados mostraron que el espesor de la GSA podría tener un valor predictivo para la dislipidemia en pacientes pediátricos obesos, particularmente en aquellos con esteatosis hepática de grado 1.

La esteatosis hepática es una de las hepatopatías crónicas más frecuentes en la niñez y, al igual que en los adultos, es un rasgo característico de la EHNA.^{21,22} La obesidad infantil se asocia a un mayor riesgo de EHNA, con hasta un 38 % de prevalencia en los adolescentes.²¹ La EHNA incluye esteatosis hepática, que abarca

de la esteatosis leve a la esteatohepatitis y, en casos aislados, la cirrosis con tendencia a un empeoramiento.^{23,24} En nuestro estudio, se observó que la edad media para la esteatosis hepática de grado 3 era de 14 años, mientras que para la esteatosis de grado 1 era de 10 años. Estos hallazgos sugieren que un diagnóstico y un tratamiento tempranos del esteatosis hepática pueden resultar fundamentales debido a su tendencia a agravarse. Según lo informado, la esteatosis hepática es más frecuente entre los varones, con una proporción entre varones y mujeres de 2:1.²⁴ En nuestro estudio, también se observó que la cantidad de varones con esteatosis de grado 1 y 2 fue superior que en las mujeres y que el sexo masculino conllevaba un mayor riesgo de esteatosis hepática que el femenino. Si bien se sabe que la obesidad atenúa las diferencias en función del sexo en la esteatosis visceral, se informó que los varones puberales y pospuberales eran más propensos a tener más tejido adiposo en la región abdominal.²⁵ Teniendo en cuenta la edad media de nuestra población, nuestros hallazgos parecen coincidir con la bibliografía, aunque es preciso esclarecerlos mejor mediante estudios bien diseñados. También se sabe que entre el 20 % y el 80 % de los niños obesos con esteatosis hepática pueden tener hipertrigliceridemia, C-LDL alto y concentraciones elevadas de transaminasas.^{23,24}

Además de las mediciones antropométricas más comunes, como el grosor de los pliegues cutáneos mediante plicómetro, la ecografía, la TC y la RM son técnicas de diagnóstico por imágenes que pueden usarse para diagnosticar la esteatosis hepática.^{13,18,26-28} De estas modalidades, la ecografía es un método asequible, ampliamente disponible y sin radiación.²⁶ Se demostró que la ecografía hepática también puede usarse para cuantificar la esteatosis en los pacientes pediátricos, y la evaluación ecográfica tiene una correlación sólida con el grado de esteatosis en la biopsia de hígado.^{28,29} La desventaja de la ecografía radica en que si el hígado tiene menos de un 30 % de grasa, la sensibilidad disminuye.^{5,13} Si bien hay algunos informes sobre el uso de modalidades de diagnóstico por imágenes como la TC y la RM para diagnosticar la esteatosis hepática, no se las suele considerar viables en niños debido a su costo, la posible necesidad de sedación, su disponibilidad relativamente limitada y la radiación propia de la TC.^{5,30} En nuestro estudio, se utilizó la ecografía para evaluar el parénquima hepático y detectar esteatosis, y se observó que todos los pacientes tenían cierto grado de

esteatosis hepática, aunque casi tres cuartos tenían grado 1.

El aumento de la adiposidad corporal observado en la obesidad se ha relacionado con trastornos metabólicos, y se ha intentado determinar la cantidad de grasa corporal mediante diferentes parámetros antropométricos. Otros estudios se han centrado en las asociaciones entre la cantidad de tejido adiposo visceral y subcutáneo y la esteatosis hepática y la dislipidemia.³¹⁻³⁵ Se ha informado de forma consistente que una mayor grasa visceral está asociada a la desregulación metabólica y a una concentración elevada de enzimas hepáticas.^{32,33} Yamaguchi y cols. hallaron una fuerte correlación entre el tejido adiposo visceral y el perfil lipídico sérico y las transaminasas en niños obesos.³³ Bibiloni y cols., demostraron que el IMC y la obesidad abdominal se asocian a la prevalencia de, al menos, un marcador de concentración anormal de lípidos, y el C-LDL bajo fue la dislipidemia más frecuente entre sus pacientes.³⁴ Bijari y cols., observaron una relación entre la obesidad central y cambios adversos en el perfil lipídico y recomendaron examinar a los pacientes para detectar obesidad central a fin de prevenir enfermedades cardiovasculares.³⁵ Asayama y cols., investigaron la relación entre el espesor de la grasa visceral o la razón entre la grasa visceral y subcutánea y varios parámetros antropométricos e informaron que el tejido adiposo visceral tenía una mejor correlación con los valores de lípidos séricos que representaban un riesgo metabólico para los niños.³² Todos estos estudios se centraron en evaluar la obesidad central y visceral, que requiere el uso de técnicas de imagen transversal como la TC o la RM.

No obstante, hay pocos estudios donde se investigó la relación entre la cantidad de grasa subcutánea y los factores de riesgo metabólico.^{36,37} Mager y cols., mostraron en su estudio que la grasa subcutánea del tronco, considerada como la suma de la grasa subcutánea de las regiones abdominal, suprailíaca y subescapular, predice valores bioquímicos hepáticos anormales y dislipidemia.³⁷ Lee y cols., utilizaron el espesor de la GSA como único parámetro para reflejar la cantidad de grasa subcutánea y observaron una correlación positiva entre el espesor de la GSA y el IMC y la esteatosis hepática.³¹ Nuestros resultados también mostraron que el espesor de la GSA de la línea media incrementaba un 64,8 % en la esteatosis de grado 1 y un 55,8 % en la esteatosis de grado 2 por cada 1 kg/m²

de aumento en el IMC, lo que sugiere que un aumento en el IMC hace que la grasa se deposite no solo en el hígado sino también en los tejidos subcutáneos. También se observó una correlación positiva entre el espesor de la GSA y el IMC. Lee y cols., hallaron una correlación entre el espesor de la GSA y las concentraciones de CT, C-LDL y ALT.³¹ De manera similar, en nuestros resultados, un aumento en la concentración de TG y C-LDL en los pacientes con esteatosis de grado 3 se asoció a un valor más elevado en el espesor de la GSA de la línea media. Además, en nuestro estudio, un aumento en las concentraciones de TG y AST se asoció a valores más elevados en el espesor de la GSA de los flancos en la esteatosis de grado 3. También se demostró que los valores de ALT de los pacientes con esteatosis de grado 1 eran significativamente menores que los de aquellos que tenían esteatosis de grados 2 y 3. Estos resultados sugieren que un aumento en el espesor de la GSA se asoció a un mayor trastorno del metabolismo lipídico, grados más elevados de esteatosis y concentraciones más altas de AST. De este modo, la medición ecográfica del espesor de la GSA puede incluirse en los estudios diagnósticos habituales de los niños obesos. Probablemente esto permita identificar y tratar de forma más temprana a los niños con un mayor riesgo de dislipidemia y compromiso hepático y, de esta forma, prevenir las complicaciones relacionadas con la obesidad que puedan surgir más adelante. Una vez que se implementan cambios en el estilo de vida y una dieta adecuada, el espesor de la GSA también puede usarse como un método fácil para controlar a los niños durante este período, a medida que los parámetros de riesgo relacionados con la obesidad regresan a valores normales.

Este estudio presenta ciertas limitaciones. En primer lugar, la evaluación del esteatosis hepática mediante ecografía depende del operador, es subjetiva y, por ende, cualitativa. Además, si la esteatosis afecta menos del 30 % del parénquima hepático, la sensibilidad y la especificidad disminuyen.^{13,30} Por lo tanto, es probable que sea menos reproducible y no ofrezca datos cuantitativos sobre la esteatosis, si bien un estudio a gran escala realizado por Schlecht y cols., informó que la ecografía tenía un alto nivel de reproducibilidad y validez para medir el espesor del tejido subcutáneo, particularmente en niños no obesos.¹⁵ Por lo tanto, la evaluación cuantitativa de la esteatosis hepática mediante RM en estudios futuros

podría esclarecer mejor este asunto y ayudar a confirmar nuestros resultados de una manera más confiable. En segundo lugar, en nuestro estudio no se realizó el análisis anatomopatológico del esteatosis hepática mediante una biopsia de hígado; esto otorgaría una mayor fiabilidad a nuestros resultados y también aclararía otros posibles motivos incluidos en el diagnóstico diferencial.¹³ Además, no se recopilaron datos sobre el origen étnico ni la circunferencia de cintura de los pacientes, los cuales deberían tenerse en cuenta al evaluar los resultados. Otra limitación fue que la cantidad de pacientes con esteatosis de grado 3 fue pequeña en comparación con los otros grupos, lo que disminuye en gran medida las certezas relativas a la interpretación de los resultados de este subgrupo. Por lo tanto, consideramos que es necesario realizar estudios adicionales que incluyan una mayor cantidad de pacientes con esteatosis hepática de grado 3 para sacar conclusiones más confiables.

CONCLUSIONES

En conclusión, tanto el espesor de la GSA de la línea media como el de los flancos tuvieron una correlación positiva con los TG en los niños obesos con esteatosis hepática de grado 3; mientras que, en los casos de esteatosis de grado 1, el espesor de la GSA de la línea media tuvo una correlación positiva con el IMC, el CT, el C-LDL y la AST. No obstante, estas asociaciones deben confirmarse mediante estudios futuros a gran escala, quizá con modalidades como la RM, que permitan evaluar la esteatosis hepática de forma cuantitativa. ■

REFERENCIAS

- Güngör NK. Overweight and obesity in children and adolescents. *J Clin Res Pediatr Endocrinol*. 2014; 6(3):129-43.
- Han JC, Lawlor D, Kimm SYS. Childhood Obesity-2010: Progress and Challenges. *Lancet*. 2010; 375(9727):1737-48.
- Lobstein T, Baur L, Uauy R, IASO International Obesity TaskForce. Obesity in children and young people: a crisis in public health. *Obes Rev*. 2004; 5(Suppl 1):4-104.
- Nicolai JP, Lupiani JH, Wolf A J. An Integrative approach to obesity. En: Rake D (ed). *Integrative Medicine*. 3rd ed. Philadelphia, PA: Saunders-Elsevier; 2012. P.364-75.
- Feldstein AE, Patton-Ku D, Boutelle KN. Obesity, Nutrition and Liver Disease in Children. *Clin Liver Dis*. 2014; 18(1):219-31.
- Freedman DS, Khan LK, Serdula MK, Dietz WH, et al. The relation of childhood BMI to adult adiposity: the Bogalusa Heart Study. *Pediatrics*. 2005; 115(1):22-7.
- Pulgaron ER, Delamater AM. Obesity and type 2 diabetes in children: epidemiology and treatment. *Curr Diab Rep*. 2014; 14(8):508.
- Juonala M, Magnussen CG, Berenson GS, Venn A, et al. Childhood adiposity, adult adiposity, and cardiovascular risk factors. *N Engl J Med*. 2011; 365(20):1876-85.
- Nobili V, Reale A, Alisi A, Morino G, et al. Elevated serum ALT in children presenting to the emergency unit: Relationship with NAFLD. *Dig Liver Dis*. 2009; 41(10):749-52.
- Parekh S, Anania FA. Abnormal lipid and glucose metabolism in obesity: implications for nonalcoholic fatty liver disease. *Gastroenterology*. 2007; 132(6):2191-207.
- Donnelly KL, Smith CI, Schwarzenberg SJ, Jessurun J, et al. Sources of fatty acids stored in liver and secreted via lipoproteins in patients with nonalcoholic fatty liver disease. *J Clin Invest*. 2005; 115(5):1343-51.
- Ko JS, Yoon JM, Yang HR, Myung JK, et al. Clinical and histological features of nonalcoholic fatty liver disease in children. *Dig Dis Sci*. 2009; 54(10):2225-30.
- Vajro P, Lenta S, Socha P, Dhawan A, et al. Diagnosis of nonalcoholic fatty liver disease in children and adolescents: position paper of the ESPGHAN Hepatology Committee. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 2012; 54(5):700-13.
- Semiz S, Ozgören E, Sabir N. Comparison of ultrasonographic and anthropometric methods to assess body fat in childhood obesity. *Int J Obes (Lond)*. 2007; 31(1):53-8.
- Schlecht I, Wiggermann P, Behrens G, Fischer B, et al. Reproducibility and validity of ultrasound for the measurement of visceral and subcutaneous adipose tissues. *Metabolism*. 2014; 63(12):1512-9.
- Wagner DR. Ultrasound as a tool to assess body fat. *J Obes*. 2013; 2013:280713.
- Whitlock EP, Williams SB, Gold R, Smith PR, Shipman SA. Screening and interventions for childhood overweight: a summary of evidence for the US Preventive Services Task Force. *Pediatrics*. 2010; 116(1):e125-44.
- Dasarathy S, Dasarathy J, Khyami A, Joseph R, et al. Validity of real time ultrasound in the diagnosis of hepatic steatosis: a prospective study. *J Hepatol*. 2009; 51(6):1061-7.
- Pulgaron ER. Childhood obesity: A review of increased risk for physical and psychological comorbidities. *Clin Ther*. 2013; 35(1):A18-32.
- Burt Solorzano CM, McCartney CR. Obesity and the pubertal transition in girls and boys. *Reproduction*. 2010; 140(3):399-410.
- Schwimmer JB, Deutsch R, Kahen T, Lavine JE, et al. Prevalence of fatty liver in children and adolescents. *Pediatrics*. 2006; 118(4):1388-93.
- Jung JH, Jung MK, Kim KE, Kwon AR, et al. Ultrasound measurement of pediatric visceral fat thickness: correlations with metabolic and liver profiles. *Ann Pediatr Endocrinol Metab*. 2016; 21(2):75-80.
- Sundaram SS, Zeitler P, Nadeau K. The metabolic syndrome and nonalcoholic fatty liver disease in children. *Curr Opin Pediatr*. 2009; 21(4):529-35.
- Marzuillo P, Miraglia del Giudice E, Santoro N. Pediatric fatty liver disease: Role of ethnicity and genetics. *World J Gastroenterol*. 2014; 20(23):7347-55.
- Staiano A, Katzmarzyk P. Ethnic and sex differences in body fat, visceral, and subcutaneous adiposity in children and adolescents. *Int J Obes (Lond)*. 2012; 36(10):1261-9.
- Sabir N, Sermez Y, Kazil S, Zencir M. Correlation of abdominal fat accumulation and liver steatosis: importance of ultrasonographic and anthropometric measurements. *Eur J Ultrasound*. 2001; 14(2-3):121-8.
- Mazhar SM, Shieh morteza M, Sirlin CB. Noninvasive assessment of hepatic steatosis. *Clin Gastroenterol Hepatol*. 2009; 7(2):135-40.
- Shannon A, Alkhouri N, Carter-Kent C, Monti L, et al. Ultrasonographic quantitative estimation of hepatic steatosis in children with NAFLD. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 2011; 53(2):190-5.
- Eifler RV. The role of ultrasonography in the measurement of subcutaneous and visceral fat and its correlation with

- hepatic steatosis. *Radiol Bras.* 2013; 46(5):273-8.
30. Vos M, Abrams S, Barlow S, Caprio S, et al. NASPGHAN clinical practice guideline for the diagnosis and treatment of Nonalcoholic Fatty Liver Disease in children: recommendations from the expert Committee on NAFLD (ECON) and the North American Society of Pediatric Gastroenterology, Hepatology and Nutrition (NASPGHAN). *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2017;64(2):319-34.
 31. Lee SH, Kim D, Baek MY, Tchah H, et al. Abdominal Subcutaneous Fat Thickness Measured by Ultrasonography Correlates with Hyperlipidemia and Steatohepatitis in Obese Children. *Pediatr Gastroenterol Hepatol Nutr.* 2015; 18(2):108-14.
 32. Asayama K, Dobashi K, Hayashibe H, Kodera K, et al. Threshold values of visceral fat measures and their anthropometric alternatives for metabolic derangement in Japanese obese boys. *Int J Obes Relat Metab Disord.* 2002; 26(2):208-13.
 33. Yamaguchi J, Oguni T, Konishi K, Mino M. Abdominal adiposity with respect to the proportion of intra-abdominal visceral fat to extra-abdominal fat (VS ratio) in Japanese childhood obesity. *Pathophysiol.* 1996; 3(1):29-35.
 34. Bibiloni MD, Salas R, De la Garza YE, Villarreal JZ, et al. Serum lipid profile, prevalence of dyslipidaemia, and associated risk factors among Northern Mexican adolescents. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2016; 63(5):544-9.
 35. Bijari B, Taheri F, Chahkandi T, Kazemi T, et al. The relationship between serum lipids and obesity among elementary school in Birjand: a case control study. *J Res Health Sci.* 2015; 15(2):83-7.
 36. Deeb A, Attia S, Mahmoud S, Elhaj G, Elfatih A. Dyslipidemia and fatty liver disease in overweight and obese children. *J Obes.* 2018; 2018:8626818.
 37. Mager DR, Yap J, Rodriguez-Dimitrescu C, Mazurak V, et al. Anthropometric Measures of visceral and subcutaneous fat are important in the determination of metabolic dysregulation in boys and girls at risk for nonalcoholic fatty liver disease. *Nutr Clin Pract.* 2013; 28(1):101-11.

Archivos hace 75 años



El texto completo se encuentra disponible en la versión electrónica de este número.

Association of abdominal subcutaneous fat thickness with hepatic steatosis, liver enzymes, and serum lipids in obese children

Levent Soydan M.D.^a, Narin Akıcı M.D.^b and Yesim Coskun M.D.^c

ABSTRACT

Introduction. Childhood obesity can cause hyperlipidemia and hepatic steatosis at early age and chronic disease complications in adult life. We aimed to evaluate the relationship between abdominal subcutaneous fat thickness (ASFT) and hepatic steatosis, serum lipid and transaminase levels in obese children.

Population and methods. A retrospective study was conducted with children (aged 4-18 years) who presented to outpatient clinic due to obesity. Associations between ASFT as assessed by ultrasonography (US) and hepatic steatosis, alanine transaminase (ALT), aspartate transaminase (AST) and serum lipid profile were evaluated.

Results. We identified 95 children, all of which were diagnosed as having hepatic steatosis; the most common type was grade 1 (73.6 %, n: 70), followed by grade 2 (21.1 %) and grade 3 (5.3 %). The mean values of midline and flank ASFT were measured as 38.48 ± 11.53 mm and 20.91 ± 8.00 mm in grade 1; 41.23 ± 10.03 and 19.84 ± 6.75 in grade 2 and 63.12 ± 12.08 and 23.22 ± 5.92 in grade 3 hepatic steatosis, respectively. Midline and flank ASFT correlated positively with triglycerides in grade 3 steatosis, while midline ASFT correlated with body mass index, total cholesterol, low-density lipoprotein cholesterol, and AST (r: 0.9; p: 0.037; r: 0.648, p: 0.001; r: 0.387, p: 0.001; r: 0.406, p: 0.001, r: 0.463, p: 0.001; respectively) in grade 1 steatosis.

Conclusion. ASFT as assessed by US may be of predictive value for hyperlipidemia in grade 3 and for hypercholesterolemia in grade 1 hepatic steatosis in obese children.

Keywords: subcutaneous fat abdominal, pediatric obesity, liver steatosis, lipid metabolism.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.114>

To cite: Soydan L, Akıcı N, Coskun Y. Association of abdominal subcutaneous fat thickness with hepatic steatosis, liver enzymes, and serum lipids in obese children. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):114-122.

- Department of Radiology, Haydarpasa Numune Training and Research Hospital. Istanbul, Turkey.
- Department of Pediatrics, Haydarpasa Numune Training and Research Hospital. Istanbul, Turkey.
- Department of Pediatrics, Bahcesehir University School of Medicine Goztepe Medicalpark Hospital. Istanbul, Turkey.

E-mail address:
Levent Soydan M.D.:
levent.soydan@gmail.com

Funding:
None.

Conflict of interest:
None.

Received: 4-21-2020
Accepted: 9-30-2020

GLOSSARY

ALT: Alanine aminotransferase.

ASFT: Abdominal subcutaneous fat thickness.

AST: Aspartate aminotransferase.

BMI: Body mass index.

CT: Computed tomography.

HDL-C: High-density lipoprotein cholesterol.

LDL-C: Low-density lipoprotein cholesterol.

MRI: Magnetic resonance imaging.

NAFLD: Nonalcoholic fatty liver disease.

TC: Total cholesterol.

TG: Triglyceride.

US: Ultrasonography.

INTRODUCTION

Pediatric obesity is a major health problem that is characterized by an excess of adiposity or body fat. It contributes to medical, physical, and emotional problems during childhood which may lead to high morbidity in adulthood.¹ According to World Health Organization, the prevalence of obesity has increased over the past three decades with an annual increase of 0,5-1 %.^{2,3} Obesity is a multifactorial condition affected by both genetic and non-genetic factors.^{1,2} It is defined by the body mass index (BMI) which has a strong correlation with adiposity.⁴

Childhood obesity often continues into adulthood obesity, which is strongly linked to insulin resistance, diabetes mellitus type 2, hypertension, dyslipidemia, fatty liver, asthma, sleep apnea, and orthopedic problems.⁵⁻⁸ Obesity can be associated with biochemical abnormalities that start in childhood. Serum lipid profile, especially triglyceride and total cholesterol (TC) levels and serum

alanine/aspartate aminotransferase (ALT/AST) levels may be above the normal range in obese children.^{9,10} Childhood obesity can also be associated with hepatic steatosis, which is defined as the accumulation of fat in the liver, especially in the form of triglycerides. Although hepatic steatosis is generally self-limiting, it may progress to nonalcoholic fatty liver disease (NAFLD) and liver cirrhosis.^{11,12}

Body adipose tissue amount and distribution is closely associated with obesity, and attempts have been made to assess visceral and subcutaneous fat tissue, using ultrasonography (US), dual-energy X-ray absorptiometry, computed tomography (CT) and magnetic resonance imaging (MRI).¹³ To investigate the association between body adiposity and obesity-related risk factors, various studies focused more on anthropometric measures and visceral adiposity. The ability of abdominal subcutaneous fat thickness (ASFT) as the sole parameter to reflect the degree of hepatic steatosis and hyperlipidemia has not been clearly established yet. US can be used both to diagnose hepatic steatosis and to measure ASFT.¹⁴⁻¹⁶ If ASFT can predict these obesity-related parameters in obese children, then sonographic assessment of ASFT may be added to the initial workup of obese children to identify high risk obese children since US is a non-invasive, easy-to-use, widely available, and safe imaging modality.¹³

In this study, we aimed to evaluate the association between ASFT and hepatic steatosis, serum lipid and transaminase levels in obese children.

POPULATION AND METHODS

This retrospective study was conducted with children who were presented to pediatric outpatient clinic due to obesity between May 2016 and April 2018 in Haydarpasa Numune Training and Research Hospital. We defined a pediatric patient as obese if her/his BMI was \geq 95th percentile.¹⁷ We excluded those obese children with chronic liver diseases, infectious liver diseases, hepatomegaly, congenital dyslipidemias or metabolic diseases.

Data on children's height and weight had been immediately assessed at admission. These data were then combined with the age and gender of the children to calculate the BMI using the mathematical formula of weight-for-height index. Serum lipid (TC, low-density lipoprotein-cholesterol [LDL-C], high-density lipoprotein-cholesterol [HDL-C], triglycerides [TG]) and transaminase levels were obtained in the fasting state by venipuncture within 7 days of outpatient admission.

Conventional US was performed by a single radiologist who had information about the clinical presentation of the patient but was unaware of

FIGURE 1. Measurement of flank abdominal subcutaneous fat thickness from skin surface (between calipers)



laboratory findings. The procedure was powered via an Aplio 500 ultrasound system (Toshiba / Canon, Japan) with linear and convex transducers (frequency bandwidth 18 and 3.5-6 MHz respectively) in a standardized manner: ASFT was measured with minimal pressure applied by the US probe during normal respiration when the child was in the supine position. The midline ASFT was measured in the transverse plane, one centimeter below the umbilicus level, and the flank ASFT was measured within the same transverse plane on both the right and left flanks, approximately at the level of each anterior superior iliac spine. The mean value of both sides was taken as flank ASFT. The subcutaneous fat thickness was defined as the distance between the skin surface and the outer margin of the abdominal muscle layer (*Figure 1 & 2*).

The hepatic steatosis score was assessed by conventional US as follows: slight and diffuse increase in fine parenchymal echoes with normal visualization of diaphragm and portal vein borders was defined as grade 1; moderate and diffuse increase in fine echoes with slightly impaired visualization of portal vein borders and diaphragm was defined as grade 2, and fine echoes with poor or no visualization of portal vein borders, diaphragm, and posterior portion of the right lobe was defined as grade 3 steatosis.¹⁸

Ethical considerations: The study protocol was approved by the Ethics Committee of Zeynep Kamil Maternity and Children's Diseases Training and Research Hospital (approval no: 2018-84). The study was performed according to the principles laid out in the Declaration of Helsinki.

Statistical analysis: Statistical analysis was performed using NCSS (Number Cruncher Statistical System) 2007 (Kaysville, Utah, USA) software. The descriptive data were expressed as the numbers and percentage or the mean, standard deviation, median, range, and z-scores; where appropriate. Kruskal Wallis test and Mann Whitney U test for Bonferroni correction were used in the comparison of three and more groups that showed non-normal distribution. The Fisher Freeman Halton test was used to compare the categorical variables. Correlation between parametric variables was tested through Spearman correlation analysis. An overall type-1 error level of 5 % was used to infer statistical significance.

RESULTS

We identified 95 obese children (boys 57.9 %); the mean age was 11.8 ± 3.9 years (range: 4-18 years). The mean BMI was 28.0 with a mean z-score of -1.7 kg/m^2 (*Table 1*).

We detected hepatic steatosis in all children,

FIGURE 2. Measurement of midline abdominal subcutaneous fat thickness from skin surface (between calipers)



TABLE 1. The demographic and clinical characteristics of the patients

Age (year)	Min-Max (median)	4-18 (11)
	mean ± standart deviation	11.8 ± 3.9
Gender, n (%)	Female	40 (42.1)
	Male	55 (57.9)
BMI (kg/m²)	Mean	28.02
	Mean z-score	-1.7
TG (mg/dl)	Min-Max (median)	35-292 (93)
	mean ± standart deviation	102.03 ± 44.43
TC (mg/dl)	Min-Max (median)	74-279 (166)
	mean ± standart deviation	166.41 ± 37.59
HDL-C (mg/dl)	Min-Max (median)	23-144 (45)
	mean ± standart deviation	47.78 ± 18.38
LDL-C (mg/dl)	Min-Max (median)	32-154 (105)
	mean ± standart deviation	101.31 ± 27.85
AST (IU/L)	Min-Max (median)	11-94 (22)
	mean ± standart deviation	24.72 ± 11.84
ALT (IU/L)	Min-Max (median)	9-109 (21)
	mean ± standart deviation	26.22 ± 17.13
Midline ASFT (cm)	Min-Max (median)	16-80 (40.60)
	mean ± standart deviation	40.36 ± 12.43
Flank ASFT (cm)	Min-Max (median)	7-44.4 (20.50)
	mean ± standart deviation	20.80 ± 7.63
Hepatic steatosis, n (%)	Grade 1	70 (73.7)
	Grade 2	20 (21.1)
	Grade 3	5 (5.3)

BMI: body mass index, TG: triglyceride, TC: total cholesterol, HDL-C: high density lipoprotein-cholesterol, LDL-C: low density lipoprotein-cholesterol, AST: aspartate aminotransferase, ALT: alanine aminotransferase, ASFT: abdominal subcutaneous fat thickness.

TABLE 2. Demographic and clinical characteristics of groups according to the grade of hepatic steatosis

		Hepatic steatosis			Test value
		Grade 1 (n = 70)	Grade 2 (n = 20)	Grade 3 (n = 5)	p
Age (year)	Min-Max (median)	4-18 (10)	8-18 (12)	13-16 (14)	χ^2 : 6.833
	mean ± standart deviation	11.19 ± 3.99	13.05 ± 3.2	14.6 ± 1.34	^a 0.033*
Gender, n (%)	Female	35 (87.5)	3 (7.5)	2 (5.0)	χ^2 : 8.165
	Male	35 (63.6)	17 (30.9)	3 (5.5)	^b 0.013*
BMI (kg/m²)	Mean	26.7	30.9	34.8	χ^2 : 14.487
	mean z-score	-0.2	0.5	1.2	^a 0.001**
TG (mg/dl)	Min-Max (median)	35-292 (89.5)	43-208 (110)	83-142 (102)	χ^2 : 3.529
	mean ± standart deviation	97.44 ± 43.65	115.45 ± 49.08	112.6 ± 26.03	^a 0.171
TC (mg/dl)	Min-Max (median)	74-279 (168)	100-219 (166)	122-201 (157)	χ^2 : 0.753
	mean ± standart deviation	167.46 ± 38.84	164.75 ± 36.35	158.4 ± 28.11	^a 0.686
HDL-C (mg/dl)	Min-Max (median)	23-144 (47)	25-56 (39.5)	30-48 (40)	χ^2 : 11.745
	mean ± standart deviation	50.79 ± 20.12	39.25 ± 8.17	39.8 ± 6.5	^a 0.003**
LDL-C (mg/dl)	Min-Max (median)	32-154 (106.5)	60-145 (103.5)	66-131 (98)	χ^2 : 0.312
	mean ± standart deviation	101.39 ± 29.38	102.2 ± 24.12	96.6 ± 23.37	^a 0.856
AST (IU/L)	Min-Max (median)	11-49 (20)	20-75 (27)	17-94 (29)	χ^2 : 18.875
	mean ± standart deviation	21.76 ± 6.95	31.75 ± 13.18	38 ± 31.89	^a 0.001**
ALT (IU/L)	Min-Max (median)	9-55 (18)	19-109 (37)	18-70 (37)	χ^2 : 35.707
	mean ± standart deviation	19.86 ± 8.94	45.1 ± 22.43	39.8 ± 20.07	^a 0.001**

^a Kruskal Wallis Test. ^b FisherFreeman. * p < 0.05. ** p < 0.01.

BMI: body mass index, TG: triglyceride, TC: total cholesterol, HDL-C: high density lipoprotein-cholesterol, LDL-C: low density lipoprotein-cholesterol, AST: aspartate aminotransferase, ALT: alanine aminotransferase.

where the most common type was grade 1 (73.6 %, n: 70), followed by grade 2 (21.1 %, n: 20) and grade 3 (5.3 %, n: 5). The mean age of the patients with grade 2 steatosis was significantly higher than those with grade 1 (p: 0.041). Grade 1 and 2 steatosis were more common among males compared to females (p: 0.027 and p: 0.018, respectively). Patients with grade 2 steatosis had significantly higher BMI than that in those with grade 1 steatosis (p: 0.001). The mean AST and ALT levels were lower in patients with grade 1 steatosis compared to those in grade 2 steatosis (p: 0.0035 and p < 0.0001). While TC and TG levels did not differ in terms of steatosis grades, patients with grade 1 steatosis had higher mean HDL levels than that in those with grade 2 (p: 0.0003) and grade 3 (p: 0.0141).

We found higher midline ASFT in patients with grade 3 steatosis than that in those with grade 1 (p: 0.0086) or grade 2 steatosis (p: 0.0114). The flank ASFT was similar across the different grades of hepatic steatosis (Table 3).

There was also a positive correlation between BMI and midline ASFT in patients with grade 1 (r: 0.648, p: 0.001) and grade 2 steatosis (r: 0.558, p: 0.011). Among transaminases, AST correlated both with midline and flank ASFT in grade 1 (r: 0.463, p: 0.001 and r: 0.431, p: 0.001; respectively) and with flank ASFT in grade 3 hepatic steatosis (r: 0.900, p: 0.037). There was also a positive correlation between midline ASFT and LDL-C and TC levels in patients with grade 1 steatosis (r: 0.406, p: 0.001 and r: = 0.387, p: 0.001; respectively). In patients with grade 3 steatosis,

TABLE 3. Evaluation of midline and flank ASFT according to grade of hepatic steatosis

		Steatosis			Test value p
		Grade 1 (n = 70)	Grade 2 (n = 20)	Grade 3 (n = 5)	
Midline ASFT (mm)	Min-Max (median)	16-61 (38.5)	25-57 (42.5)	46.6-80 (64)	χ^2 : 11.762
	mean \pm standart deviation	38.48 \pm 11.53	41.23 \pm 10.03	63.12 \pm 12.08	^a 0.003**
Flank ASFT (mm)	Min-Max (median)	7-44.4 (20.5)	11-37.4 (18.95)	17-33 (22)	χ^2 : 1.449
	mean \pm standart deviation	20.91 \pm 8.00	19.84 \pm 6.75	23.22 \pm 5.92	^a 0.485

^a Kruskal Wallis Test. ** p < 0.01.

ASFT: abdominal subcutaneous fat thickness.

TABLE 4. Associations of midline and flank ASFT with BMI, TG, TC, HDL-C, LDL-C, AST, and ALT according to grade of hepatic steatosis

		Midline ASFT Hepatic steatosis			Flank ASFT Hepatic steatosis		
		Grade 1	Grade 2	Grade 3	Grade 1	Grade 2	Grade 3
		BMI	r	0.648	0.558	0.000	0.233
	p	0.001**	0.011*	1.000	0.052	0.531	0.624
TG	r	0.009	0.148	0.900	0.154	0.048	0.900
	p	0.938	0.534	0.037*	0.202	0.840	0.037*
TC	r	0.387	0.041	0.700	0.089	0.080	0.800
	p	0.001**	0.862	0.188	0.464	0.738	0.104
HDL-C	r	0.216	0.412	0.200	0.198	0.067	0.300
	p	0.072	0.071	0.747	0.101	0.780	0.624
LDL-C	r	0.406	0.375	1.000	0.099	0.025	0.700
	p	0.001**	0.104	0.001**	0.415	0.917	0.188
AST	r	0.463	0.133	0.500	0.431	0.126	0.900
	p	0.001**	0.575	0.391	0.001**	0.598	0.037*
ALT	r	0.080	0.232	0.700	0.039	0.047	0.800
	p	0.513	0.325	0.188	0.750	0.845	0.104

r: Spearman's correlation coefficient. * p < 0.05. ** p < 0.01.

ASFT: abdominal subcutaneous fat thickness, BMI: body mass index, TG: triglyceride, TC: total cholesterol, HDL-C: high density lipoprotein-cholesterol, LDL-C: low density lipoprotein-cholesterol, AST: aspartate aminotransferase, ALT: alanine aminotransferase.

a positive correlation existed between midline ASFT and TG (r: 0.900, p: 0.037) and LDL-C (r: 1.000, p: 0.001) levels). The flank ASFT was also positively correlated with TG level in grade 3 steatosis patients (r: 0.900, p: 0.037; Table 4).

DISCUSSION

Childhood obesity is a potential risk factor of several cardiovascular diseases including hypertension, dyslipidemia, diabetes, or sleep apnea in adulthood. Therefore, it is important to identify any obesity-related condition in childhood that may progress or lead to cardiometabolic complications in later life.^{1,2,19,20} This study provides important information regarding associations between ASFT and several biomarkers of such obesity-related conditions, which may be used to predict the risk of complications in obese children. Accordingly, our findings showed ASFT to potentially have a predictive value for dyslipidemia in obese pediatric patients, especially pronounced in those with grade I hepatic steatosis.

In childhood, hepatic steatosis is among the most common chronic hepatic diseases, and like in adults, it is a hallmark of NAFLD.^{21,22} Childhood obesity is associated with an increased risk of NAFLD, reaching a prevalence of up to 38 % in adolescents.²¹ NAFLD includes hepatic steatosis, ranging from mild steatosis to steatohepatitis, and in rare cases, to cirrhosis with a tendency to progress.^{23,24} In our study, we found that the mean age for grade 3 hepatic steatosis was 14 years, whereas the mean age for grade 1 steatosis was 10 years. These findings suggest that early diagnosis and treatment of hepatic steatosis may be essential due to its tendency to progress. It has been reported that hepatic steatosis is more common in males with a male to female ratio of 2:1.²⁴ We also found in our study that the number of male patients with grade 1 and 2 steatosis were higher than female patients, and the male gender carried higher risk for hepatic steatosis than the female patients. While obesity is known to attenuate gender differences in visceral steatosis, it was reported that pubertal and postpubertal boys were more likely to have increased abdominal fat tissue.²⁵ Considering the mean age of our population, our findings seem to be consistent with the literature, though need to be clarified further with well-designed studies. It is also known that 20 % to 80 % of obese children with hepatic steatosis may have hypertriglyceridemia, high LDL-C and elevated

transaminase levels.^{23,24}

Apart from commonly used anthropometric measurements like skinfold thickness by caliper, US, CT, and MRI are imaging techniques that can be used to diagnose hepatic steatosis.^{13,18,26-28} Among these, US is a widely available, inexpensive, and radiation-free modality.²⁶ It has been demonstrated that liver US may also be used for quantifying steatosis in pediatric patients, and sonographic assessment of steatosis strongly correlates with the grade of steatosis on liver biopsy.^{28,29} The disadvantage of US is that if the liver contains less than 30 % fat, the sensitivity decreases.^{5,13} Although there are some reports for hepatic imaging modalities such as CT or MRI to diagnose steatosis, they are generally considered not feasible to be used for children because of their inherent cost, the potential need for sedation, relatively limited availability, and the inherent radiation with CT.^{5,30} In our study, we used US to assess the liver parenchyma for steatosis, and found that all our patients had some degree of hepatic steatosis, albeit near three quarters with grade 1.

Increased body adiposity seen in obesity has been linked to metabolic derangements, and there have been attempts to estimate the amount of body fat, using various anthropometric parameters. Other studies focused on any association between the amount of visceral and subcutaneous fat tissue with hepatic steatosis and dyslipidemia.³¹⁻³⁵ Increased visceral fat has been consistently reported to be associated with both metabolic dysregulation and elevated liver enzymes.^{32,33} Yamaguchi et al., found strong correlation between visceral adipose tissue and serum lipid profile and transaminases in obese children.³³ Bibiloni et al. showed that body mass index and abdominal obesity were associated with the prevalence of at least one abnormal lipid level, and low HDL-C level was the most common dyslipidaemia among their patients.³⁴ According to Bijari et al., there was a relationship between central obesity and adverse changes in lipid profiles, and they recommended screening children for central obesity for prevention of cardiovascular disease.³⁵ Asayama et al. investigated the relationship between visceral fat thickness or the ratio of visceral to subcutaneous fat and various anthropometric parameters and reported that visceral adipose tissue correlated best with serum lipid values constituting a metabolic risk in children.³² All of these studies focused on the assessment of central and visceral

obesity, which necessitates the use of cross-sectional imaging such as CT or MRI.

However, there are few studies that investigated the link between subcutaneous fat amount and metabolic risk factors.^{36,37} Mager et al., showed in their study that the trunk subcutaneous fat taken as the sum of subcutaneous fat from abdominal, suprailiac and subscapular regions predicts abnormal liver biochemistry and dyslipidemia.³⁷ Lee et al., used ASFT as the sole parameter to reflect the subcutaneous fat amount, and showed positive correlation of ASFT with BMI and hepatic steatosis.³¹ Our results also showed that midline ASFT elevated by 64.8 % in grade 1 steatosis and 55.8 % in grade 2 steatosis per 1 kg/m² increment in BMI, suggesting that an increase in BMI leads to fat deposition not only in the liver but also in the subcutaneous tissues. We also found a positive correlation between ASFT and BMI. Lee et al., found a correlation between ASFT and TC, LDL and ALT levels.³¹ Similarly, our results showed that elevation in TG and LDL levels in patients with grade 3 steatosis were associated with increased midline ASFT measurement. In addition, in our study, rising TG and AST levels were associated with increased flank ASFT measurements in grade 3 steatosis. We also demonstrated that ALT values of patients with grade 1 steatosis were significantly lower than those with grade 2 and grade 3 steatosis. These results suggest that increases in ASFT were associated with higher lipid metabolic derangement, higher grades of steatosis, and higher levels of AST. As such, sonographic measurement of ASFT may be added to the routine workup of obese children. In this way, children with a higher risk of dyslipidemia and hepatic compromise may be identified and treated earlier, thereby preventing obesity-related complications that may arise in later years. Once life-style modifications and appropriate diet are implemented, ASFT may also be used as an easy-applicable method to monitor children during this period as obesity-related risk parameters revert to normal ranges.

This study has some limitations. First, assessment of liver steatosis by US is operator-dependent, subjective, and thus qualitative. In addition, if steatosis involves less than around 30 % of liver parenchyma, the sensitivity and specificity become diminished.^{13,30} Hence, it may be less reproducible, and does not provide quantitative data about steatosis, although a large-scale study by Schlecht et al., reported

high reproducibility and validity of US in measuring subcutaneous skin thickness, especially in non-obese children.¹⁵ Therefore, quantitative assessment of hepatic steatosis by MRI techniques in future studies may shed more light on this issue, and help confirm our results in a more reliable way. Secondly, our study lacked pathological verification of hepatic steatosis by liver biopsy as this would increase the reliability of our results by also clarifying other potential reasons included in the differential diagnosis.¹³ Next, we did not collect data about ethnicity or waist circumference of the patients, which should be considered in assessing the results. Another limitation was that the number of patients with grade 3 steatosis was small compared to patients in other groups, which highly decreases the certainties of interpretation of findings related to this subgroup. Therefore, we believe that further studies with larger number of grade 3 hepatic steatosis patients are needed to achieve more reliable conclusions.

CONCLUSIONS

In conclusion, both the midline and flank ASFT were positively correlated with triglycerides in obese children with grade 3 hepatic steatosis, whereas in grade I steatosis, the midline ASFT was positively correlated with BMI, TC, LDL-C, and AST. Nevertheless, these associations need to be confirmed in future large-scaled studies, possibly with modalities such as MRI, which can assess hepatic steatosis quantitatively. ■

REFERENCES

- Güngör NK. Overweight and obesity in children and adolescents. *J Clin Res Pediatr Endocrinol*. 2014; 6(3):129-43.
- Han JC, Lawlor D, Kimm SYS. Childhood Obesity-2010: Progress and Challenges. *Lancet*. 2010; 375(9727):1737-48.
- Lobstein T, Baur L, Uauy R, IASO International Obesity TaskForce. Obesity in children and young people: a crisis in public health. *Obes Rev*. 2004; 5(Suppl 1):4-104.
- Nicolai JP, Lupiani JH, Wolf A J. An Integrative approach to obesity. In: Raket D (ed). *Integrative Medicine*. 3rd ed. Philadelphia, PA: Saunders-Elsevier; 2012.P.364-75.
- Feldstein AE, Patton-Ku D, Boutelle KN. Obesity, Nutrition and Liver Disease in Children. *Clin Liver Dis*. 2014; 18(1):219-31.
- Freedman DS, Khan LK, Serdula MK, Dietz WH, et al. The relation of childhood BMI to adult adiposity: the Bogalusa Heart Study. *Pediatrics*. 2005; 115(1):22-7.
- Pulgaron ER, Delamater AM. Obesity and type 2 diabetes in children: epidemiology and treatment. *Curr Diab Rep*. 2014; 14(8):508.
- Juonala M, Magnussen CG, Berenson GS, Venn A, et al. Childhood adiposity, adult adiposity, and cardiovascular risk factors. *N Engl J Med*. 2011; 365(20):1876-85.
- Nobili V, Reale A, Alisi A, Morino G, et al. Elevated serum ALT in children presenting to the emergency unit: Relation-

- ship with NAFLD. *Dig Liver Dis.* 2009; 41(10):749-52.
10. Parekh S, Anania FA. Abnormal lipid and glucose metabolism in obesity: implications for nonalcoholic fatty liver disease. *Gastroenterology.* 2007; 132(6):2191-207.
 11. Donnelly KL, Smith CI, Schwarzenberg SJ, Jessurun J, et al. Sources of fatty acids stored in liver and secreted via lipoproteins in patients with nonalcoholic fatty liver disease. *J Clin Invest.* 2005; 115(5):1343-51.
 12. Ko JS, Yoon JM, Yang HR, Myung JK, et al. Clinical and histological features of nonalcoholic fatty liver disease in children. *Dig Dis Sci.* 2009; 54(10):2225-30.
 13. Vajro P, Lenta S, Socha P, Dhawan A, et al. Diagnosis of nonalcoholic fatty liver disease in children and adolescents: position paper of the ESPGHAN Hepatology Committee. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2012; 54(5):700-13.
 14. Semiz S, Ozgörene E, Sabir N. Comparison of ultrasonographic and anthropometric methods to assess body fat in childhood obesity. *Int J Obes (Lond).* 2007; 31(1):53-8.
 15. Schlecht I, Wiggermann P, Behrens G, Fischer B, et al. Reproducibility and validity of ultrasound for the measurement of visceral and subcutaneous adipose tissues. *Metabolism.* 2014; 63(12):1512-9.
 16. Wagner DR. Ultrasound as a tool to assess body fat. *J Obes.* 2013; 2013:280713.
 17. Whitlock EP, Williams SB, Gold R, Smith PR, Shipman SA. Screening and interventions for childhood overweight: a summary of evidence for the US Preventive Services Task Force. *Pediatrics.* 2010; 116(1):e125-44.
 18. Dasarathy S, Dasarathy J, Khiyami A, Joseph R, et al. Validity of real time ultrasound in the diagnosis of hepatic steatosis: a prospective study. *J Hepatol.* 2009; 51(6):1061-7.
 19. Pulgarón ER. Childhood obesity: A review of increased risk for physical and psychological comorbidities. *Clin Ther.* 2013; 35(1):A18-32.
 20. Burt Solorzano CM, McCartney CR. Obesity and the pubertal transition in girls and boys. *Reproduction.* 2010; 140(3):399-410.
 21. Schwimmer JB, Deutsch R, Kahen T, Lavine JE, et al. Prevalence of fatty liver in children and adolescents. *Pediatrics.* 2006; 118(4):1388-93.
 22. Jung JH, Jung MK, Kim KE, Kwon AR, et al. Ultrasound measurement of pediatric visceral fat thickness: correlations with metabolic and liver profiles. *Ann Pediatr Endocrinol Metab.* 2016; 21(2):75-80.
 23. Sundaram SS, Zeitler P, Nadeau K. The metabolic syndrome and nonalcoholic fatty liver disease in children. *Curr Opin Pediatr.* 2009; 21(4):529-35.
 24. Marzuillo P, Miraglia del Giudice E, Santoro N. Pediatric fatty liver disease: Role of ethnicity and genetics. *World J Gastroenterol.* 2014; 20(23):7347-55.
 25. Staiano A, Katzmarzyk P. Ethnic and sex differences in body fat, visceral, and subcutaneous adiposity in children and adolescents. *Int J Obes (Lond).* 2012; 36(10):1261-9.
 26. Sabir N, Sermez Y, Kazil S, Zencir M. Correlation of abdominal fat accumulation and liver steatosis: importance of ultrasonographic and anthropometric measurements. *Eur J Ultrasound.* 2001; 14(2-3):121-8.
 27. Mazhar SM, Shieh morteza M, Sirlin CB. Noninvasive assessment of hepatic steatosis. *Clin Gastroenterol Hepatol.* 2009; 7(2):135-40.
 28. Shannon A, Alkhouri N, Carter-Kent C, Monti L, et al. Ultrasonographic quantitative estimation of hepatic steatosis in children with NAFLD. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2011; 53(2):190-5.
 29. Eifler RV. The role of ultrasonography in the measurement of subcutaneous and visceral fat and its correlation with hepatic steatosis. *Radiol Bras.* 2013; 46(5):273-8.
 30. Vos M, Abrams S, Barlow S, Caprio S, et al. NASPGHAN clinical practice guideline for the diagnosis and treatment of Nonalcoholic Fatty Liver Disease in children: recommendations from the expert Committee on NAFLD (ECON) and the North American Society of Pediatric Gastroenterology, Hepatology and Nutrition (NASPGHAN). *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2017; 64(2):319-34.
 31. Lee SH, Kim D, Baek MY, Tchah H, et al. Abdominal Subcutaneous Fat Thickness Measured by Ultrasonography Correlates with Hyperlipidemia and Steatohepatitis in Obese Children. *Pediatr Gastroenterol Hepatol Nutr.* 2015; 18(2):108-14.
 32. Asayama K, Dobashi K, Hayashibe H, Kodera K, et al. Threshold values of visceral fat measures and their anthropometric alternatives for metabolic derangement in Japanese obese boys. *Int J Obes Relat Metab Disord.* 2002; 26(2):208-13.
 33. Yamaguchi J, Oguni T, Konishi K, Mino M. Abdominal adiposity with respect to the proportion of intra-abdominal visceral fat to extra-abdominal fat (VS ratio) in Japanese childhood obesity. *Pathophysiol.* 1996; 3(1):29-35.
 34. Bibiloni MD, Salas R, De la Garza YE, Villarreal JZ, et al. Serum lipid profile, prevalence of dyslipidaemia, and associated risk factors among northern Mexican adolescents. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2016; 63(5):544-9.
 35. Bijari B, Taheri F, Chahkandi T, Kazemi T, et al. The relationship between serum lipids and obesity among elementary school in Birjand: a case control study. *J Res Health Sci.* 2015; 15(2):83-7.
 36. Deeb A, Attia S, Mahmoud S, Elhaj G, Elfatih A. Dyslipidemia and fatty liver disease in overweight and obese children. *J Obes.* 2018; 2018:8626818.
 37. Mager DR, Yap J, Rodriguez-Dimitrescu C, Mazurak V, et al. Anthropometric Measures of visceral and subcutaneous fat are important in the determination of metabolic dysregulation in boys and girls at risk for nonalcoholic fatty liver disease. *Nutr Clin Pract.* 2013; 28(1):101-11.

Conocimiento del derecho al servicio de interpretación de Lengua de Señas Argentina por pediatras que ejercen en la Ciudad Autónoma de Buenos Aires

Awareness of the right to Argentine Sign Language interpretation services among pediatricians practicing in the Autonomous City of Buenos Aires

Sr. Lucas A. Walz^a, Dr. Adrián M. Cutri^b, Dr. Fernando A. Torres^c, Prof. Claudio C. Riquelme^d, Prof. Verónica Gatto Bellora^c y Dr. Fernando C. Ferrero^c

RESUMEN

Introducción. Los obstáculos en la comunicación entre médicos y personas sordas/hipoacúsicas pueden comportarse como factores de riesgo para la salud. El servicio de un intérprete profesional de Lengua de Señas Argentina (IPLSA), según la Ley N.º 26378, podría mitigar esto.

Objetivo. Estimar la proporción de pediatras que conocen la Ley N.º 26378 y explorar si se asocia a recomendar a un IPLSA. **Población y métodos.** Estudio transversal con cuestionario electrónico autoadministrado a pediatras registrados en la Sociedad Argentina de Pediatría, que ejercían en la Ciudad Autónoma de Buenos Aires.

Resultados. Se evaluaron 381 respuestas. El 15,1 % conocía la Ley, y esto se asoció con recomendar a un IPLSA (OR: 3,7; IC 95 %: 1,1-12,9; p < 0,05).

Conclusiones. La proporción de pediatras de la Ciudad Autónoma de Buenos Aires que conocía la ley fue el 15,1 %. Esto se asoció significativamente con recomendar a un IPLSA.

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

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.123>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.123>

Cómo citar: Walz LA, Cutri AM, Torres FA, Riquelme CC, et al. Conocimiento del derecho al servicio de interpretación de Lengua de Señas Argentina por pediatras que ejercen en la Ciudad Autónoma de Buenos Aires. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):123-128.

- Universidad de Yale.
- Escuela de Educación Especial "Julia Ofelia Cubilla" N° 7, Resistencia, Chaco.
- Hospital General de Niños "Pedro de Elizalde", Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.
- Unidad Educativa de Gestión Privada N° 172 "Deolindo Felipe Bittel", Resistencia, Chaco, Argentina.

Correspondencia:

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

Financiamiento: Trabajo realizado por un sistema de becas de la Universidad de Yale, *Gary Stein Summer Fellowship*, *Yale College Fellowships for Research in Global Health Studies*, *Steven Clark Senior Essay Travel Grant*.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 28-5-2020

Aceptado: 6-10-2020

INTRODUCCIÓN

La pérdida de la audición se encuentra entre las discapacidades de mayor prevalencia,¹ pues afecta a más de 466 millones de personas en el mundo.² El Ministerio de Salud de la República Argentina estima que la discapacidad auditiva representa el 18 % de las discapacidades a nivel nacional.³ En nuestro país, muchas personas sordas o hipoacúsicas (PSH) utilizan la Lengua de Señas Argentina (LSA) como método de comunicación.

Los obstáculos en la comunicación son un factor de riesgo para la salud entre las PSH. Investigaciones en el Reino Unido demostraron mayores probabilidades de tener asma, hipertensión, obesidad y depresión en estas personas.⁴ Además, tienen mayores probabilidades de percibir que sus necesidades de atención médica no están cubiertas.⁵ Si bien pueden existir razones biológicas subyacentes, la desigualdad en el acceso a los servicios de salud podría explicar esta percepción.⁶

Las PSH tienen mayores probabilidades de tener dificultades para comunicarse con sus médicos, entenderlos y sentirse cómodas con ellos. Además, la comunicación ineficaz entre médicos y PSH limita la atención en salud.⁷ El servicio de un intérprete profesional que pueda comunicarse a través de la lengua de señas podría mitigar esas limitaciones.

La Argentina aprobó la Convención de los Derechos de las Personas con Discapacidad (Ley N° 26378) y, posteriormente, se le dio jerarquía constitucional (Ley N° 27044), con lo que se reconocieron los derechos de las personas con discapacidad.⁸ Esta norma estipula proporcionar a un intérprete profesional de LSA (IPLSA) gratuito para facilitar el acceso de PSH a instalaciones públicas. Además, la Convención de los Derechos del Niño (Ley N° 23849) enfatiza las obligaciones del Estado para prestar asistencia apropiada a los padres para el desempeño de sus

responsabilidades de crianza.⁹ La ausencia de un IPLSA en la consulta implica la conculcación de derechos de PSH y de sus hijos.

Un cuestionario realizado a padres sordos/hipoacúsicos en la Ciudad Autónoma de Buenos Aires (CABA) y en Chaco reveló que el 15,4 % había tenido alguna vez un IPLSA durante la consulta y ninguno había conseguido este servicio por parte del Estado.¹⁰ Explorar si los médicos conocen la Ley N° 26378 y si brindan información sobre el derecho de contar con un IPLSA podría ser de utilidad para garantizar los derechos de las PSH.

OBJETIVO

Estimar la proporción de pediatras de la CABA que conoce la Ley N° 26378 y recomienda el uso de un IPLSA. Explorar si el conocimiento de la Ley N° 26378 se asocia a recomendar a un IPLSA.

MATERIAL Y MÉTODO

Estudio descriptivo, transversal, por cuestionario semiestructurado, autoadministrado en línea entre el 4/10/19 y el 31/10/19, que utilizó SurveyMonkey TM¹¹ (ver *Anexo*). Se incluyeron pediatras asociados a la Sociedad Argentina de Pediatría (SAP), que ejercieran su

actividad en la CABA. La variable de resultado principal fue conocer la Ley N° 26378 (sí o no).

Para el segundo objetivo, explorar si el conocimiento de la ley se asociaba a recomendar a un IPLSA, se utilizó la primera como variable de predicción y la segunda como de resultado. Fueron controlados edad, años de práctica médica, sexo, ámbito laboral, experiencia con PSH (ver *Anexo*).

El estudio fue aprobado por el Comité de Ética en Investigación del Hospital General de Niños "Pedro de Elizalde" y el Comité de Sujetos Humanos de la Junta de Revisión Institucional de la Universidad de Yale. Además, fue avalado por la Subcomisión de Derechos del Niño y aprobado por la Comisión Directiva de la SAP para utilizar su base de datos de correo electrónico para enviar la encuesta.

Al no existir una encuesta validada, fue necesario su desarrollo. Para la validación, se realizaron entrevistas cognitivas a once médicos de un hospital pediátrico que no participaron posteriormente en la encuesta en línea.¹²

Para explorar la asociación entre el conocimiento de la Ley N° 26378 y los potenciales predictores, se utilizó la prueba de χ^2 . Nivel de significación de $p < 0,05$. El análisis se realizó con SPSS 23.0

TABLA 1. Descripción de la población de pediatras que respondieron la encuesta sobre la lengua de señas argentina

Variable	N (381)	Valor ^a
Edad		45,2 ± 12,6
Años de práctica de pediatría		19,3 ± 13,5
Sexo (mujer/varón)		307/74
Lugar de trabajo		
Privado	103	27,1 (22,9-31,8)
Público	254	66,6 (61,7-71,1)
Obras sociales	24	6,3 (4,3-9,2)
Conocen la Ley 26378	50/331	15,1 (11,7-19,4)
Han atendido a PSH ^b	335/381	87,9 (84,3-90,1)
Puede hablar la LSA correctamente	15/328	4,6 (2,8-7,4)
Durante la consulta con PSH ^c		
Cuenta con que lean los labios	265/322	82,3 (77,8-86,1)
Cuenta con lenguaje escrito	165/322	51,2 (45,8-56,7)
Utiliza LSA	42/285	14,7 (11,1-19,3)
Cuenta con un IPLSA	16/322	5,0 (3,1-7,9)
Cuenta con un intérprete no profesional	149/322	46,3 (40,9-51,7)
Recomienda a un IPLSA cuando no hay intérprete	62/314	19,7 (15,7-24,5)
Recomienda a un IPLSA cuando hay intérprete no profesional	15/119	12,6 (7,8-19,8)
No conoce la profesión de IPLSA	101/256	39,5 (33,7-45,6)
Desconoce cómo conseguir a un IPLSA	146/256	57,0 (50,9-63,0)
Tuvo problemas para adquirir a un IPLSA	24/272	8,8 (6,1-12,8)

^a Valores en media ± desvío estándar (variables continuas) y % con IC 95 % (variables categóricas).

^b Personas sordas o hipoacúsicas (PSH).

^c Se consideran los que respondieron "frecuentemente o siempre".

PSH: personas sordas o hipoacúsicas; LSA: Lengua de Señas Argentina; IPLSA: intérprete profesional de Lengua de Señas Argentina.

RESULTADOS

Se contactó a 16 140 socios registrados en la SAP en todo el país, y se recibieron 1094 respuestas. De estas, 381 correspondían a pediatras con práctica profesional en la CABA, aunque no todos respondieron todas las preguntas de la encuesta. La información sobre las variables analizadas se muestra en *Tabla 1*.

Respondieron conocer la Ley N° 26378, 50 de 331 (el 15,1 %; intervalo de confianza –IC– del 95 %: 11,7-19,4). El hecho de conocer la ley se asoció con recomendar a un IPLSA (*odds ratio* –OR–: 3,7; IC 95 %: 1,1-12,9; $p < 0,05$), con reportar problemas para conseguirlo (OR: 7,3; IC 95 %: 2,9-18,3; $p < 0,01$) y con estar más familiarizados con la LSA (OR: 5,5; IC 95 %: 2,7-11,0; $p < 0,001$) (*Tabla 2*).

El 87,9 % de los encuestados respondió haber tenido, al menos, un paciente o padre sordo/hipoacúsico. En el 92,5 % de los casos en que había un intérprete durante la consulta, se trataba de un intérprete no profesional. Además, 14/25 que intentaron solicitar a un IPLSA tuvieron problemas para conseguirlo (*Tabla 1*).

DISCUSIÓN

Nuestro estudio reveló que el 15,1 % de los encuestados (pediatras socios de la SAP que ejercían en la CABA) conocían la Ley N° 26378 y que esto estaba asociado a recomendar a un IPLSA. Así como un gran porcentaje de médicos desconocía la ley y no recomendaba a un IPLSA, datos locales mostraron que menos de la mitad de las PSH conocían su derecho a tener a un IPLSA en la consulta médica de sus hijos.¹⁰

Se observó que más del 95 % de los profesionales encuestados no utilizaban LSA. Esto, sumado a la no utilización de un IPLSA, podría derivar en situaciones embarazosas y predisponer a las PSH a responder “sí a todo”, lo que afectaría negativamente la comprensión entre ambos y comprometería el resultado de la consulta médica.

Se observó una asociación entre conocer la Ley N° 26378 y recomendar a un IPLSA. Sin embargo, cuando se intentó obtener el servicio de un IPLSA, con frecuencia, no fue exitoso y, en consecuencia, se utilizaron intérpretes no profesionales, quienes podrían no haber

TABLA 2. Descripción de las variables analizadas según el conocimiento de la Ley N° 26378^a

Características	Conocimiento de la Ley 26378		OR (IC 95 %)	p
	Sí (N = 50)	No (N = 331)		
Edad ^a	48,6 ± 12,4	44,4 ± 12,6		0,06
Años de práctica ^a	23,1 ± 13,2	19,1 ± 13,4		0,06
Sexo (varón/mujer)	15/35	50/229	1,9 (0,9-3,8)	0,07
Lugar de trabajo				
Privado	9 (18,4 %)	81 (28,8 %)		
Público	37 (75,5 %)	183 (65,1 %)		
Obras sociales	3 (6,1 %)	17 (6,1 %)		
Haber atendido a PSH ^b (sí/no)	42/8	245/36	0,7 (0,3-1,7)	0,7
Puede hablar LSA correctamente (sí/no)	8/7	42/271	7,3 (2,5-21,4)	< 0,01
Durante la consulta con un PSH				
Cuenta con que lean los labios (s f/r n) ^c	(32/10)	(201/42)	0,7 (0,3-1,4)	0,4
Cuenta con lenguaje escrito (s f/r n)	23/19	130/113	1,1 (0,5-2,2)	0,9
Utiliza LSA (s f/r n)	6/36	7/236	5,6 (1,7-17,6)	< 0,01
Cuenta con un IPLSA (s f/r n)	6/36	8/235	4,9 (1,6-14,9)	< 0,01
Cuenta con un intérprete no profesional (s f/r n)	16/26	117/126	0,6 (0,4-1,3)	0,2
Recomienda a un IPLSA				
cuando no hay intérprete (s f/r n)	20/22	35/210	5,4 (2,7-11,1)	< 0,01
Recomienda a un IPLSA				
cuando hay intérprete no profesional (s f/r n)	5/12	9/80	3,7 (1,1-12,9)	0,04
Conoce la profesión de IPLSA (sí/no)	23/6	127/91	3,6 (1,2-11,3)	0,04
Conoce cómo conseguir a un IPLSA (sí/no)	16/13	91/127	1,7 (0,8-3,7)	0,2
Tuvo problemas para conseguir a un IPLSA (sí/no)	11/30	11/220	7,3 (2,9-18,3)	< 0,01

^a Promedio ± desvío estándar (prueba de t).

^b Persona sorda o hipoacúsica (PSH).

^c Siempre o frecuentemente/raramente o nunca (s f/r n).

PSH: personas sordas o hipoacúsicas; LSA: Lengua de Señas Argentina; IPLSA: intérprete profesional de Lengua de Señas Argentina; OR: *odds ratio*; IC: intervalo de confianza.

interpretado eficazmente la información que daba un médico.

No existen estadísticas que confirmen la cantidad de IPLSA certificados en la Argentina. Estudios en España han demostrado que la cantidad de intérpretes disponibles no logra cubrir la demanda.¹³ De un modo similar, en nuestro país, pocas provincias cuentan con espacios de formación de IPLSA. Para resolver esta dificultad, una alternativa podría ser estimular la capacitación y certificación de IPLSA a nivel nacional.

Este estudio se basó en una muestra de socios de la SAP y, por lo tanto, es vulnerable a un sesgo de selección. A los invitados a participar en la encuesta se les informó el propósito de conocer la utilización de los servicios de intérpretes entre las PSH. De este modo, es posible que la encuesta haya sido respondida en mayor proporción por pediatras con experiencia en el trato a personas con discapacidad (como lo demuestra el alto porcentaje de pediatras que atendieron a pacientes sordos o hipoacúsicos), lo que haría que los resultados reflejaran una situación menos grave de lo que es en realidad.

Los 381 pediatras que respondieron la encuesta representaron un estimado del 13,4 % de los asociados a la SAP que ejercían su trabajo en la CABA. Esto hizo que la tasa de respuesta en este estudio fuera comparable a las de estudios que utilizaron una metodología similar de muestreo a través de la lista de correo electrónico de la SAP.¹⁵

Nuestro estudio sugirió que una parte de los pediatras que ejercían en la CABA desconocían la Ley N° 26378 y no recomendaban habitualmente a un IPLSA. Se considera necesario concientizar a los profesionales sobre los derechos de las personas con discapacidad, ya que son actores sociales fundamentales para llevar a la práctica las normas legales vigentes.

CONCLUSIONES

Solo el 15,1 % de los pediatras de la CABA socios de la SAP conoce la Ley N° 26378. Conocerla se asoció significativamente con recomendar a un IPLSA en la consulta. ■

REFERENCIAS

1. GBD 2015 Disease and Injury Incidence and Prevalence Collaborators. Global, regional, and national incidence, prevalence, and years lived with disability for 310 diseases and injuries, 1990-2015: a systematic analysis for the Global Burden of Disease Study 2015. *Lancet*. 2016; 388(10053):1545-602.
2. World Health Organization. Deafness and Hearing Loss. Washington DC, 2020. [Acceso: 15 de febrero de 2018]. Disponible en: <https://www.who.int/news-room/factsheets/detail/deafness-and-hearing-loss>.
3. Argentina. Ministerio de Salud. Audífonos e implantes cocleares gratuitos para promover la integración social de los niños sordos. 2012 [Acceso: 24 de enero de 2018]. Disponible en: http://www.msal.gov.ar/prensa/index.php?option=com_content&view=article&id=439:audifonos-e-implantes-cocleares-gratuitos-para-promover-la-integracion-social-de-los-ninos-sordos&catid=1:noticias439.
4. Emond A, Ridd M, Sutherland H, Allsop L, et al. The current health of the signing Deaf community in the UK compared with the general population: a cross-sectional study. *BMJ Open*. 2015; 5(1):e006668.
5. Woodcock K, Pole JD. Health profile of deaf Canadians: analysis of the Canada Community Health Survey. *Can Fam Physician*. 2007; 53(12):2140-1.
6. Barnett S, McKee M, Smith SR, Pearson TA. Deaf sign language users, health inequities, and public health: opportunity for social justice. *Prev Chronic Dis*. 2011; 8(2):A45.
7. Bat-Chava Y, Martin D, Kosciw JG. Barriers to HIV / AIDS knowledge and prevention among deaf and hard of hearing people. *AIDS Care*. 2005; 17(5):623-34.
8. Ley N.º 27044. Jerarquía Constitucional. Convención sobre los derechos de las personas con discapacidad. Boletín Oficial de la República Argentina. Buenos Aires, 22 de diciembre de 2014. [Acceso: 15 de enero de 2018]. Disponible en: <http://servicios.infoleg.gob.ar/infolegInternet/verNorma.do?id=239860>.
9. Convención sobre los Derechos del Niño. Buenos Aires, 27 de setiembre de 1990. [Acceso: 25 de febrero de 2018]. Disponible en: https://www.oas.org/dil/esp/Convencion_sobre_los_Derechos_del_Nino_Argentina.pdf.
10. Cutri AM, Torres FA, Riquelme CC, Cabrera NB, 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):310-5.
11. SurveyMonkey LLC. SurveyMonkey®. 2012. [Acceso: 4 de octubre de 2019]. Disponible en: <https://es.surveymonkey.com>.
12. Willis GB. Cognitive Interviewing: A Tool for Improving Questionnaire Design. California: SAGE Publications, Inc; 2004.
13. Muñoz-Baell IM, Ruiz-Cantero MT, Alvarez-Dardet C, Ferreiro-Lago E, et al. Comunidades sordas: ¿pacientes o ciudadanas? *Gac Sanit*. 2011; 25(1):72-8.
14. Asch DA, Jedrzejewski MK, Christakis NA. Response rates to mail surveys published in medical journals. *J Clin Epidemiol*. 1997; 50(10):1129-36.
15. Goldfarb G, Nasanovsky J, Krynski L, Ciancaglini A, et al. Uso de tecnologías de la información y comunicación por pediatras. *Arch Argent Pediatr*. 2019; 117(6):S264-76.

ANEXO

Encuesta sobre Lengua de Señas Argentina

Estimado/a Dr./a.:

La presente encuesta busca evaluar en qué medida los pediatras en nuestro país están al tanto de los derechos de las personas sordas a tener a un intérprete profesional de Lengua de Señas Argentina en las consultas médicas. Esta información resultará de gran valor para la promoción y el diseño de acciones destinadas a una mejor comunicación médico-paciente.

La respuesta a este cuestionario le llevará menos de 5 minutos. Se preservará la confidencialidad de sus respuestas y no guardaremos ningún dato que permita identificarlo.

Si usted está de acuerdo, por favor, haga clic en ACEPTAR para dar su consentimiento y comenzar la encuesta.

Muchas gracias por su participación.

Subcomisión de los Derechos del Niño, Sociedad Argentina de Pediatría

1. ¿Usted es médico pediatra? Sí/No.
2. ¿Dónde ejerce su actividad como médico pediatra? [Puede seleccionar más de una opción].
Ciudad Autónoma de Buenos Aires.
Otro lugar: _____
3. ¿Cuál es su edad? _____
4. ¿Hace cuántos años se desempeña como pediatra (incluyendo la residencia/concurrencia)? _____
5. ¿Cuál es su género? Varón/Mujer/Otro/No quiere especificar.
6. ¿En qué ámbito desarrolla su mayor carga horaria de trabajo?
Institución pública/Institución privada/Obra social.
7. ¿Ha tenido alguna vez pacientes o padres de pacientes sordos o hipoacúsicos? [Puede seleccionar más de una opción].
Sí, pacientes/Sí, padres/No, ni pacientes ni padres.
8. ¿Conoce la Lengua de Señas Argentina (LSA)? Sí/No.
9. ¿Ha intentado alguna vez aprender Lengua de Señas Argentina (LSA)? Sí/No.
10. ¿Qué tan bien domina la Lengua de Señas Argentina (LSA)?
Muy bien/Bien/No muy bien/Para nada.
11. ¿Tiene algún familiar o amigo sordo o hipoacúsico? Sí/No.
12. Aproximadamente, ¿cuántos pacientes sordos o hipoacúsicos ha tenido? _____
13. Aproximadamente, ¿cuántos pacientes con padres sordos o hipoacúsicos ha tenido? _____
14. ¿De qué manera se comunica habitualmente con pacientes sordos o hipoacúsicos o con padres sordos o hipoacúsicos? [Puede seleccionar más de una opción].
Les hablo y ellos leen los labios/Yo uso la Lengua de Señas Argentina/A través de un intérprete profesional de Lengua de Señas Argentina (IPLSA)/A través de un intérprete no profesional (hijo, familiar, amigo, vecino, etc.)/En forma escrita.
15. Considerando su nivel de dominio de la Lengua de Señas Argentina (LSA), ¿cree que la comunicación entre usted y una persona sorda o hipoacúsica mejoraría con la presencia de un intérprete profesional de Lengua de Señas Argentina (IPLSA)? Sí/No.

16. ¿Con qué frecuencia usted cuenta con alguien que actúa de intérprete (profesional o no profesional) entre usted y un paciente sordo o hipoacúsico o con padres sordos o hipoacúsicos?
Siempre/Frecuentemente/Raramente/Nunca.
17. En los casos en que hay alguien interpretando, ¿con qué frecuencia esta persona que ocupa el papel de intérprete es un intérprete profesional de Lengua de Señas Argentina (IPLSA)?
Siempre/Frecuentemente/Raramente/Nunca.
18. En los casos en que hay alguien interpretando, ¿con qué frecuencia esta persona que ocupa el papel de intérprete es un intérprete no profesional (hijo, familiar, amigo, vecino, etc.)?
Siempre/Frecuentemente/Raramente/Nunca.
19. ¿Con qué frecuencia un paciente sordo o hipoacúsico o con padres sordos o hipoacúsicos traen a un intérprete profesional (IPLSA) a la consulta por sus propios medios?
Siempre/Frecuentemente/Raramente/Nunca.
20. ¿Con qué frecuencia usted recomienda el uso de un intérprete profesional (IPLSA) con un paciente sordo o hipoacúsico o con padres sordos o hipoacúsicos cuando no hay un intérprete presente?
Siempre/Frecuentemente/Raramente/Nunca.
21. ¿Por qué recomendó el uso de un intérprete profesional (IPLSA) en dichos casos?
Describa con sus propias palabras: _____
22. ¿Por qué no recomendó el uso de un intérprete profesional (IPLSA) en dichos casos? [Puede seleccionar más de una opción].
Por desconocimiento de la profesión/Porque nos podíamos comunicar suficientemente bien sin conseguir a un IPLSA/Por desconocimiento del proceso para conseguir a un IPLSA/Otra (describa con sus propias palabras): _____
23. ¿Con qué frecuencia recomendó el uso de un intérprete profesional (IPLSA) con un paciente sordo o hipoacúsico o con padres sordos o hipoacúsicos cuando un intérprete no profesional (hijo, familiar, amigo, vecino, etc.) estaba presente?
Siempre/Frecuentemente/Raramente/Nunca.
24. ¿Por qué recomendó el uso de un intérprete profesional (IPLSA) en dichos casos?
Describa con sus propias palabras: _____
25. ¿Por qué no recomendó el uso de un intérprete profesional (IPLSA) en dichos casos? [Puede seleccionar más de una opción].
Por desconocimiento de la profesión.
Porque nos podíamos comunicar suficientemente bien sin conseguir a un IPLSA.
Por desconocimiento del proceso para conseguir a un IPLSA.
Otra (describa con sus propias palabras): _____
26. ¿Se ha enfrentado alguna vez a algún problema al tratar de conseguir los servicios de un intérprete profesional (IPLSA) después de solicitar uno?
Sí (describa con sus propias palabras): _____
No.
27. ¿Alguna vez intentó conseguir los servicios de un intérprete no profesional después de tener problemas para solicitar a un intérprete profesional (IPLSA)? Sí/No.
28. ¿Sabe de qué trata la Ley N° 26378 (Convención sobre los Derechos de las Personas con Discapacidad) sobre las personas sordas o hipoacúsicas? Sí/No.
29. ¿Puede describir qué menciona la Ley N° 26378 sobre las personas sordas e hipoacúsicas?
Describa con sus propias palabras: _____

Awareness of the right to Argentine Sign Language interpretation services among pediatricians practicing in the Autonomous City of Buenos Aires

Lucas A. Walz^a, Adrián M. Cutri, M.D.^b, Fernando A. Torres, M.D.^c, Prof. Claudio C. Riquelme^d, Prof. Verónica Gatto Bellora^c and Fernando C. Ferrero, M.D.^c

ABSTRACT

Introduction. Barriers in communication between physicians and Deaf or hard of hearing people may be risk factors for health. The services of a professional Argentine Sign Language interpreter (PASLI), by virtue of Act No. 26378, may mitigate this.

Objective. To estimate the proportion of pediatricians who have knowledge of Act No. 26378 and whether this is associated with the recommendation of a PASLI.

Population and methods. Cross-sectional study with a self-administered electronic questionnaire among pediatricians members of the Sociedad Argentina de Pediatría who practiced in the Autonomous City of Buenos Aires (CABA).

Results. A total of 381 surveys were assessed. Of these, 15.1 % knew the Act, and this was associated with the recommendation of a PASLI (OR: 3.7; 95 % CI: 1.1-12.9; $p < 0.05$).

Conclusions. The proportion of pediatricians working in CABA who knew the Act was 15.1 %. This was significantly associated with the recommendation of a PASLI.

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

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.123>

To cite: Walz LA, Cutri AM, Torres FA, Riquelme CC, et al. Awareness of the right to Argentine Sign Language interpretation services among pediatricians practicing in the Autonomous City of Buenos Aires. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):123-128.

INTRODUCTION

Hearing loss is one of the most prevalent disabilities,¹ affecting more than 466 million people around the world.² According to the National Ministry of Health of Argentina, hearing disability accounts for 18 % of disabilities at a national level.³ In our country, many Deaf and hard of hearing (DHH) individuals use Argentine Sign Language (ASL) to communicate with other people.

Barriers in communication are a risk factor for the health of DHH individuals. Studies done in the United Kingdom demonstrated that they have a higher risk for asthma, hypertension, obesity, and depression.⁴ In addition, they are more likely to perceive that their medical needs are not met.⁵ Although there may be underlying biological reasons, an unequal access to health care services may account for such perception.⁶

It is more likely that DHH individuals may have difficulties to communicate with, understand, and feel comfortable with their health care providers. In addition, an ineffective communication between physicians and DHH individuals is a limitation to health care.⁷ The services of a professional interpreter that can speak using sign language may mitigate such limitations.

Argentina approved the Convention on the Rights of Persons with Disabilities (Act No. 26378), which subsequently gained constitutional status (Act No. 27044), thus recognizing the rights of people with disabilities.⁸ This regulation stipulates that a professional ASL interpreter (PASLI) should be available, at no charge, to facilitate DHH individuals access to public institutions. In addition, the Convention on the Rights of the Child (Act No. 23849) emphasizes the State's obligations to provide adequate assistance to parents in the performance of their child rearing responsibilities.⁹ The absence of a PASLI during medical consultations implies the violation of the rights of DHH individuals and of their children.

A questionnaire administered to DHH parents in the Autonomous City of Buenos Aires (CABA)

- a. Yale University.
- b. Special Education School No. 7 "Julia Ofelia Cubilla," Resistencia, Chaco, Argentina.
- c. Hospital General de Niños "Pedro de Elizalde," Autonomous City of Buenos Aires, Argentina.
- d. Private Education Unit No. 172 "Deolindo Felipe Bittel," Resistencia, Chaco, Argentina.

E-mail address:

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

Funding: This study was carried out as part of a fellowship system of Yale University, Gary Stein Summer Fellowship, Yale College Fellowships for Research in Global Health Studies, Steven Clark Senior Essay Travel Grant.

Conflict of interest: None.

Received: 5-28-2020

Accepted: 10-6-2020

and the province of Chaco revealed that 15.4 % of them had counted with the presence of a PASLI during a medical consultation and that none had obtained such service from the State.¹⁰ Exploring whether physicians have knowledge of Act No. 26378 and whether they provide information about the right to have a PASLI may be useful to warrant the rights of DHH individuals.

OBJECTIVE

To estimate the proportion of pediatricians in CABA who have knowledge of Act No. 26378 and recommend the presence of a PASLI. To explore whether knowledge of Act No. 26378 is associated with the recommendation of a PASLI.

MATERIAL AND METHOD

This was a descriptive, cross-sectional study with a self-administered, semi-structured, online questionnaire completed between 10-04-2019 and 10-31-2019, using SurveyMonkey™¹¹ (see *Annex*). Pediatricians who were members of the Sociedad Argentina de Pediatría (SAP) and practiced in CABA were included. The primary outcome variable was having knowledge of Act No. 26378 (yes or no).

For the second objective, exploring whether knowledge of the Act was associated with the recommendation of a PASLI, the first variable was used as a predictive outcome measure and the second one, as an outcome variable. Age, years of medical practice, sex, work setting, and experience with DHH individuals were controlled for (see *Annex*).

The study was approved by the Research Ethics Committee of Hospital General de Niños “Pedro de Elizalde” and the Human Subjects Committee of the Institutional Review Board of Yale University. In addition, it was supported by the Subcommittee on the Rights of the Child and approved by the Steering Committee of the SAP to use its e-mail address database to send the survey.

There was no validated survey, so it was necessary to develop one. For validation, cognitive interviews were performed with 11 physicians from a children’s hospital who did not take part in the online survey afterwards.¹²

The χ^2 test was used to explore the association between having knowledge of Act No. 26378 and potential predictors. Significance level = $p < 0.05$. The analysis was done with the SPSS 23.0 software.

TABLE 1. Description of the population of pediatricians who completed the survey about Argentine Sign Language

Outcome measure	N (381)	Value ^a
Age		45.2 ± 12.6
Years of pediatric practice		19.3 ± 13.5
Sex (female/male)		307/74
Place of work		
Private	103	27.1 (22.9-31.8)
Public	254	66.6 (61.7-71.1)
Trade union health insurance	24	6.3 (4.3-9.2)
Have knowledge of Act No. 26378	50/331	15.1 (11.7-19.4)
Have seen DHH individuals ^b	335/381	87.9 (84.3-90.1)
Can speak ASL correctly	15/328	4.6 (2.8-7.4)
During a visit with a DHH individual ^c		
Rely on lip reading	265/322	82.3 (77.8-86.1)
Use written language	165/322	51.2 (45.8-56.7)
Use ASL	42/285	14.7 (11.1-19.3)
Have a PASLI available	16/322	5.0 (3.1-7.9)
Have a non-professional interpreter available	149/322	46.3 (40.9-51.7)
Recommend a PASLI when there is no interpreter available	62/314	19.7 (15.7-24.5)
Recommend a PASLI when there is a non-professional interpreter available	15/119	12.6 (7.8-19.8)
Are not aware of the PASLI profession	101/256	39.5 (33.7-45.6)
Do not know how to contact a PASLI	146/256	57.0 (50.9-63.0)
Had trouble contacting a PASLI	24/272	8.8 (6.1-12.8)

^a Mean ± standard deviation (continuous outcome measures) and % with 95 % confidence interval (categorical outcome measures).

^b Deaf and hard of hearing (DHH) individuals.

^c This includes responders who indicated “frequently or always.”

ASL: Argentine Sign Language; PASLI: professional Argentine Sign Language interpreter.

RESULTS

A total of 16 140 SAP members across Argentina were contacted; 1094 surveys were completed. Of these, 381 were from pediatricians who worked in CABA, although not everyone answered every question in the survey. *Table 1* shows the information about analyzed outcome measures.

Among survey respondents, 50 out of 331 (15.1 %; 95 % confidence interval [IC]: 11.7-19.4) stated that they had knowledge of Act No. 26378. Having knowledge of the Act was associated with recommending a PASLI (odds ratio [OR]: 3.7; 95 % CI: 1.1-12.9; $p < 0.05$), reporting problems to get one (OR: 7.3; 95 % CI: 2.9-18.3; $p < 0.01$), and being more familiar with ASL (OR: 5.5; 95 % CI: 2.7-11.0; $p < 0.001$) (*Table 2*).

In addition, 87.9 % of survey respondents stated that they had seen at least one DHH patient or parent. In 92.5 % of cases where there was an interpreter present during the visit, they were not professionals. Furthermore, 14/25 who requested a PASLI had trouble getting one (*Table 1*).

DISCUSSION

Our study revealed that 15.1 % of survey respondents (pediatricians members of the SAP who practiced in CABA) had knowledge of Act No. 26378 and that this was associated with the recommendation of a PASLI. It is worth noting that, just as a high percentage of physicians did not know the Act and did not recommend a PASLI, according to local data, less than half of DHH individuals knew their right to have a PASLI present during their children's medical consultations.¹⁰

It has been observed that more than 95 % of surveyed health care providers did not speak ASL. This, in addition to not using a PASLI, may result in embarrassing situations and predispose DHH individuals to answer "yes to everything," which would have a negative effect on patient-doctor understanding and compromise the outcomes of the medical consultation.

There was an association between having knowledge of Act No. 26378 and the

TABLE 2. Description of analyzed outcome measures based on knowledge of Act No. 26378^a

Characteristics	Knowledge of Act No. 26378		OR (95 % CI)	p
	Yes (N = 50)	No (N = 331)		
Age ^a	48.6 ± 12.4	44.4 ± 12.6		0.06
Years of practice ^a	23.1 ± 13.2	19.1 ± 13.4		0.06
Sex (male/female)	15/35	50/229	1.9 (0.9-3.8)	0.07
Place of work				
Private	9 (18.4 %)	81 (28.8 %)		
Public	37 (75.5 %)	183 (65.1 %)		
Trade union health insurance	3 (6.1 %)	17 (6.1 %)		
Have seen a DHH individual ^b (yes/no)	42/8	245/36	0.7 (0.3-1.7)	0.7
Can speak ASL correctly (yes/no)	8/7	42/271	7.3 (2.5-21.4)	< 0.01
During a visit with a DHH individual				
Rely on lip reading (a f/r n) ^c	(32/10)	(201/42)	0.7 (0.3-1.4)	0.4
Use written language (a f/r n)	23/19	130/113	1.1 (0.5-2.2)	0.9
Use ASL (a f/r n)	6/36	7/236	5.6 (1.7-17.6)	< 0.01
Have a PASLI available (a f/r n)	6/36	8/235	4.9 (1.6-14.9)	< 0.01
Have a non-professional interpreter available (a f/r n)	16/26	117/126	0.6 (0.4-1.3)	0.2
Recommend a PASLI when there is no interpreter available (a f/r n)	20/22	35/210	5.4 (2.7-11.1)	< 0.01
Recommend a PASLI when there is a non-professional interpreter available (a f/r n)	5/12	9/80	3.7 (1.1-12.9)	0.04
Are aware of the PASLI profession (yes/no)	23/6	127/91	3.6 (1.2-11.3)	0.04
Know how to contact a PASLI (yes/no)	16/13	91/127	1.7 (0.8-3.7)	0.2
Had trouble contacting a PASLI (yes/no)	11/30	11/220	7.3 (2.9-18.3)	< 0.01

^a Average ± standard deviation (t test).

^b Deaf and hard of hearing (DHH) individual.

^c Always or frequently/rarely or never (a f/r n).

ASL: Argentine Sign Language; PASLI: professional Argentine Sign Language interpreter; OR: odds ratio; CI: confidence interval.

recommendation of a PASLI. However, when the services of a PASLI were requested, the attempt was often unsuccessful and, therefore, non-professional interpreters were used, who may have not interpreted the information provided by a physician effectively.

There are no statistical data available to confirm the number of licensed PASLI in Argentina. Studies conducted in Spain have demonstrated that the number of available interpreters is not enough to meet the demand.¹³ Similarly, in Argentina, few provinces have PASLI education institutions. To solve this problem, an option may be to encourage PASLI education and certification at a national level.

This study was based on a sample of SAP members; therefore, it may be affected by a selection bias. Pediatricians who were invited to take the survey were informed about the purpose of knowing about the use of interpretation services among DHH individuals. Thus, the survey may have been completed mostly by pediatricians with experience in dealing with people with disabilities (as shown by the high percentage of pediatricians who had seen DHH patients), which would deem the results as reflecting a less serious situation than what it actually is.

The 381 pediatricians who completed the survey accounted for 13.4 % of SAP members who practiced in CABA. Therefore, the response rate in this study was similar to that observed in studies that used a similar sampling methodology through the SAP's mailing list.¹⁵

According to our study, part of pediatricians who practiced in CABA had no knowledge of Act No. 26378 and did not routinely recommend a PASLI. It is necessary to raise awareness about the rights of people with disabilities among health care providers because they are essential social actors for the enforcement of currently valid legal regulations.

CONCLUSIONS

Only 15.1 % of SAP member pediatricians who practice in CABA have knowledge of Act No. 26378. Having such knowledge was significantly associated with the recommendation of a PASLI during a medical consultation. ■

REFERENCES

1. GBD 2015 Disease and Injury Incidence and Prevalence Collaborators. Global, regional, and national incidence, prevalence, and years lived with disability for 310 diseases and injuries, 1990-2015: a systematic analysis for the Global Burden of Disease Study 2015. *Lancet*. 2016; 388(10053):1545-602.
2. World Health Organization. Deafness and Hearing Loss. Washington DC, 2020. [Accessed on: February 15th, 2018]. Available at: <https://www.who.int/news-room/factsheets/detail/deafness-and-hearing-loss>.
3. Argentina. Ministerio de Salud. Audífonos e implantes cocleares gratuitos para promover la integración social de los niños sordos. 2012 [Accessed on: January 24th, 2018]. Available at: http://www.msal.gov.ar/prensa/index.php?option=com_content&view=article&id=439:audifonos-e-implantes-cocleares-gratuitos-para-promover-la-integracion-social-de-los-ninos-sordos&catid=1:noticias439.
4. Emond A, Ridd M, Sutherland H, Allsop L, et al. The current health of the signing Deaf community in the UK compared with the general population: a cross-sectional study. *BMJ Open*. 2015; 5(1):e006668.
5. Woodcock K, Pole JD. Health profile of deaf Canadians: analysis of the Canada Community Health Survey. *Can Fam Physician*. 2007; 53(12):2140-1.
6. Barnett S, McKee M, Smith SR, Pearson TA. Deaf sign language users, health inequities, and public health: opportunity for social justice. *Prev Chronic Dis*. 2011; 8(2):A45.
7. Bat-Chava Y, Martin D, Kosciw JG. Barriers to HIV / AIDS knowledge and prevention among deaf and hard of hearing people. *AIDS Care*. 2005; 17(5):623-34.
8. Ley N.º 27044. Jerarquía Constitucional. Convención sobre los derechos de las personas con discapacidad. Boletín Oficial de la República Argentina. Buenos Aires, 22 de diciembre de 2014. [Accessed on: January 15th, 2018]. Available at: <http://servicios.infoleg.gov.ar/infolegInternet/verNorma.do?id=239860>.
9. Convención sobre los Derechos del Niño. Buenos Aires, 27 de setiembre de 1990. [Accessed on: February 25th, 2018]. Available at: https://www.oas.org/dil/esp/Convencion_sobre_los_Derechos_del_Nino_Argentina.pdf.
10. Cutri AM, Torres FA, Riquelme CC, Cabrera NB, 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):310-5.
11. SurveyMonkey LLC. SurveyMonkey®. 2012. [Accessed on: October 4th, 2019]. Available at: <https://es.surveymonkey.com>.
12. Willis GB. Cognitive Interviewing: A Tool for Improving Questionnaire Design. California: SAGE Publications, Inc; 2004.
13. Muñoz-Baell IM, Ruiz-Cantero MT, Alvarez-Dardet C, Ferreira-Lago E, et al. Comunidades sordas: ¿pacientes o ciudadanas? *Gac Sanit*. 2011; 25(1):72-8.
14. Asch DA, Jedrzejewski MK, Christakis NA. Response rates to mail surveys published in medical journals. *J Clin Epidemiol*. 1997; 50(10):1129-36.
15. Goldfarb G, Nasanovsky J, Krynski L, Ciancaglini A, et al. Uso de tecnologías de la información y comunicación por pediatras. *Arch Argent Pediatr*. 2019; 117(6):S264-76.

ANNEX

Survey about Argentine Sign Language

Dear Doctor:

The purpose of this survey is to assess to what extent pediatricians in Argentina are aware of the rights of Deaf people to have a professional Argentine Sign Language interpreter present during medical consultations. This information will be highly valuable for the promotion and design of actions aimed at improving patient-doctor communication.

Completing this questionnaire will take less than 5 minutes. Answers will remain confidential and no identifying information will be kept.

If you agree, please click ACCEPT to give your consent and begin the survey.

Thank you for your participation.

Subcommittee on the Rights of the Child, Sociedad Argentina de Pediatría

1. Are you a pediatrician? Yes/No.
2. Where do you practice as a pediatrician? [You may select more than one answer].
Autonomous City of Buenos Aires.
Other place:
3. How old are you? __
4. How long have you been a pediatrician (including your residency program/postgraduate attachment)? _____
5. What is your gender? Male/Female/Other/Prefer not to say.
6. In what setting do you work more hours?
Public institution/Private institution/Trade union health insurance institution.
7. Have you ever seen Deaf or hard of hearing patients or parents? [You may select more than one answer].
Yes, patients/Yes, parents/No, neither patients nor parents.
8. Do you have knowledge of Argentine Sign Language (ASL)? Yes/No.
9. Have you ever tried to learn Argentine Sign Language (ASL)? Yes/No.
10. To what extent do you master Argentine Sign Language (ASL)?
Very well/Well/Not very well/Not at all.
11. Do you have any Deaf or hard of hearing family member or friend? Yes/No.
12. Approximately, how many Deaf or hard of hearing patients have you seen? __
13. Approximately, how many patients whose parents were Deaf or hard of hearing have you seen? __
14. How do you usually communicate with Deaf or hard of hearing patients or parents?
[You may select more than one answer].
I talk and they lipread/I use Argentine Sign Language/Through a professional Argentine Sign Language interpreter (PASLI)/Through a non-professional interpreter (child, family member, friend, neighbor, etc.)/Written language.
15. Considering your knowledge of Argentine Sign Language (ASL), do you think communication between you and a Deaf or hard of hearing person would improve with the presence of a professional Argentine Sign Language interpreter (PASLI)? Yes/No.

16. How often is there someone who serves as an interpreter (professional or non-professional) between you and a Deaf or hard of hearing patient or parents? Always/Frequently/Rarely/ Never.
17. When there is someone acting as an interpreter, how often is this person a professional Argentine Sign Language interpreter (PASLI)?
Always/Frequently/Rarely/ Never.
18. When there is someone acting as an interpreter, how often is this person a non-professional interpreter (child, family member, friend, neighbor, etc.)?
Always/Frequently/Rarely/ Never.
19. How often does a Deaf or hard of hearing patient or parent bring a professional interpreter (PASLI) to the visit on their own means?
Always/Frequently/Rarely/ Never.
20. How often do you recommend using a professional interpreter (PASLI) to a Deaf or hard of hearing patient or parent when there is no interpreter present? Always/Frequently/Rarely/ Never.
21. Why did you recommend using a professional interpreter (PASLI) in those cases?
Please, describe it in your own words: _____
22. Why did you not recommend using a professional interpreter (PASLI) in those cases?
[You may select more than one answer].
Because I was not aware of the profession/ Because we were able to communicate well enough without a PASLI/ Because I did not know the process to get a PASLI/ Other (please, describe it in your own words): __
23. How often did you recommend using a professional interpreter (PASLI) to a Deaf or hard of hearing patient or parent when there was a non-professional interpreter (child, family member, friend, neighbor, etc.) present?
Always/Frequently/Rarely/ Never.
24. Why did you recommend using a professional interpreter (PASLI) in those cases?
Please, describe it in your own words: _____
25. Why did you not recommend using a professional interpreter (PASLI) in those cases?
[You may select more than one answer].
Because I was not aware of the profession.
Because we were able to communicate well enough without a PASLI.
Because I did not know the process to get a PASLI.
Other (please, describe it in your own words): _____
26. Have you ever had any trouble trying to get the services of a professional interpreter (PASLI) after requesting one?
Yes (please, describe it in your own words): _
No.
27. Have you ever tried to get the services of a non-professional interpreter after having trouble requesting a professional interpreter (PASLI)? Yes/No.
28. Do you have knowledge of the letter of Act no. 26378 (Convention on the Rights of Persons with Disabilities) in relation to Deaf or hard of hearing individuals? Yes/No.
29. Can you describe what Act No. 26378 says in relation to Deaf and hard of hearing individuals?
Please, describe it in your own words: _____

Dignidad de la persona e interés superior del niño

Human dignity and the best interest of the child

Dra. Catrian M. Sotelo^a

Colaborador: Dr. Alejandro Barceló^b

RESUMEN

En la práctica médica diaria, nos vemos envueltos en situaciones que requieren una visión integral del paciente, no solo dotada de conocimiento científico. Es aquí donde cobra importancia incorporar nociones legales, antropológicas, filosóficas y sociológicas. Todo esto puede resumirse en que tener conocimiento y formación en bioética resulta fundamental para la práctica profesional actual. De esta forma, la atención será de calidad y, además, contribuiremos al cambio de paradigma en las ciencias de la salud. El objetivo de este artículo es recorrer conceptos como *persona*, *dignidad* e *interés superior del niño*, y realizar una reflexión sobre la importancia que les damos en nuestra práctica profesional. **Palabras clave:** *dignidad, derechos de la persona, niño, defensa del niño.*

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.e113>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.e113>

- a. Docente adjunta de la Cátedra de Bioética, Instituto Universitario de Ciencias de la Salud (IUCS), Fundación H. A. Barceló, Facultad de Medicina.
- b. Abogado, docente de la Cátedra de Bioética, IUCS, Fundación H. A. Barceló, Facultad de Medicina. Buenos Aires, Argentina.

Cómo citar: Sotelo CM. Dignidad de la persona e interés superior del niño. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e113-e116.

INTRODUCCIÓN

Generalmente, se cree que el interés superior del niño (ISN) es una directriz indeterminada y sujeta a múltiples interpretaciones de carácter jurídico y psicosocial, que constituye un fundamento para tomar decisiones al margen de los derechos actualmente reconocidos. Contrario a esto, el ISN es la plena satisfacción de sus derechos.¹ Esta afirmación es cierta y permite repensar los derechos del niño como un límite y una orientación en las acciones de las autoridades, en particular, y de los adultos, en general.² Para mantener esta reflexión activa y recordarnos que los niños merecen respeto, cumplimiento de sus derechos y protección social extra por ser vulnerables, realizaremos, en este

artículo, un recorrido por conceptos bioéticos fundamentales orientados a la aplicación en la práctica médica.

Definiciones de *persona*

En este apartado, pondremos en escena dos concepciones sobre la definición de *persona*: una ontológica y otra desde la visión del derecho. Ontológicamente, *persona* es aquella sustancia racional dotada de conocimiento, voluntad y dueña de sus actos.³ Desde la visión del derecho, *persona* es aquel ser capaz de adquirir derechos y contraer obligaciones.⁴ En torno a ambas dimensiones de pensamiento, la bioética se desenvuelve como una ética general de la vida.⁵

Podríamos clasificar las corrientes de pensamiento bioético en dos grandes grupos, con fines prácticos:

- Corrientes personalistas:⁶ Dentro de este grupo, se sitúan el principialismo, el personalismo y los seguidores del humanismo, quienes afirman que la persona es un fin en sí mismo. La dignidad es una propiedad inherente a la persona, como característica ontológica, no alienable, no cuantificable, sino intrínseca y no dependiente de otras condiciones, como la libertad, la posesión de bienes o la vida de relación.
- Corrientes transpersonalistas:⁷ En este grupo, el principal exponente es el utilitarismo, pero podemos incluir también el liberalismo radical y el darwinismo social. Desde esta perspectiva, la característica personalísima y la dignidad pueden ser dejadas de lado en algunas situaciones, según

Correspondencia:

Dra. Catrian M. Sotelo:
catrisotelo@gmail.com

Financiamiento:

Ninguno.

Conflicto de intereses:

Ninguno que declarar.

Recibido: 17-1-2020

Aceptado: 5-10-2020

un juicio de proporcionalidad acerca de cuándo es lícito hacerlo. Otorgan dignidad a la persona en dependencia de su autonomía, voluntad, calidad / valor de vida, características biológicas y de la vida de relación.

Es evidente que la distinción entre ambos grupos no es rígida, ya que, en diferentes circunstancias, una corriente puede tener mayor peso en la reflexión sobre la realidad. Según Diego Gracia, “es imposible tratar todo el tiempo a los hombres como fines; todos somos medios para algo o alguien en algún momento. Lo inmoral es ser tratados como medios sin tener en cuenta nuestra condición de seres dotados de *dignidad*”.⁸ Ergo, la posesión de *dignidad* es lo que distingue a las personas de la sustancia no considerada como tal.

¿Qué es, entonces, la dignidad?

Etimológicamente, la palabra deriva del latín *dignus*, que significa ‘igual, del mismo precio o valor’ o ‘aquello que es justo y/o merecedor de respeto’. En la religión, *digno* se traduce a *imago dei*, ‘aquello que es intermediario entre el creador y lo creado’.⁹

En la ética, la dignidad tiene fundamentación como cualidad intrínseca de la naturaleza humana que sostiene a todos los derechos de la persona. Asimismo, existen bases de sustento personal, ya que cada uno de nosotros puede definirla; sustento social, en cuanto a objetivos sociales que se alcanzan con el paso del tiempo; fundamentación en la libertad y en la capacidad de discernir entre placer y dolor, y elegir de acuerdo con esto.¹⁰

Kant postula que “debes obrar de modo tal que te relaciones con la humanidad, tanto en tu persona como en la de los demás como un fin y no como un medio”. Sin embargo, la dignidad, para él, obedece a la ley personal, es decir, los hombres obedecen a su conciencia, y, para esto, la autonomía es un requisito fundamental.¹¹ Por su parte, Hegel sostiene que los hombres son personas por tener razón y libertad: la conciencia y la libertad resultan fundamentales y excluyentes para la posesión de dignidad.¹²

Actualmente, y en la misma línea de pensamiento, Carlos Nino sostiene que “la dignidad es fundamentada en la voluntad e influida por el principio de autonomía”,¹³ y luego Dworkin asegura que los derechos garantizan protección de las mayorías a las minorías, pero que, para lograr esta protección, los individuos deben tener libertad.¹⁴ Entonces, la relación entre

dignidad y libertad muestra cómo la protección de la dignidad es representada en los requerimientos jurídicos sobre la libertad. Es posible notar en los autores cierto reduccionismo, ya que, según sus posturas, la posesión de libertad y el principio de autonomía condicionan la dignidad del ser humano.

Robert Alexy, en su publicación *Dignidad humana y proporcionalidad*,¹⁵ nos dice que tiene sentido afectar la dignidad humana cuando hay razones justas. De esto se desprenden afecciones justificadas y no justificadas de la dignidad. Pero, en la definición misma de *dignidad*, él enumera características que debe tener quien la posee. Entre estos atributos, se encuentran la inteligencia, los sentimientos y la conciencia, la cual tiene carácter excluyente.

Los autores previamente citados ponderan la autonomía como condición necesaria para la expresión de la dignidad. En este punto, existen diferencias entre quienes tienen completa autonomía y quienes no cuentan con capacidad de expresarla totalmente, por ejemplo, los niños.

Los niños, ¿son personas?

La Convención Internacional de los Derechos del Niño (1959), que es uno de los tratados incorporados junto con la Declaración Universal de los Derechos del Niño a nuestra Constitución Nacional en 1994, reconoce a los niños como personas y sujetos de derecho. El Código Civil Argentino adhiere a la Constitución Nacional y los tratados internacionales incorporados a esta. La jurisprudencia nacional reafirma los ítems descritos.²

¿De qué trata el interés superior del niño?

En principio, conviene recordar qué son los derechos del niño. Se trata de derechos humanos, que disponen de mecanismos más efectivos de protección con prioridad o supremacía por tratarse de un grupo vulnerable.¹⁶ Son complementarios de los mecanismos generales de los derechos reconocidos a todas las personas, pero la *supraprotección* no es autónoma, sino que está fundada en la protección jurídica general.

Otro punto importante es que los derechos del niño trascienden culturas y sociedades, imponen un mínimo de normas que no son expresión de ninguna cultura en particular y regulan el comportamiento de todas las personas, de manera correcta. Esta característica permite la incorporación a las diferentes constituciones nacionales.

El ISN es un principio guía para garantizar esta protección que sostiene el hecho de que los derechos del niño sean garantistas, es decir, que permitan ejercer otros derechos y resolver conflictos entre estos.¹⁷ Si bien es conocida la definición de ISN, existen interpretaciones jurídicas y sociales varias en torno a él. Para resolver estas diferencias y unificar criterios, es necesario tener presente que los derechos del niño son derechos humanos, aplicados a situaciones particulares que enfrenta este grupo en la vida, ofician ordenando relaciones y estableciendo prioridad de cuidado en la tríada niño-familia-Estado: mientras los padres ejercen su responsabilidad parental –no patria potestad, gracias a los artículos 5 y 12 de la Convención sobre los Derechos del Niño–, el Estado regula y garantiza el cumplimiento de los derechos del niño mediante el apoyo a los padres para que él desarrolle sus derechos de forma plena, pero, de ninguna manera, permite que estos derechos parentales sean absolutos. En este orden, además, pueden regularse conflictos sociales, ya que el ISN permite visualizar la prioridad cuando se tratan intereses colectivos, en los que la infancia, por ser minoría, queda en un segundo plano.¹⁸

¿Cuáles son los ámbitos de aplicación de los derechos del niño y del interés superior del niño en la atención médica?

En primera instancia, la consulta es una oportunidad de conocer la situación del niño y realizar una intervención adecuada. Es importante saber con qué herramientas contamos para este fin. Independientemente de si el niño posee cobertura de salud, el Estado argentino garantiza el acceso a programas de atención de la infancia dependientes del Ministerio de Salud de la Nación e incorporados a las provincias y jurisdicciones.

El Plan Materno Infantil (2010) prevé la cobertura de la madre durante el embarazo y el parto hasta el primer mes luego del nacimiento, y la atención del recién nacido hasta cumplir un año de edad. Pero, también, el Programa de Maternidades Centradas en la Familia propuesto por la Organización Mundial de la Salud (2011) comprende al niño como parte de una familia.¹⁹

En la atención ambulatoria, siguiendo la estrategia de atención primaria de la salud, se contemplan los controles de niño sano sin cobertura de salud mediante los planes NACER (2005) y SUMAR (2012). El plan REMEDIAR (2002) permite el acceso a medicamentos y, a

través de la Ley 27491, el Calendario Nacional de Vacunación brinda una política de control de enfermedades inmunoprevenibles.²⁰

En el ámbito escolar, el Programa Nacional de Salud Escolar (PROSANE) (Ley 26061, 2015) permite tamizar a niños con problemas de salud y acercarlos al nivel sanitario adecuado para su atención.²¹ El Programa Nacional de Salud Integral en la Adolescencia (2007) parte de un enfoque de salud integral de los adolescentes y asegura la confidencialidad y el trato según el grado de autonomía de este grupo en particular.²²

En el caso de los niños que padecen enfermedades que requieren internación, la ley nacional concibe la hospitalización del niño con su familia y la atención por especialistas en infancia. Asimismo, es posible la continuidad de la escolaridad en el ámbito hospitalario, ya que, desde 1946, la docencia en el hospital depende del Ministerio de Educación de la Nación. Como ejemplo, podemos citar la Escuela Hospitalaria N° 1 del Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez.²³

Por último, para pacientes con necesidades especiales o patologías incurables, está contemplada la estrategia de cuidados paliativos (Programa Nacional de Cuidados Paliativos, 2016), la incorporación de medicina alternativa y la posibilidad de incorporar atención a su familia. Para niños con enfermedades en etapa terminal, existe la Ley 27742 de Muerte Digna.²⁴ Desde el marco legal, el Código Civil Argentino regula las relaciones legales y enmarca todas estas acciones fundado en la Constitución Nacional y los tratados adoptados.

Si contamos con todas estas herramientas, ¿cuál es el paradigma?

A pesar de contar con conocimiento de la legislación vigente y las herramientas en la práctica, la interpretación adecuada de los derechos de la infancia se encuentra atravesada por la modernidad y la revolución sociocultural liberal y utilitarista, que han dejado la impronta de que el valor de la vida se relaciona con la autonomía y con la capacidad productiva. Particularmente, los niños conforman un grupo predispuesto a errores por la fina línea entre su autonomía, la de sus padres (o tutores) y el Estado.

Para resolver esta situación, cabe recordar que el ISN está vinculado, de forma global y en particular, con necesidades psicológicas, educativas, sociales, jurídicas, medioambientales y de recursos del niño y para el niño, y que estas

necesidades son derechos incorporados en los “Instrumentos Internacionales de Derechos Humanos” y en la Constitución Nacional. Conocerlos, defenderlos y transmitir a los pacientes que seremos activos en elegir el mayor bien para ellos es nuestra tarea más importante.

Además, reconocer la autonomía progresiva y tomar decisiones en consonancia con principios bioéticos en todos los ámbitos de atención pediátrica constituye uno de los puntos fundamentales de la atención integral y de la humanización del cuidado sanitario. Lo descrito revela el paradigma: reconocer la infancia como una etapa diferente de la vida y ser abogados naturales de la causa.

A modo de conclusión

La persona es un ser dotado de dignidad. En esta cualidad, se basan las diferentes corrientes de pensamiento en bioética. La distinción no es rígida y el accionar puede tener uno u otro fundamento en diferentes situaciones: lo que no puede hacerse es ignorar la dignidad de las personas.

Los niños son personas y requieren respeto como tales; sin embargo, conforman un grupo vulnerable, por lo que, para protegerlos, existe el ISN. Como profesionales, conocer las herramientas con las que contamos y actuar en consonancia con este principio guía es una forma responsable de lograr la atención de calidad.

El paradigma es el reconocimiento de la infancia como una etapa diferente de la vida y el respeto de sus derechos mediante el modelo de atención integral y humanizada. Es probable que, en muchas oportunidades, nos encontremos lejos de la perfección, pero, al menos, es importante reflexionar frecuentemente. ■

REFERENCIAS

- UNICEF. Convención Internacional sobre los Derechos del Niño. Madrid: Unicef; 2015. Pág.8.
- Lanzavecchia G. Interés superior del niño en el Código Civil y Comercial de la Nación. *Sistema Argentino de Información Jurídica*. 2018; DACF180248.
- Martí Andrés G. Sustancia individual de naturaleza racional: el principio personificador y la índole del alma separada. *Metafís Pers*. 2009; 1:113-29.
- Herrera M, Caramelo G, Picasso S. Código Civil y Comercial de la Nación Comentado. 2.ª ed. Ciudad Autónoma de Buenos Aires: MINSAL; 2016.
- Ciuro Caldani MA. Persona humana, filosofía, ética, bioética y derecho. Marzo de 2007. [Acceso: 5 de octubre de 2020]. Disponible en: <http://www.salud.gob.ar/dels/printpdf/23>.
- García JJ. Bioética personalista y bioética principialista: Perspectivas. *Cuad Bioét*. 2013; 24(1):67-76.
- Ortiz Lluca E. Bioética personalista y bioética utilitarista. *Cuad Bioét*. 2013; 24(1):57-65.
- Gracia D. Fundamentos de Bioética. 2ª ed. Madrid: Triacastela; 2007.
- Flórez RA. El ser humano como imago Dei en Agustín de Hipona: una reflexión a partir del De trinitate. [Tesis]. Bogotá: Pontificia Universidad Javeriana; 2014.
- Macklin R. Dignity is a useless concept. *BMJ*. 2003; 327(7429):1419-20.
- Kant E. Fundamentación de la metafísica de las costumbres. Madrid: Tecnos; 2006.
- Hegel F. La ciencia de la lógica. Montevideo: Las cuarenta; 2013.
- Scatolini J. Dignidad y Autonomía de la Persona, concepto y fundamento de los derechos humanos. *Revista Perspectivas*. 2012; 2(1):145-72.
- Dworkin R. Los derechos en serio. Barcelona: Ariel; 2012.
- Alexy R. Dignidad humana y Proporcionalidad. Rosario: Universidad; 2015.
- AZPIRI JO. Derecho a conocer su origen. En *Incidencias del Código Civil y Comercial de la Nación: Derecho de Familia*. Buenos Aires: Hammurabi; 2015. Págs.197.
- Lora LN. Discurso jurídico sobre el interés superior del niño. En: *Avances de Investigación en Derecho y Ciencias Sociales*. X Jornadas de Investigadores y Becarios. Mar del Plata: Ediciones Suárez; 2006. Págs.479-88.
- Ministerio Público Fiscal de la Nación Argentina. Los derechos de niños, niñas y adolescentes (2012-2017). Buenos Aires: Dirección de relaciones institucionales. 2018. Págs.15-6.
- Larguía AM, González MA, Solana C, Basualdo MN, et al. Maternidad Segura y Centrada en la Familia [MSCF] con enfoque Intercultural: conceptualización e implementación del modelo. Buenos Aires: UNICEF; 2012.
- Argentina.gob.ar. Área de Salud Integral del Niño. [Acceso: 30 septiembre de 2017]. Disponible en: <https://www.argentina.gob.ar/salud/dinamia/saludintegral>.
- Argentina.gob.ar. Dirección de Salud Perinatal y Niñez. [Acceso: 25 junio de 2020]. Disponible en: <https://www.argentina.gob.ar/salud/dinamia>.
- Laboratorios Andrómaco. La escuela hospitalaria, una esperanza para el niño internado. *Revista Conexión Andrómaco*. 2016; 29:8-11.
- Argentina.gob.ar. El Programa Nacional de Salud Integral en la Adolescencia celebró sus 10 años. [Acceso: 1 diciembre de 2017]. Disponible en: <https://www.argentina.gob.ar/noticias/el-programa-nacional-de-salud-integral-en-la-adolescencia-celebro-sus-10-anos>.
- Blanco LG. Morir con dignidad. DELS. [Acceso: 1 marzo de 2017]. Disponible en: <http://www.salud.gob.ar/dels/entradas/morir-con-dignidad>.

Human dignity and the best interest of the child

Catrian M. Sotelo, M.D.^a

Collaborator: Alejandro Barceló M.D.^b

ABSTRACT

In our daily medical practice, we are constantly facing situations that require a comprehensive view of the patient, based not only on scientific knowledge, but also encompassing relevant legal, anthropological, philosophical, and sociological concepts. This can be summarized by saying that bioethical knowledge and training are critical in current professional practice. This will allow us to provide quality care while contributing to a paradigm change in health sciences. The objective of this article is to review concepts such as *person*, *dignity*, and *best interests of the child*, and reflect on the importance we give to them in our professional practice.

Key words: *dignity, human rights, child, defense of the child.*

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.e113>

To cite: Sotelo CM. Human dignity and the best interest of the child. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e113-e116.

- a. Associated Professor of the Chair of Bioethics, University Institute of Health Sciences (Instituto Universitario de Ciencias de la Salud, IUCS), H.A. Barceló Foundation, School of Medicine.
- b. Lawyer, Professor of the Chair of Bioethics, IUCS, H.A. Barceló Foundation, School of Medicine. Buenos Aires, Argentina.

E-mail address:
Catrian M. Sotelo, M.D.:
catriasotelo@gmail.com

Funding:
None.

Conflict of interest:
None.

Received: 1-17-2020
Accepted: 10-5-2020

INTRODUCTION

The best interests of the child (BIC) are generally believed to be undefined guidelines, subject to multiple legal and psychosocial interpretations, which serve as a basis to take decisions on the fringes of currently recognized rights. On the contrary, the BIC imply the full realization of their rights.¹ This statement is true and allows to reconsider the rights of the child as a tool to limit and guide authorities' actions in particular and adults' actions in general.² In order to foster an active reflection and remember that children deserve respect, the realization of their rights, and additional protection due to their vulnerability, this article will review essential bioethical concepts focused on their application in medical practice.

Definitions of *person*

This section will introduce two concepts regarding the definition of *person*: both from an ontological and a legal perspective. Ontologically speaking, a *person* is defined as a rational substance endowed with knowledge and will who is a master of their acts.³ From a legal standpoint, a *person* is someone who is capable of acquiring rights and assuming obligations.⁴ Surrounded by both dimensions of thought, bioethics acts as a general life ethics.⁵

For practical purposes, bioethics schools of thought may be classified into two big groups:

Personalist schools:⁶ This group includes principlism, personalism, and the followers of humanism, who state that a person is an end in itself. Dignity is an inherent characteristic of a person, as an ontological feature, which is inalienable, unquantifiable, and intrinsic, and does not depend on other conditions, such as freedom, possession of goods or relationship life.

Transpersonalist schools:⁷ Utilitarianism is the main representative of this school, but radical liberalism and social Darwinism may also be included. From this point of view, personal rights and dignity may be put aside in some situations, based on a proportionality judgment regarding when it is legal to do so. A person's dignity depends on their autonomy, will, life quality / value, biological characteristics, and relationship life.

It is evident that the distinction between both groups is not rigid, given that in different situations a

school can prove to be more relevant when reflecting on reality. According to Diego Gracia, “it is impossible to treat all human beings as ends all the time; we all are means to something or someone at some point. What is immoral is being treated as means without considering that we are beings endowed with *dignity*”.⁸ Therefore, having *dignity* is what distinguishes people from substance not considered as such.

What is dignity, then?

Etymologically, the word comes from the Latin *dignus*, meaning “equal, of the same price or value” or “that which is fair and/or worthy of respect”. In religion, this translates into *imago Dei*, “the mediator between the creator and creation”.⁹

In ethics, dignity is an intrinsic quality of human nature that is the basis of all the person’s rights. In addition, it has a personal basis, since each person can define it; it has a social basis, in relation to social objectives that are achieved over time; and it is grounded in freedom and the ability to distinguish between pleasure and pain, and choose accordingly.¹⁰

Kant posits that you should “act as to treat humanity, whether in thine own person or in that of any other, in every case as an end withal, never as a means only”. However, according to him, dignity obeys a personal law, i.e. human beings obey their conscience and, to this end, autonomy is critical.¹¹ According to Hegel, human beings are persons for having reason and freedom: dignity is exclusively reserved for those who have conscience and freedom.¹²

At present, in the same line of thought, Carlos Nino posits that “dignity is grounded in will and influenced by the autonomy principle”.¹³ and Dworkin claims that rights warrant the protection of minorities by majority groups, but in order to achieve this protection, individuals must have freedom.¹⁴ Therefore, the relation between dignity and freedom shows how the protection of dignity is represented in legal requirements regarding freedom. A certain degree of reductionism can be observed in these authors, given that according to them, having freedom and the autonomy principle determine the dignity of a human being.

Robert Alexy, in his publication *Human Dignity and Proportionality Analysis*,¹⁵ states that it makes sense to interfere with human dignity when there are fair reasons. This leads to the distinction of justified and unjustified interferences with human dignity. However, when defining *dignity*, the author lists the characteristics required for

having it, which include intelligence, sentiment, and consciousness, the latter being the pivotal condition.

The previously mentioned authors consider autonomy as a necessary condition for the expression of dignity. In this regard, there are differences between those who have complete autonomy and those who are not able to fully express it, such as children.

Are children persons?

The International Convention on the Rights of the Child (1959), which is one of the treaties that were incorporated to Argentina’s National Constitution in 1994, together with the Universal Declaration of the Rights of the Child, recognizes children as persons and subjects of law. The Argentine Civil Code adheres to the National Constitution and the international treaties incorporated to it. The national case law reaffirms the described items.²

What are the best interests of the child?

First of all, it is important to remember what the rights of the child are. These are human rights endowed with more effective protection mechanisms, with priority or supremacy for belonging to a vulnerable group.¹⁶ They complement the general mechanisms of rights recognized to all human beings, but this additional protection is not autonomous but based on general legal protection.

Another important aspect is that the rights of the child go beyond cultures and societies, set minimum rules that are not the expression of a particular culture, and regulate the correct behavior of all people. This allows them to be incorporated to different national constitutions.

The BIC are a guiding principle to ensure this protection that supports the fact that the rights of the child should allow to exercise other rights and solve conflicts between them.¹⁷ Although the BIC definition is well known, it has different legal and social interpretations. In order to resolve these differences and unify criteria, it is necessary to bear in mind that the rights of the child are human rights –applied to specific situations this group faces through life– that order relations and set care priorities in the child-family-State triad: while parents exercise their parental responsibility (not parental authority, thanks to Articles 5 and 12 of the Convention on the Rights of the Child), the State regulates and guarantees the realization of the

rights of the child by supporting parents so that the child can fully develop their rights, but by no means does it allow these parental rights to be absolute. In this direction, it is also possible to regulate social conflicts, given that the BIC allow to make priority visible when dealing with collective interests, where childhood falls into the background for being a minority.¹⁸

What is the scope of application of the rights of the child and the best interests of the child in health care?

First of all, a consultation is an opportunity to get to know the child's situation and intervene adequately. It is important to be aware of the tools at our disposal in order to do so. No matter if the child has health insurance, the Argentine State guarantees the access to childhood health care programs coordinated by the National Ministry of Health and incorporated to provinces and jurisdictions.

The Mother and Child Plan (2010) establishes the health coverage of the mother during pregnancy and labor up to the first month after birth, and the health care coverage of the newborn infant until one year of age. Also, the Family-Centered Maternity Care Program proposed by the World Health Organization (2011) sees the child as part of a family.¹⁹

In outpatient care, following with the primary health care strategy, well-child exams of children without health insurance are taken into consideration in plans NACER (2005) and SUMAR (2012). The REMEDIAR plan (2002) enables access to medication and, by means of Act 27491, the National Immunization Schedule introduces a policy to control vaccine-preventable diseases.²⁰

In the school setting, the National School Health Program (Programa Nacional de Salud Escolar, PROSANE) (Act 26061, 2015) allows to screen children for health problems and put them in contact with the appropriate health care level.²¹ The National Program for Comprehensive Adolescent Health (2007) is based on a comprehensive health approach for adolescents and warrants confidentiality and treatment according to the degree of autonomy of this particular group.²²

For children with conditions requiring hospitalization, the national law stipulates the hospitalization of the child with their family and health care provided by childhood specialists. In addition, children can continue school in the

hospital setting, given that, since 1946, hospital teaching depends on the National Ministry of Education. One example of this is Hospital School N.º 1 of Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez.²³

Lastly, for patients with special needs or incurable diseases, a palliative care strategy (National Palliative Care Program, 2016), the introduction of alternative medicine, and the possibility of providing care to their family are taken into consideration. Act 27742 for a Death with Dignity is available for children with end-stage diseases.²⁴ From a legal standpoint, the Argentine Civil Code regulates legal relations and provides a framework for all these actions based on the National Constitution and treaties adopted.

With all these tools available, which is the paradigm?

Despite having knowledge of applicable laws and tools in practice, the adequate interpretation of the rights of the child is permeated by modernity and the liberal and utilitarian sociocultural revolution, which have set the tone that the value of life is related to autonomy and productive capacity. In particular, children form a mistake-prone group because of the fine line between their autonomy, their parents' (or guardians') autonomy, and the State.

In order to solve this situation, it is worth remembering that the BIC are globally and particularly linked to psychological, educational, social, legal, environmental, and resource needs of the child and for the child, and that these needs are rights that are incorporated in the International Human Rights Instruments and the Argentine National Constitution. Knowing them, championing them, and letting patients know that we will actively choose their best interest is our main task.

Moreover, acknowledging progressive autonomy and taking decisions in line with bioethical principles in all spheres of pediatric care is one of the essential aspects of comprehensive care and the humanization of health care. This description reveals the paradigm: recognizing childhood as a different stage of life and being natural champions of this cause.

CONCLUSION

A person is a being endowed with dignity. This characteristic serves as the basis of the different schools of thought in bioethics. The distinction is not rigid, and actions may have one or another foundation in different situations:

what cannot be done is to ignore human dignity.

Children are people and require respect as such. Nevertheless, they make up a vulnerable group, hence the existence of the BIC to protect them. As professionals, knowing the tools at our disposal and acting in line with this guiding principle is a responsible way of achieving quality care.

The paradigm entails recognizing childhood as a different stage of life and respecting their rights through a comprehensive and humanized health care model. Probably, on many occasions, we will be far from perfection, but it is important to at least reflect frequently on the subject. ■

REFERENCES

1. UNICEF. Convención Internacional sobre los Derechos del Niño. Madrid: Unicef; 2015. Page 8.
2. Lanzavecchia G. Interés superior del niño en el Código Civil y Comercial de la Nación. *Sistema Argentino de Información Jurídica*. 2018; DACF180248.
3. Martí Andrés G. Sustancia individual de naturaleza racional: el principio personificador y la índole del alma separada. *Metafís Pers*. 2009; 1:113-29.
4. Herrera M, Caramelo G, Picasso S. Código Civil y Comercial de la Nación Comentado. 2.^a ed. Ciudad Autónoma de Buenos Aires: MINSAL; 2016.
5. Ciuro Caldani MA. Persona humana, filosofía, ética, bioética y derecho. Marzo de 2007. [Accessed on: October 5th, 2020]. Available at: <http://www.salud.gov.ar/dels/printpdf/23>.
6. García JJ. Bioética personalista y bioética principialista: Perspectivas. *Cuad Bioét*. 2013; 24(1):67-76.
7. Ortiz Lluca E. Bioética personalista y bioética utilitarista. *Cuad Bioét*. 2013; 24(1):57-65.
8. Gracia D. Fundamentos de Bioética. 2.^a ed. Madrid: Triacastela; 2007.
9. Flórez RA. El ser humano como imago Dei en Agustín de Hipona: una reflexión a partir del De trinitate. [Dissertation]. Bogotá: Pontificia Universidad Javeriana; 2014.
10. Macklin R. Dignity is a useless concept. *BMJ*. 2003; 327(7429):1419-20.
11. Kant E. Fundamentación de la metafísica de las costumbres. Madrid: Tecnos; 2006.
12. Hegel F. La ciencia de la lógica. Montevideo: Las cuarenta; 2013.
13. Scatolini J. Dignidad y Autonomía de la Persona, concepto y fundamento de los derechos humanos. *Revista Perspectivas*. 2012; 2(1):145-72.
14. Dworkin R. Los derechos en serio. Barcelona: Ariel; 2012.
15. Alexy R. Dignidad humana y Proporcionalidad. Rosario: Universidad; 2015.
16. AZPIRI JO. Derecho a conocer su origen. In: *Incidencias del Código Civil y Comercial de la Nación: Derecho de Familia*. Buenos Aires: Hammurabi; 2015. Page 197.
17. Lora LN. Discurso jurídico sobre el interés superior del niño. In: *Avances de Investigación en Derecho y Ciencias Sociales*. X Jornadas de Investigadores y Becarios. Mar del Plata: Ediciones Suárez; 2006. Pages 479-88.
18. Ministerio Público Fiscal de la Nación Argentina. Los derechos de niños, niñas y adolescentes (2012-2017). Buenos Aires: Dirección de relaciones institucionales. 2018. Pages 15-6.
19. Larguía AM, González MA, Solana C, Basualdo MN, et al. Maternidad Segura y Centrada en la Familia [MSCF] con enfoque Intercultural: conceptualización e implementación del modelo. Buenos Aires: UNICEF; 2012.
20. Argentina.gov.ar. Área de Salud Integral del Niño. [Accessed on: September 30th, 2017]. Available at: <https://www.argentina.gov.ar/salud/dinamia/saludintegral>.
21. Argentina.gov.ar. Dirección de Salud Perinatal y Niñez. [Accessed on: June 25th, 2020]. Available at: <https://www.argentina.gov.ar/salud/dinamia>.
22. Laboratorios Andrómaco. La escuela hospitalaria, una esperanza para el niño internado. *Revista Conexión Andrómaco*. 2016; 29:8-11.
23. Argentina.gov.ar. El Programa Nacional de Salud Integral en la Adolescencia celebró sus 10 años. [Accessed on: December 1st, 2017]. Available at: <https://www.argentina.gov.ar/noticias/el-programa-nacional-de-salud-integral-en-la-adolescencia-celebro-sus-10-anos>.
24. Blanco LG. Morir con dignidad. DELS. [Accessed on: March 1st, 2017]. Available at: <http://www.salud.gov.ar/dels/entradas/morir-con-dignidad>.

Hepatitis B crónica en pediatría: tratar o no tratar, esa es la pregunta

Chronic hepatitis B in pediatrics: To treat or not to treat, that is the question

Dr. Fernando Álvarez^a, Dra. Miriam L. Cuarterolo^b y Dra. Mirta Ciocca^c

RESUMEN

La infección crónica con el virus B de la hepatitis es una de las enfermedades de mayor prevalencia mundial. Puede evolucionar a la cirrosis y carcinoma hepatocelular. La detección temprana, evitar la utilización de drogas intravenosas, la educación sexual y la vacunación son fundamentales para la prevención. La infección neonatal y durante el primer año de vida evoluciona hacia la cronicidad en más del 90 % de los niños. La transmisión vertical, de una madre con virus B de la hepatitis al recién nacido, es, actualmente, la forma más frecuente de infección. Su detección y la administración de inmunoglobulinas y vacuna disminuyen esta vía de infección. El tratamiento antiviral puede acelerar en dos o tres años el pasaje de la fase activa a la inactiva de la infección, sin influir en el proceso hacia la recuperación. El tratamiento oportuno de algunos casos elegidos puede evitar la progresión de la enfermedad.

Palabras clave: hepatitis B, terapéutica, cirrosis.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.e117>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.e117>

- a. Departamento de Pediatría, CHU-Sainte Justine, Universidad de Montreal, Canadá.
- b. Sección Hepatología, Hospital de Pediatría "Prof. Dr. Juan P. Garrahan". Buenos Aires, Argentina
- c. Hepatología y Trasplante Hepático Pediátrico, Hospital Alemán, Buenos Aires, Argentina

Correspondencia:

Dr. Fernando Álvarez:
fernando.alvarez@
umontreal.ca

Financiamiento:

Ninguno.

Conflicto de intereses:

Ninguno que declarar.

Recibido: 19-8-2020

Aceptado: 30-10-2020

evitar la drogadicción intravenosa, la educación sexual y la vacunación son medidas sanitarias relevantes para prevenir esta enfermedad.

Características del virus

El virus B de la hepatitis (VBH) es un virus ácido desoxirribonucleico (ADN), de la familia de los hepadnavirus. Posee un genoma ADN de 3,2 kb, relativamente pequeño, considerando las proteínas necesarias para permitir su replicación dentro del parénquima hepático. La misma sección del ADN, utilizando diferentes sitios de iniciación de la transcripción, codifica más de un ácido ribonucleico (ARN) mensajero (ARNm) y, en consecuencia, más de una proteína.

Un caso particular es el de la secuenciación del ADN *precore*, que tiene dos sitios de iniciación de la transcripción, uno de los ARNm codifica la proteína E, y el otro la proteína *core*. La mutación en la secuencia del primero puede no afectar la lectura de la proteína *core*, con lo cual el virus continúa su replicación, pero el antígeno e (AgHBe) desaparece de la circulación y aparece el anti-HBe, asociado a una carga viral más o menos importante. Otras mutaciones en la secuencia que codifica para la proteína S se observan en raros casos, lo que puede ocasionar un escape a la respuesta inmunitaria.

Una particularidad del VBH es que se comporta como un retrovirus, lo cual significa que tiene la capacidad de integrarse al genoma del individuo infectado y perdurar en el organismo. La integración puede acontecer rápidamente luego de la infección, aunque es probable que la duración

INTRODUCCIÓN

La hepatitis B es una de las enfermedades infecciosas crónicas con más alta prevalencia. En el mundo, existen más de 350 millones de personas infectadas con este virus. De estas, el 15-25 % desarrollarán cirrosis y, eventualmente, un hepatocarcinoma.¹ La prevalencia en diferentes regiones del mundo es variable, y aún existen algunas zonas endémicas. En nuestro país, la prevalencia es muy baja, pero hay que estar atentos al aporte del virus por los inmigrantes de países con alta prevalencia, que son cada año más numerosos. La detección temprana,

Cómo citar: Álvarez F, Cuarterolo ML, Ciocca M. Hepatitis B crónica en pediatría: tratar o no tratar, esa es la pregunta. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e117-e120.

del período de replicación favorezca este proceso.² Esta propiedad particular del VBH aumenta las posibilidades de desarrollo de un carcinoma, dependiendo del sitio de integración.³

Clínica y laboratorio del virus B de la hepatitis

El momento de la infección por el VBH en pediatría determinará las posibilidades de que se desarrolle una infección crónica. Cuando la infección se produce durante el período neonatal y hasta el primer año de vida, más del 90 % de los niños evolucionarán hacia la cronicidad. Este porcentaje disminuye según la edad y llega al 5 % después del quinto año de vida, semejante al del adulto.

La transmisión vertical, de una madre positiva para el VBH, al recién nacido, es, en la actualidad, la forma más frecuente de infección, aunque la búsqueda del VBH en los exámenes de mujeres embarazadas y la administración de inmunoglobulinas y vacuna durante las primeras 12 horas de vida han disminuido mucho esta vía de infección. No obstante, sigue siendo de alrededor del 5 % en madres con alta replicación viral, a pesar de que las medidas profilácticas hayan sido estrictamente seguidas. Este pequeño porcentaje de infección puede ser anulado indicando tratamiento antiviral a las madres durante el tercer trimestre del embarazo.⁴

El virus también se transmite por vía horizontal, parenteral o sexual. Por esto, la prevención de la drogadicción intravenosa, las medidas de higiene, la vacunación y la educación sexual son elementos importantes en el combate

contra estos modos de contagio.

Los casos de hepatitis B crónica son asintomáticos, salvo que el paciente se encuentre en estadio de cirrosis, en el cual las manifestaciones clínicas corresponden a las complicaciones de cierto grado de insuficiencia hepática o de la hipertensión portal. Por lo general, la evolución tórpida con desarrollo de fibrosis y, finalmente, cirrosis no suele ocurrir en los primeros años de vida. Esta evolución sucede en menos del 4 % de los pacientes pediátricos y, en esos casos, hay que estar particularmente atentos a la posibilidad de desarrollo de un carcinoma hepatocelular, que acontece en, al menos, un paciente de cada dos, aunque existen raros casos de carcinoma hepatocelular sin cirrosis. Estas complicaciones nos llevan a sugerir un seguimiento riguroso de estos niños con o sin cirrosis, por lo menos, una vez al año.^{5,6} El examen físico, enzimas hepáticas, alfafetoproteína y ecografía abdominal son los controles indicados.

La coinfección del VBH con el virus delta de la hepatitis puede evolucionar hacia la cirrosis en más del 25 % de los niños. Afortunadamente, la mencionada coinfección es muy rara en pediatría, sobre todo, en nuestro país.

Historia natural del virus B de la hepatitis

Se pueden reconocer cuatro etapas en la historia natural del VBH, dependiendo de la respuesta inmunitaria contra el virus. La primera es de tolerancia; la segunda, de respuesta activa; la tercera, de inactivación, y, finalmente, la de recuperación (Tabla 1). La duración de cada fase

TABLA 1. Resumen de la historia natural de la infección crónica por el virus B de la hepatitis en pediatría

Historia natural				
Fases	Tolerancia	Activa	Inactiva	Recuperación
GPT	Normal	Aumentada	Normal	Normal
AgHBe	+++	+	-	-
Anti-HBe	-	-	+	*
ADN-HBV	++++	++	No detectable	No detectable
AgHBs	+++	++	++	-
Anti-HBs	-	-	-	+
		Respuesta inmunológica	Mínima replicación	

* Anti-HBe puede ser positivo en casos de mutación *precore*, en general, asociado con aumento de GPT.

GPT: transamina glutámico-pirúvica.

AgHBe: antígeno e de la hepatitis B.

Anti-HBe: anticuerpo contra el antígeno e de la hepatitis B.

ADN-HBV: ADN del virus de la hepatitis B.

AgHBs: antígeno de superficie de la hepatitis B.

Anti-HBs: anticuerpo contra el antígeno de superficie de la hepatitis B.

o etapa es variable en el tiempo. El pasaje de la fase de tolerancia a la activa está marcada por un aumento de las transaminasas y una disminución de la carga viral. En los niños infectados por transmisión vertical, la activación de la respuesta inmunitaria ocurre, generalmente, alrededor de la pubertad.⁶

En la edad pediátrica, o sea, en los menores de 18 años, hasta un 85 % de los niños alcanzarán la fase inactiva de la enfermedad, de manera espontánea o después de un tratamiento. Solo el 20 % en el mismo período pasarán a la etapa de recuperación completa con aparición de anticuerpos (Anti-HBs) contra el antígeno de superficie (AgHBs). Esta progresión no se modifica por el tratamiento.^{5,7}

Tratamiento

Diferentes tratamientos han sido utilizados en los últimos 20 años con el objeto de disminuir o evitar las complicaciones de la infección crónica por el VBH (Tabla 2). Inicialmente, se utilizó el α -interferón, con resultados similares a los antivirales actuales, pero con más efectos adversos. Luego se incorporó la lamivudina.^{8,9} No obstante, este medicamento generaba un porcentaje importante de mutaciones de resistencia.

Un estudio posterior mostró la eficacia del adefovir dipivoxil en los niños de más de 12 años (el 23 %), pero no en los menores de esta edad, que generó un menor porcentaje de mutaciones que la lamivudina.¹⁰ El entecavir es bien tolerado en los niños mayores de 12 años. Muestra una eficacia similar a los tratamientos previamente descritos, pero con menos del 1 % de mutaciones de resistencia luego de un año de tratamiento y del 2,6 % luego de dos años consecutivos. El fumarato de disoproxilo de tenofovir ha

sido utilizado en los niños mayores de 12 años con eficacia similar a los precedentes, aunque ofrece la ventaja de la ausencia de mutaciones, aun luego de varios años consecutivos de uso en los adultos.¹¹⁻¹³ No obstante, la utilización a largo plazo puede provocar efectos adversos óseos o renales, que son menores si se utiliza tenofovir-alafenamida, con igual eficacia.¹⁴ Este medicamento también favorecería la respuesta inmunitaria contra el VBH.¹⁵

El tratamiento está indicado en pacientes en fase activa de la enfermedad. Los factores que favorecen la seroconversión del AgHBe al anticuerpo anti-e (Anti-HBe) son los siguientes: 1) el aumento de la transaminasa glutámico pirúvica (*glutamic-pyruvic transaminase; GPT*, por sus siglas en inglés) a más de dos veces el valor normal; 2) la disminución de la carga viral antes de su comienzo; y 3) el grado de inflamación en la biopsia hepática.

El intento de estimular la respuesta inmune con inyecciones de interferón en la fase de tolerancia de la infección, seguido de la administración de un antiviral, aunque surgió como una idea interesante, no tuvo el éxito esperado.¹⁶ Teniendo en cuenta la historia natural de la enfermedad, durante los primeros años de vida, el tratamiento estaría solamente indicado en casos de un aumento importante de la *GPT* y presencia de fibrosis para producir su regresión o evitar la progresión hacia la cirrosis.¹⁷ Otra posibilidad es tratar a los niños con mutaciones *precore*, cuando se asocian a un persistente aumento de transaminasas.

El trasplante hepático por hepatitis B crónica es raramente requerido en pediatría y las indicaciones son el carcinoma hepatocelular y la cirrosis con insuficiencia hepática. Esto último es más frecuente en la coinfección del VBH con el virus delta.

TABLA 2. Tratamientos disponibles para los niños con infección por virus B de la hepatitis crónica. Porcentaje de seroconversión de AgHBe+ a Anti-HBe+ en niños y adultos

Tratamiento	Seroconversión de AgHBe a Anti-HBe	
	Pediatría	Adultos
PEG-interferón	26 %	27-32 %
Lamivudina	23 %	16-21 %
Adefovir	23 %	12 %
Entecavir	24,2 %	21 %

PEG-interferón: interferón pegilado.

AgHBe: antígeno e de la hepatitis B.

Anti-HBe: anticuerpo contra el antígeno e de la hepatitis B.

CONCLUSIONES

El tratamiento de la hepatitis B crónica puede lograr, en el mejor de los casos, acelerar en dos o tres años el pasaje de la fase activa a la fase inactiva de la infección. El pasaje de la etapa inactiva a la de recuperación no está influenciado por el tratamiento. Un objetivo modesto, como lograr la seroconversión del AgHBe al Anti-HBe, lo que señala el pasaje a la fase inactiva (con normalización de las transaminasas), es, tal vez, suficiente en la mayoría de los casos para evitar, con la desaparición de la hepatitis, el desarrollo de una cirrosis y, en consecuencia, de

un carcinoma hepatocelular. Como se señaló, el tratamiento adelanta el momento de inactivación, que ocurriría aun sin tratamiento un poco más tarde.

Una posible especulación podría proponer que, acelerando el control de la replicación viral, disminuirían las posibilidades de integración del VBH al genoma del hepatocito. En contra de esta hipótesis, el virus ha sido encontrado dentro del genoma del hepatocito aun en biopsias del hígado de pacientes con una hepatitis fulminante por VBH, que rápidamente en días pasan a la etapa de recuperación.

Desafortunadamente, en los niños con cirrosis, la aparición de un carcinoma hepatocelular puede ser detectada años después de la inactivación de la replicación viral. Esto hace sospechar que el proceso de la pérdida de diferenciación celular, probablemente, haya ocurrido mucho tiempo atrás o que la integración del virus en regiones prooncogénicas se haya manifestado tardíamente.

Si se tiene en cuenta el bajo porcentaje de eficacia de los tratamientos existentes, alrededor del 20 % de los niños tratados pasan de una fase activa a una inactiva al final del primer año. Este porcentaje es de alrededor del 10 % en los grupos placebo. Un argumento importante a favor del tratamiento con antivirales es que la menor replicación viral disminuye el grado de inflamación del hígado durante el tratamiento.

Idealmente, se tendría que administrar un tratamiento que generara pocas o ninguna mutación de resistencia viral. El más eficaz, en la actualidad, es el tenofovir, pero la administración a largo plazo genera efectos adversos renales y óseos. Tal vez, este tratamiento pueda justificarse en los adultos de riesgo, pero difícilmente en pediatría.

Un objetivo deseable sería “activar” la respuesta inmunitaria para facilitar a continuación el control de la replicación viral. Esta estrategia sería adoptada rápidamente con la finalidad de minimizar las complicaciones de esta infección en el largo plazo.

La detección de la infección por VBH en embarazadas y su adecuado manejo, así como la implementación de medidas de prevención en el recién nacido, podrían disminuir el porcentaje de transmisión vertical, la más frecuente en pediatría. El seguimiento de los pacientes con hepatitis B crónica es fundamental para prevenir y diagnosticar complicaciones asociadas. El tratamiento oportuno en algunos casos elegidos puede evitar la progresión de la enfermedad. ■

REFERENCIAS

- McMahon BJ. Natural history of chronic hepatitis B. *Clin Liver Dis.* 2010;14(3):381-96.
- Scotto J, Hadchouel M, Hery C, Alvarez F, et al. Hepatitis B virus DNA in children's liver diseases: detection by blot hybridisation in liver and serum. *Gut.* 1983;24(7):618-24.
- Jia L, Gao Y, He Y, Hooper JD, et al. HBV induced hepatocellular carcinoma and related potential immunotherapy. *Pharmacol Res.* 2020;159:104992.
- Brown RS Jr, McMahon BJ, Lok AS, Wong JB, et al. Antiviral therapy in chronic hepatitis B viral infection during pregnancy: A systematic review and meta-analysis. *Hepatology.* 2016;63(1):319-33.
- Bortolotti f, Guido M, Bartolacci S, Cadrobbi P, et al. Chronic Hepatitis B in Children After e Antigen Seroclearance: Final Report of a 29-Year Longitudinal Study. *Hepatology.* 2006;43(3):556-62.
- Wen WH, Chang MH, Hsu HY, Ni YH, et al. The development of hepatocellular carcinoma among prospectively followed children with chronic hepatitis B virus infection. *J Pediatr.* 2004;144(3):397-9.
- Marx G, Martin SR, Chicoine JF, Alvarez F. Long-term follow-up of chronic hepatitis B virus infection in children of different ethnic origins. *J Infect Dis.* 2002;186(3):295-301.
- Jonas MM, Mizerski J, Badia IB, Areias JA, et al. Clinical trial of lamivudine in children with chronic hepatitis B. *N Engl J Med.* 2002;346(22):1706-13.
- Yousef Y, Beland K, Mas E, Lapierre P, et al. Predictive factors of lamivudine treatment success in an hepatitis B virus-infected pediatric cohort: a 10-year study. *Can J Gastroenterol.* 2012;26(7):429-35.
- Jonas MM, Kelly D, Pollack H, Mizerski J, et al. Safety, efficacy, and pharmacokinetics of adefovir dipivoxil in children and adolescents (aged 2 to <18 years) with chronic hepatitis B. *Hepatology.* 2008;47(6):1863-71.
- Kitrinos KM, Corsa A, Liu Y, Flaherty J, et al. No detectable resistance to tenofovir disoproxil fumarate after 6 years of therapy in patients with chronic hepatitis B. *Hepatology.* 2014;59(2):434-42.
- Murray KF, Szenborn L, Wysocki J, Rossi S, et al. Randomized, placebo-controlled trial of tenofovir disoproxil fumarate in adolescents with chronic hepatitis B. *Hepatology.* 2012;56(6):2018-26.
- Lim YS, Lee YS, Gwak GY, Byun KS, et al. Monotherapy with tenofovir disoproxil fumarate for multiple drug-resistant chronic hepatitis B: 3-year trial. *Hepatology.* 2017;66(3):772-83.
- Agarwal K, Brunetto M, Seto WK, Lim YS, et al. 96 weeks treatment of tenofovir alafenamide vs. tenofovir disoproxil fumarate for hepatitis B virus infection. *J Hepatol.* 2018;68(4):672-81.
- Murata K, Tsukuda S, Suizu F, Kimura A, et al. Immunomodulatory Mechanism of Acyclic Nucleoside Phosphates in Treatment of Hepatitis B Virus Infection. *Hepatology.* 2020;71(5):1533-45.
- Rosenthal P, Ling SC, Belle SH, Murray, et al. Combination of Entecavir/Peginterferon Alfa-2a in Children With Hepatitis B e Antigen-Positive Immune Tolerant Chronic Hepatitis B Virus Infection. *Hepatology.* 2019;69(6):2326-37.
- Marcellin P, Gane E, Buti M, Afdhal N, et al. Regression of cirrhosis during treatment with tenofovir disoproxil fumarate for chronic hepatitis B: a 5-year open-label follow-up study. *Lancet.* 2013;381(9865):468-75.

Chronic hepatitis B in pediatrics: to treat or not to treat, that is the question

Fernando Álvarez, M.D.^a, Miriam L. Cuarterolo, M.D.^b and Mirta Ciocca, M.D.^c

ABSTRACT

Chronic hepatitis B virus infection is one of the most prevalent diseases worldwide. It may progress to cirrhosis and hepatocellular carcinoma. An early detection, not using intravenous drugs, sex education, and immunization are critical for prevention. An infection in the neonatal period and in the first year of life becomes chronic in more than 90 % of children. Vertical transmission from a mother with hepatitis B virus to the newborn infant is currently the most common mode of transmission. Detection, immunoglobulin administration, and immunization help to reduce it. Antiviral therapy may accelerate the transition from the active to the inactive phase of infection by two or three years, without affecting the recovery process. A timely treatment of some selected cases may prevent hepatitis B progression.

Key words: hepatitis B, therapy, cirrhosis.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.e117>

To cite: Álvarez F, Cuarterolo ML, Ciocca M. Chronic hepatitis B in pediatrics: To treat or not to treat, that is the question. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e117-e120.

- a. Department of Pediatrics, CHU-Sainte Justine, University of Montreal, Canada.
- b. Division of Hepatology, Hospital de Pediatría "Prof. Dr. Juan P. Garrahan," Autonomous City of Buenos Aires, Argentina.
- c. Division of Hepatology and Pediatric Liver Transplant, Hospital Alemán, Autonomous City of Buenos Aires, Argentina.

E-mail address:
Fernando Álvarez,
M.D.: fernando.
alvarez@umontreal.ca

Funding:
None.

Conflict of interest:
None.

Received: 8-19-2020
Accepted: 10-30-2020

Virus characteristics

Hepatitis B virus (HBV) is a deoxyribonucleic acid (DNA) virus from the *Hepadnaviridae* family. It has a relatively small DNA genome, 3.2 kb, considering the proteins necessary to allow its replication inside the liver parenchyma. The same DNA section, using different transcription start sites, codes more than one messenger ribonucleic acid (mRNA) and, therefore, more than one protein.

A particular case is precore DNA sequence, with two transcription start sites; one of the mRNAs codes the e protein and the other, the core protein. The mutation in the sequence of the former may not affect the core protein reading, so the virus continues replicating, but the hepatitis B e antigen (HBeAg) disappears from circulation and anti-HBe antibodies emerge, in association with a viral load that is sort of relevant. Other mutations in the sequence that codes for the S protein have been observed in rare cases, which may lead to an escape to the immune response.

A specific characteristic of HBV is that it acts like a retrovirus. This means that it is capable of integrating into the host's genome and remaining in their body. Integration may occur rapidly after infection, but the duration of the replication period may favor this process.² Such specific property of HBV increases the possibility of developing carcinoma, depending on the integration site.³

Hepatitis B virus clinical characteristics and lab tests

The time of infection by HBV in children will determine the possibility of developing a chronic infection. If the infection occurs during the

INTRODUCTION

Hepatitis B is one of the most prevalent chronic infections. Worldwide, more than 350 million people are infected with this virus. Of them, 15-25 % will develop cirrhosis and, eventually, hepatocellular carcinoma.¹ Prevalence varies across the different world regions, with some areas still endemic. In our country, the prevalence is very low, but it is necessary to pay close attention to the virus brought in by immigrants from high-prevalence countries, which are increasing every year. An early detection, not using intravenous drugs, sex education, and immunization are relevant health measures to prevent this condition.

neonatal period and up to the first year of life, more than 90 % of children will become chronic. Such percentage decreases with age and reaches 5 % after 5 years old, similar to adults.

Vertical transmission, from a HBV positive mother to a newborn infant, is currently the most common mode of transmission, although screening for HBV during pregnancy controls, together with immunoglobulin administration and immunization in the first 12 hours of life, have considerably reduced this route of transmission. However, the rate of vertical transmission is still approximately 5 % among mothers with high viral replication, in spite of a strict compliance with prophylactic measures. Such small percentage of infection may be reversed by prescribing antiviral therapy to pregnant women in their third trimester.⁴

HBV may also be disseminated via horizontal, parenteral or sexual transmission. Therefore, intravenous drug prevention, hygiene measures, immunization, and sex education are key elements to fight these modes of transmission.

Chronic hepatitis B patients are asymptomatic, except if they develop cirrhosis, in which case clinical manifestations correspond to complications from certain extent of liver failure or portal hypertension. In general, a torpid progression with fibrosis and, finally, cirrhosis does not take place in the first years of life. Such clinical course has been seen in less than 4 % of pediatric patients; in these cases, it is worth paying special attention to the possibility of developing hepatocellular carcinoma, which

occurs in at least 1 out of 2 patients, although rare cases of hepatocellular carcinoma without cirrhosis have been reported. Such complications suggest a strict follow-up of these children with or without cirrhosis, at least once every year.^{5,6} A physical examination, liver enzymes and alpha-fetoprotein levels, and an abdominal ultrasound are indicated for control.

HBV co-infection with the hepatitis D virus may progress to cirrhosis in more than 25 % of children. Fortunately, such co-infection is very rare in pediatrics, especially in our country.

Natural history of hepatitis B virus

The natural history of HBV has four phases, depending on the anti-viral immune response. First of all, tolerance; secondly, active response; thirdly, inactivation; and finally, recovery (*Table 1*). The duration of each phase or stage varies over time. The transition from the tolerance to the active phase is marked by an increased transaminase level and a reduced viral load. In children infected via vertical transmission, the activation of the immune response generally occurs around puberty.⁶

During the pediatric age, i.e., until 18 years old, up to 85 % of children will reach the inactive phase, either spontaneously or after receiving treatment. Only 20 % in the same period will transition to the full recovery phase with the development of antibodies against hepatitis B surface antigen (anti-HBs). Such progression is not affected by treatment.^{5,7}

TABLE 1. Summary of the natural history of chronic hepatitis B virus infection in pediatrics

Phases	Natural history			
	Tolerance	Active	Inactive	Recovery
GPT	Normal	Increased	Normal	Normal
HBeAg	+++	+	-	-
Anti-HBe	-	-	+	*
HBV-DNA	++++	++	Undetectable	Undetectable
HBsAg	+++	++	++	-
Anti-HBs	-	-	-	+
		Immune response	Minimum replication	

* Anti-HBe may be positive in precore mutation cases, in general, associated with an increased GPT level.

GPT: glutamic-pyruvic transaminase.

HBeAg: hepatitis B e antigen.

Anti-HBe: antibody against hepatitis B e antigen.

HBV-DNA: hepatitis B virus DNA.

HBsAg: hepatitis B surface antigen.

Anti-HBs: antibody against hepatitis B surface antigen.

Treatment

Different treatments have been used in the past 20 years for the purpose of reducing or preventing complications from chronic HBV infection (Table 2). Initially, alpha interferon was used with similar results to those of current antivirals, but with more adverse events. Lamivudine was introduced later.^{8,9} However, this drug caused an important number of resistance mutations.

A subsequent study demonstrated the effectiveness of adefovir dipivoxil in children older than 12 years (23 %), but not in younger children; it caused a smaller percentage of mutations than lamivudine.¹⁰ Entecavir is well tolerated by children older than 12 years. Its effectiveness is similar to that of treatments described above, but it caused less than 1 % of resistance mutations after one year of treatment and 2.6 % after two consecutive years. Tenofovir disoproxil fumarate has been used in children older than 12 years with an effectiveness similar to that of the drugs described before, but it offers the advantage of not causing mutations, even after several years of consecutive use in adults.¹¹⁻¹³ However, long-term use may cause bone or kidney adverse events, which may be less severe if tenofovir-alafenamide is used, which is equally effective.¹⁴ This drug may also favor the immune response to HBV.¹⁵

Treatment is indicated for patients in the active phase. The following factors favor HBeAg seroconversion to antibody against hepatitis B e antigen (anti-HBe): 1) increased glutamic-pyruvic transaminase (GPT) level to more than twice the normal value; 2) reduced viral load before onset; and 3) the extent of inflammation observed in the liver biopsy.

TABLE 2. Treatments available for children with chronic hepatitis B virus infection. Percentage of HBeAg+ seroconversion to anti-HBe+ in children and adults

HBeAg seroconversion to anti-HBe		
Treatment	Children	Adults
Peg-interferon	26 %	27-32 %
Lamivudine	23 %	16-21 %
Adefovir	23 %	12 %
Entecavir	24.2 %	21 %

Peg-interferon: pegylated interferon.

HBeAg: hepatitis B e antigen.

Anti-HBe: antibody against hepatitis B e antigen.

The attempt to promote an immune response with interferon injections in the tolerance phase of infection, followed by an antiviral, emerged as an interesting idea but did not achieve the desired success.¹⁶ Considering the natural history of HBV infection, treatment would only be indicated in the first years of life in the case of an important GPT increase and in the presence of fibrosis so as to attain regression or prevent the progression to cirrhosis.¹⁷ Another option would be to treat children with precore mutations if associated with persistent increased transaminase levels.

Liver transplantation for chronic hepatitis B is rarely required in children; however, it is indicated in the case of hepatocellular carcinoma and cirrhosis with liver failure. The latter is more common in HBV co-infection with hepatitis D virus.

CONCLUSIONS

The treatment of chronic hepatitis B may, at best, accelerate the transition from the active to the inactive phase of infection by two or three years. Transition from the inactive to the recovery phase is not affected by treatment. A modest objective, such as achieving HBeAg seroconversion to anti-HBe status, which indicates the transition to the inactive phase (with normalized transaminase levels), is probably enough in most cases, with the disappearance of hepatitis, to prevent the progression to cirrhosis and, subsequently, to hepatocellular carcinoma. As pointed out, treatment advances the moment of inactivation, which would occur somewhat later without treatment.

A potential assumption may propose that the acceleration of viral replication control would reduce the possibility of HBV becoming integrated into the hepatocyte genome. In opposition to this hypothesis, the virus has been found inside the hepatocyte genome even in liver biopsies from patients with acute massive liver necrosis caused by HBV, who rapidly enter the recovery phase within days.

Unfortunately, in children with cirrhosis, the development of hepatocellular carcinoma may be detected years after the inactivation of viral replication. Based on this, it may be suspected that the process of cell differentiation loss probably occurred a long time ago or that virus integration into pro-oncogenic regions expressed late.

Considering the low effectiveness of existing treatments, approximately 20 % of treated children transition from the active to the inactive

phase at the end of the first year. This percentage is approximately 10 % among placebo groups. A major argument in favor of antiviral therapy is that a lower viral replication reduces the extent of liver inflammation during treatment.

Ideally, treatment should cause only a few viral resistance mutations or none at all. At present, the most effective drug is tenofovir, but long-term administration leads to kidney and bone adverse events. This treatment may be justified for adults at risk, but hardly in pediatrics.

It would be desirable to “activate” the immune response to facilitate the subsequent control of viral replication. This strategy would be rapidly adopted to minimize the complications of HBV infection in the long term.

The detection of HBV infection in pregnant women and an adequate management, as well as the implementation of preventive measures in the newborn infant, may reduce the rate of vertical transmission, the most common mode in pediatrics. Monitoring chronic hepatitis B patients is critical to prevent and diagnose associated complications. A timely treatment of selected cases may prevent hepatitis B progression. ■

REFERENCES

- McMahon BJ. Natural history of chronic hepatitis B. *Clin Liver Dis.* 2010; 14(3):381-96.
- Scotto J, Hadchouel M, Hery C, Alvarez F, et al. Hepatitis B virus DNA in children's liver diseases: detection by blot hybridisation in liver and serum. *Gut.* 1983; 24(7):618-24.
- Jia L, Gao Y, He Y, Hooper JD, et al. HBV induced hepatocellular carcinoma and related potential immunotherapy. *Pharmacol Res.* 2020; 159:104992.
- Brown RS Jr, McMahon BJ, Lok AS, Wong JB, et al. Antiviral therapy in chronic hepatitis B viral infection during pregnancy: A systematic review and meta-analysis. *Hepatology.* 2016; 63(1):319-33.
- Bortolotti G, Guido M, Bartolacci S, Cadrobbi P, et al. Chronic Hepatitis B in Children After e Antigen Seroclearance: Final Report of a 29-Year Longitudinal Study. *Hepatology.* 2006; 43(3):556-62.
- Wen WH, Chang MH, Hsu HY, Ni YH, et al. The development of hepatocellular carcinoma among prospectively followed children with chronic hepatitis B virus infection. *J Pediatr.* 2004; 144(3):397-9.
- Marx G, Martin SR, Chicoine JF, Alvarez F. Long-term follow-up of chronic hepatitis B virus infection in children of different ethnic origins. *J Infect Dis.* 2002; 186(3):295-301.
- Jonas MM, Mizerski J, Badía IB, Areias JA, et al. Clinical trial of lamivudine in children with chronic hepatitis B. *N Engl J Med.* 2002; 346(22):1706-13.
- Yousef Y, Beland K, Mas E, Lapierre P, et al. Predictive factors of lamivudine treatment success in an hepatitis B virus-infected pediatric cohort: a 10-year study. *Can J Gastroenterol.* 2012; 26(7):429-35.
- Jonas MM, Kelly D, Pollack H, Mizerski J, et al. Safety, efficacy, and pharmacokinetics of adefovir dipivoxil in children and adolescents (aged 2 to <18 years) with chronic hepatitis B. *Hepatology.* 2008; 47(6):1863-71.
- Kitrinis KM, Corsa A, Liu Y, Flaherty J, et al. No detectable resistance to tenofovir disoproxil fumarate after 6 years of therapy in patients with chronic hepatitis B. *Hepatology.* 2014; 59(2):434-42.
- Murray KF, Szenborn L, Wysocki J, Rossi S, et al. Randomized, placebo-controlled trial of tenofovir disoproxil fumarate in adolescents with chronic hepatitis B. *Hepatology.* 2012; 56(6):2018-26.
- Lim YS, Lee YS, Gwak GY, Byun KS, et al. Monotherapy with tenofovir disoproxil fumarate for multiple drug-resistant chronic hepatitis B: 3-year trial. *Hepatology.* 2017; 66(3):772-83.
- Agarwal K, Brunetto M, Seto WK, Lim YS, et al. 96 weeks treatment of tenofovir alafenamide vs. tenofovir disoproxil fumarate for hepatitis B virus infection. *J Hepatol.* 2018; 68(4):672-81.
- Murata K, Tsukuda S, Suizu F, Kimura A, et al. Immunomodulatory Mechanism of Acyclic Nucleoside Phosphates in Treatment of Hepatitis B Virus Infection. *Hepatology.* 2020; 71(5):1533-45.
- Rosenthal P, Ling SC, Belle SH, Murray, et al. Combination of Entecavir/Peginterferon Alfa-2a in Children With Hepatitis B e Antigen-Positive Immune Tolerant Chronic Hepatitis B Virus Infection. *Hepatology.* 2019; 69(6):2326-37.
- Marcellin P, Gane E, Buti M, Afdhal N, et al. Regression of cirrhosis during treatment with tenofovir disoproxil fumarate for chronic hepatitis B: a 5-year open-label follow-up study. *Lancet.* 2013; 381(9865):468-75.

Nuevas recomendaciones para el cuidado de los pacientes con mucopolisacaridosis tipo I

New recommendations for the care of patients with mucopolysaccharidosis type I

Dra. Luisa Bay^a, Dr. Hernán Amartino^b, Dra. Alejandra Antacle^c, Dra. Claudia Arberas^d, Dra. Adriana Berretta^e, Dr. Hugo Botto^f, Dra. Mariana Cazalas^g, Lic. Adriana Copiz^h, Dra. Carmen De Cuntoⁱ, Dr. Guillermo Drelichman^j, Dra. Graciela Espada^k, Dr. Hernán Eiroa^l, Dr. Alejandro Fainboim^m, Dra. Virginia Fanoⁿ, Dr. Norberto Guelbert^o, Dr. Alberto Maffey^p, Dr. Claudio Paris^q, Dra. Marcela Pereyra^r, Dr. Rodrigo Remondino^s, Farm. Andrea Schenone^t, Dra. Norma Spécola^e, Dra. Raquel Staciuk^t y Dra. Graciela Zuccaro^u

RESUMEN

Dados los avances sobre mucopolisacaridosis I con posterioridad al consenso publicado en la Argentina por un grupo de expertos en 2008, se revisan recomendaciones respecto a estudios genéticos, seguimiento cardiológico, cuidado de la vía aérea, alertas sobre aspectos auditivos, de la patología espinal y neurológica. Se hace revisión de la terapéutica actual y se enfatiza en la necesidad de un diagnóstico y tratamiento precoces, así como de un seguimiento interdisciplinario.

Palabras clave: mucopolisacaridosis I, clasificación, terapéutica, diagnóstico, seguimiento.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.e121>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.e121>

Cómo citar: Bay L, Amartino H, Antacle A, Arberas C, et al. Nuevas recomendaciones para el cuidado de los pacientes con mucopolisacaridosis tipo I. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e121-e128.

INTRODUCCIÓN

En 2008, se publicó un consenso de diagnóstico y tratamiento de mucopolisacaridosis tipo I (MPS I) en la Argentina.¹ El tiempo transcurrido con respecto al tratamiento y al seguimiento en nuestro medio y en el mundo lleva a revisar las recomendaciones sobre algunos aspectos de la enfermedad.

Formas clínicas

Los pacientes con MPS I se clasificaban según su gravedad en tres formas clínicas: Hurler, Hurler-Scheie y Scheie. Actualmente, se define como forma grave (FG) lo que era S. Hurler y forma atenuada (FA) abarca las anteriores H. Scheie y Scheie.¹

Genética

La MPS I es una enfermedad autosómica recesiva cuya heterogeneidad genética explica, en parte, la heterogeneidad clínica. El gen responsable es *IDUA* con 14 exones, locus 4p16.3. Se conocen unas 100 mutaciones, y 20 de ellas cubren entre el 85 % y el 90 % de los casos.

En el 90-95 % de los casos, se identifican las mutaciones por secuenciación completa, pues técnicas más simples pueden no hacerlo. Hay mutaciones *missense* (en FA), *nonsense* (en FG) o por delección.

En la FG, las mutaciones más frecuentes son W402X (el 45 %) y Q70X (el 16 %). Ambas en homocigosis. En la FA, suele encontrarse heterocigotas compuestas con una de ellas.

La forma clínica no se determina por el dosaje enzimático ni por marcadores bioquímicos. La correlación genotipo/fenotipo puede ayudar, especialmente, en el recién nacido.

Sobre 538 MPS I del registro internacional, el 67,6 % de los 380 FG

- a. Servicio de Errores Congénitos del Metabolismo, Hospital "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".
- b. Servicio de Neurología Infantil, Clínica de Mucopolisacaridosis, Hospital Universitario Austral, Pilar, Buenos Aires.
- c. Oftalmología Infantil, Universidad Católica Argentina.
- d. Sección Genética Médica, Hospital de Niños Dr. Ricardo Gutiérrez, Buenos Aires.
- e. Hospital Privado de Córdoba.
- f. Endoscopia Respiratoria Pediátrica, Hospital "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".
- g. División Cardiología, Hospital de Niños Dr. Ricardo Gutiérrez.
- h. Sección de Audiología, Servicio de Otorrinolaringología, Hospital de Niños Dr. Ricardo Gutiérrez.
- i. Sección Reumatología Pediátrica, Servicio Clínica Pediátrica, Departamento de Pediatría, Hospital Italiano de Buenos Aires.
- j. Servicio de Hematología, Hospital de Niños Dr. Ricardo Gutiérrez y Fundación Favalaro.
- k. Servicio de Reumatología Infantil, Hospital de Niños Dr. Ricardo Gutiérrez.
- l. Servicio de Errores Congénitos del Metabolismo, Hospital "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".
- ll. Coordinador del Hospital de Día Polivalente, Hospital de Niños Dr. Ricardo Gutiérrez.
- m. Servicio de Crecimiento y Desarrollo, Hospital "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".
- n. Servicio de Enfermedades Metabólicas, Clínica Universitaria Reina Fabiola.
- ñ. Centro Respiratorio, Hospital de Niños Dr. Ricardo Gutiérrez.
- o. Secciones Alergia Pediátrica y Adultos, Hospital Italiano de Buenos Aires. Coordinador del Grupo de Trabajo Alérgenos Alimentarios, International Life Sciences Institute (ILSI) Argentina.
- p. Crecimiento y Desarrollo, referente en Errores Congénitos del Metabolismo de Mendoza, Hospital Pediátrico Dr. H. J. Notti de Mendoza.
- q. Patología Espinal, Hospital "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".
- r. Laboratorio Dr. Chamoles.
- s. Unidad de Metabolismo, Hospital Sor María Ludovica, La Plata.
- t. Servicio de Trasplante de Médula Ósea, Hospital "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".
- u. Neurocirugía, Universidad de Buenos Aires (UBA), Servicio de Neurocirugía, Hospital "Prof. Dr. Juan P. Garrahan", ex presidenta de la *International Society of Pediatric Neurosurgery* (ISPN), medallista de Federación Latinoamericana de Sociedades de Neurocirugía (FLANC), 2018.

Correspondencia:

Dra. Luisa Bay: bay.luisa@gmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses:

Los doctores Luisa Bay, Norberto Guelbert, Alejandro Fainboim, Norma Spécola, Guillermo Drelichman y Marcela Pereyra han recibido honorarios del laboratorio Sanofi por tareas docentes sobre enfermedades lisosomales.

Recibido: 21-7-2020

Aceptado: 20-10-2020

tenían mutaciones que permitían predecir el fenotipo.² Todo paciente diagnosticado debe recibir asesoramiento genético.

Evaluación cardiológica

El 88-93 % de los pacientes con FG y FA tienen manifestaciones cardíacas^{3,4} (Tabla 1). Los tratamientos disponibles aumentan la supervivencia, pero la enfermedad coronaria y las valvulopatías se presentan a pesar del tratamiento^{5,6} y causan elevada morbilidad. El 50 % de los pacientes con FG mueren por causa cardíaca.⁷⁻⁹

Se informaron anomalías valvulares en el 35 % de los pacientes latinoamericanos con FG y en el 54 % en las FA, versus el 73 % y el 87 % en los del resto del mundo. Será por un fenotipo regional o por la forma de evaluación diagnóstica.¹⁰

Se recomienda lo siguiente para el diagnóstico y el seguimiento cardiológico:

- Examen cardiovascular, electrocardiograma (para alteraciones del ritmo) y ecocardiogramas iniciales.
- En el seguimiento:¹¹⁻¹³
Ecocardiograma cada 1-2 años si no hay alteraciones o estas son leves.
Cada 6 meses o más frecuente cuando hay afecciones de moderadas a graves.
- *Holter*, solo indicado ante palpitaciones o arritmias en el electrocardiograma.
- Test de ejercicio cardiopulmonar; difícil de realizar por las alteraciones esqueléticas; sin estudios que avalen su práctica.
- Por sospecha de coronariopatía, se hace tomografía computada (TC) *multislice*, perfusión miocárdica y angiogramografía o angiografía con sospecha de afección de grandes arterias.

TABLA 1. Las manifestaciones cardíacas más importantes

Afección cardíaca	Frecuencia	Manifestación	Diagnóstico y seguimiento	Modificaciones con tratamiento
Valvulopatía mitral/aórtica	Más frecuente la afectación mitral.	Insuficiencia y estenosis.	Ecocardiograma (el 57 % tienen auscultación normal). El 14 % de las formas atenuadas requieren reemplazo valvular en evolución.	El TCPH y la TRE no modifican ni detienen la progresión.
Afección miocárdica	Muy frecuente en formas graves.	Hipertrofia (el 83 %). Dilatación. Disfunción diastólica en el 50 %.	Ecocardiograma. Electrocardiograma: no demuestra la hipertrofia debido a la conductividad baja de los glicosaminoglicanos.	El TCPH y la TRE mejoran la hipertrofia y la función ventricular.
Afección coronaria	Menos frecuente que en otras mucopolisacaridosis.	Compromiso difuso con isquemia que lleva a miocardiopatía dilatada.	TC <i>multislice</i> y perfusión miocárdica para el diagnóstico. Electrocardiograma: no evidencia isquemia.	El efecto de la TCPH y TRE sobre la lesión coronaria dependerá de la gravedad previa de esta afección. Otras publicaciones dicen que esto no influye.
Afección arterial	Dilatación de la raíz aórtica en el 38 % de las formas graves. HTA en el 32 % de los pacientes.	Formas atenuadas de estenosis. Dolor y claudicación en los miembros inferiores. HTA: compromiso de las arterias renales.	Control de TA. Sospecha clínica. Ecocardiograma y ecodoppler arterial.	No hay datos.
Hipertensión pulmonar	Poco frecuente.	Disnea. Elevada morbilidad.	Ecocardiograma.	No hay datos.
Disfunción endotelial	Riesgo aumentado en MPS I.	En adolescentes y preadolescentes, la edad vascular equivale a la de un adulto de 40 años.	Doppler de vasos del cuello.	Disminuye con TRE y TCPH, aunque no se recupera la función endotelial.

TCPH: trasplante de células precursoras hematopoyéticas; TRE: terapia de reemplazo enzimático; HTA: hipertensión arterial; TA: tensión arterial; MPS I: mucopolisacaridosis tipo I.

- A futuro, habrá que evaluar el riesgo vascular, calculando la edad vascular mediante ecocardiograma doppler de los vasos del cuello y la velocidad de onda de pulso.¹¹

Evaluación de la vía aérea

La obstrucción de la gran vía aérea es un grave problema.¹⁴ La hipertrofia de amígdalas palatinas y adenoides genera ronquido, obstrucción y apneas obstructivas. Se deben estudiar con polisomnografía de sueño y radiografía de cuello de perfil en posición de olfateo.^{15,16}

La amígdala-adenoidectomía mejora la ventilación y el efecto deletéreo de la hipoxia nocturna sobre el sistema nervioso central (SNC) y otros órganos. Debe ser cuidadosa, por posibles complicaciones cardíacas, sumadas a la presencia de infiltrados subglóticos.¹⁷

A más edad, se suman escoliosis y rigidez torácica, con incapacidad ventilatoria restrictiva. La acumulación de glicosaminoglicanos en la pared de la tráquea y los bronquios agrega incapacidad ventilatoria obstructiva, por lo que puede requerirse traqueotomía.¹⁸ Se ha descrito la infiltración intersticial pulmonar en el neonato.¹⁹ La vía aérea difícil debe evaluarse antes de una cirugía, ya que una traqueotomía puede evitar complicaciones en el posoperatorio.^{20,21}

Evaluación auditiva

La patología recidivante del oído medio es frecuente y temprana. La reiteración de pesquisa auditiva anómala podría hacer sospechar una mucopolisacaridosis. Si hay pérdida auditiva progresiva, se debe reevaluar a los 6, a los 9 y a los 12 meses.

La hipoacusia es de tipo conductiva o mixta y algunas evolucionan a neurosensoriales. Los depósitos de glicosaminoglicanos ocurren primero en la membrana timpánica, luego en el oído interno y, finalmente, a nivel central.

Cuando hay una alteración de la conducción entre moderada y grave, se debe habilitar el canal auditivo para conservar el estímulo y la comunicación. El grado grave instalado ya no tiene indicación de tratamiento.

La indicación de dispositivos audioprotésicos, implantes cocleares y osteointegrados depende del nivel auditivo y del compromiso general del paciente. La metodología de evaluación audiológica debe incluir pruebas subjetivas o conductuales para la confirmación diagnóstica.²²

Salud espinal

Se observa una deficiencia anterior y media del cuerpo vertebral, la clásica platispondilia con un pico o *notch* anterior, por osificación endocondral incompleta del cuerpo vertebral,^{23,24} vértebras trapezoidales o acuñaadas,²³ discos intervertebrales grandes en relación con vértebras hipoplásicas, presencia de abombamiento (*bulging*) posterior intracanal^{26,27} y estenosis de canal raquídeo a distintos niveles. La patología cervical es más rara en el tipo I que en el tipo IV y VI. La hipoplasia de apófisis odontoides,²⁵ en algunos casos, asociada a inestabilidad cervical atlantoaxial, se detecta en el par radiológico cervical, en máxima flexión y extensión.

Las cifoescoliosis progresivas conducen a descompensación del tronco, inestabilidades y potencial compromiso neurológico.^{28,29} Los pacientes van desde estar asintomáticos a presentar compromiso neurológico secundario a una compresión medular.^{30,31}

De 42 pacientes (atendidos en el Hospital Garrahan) con mucopolisacaridosis de distintos tipos (IV, VI y I) operados, el 55 % se presentó con compromiso neurológico. Tenían hipoplasia odontoidea el 25 %, inestabilidad atlantoaxoidea el 21 % y canal cervical estrecho por depósitos de glicosaminoglicanos el 21 %.

Con sospecha de estenosis cervical, al momento del examen clínico, se deben realizar estudios radiológicos, resonancia magnética estática y tomografías computadas preoperatorias. Se requiere la evaluación especializada.³² Se realizan, también, potenciales somatosensitivos, motores, algunas veces, urodinamias y polisomnografías.

La cirugía se realiza liberando compresiones y preservando las estructuras neurológicas, utilizando técnicas de descompresión posterior, en su gran mayoría, asociadas a artrodesis.³² Las fusiones profilácticas versus terapéuticas son controvertidas. La cirugía debe ser precoz cuando está indicada.³³

La deformidad más frecuente es la cifosis con apex en la región L1 o L2, seguida por escoliosis, o combinadas. En los menores de 7 años con cifoescoliosis y curvas con ángulo inferior a 50 grados, se utiliza corsé toracolumbosacro termoplástico a medida, 22 h/día, que permite hacer actividad física o deportiva si no hay riesgo medular a nivel cervical o toracolumbar. Para las edades mayores, con curvas entre 50 y 70 grados o superiores, se indican fusiones posteriores instrumentadas. Con deformidad asociada

a estenosis de canal y déficit neurológico, se realiza doble abordaje (anterior descompresión y artrodesis + posterior fusión instrumentada). El equipo quirúrgico incluye anestesiólogo y neurofisiólogo experimentados.

Manifestaciones neurológicas

La MPS I tiene compromiso evolutivo del SNC y periférico (SNP), variable según la forma clínica. Hay deterioro cognitivo, problemas de comportamiento, trastornos del sueño, hidrocefalia y compresión de la médula espinal, atrapamiento de raíces, nervios periféricos y pares craneales.

Deterioro cognitivo

En la FG, luego de un período de desarrollo normal, ocurre un estancamiento entre el primer y el segundo año de vida, seguido por un deterioro cognitivo rápido.³⁴⁻³⁶ Se pierden, aproximadamente, 20 puntos del coeficiente intelectual (CI) por año.³⁷ La neurodegeneración involucra depósito de heparán sulfato, que actúa como matriz de neuroinflamación y sobreexpresión de gangliósidos con efecto neurotóxico, que induce dendritogénesis ectópica y sinaptogénesis anormal.³⁸

Las FA no están totalmente exentas de problemas del desarrollo cognitivo. Por cada año que se retrase el tratamiento, habrá 9 puntos menos de CI.³⁹ Algunas mutaciones (L238Q) favorecen manifestaciones psiquiátricas tardías, como aislamiento y depresión.⁴⁰

No hay biomarcadores orientadores de neurodegeneración. Esta se mide mediante la evaluación cognitiva formal en el tiempo. Hasta los 3 años, se recomienda usar la escala Bayley-III, que brinda información de edad equivalente. En los mayores de 3 años, se puede medir el CI con las escalas de Wechsler. Para la conducta adaptativa, se recomienda la escala Vineland para todas las edades.³⁴

El compromiso auditivo precoz puede, *per se*, afectar el lenguaje. Las nuevas neuroimágenes funcionales y su correlación con las funciones mentales superiores aún están en etapa de investigación.⁴¹ Para un mejor pronóstico cognitivo a largo plazo en FG, hay que trasplantar tempranamente.⁴²

Hidrocefalia

La hidrocefalia es una complicación de relativa frecuencia en las mucopolisacaridosis, en especial, en MPS I y II, y, junto con los depósitos de

glicosaminoglicanos en los diferentes planos, contribuye a la macrocefalia. Se presenta con lento deterioro neurológico, decaimiento progresivo y, raramente, edema de papila, cefalea y vómitos.

El 80-85 % son comunicantes.⁴³ La dinámica de la circulación del líquido cefalorraquídeo (LCR) se altera por depósito de glicosaminoglicanos con obstrucción de los espacios subaracnoideos y granulaciones de Pacchioni, con reducción del drenaje venoso.

En los niños, se corrige cuando se requiere, con derivación ventrículo-peritoneal o ventrículo-atrinal o lumboperitoneal para acortar el recorrido subcutáneo. Los glicosaminoglicanos pueden obstruir la derivación.

El depósito de glicosaminoglicanos en la sustancia blanca y ganglios de la base produce destrucción tisular, compresión de los vasos del parénquima, dilatación de los espacios perivasculares y subaracnoideos, que conduce a la atrofia cerebral con dilatación pasiva de los ventrículos y mimetiza la hidrocefalia. Esta no requiere tratamiento.

Compresión medular

El depósito de glicosaminoglicanos en la duramadre y los ligamentos causa compresión medular y mielopatía. Su detección y corrección quirúrgica precoz evitan el daño medular irreversible. Los signos iniciales, leves e insidiosos (debilidad progresiva, torpeza, fatiga, hiperreflexia, dolor y parestesias) pueden confundirse con signos de la enfermedad osteoarticular.^{37,38}

Diagnóstico

Se realiza demostrando en el paciente, con signos y síntomas sugestivos, la deficiencia de la enzima alfa-L-iduronidasa en leucocitos purificados o en gotas de sangre en papel de filtro. También puede realizarse la pesquisa neonatal.^{1,8,9}

Los métodos disponibles actualmente hacen prescindible medir la actividad enzimática en cultivo de fibroblastos. En la *Tabla 2*, se muestran ventajas y limitaciones de los métodos bioquímicos disponibles. El estudio molecular no es imprescindible para el diagnóstico, pero es necesario para indicar el tratamiento.

Tratamientos disponibles

Los tratamientos específicos son el trasplante alogénico de células progenitoras hematopoyéticas (TCPH) o la terapia de

reemplazo enzimático (TRE). El consenso europeo remite a un equipo de expertos la decisión terapéutica, que es una excelente recomendación para nuestro medio.⁴⁴

El TCPH es el tratamiento de elección para la FG para reemplazar el sistema monocítico-macrofágico deficiente por el del donante, que secreta la enzima faltante. Ofrecido a < 2 años y con un CI > 70, puede detener el deterioro neurocognitivo progresivo y el daño sobre otros órganos.^{8,44} Los mayores de 2 años y con CI < 70 tienen pobre beneficio con el TCPH.

La edad es la variable más importante. Trasplantando antes de los 12 meses, se logra el mejor pronóstico cognitivo y, antes de los 9 meses, el desarrollo neurocognitivo alcanzado puede ser normal.^{42,45-48}

Desde el primer TCPH en 1981 hasta la fecha, se han trasplantado más de 500 pacientes. En la Argentina, entre 2009 y 2018, diecisiete pacientes recibieron 20 TCPH* (* datos aportados por el Instituto Nacional Central Único Coordinador de Ablación e Implante –INCUCAI-). Un ~25 % tendrá un donante familiar; el resto requerirá una

TABLA 2. Métodos de diagnóstico

Tipo de muestra	Ventajas	Limitaciones
Glicosaminoglicanos en orina		
Cuantitativo Medir la concentración de glicosaminoglicanos en orina corregido por la creatinina.	<ul style="list-style-type: none"> Orina de 24 h 	<ul style="list-style-type: none"> Es útil como método de pesquisa para aquellas mucopolisacaridosis que presentan altas concentraciones de glicosaminoglicanos en orina. El ensayo puede ser usado para monitorear la evolución de la enfermedad o la respuesta al tratamiento.
		<ul style="list-style-type: none"> No es específico para heparán y dermatán sulfato. Algunos pacientes pueden excretar cantidades normales de glicosaminoglicanos o levemente aumentados. Los niveles de corte deben estar establecidos acorde a la edad del paciente. La concentración de glicosaminoglicanos disminuye conforme aumenta la edad del paciente. Se pueden obtener resultados falsos positivos si la orina presenta una concentración de creatinina elevada o negativos si la orina es muy diluida. La muestra es difícil de obtener en pacientes que no controlan esfínteres (niños pequeños o con retraso mental). El envío de muestras hasta un centro de referencia. Un resultado negativo puede hacer que no se siga estudiando a un paciente.
Cualitativo Identifica específicamente el tipo de glicosaminoglicano presente en la orina, lo que permite tipificar el tipo de mucopolisacaridosis que tiene el paciente.	<ul style="list-style-type: none"> Orina de 24 h. 	<ul style="list-style-type: none"> Se puede observar un patrón específico de excreción para distintas mucopolisacaridosis, aun en casos en los que la cuantificación de glicosaminoglicanos fue normal.
		<ul style="list-style-type: none"> El perfil obtenido no permite discriminar entre MPS I y II. La muestra es difícil de obtener en pacientes que no controlan esfínteres (niños pequeños o con retraso mental). Se requiere un laboratorio especializado para su realización.
Ensayo de actividad enzimática de alfa-iduronidasa		
Leucocitos	<ul style="list-style-type: none"> 10 ml de sangre heparinizada. 	<ul style="list-style-type: none"> Método altamente sensible y específico. Una vez acondicionada la muestra, se puede conservar mucho tiempo.
		<ul style="list-style-type: none"> La muestra debe llegar al laboratorio dentro de las 24 h de haber sido obtenida. El volumen de muestra requerido es elevado, sobre todo, en pacientes pediátricos. Se requiere un laboratorio especializado para su realización.
Fibroblastos	<ul style="list-style-type: none"> Biopsia de piel. 	<ul style="list-style-type: none"> Se pueden realizar múltiples ensayos de una misma muestra. Una vez acondicionada la muestra, se puede conservar mucho tiempo.
		<ul style="list-style-type: none"> Toma de muestra invasiva. El desarrollo del cultivo de fibroblastos demanda semanas hasta estar en condiciones para hacer el ensayo enzimático, lo que demora el resultado. El transporte puede alterar la muestra. Se requiere un laboratorio especializado para su realización.
GSPF	<ul style="list-style-type: none"> Sangre entera impregnada en papel (el mismo que se utiliza para pesquisa neonatal). 	<ul style="list-style-type: none"> Toma de muestra mínimamente invasiva. Fácil transporte. Permite realizar varios ensayos sobre una misma muestra. Permite hacer estudios a gran escala. Buena correlación de resultados obtenidos en leucocitos.
		<ul style="list-style-type: none"> Se requiere un laboratorio especializado para su realización. Los resultados obtenidos deben ser confirmados en leucocitos o con el estudio genético.

GSPF: gota de sangre en papel de filtro.

búsqueda en registros internacionales.

Puede haber hasta un 30 % de pérdida del injerto, pero los acondicionamientos mieloablativos, basados en busulfán han mejorado este aspecto. Con el esquema busulfán/fludarabina, se reportan sobrevidas > 90 %.^{42,44,45,49}

La sobrevida global (SG) a los 5 años es del 74-95 %, y la libre de eventos, del 63-90 %, dependiendo del tipo de donante y la fuente de TCPH.^{46,47} La mortalidad relacionada con el trasplante, del 10 % al 25 %, es, principalmente, por causas infecciosas virales, enfermedad injerto contra huésped (EICH), complicaciones pulmonares, hemorragias y falla múltiple de órgano.^{46,49}

La sangre de cordón umbilical (SCU) ha mostrado mayor probabilidad de lograr quimerismo del donante ($p = 0,39$) y niveles enzimáticos normales ($p = 0,07$) (el 92 % y el 98 %, respectivamente) comparada con otras fuentes. La SG con SCU (identidad 6/6), el 81 %, es comparable con el trasplante de donante familiar idéntico. Sería una fuente preferencial por la rápida disponibilidad y tener mayor población de CPH primitivas. El período de aplasia es más prolongado, con el consiguiente mayor riesgo de reactivaciones virales, y se tiene una sola donación por donante. Los resultados con SCU (SG ~ 90 %) son mejores que con médula ósea o sangre periférica. Podrían estar influidos por los cuidados de soporte, acondicionamientos y alto grado de compatibilidad por ser de la última década.^{45-47,49}

Las opciones para un TCPH serían las siguientes:

1. Donante familiar idéntico (hermano, con estudios moleculares).
2. Donante no relacionado (DNR) 10/10 o SCU 6/6 (antígenos leucocitarios humanos -*human leucocyte antigen*; HLA, por sus siglas en inglés - en alta resolución).

La actividad enzimática alcanza valores comparables con los del donante en los primeros 3 meses. Se logra, aproximadamente, el 50 % del valor normal con donante portador y el 100 % con donante no afectado.⁴⁹

Puede persistir el compromiso en algunos órganos, dependiendo de la carga de enfermedad previa. Mejoran la hepatoesplenomegalia, los síntomas ventilatorios y la hipertrofia miocárdica, aunque las alteraciones valvulares persisten. Mejora la opacidad corneal, pero puede ocurrir degeneración retiniana. La audición también mejora, aun con un componente neurosensorial.

La mayoría queda con estatura corta. Las displasias óseas persisten. Mejora la displasia odontoidea y la estabilidad cervical, la movilidad articular de las extremidades superiores, más que las inferiores. Puede haber retraso puberal y fertilidad reducida.^{42,43,46} El deterioro cognitivo mejora 6-12 meses postrasplante porque requiere la presencia de los macrófagos del donante transportadores de la enzima en la microglía y la tasa de reemplazo es lenta.^{42,45,49,50}

El pronóstico del TCPH a largo plazo depende de la edad, el estado clínico basal y el quimerismo completo. Es importantísimo el diagnóstico temprano, la derivación oportuna y la aceptación rápida en centros de trasplante con experiencia.^{42,45,49,50} El seguimiento debe hacerlo un equipo multidisciplinario e interdisciplinario, con participación activa, al menos, de 1 año del equipo que trasplante.

La TRE con laronidasa humana recombinante es para las FA, no para las FG, porque no atraviesa la barrera hematoencefálica (BHE).⁴⁵ El mejor resultado terapéutico depende de la edad, la gravedad y el grado y tipo de compromiso clínico de cada paciente.⁴⁵

Con TCPH, se obtiene mejor control metabólico que con TRE.⁵¹ No corrige las afecciones en el SNC, hueso, válvulas cardíacas ni córneas. La TRE pretrasplante mejora la función respiratoria y la miocardiopatía. No aumenta el riesgo de reacciones inmunomediadas, no afecta negativamente al injerto ni promueve la EICH. Se reportó una mejoría de las funciones cognitivas con TRE postrasplante, probablemente, por la mejoría de las demás manifestaciones clínicas.⁵²

La TRE modifica la historia natural de la enfermedad en las FA, mejora la hepatoesplenomegalia, el grosor de la piel, la función respiratoria y la miocardiopatía, pero no revierte el rango anormal de la movilidad articular ya establecida y afecciones como la disostosis, la valvulopatía y la opacidad corneal. La TRE temprana, en FA, antes de que se instale la cascada inflamatoria posterior al depósito de glicosaminoglicanos, evita algunas de las manifestaciones. La indicación difiere, entonces, de los criterios establecidos en 2008 para tratar las FA.¹ Debe comenzar cuanto antes.

Se comunicó una mejor evolución con 12 años de seguimiento de un paciente que inició TRE a los 5 meses, comparado con su hermana que la comenzó a los 5 años. El hermano menor mantuvo facies normal, menos lesiones óseas, de las articulaciones y del miocardio, creció en

percentilo 97, y la hermana en el 10, y alcanzó un CI 100, y la hermana 70.⁵³ El beneficio de TRE parece mínimo en FG no trasplantados.⁵⁴ Se sugiere que un grupo de expertos evalúe individualmente su indicación.⁵⁵

CONCLUSIONES

El diagnóstico y tratamiento tempranos modifican la evolución. Idealmente, el seguimiento estará a cargo de un equipo interdisciplinario. ■

REFERENCIAS

1. Grupo de trabajo de enfermedades poco frecuentes. Consenso de diagnóstico y tratamiento de la mucopolisacaridosis tipo I. *Arch Argent Pediatr*. 2008; 106(4):361-8.
2. Clarke LA, Giugliani R, Guffon N, Jones SA, et al. Genotype-phenotype relationships in mucopolysaccharidosis type I (MPS I): Insights from the International MPS I Registry. *Clin Genet*. 2019; 96(4):281-9.
3. Izumi Y, Saito T, Sato S, Shimizu W. Myocardial Alterations in a Patient with Mucopolysaccharidosis Type I. *Eur Heart J*. 2018; 39(21):1863.
4. Soliman OI, Timmermans RG, Nemes A, Vletter WB, et al. Cardiac abnormalities in adults with the attenuated form of mucopolysaccharidosis type I. *J Inherit Metab Dis*. 2007; 30(5):750-7.
5. Watanabe N, Anagnostopoulos PV, Azakie A. Aortic stenosis in a patient with Hurler's syndrome after bone marrow transplantation. *Cardiol Young*. 2011; 21(3):349-50.
6. Robinson CR, Roberts WC. Outcome of Combined Mitral and Aortic Valve Replacement in Adults with Mucopolysaccharidosis (the Hurler Syndrome). *Am J Cardiol*. 2017; 120(11):2113-8.
7. Dangel JH. Cardiovascular Changes in Children with Mucopolysaccharide Storage Diseases and Related Disorders-Clinical and Echocardiographic Findings in 64 Patients. *Eur J Pediatr*. 1998; 157(7):534-8.
8. Muenzer J, Wraith E, Clarke LA. Mucopolisaccharidosis I: management and treatment guidelines. *Pediatrics*. 2009; 123(1):19-29.
9. Martins AM. Introduction to Brazilian Guidelines for diagnosis, treatment, and monitoring for Gaucher disease, Fabry disease, Mucopolysaccharidosis I, and Pompe disease. *J Pediatr*. 2009; 155(4 Suppl):S9.
10. Muñoz-Rojas MV, Bay L, Sanchez L, Van Kuijk M, et al. Clinical manifestations and treatment of mucopolysaccharidosis type I patients in Latin America as compared with the rest of the world. *J Inherit Metab Dis*. 2011; 34(5):1029-37.
11. Kelly AS, Metzger AM, Steinberger J, Braunlin EA. Endothelial function in children and adolescents with mucopolysaccharidosis. *J Inherit Metab Dis*. 2013; 36(2):221-5.
12. Wang R Y, Rudser KD, Dengel DR, Braunlin EA, et al. The Carotid Intima-Media Thickness and Arterial Stiffness of Pediatric Mucopolysaccharidosis Patients are Increased Compared to Both Pediatric and Adult Controls. *Int J Mol Sci*. 2017; 18(3):637.
13. Leal GN, De Paula AC, Leone C, Kim CA. Echocardiographic study of paediatric patients with mucopolysaccharidosis. *Cardiol Young*. 2010; 20(3):254-61.
14. Moretto A, Bosatra MG, Marchesini L, Tesoro S. Anesthesiological risks in mucopolysaccharidoses. *Ital J Pediatr*. 2018; 44(Suppl 2):116.
15. Solaiman SS, Rifkin DS, Rao H. Sleep Apnea in Hurler Syndrome: Looking Beyond the Upper Airway. *J Clin Sleep Med*. 2016; 12(10):1423-4.
16. Wooten WI 3rd, Muenzer J, Vaughn BV, Muhlebach MS. Relationship of Sleep to Pulmonary Function in Mucopolysaccharidosis II. *J Pediatr*. 2013; 162(6):1210-5.
17. Semenza GL, Pyeritz RE. Respiratory complications of mucopolysaccharide storage disorders. *Medicine (Baltimore)*. 1988; 67(4):209-19.
18. Marcus CL. Sleep-disordered breathing in children. *Am J Respir Crit Care Med*. 2001; 164(1):16-30.
19. Bush D, Sremba L, Lomax K, Lipsett J, et al. Neonatal Onset Interstitial Lung Disease as a Primary Presenting Manifestation of Mucopolysaccharidosis Type I. *JIMD Rep*. 2019; 43:71-7.
20. Allen JL. Treatment of respiratory system (not just lung!) abnormalities in mucopolysaccharidosis I. *J Pediatr*. 2004; 144(5):561-2.
21. Shinhar SY, Zablocki H, Madgy DN. Airway management in mucopolysaccharide storage disorders. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2004; 130(2):233-7.
22. Gökdoğan Ç, Altınyay Ş, Gökdoğan O, Tutar H, et al. Audiologic evaluations of children with mucopolysaccharidosis. *Braz J Otorhinolaryngol*. 2016; 82(3):281-4.
23. White KK. Orthopaedic aspects of mucopolysaccharidoses. *Rheumatology (Oxford)*. 2011; 50(Suppl 5):v26-33.
24. Field RE, Buchanan JAF, Copplemans MGJ, Aichroth PM. Bone marrow transplantation in Hurlers syndrome: effect on skeletal development. *J Bone Joint Surg Br*. 1994; 76(6):975-81.
25. Langer L Jr, Carey L. The roentgenographic features of the KS mucopolysaccharidosis of Morquio (Morquio-Brailsford's disease). *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med*. 1966; 97(1):1-20.
26. Swischuk LE. The beaked, notched, or hooked vertebra: Its significance in infants and young children. *Radiology*. 1970; 95(3):661-4.
27. Tandon V, Williamson JB, Cowie RA, Wraith JE. Spinal problems in mucopolysaccharidosis I (Hurler syndrome). *J Bone Joint Surg Br*. 1996; 78(6):938-44.
28. Holte DC, Rogers MA, Ransford AO, Crockard HA, et al. Thoracic spinal cord compression in Morquio-Brailsford's disease: Report of a case and review of the literature. *Neuro-Orthopaedics*. 1994; 16:31-7.
29. Kulkarni MV, Williams JC, Yeakley JW, Andrews JL, et al. Magnetic resonance imaging in the diagnosis of the cranio-cervical manifestations of the mucopolysaccharidoses. *Magn Reson Imaging*. 1987; 5(5):317-23.
30. Hughes DG, Chadderton RD, Cowie RA, Wraith JE, et al. MRI of the brain and craniocervical junction in Morquio's disease. *Neuroradiology*. 1997; 39(5):381-5.
31. Ransford A, Crockard H, Stevens J, Modagheh S. Occipitoatlanto-axial fusion in Morquio-Brailsford Syndrome. *J Bone Joint Surg Br*. 1996; 78(2):307-13.
32. Kachur E, Del Maestro R. Mucopolysaccharidosis and spinal cord compression: case report and review of the literature with implications of bone marrow transplantation. *Neurosurgery*. 2000; 47(1):223-9.
33. Sostrin RD, Hasso AN, Peterson DI, Thompson JR. Myelographic features of mucopolysaccharidosis: a new sign. *Radiology*. 1977; 125(2):421-4.
34. Shapiro EG, Escolar ML, Delaney KA, Mitchell JJ. Assessments of neurocognitive and behavioral function in the mucopolysaccharidoses. *Mol Genet Metab*. 2017; 122(Suppl:8)-16.
35. Shapiro EG, Nestrasil I, Rudser K, Delaney K, et al. Neurocognition across the spectrum of

- mucopolysaccharidosis type I: age, severity, and treatment. *Mol Genet Metab.* 2015; 116(1-2):61-8.
36. Krivit W, Peters C, Shapiro EG. Bone marrow transplantation as effective treatment of central nervous system disease in globoid cell leukodystrophy, metachromatic leukodystrophy, adrenoleukodystrophy, mannosidosis, fucosidosis, aspartylglucosaminuria, Hurler, Maroteaux-Lamy and Sly syndromes, and Gaucher disease type III. *Curr Opin Neurol.* 1999;v12(2):167-76.
 37. Krenzlin H, Ta-Chih T, Lampe C, Knuf M, et al. Standalone cráneo-cervical decompression is feasible in children with MPS type I, IVA and VI. *Spine J.* 2018; 18(8):1455-9.
 38. Vitner EB, Platt FM, Futerman AH. Common and uncommon pathogenic cascades in lysosomal storage diseases. *J Biol Chem.* 2010; 285(27):20423-7.
 39. Van der Lee JH, Morton J, Adams HR, Clarke L, et al. Cognitive endpoints for therapy development for neuronopathic mucopolysaccharidoses: results of a consensus procedure. *Mol Genet Metab.* 2017; 121(2):70-9.
 40. Ahmed A, Whitley CB, Cooksley R, Rudser K, et al. Neurocognitive and neuropsychiatric phenotypes associated with the mutation L238Q of the α -L-iduronidase gene in Hurler-Scheie syndrome. *Mol Genet Metab.* 2014; 111(2):123-7.
 41. Shapiro EG. Longitudinal studies of brain structure and function in MPS disorders: a study of the lysosomal disease network. *Mol Genet Metab.* 2010; 99(2):s34.
 42. Parini R, Deodato F, Di Rocco M, Lanino E, et al. Open Issues in Mucopolysaccharidosis type I-Hurler. *Orphanet J Rare Dis.* 2017; 12(1):112.
 43. Aldenhoven M, Wynn R, Orchard P, O'Meara A, et al. Long-term outcome of Hurler Syndrome patients after hematopoietic cell transplantation: an international multicenter study. *Blood.* 2015; 125(13):2164-72.
 44. Martins AM, Dualibi AP, Norato D, Takata ET, et al. Guidelines for the Management of Mucopolysaccharidosis Type I. *J Pediatr.* 2009; 155(4 Suppl):S32-46.
 45. De Ru MH, Boelens JJ, Das AM, Jones SA, et al. Enzyme replacement therapy and/or hematopoietic stem cell transplantation at diagnosis in patients with mucopolysaccharidosis type I: results of a European consensus procedure. *Orphanet J Rare Dis.* 2011; 6:55.
 46. Boelens JJ, Prasad VK, Tolar J, Wynn RF, et al. Current international perspectives on hematopoietic stem cell transplantation for inherited metabolic disorders. *Pediatr Clin North Am.* 2010; 57(1):123-45.
 47. Aldenhoven M, Jones S, Bonney D, Borrill RE, et al. Hematopoietic cell transplantation for Mucopolysaccharidosis patients is safe and effective: Results after implementation of international Guidelines. *Biol Marrow Transplant.* 2015; 21(6):1106-9.
 48. Boelens JJ, Aldenhoven M, Purtill D, Ruggeri A, et al. Outcomes of transplantation using various hematopoietic cell sources in children with Hurler syndrome after myeloablative conditioning. *Blood.* 2013; 121(19):3981-7.
 49. Poe MD, Chagnon SL, Escolar ML. Early treatment is associated with improved cognition in Hurler syndrome. *Ann Neurol.* 2014; 76(5):747-53.
 50. Aldenhoven M, Boelens JJ, De Koning T. The clinical outcome of Hurler syndrome after stem cell transplantation. *Biol Blood Marrow Transplant.* 2008; 14(5):485-98.
 51. Wynn RF, Wraith JE, Mercer J, O'Meara A, et al. Improved metabolic correction in patients with lysosomal storage disease treated with hematopoietic stem cell transplant compared with enzyme replacement therapy. *J Pediatr.* 2009; 154(4):609-11.
 52. Eisengart JB, Rudser KD, Tolar J, Orchard PJ, et al. Enzyme replacement is associated with better cognitive outcomes after transplant in Hurler syndrome. *J Pediatr.* 2013; 162(2):375-80.e1.
 53. Gabrielli O, Clarke LA, Ficcadenti A, Santoro L, et al. 12 year follow up of enzyme-replacement therapy in two siblings with attenuated mucopolysaccharidosis I: the important role of early treatment. *BMC Med Genet.* 2016; 17:19.
 54. Yano S, Moseley K, Pavlova Z. Postmortem studies on a patient with mucopolysaccharidosis type I: histopathological findings after one year of enzyme replacement therapy. *J Inherit Metab Dis.* 2009; 32(Suppl 1):S53-7.
 55. Pasad VK, Kurtzberg j. Transplant outcome in mucopolysaccharidoses. *Semin Hematol.* 2010; 47(1):59-69

New recommendations for the care of patients with mucopolysaccharidosis type I

Luisa Bay, M.D.^a, Hernán Amartino, M.D.^b, Alejandra Antacle, M.D.^c, Claudia Arberas, M.D.^d, Adriana Berretta, M.D.^e, Hugo Botto, M.D.^f, Mariana Cazalas, M.D.^g, Adriana Copiz, B.S.^h, Carmen De Cunto, M.D.ⁱ, Guillermo Drelichman, M.D.^j, Graciela Espada, M.D.^k, Hernán Eiroa, M.D.^l, Alejandro Fainboim, M.D.^m, Virginia Fano, M.D.ⁿ, Norberto Guelber, M.D.^o, Alberto Maffey, M.D.^p, Claudio Parisi, M.D.^q, Marcela Pereyra, M.D.^r, Rodrigo Remondino, M.D.^s, Andrea Schenone, Pharmacist^t, Norma Spécola, M.D.^u, Raquel Staciuk, M.D.^v and Graciela Zuccaro, M.D.^w

- a. Division of Inborn Errors of Metabolism, Hospital "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".
 b. Division of Pediatric Neurology, Mucopolysaccharidosis Clinic, Hospital Universitario Austral, Pilar, Buenos Aires.
 c. Pediatric Ophthalmology, Universidad Católica Argentina.
 d. Genetic Medicine Division, Hospital de Niños "Dr. Ricardo Gutiérrez", Autonomous City of Buenos Aires.
 e. Hospital Privado de Córdoba.
 f. Pediatric Airway Endoscopy, Hospital "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".
 g. Cardiology Division, Hospital de Niños "Dr. Ricardo Gutiérrez".
 h. Division of Audiology, Ear, Nose and Throat Department, Hospital de Niños "Dr. Ricardo Gutiérrez".
 i. Division of Pediatric Rheumatology, Service of Clinical Pediatrics, Department of Pediatrics of Hospital Italiano de Buenos Aires.
 j. Department of Hematology, Hospital de Niños "Dr. Ricardo Gutiérrez" and Fundación Favaloro.
 k. Department of Pediatric Rheumatology, Hospital de Niños "Dr. Ricardo Gutiérrez".
 l. Division of Inborn Errors of Metabolism, Hospital "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".
 m. Coordinator at the Multipurpose Day Hospital, Hospital de Niños "Ricardo Gutiérrez".
 n. Department of Growth and Development, Hospital "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".
 o. Department of Metabolic Disorders, Clínica Universitaria Reina Fabiola.
 p. Respiratory Diseases Center, Hospital de Niños "Dr. Ricardo Gutiérrez".
 q. Division of Pediatric and Adult Allergy, Hospital Italiano de Buenos Aires. Coordinator of the Food Allergy Task Force, International Life Sciences Institute (ILSI) Argentina.
 r. Growth and Development, referral center in the field of Inborn Errors of Metabolism in Mendoza, Hospital Pediátrico "Dr. H. J. Notti de Mendoza".
 s. Spinal Disease, Hospital "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".
 t. Dr. Chamoles Laboratory.
 u. Unit of Metabolism, Hospital Sor María Ludovica, La Plata.
 v. Department of Bone Marrow Transplant, Hospital "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".
 w. Neurosurgery, Universidad de Buenos Aires (UBA), Department of Neurosurgery, Hospital "Prof. Dr. Juan P. Garrahan," Past President of the International Society of Pediatric Neurosurgery (ISPN), awarded with the Latin American Federation of Neurosurgical Societies (Federación Latinoamericana de Sociedades de Neurocirugía, FLANC) medal of honor in 2018.

E-mail address:
Luisa Bay, M.D.: bay.luisa@gmail.com

Funding: None.

Conflict of interest:
Doctors Luisa Bay, Norberto Guelber, Alejandro Fainboim, Norma Spécola, Guillermo Drelichman, and Marcela Pereyra have received professional fees from Sanofi for conducting teaching activities about lysosomal storage diseases.

Received: 7-21-2020
Accepted: 10-20-2020

ABSTRACT

Considering the advances made on mucopolysaccharidosis type I after the consensus study published by a group of experts in Argentina in 2008, recommendations about genetic testing, cardiological follow-up, airway care, hearing impairment detection, spinal and neurological conditions, as well as current treatments, were reviewed. Emphasis was placed on the need for early diagnosis and treatment, as well as an interdisciplinary follow-up.

Key words: *mucopolysaccharidosis type I, classification, treatment, diagnosis, follow-up.*

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.e121>

To cite: Bay L, Amartino H, Antacle A, Arberas C, et al. New recommendations for the care of patients with mucopolysaccharidosis type I. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e121-e128.

INTRODUCTION

In 2008, a consensus study was published about the diagnosis and treatment of mucopolysaccharidosis type I (MPS I) in Argentina.¹ Time elapsed regarding the treatment and follow-up in our setting and in the world underscores the need to review the recommendations about some aspects of the disease.

Clinical forms

MPS I patients were classified according to the degree of severity into three clinical forms: Hurler, Hurler-Scheie, and Scheie. At present, this disease has been classified into severe form (SF), formerly called Hurler syndrome, and attenuated form (AF), which comprises the Hurler-Scheie and Scheie syndromes.¹

Genetics

MPS I is an autosomal recessive disease whose genetic heterogeneity partly accounts for its clinical heterogeneity. The responsible gene is *IDUA*, which contains 14 exons and is localized on the 4p16.3 chromosomal locus. Today, close to 100 mutations are known, and 20 of them are involved in 85 % to 90 % of cases.

In 90 % to 95 % of the cases, the mutations are identified by complete sequencing, since it is not possible to identify them using simpler techniques. There are missense (AF), nonsense (SF), and deletion mutations.

In the SFs, the most frequent mutations are W402X (45 %) and Q70X (16 %), both in homozygosity. In the AFs, heterozygous variants combined with one of them may be found.

The clinical form cannot be determined by enzyme assays or biochemical markers. The genotype-phenotype correlation may be especially helpful in newborn infants.

Out of 538 MPS I cases in the international registry, 67.6 % of the 380 SFs had mutations that allowed predicting the phenotype.² Every diagnosed patient should receive genetic counseling.

Cardiovascular assessment

Between 88 % to 93 % of the patients with SFs and AFs have cardiac manifestations^{3,4} (Table 1). Available treatments prolong survival, but coronary heart disease and valve

diseases occur despite treatment^{5,6} causing a high morbidity and mortality. Fifty percent of patients with the SF die because of a cardiac cause.⁷⁻⁹

Valve abnormalities were reported in 35 % of Latin American patients with the SF and 54 % with the AF, versus 73 % and 87 % in the rest of the world. This difference might be related to a regional phenotype or to the way the diagnostic assessment is performed.¹⁰

The following is recommended for cardiological diagnosis and management:

- Cardiovascular examination, electrocardiogram (for abnormal heart rhythm) and baseline echocardiograms.
- In the follow-up:¹¹⁻¹³ Echocardiogram every 1 to 2 years if there are no abnormalities or if these are mild. Every 6 months or more frequently when there are moderate to severe conditions.

- Holter monitoring, only indicated for palpitations or ECG picked-up arrhythmias.
- Cardiopulmonary exercise testing; difficult to perform due to skeletal abnormalities; no studies support its use.
- For suspected coronary artery disease, multislice computed tomography, myocardial perfusion, and CT angiogram or MR angiography are performed when the disease of great vessels is suspected.
- In the future, it will be necessary to determine the vascular risk, calculating the vascular age with a Doppler echocardiogram of the neck vessels and the pulse wave velocity.¹¹

Airway assessment

Large airway obstruction is a serious problem.¹⁴ The hypertrophy of palatine tonsils and adenoids results in snoring, obstruction, and

TABLE 1. Most important cardiac manifestations

Cardiac condition	Frequency	Manifestation	Diagnosis and follow-up	Modifications with treatment
Mitral/aortic valve disease	Mitral valve disease is more frequent.	Regurgitation and stenosis.	Echocardiogram (57 % has normal auscultation). Concerning patients with attenuated forms, 14 % would require valve replacement.	HSCT and ERT neither modify nor stop progression.
Myocardial involvement	Very frequent in severe forms.	Hypertrophy (83 %). Dilated cardiomyopathy. Diastolic dysfunction in 50 %.	Echocardiogram. Electrocardiogram: hypertrophy is not shown due to the low conductivity of glycosaminoglycans.	HSCT and ERT improve hypertrophy and ventricular function.
Coronary involvement	Less frequent than in other mucopolysaccharidoses.	Diffuse compromise with ischemia leading to a dilated cardiomyopathy.	Multislice CT and myocardial perfusion for the diagnosis. Electrocardiogram: no evidence of ischemia.	The effect of the HSCT and ERT on the coronary lesion will depend on the previous severity of this condition. Other publications state that this does not have an influence.
Arterial involvement	Dilation of the aortic root in 38 % of the severe forms. Arterial hypertension in 32 % of patients.	Attenuated types of stenosis. Lower limb pain and claudication. HTN: involvement of the renal arteries.	BP monitoring. Clinical suspicion. Echocardiogram and arterial Doppler ultrasound.	No data available.
Pulmonary hypertension	Rare.	Dyspnea. High morbidity and mortality.	Echocardiogram.	No data available.
Endothelial dysfunction	Increased risk in MPS I.	In adolescents and pre-adolescents, vascular age is equivalent to that of a 40-year-old individual.	Neck-vessel Doppler ultrasound.	Decreases with ERT and HSCT although endothelial function is not recovered.

HSCT: hematopoietic stem cell transplantation; ERT: enzyme replacement therapy; HTN: arterial hypertension; BP: blood pressure; MPS I: mucopolysaccharidosis type I.

obstructive sleep apneas. They should be studied with sleep polysomnography and lateral neck X-ray in sniffing position.^{15,16}

Tonsillectomy and adenoidectomy improve ventilation and the deleterious effect of nocturnal hypoxia on the central nervous system (CNS) and other organs. It should be done carefully because of possible cardiac complications, added to the presence of subglottic infiltrates.¹⁷

With increasing age, scoliosis and thoracic stiffness develop, together with restrictive ventilatory impairment. Glycosaminoglycan accumulation on the tracheal and bronchial walls worsens the obstructive ventilatory impairment, so a tracheostomy may be required.¹⁸ Lung interstitial infiltration in the newborn infant has been described.¹⁹ Difficult airways should be evaluated before surgery, as a tracheostomy can prevent post-operative complications.^{20,21}

Audiological evaluation

Recurrent diseases of the middle ear are frequent and early. Repeated abnormal hearing screening tests might lead to the suspicion of mucopolysaccharidosis. If there is progressive hearing loss, it should be re-assessed at 6, 9, and 12 months.

Hearing loss is of conductive or mixed type and some cases progress to neurosensory type. Glycosaminoglycan deposits occur first in the tympanic membrane, then in the inner ear, and finally at a central level.

When there is a moderate to severe conductive hearing impairment, the ear canal must be stimulated to preserve the quality of communication. Severe conduction impairment no longer has an indication for treatment.

The indication for hearing aids, cochlear and osseointegrated implant processors depends on the patient's hearing level and overall commitment. An audiological evaluation should include subjective or behavioral tests for the diagnostic confirmation.²²

Spinal health

An anterior and medial defect of the vertebral body, the classic platyspondyly aspect with the presence of an anterior peak or notch, because of an incomplete endochondral ossification of the vertebral body,^{23,24} trapezoid- or wedged-shaped vertebrae,²³ large intervertebral discs in relation to the hypoplastic vertebrae, the presence of a posterior intracanal bulging,^{26,27} and spinal canal stenosis at different levels are observed. Cervical

pathology is less frequent in type I than in types IV and VI. Hypoplasia of the odontoid process,²⁵ in some cases, associated with atlantoaxial cervical instability, is detected in the cervical radiographic pair, in maximum flexion and extension.

Progressive kyphoscoliosis leads to decompensation of the trunk, instability, and potential neurological compromise.^{28,29} Patients range from being asymptomatic to presenting neurological involvement secondary to spinal cord compression.^{30,31}

Out of the 42 operated patients (assisted at Hospital Garrahan) with mucopolysaccharidosis of different types (IV, VI, and I), 55 % had neurological involvement. Twenty five percent had odontoid hypoplasia; 21 %, atlantoaxial instability; and 21 %, narrowing of the cervical spinal canal due to glycosaminoglycan deposits.

If cervical stenosis is suspected at the time of the clinical examination, radiographic studies, static magnetic resonance and preoperative CT scans should be performed. A specialized assessment is required.³² Somatosensory and motor evoked potentials, sometimes urodynamic testing and polysomnographic evaluations are also performed.

Surgery is performed by releasing compressions and preserving the neurological structures, using subsequent decompression techniques, mostly associated with arthrodesis.³² Prophylactic versus therapeutic fusions are controversial. Surgery should be done at an early stage when indicated.³³

The most frequent deformity is kyphosis with apex at the L1 or L2 region, followed by scoliosis, or combined. In children under 7 years of age with kyphoscoliosis and curves with an angle of less than 50 degrees, a custom-made thermoplastic thoracolumbosacral orthosis is used, 22 hours per day, which allows practising physical activity or sports if there is no spinal risk at the cervical or thoracolumbar level. For older ages, with curves between 50 and 70 degrees or more, instrumental fusions are indicated at a later stage. With a deformity associated with spinal stenosis and neurological deficit, a double approach is used (anterior decompression and arthrodesis + posterior instrumental fusion). The surgical team includes highly qualified anesthesiologist and neurophysiologist.

Neurological manifestations

MPS I has a progressive involvement of the central (CNS) and peripheral nervous systems (PNS), which varies according to the clinical form.

They include cognitive impairment, behavioral problems, sleep disorders, hydrocephalus and spinal cord compression; root, peripheral nerve and cranial nerve entrapment.

Cognitive impairment

In the SF, after a period of normal development, a stagnation occurs between the first and second year of life, followed by a fast cognitive deterioration.³⁴⁻³⁶ Approximately 20 intellectual quotient (IQ) points are lost per year.³⁷ Neurodegeneration involves heparan sulfate deposit, which acts as a matrix of neuroinflammation and overexpression of gangliosides with a neurotoxic effect, which induces ectopic dendritogenesis and abnormal synaptogenesis.³⁸

The AFs are not entirely free of cognitive developmental problems. For every year that treatment is delayed, there will be 9 IQ points less.³⁹ Some mutations (L238Q) favor late psychiatric manifestations, such as self-isolation and depression.⁴⁰

There are no biomarkers to determine the presence of neurodegeneration. This is measured by formal cognitive assessment over time. Up to age 3, it is recommended to use the Bayley-III scale, which provides age-equivalent scores. For those over 3 years old, IQ can be measured with the Wechsler scales. For the adaptive behavior, the Vineland scale is recommended for all ages.³⁴

Early hearing impairment can, *per se*, affect language. New functional neuroimaging and their correlation with higher mental functions are still being studied.⁴¹ For a better long-term cognitive prognosis in the SFs, early transplantation should be indicated.⁴²

Hydrocephalus

Hydrocephalus is a relatively frequent complication in mucopolysaccharidoses, especially in MPS I and II, and, together with glycosaminoglycan deposits in the different planes, it contributes to macrocephalus. It presents with slow neurological disorders, progressive deterioration, and rarely, papilledema, headache, and vomiting.

From 80 % to 85 % of cases are communicating.⁴³ The dynamics of cerebrospinal fluid (CSF) circulation is altered by glycosaminoglycan deposit with obstruction of the subarachnoid spaces and Pacchionian granulations, with reduction of the venous drainage.

In children, it is corrected when required, with ventriculoperitoneal, ventriculoatrial or lumboperitoneal shunts to shorten the subcutaneous path. The accumulation of glycosaminoglycans can predispose to blockage of the shunt.

Glycosaminoglycan deposits in the white matter and basal ganglia promotes tissue destruction, compression of the parenchymal vessels, dilation of the perivascular and subarachnoid spaces, which leads to cerebral atrophy with passive dilation of the ventricles and mimics hydrocephalus. This one does not require treatment.

Spinal cord compression

Glycosaminoglycan deposits in the dura mater and ligaments causes spinal cord compression and myelopathy. Early detection and surgical correction prevents irreversible damage of the spinal cord. Initial, mild, insidious signs (progressive weakness, clumsiness, fatigue, hyperreflexia, pain, and paresthesias) may be confused with signs of osteoarticular diseases.^{37,38}

Diagnosis

It is performed by showing in the patient with suggestive signs and symptoms, the deficiency of the enzyme alpha-L-iduronidase in purified leukocytes or blood drops on filter paper. Newborn screening can also be performed.^{1,8,9}

The methods available today make it unnecessary to measure enzyme activity in fibroblast culture. *Table 2* shows the advantages and limitations of the available biochemical methods. The molecular study is not essential for diagnosis, but it is necessary to indicate the treatment.

Available treatments

The specific treatments are allogeneic hematopoietic stem cell transplantation (HSCT) or enzyme replacement therapy (ERT). The European consensus forwards the treatment decision-making to a team of experts, which is an excellent recommendation to be applied in our setting.⁴⁴

HSCT is the treatment of choice for the SF to replace the defective monocytic-macrophage system with that of the donor, which secretes the missing enzyme. Offered at < 2 years and with an IQ > 70, it can stop progressive neurocognitive deterioration and damage to other organs.^{8,44} Those older than 2 years and with IQ < 70 have poor benefit from HSCT.

Age is the most important outcome measure. By transplanting before 12 months of age, the best cognitive prognosis is achieved and, before 9 months, the neurocognitive development achieved may be normal.^{42,45-48}

Since the first HSCT performed in 1981 to date, more than 500 patients have been transplanted. In Argentina, between 2009 and 2018, 17 patients underwent 20 HSCT* (* data provided by the National Institute for Organ and Tissue Procurement for Transplantation [Instituto Nacional Central Único Coordinador de Ablación e Implante, INCUCAI]).

About 25 % will have a related donor; the rest will require an international registry search.

There may be a graft loss of up to 30 %, but busulfan-based myeloablative conditioning has improved this figure. With the busulfan/fludarabine regimen, survivals > 90 % have been reported.^{42,44,45,49}

Five-year overall survival (OS) rate ranges from 74 % to 95 %, and event-free survival from 63 % to 90 %, depending on the type of donor and the sources of hematopoietic stem cells used for the transplantation.^{46,47} Transplant-related

TABLE 2. Diagnostic methods

Type of sample	Advantages	Limitations
Glycosaminoglycans in urine		
Quantitative Glycosaminoglycan concentration in urine measured and corrected to urinary creatinine levels.	<ul style="list-style-type: none"> • 24-hour urine test • It is useful as a screening method for those mucopolysaccharidoses with high glycosaminoglycan levels in urine. • The test can be used to monitor the course of the disease or the response to treatment. 	<ul style="list-style-type: none"> • Non-specific for heparan and dermatan sulfate. • Some patients may excrete normal or slightly increased amounts of glycosaminoglycans. • Cut-off levels should be set according to the patient's age. Glycosaminoglycan concentration decreases as the patient's age increases. • Results can be false positive if urine has a high creatinine level or negative if urine is very diluted. • The sample is difficult to obtain in patients who do not have sphincter control (young children or those with mental retardation). • Sample delivery to a referral center. • A negative test may result in a patient not being studied further.
Qualitative It specifically identifies the type of glycosaminoglycans present in the urine, which allows classifying the type of mucopolysaccharidosis the patient may have.	<ul style="list-style-type: none"> • 24-hour urine test • A specific pattern of excretion can be observed or different mucopolysaccharidoses even in cases where glycosaminoglycan quantification was normal. 	<ul style="list-style-type: none"> • The profile obtained does not allow to tell the difference between MPS I and II. • The sample is difficult to obtain in patients who do not have sphincter control (young children or those with mental retardation). • A specialized laboratory is required to perform this assay.
Alpha-L-iduronidase enzyme activity assay		
Leukocytes	<ul style="list-style-type: none"> • 10 mL of heparinized blood. • Highly sensitive and specific method. • Once the sample is conditioned, it can be stored for a long time. 	<ul style="list-style-type: none"> • The sample must be delivered at the laboratory within 24 hours of being obtained. • The required sample volume is high, especially in pediatric patients. • A specialized laboratory is required to perform this assay.
Fibroblasts	<ul style="list-style-type: none"> • Skin biopsy. • Multiple assays can be performed in the same specimen. • Once the sample is conditioned, it can be stored for a long time. 	<ul style="list-style-type: none"> • Invasive specimen collection method. • The development of the fibroblast culture requires weeks to be able to do the enzyme assay, which delays the result. • Transportation might affect the sample. • A specialized laboratory is required to perform this assay.
BDFP	<ul style="list-style-type: none"> • Filter paper soaked in whole blood (the same that is used for newborn screening). • Minimally-invasive sample collection. • Easy transportation. • Multiple assays can be performed in the same specimen. • Allows for large-scale testing. • Good correlation of results obtained in leukocytes. 	<ul style="list-style-type: none"> • A specialized laboratory is required to perform this assay. • Results obtained should be confirmed in leukocytes or by genetic testing.

BDFP: blood drop on filter paper.

mortality ranges from 10 % to 25 %, mainly due to viral infectious causes, graft versus host disease (GVHD), pulmonary complications, bleeding, and multiple organ failure.^{46,49}

Cord blood (CB) stem cells have been shown to be more likely to achieve donor chimerism ($p = 0.39$) and normal enzyme levels ($p = 0.07$) (92 % and 98 %, respectively) compared to other sources. OS with CB (identity 6/6), of 81 %, is comparable to the related identical donor transplantation. It would be a preferential source because of the rapid availability and larger population of primitive hematopoietic stem cells. The period of aplasia is longer, with the consequent higher risk of viral reactivations, and only one donation per donor is feasible. Results obtained with CB (OS ~90 %) are better than those obtained with bone marrow or peripheral blood stem cells. They could be influenced by supportive care, conditioning, and high degree of compatibility since they are from the last decade.^{45-47,49}

Options for a HSCT would be as follows:

1. Related identical donor (sibling, with molecular studies).
2. Unrelated donor (URD) 10/10 or CB 6/6 (high-resolution human leukocyte antigen, HLA).

Enzyme activity reaches values comparable to those of the donor in the first 3 months. Approximately 50 % of the normal value is achieved with a carrier donor and 100 % with an unaffected donor.⁴⁹

Compromise of some organs might persist depending on the previous disease burden. Hepatosplenomegaly, ventilatory symptoms, and myocardial hypertrophy improve, although valve alterations may persist. Corneal opacity improves, but retinal degeneration may occur. Hearing also improves, even though a neurosensorial component may be present.

Short stature will remain. Skeletal dysplasia persists. It improves odontoid dysplasia and cervical stability, joint mobility of the upper limbs, more than that of the lower limbs. There may be delayed puberty and reduced fertility.^{42,43,46} Cognitive impairment improves 6-12 months after transplantation because it requires the presence of donor macrophages transporting microglial enzymes and the replacement turnover rate is slow.^{42,45,49,50}

Long-term prognosis of a HSCT depends on age, baseline clinical status, and complete chimerism. Early diagnosis, timely referral, and

rapid admission to experienced transplant centers are critical.^{42,45,49,50} Follow-up should be done by a multidisciplinary and interdisciplinary team, with active participation of the transplant team during, at least, 1 year.

ERT with recombinant human laronidase is for AFs, not for SFs, because it does not cross the blood-brain barrier (BBB).⁴⁵ The best treatment outcome depends on age, severity, and each patient's degree and type of clinical compromise.⁴⁵

With a HSCT, compared to an ERT, a better metabolic control is obtained.⁵¹ It does not improve CNS, bone, heart valves or corneal conditions. Pre-transplant ERT improves respiratory function and cardiomyopathy. It does not increase the risk for developing immune-mediated reactions nor it negatively affects the graft nor promotes GVHD. An improvement of cognitive functions was reported in relation to post-transplant ERT, probably because of the improvement of the other clinical manifestations.⁵²

ERT modifies the natural history of the disease in the AFs, improves hepatosplenomegaly, skin thickness, respiratory function, and cardiomyopathy, but does not reverse the abnormal range of the already established joint mobility problems and conditions, such as dysostosis, valve disease, and corneal opacity. Early ERT in the AFs, before the establishment of the inflammatory cascade after the glycosaminoglycan deposit, prevents the occurrence of some of these manifestations. The indication differs, then, from the criteria established in 2008 to treat the AFs.¹ The sooner it starts, the better.

A better course was reported with the 12 year follow-up of a patient who was administered ERT at 5 months old, compared to his sister who started treatment at 5 years old. The younger brother maintained normal facies and fewer skeletal, joint, and myocardial lesions; he was in the 97th percentile, and his sister in the 10th percentile, and reached an IQ of 100, while his sister reached 70.⁵³ ERT benefit appears minimal in non-transplanted patients with SFs.⁵⁴ It is suggested that a group of experts should evaluate this indication on an individual basis.⁵⁵

CONCLUSIONS

Early diagnosis and treatment modify the course of the disease. Ideally, an interdisciplinary team should be in charge of the follow-up. ■

REFERENCES

- Grupo de trabajo de enfermedades poco frecuentes. Consenso de diagnóstico y tratamiento de la mucopolisaccharidosis tipo I. *Arch Argent Pediatr*. 2008; 106(4):361-8.
- Clarke LA, Giugliani R, Guffon N, Jones SA, et al. Genotype-phenotype relationships in mucopolysaccharidosis type I (MPS I): Insights from the International MPS I Registry. *Clin Genet*. 2019; 96(4):281-9.
- Izumi Y, Saito T, Sato S, Shimizu W. Myocardial Alterations in a Patient with Mucopolysaccharidosis Type I. *Eur Heart J*. 2018; 39(21):1863.
- Soliman OL, Timmermans RG, Nemes A, Vletter WB, et al. Cardiac abnormalities in adults with the attenuated form of mucopolysaccharidosis type I. *J Inherit Metab Dis*. 2007; 30(5):750-7.
- Watanabe N, Anagnostopoulos PV, Azakie A. Aortic stenosis in a patient with Hurler's syndrome after bone marrow transplantation. *Cardiol Young*. 2011; 21(3):349-50.
- Robinson CR, Roberts WC. Outcome of Combined Mitral and Aortic Valve Replacement in Adults with Mucopolysaccharidosis (the Hurler Syndrome). *Am J Cardiol*. 2017; 120(11):2113-8.
- Dangel JH. Cardiovascular Changes in Children with Mucopolysaccharide Storage Diseases and Related Disorders-Clinical and Echocardiographic Findings in 64 Patients. *Eur J Pediatr*. 1998; 157(7):534-8.
- Muenzer J, Wraith E, Clarke LA. Mucopolysaccharidosis I: management and treatment guidelines. *Pediatrics*. 2009; 123(1):19-29.
- Martins AM. Introduction to Brazilian Guidelines to diagnosis, treatment, and monitoring for Gaucher disease, Fabry disease, Mucopolysaccharidosis I, and Pompe disease. *J Pediatr*. 2009; 155(4 Suppl):S9.
- Muñoz-Rojas MV, Bay L, Sanchez L, Van Kuijk M, et al. Clinical manifestations and treatment of mucopolysaccharidosis type I patients in Latin America as compared with the rest of the world. *J Inherit Metab Dis*. 2011; 34(5):1029-37.
- Kelly AS, Metzger AM, Steinberger J, Braunlin EA. Endothelial function in children and adolescents with mucopolysaccharidosis. *J Inherit Metab Dis*. 2013; 36(2):221-5.
- Wang R Y, Rudser KD, Dengel DR, Braunlin EA, et al. The Carotid Intima-Media Thickness and Arterial Stiffness of Pediatric Mucopolysaccharidosis Patients are Increased Compared to Both Pediatric and Adult Controls. *Int J Mol Sci*. 2017; 18(3):637.
- Leal GN, DePaula AC, Leone C, Kim CA. Echocardiographic study of paediatric patients with mucopolysaccharidosis. *Cardiol Young*. 2010; 20(3):254-61.
- Moretto A, Bosatra MG, Marchesini L, Tesoro S. Anesthesiological risks in mucopolysaccharidoses. *Ital J Pediatr*. 2018; 44(Suppl 2):116.
- Solaiman SS, Rifkin DS, Rao H. Sleep Apnea in Hurler Syndrome: Looking Beyond the Upper Airway. *J Clin Sleep Med*. 2016; 12(10):1423-4.
- Wooten WI 3rd, Muenzer J, Vaughn BV, Muhlebach MS. Relationship of Sleep to Pulmonary Function in Mucopolysaccharidosis II. *J Pediatr*. 2013; 162(6):1210-5.
- Semenza GL, Pyeritz RE. Respiratory complications of mucopolysaccharide storage disorders. *Medicine (Baltimore)*. 1988; 67(4):209-19.
- Marcus CL. Sleep-disordered breathing in children. *Am J Respir Crit Care Med*. 2001; 164(1):16-30.
- Bush D, Sremba L, Lomax K, Lipssett J, et al. Neonatal Onset of Interstitial Lung Disease as a Primary Presenting Manifestation of Mucopolysaccharidosis Type I. *JIMD Rep*. 2019; 43:71-7.
- Allen JL. Treatment of respiratory system (not just lung!) abnormalities in mucopolysaccharidosis I. *J Pediatr*. 2004; 144(5):561-2.
- Shinhar SY, Zablocki H, Madgy DN. Airway management in mucopolysaccharide storage disorders. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2004; 130(2):233-7.
- Gökdoğan Ç, Altinyay Ş, Gökdoğan O, Tutar H, et al. Audiologic evaluations of children with mucopolysaccharidosis. *Braz J Otorhinolaryngol*. 2016; 82(3):281-4.
- White KK. Orthopaedic aspects of mucopolysaccharidoses. *Rheumatology (Oxford)*. 2011; 50(Suppl 5):v26-33.
- Field RE, Buchanan JAF, Copplemans MGJ, Aichroth PM. Bone marrow transplantation in Hurlers syndrome: effect on skeletal development. *J Bone Joint Surg Br*. 1994; 76(6):975-81.
- Langer L Jr, Carey L. The roentgenographic features of the KS mucopolysaccharidosis of Morquio (Morquio-Brailsford's disease). *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med*. 1966; 97(1):1-20.
- Swischuk LE. The beaked, notched, or hooked vertebra: Its significance in infants and young children. *Radiology*. 1970; 95(3):661-4.
- Tandon V, Williamson JB, Cowie RA, Wraith JE. Spinal problems in mucopolysaccharidosis I (Hurler syndrome). *J Bone Joint Surg Br*. 1996; 78(6):938-44.
- Holte DC, Rogers MA, Ransford AO, Crockard HA, et al. Thoracic spinal cord compression in Morquio-Brailsford's disease: Report of a case and review of the literature. *Neuro-Orthopaedics*. 1994; 16:31-7.
- Kulkarni MV, Williams JC, Yeakley JW, Andrews JL, et al. Magnetic resonance imaging in the diagnosis of the cranio-cervical manifestations of the mucopolysaccharidoses. *Magn Reson Imaging*. 1987; 5(5):317-23.
- Hughes DG, Chadderton RD, Cowie RA, Wraith JE, et al. MRI of the brain and craniocervical junction in Morquio's disease. *Neuroradiology*. 1997; 39(5):381-5.
- Ransford A, Crockard H, Stevens J, Modagheh S. Occipitoatlanto-axial fusion in Morquio-Brailsford Syndrome. *J Bone Joint Surg Br*. 1996; 78(2):307-13.
- Kachur E, Del Maestro R. Mucopolysaccharidosis and spinal cord compression: case report and review of the literature with implications of bone marrow transplantation. *Neurosurgery*. 2000; 47(1):223-9.
- Sostrin RD, Hasso AN, Peterson DI, Thompson JR. Myelographic features of mucopolysaccharidosis: a new sign. *Radiology*. 1977; 125(2):421-4.
- Shapiro EG, Escolar ML, Delaney KA, Mitchell JJ. Assessments of neurocognitive and behavioral function in the mucopolysaccharidoses. *Mol Genet Metab*. 2017; 122(Suppl:8):16.
- Shapiro EG, Nestrasil I, Rudser K, Delaney K, et al. Neurocognition across the spectrum of mucopolysaccharidosis type I: age, severity, and treatment. *Mol Genet Metab*. 2015; 116(1-2):61-8.
- Krivit W, Peters C, Shapiro EG. Bone marrow transplantation as effective treatment of central nervous system disease in globoid cell leukodystrophy, metachromatic leukodystrophy, adrenoleukodystrophy, mannosidosis, fucosidosis, aspartylglucosaminuria, Hurler, Maroteaux-Lamy and Sly syndromes, and Gaucher disease type III. *Curr Opin Neurol*. 1999; v12(2):167-76.
- Krenzlín H, Ta-Chih T, Lampe C, Knuf M, et al. Stand-alone craniocervical decompression is feasible in children with MPS type I, IVA and VI. *Spine J*. 2018; 18(8):1455-9.
- Vitner EB, Platt FM, Futerman AH. Common and

- uncommon pathogenic cascades in lysosomal storage diseases. *J Biol Chem.* 2010; 285(27):20423-7.
39. Van der Lee JH, Morton J, Adams HR, Clarke L, et al. Cognitive endpoints for therapy development for neuronopathic mucopolysaccharidoses: results of a consensus procedure. *Mol Genet Metab.* 2017; 121(2):70-9.
 40. Ahmed A, Whitley CB, Cooksley R, Rudser K, et al. Neurocognitive and neuropsychiatric phenotypes associated with the mutation L238Q of the α -L-iduronidase gene in Hurler-Scheie syndrome. *Mol Genet Metab.* 2014; 111(2):123-7.
 41. Shapiro EG. Longitudinal studies of brain structure and function in MPS disorders: a study of the lysosomal disease network. *Mol Genet Metab.* 2010; 99(2):s34.
 42. Parini R, Deodato F, Di Rocco M, Lanino E, et al. Open Issues in Mucopolysaccharidosis type I-Hurler. *Orphanet J Rare Dis.* 2017; 12(1):112.
 43. Aldenhoven M, Wynn R, Orchard P, O'Meara A, et al. Long-term outcome of Hurler Syndrome patients after hematopoietic cell transplantation: an international multicenter study. *Blood.* 2015; 125(13):2164-72.
 44. Martins AM, Dualibi AP, Norato D, Takata ET, et al. Guidelines for the Management of Mucopolysaccharidosis Type I. *J Pediatr.* 2009; 155(4 Suppl):S32-46.
 45. De Ru MH, Boelens JJ, Das AM, Jones SA, et al. Enzyme replacement therapy and/or hematopoietic stem cell transplantation at diagnosis in patients with mucopolysaccharidosis type I: results of a European consensus procedure. *Orphanet J Rare Dis.* 2011; 6:55.
 46. Boelens JJ, Prasad VK, Tolar J, Wynn RF, et al. Current international perspectives on hematopoietic stem cell transplantation for inherited metabolic disorders. *Pediatr Clin North Am.* 2010; 57(1):123-45.
 47. Aldenhoven M, Jones S, Bonney D, Borrill RE, et al. Hematopoietic cell transplantation for Mucopolysaccharidosis patients is safe and effective: Results after implementation of international Guidelines. *Biol Marrow Transplant.* 2015; 21(6):1106-9.
 48. Boelens JJ, Aldenhoven M, Purtill D, Ruggeri A, et al. Outcomes of transplantation using various hematopoietic cell sources in children with Hurler syndrome after myeloablative conditioning. *Blood.* 2013; 121(19):3981-7.
 49. Poe MD, Chagnon SL, Escobar ML. Early treatment is associated with improved cognition in Hurler syndrome. *Ann Neurol.* 2014; 76(5):747-53.
 50. Aldenhoven M, Boelens JJ, De Koning T. The clinical outcome of Hurler syndrome after stem cell transplantation. *Biol Blood Marrow Transplant.* 2008; 14(5):485-98.
 51. Wynn RF, Wraith JE, Mercer J, O'Meara A, et al. Improved metabolic correction in patients with lysosomal storage disease treated with hematopoietic stem cell transplant compared with enzyme replacement therapy. *J Pediatr.* 2009; 154(4):609-11.
 52. Eisengart JB, Rudser KD, Tolar J, Orchard PJ, et al. Enzyme replacement is associated with better cognitive outcomes after transplant in Hurler syndrome. *J Pediatr.* 2013; 162(2):375-80.e1.
 53. Gabrielli O, Clarke LA, Ficcadenti A, Santoro L, et al. 12 year follow up of enzyme-replacement therapy in two siblings with attenuated mucopolysaccharidosis I: the important role of early treatment. *BMC Med Genet.* 2016; 17:19.
 54. Yano S, Moseley K, Pavlova Z. Postmortem studies on a patient with mucopolysaccharidosis type I: histopathological findings after one year of enzyme replacement therapy. *J Inherit Metab Dis.* 2009; 32(Suppl 1):S53-7.
 55. Pasad VK, Kurtzberg J. Transplant outcome in mucopolysaccharidoses. *Semin Hematol.* 2010; 47(1):59-69.

Síndrome de Saethre-Chatzen: a propósito de un caso

Saethre-Chatzen syndrome: a case report

Dra. Blanca Díez de los Ríos Quintanero^a, Dra. Eva Gracia Rojas^a, Dr. Roberto Ortiz Movilla^b, Prof. Dr. María J. Cabrejas Núñez^{c,d} y Prof. Dr. Miguel Á. Marín Gabriel^{b,e}

RESUMEN

El síndrome de Saethre-Chatzen es un síndrome malformativo craneofacial caracterizado por una sinostosis de las suturas coronales y alteraciones de extremidades. Tiene una prevalencia de 1 de cada 25 000-50 000 recién nacidos vivos. Se presenta el caso de un neonato sin antecedentes de interés con alteraciones craneofaciales al nacer. Ante los rasgos fenotípicos del paciente, se realizó una tomografía axial computada craneal, que mostró la fusión parcial de la sutura coronal y evidenció la presencia de huesos wormianos en localización metópica y lambdaoidea derecha. Con la sospecha clínica de síndrome malformativo craneofacial, se solicitó análisis del exoma dirigido, que confirmó que el paciente era portador heterocigoto de la variante patogénica c.415C>A, que inducía un cambio de prolina a treonina en la posición 139 del gen *TWIST1*, responsable del síndrome. La presencia de huesos wormianos, hallazgo no descrito hasta ahora en la literatura, amplía la variabilidad fenotípica conocida de este síndrome. **Palabras clave:** síndrome de Saethre-Chatzen, craneosinostosis, acrocefalosindactilia, *TWIST1*, huesos wormianos.

ABSTRACT

The Saethre-Chatzen syndrome is a craniofacial malformation syndrome characterized by synostosis of coronal sutures and limb anomalies. The estimated prevalence of this syndrome is 1 in 25 000-50 000 live births. We present a case report of a neonate, without relevant family history, who presented craniofacial alterations at birth. Given the phenotypic features, a cranial computed tomography scan was performed, showing partial fusion of the coronal suture, evidencing the presence

of wormian bones in the metopic and right lambdaoid location. With the clinical suspicion of craniofacial malformation syndrome, an analysis of the directed exome was requested confirming that the patient is a heterozygous carrier of the pathogenic variant c.415C>A, which induces a change of proline to threonine at position 139 of the *TWIST1* gene, responsible for Saethre-Chatzen syndrome.

The presence of wormian bones, a finding not described so far in the literature, extends the well-known phenotypic variability of this syndrome.

Key words: Saethre-Chatzen syndrome, craniosynostoses, acrocephalosyndactylia, *TWIST1*, wormian bones.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.e129>

Cómo citar: Díez de los Ríos Quintanero B, Gracia Rojas E, Ortiz Movilla R, Cabrejas Núñez MJ, Marín Gabriel MA. Síndrome de Saethre-Chatzen: a propósito de un caso. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e129-e132.

- Servicio de Pediatría, Hospital Universitario Puerta de Hierro-Majadahonda, Madrid, España.
- Unidad de Neonatología, Servicio de Pediatría, Hospital Universitario Puerta de Hierro-Majadahonda, Madrid, España.
- Servicio de Bioquímica Clínica-Genética Médica, Hospital Universitario Puerta de Hierro, Madrid, España.
- Universidad de Alcalá, Máster de Genética Médica.
- Universidad Autónoma de Madrid, Departamento de Pediatría.

Correspondencia:

Dr. Miguel Á. Marín Gabriel:
mangel.maringa@salud.madrid.org

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 15-4-2020

Aceptado: 9-10-2020

INTRODUCCIÓN

La craneosinostosis se define como la fusión prematura de una o más suturas craneales. Se puede clasificar en no sindrómica (aislada) o sindrómica, cuando va asociada a otras malformaciones o rasgos fenotípicos.¹ Dentro de este último grupo, se encuentra el síndrome de Saethre-Chatzen (SCS; OMIM # 101400), que se incluye, asimismo, dentro del grupo de las acrocefalosindactilias tipo 3, un conjunto de síndromes malformativos congénitos poco frecuentes caracterizados por presentar craneosinostosis coronal y sindactilia, asociado, a menudo, con otras anomalías fenotípicas muy variables entre sujetos, como asimetría facial, estrabismo, ptosis y pabellones auriculares característicos con prominencia del hélix.²⁻⁴

Tiene una prevalencia de 1 de cada 25 000-50 000 recién nacidos vivos.⁵ Su herencia es autosómica dominante, si bien puede manifestarse como una mutación *de novo*,⁶ y afecta a ambos sexos por igual.³ El diagnóstico definitivo es genético, y el tratamiento y seguimiento de estos pacientes ha de ser multidisciplinar.²

La existencia de diferentes variables fenotípicas hace difícil su diagnóstico.¹ Se presenta un caso clínico de este síndrome, en el que se describe por primera vez la presencia de huesos wormianos craneales. Este hallazgo radiológico,

no descrito hasta ahora en la literatura, amplía aún más la variabilidad fenotípica conocida del SCS.

CASO CLÍNICO

Se presenta el caso de un neonato a término de 41⁺⁴ semanas de edad gestacional con alteraciones craneofaciales al nacer. Como antecedentes personales, fue un embarazo controlado, primigesta, de curso normal. No presentaba antecedentes familiares de interés, con padres no consanguíneos, y tampoco historia de ingesta de tóxicos durante el embarazo. Nació tras una cesárea por desproporción pélvico-cefálica y tuvo un puntaje de Apgar (al minuto/cinco minutos) de 7/10, sin precisar reanimación. Al nacer, presentó un peso de 3314 g, una longitud de 50,5 cm y un perímetro cefálico de 33 cm.

En la exploración física, se observó plagiocefalia, turricefalia y asimetría facial, con frente abombada en la zona media y pliegue marcado en la zona del puente nasal. Asociaba cabello de implantación baja en la zona frontal, cejas finas y escasas, hipertelorismo, blefarofimosis, fisuras palpebrales de inclinación descendente y nariz corta con narinas antevertidas, región distal apuntada y *filtrum* largo. Los pabellones auriculares eran de implantación límite; el derecho, grande, redondeado, con plegamiento del hélix y raíz

del hélix malformada, concha ausente y ausencia de lóbulo (*Figuras 1 y 2*). El cuello era corto y no presentaba alteraciones claviculares. En las extremidades, se observó el primer dedo de ambos pies ancho, sin presencia de sindactilias (*Figura 3*).

Ante estos rasgos fenotípicos, se realizó, inicialmente, una ecografía trasfontanelar, que observó una fontanela anterior de localización muy anterior y una fontanela posterior localizada en el vértex, con sutura metópica ausente y presencia de hueso wormiano en su lugar. A continuación, se solicitó una tomografía axial computarizada (TAC) craneal, que demostró la fusión parcial de la sutura coronal y evidenció la presencia de huesos wormianos en localización metópica y lambdaoidea derecha (*Figura 4*).

Además, se realizó el despistaje de otras anomalías asociadas con ecografía abdominal, serie ósea y evaluación por Oftalmología, que fueron normales. Se realizó también la evaluación por Cardiología con ecocardiografía, en la que solo se observó un foramen oval permeable sin otras anomalías acompañantes.

Debido al amplio fenotipo del SCS y a la superposición de ciertos hallazgos clínicos con otros síndromes, se optó por el estudio de exoma dirigido (*next generation sequencing; NGS*, por sus siglas en inglés), de nuestro propio diseño, que incluyó 28 genes distintos, habitualmente,

FIGURA 1. Vista frontal: plagiocefalia, turricefalia y asimetría facial, con frente abombada en la zona media



Figura 2. Vista lateral: pabellones auriculares de implantación límite con prominencia del hélix



involucrados en craneosinostosis sindrómicas. Este análisis mostró un cambio en heterocigosis en el gen *TWIST1* (OMIM * 601622), que consistía en una transversión de una C por una A (c.415C>A) que, a nivel de la proteína, producía, presumiblemente, el cambio de la prolina de la posición 139 por una treonina (p.P139T). Este está clasificado en la base de datos HGMD (CM094901) como un cambio patogénico asociado al SCS, ya que ha sido identificado en un paciente como una variante *de novo*.⁷ Ninguno de los padres portaba dicha mutación, por lo que se trataba de esta mutación *de novo*.

Durante el seguimiento, se ha realizado el consejo genético e información a los progenitores. En la actualidad, el paciente mantiene seguimiento por Neurocirugía y Oftalmología para la evaluación de posibles complicaciones asociadas, y se encuentra asintomático y con un desarrollo psicomotor normal.

DISCUSIÓN

El SCS es una de las formas de craneosinostosis sindrómica más frecuentes. Fue descrito de forma independiente por dos psiquiatras: Haakon Saethre y Fritz Chotzen, con dos casos de aparente herencia familiar. Su inusual variabilidad fenotípica retrasó su definición 40 años, hasta la publicación de Panke et al., con la evaluación sistemática de

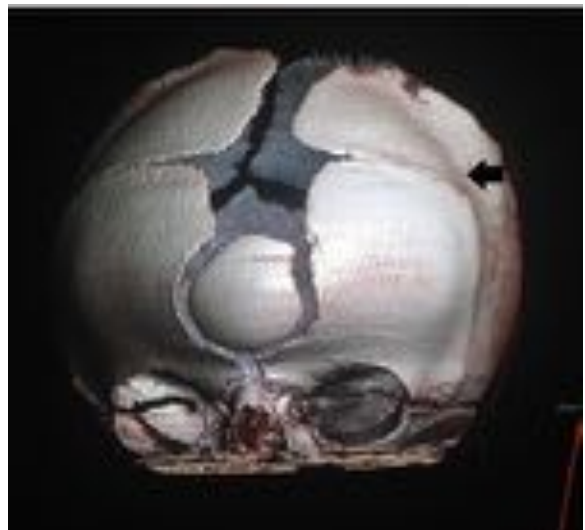
seis familias con SCS y la atribución a este de muchos síndromes previamente diagnosticados como otras craneosinostosis sindrómicas.⁸ Se caracteriza por una sinostosis unilateral o bilateral precoz de las suturas coronales, que genera acrocefalia y braquicefalia. En algunos casos, la craneosinostosis es asimétrica, lo que da lugar a plagiocefalia que ocurre hasta en un 25 % de casos.³ Estas alteraciones craneofaciales contribuyen a la asimetría facial de estos pacientes. Además, pueden presentar pabellones auriculares característicos con raíz de hélix prominente. Se asocia también con alteraciones de las extremidades, como sindactilia cutaneomucosa (sobre todo, de los segundos y terceros dedos de la mano), clinodactilia (generalmente, bilateral), duplicación de la falange distal del primer dedo del pie y braquidactilia.⁹

Es preciso descartar malformaciones cardíacas, alteraciones visuales (ptosis, estrabismo, estenosis del conducto lacrimal o papiledema) y auditivas (por lo general, por hipoacusia de conducción, aunque también hay casos de sordera neurosensorial o mixta).⁵ El desarrollo intelectual es, habitualmente, normal, aunque se han descrito casos con retraso cognitivo de leve a moderado, sobre todo, en aquellos síndromes asociados a una delección en el gen *TWIST1*.² Ante la sospecha diagnóstica, se debe realizar una TAC craneal y un fondo de ojo para descartar posibles

FIGURA 3. Extremidades: primer dedo del pie ancho



Figura 4. Tomografía axial computada craneal con fusión parcial de la sutura coronal (flecha) y hueso wormiano en localización metópica



complicaciones asociadas, como hipertensión intracraneal, que hagan necesario el tratamiento inmediato.^{2,6}

El estudio genético confirmará el diagnóstico si se encuentra una variante heterocigota patogénica del gen *TWIST1* (7p21). Estas mutaciones producen una haploinsuficiencia del factor de transcripción *TWIST1* (perteneciente a la familia de proteínas hélice-bucle-hélice básico *-basic helix-loop-helix; bHLH*, por sus siglas en inglés-), que se expresa en el mesénquima sutural y produce dichas anomalías.^{1,2}

Aunque algunas características fenotípicas son exclusivas del SCS, como la sindactilia del segundo y tercer dedo de la mano, en el diagnóstico diferencial, se deben incluir otras craneosinostosis sindrómicas, como el síndrome de Muenke o el de Crouzon, entre otros, causados por mutaciones en genes distintos, como el *FGFR3* (OMIM * 134934) o el *FGFR2* (OMIM * 176943) y *ERF-ETS2* (OMIM * 611888), respectivamente.⁴ Estos síndromes asocian a la craneosinostosis otras malformaciones muy similares al SCS debido a la gran variabilidad fenotípica de todos ellos. Por eso, en cualquier craneosinostosis, se deberá realizar un test genético para confirmar la enfermedad.² Sin embargo, hay que tener en cuenta que alrededor del 85 % de las craneosinostosis son formas no sindrómicas, como la sinostosis coronal unilateral aislada.⁹

Aunque, en el inicio, no parezca haber historia familiar, se debe estudiar activamente a los familiares más cercanos, ya que puede haber una gran variabilidad fenotípica, incluso en los miembros de la misma familia o la mutación podría expresarse con una penetrancia reducida, lo que daría lugar a casos leves que podrían pasar desapercibidos. Por ello, se estima que el número de casos de SCS podría ser mucho mayor.³ La proporción de casos debidos a mutaciones *de novo* es desconocida. En estos, aunque el riesgo de recurrencia en otro hijo de la pareja es bajo, debido a su penetrancia reducida y la posibilidad de existencia de un mosaicismo gonadal, se debe ofrecer la posibilidad de estudio prenatal en sucesivos embarazos.² La descendencia de un individuo con una variante patogénica, como el caso presentado, tiene un 50 % de riesgo de herencia de la mutación. En estos casos, el

diagnóstico prenatal y preimplantacional es posible si se ha identificado la variante patogénica de la enfermedad.²

El seguimiento posterior de este cuadro debe ser multidisciplinar. En la mayoría de los casos, durante el primer año de vida, se realiza una craneoplastia como tratamiento neuroquirúrgico para la reconstrucción craneofacial. Además, precisará seguimiento, al menos, anual, por parte de Oftalmología para la evaluación de la aparición de papiledema, ptosis, estrabismo o anomalías en el conducto lacrimal. Necesitará también controles por parte de Otorrinolaringología, cada 6-12 meses, para evaluar si existe pérdida auditiva. Por último, será indispensable el seguimiento clínico por parte de Neurología cada 6-12 meses a fin de diagnosticar retrasos en el desarrollo si estos se produjeran. Otros controles clínicos por parte de Cardiología, Traumatología, Endocrinología o Neumología se realizarán según los hallazgos clínicos que pudieran asociarse al cuadro.² ■

REFERENCIAS

1. Paumard-Hernández B, Berges-Soria J, Barroso E, Rivera-Pedroza CI, et al. Expanding the mutation spectrum in 182 spanish probands with craniosynostosis: identification and characterization of novel *TCF12* variants. *Eur J Hum Genet*. 2015; 23(7):907-14.
2. Gallagher ER, Ratisoontorn C, Cunningham ML. Saethre-Chotzen syndrome. In Adam MP, Ardinger HH, Pagon RA, et al. (eds.). GeneReviews® [Internet]. Seattle (WA): University of Washington, Seattle; 1993-2020.
3. Pelc A, Mikulewicz M. Saethre-Chotzen syndrome: case report and literature review. *Dent Med Probl*. 2018; 55(2):217-25.
4. De Heer IM, De Klein A, Van den Ouweland AM, Vermeij-Keers C, et al. Clinical and genetic analysis of patients with Saethre-Chotzen syndrome. *Plast Reconstr Surg*. 2005; 115(7):1894-902.
5. Lee S, Seto M, Sie K, Cunningham M. A child with Saethre-Chotzen syndrome, sensorineural hearing loss, and a *TWIST* mutation. *Cleft Palate Craniofac J*. 2002; 39(1):110-4.
6. Sharma A, Patel N, Arora S, Ramachandran R. Child with Saethre-Chotzen syndrome: anesthetic management and literature review. *Acta Anaesthesiol Belg*. 2014; 65(4):179-82.
7. Woods RH, Ul-Haq E, Wilkie AO, Jayamohan J, et al. Reoperation for intracranial hypertension in *TWIST1*-confirmed Saethre-Chotzen syndrome: a 15-year review. *Plast Reconstr Surg*. 2009; 123(6):1801-10.
8. Reardon W, Winter RM. Saethre-Chotzen syndrome. *J Med Genet*. 1994; 31(5):393-6.
9. Heuzé Y, Holmes G, Peter I, Richtsmeier JT, et al. Closing the gap: genetic and genomic continuum from syndromic to nonsyndromic craniosynostoses. *Curr Genet Med Rep*. 2014; 2(3):135-45.

Luxaciones puras de codo en pacientes pediátricos: tratamiento conservador y complicaciones asociadas a una patología poco prevalente. Serie de 4 casos

Isolated elbow dislocation in pediatric patients: non-operative treatment and complications associated with an infrequent pathology. Series of 4 cases

Dra. Catalina Larrague^a, Dr. Diego Campelo^a, Dr. Fernando Díaz Dilernia^a, Dr. Santiago Bosio^a,
Dr. Rubén Maenza^a y Dr. Miguel Puigdevall^a

RESUMEN

Si bien el codo es la articulación más frecuentemente luxada en niños, representa el 3-6 % de las lesiones en ese sitio. Las luxaciones sin fracturas asociadas son muy raras y son producto de una caída con el codo en extensión. El paciente consulta por dolor, impotencia funcional y deformidad evidente. La finalidad del tratamiento es restaurar la congruencia articular, lograr estabilidad y minimizar los riesgos de posibles lesiones neurovasculares.

Se presentan 4 pacientes tratados con manejo conservador con excelentes resultados funcionales, incluso aquel que presentó una neuropraxia del mediano con restitución *ad integrum*.

Según nuestra experiencia, suelen ser lesiones con buena evolución. Se destaca la importancia de un rápido y preciso examen neurovascular, optando, de ser posible, por una conducta expectante ante las lesiones nerviosas. Se resalta la indicación de una inmovilización acotada con movilización temprana que evite rigidez del codo.

Palabras clave: luxaciones articulares, codo, niño, rigidez muscular, paresia.

ABSTRACT

Even though the elbow is the most often dislocated joint in children, this injury accounts for 3-6 % of elbow pathology. Dislocations without associated fractures are extremely rare. They result from a fall onto an outstretched hand. The patient is always referred with a painful joint, movement impairment and even clinical deformity. Acute treatment aims to achieve quick reduction and adequate joint stability, avoiding neurovascular injuries.

We sought to analyze the functional outcomes and the complications after non-operative treatment. Our 4 patients

had excellent functional results at the latest follow-up, and one of them suffered from a median nerve palsy without further consequences.

In our experience, these injuries presented excellent outcomes and we would like to highlight the importance of a quick and precise neurovascular examination with the possibility of non-surgical management of nerve injuries. A short period of immobilization with early rehabilitation should be indicated to avoid joint stiffness.

Key words: joint dislocations, elbow, child, muscle rigidity, paresis.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.e133>

Cómo citar: Larrague C, Campelo D, Díaz Dilernia F, Bosio S, et al. Luxaciones puras de codo en pacientes pediátricos: tratamiento conservador y complicaciones asociadas a una patología poco prevalente. Serie de 4 casos. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e133-e137.

INTRODUCCIÓN

El codo es la articulación grande luxada con más frecuencia en los niños menores de 10 años.¹ No obstante, las luxaciones representan el 3-6 % de todas las lesiones del codo y son significativamente menos habituales que su fractura,^{2,3} lo que hace que las luxaciones puras, sin fracturas asociadas, sean muy raras.

Por lo general, son consecuencia de una caída sobre la mano con el codo en extensión, y, al momento del examen físico, se observa dolor, impotencia funcional y una deformidad evidente. En la urgencia, es importante descartar fracturas asociadas y posibles lesiones neurovasculares, y finalizar, idealmente, con la reducción temprana de la articulación.

Debido a su baja frecuencia en los niños, pocos han sido los casos reportados en la literatura. En general, los reportes publicados describen casos de luxaciones con fracturas asociadas, que suelen evolucionar con una morbilidad aumentada.⁴ De hecho, tampoco se han encontrado publicaciones en las que se describa el tratamiento conservador de las lesiones del nervio mediano (NM), como se ha registrado en uno de nuestros pacientes.

a. Hospital Italiano de Buenos Aires, Instituto de Ortopedia y Traumatología "Carlos E. Ottolenghi". Buenos Aires, Argentina.

Correspondencia:

Dra. Catalina Larrague:
catalina.larrague@hospitalitaliano.org.ar

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 30-3-2020

Aceptado: 23-10-2020

El objetivo de esta serie de casos fue analizar los resultados funcionales y las complicaciones de las luxaciones puras de codo en los niños tratadas de forma conservadora.

CASOS CLÍNICOS

El proyecto fue aprobado por el Comité de Ética de Protocolos de Investigación del Hospital Italiano de Buenos Aires, y los pacientes incluidos firmaron un consentimiento informado que autorizaba la publicación del material de la historia clínica. Se analizaron los resultados funcionales de 4 pacientes menores de 18 años con diagnóstico de luxaciones puras de codo, secundarias a un traumatismo agudo, tratados de forma conservadora entre enero de 2015 y abril de 2019 (Tabla 1).

Los pacientes presentaron un promedio de 7 años de edad. Ninguno refería comorbilidades de relevancia clínica. Fueron atendidos en la Central de Emergencias Médicas Pediátricas del Hospital Italiano de Buenos Aires tras una caída de propia altura sobre sus manos con el codo en extensión.

Clínicamente, se presentaron con dolor, edema e impotencia funcional en el codo. En el inicio, se descartaron lesiones neurovasculares agudas, y luego se realizaron radiografías anteroposterior y de perfil bilaterales para confirmar el diagnóstico y clasificar el desplazamiento, que fue posterolateral en todos los casos. En el mismo día del ingreso, se realizó la reducción cerrada en quirófano, bajo anestesia general, utilizando maniobras de tracción y contracción.

TABLA 1. Datos demográficos de la serie

Paciente	1	2	3	4
Sexo	Masculino	Masculino	Femenino	Femenino
Edad	7	9	6	7
Lado afectado	Derecho	Izquierdo	Derecho	Izquierdo
Desplazamiento	Posterolateral	Posterolateral	Posterolateral	Posterolateral

FIGURA 1. Secuencia de imágenes radiológicas



Caso 1. Radiografías de codo izquierdo anteroposterior y de perfil al ingresar. Se observa una luxación posterolateral de codo sin fracturas concomitantes asociadas (A). Radiografías de codo izquierdo anteroposterior y de perfil luego de la exitosa reducción cerrada bajo anestesia con la congruencia articular correspondiente (B). Radiografías anteroposteriores de codo derecho e izquierdo posreducción que comparan la medición del ángulo de carga en ambos codos (C).

Bajo radioscopia intraoperatoria, se constató la congruencia articular adecuada y se evaluó la estabilidad de la articulación mediante maniobras de estrés. En todos los pacientes, se logró la reducción cerrada satisfactoria, y se presentó una estabilidad adecuada frente al estrés en varo-valgo (Figura 1). Se repitió el examen neurovascular y luego se efectuó la inmovilización del codo con un yeso braquiopalmar a 90°.

El seguimiento promedio de la serie fue de 38 meses. En los controles ambulatorios, fueron evaluados con radiografías y tomografía para constatar la congruencia articular y descartar lesiones concomitantes. En la incidencia anteroposterior, se midió el ángulo de carga y se lo comparó con el codo contralateral, tomándose como valor normal una desviación en valgo de 5-15°. La evaluación funcional constató la estabilidad del codo, mediante maniobras de estrés, y la funcionalidad articular, utilizando el puntaje de Mayo (*Mayo Elbow Performance Score; MEPS*, por sus siglas en inglés) y el puntaje *Disabilities of the Arm, Shoulder and Hand (DASH)*.⁵

Todos los pacientes tuvieron resultados funcionales excelentes y ninguno presentó nuevos episodios de inestabilidad, cambios en el ángulo de carga comparado con el codo contralateral ni lesiones vasculares asociadas al final del seguimiento (Tabla 2). En cuanto a las lesiones nerviosas, uno de los pacientes sufrió una neuropraxia del NM posterior a la reducción cerrada. Presentó dolor intenso de tipo neuropático en el territorio de inervación, dificultad para realizar la pinza superior, hiperalgesia y disminución de la sensibilidad protopática y vibratoria en los tres primeros dedos de la mano derecha. En imágenes de resonancia magnética nuclear (RMN) del codo, se detectaron hallazgos compatibles con lesión del nervio (Figura 2). El paciente fue inmovilizado con un yeso braquiopalmar por 16 días y luego fue tratado con terapia ocupacional, que logró

la restitución *ad integrum* tras 6 meses de rehabilitación. Otro paciente de la serie presentó limitación a la extensión del codo luego de 21 días de inmovilización. Se le indicó la rehabilitación kinesiológica durante 1 mes, y se alcanzó la extensión completa y una puntuación de Mayo de 100 puntos.

DISCUSIÓN

Las luxaciones de codo representan el 3-6 % de todas las lesiones de codo en la población general; no obstante, es raro encontrarlas en los niños sin fracturas asociadas.^{1,2} Debido a la inmadurez esquelética, el tejido óseo es más débil que el ligamentario, y, en consecuencia, un mayor estrés aplicado sobre el codo, habitualmente, resulta en una lesión ósea y no en una luxación aislada.^{2,3} Tienen su pico de incidencia en la segunda década de la vida debido al cierre parcial del cartílago de crecimiento de los huesos que conforman el codo.² El lado no dominante¹ es el más afectado y el mecanismo descrito con mayor frecuencia es la caída sobre la mano con el codo en extensión.

Las luxaciones de codo se clasifican en posteriores, anteriores y divergentes según el desplazamiento del cúbito con respecto al húmero.⁴ Cuando el desplazamiento es posterior, se pueden subclasificar en posterolaterales y posteromediales. El 90 % de las luxaciones de codo son posteriores, y el 70 % de las mismas son posterolaterales.⁶

El tratamiento de elección es la reducción precoz, en la mayoría de los casos, realizando una tracción simple en el eje.⁷ Múltiples autores evidenciaron la relación directa entre el tiempo de inmovilización, la incidencia de rigidez y la limitación a la extensión.⁷⁻¹⁰ Robinson y col., sugirieron una corta inmovilización de 3 a 10 días luego de la reducción y continuar con una rehabilitación temprana. Esto se debe a que la secuela más frecuente es la pérdida de la extensión, lo que se asocia directamente con

Tabla 2. Tratamiento, evaluación posoperatoria y complicaciones

Paciente	1	2	3	4
Días de inmovilización	16	21	8	19
Estabilidad	Sí	Sí	Sí	Sí
Ángulo de carga	6,67°	11,03°	12,34°	7,85°
Complicaciones	Neuropraxia del mediano	Rigidez	-	-
Puntaje de Mayo	100	100	100	100
Puntaje DASH	0	0	0	0
Seguimiento	31 meses	53 meses	39 meses	29 meses

DASH: *Disabilities of the Arm, Shoulder and Hand*.

el tiempo de inmovilización prolongado.¹⁰ Se cree que, luego de la reducción, la estabilidad se mantiene por el contorno de las superficies articulares, lo que permite la movilización y, así, prevenir la rigidez.⁸ En nuestra serie, los pacientes que no presentaron rigidez posterior a la inmovilización fueron aquellos inmovilizados por menos de 17 días.

Las lesiones neurovasculares son raras, y las más frecuentes son las del nervio cubital, con una incidencia del 6,3 %.¹¹ Además, las lesiones del NM resultan aún más infrecuentes y se reportan en un 3 % de los casos. Su compresión

genera isquemia y, secundariamente, fibrosis del tejido neural.¹² Se han reportado casos de compresión del NM en el contexto de luxaciones de codo, y todos ellos fueron tratados con su descompresión quirúrgica.¹²⁻¹⁵ En nuestro caso, el paciente presentó una recuperación *ad integrum* luego de una intensa rehabilitación sin tener que recurrir a una nueva intervención quirúrgica. Por último, se obtuvieron excelentes resultados funcionales al final del seguimiento (> 90 en el MEPS) en los cuatro pacientes, incluso en aquel que sufrió la neuropraxia del NM. No hubo alteraciones en la medición del ángulo de carga

FIGURA 2. Lesión del nervio mediano en la resonancia magnética nuclear



Caso 1. Imágenes de la resonancia magnética nuclear de codo derecho. Corte sagital (A) y corte coronal (B) en secuencia STIR (*Short Tau Inversion Recovery*). Corte coronal en secuencia T1 (C). Se evidencia el engrosamiento del tejido nervioso y la pérdida de la arquitectura fascicular habitual del nervio, hallazgos compatibles con lesión por distensión del nervio.

posterior a la reducción, comparado con el codo contralateral.

Las luxaciones puras de codo en los pacientes pediátricos constituyen una patología poco frecuente y, en nuestro Centro, solo se han encontrado 4 casos en 4 años de estudio. A pesar de ser un estudio retrospectivo y con una casuística limitada, las luxaciones puras de codo en los niños parecen ser lesiones benignas y de buena evolución. Es importante que el ortopedista infantil, el médico pediatra y el de familia conozcan la importancia de realizar un examen neurovascular completo para descartar y evitar lesiones asociadas. Asimismo, es fundamental la realización de la reducción cerrada en agudo y considerar el manejo expectante ante la aparición de una lesión nerviosa. ■

REFERENCIAS

- Murphy RF, Vuillermin C, Naqvi M, Miller PE, et al. Early Outcomes of Pediatric Elbow Dislocation-Risk Factors Associated With Morbidity. *J Pediatr Orthop*. 2017; 37(7):440-6.
- Kaziz H, Naouar N, Osman W, Ayeche M. Outcomes of paediatric elbow dislocations. *Malays Orthop J*. 2016; 10(1):44-9.
- Uhl TL, Gould M, Gieck JH. Rehabilitation after posterolateral dislocation of the elbow in a collegiate football player: a case report. *J Athl Train*. 2000; 35(1):108-10.
- Kuhn MA, Ross G. Acute elbow dislocations. *Orthop Clin North Am*. 2008; 39(2):155-61.
- Angst F, Schwyzer HK, Aeschlimann A, Simmen BR, et al. Measures of adult shoulder function: Disabilities of the Arm, Shoulder, and Hand Questionnaire (DASH) and its short version (QuickDASH), Shoulder Pain and Disability Index (SPADI), American Shoulder and Elbow Surgeons (ASES) Society standardized shoulder assessment form, Constant (Murley) Score (CS), Simple Shoulder Test (SST), Oxford Shoulder Score (OSS), Shoulder Disability Questionnaire (SDQ), and Western Ontario Shoulder Instability Index (WOSI). *Arthritis Care Res (Hoboken)*. 2011; 63(Suppl 11):S174-88.
- Lieber J, Zundel SM, Luithle T, Fuchs J, et al. Acute traumatic posterior elbow dislocation in children. *J Pediatr Orthop B*. 2012; 21(5):474-81.
- Robinson PM, Griffiths E, Watts AC. Simple elbow dislocation. *Shoulder Elbow*. 2017; 9(3):195-204.
- De Haan J, Schep NWL, Tuinebreijer WE, Patka P, et al. Simple elbow dislocations: a systematic review of the literature. *Arch Orthop Trauma Surg*. 2010; 130(2):241-9.
- Di Gennaro GL, Spina M, Fosco M, Antonioli D, et al. Dislocations of the elbow in children: long-term follow-up. *Musculoskelet Surg*. 2013; 97(Suppl 1):3-7.
- Panteli M, Pountos I, Kanakaris NK, Tosounidis TH, et al. Cost analysis and outcomes of simple elbow dislocations. *World J Orthop*. 2015; 6(7):513-20.
- O'Callaghan PK, Freeman K, Davis LC, Murphy RF. A rare case of type 2 entrapment of the median nerve after posterior elbow dislocation with MRI and ultrasound correlation. *Skeletal Radiol*. 2019; 48(10):1629-36.
- Dubey V, Saify A, Samant A, Shahane S. Median Nerve Entrapment after Elbow Dislocation and the Role of Ultrasonography - A Case Report. *J Orthop Case Rep*. 2017; 7(3):21-4.
- Wenger A, Berger J, Piza-Katzer H. Nervenverletzungen nach Ellenbogenluxationsfraktur im Kindesalter. *Unfallchirurg*. 2016; 119(8):690-7.
- Petratos DV, Stavropoulos NA, Morakis EA, Matsinos GS. Median nerve entrapment and ulnar nerve palsy following elbow dislocation in a child. *J Surg Orthop Adv*. 2012; 21(3):157-61.
- Simon D, Masquijo JJ, Duncan MJ, Kontio K. Intra-articular median nerve incarceration after spontaneous reduction of a pediatric elbow dislocation: case report and review of the literature. *J Pediatr Orthop*. 2010; 30(2):125-9.

Linfangiectasia intestinal en un paciente afectado de síndrome de Sanfilippo B

Intestinal lymphangiectasia in a patient with Sanfilippo B syndrome

Lic. Sara M. Barbed Ferrández^a, Dra. Ruth García Romero^b, Lic. Raquel Pérez Delgado^c,
Lic. Inés Romagosa Sánchez-Monge^d, Dr. Ignacio Ros Arnal^b y Dra. Nerea Torrecilla Idoipe^e

RESUMEN

La mucopolisacaridosis tipo III B es una enfermedad de depósito lisosomal causada por la deficiencia de la enzima N-acetil-alfa-D-glucosaminidasa, implicada en el catabolismo del heparán sulfato, que produce su acúmulo en diversos tejidos. Se presenta a un paciente de 8 años, afectado de mucopolisacaridosis tipo III B, con historia de diarrea crónica y hallazgos endoscópicos e histológicos compatibles con linfangiectasia intestinal. Tras tratamiento dietético con restricción de ácidos grasos de cadena larga y rica en triglicéridos de cadena media, presentó mejoría clínica, mantenida hasta la actualidad.

La patogenia de la diarrea crónica en pacientes con mucopolisacaridosis tipo III B es aún desconocida. Debe investigarse la presencia de linfangiectasia intestinal en estos pacientes e iniciar, en caso de confirmarse, un tratamiento dietético adecuado para mejorar así su calidad de vida.

Palabras clave: mucopolisacaridosis III B, N-acetil-alfa-D-glucosaminidasa, diarrea, linfangiectasia, pediatría.

ABSTRACT

Mucopolysaccharidosis type IIIB is a lysosomal storage disease caused by a deficiency of the N-acetyl-alpha-D-glucosaminidase enzyme involved in the catabolism of heparan sulfate, causing its accumulation in various tissues. We present an 8-year-old patient with mucopolysaccharidosis type IIIB, with a history of chronic diarrhea and endoscopic and histological findings compatible with intestinal lymphangiectasia. After a dietary treatment with a low-fat diet supplemented with medium-chain triglyceride, our patient presents clinical improvement until today. The pathogenesis of chronic diarrhea in patients with mucopolysaccharidosis type IIIB is still unknown. The

presence of intestinal lymphangiectasia in these patients should be investigated, and appropriate dietary treatment should be initiated, if confirmed, to improve their quality of life.

Key words: mucopolysaccharidosis IIIB, alpha-N-acetylglucosaminidase, diarrhea, lymphangiectasia, pediatrics.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.e138>

Cómo citar: Barbed Ferrández SM, García Romero R, Pérez Delgado R, Romagosa Sánchez-Monge I, et al. Linfangiectasia intestinal en un paciente afectado de síndrome de Sanfilippo B. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e138-e141.

INTRODUCCIÓN

La mucopolisacaridosis tipo III o síndrome de Sanfilippo es una enfermedad de depósito lisosomal, causada por el déficit de una de las cuatro enzimas encargadas del catabolismo de un glucosaminoglicano, el heparán sulfato.¹ Como resultado, se produce su acumulación en diversos tejidos, con una clínica extremadamente variable.² Se clasifica en cuatro tipos (A, B, C y D), en función del déficit enzimático. El patrón de herencia es autosómico recesivo, con más de 300 mutaciones descritas.³ La prevalencia estimada es de 0,3-4,1 : 100 000 recién nacidos, dependiendo del subtipo.¹

Es una enfermedad multisistémica que se caracteriza por una degeneración progresiva del sistema nervioso central (SNC), con discapacidad intelectual grave, regresión del neurodesarrollo y otras alteraciones neurológicas, que incluyen trastornos del espectro autista, de conducta y trastornos del sueño.⁴ Tanto el fenotipo como las manifestaciones músculo-esqueléticas son más sutiles que en otras mucopolisacaridosis,⁵ motivo por el cual el diagnóstico podría retrasarse. Junto con la clínica neurológica, se suceden otras manifestaciones cuya patogénesis no es bien conocida hasta la fecha, como ocurre con las gastrointestinales.

Se presenta el caso de un varón, con diagnóstico de mucopolisacaridosis tipo III B (MPS III B), derivado a consulta de Gastroenterología Infantil por diarrea crónica de varios años de evolución.

- Centro de Salud Ejea de los Caballeros. Zaragoza, España.
- Unidad de Gastroenterología Pediátrica, Servicio de Pediatría, Hospital Infantil Miguel Servet. Zaragoza, España.
- Unidad de Neurometabolismo Pediátrico, Servicio de Pediatría, Hospital Infantil Miguel Servet. Zaragoza, España.
- Servicio de Pediatría, Hospital Infantil Miguel Servet. Zaragoza, España.
- Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Clínico Universitario Lozano Blesa. Zaragoza, España.

Correspondencia:

Lic. Sara M. Barbed Ferrández: sarabarbed@gmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 27-4-2020

Aceptado: 7-10-2020

CASO CLÍNICO

Paciente varón de 8 años. Embarazo gemelar por fecundación *in vitro*, sin incidencias. Nació tras una cesárea urgente a la 32⁺⁴ semanas de gestación, por el riesgo de pérdida de bienestar fetal de su gemelo. Nació vital, sin requerir reanimación, con antropometría adecuada para su edad y exploración física normal, salvo un fenotipo peculiar. Se hospitalizó el primer día de vida por enfermedad de membrana hialina. Presentó una evolución adecuada y obtuvo el alta hospitalaria a los 2 meses de vida.

Durante los primeros 2 años, se le diagnosticó alergia a la proteína de la leche de vaca no mediada por inmunoglobulina E (IgE). Además, presentó otitis repetidas, sordera neurosensorial bilateral y una insuficiencia mitral sin repercusión cardiovascular. Neurológicamente, se observó retraso del desarrollo psicomotor, con tendencia a la irritabilidad, y se mostró menos sociable que su hermano gemelo.

Los rasgos evolucionaron hacia un fenotipo tosco (boca grande, raíz nasal ancha, cejas pobladas y cifosis dorsal). Se sospechó la presencia de una enfermedad de depósito lisosomal, por lo que se realizó un estudio metabólico orientado, con los siguientes resultados: excreción aumentada de glucosaminoglicano en orina (272,5 mg/dl; valor normal para su edad: 37,4 ± 14,6 mg/dl), test cualitativo de Berry positivo, test cuantitativo de 1,9 azul de dimetilmileno por espectrofotometría positivo (48,69 mg/mmol/creatinina; valor normal: 0,27-9,35). El estudio enzimático de tipificación en sangre seca mostró una deficiencia de la enzima

N-acetil-alfa-glucosaminidasa, compatible con MPS III B (0,0 nmol/h/spot) y se confirmó el diagnóstico mediante genética molecular, detectando una delección (c.351delG) en el exón 1 del gen *NAGLU* en homocigosis.

A los 6 años, los padres mostraron su preocupación por el ritmo deposicional del paciente y refirieron 5-6 deposiciones diarias, tipo 6, en la escala Bristol. Inicialmente, se implementó una dieta de exclusión de la proteína de la leche de vaca, ya que la familia lo relacionaba con la toma de lácteos, y se observó una discreta mejoría.

Dada la persistencia de la diarrea y ante la sospecha de posible sobrecrecimiento bacteriano, se realizó una prueba terapéutica con tandas de metronidazol, sin observarse resolución. Se realizó un análisis de sangre que incluyó el despistaje de enfermedad celíaca, estudio microbiológico en heces (virus, parásitos, bacterias y *Clostridium difficile*), test de hidrógeno espirado con lactosa y ecografía abdominal, sin hallazgos patológicos, salvo un déficit puntual de vitamina D, que se resolvió con suplemento.

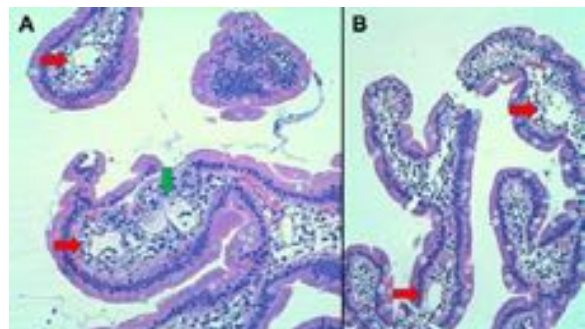
Ante la persistencia de la clínica, se realizó una endoscopia digestiva alta, que mostró, en la segunda porción duodenal, una mucosa con agregados blanquecinos milimétricos distribuidos por toda la superficie (Figura 1). A nivel histológico, se visualizaron vellosidades intestinales con estructuras vasculares dilatadas, luces vacías o con pocos linfocitos y escasos material proteináceo y escasos linfocitos, con un endotelio fino y con células monótonas y poco prominentes (Figura 2).

FIGURA 1. Imagen endoscópica procedente de la segunda porción duodenal del paciente



Se observa una mucosa con agregados blanquecinos de escasos milímetros, distribuidos a lo largo de toda la superficie duodenal.

FIGURA 2. Imagen de microscopía óptica de la biopsia de intestino delgado del paciente



Vellosidades del intestino delgado con estructuras vasculares dilatadas y luces vacías (flechas rojas) o con pocos linfocitos o material proteináceo en su interior (flechas verdes), que se encuentran revestidas por un endotelio fino y con células monótonas y poco prominentes. No se observa ninguna otra particularidad en el epitelio.

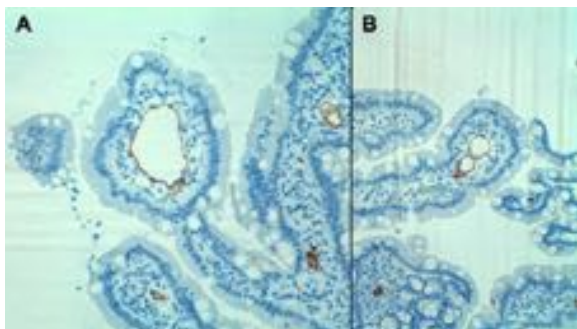
Se realizó la técnica inmunohistoquímica específica para el endotelio linfático, que marcó el revestimiento de los espacios vasculares (Figura 3). Los hallazgos endoscópicos e histológicos eran compatibles con el diagnóstico de linfangiectasia intestinal (LI).

Tras el diagnóstico endoscópico, se decidió iniciar una prueba terapéutica con dieta baja en grasas saturadas y rica en triglicéridos de cadena media (*medium-chain triglyceride*; MCT, por sus siglas en inglés), con aporte diario de un complemento nutricional de bajo contenido lipídico, a base de proteína de suero de leche de vaca suplida con aminoácidos esenciales, hidratos de carbono, lípidos (el 90 % de MCT), vitaminas, minerales y oligoelementos. Con esta dieta, el paciente mostró la resolución de la diarrea de forma progresiva, presentó deposiciones normales hasta la fecha y controles analíticos seriados dentro de la normalidad, y la familia manifestó, en la consulta, una menor alteración en las actividades básicas de la vida diaria del núcleo familiar.

DISCUSIÓN

La MPS III B (OMIM # 252920) es causada por una mutación del gen *NAGLU*, que codifica la enzima N-acetil-alfa-d-glucosaminidasa, localizada en el cromosoma 17q21.2.¹⁻³ Se trata de un subtipo heterogéneo, con una amplia variabilidad clínica, incluso dentro de una misma familia. En el caso de nuestro paciente, por tener un gemelo sano, las manifestaciones fueron detectadas tempranamente, al comparar su desarrollo psicomotor con el de su hermano.

FIGURA 3. Examen histológico mediante la técnica inmunohistoquímica de la biopsia de intestino delgado del paciente



Técnica inmunohistoquímica D2-40 (podoplanina) que detecta de forma específica endotelios linfáticos y se ve como marca (en color marrón) el revestimiento de los espacios vasculares.

El carácter neurodegenerativo progresivo de este trastorno produce un enorme impacto psicológico en las familias de los pacientes.¹ Además, aunque las manifestaciones somáticas no son tan importantes como en otros tipos de mucopolisacaridosis, tienen un impacto relevante tanto para el paciente como para su familia y añaden una carga negativa importante durante el desarrollo de la enfermedad, como puede ocurrir con las manifestaciones gastrointestinales.⁶

La aparición de diarrea recurrente o crónica ha sido descrita en pacientes afectados de MPS II y III, que alcanzó, en España, al 50 % de los pacientes con diagnóstico de MPS III A, B y C.³ Sin embargo, su patogenia no es del todo conocida. Se cree que se debe al depósito de glucosaminoglicanos en las neuronas del plexo mientérico, lo que ocasiona una motilidad anormal.^{7,8} El depósito de glucosaminoglicanos en estas células ha sido observado en biopsias intestinales de pacientes; sin embargo, la motilidad no ha sido estudiada.^{7,9}

Un estudio de serie de casos de pacientes con MPS III detectó la aparición de diarrea en 36/62 pacientes. Sin embargo, solo fueron estudiados por la gravedad de la diarrea 3 de ellos, en los que no se especificaron los estudios realizados, salvo la prueba del sudor y biopsia yeyunal, sin observar su causa en ninguno.⁹

En el caso de nuestro paciente, los padres manifestaron su preocupación acerca de este aspecto a los 6 años, motivo por el cual, tras evaluar y tratar las causas más frecuentes de diarrea crónica, ante la sospecha de una LI, fue derivado a la Unidad de Gastroenterología. Los hallazgos endoscópicos obtenidos tras el estudio resultaban desconcertantes, ya que tanto a nivel macroscópico como histológicamente, eran compatibles con el diagnóstico de LI. Sin embargo, no presentaba los signos típicos de una enteropatía perdedora de proteínas, pues no se detectaban las alteraciones analíticas características de dicha entidad (linfopenia, hipoalbuminemia, hipogammaglobulinemia) ni clínicas (ascitis, edemas, retraso de crecimiento), manifestaciones habituales fruto de un bloqueo de los vasos linfáticos, con la consecuente pérdida de linfa en el tracto gastrointestinal.^{10,11}

En la revisión bibliográfica realizada, solo se ha encontrado un caso publicado hasta la fecha en un paciente afectado de MPS III B, con hallazgos intestinales similares a los de nuestro paciente, tanto endoscópicos como histológicos.⁶ Dicho paciente tampoco presentaba

las manifestaciones clínicas ni bioquímicas habituales de la LI. Los autores del caso referido sugirieron como explicación la posibilidad de que la LI se detectara de forma tan incipiente que todavía no se hubiesen producido estas manifestaciones referidas. Sin embargo, tanto en su caso como en el que se describe en este trabajo, la diarrea persistía desde hacía varios años cuando se realizó el diagnóstico de LI como causa posible, tiempo que se considera suficiente como para producir los signos típicos de una enteropatía perdedora de proteínas, por lo que se rechaza dicha hipótesis. El hecho de estos dos casos descritos sugiere una posible asociación entre LI y MPS III B, ya que las incidencias de ambas son bajas, y la fisiopatología de la LI es desconocida.

El carácter prolongado de la diarrea de nuestro paciente, junto con los hallazgos endoscópicos y la similitud con el caso encontrado en la literatura, nos llevó a realizar una prueba terapéutica con restricción de ácidos grasos de cadena larga y suplemento con MCT. Obtuvo una respuesta clínica completa que se mantiene en la actualidad.

Se enfatiza la importancia de estudiar los cuadros de diarrea crónica en pacientes afectados de mucopolisacaridosis y evaluar la realización precoz de endoscopia y, en caso de encontrar hallazgos similares a los descritos, iniciar una dieta controlada en grasas, con suplemento de ácidos grasos de cadena media. No obstante, son necesarios más estudios para caracterizar el papel verdadero de los glucosaminoglicanos en la función intestinal de estos pacientes. ■

REFERENCIAS

1. Andrade F, Aldámiz-Echevarría L, Llarena M, Couce ML. Sanfilippo syndrome: Overall review. *Pediatr Int*. 2015; 57(3):331-8.
2. Wagner VF, Northrup H. Mucopolysaccharidosis Type III. In: Adam MP, Ardinger HH, Pagon RA, et al. (eds). *GeneReviews*®. Seattle (WA): University of Washington, Seattle; 1993-2019. [Acceso: 3 de noviembre de 2019]. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK546574/>.
3. Delgadillo V, O'Callaghan MM, Gort L, Coll MJ, et al. Natural history of Sanfilippo syndrome in Spain. *Orphanet J Rare Dis*. 2013; 8:189.
4. Jones S, Wynn R. Mucopolysaccharidoses: Clinical features and diagnosis. In E. TePas (ed.), *Upto Date Inc*. 2019. [Acceso: 2 de noviembre de 2019]. Disponible en: <https://www.uptodate.com/contents/mucopolysaccharidoses-clinical-features-and-diagnosis>.
5. Nijmeijer SCM, Ingeborg van den Born L, Kievit AJA, Stepien KM, et al. The attenuated end of the phenotypic spectrum in MPS III: from late-onset stable cognitive impairment to a nonneuronopathic phenotype. *Orphanet J Rare Dis*. 2019; 14(1):249.
6. Sibilio M, Miele E, Ungaro C, Astarita L, et al. Chronic Diarrhea in Mucopolysaccharidosis IIIB. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 2009; 49(4):477-80.
7. Jones S, Wynn R. Mucopolysaccharidoses: complications. In: E. TePas (ed.), *Upto Date. Inc*. 2019. [Acceso: 2 de noviembre de 2019]. Disponible en: https://www.uptodate.com/contents/mucopolysaccharidoses-complications?search=Jones%20S,%20Wynn%20R.%20Mucopolysaccharidoses:%20complications.&source=search_result&selectedTitle=1~87&usage_type=default&display_rank=1.
8. Elsner B. Ultrastructure of the rectal wall in Hunter's syndrome. *Gastroenterology*. 1970; 58(6):856-62.
9. Cleary MA, Wraith JE. Management of mucopolysaccharidosis type III. *Arch Dis Child*. 1993; 69(3):403-6.
10. Valdovinos-Oregón D, Ramírez-Mayans J, Cervantes-Bustamante R, Toro-Monjaraz E, et al. Linfangiectasia intestinal primaria: 20 años de experiencia en el Instituto Nacional de Pediatría. *Rev Gastroenterol Méx*. 2014; 79(1):7-12.
11. Alshiko MJ, Talas JM, Noureldine SI, Zazou S, et al. Intestinal Lymphangiectasia: Insights on Management and Literature Review. *Am J Case Rep*. 2016; 17: 512-22.

Manifestaciones neurológicas graves de la gripe durante la temporada gripal 2018-2019: serie de casos de 13 pacientes pediátricos

Severe neurological manifestations of influenza during 2018-2019 influenza season: Case series of 13 pediatric patients

Dr. M. Gultekin Kutluk^a y Dra. E. Naz Kadem^b

RESUMEN

La gripe se asocia al aparato respiratorio, especialmente en invierno, y puede causar complicaciones neurológicas. Se evaluó a pacientes pediátricos con manifestaciones neurológicas graves por gripe desde septiembre de 2018 hasta febrero de 2019 para determinar características clínicas, neuroimagenología, tratamiento y resultados. El objetivo fue evaluar la encefalitis asociada a la gripe y destacar diferentes manifestaciones neurológicas y cambios de neuroimagenología. El estudio incluyó a 13 pacientes. Los síntomas neurológicos ocurrieron tras los síntomas típicos de la gripe. Los cambios de neuroimagenología incluyen alteraciones de señal de la sustancia blanca cortical y subcortical, edema localizado o generalizado y lesiones multifocales simétricas bilaterales en el tálamo y la médula del cerebelo. Las opciones terapéuticas incluyen metilprednisolona en inyección intravenosa, inmunoglobulina intravenosa, plasmaféresis y oseltamivir. Es fundamental considerar la encefalitis asociada a la gripe en pacientes con convulsiones, la encefalopatía con hallazgos radiológicos compatibles, e iniciar el tratamiento lo antes posible.

Palabras clave: encefalitis, encefalopatía, síndrome de Guillain-Barré, cuerpo calloso, pediatría.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.e142>

Texto completo en inglés:

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.e142>

Cómo citar: Kutluk MG, Kadem EN. Manifestaciones neurológicas graves de la gripe durante la temporada gripal 2018-2019: serie de casos de 13 pacientes pediátricos. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e142-e148.

GLOSARIO

ADC: Coeficiente de difusión aparente.

EEG: Electroencefalografía.

FLAIR: Recuperación de la inversión atenuada por líquidos.

GOSE: Escala de resultados de Glasgow ampliada.

IgIV: Inmunoglobulina intravenosa.

LCR: Líquido cefalorraquídeo.

MP: Metilprednisolona.

PDRG: Pruebas de diagnóstico rápido de la gripe.

RM: Resonancia magnética.

INTRODUCCIÓN

Los niños generalmente tienen infecciones gripales con síntomas respiratorios y son hospitalizados por complicaciones respiratorias y neurológicas, sobre todo en invierno. A nivel mundial, casi 90 millones de niños padecen infecciones gripales cada año.^{1,2} Se observan diferencias en la incidencia de las complicaciones neurológicas asociadas a la gripe según la región; Glaser y cols., informaron complicaciones neurológicas en 1,2/1 000 000. En Japón se informó una incidencia de encefalitis asociada a la gripe de 6-11/1 000 000 en 1999-2000.³ Las manifestaciones neurológicas tienen un amplio espectro de gravedad y se caracterizan a partir de los hallazgos de la resonancia magnética (RM). Además, hay muchos casos con diferentes alteraciones en la RM que no son frecuentes en la bibliografía.² En este estudio se presentan 13 casos pediátricos con encefalitis asociada a la gripe durante la temporada gripal 2018-2019 en un único centro. Además, se señalan las diferentes características de gravedad y neuroimagenología de la encefalitis asociada a la gripe y las opciones terapéuticas.

MÉTODOS

Población del estudio

Se llevó a cabo una investigación retrospectiva con pacientes de entre 6 meses

a. Departamento de Neurología Pediátrica.

b. Consultorios de Pediatría.

Hospital de Formación e Investigación de Antalya, Antalya, Turquía.

Correspondencia:

Dr. M. Gultekin Kutluk: gultekinkutluk@gmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 20-5-2020

Aceptado: 23-10-2020

y 18 años de edad que habían sido ingresados en un único centro por infecciones de gripe A con complicaciones neurológicas graves entre septiembre de 2018 y diciembre de 2019. El consentimiento firmado se obtuvo de los tutores legales de los participantes.

Estudios virológicos

Se realizaron una reacción en cadena de la polimerasa con retrotranscripción en tiempo real (RT-PCR) y pruebas de diagnóstico rápido

de la gripe (PDRG) con las muestras de las vías respiratorias y del líquido cefalorraquídeo (LCR).

Estudios neuroimagenológicos y electrofisiológicos

Se realizó una electroencefalografía (EEG) a todos los pacientes, las cuales fueron evaluadas por el mismo neurólogo pediátrico. Las imágenes de RM ponderadas en T1 y T2, la recuperación de la inversión atenuada por líquidos (FLAIR), las imágenes ponderadas por difusión (DWI) y el

Tabla 1. Datos demográficos, primeras características de presentación y evolución clínica, resultado de los pacientes con encefalitis asociada a la gripe

Número de caso	Edad/ Sexo	Inicio de los síntomas respiratorios (días)	Presentación clínica	GCS en la primera consulta	Vacuna	EEG la UCIP	Días en (tras el tratamiento)	GOSE	Secuelas neurológicas
1	21 m/F	7	Fiebre, rinitis, convulsiones, estado mental alterado	10	Sin vacuna	Encefalopatía	8	8	Ninguna
2	11 a/F	15	Disfagia, afasia, estado mental alterado	12	Sin vacuna	Encefalopatía	16	7	Ninguna
3	8 a/M	10	Disfagia, afasia, estado mental alterado	13	Sin vacuna	Encefalopatía	17	8	Ninguna
4	7 a/F	4	Pérdida temporal de la visión	15	Sin vacuna	No se realizó	0	8	Ninguna
5	16 a/M	6	Convulsiones, estado mental alterado	11	Sin vacuna	Encefalopatía	23	6	Epilepsia y trastorno de la conducta
6	8 a/M	4	Convulsiones, estado mental alterado	12	Sin vacuna	Encefalopatía	4	8	Ninguna
7	12 a/F	5	Cefalea, afasia, convulsiones, estado mental alterado	13	Sin vacuna	Encefalopatía	11	8	Ninguna
8	10 a/M	4	Convulsiones, estado mental alterado	12	Sin vacuna	Encefalopatía	3	8	Ninguna
9	18 m/M	2	Fiebre, rinitis, convulsiones, estado mental alterado	6	Sin vacuna	Estado convulsivo	5	8	Ninguna
10	6 a/M	15	Distonía, afasia, síncope	9	Sin vacuna	Encefalopatía	20	6	Discapacidad intelectual, trastorno de la conducta, dificultad para caminar
11	16 a/F	11	Distonía, afasia, síncope	8	Sin vacuna	Encefalopatía, actividad epiléptica centrottemporal	44	5	Discapacidad intelectual, tetraparesia espástica
12	9 a/M	7	Cuadro confusional agudo, estado mental alterado	9	Sin vacuna	Encefalopatía	29	8	Ninguna
13	8 a/F	15	Ataxia	15	Sin vacuna	No se realizó	0	8	Ninguna

GCS: escala de coma de Glasgow; UCIP: unidad de cuidados intensivos pediátricos; GOSE: escala de resultados de Glasgow ampliada; F: femenino; M: masculino.

coeficiente de difusión aparente (ACD, $b = 1000$) se obtuvieron con aparatos de RM de 1,5 T o 3 T. Se utilizó un medio de contraste de gadolinio para demostrar la presencia de inflamación.

Evaluación clínica

Se evaluó y trató a todos los pacientes en los departamentos de Neurología Pediátrica y de Enfermedades Infecciosas Pediátricas y la Unidad de Cuidados Intensivos Pediátricos (UCIP). Se utilizó la escala de coma de Glasgow (GCS) para describir el nivel general de conciencia.⁴ Se usó la escala de resultados de Glasgow ampliada (GOSE) para determinar el resultado al momento del alta hospitalaria.⁵

RESULTADOS

Datos demográficos

Se incluyó a 13 pacientes en el estudio. Los datos demográficos de todos los pacientes se describen en la *Tabla 1*. Antes de acudir al centro, los pacientes 5, 9 y 11 tenían comorbilidades; los demás estaban sanos. El paciente 5 tenía epilepsia y la paciente 11, retraso mental. El paciente 9 había nacido prematuramente. Tres pacientes tenían padres consanguíneos.

Síntomas neurológicos

Todos los pacientes presentaron síntomas neurológicos luego de una media de 8,07 días (mín.: 4 días-máx.: 15 días) de síntomas gripales.

El primer síntoma fue el estado alterado de conciencia en 11 de 13 pacientes, y la media de la GCS fue 11,15 (mín.: 6-máx.: 15). Cuatro de ellos recobraron el conocimiento luego del día 1, mientras que 7 tuvieron un deterioro persistente de las funciones corticales superiores. Una paciente tuvo retención urinaria, que se consideró una disfunción neurovegetativa (P2). Seis pacientes tuvieron convulsiones y el paciente 9, estado epiléptico (*Tabla 1*).

Hallazgos de laboratorio

En el cultivo de exudado nasal, se detectó gripe A mediante PCR (10 pacientes, 76,9 %) o PDRG (3 pacientes, 23,1 %). No se detectaron microorganismos en las muestras de sangre ni en las de LCR. No se halló ninguna otra alteración en los análisis de laboratorio en relación con las características clínicas mencionadas (*Tabla 2*).

Hallazgos del estudio neuroimagenológico y de la EEG

Los resultados anormales de la EEG se informaron como encefalopatía, actividad epiléptica centrotemporal y estado convulsivo (*Tabla 1*). El paciente 5 presentaba actividad epiléptica frontotemporal durante el seguimiento y la paciente 11, actividad epiléptica centrotemporal en la EEG. En la RM craneal de la paciente 4, se observaron alteraciones de la señal en el splenio del cuerpo caloso, que era

Tabla 2. Hallazgos de laboratorio

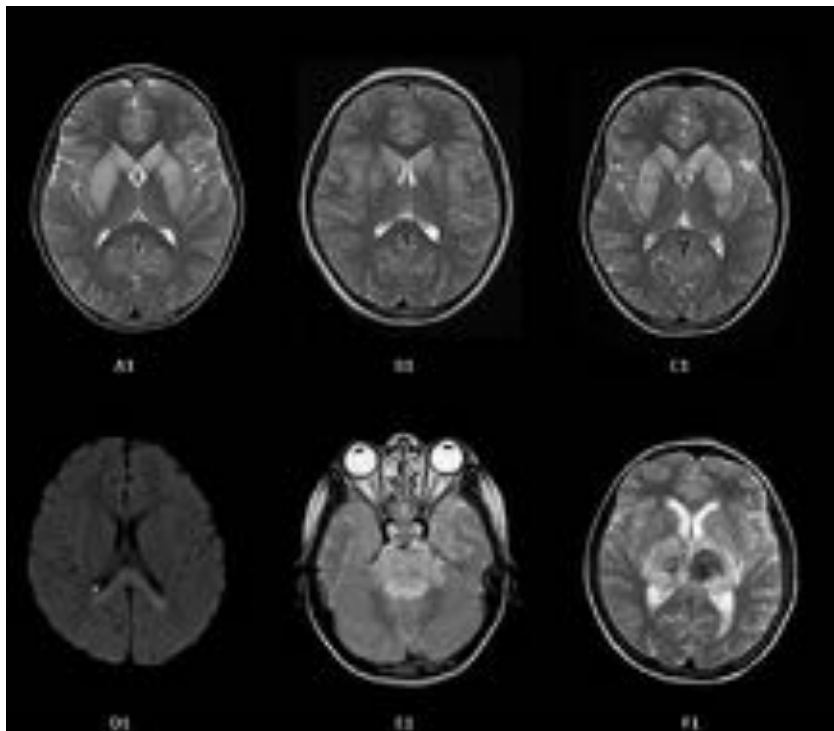
Número de caso	LCR	Tipo de gripe	Hemocultivo	Pruebas de encefalitis autoinmunitaria
1	Normal	Gripe A (PCR)	Estéril	-
2	Normal	Gripe A (H1N1) (PCR)	Estéril	Normal
3	Pleocitosis	Gripe A (H1N1) (PCR)	Estéril	Normal
4	Normal	Gripe A (H1N1) (PDRG)	Estéril	-
5	Normal	Gripe A (PCR)	Estéril	-
6	Normal	Gripe A (PCR)	Estéril	-
7	Normal	Gripe A (PCR)	Estéril	-
8	Normal	Gripe A (PDRG)	Estéril	-
9	Normal	Gripe A (PDRG)	Estéril	-
10	Normal	Gripe A (PCR)	Estéril	Normal
11	Normal	Gripe A (PCR)	Estéril	Normal
12	Normal	Gripe A (PCR)	Estéril	Normal
13	Disociación albumino-citológica	Gripe A (PCR)	Estéril	-

Pruebas de encefalitis autoinmunitaria: receptor de N-metil-D-aspartato (NMDA), ácido α -amino-3-hidroxi-5-metilo-4-isoxazolpropiónico antiglutamato tipo 1 y 2, anticuerpos contra la proteína asociada a contactina-2 (CASPR2), anticuerpos contra el receptor del ácido γ -aminobutírico de tipo B (GABA_B), anticuerpos contra la proteína 1 inactivada del glioma rica en leucina (LG11). LCR: líquido cefalorraquídeo; PCR: reacción en cadena de la polimerasa; PDRG: pruebas de diagnóstico rápido de la gripe.

hiperintenso en las imágenes FLAIR ponderadas en T2 e isointenso con difusión restringida en las imágenes ponderadas en T1 sin realce del contraste (*Figura 1A-D1*). Por lo tanto, se le diagnosticó encefalitis/encefalopatía leve con lesión reversible del esplenio del cuerpo caloso (MERS). Las alteraciones en la RM fueron similares en 3 casos (pacientes 2, 3 y 7). En todos se observó tumefacción de ambos núcleos caudados e hiperintensidad en los núcleos lenticulares en las imágenes FLAIR ponderadas en T2 (*Figura 1A-A1, B1, C1*), y esta lesión tenía difusión restringida con un aumento de la intensidad de señal en los mapas ADC. El paciente 10 tenía alteraciones de la señal en la protuberancia anular, el mesencéfalo, el bulbo raquídeo y los pedúnculos cerebelosos con hiperintensidad en las imágenes FLAIR ponderadas en T2 y difusión restringida con una disminución de la intensidad de señal en los mapas ADC de la protuberancia anular (*Figura 1A-E1*). En la RM de la paciente 11, se observaron alteraciones hemorrágicas en el tálamo, el mesencéfalo y el cerebelo en

ambos hemisferios. En las imágenes FLAIR ponderadas en T2, se observó hiperintensidad en el tálamo, los núcleos basales, el mesencéfalo, la protuberancia anular y la sustancia blanca periventricular en ambos hemisferios (*Figura 1A-F1*). En las imágenes del mapa ADC ponderadas por difusión, se observó difusión restringida en el tálamo, el asta posterior de la cápsula interna y la sustancia blanca periventricular frontoparietal en ambos hemisferios. En los estudios de RM del paciente 5, se observó expansión de los giros cerebrales y edema en la región frontotemporoparietal izquierda en los estudios anteriores a la administración de contraste con hiperintensidad en las imágenes FLAIR ponderadas en T2. Además, se detectó realce leptomeníngeo en las imágenes FLAIR posteriores a la administración de contraste. En el caso de la paciente 13, se observó realce del contraste en el cono medular y las raíces de los nervios de la cola de caballo. Las RM de seguimiento revelaron una mejoría (*Figura 1B*).

FIGURE 1A. RM inicial



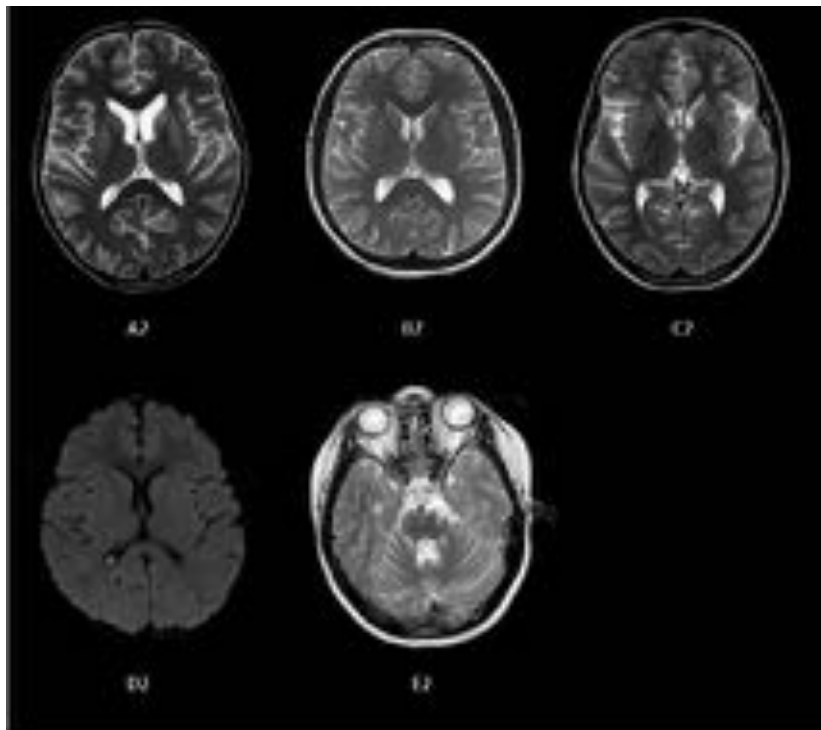
Hinchazón en ambos núcleos caudados e hiperintensidad en los núcleos lenticulares en las imágenes FLAIR ponderadas en T2 (A1, B1, C1), alteraciones de la señal en el esplenio del cuerpo caloso, con hiperintensidad en las imágenes FLAIR ponderadas en T2 (D1). Hiperintensidad en la protuberancia anular y el pedúnculo cerebeloso en las imágenes FLAIR ponderadas en T2 (E1), hiperintensidad y alteraciones hemorrágicas en el tálamo, en ambos hemisferios, en las imágenes FLAIR ponderadas en T2 (F1). Los pacientes 1, 6, 8, 9 y 12 tuvieron resultados normales en la RM.

Tratamiento

Se administraron aciclovir y oseltamivir como tratamiento antiviral hasta obtener los resultados microbiológicos. Once pacientes recibieron un tratamiento antiviral en el transcurso de las

primeras 12 horas. El paciente 5 fue trasladado a nuestro hospital y se le administró el tratamiento antiviral 72 horas después de que solicitó atención médica. Se administró metilprednisolona (MP) en inyección intravenosa a 11 pacientes con

FIGURA 1B. RM de seguimiento



Mejoría después del tratamiento (A2-E2). No se realizó la RM de seguimiento de la paciente 11 debido a la pandemia de COVID-19.

TABLA 3. Tratamiento de los pacientes con encefalitis asociada a la gripe

Número de caso	Oseltamivir	Aciclovir	MP en inyección intravenosa	IgIV (2 g/kg)	Plasmaféresis	Antiepilépticos
1	+	+	+/5 días	-	-	Levetiracetam
2	+	+	+/5 días	+/4 días	+/7 días	-
3	+	+	+/5 días	+/4 días	+/7 días	-
4	+	+	+/5 días	-	-	-
5	+	+	+/5 días	+/4 días	-	Levetiracetam/ácido valproico
6	+	+	+/5 días	-	-	-
7	+	+	+/5 días	+/4 días	+/7 días	Levetiracetam
8	+	+	+/5 días	-	-	Fenitoína
9	+	+	-	-	-	Levetiracetam
10	+	+	+/5 días	+/4 días	+/7 días	Levetiracetam
11	+	+	+/5 días	+/4 días	+/7 días	Levetiracetam
12	+	+	+/5 días	+/4 días	+/7 días	Levetiracetam
13	-	-	-	+/4 días	-	-

MP: metilprednisolona; IgIV: inmunoglobulina intravenosa.

un tiempo de inicio de 18,5 h. Se administró inmunoglobulina intravenosa (IgIV) en 7 casos, que estaban en fases más avanzadas y tenían alteraciones más graves en la RM. El paciente al que se le diagnosticó síndrome de Guillain-Barré también recibió IgIV. Además, se realizó plasmaféresis a 6 pacientes que tuvieron una respuesta parcial al tratamiento con MP en inyección intravenosa y con IgIV. Se administró una solución salina hipertónica para tratar los edemas. Se administró un tratamiento anticonvulsivo a 6 pacientes que tuvieron convulsiones y a 2 pacientes de forma preventiva (Tabla 3).

Abordaje y resultados

Once pacientes debieron permanecer en la UCIP durante una media de 16,3 días (mín.: 3 días-máx.: 44 días). Todos estos pacientes recibieron el alta hospitalaria con un puntaje GOSE medio de 7,3 (mín.: 5-máx.: 8) y se los contactó para un seguimiento mensual durante 9 meses. Los pacientes 5 y 11 presentaron epilepsia y requirieron un tratamiento anticonvulsivo (levetiracetam y ácido valproico). Además, los pacientes 10 y 11 tuvieron cambios de comportamiento, un retroceso de las funciones cognitivas y dificultad para caminar (Tabla 1). Seis pacientes recibieron fisioterapia tras el alta.

DISCUSIÓN

La gripe es una de las causas más frecuentes de encefalitis/encefalopatía aguda en pediatría. La encefalitis/encefalopatía asociada a la gripe se observó en todas las edades, desde la lactancia hasta la pubertad.⁴

Las epidemias de gripe tienen un patrón estacional característico, con un pico de incidencia en otoño e invierno.⁶ Las vacunas inactivadas y atenuadas con microbios vivos reducen el riesgo de infección gripal en los niños.⁷ No obstante, no hay certeza de que exista una relación entre la vacunación contra la gripe y la protección contra las complicaciones neurológicas.³

El mecanismo subyacente de la encefalitis asociada a la gripe es controvertido. Hay diferentes opiniones sobre la patogenia; la invasión viral, determinados acervos genéticos y la tormenta de citocinas podrían afectar la función del sistema nervioso central (SNC) y dañar el tejido del SNC.⁸ Fujimoto y cols., informaron que se detectó el ARN del virus de la gripe en el LCR.⁹ Por el contrario, en otros informes, solo unos pocos pacientes tuvieron resultados positivos

de ARN viral en el LCR.⁸ En nuestros pacientes, solo se detectó ARN viral en las muestras de los cultivos de exudado nasal. Con nuestros datos, abordamos el tratamiento de nuestros pacientes como una enfermedad inmunitaria, y no como la infección principal.

Los cambios de neuroimagenología de la encefalitis/encefalopatía asociada a la gripe incluyen alteraciones de la señal de la sustancia blanca cortical y subcortical, edema localizado o generalizado y lesiones multifocales simétricas bilaterales en el tálamo y la médula del cerebelo.¹⁰ A continuación, se presentan diferentes diagnósticos clínicos y de neuroimagenología: encefalopatía necrotizante aguda (ENA), síndrome de encefalopatía posterior reversible (SEPR), encefalomielitis aguda diseminada (EMAD), MERS, meningoencefalitis, encefalopatía aguda con convulsiones bifásicas y difusión reducida tardía (AESD), síndrome de choque hemorrágico y encefalopatía (HSES).^{11,12} Las RM de los pacientes 4, 5, 10, 11 y 13 tuvieron similitudes con lo expuesto en la bibliografía. En la RM de los pacientes 2, 3 y 7, se observó la afectación del núcleo caudado y el putamen en ambos hemisferios. La afectación aislada bilateral del núcleo caudado y del putamen no se observa con frecuencia en la bibliografía existente.^{2,4,12,13}

No existe un tratamiento específico para la encefalitis asociada a la gripe y hay diferentes formas de tratarla, que incluyen el tratamiento antiviral, corticoesteroides en dosis altas, IgIV y plasmaféresis.¹ La eficacia del oseltamivir con resultados favorables no es absoluta; no obstante, en las pautas de la Sociedad de Enfermedades Infecciosas de Estados Unidos, se recomienda el uso de oseltamivir, y algunas series aportaron datos que lo respaldan.^{5,14} La MP en inyección intravenosa, la IgIV y la plasmaféresis constituyen la inmunoterapia de elección para la encefalitis autoinmunitaria.¹⁵ Los mecanismos inmunitarios se consideran la patogenia subyacente de la encefalitis asociada a la gripe; por lo tanto, la MP en inyección intravenosa y la IgIV son las opciones terapéuticas más frecuentes.⁴

Se informó que entre el 21 % y el 45 % de los pacientes que sobreviven a la encefalitis asociada a la gripe tienen deficiencias neurológicas.^{1,3} Aún no se han determinado los factores pronósticos específicos de la encefalitis asociada a la gripe;³ el diagnóstico temprano fue el factor más relevante en nuestros casos. La RM es fundamental para lograr un diagnóstico y un tratamiento tempranos. Los hallazgos de la RM de la paciente 11 eran

los más graves, con características clínicas potencialmente mortales. Se le dio el alta con un puntaje GOSE de 5 y, durante el seguimiento, logró caminar con apoyo. El paciente 5 recibió el tratamiento más tarde que los demás, su puntaje GOSE fue bajo (6) y tuvo secuelas neurológicas. Los puntajes GOSE de los demás pacientes fueron altos (GOSE 7, 8), y estos no tuvieron secuelas durante el seguimiento. Creemos que la detección temprana y un tratamiento intensivo y temprano son importantes para la morbilidad en esta experiencia.

En este artículo, se presentaron diferentes complicaciones neurológicas de la gripe como hallazgos de la RM y características clínicas asociadas. La detección de las complicaciones neurológicas de la gripe es difícil, sobre todo cuando el cuadro clínico inicial no es típico. Los estudios de RM son sumamente importantes para lograr un diagnóstico y un tratamiento tempranos. La afectación de los núcleos caudados y del putamen en la RM no es frecuente en los casos de encefalitis asociada a la gripe. No obstante, durante la temporada gripal, se debe tener especialmente en cuenta esta afectación mediante exámenes clínicos y análisis de laboratorio y se debe iniciar el tratamiento lo antes posible. ■

Agradecimientos

Agradecemos la ardua labor del Departamento de Enfermedades Infecciosas Pediátricas y de la Unidad de Cuidados Intensivos Pediátricos.

REFERENCIAS

1. Paksu MS, Aslan K, Kendirli T, Akyildiz BN, et al. Neuroinfluenza: evaluation of seasonal influenza associated severe neurological complications in children (a multicenter study). *Childs Nerv Syst.* 2018; 34(2):335-47.
2. Dadak M, Pul R, Lanfermann H, Hartmann H, et al. Varying Patterns of CNS Imaging in Influenza A Encephalopathy in Childhood. *Clin Neuroradiol.* 2019; 30(2):243-9.
3. Britton PN, Blyth CC, Macartney K, Dale RC, et al. The Spectrum and Burden of Influenza-Associated Neurological Disease in Children: Combined Encephalitis and Influenza Sentinel Site Surveillance From Australia, 2013-2015. *Clin Infect Dis.* 2017; 65(4):653-60.
4. Chen LW, Teng CK, Tsai YS, Wang JN, et al. Influenza-associated neurological complications during 2014-2017 in Taiwan. *Brain Dev.* 2018; 40(9):799-806.
5. Goenka A, Michael BD, Ledger E, Hart IJ, et al. Neurological manifestations of influenza infection in children and adults: results of a National British Surveillance Study. *Clin Infect Dis.* 2014; 58(6):775-84.
6. Gómez-Barroso D, León-Gómez I, Delgado-Sanz C, Larrauri A. Climatic Factors and Influenza Transmission, Spain, 2010-2015. *Int J Environ Res Public Health.* 2017; 14(12):1469.
7. Jefferson T, Rivetti A, Di Pietrantonj C, Demicheli V. Vaccines for preventing influenza in healthy children. *Cochrane Database Syst Rev.* 2018; 2(2):CD004879.
8. Wang GF, Li W, Li K. Acute encephalopathy and encephalitis caused by influenza virus infection. *Curr Opin Neurol.* 2010; 23(3):305-11.
9. Fujimoto S, Kobayashi M, Uemura O, Iwasa M, et al. PCR on cerebrospinal fluid to show influenza-associated acute encephalopathy or encephalitis. *Lancet.* 1998; 352(9131):873-5.
10. Surana P, Tang S, McDougall M, Tong CY, et al. Neurological complications of pandemic influenza A H1N1 2009 infection: European case series and review. *Eur J Pediatr.* 2011; 170(8):1007-15.
11. Wilking AN, Elliott E, García MN, Murray KO, Munoz FM. Central nervous system manifestations in pediatric patients with influenza A H1N1 infection during the 2009 pandemic. *Pediatr Neurol.* 2014; 51(3):370-6.
12. Amin R, Ford-Jones E, Richardson SE, MacGregor D, et al. Acute childhood encephalitis and encephalopathy associated with influenza: a prospective 11-year review. *Pediatr Infect Dis J.* 2008; 27(5):390-5.
13. Britton PN, Dale RC, Blyth CC, Macartney K, et al. Influenza-associated Encephalitis/Encephalopathy Identified by the Australian Childhood Encephalitis Study 2013-2015. *Pediatr Infect Dis J.* 2017; 36(11):1021-6.
14. Tunkel AR, Glaser CA, Bloch KC, Sejvar JJ, et al. The management of encephalitis: clinical practice guidelines by the Infectious Diseases Society of America. *Clin Infect Dis.* 2008; 47(3):303-27.
15. Shin YW, Lee ST, Park KI, Jung KH, et al. Treatment strategies for autoimmune encephalitis. *Ther Adv Neurol Disord.* 2018; 11:1756285617722347.

Severe neurological manifestations of influenza during 2018-2019 influenza season: Case series of 13 pediatric patients

M. Gultekin Kutluk M.D.^a and E. Naz Kadem M.D.^b

ABSTRACT

Influenza is mostly associated with the respiratory tract system, especially in the winter season. Various neurological complications could occur due to influenza infection. Pediatric patients who had severe neurological manifestations due to influenza infection from September 2018 to February 2019 were evaluated for clinical characteristics, neuroimaging studies, treatment, and outcome. We aimed to assess Influenza-associated encephalitis in children, emphasize different neurological manifestations and neuroimaging changes. Thirteen patients were included in the study. Neurological symptoms occurred after flu-like symptoms. Neuroimaging changes of influenza-associated encephalitis/encephalopathy include cortical and subcortical white matter signal alterations, localized or generalized edema, and bilateral symmetrical multifocal lesions on the thalamus and cerebellar medulla. Pulse methylprednisolone, intravenous immunoglobulin, plasma exchange, and oseltamivir are the therapy choices. It is essential to consider influenza-associated encephalitis in patients with seizures, encephalopathy with supporting radiological findings, especially during the influenza season and starting treatment as fast as possible for better outcomes.

Key words: encephalitis, encephalopathy, Guillain-Barré syndrome, corpus callosum, pediatrics.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.eng.e142>

To cite: Kutluk MG, Kadem EN. Severe neurological manifestations of influenza during 2018-2019 influenza season: Case series of 13 pediatric patient. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e142-e148.

GLOSSARY

ADC: Apparent diffusion coefficient.

CSF: Cerebrospinal fluid.

EEG: Electroencephalography.

FLAIR: Fluid-attenuated inversion recovery.

GOSE: Glasgow outcome scale expanded.

IAE: Influenza-associated encephalitis.

IVIG: Intravenous immunoglobulin.

MP: Methylprednisolone.

MRI: Magnetic resonance imaging.

RIDT: Rapid influenza diagnostic tests.

INTRODUCTION

Children have influenza infection mostly with respiratory tract system symptoms, and are hospitalized due to respiratory and neurological complications, especially in the winter. Almost 90 million children are infected with influenza every year worldwide.^{1,2} Incidence of influenza-associated neurological complications show difference upon regions; Glaser et al., reported neurological complications of 1.2/1 000 000. In Japan, the incidence of influenza-associated encephalitis (IAE) was reported as 6-11/1 000 000 in 1999-2000.³ Neurological manifestations vary in a broad spectrum of severity, and are characterized by specific magnetic resonance imaging (MRI) findings. There are also many cases with different MRI changes that are not common in the literature.² Here in this study, we presented 13 pediatric cases with IAE during the 2018-2019 influenza season in a single center. This study marks on different severity and neuroimaging characteristics of IAE and treatment options.

METHODS

Study population

Patients aged 6 months to 18 years, admitted to a single center for influenza A infections with a severe neurological complication from September 2018 to December 2019, were retrospectively investigated. Patients' written consents were obtained from their legal guardians by the corresponding author.

a. Pediatric Neurology Department.

b. Pediatrics Clinic.

Antalya Research and Training Hospital, Antalya, Turkey.

E-mail address:

M. Gultekin Kutluk M.D: gultekinkutluk@gmail.com

Funding: None.

Conflict of interest: None.

Received: 5-20-2020

Accepted: 10-23-2020

Virology survey

Real-time reverse transcription-polymerase chain reaction (RT-PCR) and rapid influenza diagnostic tests (RIDT) were performed with the airway and cerebrospinal fluid (CSF) specimens.

Neuroimaging and electrophysiological studies

Electroencephalography (EEG) was performed for all patients and evaluated by the same pediatric neurologist. MRI with T1 and T2 weighted images, fluid-attenuated inversion recovery (FLAIR), diffusion-weighted imaging (DWI), and apparent diffusion coefficient (ADC, $b = 1000$) studies were acquired by 1.5 T or 3T MR machines. Gadolinium contrast medium was used for the demonstration of inflammation.

Clinical evaluation

All patients were evaluated and treated by pediatric neurology, pediatric infectious diseases, and pediatric intensive care unit (PICU) departments. Glasgow coma scale (GCS) was used to describe the general level of consciousness.⁴ Glasgow Outcome Scale Expanded (GOSE) was used to determine the outcome at discharge from the hospital.⁵

RESULTS

Demographic data

Thirteen patients were included in the study. Demographic data for all patients are shown in *Table 1*. Prior to the presentation, patients 5, 9, and 11 had medical comorbidities, and the rest

TABLE 1. Demographic data, first presentation characteristics and clinical course, outcome of IAE patients

Case Number	Age/Sex	Respiratory track symptoms onset (days)	Clinical Presentation	GCS at first presentation	Vaccine	EEG	Days in PICU	GOSE (after treatment)	Neurological sequela
1	21 m/F	7	Fever, coryza, seizures, altered mental status	10	No vaccine	Encephalopathic	8	8	None
2	11 y/F	15	Dysphagia, aphasia, altered mental status	12	No Vaccine	Encephalopathic	16	7	None
3	8 y/M	10	Dysphagia, aphasia, altered mental status	13	No vaccine	Encephalopathic	17	8	None
4	7 y/F	4	Transient visual loss	15	No vaccine	Not performed	0	8	None
5	16 y/M	6	Seizures, altered mental status	11	No vaccine	Encephalopathic	23	6	Epilepsy and behavioral disorder
6	8 y/M	4	Seizures, altered mental status	12	No vaccine	Encephalopathic	4	8	None
7	12 y/F	5	Headache, aphasia, seizures, altered mental status	13	No vaccine	Encephalopathic	11	8	None
8	10 y/M	4	Seizures, altered mental status	12	No vaccine	Encephalopathic	3	8	None
9	18 m/M	2	Fever, coryza, seizures, altered mental status	6	No vaccine	Convulsive status	5	8	None
10	6 y/M	15	Dystonia, aphasia, loss of consciousness	9	No vaccine	Encephalopathic	20	6	Intellectual disability, behavioral disorder, walking difficulties
11	16 y/F	11	Dystonia, aphasia, loss of consciousness	8	No vaccine	Encephalopathic, centrotemporal epileptic activity	44	5	Intellectual disability spastic tetraparesis
12	9 y/M	7	Delirium, altered mental status	9	No vaccine	Encephalopathic	29	8	None
13	8 y/F	15	Ataxia	15	No vaccine	Not performed	0	8	None

GCS: Glasgow coma score; EEG: electroencephalography; PICU: pediatric intensive care unit; GOSE: Glasgow outcome scale expanded; F: female; M: male.

were healthy. Patient 5 had epilepsy, and patient 11 had mental retardation. Patient 9 was born prematurely. Three patients had consanguineous parents.

Neurological symptoms

All patients developed neurological symptoms after a mean of 8.07 days (min. 4 days - max. 15 days) of flu-like symptoms. The first presentation was the altered state of consciousness in 11 of 13 patients, and GCS was mean 11.15 (min. 6 - max. 15). Four of them gained consciousness after day 1, while 7 of them had persistent high cortical function impairment. One patient developed urine retention, which was considered as autonomic dysfunction (P2). Six were presented with seizures, and patient 9 had status epilepticus (Table 1).

Laboratory findings

Influenza A was detected by PCR (10 patients, 76.9 %) or RIDT (3 patients, 23.1 %) from the nasal swab. No microorganisms were detected from neither blood nor CSF samples. There was no other abnormality in laboratory studies related to the mentioned clinical features. (Table 2)

Neuroimaging examinations and EEG findings

Pathological EEG studies were reported as encephalopathy, centrotemporal epileptic

activity, and convulsive status (Table 1). Patient 5 had frontotemporal epileptic activity on the follow-up, and patient 11 had centrotemporal epileptic activity on EEG. Cranial MRI scans of patient 4 showed signal alterations in the splenium of the corpus callosum, which was hyperintense on T2WI-FLAIR and restricted diffusion, isointense on T1WI with no contrast enhancement (Figure 1A-D1). Consequently, she was diagnosed with mild encephalitis/encephalopathy with a reversible splenial lesion of corpus callosum (MERS). MRI changes were alike in three cases (Patients 2, 3 and 7). All showed bilaterally swollen nucleus caudatus, and lentiform nuclei with T2/FLAIR hyperintensity (Figure 1A- A1, B1, C1), and this lesion demonstrated restricted diffusion with decreased signal intensity in ADC maps. Patient 10 had signal alterations in the pons, mesencephalon, medulla oblongata, and cerebellar peduncles with T2/FLAIR hyperintensity and restricted diffusion with decreased signal intensity in ADC maps of the pons (Figure 1A-E1). MRI scans of patient 11 showed hemorrhagic changes at the bilateral thalamus, mesencephalon, and cerebellar hemispheres. T2/FLAIR images showed hyperintensity at bilateral thalamus, basal ganglia, mesencephalon, pons and periventricular white matter (Figure 1A-F1). Diffusion-weighted ADC map images showed

TABLE 2. Laboratory findings

Case number	CSF	Influenza type	Blood culture	Autoimmune encephalitis panel
1	Normal	Influenza A (PCR)	Sterile	-
2	Normal	Influenza A (H1N1) (PCR)	Sterile	Normal
3	Pleocytosis	Influenza A (H1N1) (PCR)	Sterile	Normal
4	Normal	Influenza A (H1N1) (RIDT)	Sterile	-
5	Normal	Influenza A (PCR)	Sterile	-
6	Normal	Influenza A (PCR)	Sterile	-
7	Normal	Influenza A (PCR)	Sterile	-
8	Normal	Influenza A (RIDT)	Sterile	-
9	Normal	Influenza A (RIDT)	Sterile	-
10	Normal	Influenza A (PCR)	Sterile	Normal
11	Normal	Influenza A (PCR)	Sterile	Normal
12	Normal	Influenza A (PCR)	Sterile	Normal
13	Albumin-cytologic dissociation	Influenza A (PCR)	Sterile	-

Autoimmune encephalitis panel: N-methyl-D-aspartate receptor, anti-glutamate type α -amino-3-hydroxy-5-methyl-4-isoxazolepropionic acid 1 and 2, anti-contactin-associated protein-like 2, anti-gamma-aminobutyric acid B receptor, anti-leucine-rich, glioma inactivated 1 antibody.

CSF: cerebrospinal fluid; PCR: polymerase chain reaction; RIDT: rapid influenza diagnostic tests.

restricted diffusion in the bilateral thalamus, posterior horn of internal capsule, and frontoparietal periventricular white matter. MRI studies of patient 5 demonstrated gird expansion and edema in the left frontotemporoparietal area on pre-contrast studies with T2/FLAIR hyperintensity. Also, there was a leptomeningeal enhancement on post-contrast FLAIR images. Patient 13 showed contrast enhancement on the conus medullaris and the nerve roots of the cauda equina. Follow-up MRIs showed improvement (Figure 1B).

Treatment

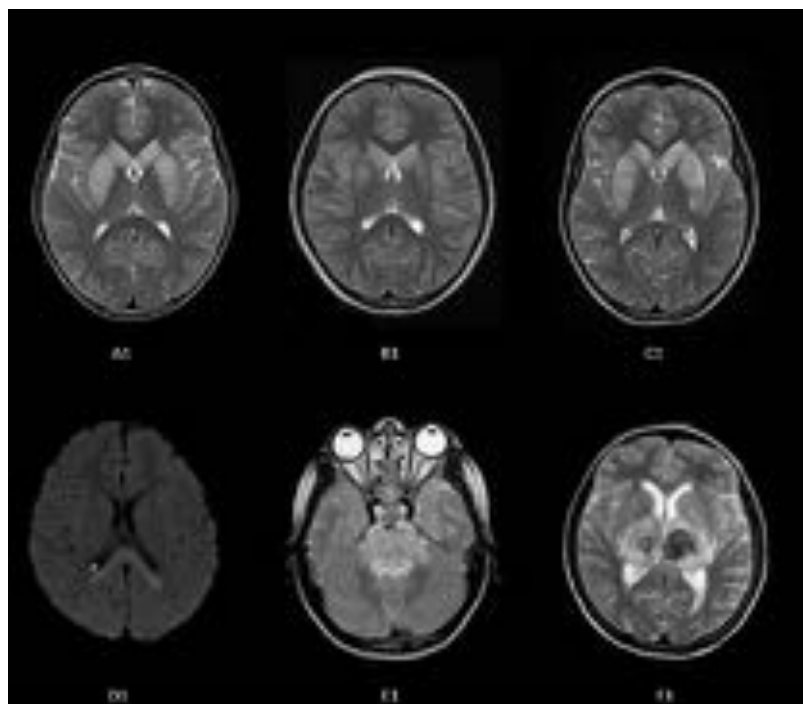
Acyclovir and oseltamivir were given as antiviral treatment until microbiological results came back. Eleven patients received antiviral treatment within the first 12 hours. Patient 5 was transferred to our hospital and given antiviral treatment after 72 hours of the first presentation to medical attention. Pulse methylprednisolone (MP) was given to eleven patients with an initiation time of 18,5 h. Intravenous immunoglobulin (IVIG) was applied

to seven cases, which were more advanced and had more severe MRI changes. Also, the patient diagnosed with Guillain-Barré syndrome received IVIG. Plasma exchange was also performed for six patients who partially responded to pulse MP and IVIG treatments. Hypertonic saline infusion was administered as anti-edema treatment. Anti-convulsant therapy was given to six patients who had seizures, and two patients for prevention (Table 3).

Management and outcome

Eleven patients required PICU stay for a mean of 16.3 days (min. 3 days-max. 44). All patients were discharged from the hospital with a mean 7.3 GOSE (min. 5-max. 8) and called for monthly follow-ups in 9 months. Patients 5 and 11 developed epilepsy and required anti-convulsant treatment (levetiracetam and valproic acid). Also, patients 10 and 11 showed behavioral changes, regression of cognitive functions, and walking difficulties (Table 1). Six patients had physiotherapy after discharge.

FIGURE 1A. MRI at presentation



Bilaterally swollen nucleus caudatus and lentiform nuclei with T2/FLAIR hyperintensity (A1, B1, C1), signal alterations in the splenium of corpus callosum, which was hyperintense on T2WI-FLAIR (D1). Pons and cerebellar peduncle with T2/FLAIR hyperintensity (E1), bilateral thalamus with T2/FLAIR hyperintensity and hemorrhagic changes (F1). Patients 1, 6, 8, 9, and 12 had normal MRI findings.

DISCUSSION

Influenza is one of the most common causes of pediatric acute encephalitis/encephalopathy. Influenza-associated encephalitis/encephalopathy could be seen in all ages, from infancy to puberty.⁴

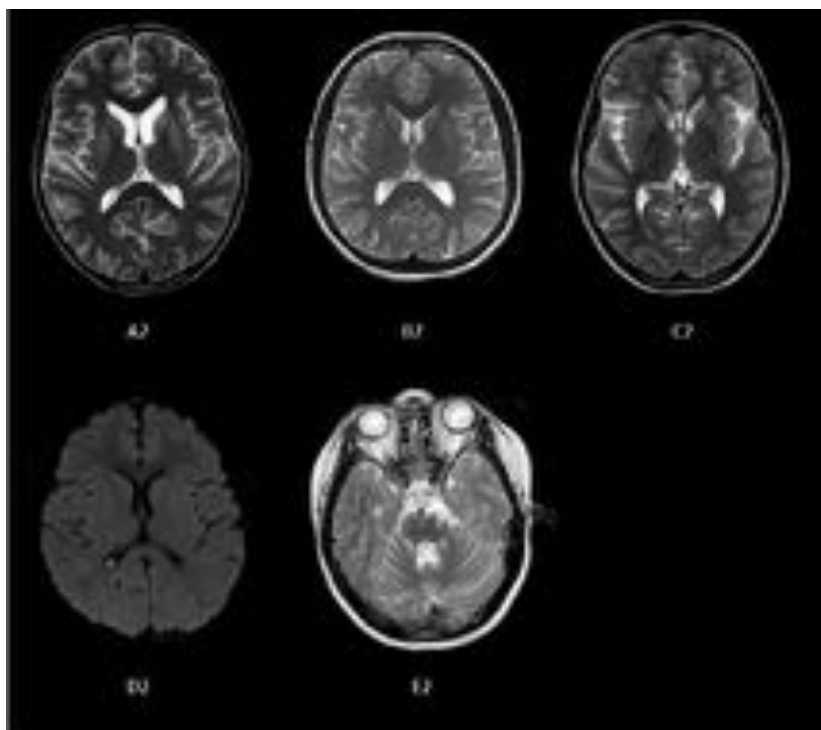
Influenza epidemics show a characteristic seasonal pattern with peak incidence occurring in fall and winter.⁶ Live attenuated and inactivated vaccines reduce the risk of influenza infection in children.⁷ However, there is no certain evidence between influenza vaccination and protection

TABLE 3. Treatment of IAE patients

Case number	Oseltamivir	Acyclovir	Pulse MP	IVIG (2 g/kg)	Plasmapheresis	Antiepileptic
1	+	+	+/5 days	-	-	Levetiracetam
2	+	+	+/5 days	+/4 days	+/7 days	-
3	+	+	+/5 days	+/4 days	+/7 days	-
4	+	+	+/5 days	-	-	-
5	+	+	+/5 days	+/4 days	-	Levetiracetam/ Valproic acid
6	+	+	+/5 days	-	-	-
7	+	+	+/5 days	+/4 days	+/7 days	Levetiracetam
8	+	+	+/5 days	-	-	Phenytoin
9	+	+	-	-	-	Levetiracetam
10	+	+	+/5 days	+/4 days	+/7 days	Levetiracetam
11	+	+	+/5 days	+/4 days	+/7 days	Levetiracetam
12	+	+	+/5 days	+/4 days	+/7 days	Levetiracetam
13	-	-	-	+/4 days	-	-

MP: methylprednisolone; IVIG: intravenous immunoglobulin.

FIGURE 1B. Follow-up MRIs



After treatment, improved (A2-E2). Patient 11's follow-up MRI study wasn't performed because of COVID-19 pandemic.

against neurological complications.³

The underlying mechanism of influenza encephalitis is controversial. There are different opinions on pathogenesis; viral invasion, certain genetic backgrounds and cytokine storm could influence the CNS function, and damage the CNS tissue.⁸ Fujimoto et al. reported that influenza virus RNA was detected in the CSF,⁹ contrary, in other reports, only a few patients were positive for viral RNA in CSF.⁸ Viral RNA was only detected in nasal swab samples of our patients. With our evidence, we managed our patients' treatment as an immune-related disease, not as the primary infection.

Neuroimaging changes of influenza-associated encephalitis/encephalopathy include cortical and subcortical white matter signal alterations, localized or generalized edema, and bilateral symmetrical multifocal lesions on the thalamus and cerebellar medulla.¹⁰ Different clinical-neuroimaging diagnoses are the following; ANE (acute necrotizing encephalopathy), PRES (posterior reversible encephalopathy syndrome), ADEM (acute disseminated encephalomyelitis), MERS, meningoencephalitis, AESD (acute encephalopathy with biphasic seizures and late diffusion restriction), HSES (hemorrhagic shock and encephalopathy syndrome).^{11,12} MRI studies of patients 4, 5, 10, 11 and 13 showed similarity to literature. Patients 2, 3 and 7 showed bilateral nucleus caudatus and putamen involvements in MRI. Isolated bilateral nucleus caudatus and putamen involvements are not frequently seen in published literature.^{2,4,12,13}

There is no specific treatment for IAE, and there are several aspects of treatment, including antiviral therapy, high dose corticosteroids, IVIg, and plasma exchange.¹ The efficiency of oseltamivir on favorable outcomes is not absolute, but Infectious Disease Society of America guidelines recommend oseltamivir, and some series have supporting evidence.^{5,14} Pulse MP, IVIG, and plasma exchange are the first line immunotherapy for autoimmune encephalitis.¹⁵ Immune-related mechanisms are considered as the underlying pathogenesis for IAE; therefore, pulse MP and IVIG are the frequently used treatment options.⁴

Among surviving patients of IAE, neurological deficits were reported in 21-45%.^{1,3} Specific prognostic factors are not determined for IAE,³ early diagnosis was the most relevant factor in our cases. MRI is essential to make an early diagnosis and treatment. Patient 11 had the most

severe MRI findings and life-threatening clinical features. She was discharged with a GOSE score of 5, and on the follow-up, she was able to walk with support. Patient 5 received treatment later than others, his GOSE score was low (6), and he developed neurological sequelae. GOSE scores were high (GOSE 7,8) for the rest and sequelae-free on follow-ups. We think early recognition, early and intense therapy are important on morbidity and mortality with this experience.

In this paper, severe neurological complications of influenza were presented as different MRI findings and associated clinical features. Recognition of neurological complications of influenza is difficult, especially when the presentation is not typical. MRI studies are highly important for early diagnosis and treatment. Nucleus caudatus and putamen involvements on MRI are unusual for IAE. Nevertheless, during the influenza season, these involvements should be considered carefully with clinical and laboratory evaluations and start treatment as early as possible. ■

Acknowledgment

We are grateful for all the hard work of pediatric infectious diseases and pediatric intensive care unit departments.

REFERENCES

1. Paksu MS, Aslan K, Kendirli T, Akyildiz BN, et al. Neuroinfluenza: evaluation of seasonal influenza associated severe neurological complications in children (a multicenter study). *Childs Nerv Syst.* 2018; 34(2):335-47.
2. Dadak M, Pul R, Lanfermann H, Hartmann H, et al. Varying Patterns of CNS Imaging in Influenza A Encephalopathy in Childhood. *Clin Neuroradiol.* 2019; 30(2):243-9.
3. Britton PN, Blyth CC, Macartney K, Dale RC, et al. The Spectrum and Burden of Influenza-Associated Neurological Disease in Children: Combined Encephalitis and Influenza Sentinel Site Surveillance From Australia, 2013-2015. *Clin Infect Dis.* 2017; 65(4):653-60.
4. Chen LW, Teng CK, Tsai YS, Wang JN, et al. Influenza-associated neurological complications during 2014-2017 in Taiwan. *Brain Dev.* 2018; 40(9):799-806.
5. Goenka A, Michael BD, Ledger E, Hart IJ, et al. Neurological manifestations of influenza infection in children and adults: results of a National British Surveillance Study. *Clin Infect Dis.* 2014; 58(6):775-84.
6. Gómez-Barroso D, León-Gómez I, Delgado-Sanz C, Larrauri A. Climatic Factors and Influenza Transmission, Spain, 2010-2015. *Int J Environ Res Public Health.* 2017; 14(12):1469.
7. Jefferson T, Rivetti A, Di Pietrantonj C, Demicheli V. Vaccines for preventing influenza in healthy children. *Cochrane Database Syst Rev.* 2018; 2(2):CD004879.
8. Wang GF, Li W, Li K. Acute encephalopathy and encephalitis caused by influenza virus infection. *Curr Opin Neurol.* 2010; 23(3):305-11.
9. Fujimoto S, Kobayashi M, Uemura O, Iwasa M, et al. PCR on cerebrospinal fluid to show influenza-associated acute

- encephalopathy or encephalitis. *Lancet*. 1998; 352(9131):873-5.
10. Surana P, Tang S, McDougall M, Tong CY, et al. Neurological complications of pandemic influenza A H1N1 2009 infection: European case series and review. *Eur J Pediatr*. 2011; 170(8):1007-15.
 11. Wilking AN, Elliott E, García MN, Murray KO, Munoz FM. Central nervous system manifestations in pediatric patients with influenza A H1N1 infection during the 2009 pandemic. *Pediatr Neurol*. 2014; 51(3):370-6.
 12. Amin R, Ford-Jones E, Richardson SE, MacGregor D, et al. Acute childhood encephalitis and encephalopathy associated with influenza: a prospective 11-year review. *Pediatr Infect Dis J*. 2008; 27(5):390-5.
 13. Britton PN, Dale RC, Blyth CC, Macartney K, et al. Influenza-associated Encephalitis/Encephalopathy Identified by the Australian Childhood Encephalitis Study 2013-2015. *Pediatr Infect Dis J*. 2017; 36(11):1021-6.
 14. Tunkel AR, Glaser CA, Bloch KC, Sejvar JJ, et al. The management of encephalitis: clinical practice guidelines by the Infectious Diseases Society of America. *Clin Infect Dis*. 2008; 47(3):303-27.
 15. Shin YW, Lee ST, Park KI, Jung KH, et al. Treatment strategies for autoimmune encephalitis. *Ther Adv Neurol Disord*. 2018; 11:1756285617722347.

Tumores ováricos en pediatría: revisión de los casos en un servicio de pediatría durante 10 años

Pediatric ovarian tumors: a 10-year review in a pediatric service

Lic. Gloria Caro Chinchilla^a, Lic., FEA Cristina Martínez Faci^a y Lic., FEA Macarena González Cruz^a

RESUMEN

Los tumores ováricos, a diferencia de lo que sucede en la edad adulta, son infrecuentes en la población pediátrica. Predomina la estirpe germinal, con altas tasas de supervivencia. El objetivo de este estudio es presentar la epidemiología, clínica, diagnóstico y tratamiento de las pacientes de 0-15 años con diagnóstico, entre 2007 y 2017, de tumor ovárico en nuestro centro. Fueron 8 los casos encontrados de 171 tumores diagnosticados (el 4,7%), con edad media de presentación de 12,5 años. Predominaban, al momento del debut, alteraciones menstruales, dolor abdominal y aumento de perímetro abdominal. Fueron de tipo germinal 6/8, y el teratoma maduro fue el más frecuente. Todas se diagnosticaron con ecografía abdominal, y se confirmó el diagnóstico en 7/8 con resonancia magnética. Se intervinieron todos los casos; predominó la salpingo-ooforectomía, y una paciente precisó quimioterapia adyuvante. La supervivencia libre de enfermedad fue del 100%.

Palabras clave: biomarcadores de tumor, ovariectomía, pediatría, neoplasias ováricas, neoplasias de células germinales y embrionarias.

ABSTRACT

Unlike adults, ovarian tumors are infrequent in the pediatric population, predominating the germ line at this age, with high survival rates. The objective is to present the epidemiological, clinical, diagnosis and therapeutic characteristics of 0 to 15-year-old patients diagnosed with ovarian tumor in our center between 2007 and 2017.

Eight cases out of 171 diagnosed tumors (4.7%) were found, with a mean age of presentation of 12.5 years. At the moment of diagnosis, menstrual disturbances, abdominal pain and an increase in abdominal circumference predominated. Six out of eight were germ cell tumors, being the mature teratoma the most frequent one. All cases were diagnosed with abdominal ultrasound scan, confirmed in 7/8 cases with magnetic resonance imaging. All cases underwent surgery, predominating salpingo-oophorectomy with one patient requiring adjuvant chemotherapy. Disease-free survival was 100%.

Key words: neoplasms, germ cell and embryonal, ovariectomy, ovarian neoplasms, pediatrics, biomarkers, tumor.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.e149>

Cómo citar: Caro Chinchilla C, Martínez Faci C, González Cruz M. Tumores ováricos en pediatría: revisión de los casos en un servicio de pediatría durante 10 años. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e149-e152.

INTRODUCCIÓN

Los tumores ováricos son infrecuentes en pediatría, con una incidencia de 2,6/100 000 niñas/año,^{1,2} que constituyen el 1-5 % del total de tumores infantiles. El diagnóstico es más frecuente entre los 9 y los 12 años de edad.³⁻⁵ Según su histología, se clasifican en tumores epiteliales, germinales y del estroma, y cordones sexuales. En la población adulta, los tumores ováricos suponen la quinta causa de muerte por cáncer, y predomina la estirpe epitelial, mientras que, en la población pediátrica, la tasa de supervivencia es muy alta, y la estirpe germinal es la más frecuente (el 40-90 %).^{1,3,6} La tasa de malignidad difiere en distintas revisiones.⁷⁻⁹ En algunas, es mayor en la etapa previa a la menarquia y, en otras, en la etapa posterior.

La baja incidencia de tumores ováricos en esta población fomenta la escasez de estudios con una muestra suficientemente amplia y multicéntrica como para obtener suficiente evidencia, de forma que le han sido aplicados protocolos destinados a la población adulta. Dadas las diferencias epidemiológicas, clínicas e histopatológicas entre ambas poblaciones, describir las características propias de la población pediátrica permite entender mejor su historia natural y poder elaborar protocolos más ajustados a su realidad. El objetivo de este estudio es presentar la epidemiología, clínica, diagnóstico y tratamiento de las pacientes de 0-15 años a quienes se les diagnosticó, entre 2007 y 2017, tumor ovárico en nuestro centro.

a. Facultativo Especialista de Área. Complejo Hospitalario Universitario de Canarias, Universidad de La Laguna, Santa Cruz de Tenerife, España.

Correspondencia:

Lic. Gloria Caro Chinchilla: gloriacarochin@gmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 27-5-2020

Aceptado: 24-9-2020

MÉTODOS

Se realizó una búsqueda retrospectiva en la base de datos del Servicio de Oncología Pediátrica del Hospital Universitario de Canarias (Tenerife, España) de todas las pacientes menores de 15 años con diagnóstico de neoplasia de ovario entre 2007 y 2017 atendidas en dicho centro. El estudio fue aprobado por el Comité de Ética del mismo hospital tras solicitar la autorización de todas las participantes o de sus tutores legales. Se llevó a cabo un análisis descriptivo y observacional de los datos epidemiológicos, clínicos, diagnósticos, histológicos y terapéuticos, así como de la evolución posterior. Para la recogida de datos, se ha usado una hoja Excel diseñada a tal efecto para ser introducida en el programa estadístico SPSS v.17. Las variables continuas se mostraron como medias +/- desviación estándar (DE) y como medianas, y su rango intercuartílico y las variables categóricas, como porcentaje.

RESULTADOS

De los 171 tumores diagnosticados en población pediátrica en el período descrito, el 4,7 % (8) fueron ováricos, y supusieron el 9,4 % de los tumores en niñas.

El resumen de los datos de nuestras pacientes se presenta en la *Tabla 1*. La edad media al momento del diagnóstico fue 12,7 años (rango: 9,4-14,2 años). Seis pacientes habían tenido la menarquia a una edad media de 11,1 años (rango: 9-13 años).

Respecto al motivo de consulta, en tres casos, fue un hallazgo incidental en exploraciones realizadas por otras causas (radiografía abdominal en el contexto de escoliosis, ecografía abdominal en un estudio de obesidad y en la palpación de masa abdominal en una consulta por un proceso infeccioso), sin presentar ninguna sintomatología. De las 5 pacientes restantes, los síntomas más frecuentes fueron dolor abdominal de horas a días de evolución (3/5), aumento del perímetro abdominal (3/5) y desajustes menstruales (3/5), con anemia ferropénica secundaria a hipermenorrea en uno de los casos.

A todas las pacientes se les realizó una ecografía abdominal como prueba de imagen diagnóstica inicial, y se confirmaron los hallazgos por resonancia magnética nuclear (RMN) en siete de ellas. La mediana del tamaño de los tumores fue 16,9 cm (4,9-32), y todos fueron unilaterales.

Tabla 1. Datos epidemiológicos, clínicos, analíticos, diagnósticos y terapéuticos de todas las pacientes

Paciente	Año de diagnóstico	Edad (años)	Menarquia (años)	Clínica	Lateralidad	Tamaño (cm)	Histología	Marcadores positivos	Tratamiento	Vía de abordaje
1	2010	13	Sí (11)	Dolor abdominal agudo Aumento del perímetro abdominal	Izquierdo	18	Mixto (teratoma inmaduro grado II + seno endodérmico grado III)	AFP, β -HCG, Ca-125	Anexectomía unilateral + quimioterapia	Laparotomía
2	2010	11	No	Asintomática	Derecho	6,5	Fibroma calcificado	Negativos	Tumorectomía	Laparoscopia
3	2011	9	No	Dolor abdominal agudo	Derecho	4,9	Teratoma maduro	Ca-19,9, Ca-125	Tumorectomía	Laparoscopia
4	2012	13	Sí (11)	Dolor abdominal crónico Alteraciones menstruales	Izquierdo	7,3	Teratoma quístico maduro unilateral	Negativos	Ooforectomía	Laparoscopia
5	2015	12	Sí (11)	Asintomática	Izquierdo	20,2	Teratoma quístico maduro	Negativos	Anexectomía unilateral	Laparoscopia
6	2015	14	Sí (13)	Asintomática	Izquierdo	15,7	Teratoma maduro	Negativos	Ooforectomía	Laparoscopia
7	2017	11	Sí (9)	Aumento del perímetro abdominal Alteraciones menstruales Síndrome anémico	Derecho	32	Cistoadenoma seroso	Ca-125	Anexectomía unilateral	Laparoscopia
8	2017	13	Sí (12)	Aumento del perímetro abdominal Alteraciones menstruales	Derecho	32	Teratoma inmaduro grado II	AFP	Anexectomía unilateral	Laparoscopia

Valores de referencia: AFP < 10 ng/ml; β -HCG < 5 mIU/ml; Ca-125 < 35 U/ml; Ca-19,9 < 37 U/ml.
AFP: alfa feto-proteína; β -HCG: gonadotropina coriónica humana β .

Todas las pacientes fueron intervenidas quirúrgicamente; 7 de ellas, por laparoscopia, y se realizó laparotomía en una al visualizarse implantes peritoneales en la RMN. Los procedimientos quirúrgicos realizados fueron salpingo-ooforectomía (n = 4), ooforectomía (n = 2) y tumorectomía (n = 2). Todas conservaron el ovario contralateral.

En cuanto a su histología, predominó la estirpe germinal (n = 6). El tipo más frecuente fue el teratoma maduro (n = 4), y a las dos restantes se les diagnosticó teratoma inmaduro y tumor mixto (teratoma inmaduro + tumor del seno endodérmico). El tumor de estirpe epitelial fue un cistoadenoma seroso, y el de los cordones sexuales, un fibroma calcificado.

A todas las pacientes se les realizó analítica sanguínea al momento del diagnóstico, con determinación de marcadores tumorales. Alfa feto-proteína (AFP) y gonadotropina coriónica humana β (*β human chorionic gonadotropin*; β -HCG, por sus siglas en inglés) fueron positivas en los casos de tumores germinales inmaduros. Ca-125 fue positivo en 3/5 casos, que correspondieron a tumores de distinta estirpe.

Se realizó un estudio de extensión (radiografía y tomografía computarizada torácicas) en las pacientes afectas de teratoma inmaduro y de tumor mixto, sin hallazgos patológicos en ambos casos. Solo la paciente afecta de tumor germinal mixto precisó tratamiento adyuvante con quimioterapia (carboplatino, etopósido y bleomicina). La supervivencia en todas las pacientes ha sido del 100 %, sin recidivas a lo largo de su seguimiento.

DISCUSIÓN

Según la literatura, los tumores ováricos en la edad pediátrica producen signos y síntomas inespecíficos y poco sensibles, que no diferencian benignidad de malignidad, tal y como ocurre en las pacientes de nuestra muestra. Los síntomas y signos más frecuentes descritos en otras muestras más amplias son el dolor abdominal y la masa palpable,^{4,10} pero, en otros casos, pueden debutar con alteraciones en la menstruación, como ocurrió con tres de nuestras pacientes, o incluso con pubertad precoz si presentan actividad endocrina, abdomen agudo al producirse una torsión o hemorragia del tumor, o con síntomas por compresión de estructuras vecinas, como estreñimiento, polaquiuria o urgencia urinaria. En frecuentes ocasiones, las pacientes se encuentran asintomáticas, lo que supone un hallazgo casual

en la exploración física o en pruebas de imagen realizadas por otros motivos, como ocurrió en tres de nuestras pacientes.

Los marcadores tumorales son parámetros útiles en el seguimiento de recidivas, ya que su elevación es muy sensible, por lo que preceden a la clínica y al diagnóstico por imagen. Algunos servirán como aproximación al origen histológico del tumor,^{2,3} puesto que AFP y β -HCG se elevan predominantemente en los subtipos germinales, mientras que el Ca-125 se asocia, sobre todo, a los tumores epiteliales, aunque cada vez más su especificidad está en entredicho.^{3,7,10} Existe controversia al respecto, pero son varias las revisiones que coinciden en que, si los marcadores tumorales se correlacionan con gran tamaño o con determinadas características morfológicas del tumor, pueden aumentar la especificidad para determinar benignidad o malignidad, aunque algunas de estas revisiones incluyen masas no neoplásicas.^{7,11}

Al ser más frecuentes en la población pediátrica los tumores germinales, los marcadores que fueron solicitados a nuestras pacientes de forma casi global fueron la β -HCG y la AFP, con positividad, en los dos casos, de tumores germinales inmaduros. Ca-125 fue otro marcador significativamente estudiado en nuestra muestra, quizás, por tomar como referencia a la población adulta, que presentaba una amplia positividad de este marcador al predominar los tumores epiteliales. No obstante, en nuestra muestra, se correspondió tanto con tumores germinales como epiteliales. Otros marcadores, como Ca-19,9, lactato deshidrogenasa (LDH) y antígeno carcinoembrionario (*carcinoembryonic antigen*; CEA, por sus siglas en inglés), han tenido una representación más anecdótica en nuestra muestra, aunque el primero de ellos fue positivo en uno de los casos de tumor germinal.

La ecografía tiene una gran sensibilidad para identificar estos tumores, aunque, en nuestra muestra, se realizó, además, una RMN abdominal en 7 de las 8 pacientes para caracterizar mejor las masas y su extensión de cara a la cirugía. Según el resultado de la anatomía patológica, será necesario completar con un estudio de extensión, tal y como se realizó en los dos casos de teratoma inmaduro. Otras técnicas, como la gammagrafía ósea o la tomografía por emisión de positrones (*positron emission tomography*; PET, por sus siglas en inglés), pueden ser necesarias cuando hay marcadores tumorales elevados sin identificación de la localización por otros métodos de imagen.²

La cirugía es necesaria tanto para el diagnóstico histopatológico como para el tratamiento. Debe ir destinada a conservar, en lo posible, tejido ovárico para preservar su función y la capacidad reproductiva de las pacientes, por lo que es necesaria una adecuada planificación quirúrgica basada en los hallazgos de imagen y los marcadores tumorales.¹¹ En dos de nuestras pacientes, fue posible realizar tumorectomía con preservación del ovario afecto. Ambos casos se correspondieron con los tumores más pequeños de la muestra, que resultaron ser, posteriormente, un teratoma maduro y un fibroma calcificado (4,9 y 6,5 cm, respectivamente).

Las metástasis identificadas en el momento del diagnóstico son raras y se suelen relacionar con el teratoma inmaduro. Tan solo en una de nuestras pacientes, que se correspondía con el tumor mixto, se presentaron implantes peritoneales. Para la estadificación de estos tumores, se han utilizado tanto la clasificación de la Federación Internacional de Ginecología y Obstetricia (FIGO)¹² para cualquier tipo histológico de tumor ovárico como la propuesta por el Grupo de Oncología Infantil (*Children's Oncology Group*, COG)¹³ para la estadificación de tumores germinales, basados en los hallazgos de imagen y quirúrgicos, invasión a otros tejidos, así como en los niveles de marcadores tumorales. La terapia adyuvante propuesta por el COG para los tumores de células germinales está basada en cisplatino, etopósido y bleomicina, tal y como se aplicó en nuestra paciente.

La mayoría de los tumores ováricos en la población pediátrica son benignos, aunque pueden malignizarse en su evolución.⁴ Los tumores germinales inmaduros conforman el mayor porcentaje de casos de malignidad, a pesar de lo cual tienen un alto porcentaje de supervivencia.¹⁰ El 100 % de supervivencia de nuestra muestra se correspondió con la descrita en las series revisadas, del 85-100 %.^{1,3,14} ■

REFERENCIAS

- Vázquez Rueda F, Murcia Pascual FJ, Siu Uribe A, Ortega Salas RM, et al. Análisis de los tumores sólidos ováricos pediátricos en nuestra población. *An Pediatr*. 2020; 92(2):88-93.
- Villarreal Peña N, Pavía Sesma C, Cordón A, Ribó JM, et al. Patología tumoral ovárica infrecuente: comentarios a partir de 3 casos. *Rev Esp Endocrinol Pediatr*. 2013; 4(1):54-61.
- Gonzalo Alonso E, Merino Marcos I, Fdez-Teijeiro Álvarez A, Astigarraga Aguirre I, et al. Tumores ováricos en la infancia: a propósito de una revisión casuística. *An Esp Pediatr*. 1998; 49(5):491-4.
- Sulb AA, El Haija MA, Muthukumar A. Incidental finding of a huge ovarian serous cystadenoma in an adolescent female with menorrhagia. *SAGE Open Med Case Rep*. 2016; 4:2050313X16645755.
- Faure-Contier C, Pashankar F. Immature Ovarian Teratoma: When to Give Adjuvant Therapy? *J Pediatr Hematol Oncol*. 2017; 39(7):487-9.
- Yeap ST, Hsiao CC, Hsieh CS, Yu HR, et al. Pediatric malignant ovarian tumors: 15 years of experience at a single institution. *Pediatr Neonatol*. 2011; 52(3):140-4.
- Łuczak J, Baglaj M. Selecting treatment method for ovarian masses in children- 24 years of experience. *J Ovarian Res*. 2017; 10(1):59.
- Marginean CO, Marginean C, Chincesan M, Marginean MO, et al. Pediatric ovarian tumors, a challenge for pediatrician and gynecologist: three case reports (CARE compliant). *Medicine (Baltimore)*. 2019; 98(16):e15242.
- Andrés MM, Costa E, Cañete A, Moreno L, et al. Solid ovarian tumours in childhood: a 35-year review in a single institution. *Clin Transl Oncol*. 2010; 12(4):287-91.
- Goudie C, Witkowski L, Vairy S, McCluggage WG, et al. Paediatric ovarian tumours and their associated cancer susceptibility syndromes. *J Med Genet*. 2018; 55(1):1-10.
- Papic JC, Finnell SM, Slaven JE, Billmire DF, et al. Predictors of ovarian malignancy in children: overcoming clinical barrier of ovarian preservation. *J Pediatr Surg*. 2014; 49(1):144-7.
- Bhatla N, Denny L. FIGO Cancer Report 2018. *Int J Gynaecol Obstet*. 2018; 143(Suppl 2):2-3.
- Rogers PC, Olson TA, Cullen JW, Billmire DF, et al. Treatment of Children and Adolescents with Stage II testicular and Stages I and II Ovarian Malignant Germ Cell tumors: a Pediatric Intergroup Study-Pediatric Oncology group 9048 and Children's Cancer Group 8891. *J Clin Oncol*. 2004; 22(17):3563-9.
- Ruiz Catena MJ. Estudio de la patología tumoral ovárica en la población pediátrica de Málaga [Tesis de maestría]. I Máster Universitario de Urología Pediátrica. Sevilla: Universidad Internacional de Andalucía, 2016. [Acceso: 24 de septiembre de 2020]. Disponible en: https://dspace.unia.es/bitstream/handle/10334/3575/0713_Ruiz.pdf?sequence=1&isAllowed=y.

Actinomicosis en el hueso temporal. Reporte de un caso pediátrico

Actinomycosis in temporal bone. A pediatric case report

Dra. Lucía V. Fernández^a, Dra. Elena Arias^b, Dra. Daniela Cohen^b y Dra. Roxana Spini^b

RESUMEN

La actinomicosis es una infección causada por un bacilo anaerobio Gram-positivo, filamentosos, ramificado, no esporulado. Integra la flora habitual de la orofaringe y coloniza transitoriamente el tracto gastrointestinal, genital femenino y el árbol bronquial. Es poco frecuente en el hueso temporal. Por su semejanza a un hongo, es difícil su reconocimiento, lo que hace necesaria la sospecha clínica para obtener los cultivos apropiados en condiciones anaeróbicas en forma prolongada. Los hallazgos microscópicos típicos incluyen necrosis con gránulos de azufre amarillento y la presencia de filamentosos que se asemejan a infecciones fúngicas. El tratamiento requiere de elevadas y prolongadas dosis de antibiótico con penicilina o amoxicilina, entre 6 y 12 meses. La duración de la terapia antimicrobiana podría ser reducida en pacientes que han sido operados quirúrgicamente. Se presenta, a continuación, un caso clínico de actinomicosis en el hueso temporal en un paciente pediátrico que requirió tratamiento quirúrgico para su resolución.

Palabras clave: *actinomicosis, otitis media crónica, mastoiditis, mastoidectomía.*

ABSTRACT

Actinomycosis is an infection caused by a Gram-positive, filamentous anaerobic bacillus. Mainly belonging to the human commensal flora of the oropharynx, it normally colonizes the human digestive and genital tracts and the bronchial tree. It is slightly frequent in the temporal bone. Bacterial cultures and pathology are the cornerstone of diagnosis, but particular conditions are required in order to get the correct diagnosis. Prolonged bacterial cultures in anaerobic conditions are necessary to identify the bacterium and typical microscopic findings include necrosis with yellowish sulfur granules and filamentous Gram-positive fungal-like pathogens. Patients with actinomycosis require prolonged (6- to 12-month) high doses of penicillin G or amoxicillin, but the duration of antimicrobial therapy could probably be shortened in patients in whom optimal surgical resection of infected tissues has been performed. A pediatric patient with actinomycosis in temporal bone who needed surgery resolution is reported.

Key words: *actinomycosis, chronic otitis media, mastoiditis, mastoidectomy.*

a. Residencia de Otorrinolaringología Infantil.

b. División de Otorrinolaringología.
Hospital General de Niños Pedro de Elizalde,
Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.

Correspondencia:

Dra. Lucía V. Fernández: lucifernandez1986@gmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 2-6-2020

Aceptado: 30-9-2020

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.e153>

Cómo citar: Fernández LV, Arias E, Cohen D, Spini R. Actinomicosis en el hueso temporal. Reporte de un caso pediátrico. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e153-e157.

INTRODUCCIÓN

La actinomicosis es una infección causada por un bacilo anaerobio Gram-positivo, filamentosos, ramificado, no esporulado,¹ que integra la flora habitual de la orofaringe y coloniza transitoriamente el tracto gastrointestinal (estómago, colon), genital femenino (vagina) y árbol bronquial.² El origen de la infección es endógeno y no existen casos documentados de transmisión interhumana. Sus características, que lo asemejan a un hongo en su apariencia y conducta, tornan difícil su reconocimiento, lo que hace necesaria la sospecha clínica para obtener los cultivos apropiados. Las poblaciones con limitado acceso al cuidado médico y odontológico presentan mayor riesgo de adquirir la enfermedad.

La infección es producida, principalmente, por *Actinomyces israelii*. Se desarrolla a partir de una disrupción de las barreras mucosas y puede diseminarse por contigüidad, por vía hematogena y/o linfática. Compromete tres regiones anatómicas principales: orocervicofacial, torácica y abdominal. La anatomía patológica evidencia focos purulentos rodeados de fibrosis densa, abscesos ricos en macrófagos, células plasmáticas, eosinófilos y fibroblastos.

CASO CLÍNICO

Paciente de 7 años de edad, masculino, que ingresó con diagnóstico de mastoiditis aguda del oído derecho (OD). Fue derivado por la mala respuesta al tratamiento antibiótico endovenoso con ceftriaxona y clindamicina en su séptimo día.

Al momento del examen físico de ingreso, se constató buen estado general y nutricional, afebril. En el examen otorrinolaringológico, presentaba desplazamiento del pabellón auricular derecho hacia delante, eritema y borramiento

del pliegue retroauricular. Oído medio ocupado. Presencia de múltiples caries y mal estado de las piezas dentarias, por lo que fue evaluado por Odontología. El resto del examen físico era normal. Negaba antecedentes personales y familiares de relevancia.

Se realizó una miringotomía amplia con muestras para el cultivo de gérmenes comunes y reacción en cadena de la polimerasa (*polymerase chain reaction*; PCR, por sus siglas en inglés) para tuberculosis: negativas. Anatomía Patológica informó inflamación crónica en actividad. Recibió tratamiento con ceftriaxona, clindamicina y corticoides por 7 días, con buena respuesta. Continuó el tratamiento ambulatorio con ciprofloxacina y clindamicina por vía oral (VO).

Control a los 7 días: con empeoramiento clínico sin haber interrumpido el tratamiento. Presentaba absceso retroauricular derecho. Otomicroscopía: atelectasia central con perforación atical pequeña, ocupación en la caja timpánica. Análisis de laboratorio: glóbulos blancos (GB), 11 940/mm³ (0/60/0/2/33/7); hemoglobina: 11,8 g/dl; hematocrito: el 36 %; plaquetas: 273 000/mm³; hepatograma normal; proteínas totales: 6,87 g/dl; albúmina: 4,25 g/dl; proteinograma normal; proteína C reactiva (PCR): 0,61. Se realizó una tomografía de ambos peñascos, que evidenció el OD ocupado por una imagen de densidad de partes blandas homogénea en la caja timpánica, ático y mastoides (*Figura 1*). La audiometría constató hipoacusia conductiva moderada derecha con diferencia de 35-40 db (*Figura 2*).

FIGURA 1. Tomografía de peñasco del oído derecho, corte coronal. A: mastoides ocupado por material de densidad de partes blandas. B: ático, mesotímpano e hipotímpano ocupado por material de densidad de partes blandas. Cadena osicular difícil de visualizar

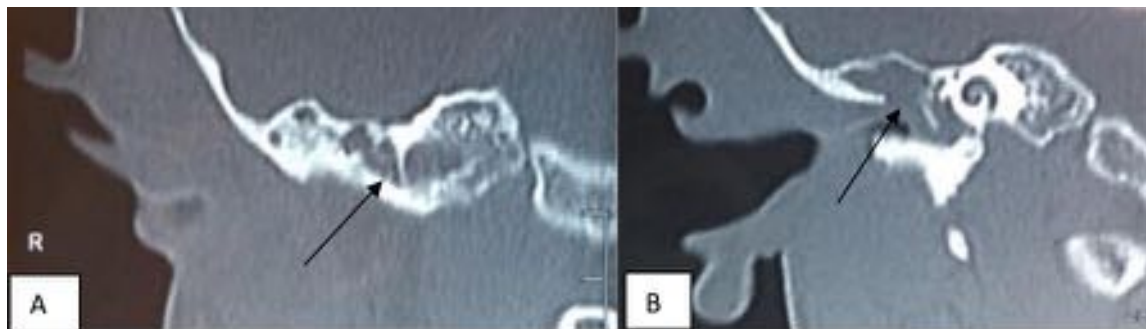
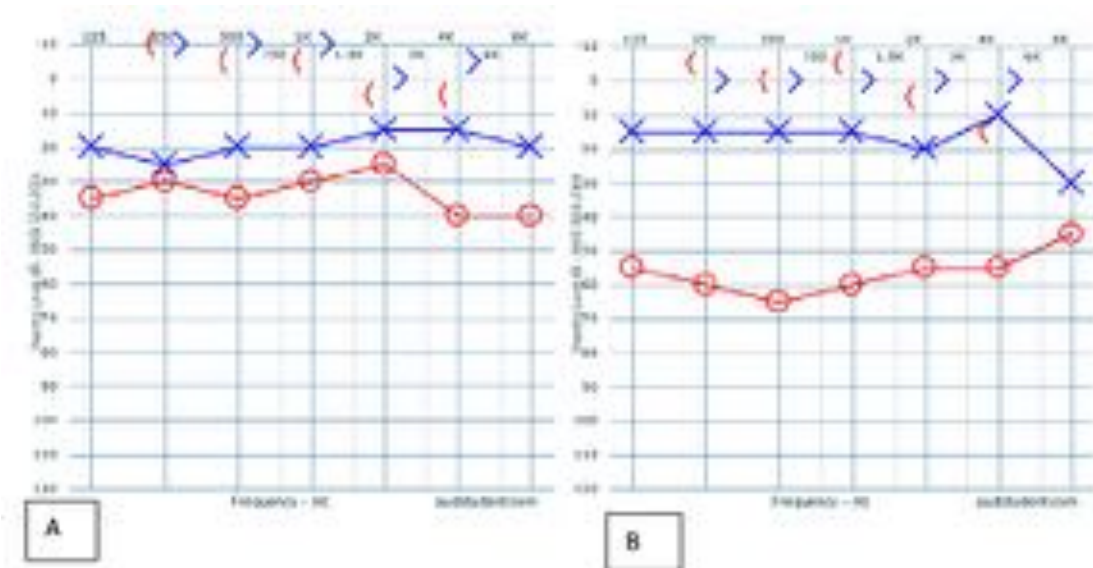


FIGURA 2. A. Audiometría tonal prequirúrgica: hipoacusia conductiva moderada del oído derecho. B. Audiometría tonal posquirúrgica: hipoacusia conductiva moderada-grave del oído derecho



Se decidió la intervención quirúrgica. Durante la cirugía, se observó la presencia de material de aspecto pastoso y coloración parduzca, con abundante tejido de granulación en el antro, el ático y el mesotímpano. Cadena osicular con martillo indemne, apófisis larga del yunque erosionada y estribo envuelto en tejido de granulación. En mastoides, se visualizó una fístula en la tabla externa que comunicaba con tejidos blandos (Figura 3). Se enviaron muestras para anatomía patológica y cultivo.

En el posquirúrgico inmediato, presentó celulitis en el dorso paramedial derecho (escápula derecha). Se realizaron dos hemocultivos, tres

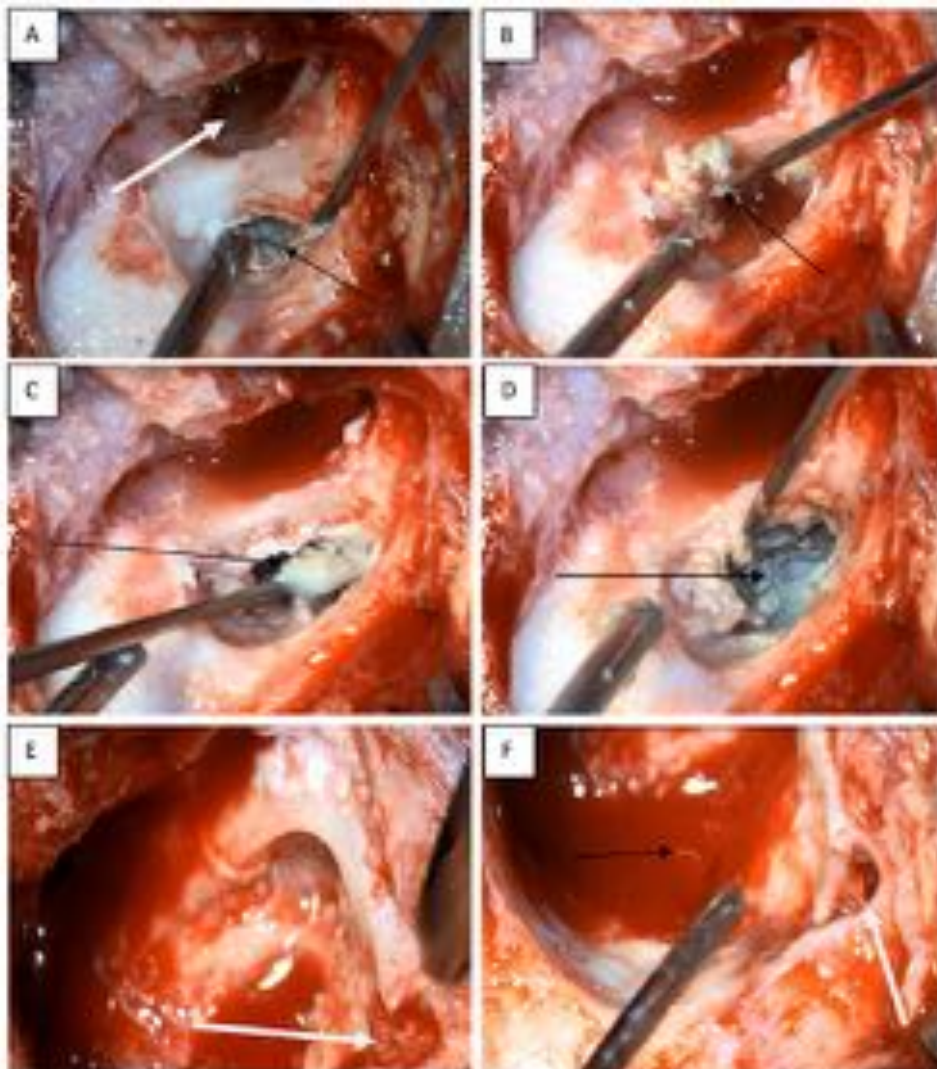
lavados gástricos, serologías para hepatitis A, B, C, y rubéola, que fueron negativas. Las serologías para citomegalovirus y virus de Epstein-Barr fueron positivas. PCR para tuberculosis, negativa; radiografía de tórax, normal; prueba cutánea de derivado proteico purificado (*purified protein derivative*; PPD, por sus siglas en inglés), negativa; virus de la inmunodeficiencia humana (*human immunodeficiency virus*; HIV, por sus siglas en inglés), negativo; inmunoglobulinas G, M, E y A y poblaciones linfocitarias, normales.

Por presentar, al tercer día posquirúrgico, signos de flogosis e induración en la herida quirúrgica, se modificó el esquema antibiótico

FIGURA 3. A. Apertura del antro (flecha negra). Conducto auditivo externo (CAE) (flecha blanca).

B, C, D. Antro: se visualiza secreción parduzca, grisácea (flecha negra) (aspecto caseoso). Se envía a cultivo de gérmenes comunes, hongos y tuberculosis. Se envía a anatomía patológica.

E, F. Mastoidectomía (flecha negra). Fístula de tabla externa de mastoides que comunica con el tejido subcutáneo (flecha blanca)



a piperacilina-tazobactam endovenosos, clindamicina endovenosa (día 10) y suspendió la ceftriaxona endovenosa (día 10). Anatomía Patológica describió fragmentos de tejido adiposo con leves-moderados infiltrados inflamatorios mononucleares acompañados por escasos neutrófilos. Material fibrohemático y necrótico compatibles con inflamación crónica en actividad. Cultivo Gram-positivo para *Actinomyces europaeus*. Inició el tratamiento antibiótico con penicilina G sódica a razón de 300 000 U/kg/día endovenosas por tres semanas, con buena evolución, y se suspendió el último esquema antibiótico indicado. Total de días internado: 44. Completó el tratamiento ambulatorio por tres semanas más con penicilina por VO. No se constató recidiva luego de dos años.

DISCUSIÓN

Actinomyces spp. son un grupo de bacilos Gram-positivos anaerobios y filamentosos, que pertenecen a la flora habitual de la orofaringe, el tracto gastrointestinal y el tracto urogenital.² Son prevalentes en las grietas gingivales, criptas tonsilares y piezas dentales cariadas, y son muy poco frecuentes en el hueso temporal.³ La permeabilidad de la trompa de Eustaquio es condición necesaria para el compromiso ótico a partir de la cavidad oral.⁴ Es considerada, principalmente, una infección endógena que se desencadena por una lesión de la mucosa.

Se han descrito más de 30 tipos de especies de *Actinomyces*; *Actinomyces israelii* es la más aislada.⁵ Sin embargo, otras especies, como *A. odontolyticus*, *A. turicensis*, *A. viscosus*, *A. bovis*, *A. naeslundii*, *A. meyeri*, *A. europaeus* y *A. radinae*, también pueden causar infecciones que involucran el tracto digestivo y urinario, la piel, los genitales y el pulmón, así como también el oído, la nariz y la garganta.⁶

Fueron descritas por primera vez por Beck en 1906 y Chang et al., en 1993. Las complicaciones intracerebrales pueden ocurrir aun en los pacientes tratados con antibióticos.⁷ En el inicio, *Actinomyces* spp. se agruparon taxonómicamente como un hongo,^{8,9} lo que explica su nomenclatura engañosa original por cierta semejanza en la formación de una red micelial y por su poder de ramificación.⁶ Actualmente, se agrupan dentro de las micobacterias por la presencia de ácido murámico en su pared, por carecer de mitocondrias y de membrana nuclear, por reproducirse por fisión y ser sensibles al tratamiento con penicilina, con mala respuesta

a los antifúngicos.¹⁰ Son fagocitadas por las células del huésped, por lo que se definen como un parásito intracelular facultativo. Imitan otros procesos infecciosos, como osteomielitis, enfermedad granulomatosa y neoplasias.¹¹

En el tejido, las colonias se agrupan para formar gránulos de azufre patognomónicos. Pueden presentar material intensamente eosinófilo en forma de estrella o radiación, alrededor de grupos de microorganismos, lo que se denomina *fenómeno Splendore-Hoeppli*.⁶

Requieren de una herida traumática o quirúrgica, presencia de cuerpos extraños, infecciones crónicas o recurrentes para establecerse.¹² La infección mixta inicial es condicionante. Esto explica la presentación de diferentes casos en la literatura que detallan la larga historia de otomastoiditis que no han respondido al tratamiento médico. El potencial de oxidación-reducción es crítico para el desarrollo de la infección.⁴ A medida que avanza la infección, *Actinomyces* se establece como el patógeno predominante.

Existen tres características clínicas que deben hacer sospechar esta infección:¹⁰

1. La combinación de cronicidad e invasión, con progresión a través de las fronteras tisulares. Este rasgo puede ser explicado por la presencia de enzimas proteolíticas, que conducen a una extensa destrucción de los tejidos blandos y la penetración a través de los planos tisulares.
2. El desarrollo de un tracto fistuloso, que se puede resolver en forma espontánea y reaparecer posteriormente.
3. Comportamiento recidivante y resistente a ciclos cortos de tratamiento, que requiere antibioticoterapia prolongada.

Clínicamente, se caracteriza por una fase inflamatoria aguda tipo celulitis, única o múltiple. La piel adyacente toma un color rojo o azulado y la lesión evoluciona hacia la fluctuación y supuración central, con necrosis, infiltrado neutrófilo y formación de gránulos. La fase crónica se caracteriza por una lesión fibrótica y densa que se extiende en forma continua y lentamente progresiva en los planos tisulares.

Es notable que los tejidos comprometidos están indurados, relativamente avasculares y edematizados, y tienden a formar múltiples fístulas que supuran temprano y que, a veces, se cierran de modo espontáneo para volver a abrirse. Con el tiempo, los trayectos fistulosos se extienden hacia la piel, los órganos, el hueso o los tejidos adyacentes.^{13,14}

El diagnóstico diferencial incluye neoplasias, enfermedades granulomatosas, como la tuberculosis, nocardiosis, histoplasmosis, coccidioidomicosis, criptococosis, blastomicosis y botriomicosis.¹⁰ El diagnóstico preoperatorio correcto es inferior al 10 % de los casos.

El diagnóstico es histológico por el aislamiento en cultivos. Deben incubarse, como mínimo, durante 2 semanas. El tratamiento quirúrgico incluye el drenaje de abscesos voluminosos, marsupialización, extirpación de la lesión fibrótica recalcitrante y/o el desbridamiento de tejido óseo necrótico en caso de osteomielitis.

La mayoría de los aislamientos son sensibles a betalactámicos, y el tratamiento de elección es un curso prolongado de amoxicilina oral. La penetración de los betalactámicos en el hueso es baja, por lo que el tratamiento puede incluir clindamicina, macrólidos y doxiciclina, que tienen una mejor penetración ósea.

El curso de tratamiento tradicional es de 6-12 meses.¹²⁻¹⁵ Puede acortarse si se realiza la resección quirúrgica de los tejidos infectados. Presenta favorable respuesta al tratamiento antibiótico instaurado y ausencia de afectación ósea. Se han informado tasas de curación satisfactorias con terapia antimicrobiana de 4 a 6 semanas en estos casos.⁵

La actinomicosis es una enfermedad poco frecuente que puede presentarse con características similares a una otitis media crónica complicada y no sospecharse en primera instancia. Una vez diagnosticada, debe instaurarse un tratamiento combinado prolongado. ■

Agradecimientos

Los autores agradecen a las licenciadas Mariana Niotti e Ingrid Klenner, quienes forman parte de la División de Otorrinolaringología Infantil del Hospital General de Niños "Pedro de Elizalde", Sector de Audiología, por sus aportes y contribuciones en el diagnóstico del paciente.

REFERENCIAS

1. Thukral R, Shrivastav K, Mathur V, Barodiya A, et al. Actinomyces: a deceptive infection of oral cavity. *J Korean Assoc Oral Maxillofac Surg*. 2017; 43(4):282-5.
2. Sugrue I, O'Connor PM, Hill C, Stanton C, et al. Actinomyces Produces Defensin-Like Bacteriocins (Actifensins) with a Highly Degenerate Structure and Broad Antimicrobial Activity. *J Bacteriol*. 2020; 202(4):e00529-19.
3. Ajal M, Turner J, Fagan P, Walker P. Actinomycosis otomastoiditis. *J Laryngol Otol*. 1997; 111(11):1069-71.
4. Russmueller G, Seemann R, Weiss K, Stadler V, et al. The association of medication related osteonecrosis of the jaw with Actinomyces spp. infection. *Sci Rep*. 2016; 6:31604.
5. Valour F, Sénéchal A, Dupieux C, Karsenty J, et al. Actinomycosis: etiology, clinical features, diagnosis, treatment, and management. *Infect Drug Resist*. 2014; 7:183-97.
6. Lezcano C, Simons JP, Colman KL, Cohen ML, et al. Actinomycotic mastoiditis complicated by sigmoid sinus thrombosis and labyrinthine fistula. *Pediatr Dev Pathol*. 2014; 17(6):478-81.
7. Boor A, Jurkovic I, Friedmann I, Benicictf M, et al. Actinomycosis of the middle ear. *J Laryngol Otol*. 1998; 112(8):800-1.
8. Prasad Chatterjee R, Shah N, Kundu S, Mahmud A, et al. Cervicofacial Actinomycosis Mimicking Osseous Neoplasm: A Rare Case. *J Clin Diagn Res*. 2015; 9(7):ZD29-31.
9. Lancelli A, Abbate G, Foscolo AM, Dosdegani R. Two unusual presentations of cervicofacial actinomycosis and review of the literatura. *Acta Otorhinolaryngol Ital*. 2008; 28(2):89-93.
10. Vazquez Guillamet J, Malinis MG, Meyerc JP. Emerging role of *Actinomyces meyeri* in brain abscesses: A case report and literature review. *IDCases*. 2017; 10:26-9.
11. McHugh K, Sturgis C, Procop G, Rhoads D. The cytopathology of Actinomyces, Nocardia, and their mimickers. *Diagn Cytopathol*. 2017; 45(12):1105-15.
12. Könönen E, Wadec WG. Actinomyces and Related Organisms in Human Infections. *Clin Microbiol Rev*. 2015; 28(2):419-42.
13. Gajdács M, Urbán E, Terhes G. Microbiological and Clinical Aspects of Cervicofacial Actinomyces Infections: An Overview. *Dent J (Basel)*. 2019; 7(3):85.
14. Vásquez J, Gómez C, Chiquillo A, Pescador L. Actinomicosis diseminada con compromiso de sistema nervioso central. *Rev Chil Infectol*. 2017; 34(6):598-602.
15. Shen JY, Futran ND, Sardesai MG. Craniofacial Actinomyces osteomyelitis evolving from sinusitis. *Radiol Case Rep*. 2017; 13(1):104-7.

Dilatación segmentaria intestinal. A propósito de un caso de presentación neonatal típica

Segmental dilatation of the intestine. Case report of a typical presentation in a newborn

Dra. M. Constanza Janis^a, Dr. Maximiliano Maricic^b, Dr. Alejandro Lux Wurm^b, Dra. María S. Medina^a, Dra. Sandra B. Díaz^a, Dr. Agustín Bernatzky^a, Dr. José Marmo Lupano^a, Dr. Mauro Fichera^b, Dr. Juan P. Berazategui^a y Dra. Elena De Matteo^c

RESUMEN

La dilatación segmentaria intestinal es una entidad congénita extremadamente rara, caracterizada por la dilatación local del intestino que no se debe a la obstrucción distal ni a la ausencia de células ganglionares. Se presenta el caso clínico de una paciente en el período neonatal con la presentación típicamente descrita en esta enfermedad en ausencia de comorbilidades, forma clínica poco descrita en la bibliografía. Se desarrolla también la resolución quirúrgica con resección segmentaria y los hallazgos anatomopatológicos.

Palabras clave: obstrucción intestinal, dilatación intestinal segmentaria, recién nacido.

ABSTRACT

Segmental dilatation of the intestine is an extremely rare congenital entity characterized by a local dilation of the intestine without distal obstruction or the absence of ganglion cells. We present the case of a patient in the neonatal period with typical clinical features in absence of other comorbidities, shortly published in the bibliography. We also describe the surgical resolution and the pathological results.

Key words: intestinal obstruction, segmental intestinal dilatation, infant, newborn.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.e158>

Cómo citar: Janis MC, Maricic M, Lux Wurm A, Medina MS, et al. Dilatación segmentaria intestinal. A propósito de un caso de presentación neonatal típica. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e158-e162.

- Unidad de Neonatología, Sanatorio Anchorena San Martín, Pdo. de Gral. San Martín, Buenos Aires, Argentina.
- Cirugía Pediátrica, Sanatorio Anchorena San Martín, Pdo. de Gral. San Martín, Buenos Aires, Argentina.
- Patología, Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez.

Correspondencia:

Dra. M. Constanza Janis: cosjanis1911@gmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 9-6-2020

Aceptado: 23-10-2020

INTRODUCCIÓN

La dilatación segmentaria intestinal es una entidad congénita rara caracterizada por la presencia de dilatación focal del intestino sin mediar obstrucción distal, ya sea mecánica (atresia, estenosis, íleo) o funcional (ausencia de células ganglionares o inmadurez intestinal del prematuro). La resección quirúrgica del segmento afectado resuelve el cuadro oclusivo. Se presenta el caso clínico de una recién nacida, cuyo interés radica en la presentación típica de la enfermedad descrita por la literatura y la ausencia de comorbilidades, forma clínica escasamente publicada.¹⁻⁶

PRESENTACIÓN DEL CASO

Recién nacida pretérmino con peso adecuado (34 semanas/2230 gramos, percentilo 50). Hija de madre con diabetes gestacional tratada con dieta. Primera gesta, nacimiento por parto vaginal cefálico. Apgar 8/9, síndrome de dificultad respiratoria con requerimiento de presión positiva continua de la vía aérea (*continuous positive airway pressure*; CPAP, por sus siglas en inglés) sin oxígeno suplementario.

Se colocó una sonda orogástrica abierta con débito gástrico, y presentó, desde las primeras horas de vida, discreta distensión abdominal, que se consideró secundaria al soporte respiratorio no invasivo. Presentó deposiciones meconiales de características normales. Se indicó la alimentación enteral trófica con leche humana exclusiva. Recibió una única toma por la falta de disponibilidad de leche materna, por lo que permaneció ayunada posteriormente.

A las 48 horas de vida, aumentó la distensión abdominal, por lo que se suspendió la CPAP. Presentó deposiciones meconiales escasas. Por insuficiencia ventilatoria, se reinició el soporte con CPAP, luego de lo cual se observó nuevamente distensión abdominal marcada, que llevó al ingreso a asistencia respiratoria

mecánica (ARM) por causa restrictiva. Se realizó una radiografía abdominal, en la que se observó marcada dilatación de asas intestinales, predominantemente, en el flanco y la fosa iliaca derecha con escaso aire distal (Figura 1.a).

Permaneció hemodinámicamente estable, con análisis de laboratorio dentro de los parámetros normales. Por la sospecha de alteración funcional colónica, se realizó colon por enema bajo anestesia

general, en el que se observó colon permeable de calibre adecuado, posicionado correctamente, sin obstrucción intrínseca o extrínseca con imposibilidad de pasaje del material de contraste al íleon con presiones seguras (Figura 1.b). Se decidió una laparotomía exploradora, cuyos hallazgos fueron asa distendida de yeyuno e íleon de 25 cm a 30 cm de la válvula ileocecal con diferencia de calibre respecto de las asas

FIGURA 1: **a.** Radiografía de abdomen de frente: se observan asas intestinales dilatadas con predominio en el flanco y fosa iliaca derecha con escaso aire distal y elevación diafragmática. **b.** Colon por enema: colon permeable de calibre adecuado, posicionado adecuadamente, sin obstrucción intrínseca o extrínseca, imposibilidad de pasaje del material de contraste al íleon

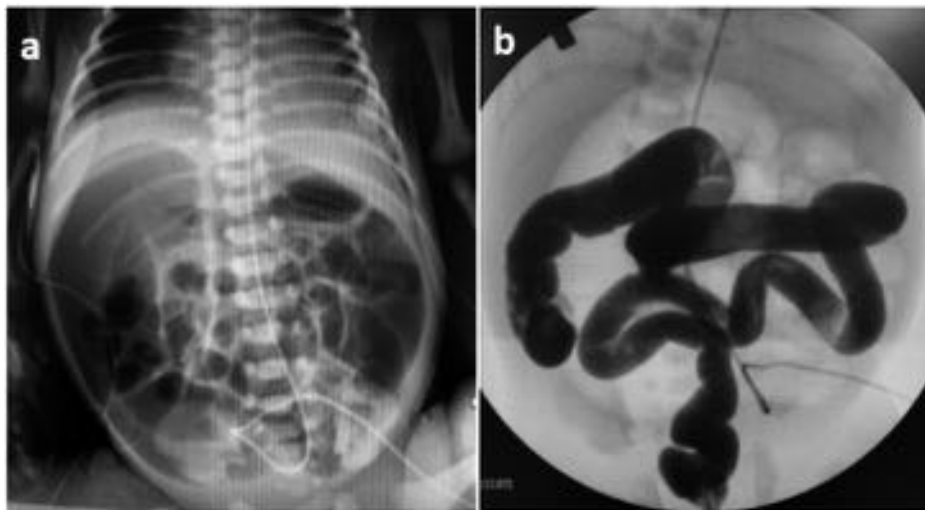
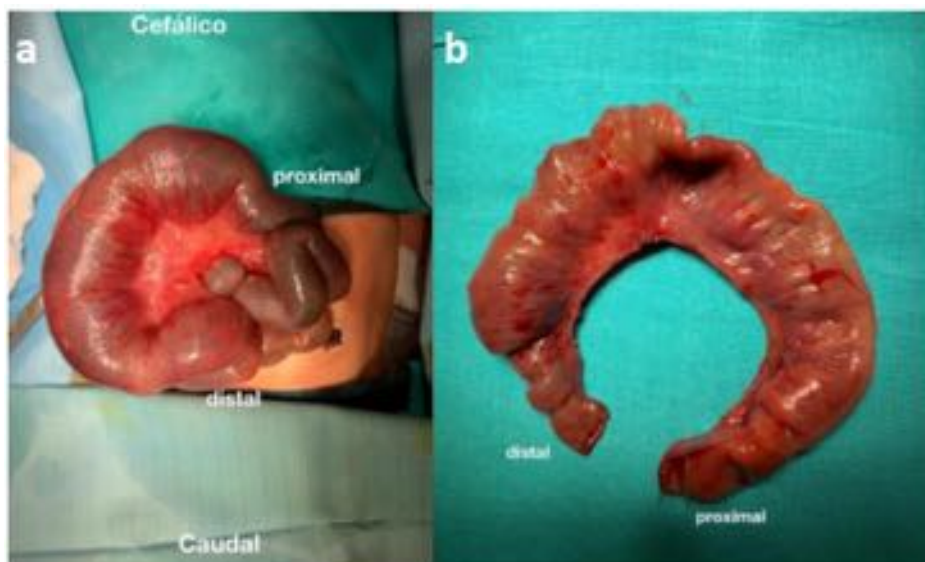


FIGURA 2: **a.** Hallazgo operatorio, dilatación segmentaria de yeyuno e íleon a 30 cm de la válvula ileocecal, sin oclusión mecánica intra- o extraluminal. Luego de una devolvulación por vólvulo secundario a dilatación. **b.** Segmento de yeyuno e íleon resecado de 25 cm de longitud



no dilatadas de 3 : 1, con cambio de coloración, sin necrosis, indicativo de isquemia leve que se recuperó rápidamente. Este hallazgo, inicialmente, se atribuyó a un vólvulo intestinal de 180 grados segmentario sin causa mecánica extrínseca, bridas o adherencias congénitas, sin obstrucciones intra- o extraluminales, atresias o estenosis. Se redujo manualmente con la recuperación completa de la perfusión y permeabilidad conservada del segmento intestinal involucrado, por lo que se decidió la conducta conservadora respecto de la resección del segmento intestinal.

A las 48 horas posquirúrgicas, ya sin requerimiento de soporte ventilatorio, presentó nuevamente distensión abdominal, con imagen radiológica similar a la preoperatoria (*Figura 1.b*) y eliminación completa del material de contraste en menos de 24 horas, dato en favor de la presencia de motilidad colónica adecuada. Se decidió la reoperación quirúrgica, en la que se encontró nuevamente el mismo segmento intestinal dilatado, sin presencia de vólvulo, por lo que se procedió a su resolución con resección de segmento yeyuno-ileal distendido y anastomosis término-terminal (*Figura 2.a y b*).

Debido al comportamiento clínico y a los hallazgos quirúrgicos, que, por las características macroscópicas, mostraron un segmento intestinal dilatado, flanqueado en ambos extremos por el intestino en apariencia normal y sin obstrucción mecánica intra- o extraluminal evidente, se sospechó el diagnóstico de dilatación segmentaria intestinal. Ante la tinción convencional del análisis anatomopatológico, se evidenció la presencia de plexos nerviosos mioentéricos y

submucosos, con adelgazamiento leve de las capas musculares, probablemente, secundaria a la dilatación intestinal. En la búsqueda mediante tinciones especiales y en vistas de complementar datos que acercaran al diagnóstico definitivo, se solicitó la tinción de células de Cajal (motoneuronas intermedias) S100 y CD117 (Cekit).

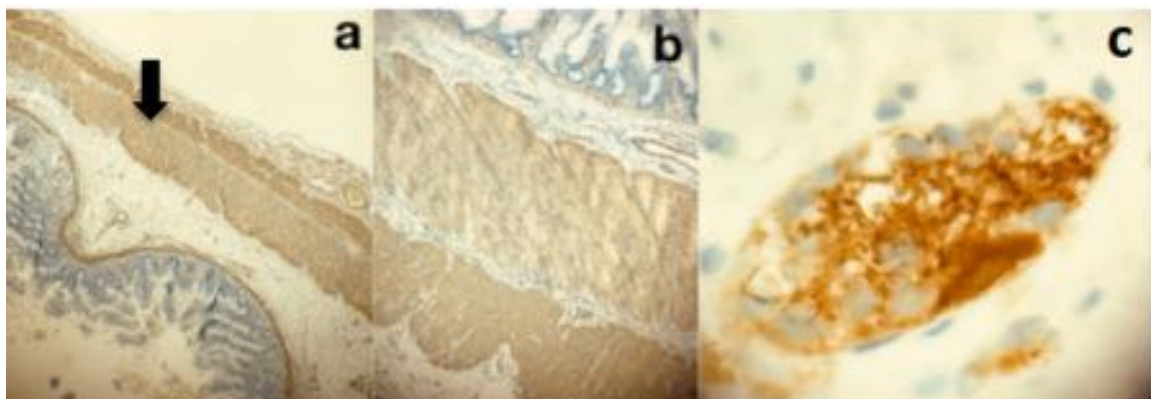
La paciente presentó una evolución favorable. Inició la alimentación enteral al sexto día posquirúrgico, con adecuada tolerancia, y se otorgó el alta hospitalaria a los 17 días de vida, 12 días después de la cirugía. Realizó controles ambulatorios con apropiada tolerancia enteral y buen progreso ponderoestatural.

El resultado de las tinciones especiales evidenció enolasa neuroespecífica en los plexos. La actina muscular lisa mostró la capa muscular adelgazada en el segmento dilatado y normal en el margen de resección proximal y distal CD117 (Cekit), células intersticiales de Cajal presentes en las capas musculares y submucosa, S100 positiva en los plexos (*Figuras 3 y 4*).

DISCUSIÓN

La dilatación segmentaria intestinal es una entidad congénita rara, descrita por primera vez en 1959 por Swenson y Rathauer en una serie de pacientes que presentaban dilatación segmentaria del colon. Esta entidad se caracteriza por la dilatación local del intestino sin mediar obstrucción distal mecánica intra- o extraluminal, o ausencia de células ganglionares.^{1,6} Hasta 2019, solo cerca de 150 casos habían sido reportados en la literatura.²

FIGURA 3: *a.* Actina muscular lisa que muestra la capa muscular adelgazada en el segmento dilatado. *b.* Normal en los segmentos proximal y distal de los márgenes de seguridad de resección. *c.* Enolasa neuroespecífica de los plexos mioentéricos



A continuación, se enumeran los criterios diagnósticos descritos en la literatura:^{1,2}

- Dilatación intestinal limitada con aumento de 3-4 veces el tamaño del intestino normal.
- Transición abrupta entre la zona dilatada y la normal.
- Ausencia de oclusión distal intrínseca o extrínseca.
- Síndrome clínico de oclusión o suboclusión intestinal.
- Plexos nerviosos intestinales normales.
- Recuperación completa luego de la resección del segmento afectado.

Teoría etiológica:^{1,3,4}

- Insuficiencia vascular focal durante la gestación (malformación vascular, isquemia transitoria por volvulaciones, intususcepción o eventos mecánicos, como bridas congénitas, etc.).
- Alteración en la continuidad de fibras nerviosas de los plexos o en sus células debido a alteraciones en la migración en la etapa embrionaria.

En una cohorte de pacientes estudiados por Tatsuma Sakaguchi et al., entre 2000 y 2009, se reclutaron 28 casos, de los cuales el 50 % presentó dilatación del íleon; el 37 %, del colon; el 10 %, del yeyuno, y el 3 %, del duodeno. Ocurrieron más frecuentemente durante el período neonatal (el 64 %). Cuando el segmento afectado fue el íleon, el inicio de la sintomatología fue precoz, en el período neonatal, con clínica compatible con íleo.¹

La presentación clínica de esta enfermedad es variable y, durante el período neonatal, suele

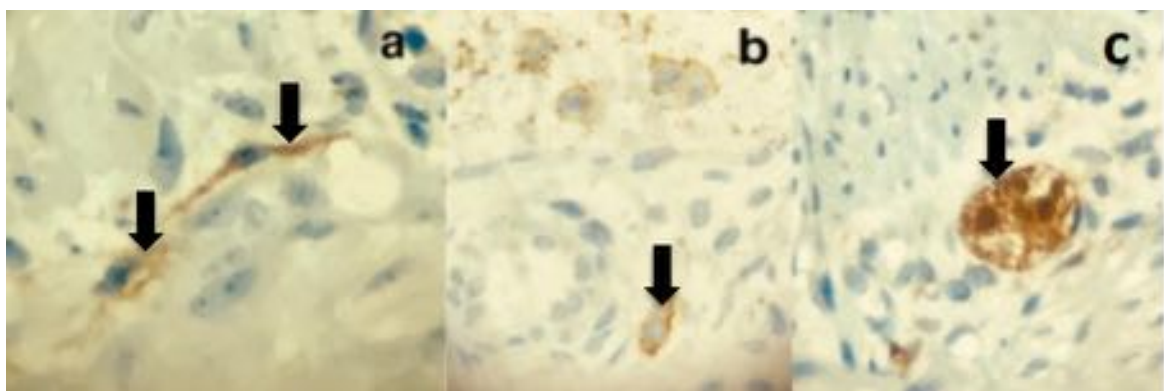
manifestarse con oclusión intestinal o perforación. En los niños mayores, se caracteriza por dolor abdominal, constipación, enterorragia,⁵ anemia crónica, esta última, muchas veces, asociada a heterotopía gástrica. En más del 50 %, se encuentra asociada a otras malformaciones,⁴ principalmente, digestivas, pero también se describen otras, tales como cardiopatía³ y alteraciones vertebrales.⁴ El tratamiento consiste en la resección completa del segmento dilatado, con anastomosis término-terminal.⁴

En la bibliografía, el examen histopatológico mostró una amplia variedad de hallazgos, como adelgazamiento o engrosamiento de la capa muscular lisa, alteraciones en las características de las células ganglionares, disminución del número de células de Cajal, cuya función es la de marcapasos en el peristaltismo intestinal.¹ Algunos autores han descrito la presencia de tejido heterotópico, tales como de pulmón, cartílago, músculo estriado, mucosa gástrica o esofágica y pancreática.⁶ Y, en la mayoría de los casos, no se encontraron alteraciones de la histoarquitectura de la pared muscular, sin que ello implicara funcionalidad adecuada de esta.

En el caso clínico presentado aquí, se cumplen todos los criterios diagnósticos propuestos por Swenson y Rathauer, con evolución clínica favorable posterior a la resección del segmento dilatado. El análisis de la histoarquitectura es coincidente con la mayoría de los casos, lo que soporta nuestra hipótesis diagnóstica.^{7,8} Y es de sumo interés el hallazgo de un caso que no presenta otras malformaciones asociadas.

Las causas más frecuentes de oclusión o suboclusión intestinal en el período neonatal

FIGURA 4: CD117 (Cekit). a. Células intersticiales de Cajal (CIC) presentes en las capas musculares. b. CIC en la submucosa. c. S100 positiva en los plexos



son la atresia o estenosis intestinal, seguida de enfermedad de Hirschsprung y de otras entidades, tales como íleo meconial, duplicación intestinal e inmadurez del colon izquierdo del prematuro. Debido a que la dilatación segmentaria del intestino es una patología muy poco frecuente, es de gran importancia mantener un alto índice de sospecha en los pacientes que presentan clínica compatible con síndrome oclusivo o suboclusivo en el período neonatal temprano. ■

REFERENCIAS

1. Sakaguchi T, Hamada Y, Masumoto K, Taguchi T, et al. Segmental dilatation of the intestine: results of a nationwide survey in Japan. *Pediatr Surg Int*. 2015; 31(11):1073-6.
2. Shah AA, Shah AV. Congenital Segmental Dilatation of Jejunum: A Rare Entity. *J Indian Assoc Pediatr Surg*. 2019; 24(4):285-7.
3. Sergi C, Hager T, Hager J. Congenital Segmental Intestinal Dilatation: A 25-Year Review with Long-Term Follow-up at the Medical University of Innsbruck, Austria. *AJP Rep*. 2019; 9(3):e218-25.
4. Ben Brahim M, Belghith M, Mekki M, Jouini R, et al. Segmental dilatation of the intestine. *J Pediatr Surg*. 2006; 41(6):1130-3.
5. Nischal N, Balachandra D, Agarwal A, Puri S. Segmental dilatation of ileum in a young patient presenting with anemia. *Indian J Radiol Imaging*. 2018; 28(3):369-72.
6. Saha S, Konar H, Chatterjee P, Basu KS, et al. Segmental ileal obstruction in neonates-a rare entity. *J Pediatr Surg*. 2009; 44(9):1827-30.
7. Swenson O, Rathauer F. Segmental Dilatation of the Colon. A new entity. *Am J Surg*. 1959;97(6):734-8.
8. Rathod KJ, Mohd Z, Kanojia R, Rao KL. Segmental ileal dilatation: an unsuspected cause of neonatal intestinal obstruction. *Trop Gastroenterol*. 2012; 33(2):143-6.

Abordaje interdisciplinario de endoftalmitis endógena neonatal. Reporte de caso

Interdisciplinary approach to endogenous neonatal endophthalmitis. Case report

Dr. Matías Osaba^{a,b}, Dr. Alejandro Del Rivero^c, Dra. Tatiana Canchi^{a,b}, Dra. Maitén Arrigone^{a,b},
Dr. Luis Ahumada^d, Dra. Patricia Vega Robelli^d y Dr. Víctor Reviglio^{a,b}

RESUMEN

La endoftalmitis endógena neonatal es una patología poco frecuente que puede causar daño ocular grave. Puede manifestarse en pacientes con comorbilidades, como nacimiento pretérmino, bajo peso al nacer, complicaciones posquirúrgicas perinatales o sepsis.

El presente reporte de caso documenta a una paciente pretérmino que fue sometida a múltiples cirugías abdominales. Durante su internación, desarrolló sepsis, meningitis y endoftalmitis endógena neonatal. La frecuencia extremadamente baja de la endoftalmitis endógena a esta edad, la importancia de preservar la salud visual del paciente y el abordaje interdisciplinario son puntos importantes de aprendizaje en este caso.

Palabras clave: endoftalmitis, recién nacido, Enterobacter cloacae, sepsis, phthisis bulbi.

ABSTRACT

Neonatal endogenous endophthalmitis is a rare condition that can cause serious eye injuries. It can manifest in patients with comorbidities, such as preterm birth, low birth weight, post-surgical perinatal complications, or sepsis.

This case report documents a preterm patient who underwent multiple abdominal surgeries. During her hospitalization, she developed sepsis, meningitis and neonatal endogenous endophthalmitis. The extremely low frequency of endogenous endophthalmitis at this age, the importance of preserving the patient's visual health, and the interdisciplinary approach are important learning points in this case.

Key words: endophthalmitis, infant newborn, Enterobacter cloacae, sepsis, phthisis bulbi.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.e163>

Cómo citar: Osaba M, Del Rivero A, Canchi T, Arrigone M, et al. Abordaje interdisciplinario de endoftalmitis endógena neonatal. Reporte de caso. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e163-e166.

- Instituto de la Visión Cerro, Sanatorio Allende, sede Cerro, Córdoba, Argentina.
- Facultad de Ciencias de la Salud, Universidad Católica de Córdoba, Córdoba, Argentina.
- Clínica de Ojos Maldonado Bas, Córdoba, Argentina.
- Terapia Intensiva Neonatal, Sanatorio Allende, sede Cerro, Córdoba, Argentina.

Correspondencia:

Dr. Matías Osaba: doctorosaba@gmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 15-6-2020

Aceptado: 21-9-2020

INTRODUCCIÓN

La endoftalmitis neonatal se describe como complicación de una sepsis neonatal y puede generar potencialmente ceguera. Por lo general, las endoftalmitis se dividen en exógenas y endógenas, según el origen de la infección. Las de origen endógeno están causadas por microorganismos provenientes de un sitio distante de infección, por ejemplo, meningitis, cirugías, alimentación parenteral, entre otras.¹

Las endoftalmitis endógenas en niños son raras; constituyen entre el 0,1 % y el 4 % de las endoftalmitis.² Los tejidos que primero se ven afectados son la retina, la coroides y el cuerpo ciliar, ya que tienen un alto flujo sanguíneo. Además, pueden estar enmascaradas como una uveítis, una celulitis preseptal, glaucoma congénito, conjuntivitis o un retinoblastoma.

En los neonatos, se presenta, principalmente, en niños prematuros de bajo peso al nacer, sometidos a múltiples intervenciones quirúrgicas y al uso prolongado de catéteres centrales,³ como el caso aquí documentado. Por lo tanto, el diagnóstico y el tratamiento oportuno favorecen el correcto desarrollo visual del neonato, que evita la ceguera.

Reporte de caso

Paciente de sexo femenino pretérmino (27 semanas de gestación) y bajo peso al nacer (930 g). En los primeros días de vida, fue intervenida quirúrgicamente en dos oportunidades por una perforación intestinal.

Alrededor de los 80 días de vida, comenzó con síndrome febril causado por sepsis, junto con el desarrollo de meningitis. En los hemocultivos y en el líquido cefalorraquídeo, se aisló *Enterobacter cloacae*.

Concomitantemente, la paciente comenzó con secreción conjuntival purulenta del ojo derecho. Se tomó una muestra de la secreción y se aislaron *Pseudomonas* spp. sensibles a fluoroquinolonas. Se trató y se resolvió de manera satisfactoria con gatifloxacina 0,2 % (Gatimicin Elea®) dentro de las 48 horas de haberse instaurado el tratamiento.

Cabe destacar que la paciente estaba recibiendo tratamiento antibiótico sistémico con meropenem, vancomicina y fluconazol (de forma profiláctica) por su estado séptico, indicado por el equipo médico de Terapia Intensiva Neonatológica. Quince días después de la resolución de la conjuntivitis, la paciente presentó edema bpalpebral, hiperemia moderada, opacidad corneal sin úlcera e hipopión (*Figura 1*).

De manera consensuada entre el equipo de Oftalmología y de Neonatología, se tomaron muestras para el cultivo microbiológico del fondo de saco conjuntival del ojo afectado, sin observarse desarrollo. La paciente tuvo tres fondos de ojo bilaterales previos por *screening* de retinopatía del prematuro (en la segunda, cuarta y octava semanas de vida), informados como normales. El fondo de ojo no pudo realizarse por opacidad de medios (en especial, la córnea y el vítreo), por lo cual se solicitó una ecografía

ocular por la sospecha de endoftalmitis. En esta (*Figura 2*), se evidenciaron opacidades vítreas aumentadas en el ojo derecho, motivo por el cual se estableció el diagnóstico de endoftalmitis endógena neonatal (EEN).

Bajo estrictas normas de asepsia, se aspiró líquido de la cámara anterior, el cual fue enviado al Departamento de Microbiología para el cultivo y la tipificación. En el procedimiento quirúrgico, se intentó aspirar humor vítreo, pero no se obtuvo ningún resultado satisfactorio dada su densidad. Se sugirió realizar una vitrectomía para la obtención significativa de vítreo para su análisis, pero no fue posible debido a la condición crítica de la paciente.

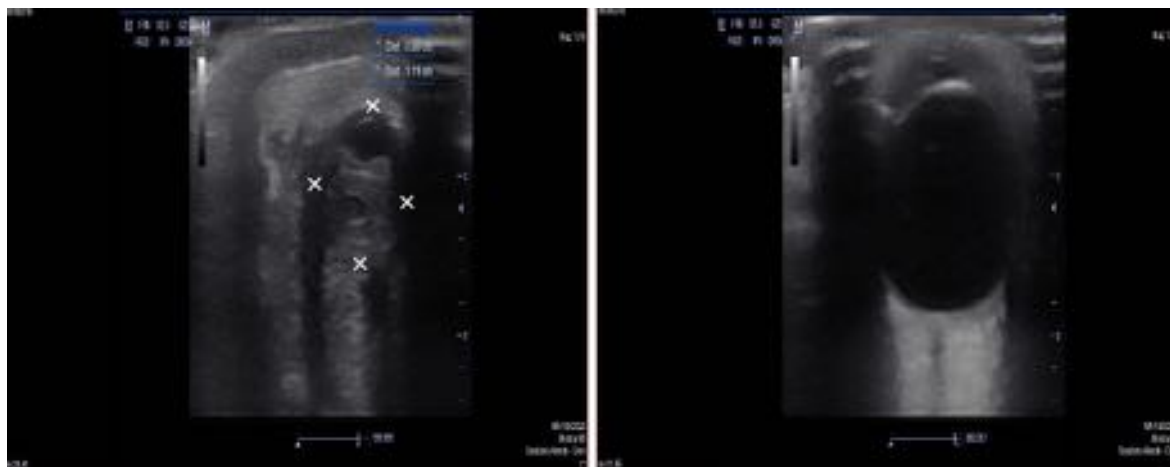
Se procedió a realizar inyección de vancomicina (1 mg/0,1 ml), ceftazidima (2,25 mg/0,1 ml) y anfotericina B (5 µg/0,1 ml) intravítreas. A la semana de haberse realizado el tratamiento, se repitió la colocación de

FIGURA 1. Examen macroscópico



Ojo derecho, edema bpalpebral, hiperemia, opacidad corneal e hipopión.

FIGURA 2. Ecografía ocular bilateral



Ojo derecho (OD): disminución de volumen y aumento de densidad vítreo. Se marca con x el área que correspondería al OD. Ojo izquierdo (OI): estructuras oculares normales.

vancomicina, ceftazidima y dexametasona (0,4 mg en 0,1 ml), ya que no se evidenció mejoría o respuesta ante el primer ciclo de tratamiento intravítreo.

Luego, el edema palpebral y el hipopión lentamente fueron disminuyendo, pero el ojo, por su proceso biológico, comenzó a mostrarse hipotónico, enoftálmico y a disminuir su volumen (en comparación con el ojo izquierdo). A pesar de que se consiguió controlar la infección con el tratamiento intravítreo, el ojo desarrolló un deterioro progresivo y atrofia (*phthisis bulbi*). El ojo izquierdo permanece, hasta la actualidad, con desarrollo estructural y funcional dentro de los parámetros de normalidad (en una niña de 2 años), con controles periódicos semestrales.

DISCUSIÓN

La endoftalmitis endógena es una patología poco frecuente (del 5-7 %), potencialmente grave. Es causada por la migración del patógeno desde un sitio primario de infección distante hasta el ojo, donde atraviesa la barrera hematoocular.⁴

Los diagnósticos de dicha patología en neonatos son un reto para el equipo médico, dado que puede ser confundida con conjuntivitis, uveítis, retinoblastoma, etc. La presentación típica incluye síntomas como disminución de la visión, dolor ocular, enrojecimiento y fotofobia.⁵ Los signos más frecuentes suelen ser hemorragia subconjuntival e inyección conjuntival, iritis, retinitis, edema corneal, presencia de células en la cámara anterior y reducción o ausencia del reflejo rojo.⁶

La incidencia mundial es baja. Se documentan pocos reportes de caso en neonatos.³ Según la bibliografía consultada, el caso aquí descrito es el primero de EEN reportado en Latinoamérica.

En lo que respecta a los microorganismos más frecuentes causantes de endoftalmitis postraumática y posoperatoria, se encuentran *Streptococcus* spp., *Staphylococcus* spp. y *Listeria monocytogenes*. *Candida albicans* y *Aspergillus* spp.; son la causa más común de endoftalmitis endógena.⁷ Además, entre los organismos Gram-negativos más comunes, se incluyen *Klebsiella* spp., *Escherichia coli*, *Pseudomonas aeruginosa* y *Neisseria meningitidis*.⁸

Las técnicas de microbiología no lograron obtener resultados satisfactorios a partir de la punción de la cámara anterior y tampoco se pudo obtener material por punción vítrea debido, en parte, al escaso volumen de los neonatos (0,2 ml) y por no poder llevar a cabo la vitrectomía.

Por consiguiente, el equipo médico tomó como referencia el microorganismo obtenido en el hemocultivo⁹ y el líquido cefalorraquídeo, que fue el *Enterobacter cloacae*.

Las bacterias del género *Enterobacter* son bacilos Gram-negativos pertenecientes a la familia *Enterobacteriaceae*. La mayoría de las infecciones en humanos son causadas por *E. hormaechei* y *E. cloacae*. Si bien esta bacteria forma parte de la flora gastrointestinal humana, se la ha aislado en endoftalmitis, abscesos cerebrales, meningitis, espondilodiscitis y endocarditis.¹⁰

El *Enterobacter cloacae* puede ser susceptible a antibióticos no β -lactámicos, como fluoroquinolonas, cotrimoxazol, cloranfenicol y aminoglucósidos. Se considera resistente a las aminopenicilinas, cefalosporinas de primera generación y cefoxitina, debido a la presencia de β -lactamasas, con susceptibilidad variable a cefalosporinas de tercera y cuarta generación.¹¹

La bibliografía consultada sostiene que los hemocultivos suelen ser más propensos a ser positivos que los vítreos. El hemocultivo es el medio más común para confirmar el diagnóstico de endoftalmitis endógena y es uno de los cuatro criterios diagnósticos para definirla.¹²

La endoftalmitis endógena afecta la barrera hematoocular. Por este motivo, permite el ingreso de los antibióticos sistémicos, los cuales se administran de forma empírica e inmediata de acuerdo con el foco de la infección.¹³

Los autores sugieren la terapia combinada de inyecciones intravítreas. Algunos de ellos sostienen que la mejor combinación es vancomicina (1 mg/0,1 ml) para la cobertura de Gram-positivos en combinación con ceftazidima (2,25 mg/0,1 ml), que cubre gérmenes Gram-negativos.¹⁴

Debido a que la respuesta inflamatoria intraocular tiene el potencial de causar daño intraocular colateral, detener la respuesta inmune con esteroides intravítreos puede servir como complemento a la terapia con antibióticos. Aunque no hay pruebas definitivas de ninguna de las formulaciones, los corticosteroides (dexametasona 0,4 mg/0,1 ml) se usan comúnmente junto con los antibióticos para el tratamiento de la endoftalmitis. Cabe destacar que la vitrectomía terapéutica puede ser tres veces más beneficiosa para preservar la visión y disminuir la necesidad de eviscerar o enuclea. Sin embargo, la vitrectomía en neonatos es difícil debido a su anatomía.¹⁵

En el caso aquí citado, el equipo de

Neonatología informó que la paciente no podía someterse a cirugías debido a su estado crítico. Por eso, se realizaron dos inyecciones intravítreas con vancomicina (1 mg/0,1 ml), ceftazidima (2,25 mg/0,1 ml), anfotericina B (5 µg/0,1 ml) y dexametasona (0,4 mg en 0,1 ml).

Finalmente, el ojo de la paciente evolucionó a *phthisis bulbi*, a pesar de una rápida instauración terapéutica acompañada de un estricto seguimiento. El desarrollo de esta afección también ha sido descrito por otros autores^{1,3} y se debe a la necrosis retiniana y a su posterior desprendimiento.

La EEN es una patología infrecuente, que implica un desafío para el equipo médico porque requiere de un diagnóstico certero con instalación de tratamiento inmediato, ya que pone en riesgo la visión del paciente. Sin embargo, en ocasiones, a pesar del tratamiento instaurado, el resultado puede ser incierto. ■

Agradecimientos

El equipo de trabajo agradece a todos los profesionales que colaboraron y ayudaron para la realización de este reporte de caso.

REFERENCIAS

1. Murugan G, Shah PK, Narendran V. Clinical profile and outcomes of pediatric endogenous endophthalmitis: A report of 11 cases from South India. *World J Clin Pediatr.* 2016; 5(4):370-3.
2. Xu M, Li A, Kong H, Zhang W, et al. Endogenous endophthalmitis caused by a multidrug-resistant hypervirulent *Klebsiella pneumoniae* strain belonging to a novel single locus variant of ST23: first case report in China. *BMC Infect Dis.* 2018; 18(1):669.
3. Basu S, Kumar A, Kapoor K, Bagri NK, et al. Neonatal endogenous endophthalmitis: a report of six cases. *Pediatrics.* 2013; 131(4):e1292-7.
4. Dave VP, Pathengay A, Nishant K, Pappuru R, et al. Clinical presentations, risk factors and outcomes of ceftazidime-resistant Gram-negative endophthalmitis. *Clin Exp Ophthalmol.* 2017; 45(3):254-60.
5. Lim HW, Shin JW, Cho HY, Kim HK, et al. Endogenous endophthalmitis in the Korean population: a six-year retrospective study. *Retina.* 2014; 34(3):592-602.
6. Jackson TL, Paraskevopoulos T, Georgalas I. Systematic review of 342 cases of endogenous bacterial endophthalmitis. *Surv Ophthalmol.* 2014; 59(6):627-35.
7. Lingappan A, Wykoff CC, Albin TA, Miller D, et al. Endogenous fungal endophthalmitis: causative organisms, management strategies, and visual acuity outcomes. *Am J Ophthalmol.* 2012; 153(1):162-6.e1.
8. Khan S, Athwal L, Zarbin M, Bhagat N. Pediatric infectious endophthalmitis: a review. *J Pediatr Ophthalmol Strabismus.* 2014; 51(3):140-53.
9. Relhan N, Albin T, Pathengay A, Flynn HW Jr. Bilateral endogenous endophthalmitis caused by vancomycin-resistant *Staphylococcus epidermidis* in a neonate. *J Ophthalmic Inflamm Infect.* 2015; 5:11.
10. Al Yazidi LS, Hameed H, Isaacs D, Axt M, et al. Enterobacter cloacae osteoarticular infection without risk factors: Case report and review of the literature. *J Paediatr Child Health.* 2018; 54(8):915-7.
11. Davin-Regli A, Lavigne JP, Pagès JM. *Enterobacter* spp.: Update on Taxonomy, Clinical Aspects, and Emerging Antimicrobial Resistance. *Clin Microbiol Rev.* 2019; 32(4):e00002-19.
12. Jung H, Kim SW, Chang HH, Lee SA, et al. Analysis of *Klebsiella* as a Prognostic Factor of Ocular Outcomes in Endogenous Endophthalmitis with Decision Tree Analysis. *Infect Chemother.* 2018; 50(3):238-51.
13. Aziz HA, Berrocal AM, Sisk RA, Hartley K, et al. Intraocular infections in the neonatal intensive care unit. *Clin Ophthalmol.* 2012; 6:733-7.
14. Cunningham ET, Flynn HW, Relhan N, Zierhut M. Endogenous Endophthalmitis. *Ocul Immunol Inflamm.* 2018; 26(4):491-5.
15. Mishra C, Ramasamy K. Commentary: Enterobacter endophthalmitis: Clinical settings, susceptibility profile, and management outcomes across two decades. *Indian J Ophthalmol.* 2020; 68(1):116-7.

Fístula perilinfática de causa traumática. Reporte de un caso pediátrico

Traumatic perilymphatic fistula. Report of a pediatric case

Dra. Elena Arias^a, Dra. Daniela Cohen^a y Dra. Florencia Bianchi^a

RESUMEN

La fístula perilinfática de causa traumática es una patología poco habitual. En general, es causada por lápices, hisopos, hebillas de pelo y fósforos. Dentro de los síntomas más frecuentes, los pacientes pueden presentar hipoacusia y vértigo. Su diagnóstico requiere un examen físico completo que incluya otomicroscopía, audiometría y tomografía computada de ambos peñascos. El tratamiento depende de la sintomatología del paciente. En general, en un principio, es conservador, pero puede llegar a requerir cirugía. Se presenta un caso clínico de un niño de 6 años con fístula perilinfática secundaria a un traumatismo del oído izquierdo por un hisopo, que requirió tratamiento quirúrgico. **Palabras clave:** fístula, perilinf, heridas y traumatismos, oído medio.

ABSTRACT

Traumatic perilymphatic fistula is an unusual pathology. Generally caused by pencils, swabs, hair buckles, and matches. Among the most frequent symptoms, patients can present hearing loss and vertigo.

Diagnosis requires a complete physical examination that includes otomicroscopy, audiometry and computed tomography of both boulders. Treatment depends on the patient's symptoms. In general, it is conservative at first, but may require surgery.

We present a clinical case of a 6-year-old boy with perilymphatic fistula secondary to left ear trauma due to swab, which required surgical treatment.

Key words: fistula, perilymph, wounds and injuries, middle ear.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.e167>

Cómo citar: Arias E, Cohen D, Bianchi F. Fístula perilinfática de causa traumática. Reporte de un caso pediátrico. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e167-e170.

a. División de Otorrinolaringología, Hospital General de Niños Pedro De Elizalde. Buenos Aires, Argentina.

Correspondencia:

Dra. Florencia Bianchi: florenciabianchi.ori@gmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 18-6-2020

Aceptado: 25-9-2020

INTRODUCCIÓN

La fístula perilinfática (FPL) adquirida es uno de los mayores desafíos en la práctica otológica. No existe una técnica diagnóstica universalmente aceptada.¹ Dentro de las causas más comunes de FPL, se incluyen el trauma penetrante, el barotrauma, la cirugía del oído medio y la fractura del hueso temporal.²

El daño de la cadena de huesecillos del oído medio provocado por traumatismos penetrantes es muy poco frecuente en la población pediátrica. La luxación del estribo con o sin apertura de la ventana oval ocurre, en general, por la introducción en el conducto auditivo externo (CAE) de un cuerpo extraño, frecuentemente, un hisopo o cotonete, que produce la perforación en la membrana timpánica y, si es muy profundo, daño en la cadena osicular.³ La fractura del estribo ocurre en alrededor de 1/3 de las lesiones traumáticas osiculares.⁴

La FPL se asocia, por lo general, a mareos e hipoacusia. No existe consenso sobre su tratamiento debido al limitado número de casos reportados.⁵

CASO CLÍNICO

Niño de 6 años, sin antecedentes otológicos, que consultó por presentar otodinia y otorrea izquierda de 12 horas de evolución, posteriores a la introducción de un hisopo en el CAE. En la exploración, se constató una perforación amplia de la membrana timpánica y otorrea clara pulsátil. No refería hipoacusia ni síntomas vestibulares. Se realizó una audiometría tonal, la cual mostró una hipoacusia conductiva moderada en el oído izquierdo y fue normal en el oído derecho. Se indicaron pautas de alarma y reposo. Se citó en 24 horas.

En el control, se observó la misma imagen otomicroscópica. Debido a la sospecha de FPL, se solicitó una tomografía computada (TC) de ambos peñascos y una nueva audiometría. La TC mostró velamiento parcial de la caja timpánica y del mastoides del lado izquierdo. No se evidenció alteración en la cadena de huesecillos ni imágenes compatibles con pneumolaberinto (*Figura 1*).

La audiometría reflejó una hipoacusia mixta en el oído izquierdo y fue normal para el oído derecho (Figura 2). Se decidió su internación con tratamiento médico.

Debido a la persistencia de salida de líquido claro a través de la perforación de la membrana timpánica y a la hipoacusia neurosensorial progresiva, al quinto día de internación, se decidió realizar la exploración quirúrgica. Durante el acto

quirúrgico, se observó la mucosa inflamada, salida de líquido claro a nivel de la ventana oval; la cadena osicular se encontraba íntegra y móvil; el estribo no estaba luxado. Se colocó fascia para cubrir las ventanas oval y redonda, y, por encima, cola de fibrina (Beriplast®) para sellarlas completamente (Figura 3). Se decidió no reparar la perforación timpánica para permitir el control posterior.

FIGURA 1. Tomografía computada de ambos peñascos con ocupación parcial de la caja timpánica y mastoides izquierda por imagen de densidad de partes blandas. No impresionaba pneumolaberinto

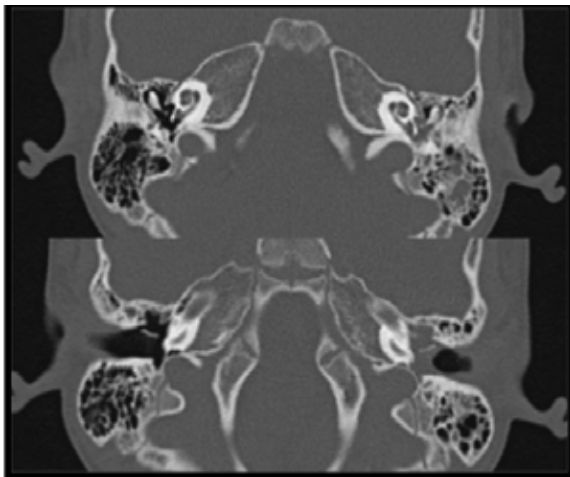


FIGURA 2. Audiometría tonal. Hipoacusia mixta de moderada a grave

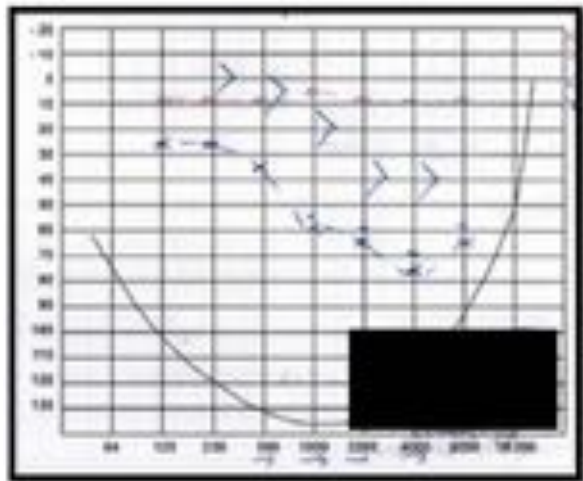
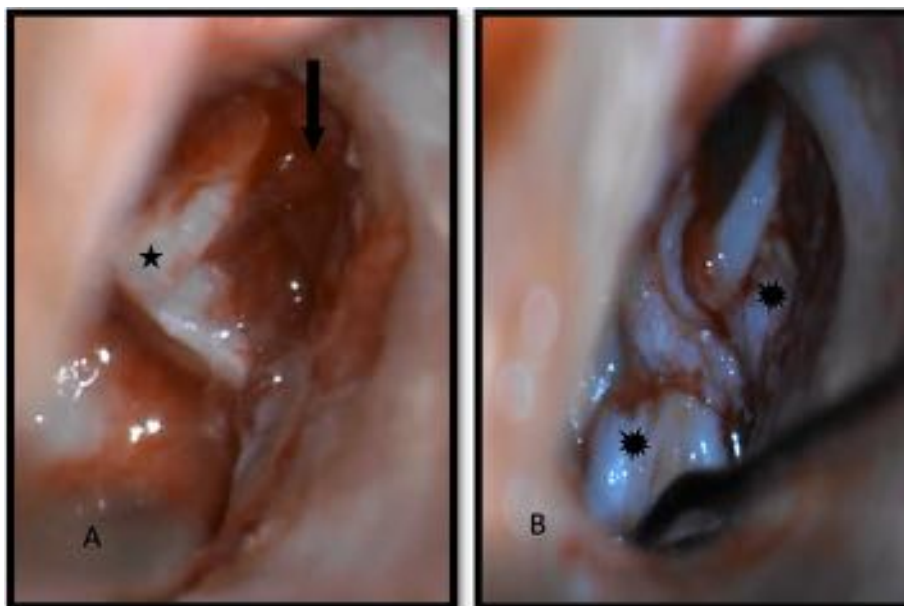


FIGURA 3. Imagen intraquirúrgica del oído izquierdo. A. ★ Apófisis corta del martillo. ➔ Salida de líquido claro. B. Se colocó fascia (✱) para cubrir la ventana oval



El paciente evolucionó favorablemente y se otorgó el egreso hospitalario a los 7 días de la cirugía. Al mes de seguimiento, presentó buena evolución clínica. Se observó una perforación pequeña en la región posterior, con oído seco y sin signos inflamatorios. La audiometría presentó una curva compatible con hipoacusia neurosensorial moderada izquierda (Figura 4), por lo que se sugirió la posterior selección de otoamplifono para el oído izquierdo.

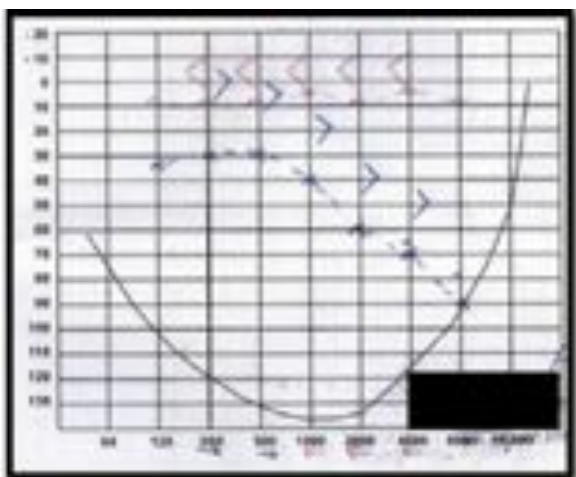
DISCUSIÓN

Los traumas directos en la membrana timpánica u oído medio ocurren, mayormente, en los niños. Los instrumentos más comúnmente utilizados son lápices, hisopos, hebillas de pelo y fósforos.

La lesión del oído medio puede producir perforación de la membrana timpánica, hemorragia, dislocación y fractura de la cadena osicular, FPL desde la ventana oval o redonda, lesión de la cuerda del tímpano o parálisis facial.³ La FPL es una comunicación anormal entre el oído interno y el oído medio secundario a un daño en la ventana redonda o la ventana oval. En el caso de una dislocación estapediovestibular, la FPL es el resultado de una disrupción del ligamento anular o fractura de la platina.⁶

Los síntomas asociados a FPL tienden a aparecer rápidamente. El grado de pérdida auditiva varía de leve a profunda.⁷ Otros síntomas son el vértigo posicional agravado por la maniobra de Valsalva o el nistagmus inducido por presión sobre el trago.⁸

FIGURA 4. Audiometría tonal. Control al mes de la cirugía. Persistió la hipoacusia neurosensorial de moderada a grave



Si se sospecha FPL, se debe pedir una TC de peñascos de alta resolución para evaluar la presencia de pneumolaberinto. Este se detecta fácilmente cuando es de gran tamaño, pero, si es pequeño, puede ser un gran desafío hallarlo.²

Existen controversias sobre si, en caso de evidenciarse pneumolaberinto, es necesaria la exploración quirúrgica o no. Sin embargo, la presencia de aire en el oído interno no significa, necesariamente, una fístula activa, ya que esta puede haberse cerrado y haber dejado aire en el interior del laberinto.⁶

Pueden hallarse diferentes posturas en cuanto a la conducta. Algunos autores proponen el tratamiento conservador en el caso de pneumolaberinto y/o luxación del estribo.

En una de serie de 3 casos de pneumolaberinto por trauma penetrante (sumado a la revisión bibliográfica de otros 48 casos), Hidaka⁵ observó que no había diferencia significativa en la mejoría de la audición entre el grupo que había recibido tratamiento quirúrgico con respecto al que no lo había recibido. El tratamiento conservador puede continuar si no existe progresión de la hipoacusia o persistencia de síntomas vestibulares. En caso contrario, se debe realizar una cirugía exploradora.⁵

Tsubota⁹ describió el caso clínico de un paciente de 20 años que presentó un traumatismo por hisopo. Este, a pesar del tratamiento médico, evolucionó con hipoacusia progresiva y vértigo, por lo que requirió tratamiento quirúrgico. La cirugía consistió en reposicionar el estribo en la ventana oval, colocar fascia temporal y sellar con cola de fibrina.

Hay autores que proponen que, en el caso de FPL por trauma penetrante, primero, se debe realizar el tratamiento conservador con timpanotomía exploradora temprana (1-2 semanas) y cierre de fístula en el caso de aumento de síntomas vestibulares o hipoacusia neurosensorial. En general, luego de este procedimiento, los síntomas vestibulares mejoran, pero los efectos sobre la hipoacusia neurosensorial son inconstantes.³

Según Tsubota, el pronóstico de los síntomas vestibulares es bueno en los casos de pneumolaberinto, pero el pronóstico de los niveles auditivos es peor. A su vez, este autor propone 3 factores predictivos de la mejoría auditiva, basándose en series de casos reportados en la bibliografía:

1. El tiempo desde el traumatismo hasta la cirugía (en los pacientes en los que la cirugía

había sido realizada antes de los 14 días, se vio mayor recuperación de la audición con respecto a aquellos en los que se había demorado más tiempo).

2. El nivel de conducción ósea en la audiometría (los pacientes que tenían niveles de conducción por vía ósea mayores de 65 dB al inicio de la enfermedad tuvieron peores resultados auditivos que los que presentaban niveles menores de 65 dB).
3. La lesión del estribo.⁹ Con respecto a este último punto, hay diferentes posturas. Por ejemplo, Hatano¹⁰ propone que, en caso de luxación del estribo en el vestíbulo, el tratamiento dependa de cada paciente.

Es importante evaluar (con el fin de definir el plan quirúrgico) si el estribo está deprimido en el vestíbulo. Si lo está, cuán profundo se encuentra y si presenta o no fractura. Cuando el estribo está profundamente deprimido en el vestíbulo, el reposicionamiento quirúrgico aumenta el riesgo de causar daño en el oído interno, lo que origina resultados desfavorables en la audición posoperatoria. De lo contrario, si el estribo permanece en el vestíbulo, pueden generarse bridas alrededor de este, ocupar el espacio vestibular y causar un daño tardío en el oído interno. En el caso en que el estribo está levemente deprimido en el vestíbulo y la superestructura puede observarse en la ventana oval, entonces, el huesecillo debe ser removido. Sin embargo, debido al escaso número de casos descritos en la literatura, no hay un protocolo de tratamiento cuando el estribo está profundamente deprimido en el vestíbulo.¹⁰

En nuestro paciente, en una primera instancia, se consideró el tratamiento conservador, pero, al persistir la salida de líquido claro a través de la membrana timpánica (lo que indicaba que la FPL permanecía activa) y presentar una hipoacusia neurosensorial progresiva, se decidió realizar el tratamiento quirúrgico. Evolucionó, luego de la cirugía, con mejoría de la imagen otomicroscópica y estabilización de la hipoacusia.

En los casos de pneumolaberinto, el pronóstico de la audición es peor que el de los síntomas vestibulares.⁸ La FPL puede ocurrir como consecuencia del traumatismo de la cadena osicular y ventana oval. En ocasiones, se observa, en la TC, un signo patognomónico, como el pneumolaberinto. No hay un protocolo establecido para el tratamiento. En principio, se recomienda el seguimiento audiométrico y la evaluación de síntomas vestibulares. En el caso de presentar hipoacusia neurosensorial progresiva o aparición de síntomas vestibulares, se sugiere la cirugía. ■

REFERENCIAS

1. Nishiike S, Hyo Y, Fukushima H. Stapediovestibular dislocation with pneumolabyrinth. *J Laryngol Otol.* 2008; 122(4):419-21.
2. Kita A, Kim I, Ishiyama G, Ishiyama A. Perilymphatic fistula after penetrating ear trauma. *Clin Pract Cases Emerg Med.* 2019; 3(2):115-8.
3. Van Hoecke H, Calus L, Dhooge I. Middle ear damages. *B-Ent.* 2016; Suppl 26(1):173-83.
4. Snelling JD, Bennett A, Wilson P, Wickstead M. Unusual Middle-Ear Mischief: Trans-Tympanic trauma from a hair grip resulting in ossicular, facial nerve and oval window disruption. *J Laryngol Otol.* 2006; 120(9):793-5.
5. Hidaka H, Miyazaki M, Kawase T, Kobayashi T. Traumatic Pneumolabyrinth: air location and hearing outcome. *Otol Neurotol.* 2012; 33(2):123-31.
6. Bogaerts M, Waterval J, Van Dinther J, Somers T, Et Al. Treatment of traumatic stapediovestibular luxation: case report with the introduction of a new technique and review of literature. *Otol Neurotol.* 2014; 35(4):582-8.
7. Nakashima T, Matsuda K, Okuda T, Tono T, et al. Late pneumolabyrinth may be induced by old penetrating injury: possibility of undiagnosed posttraumatic perilymphatic fistula. *Case Rep Otolaryngol.* 2015; 2015:506484.
8. Achache M, Sanjuan Puchol M, Santini L, Lafont B, et al. Late pneumolabyrinth after undiagnosed post-traumatic perilymphatic fistula. Case report illustrating the importance of systematic emergency management. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis.* 2013; 130(5):283-7.
9. Tsubota M, Shojaku H, Watanabe Y. Prognosis of inner ear function in pneumolabyrinth: case report and literature review. *Am J Otolaryngol.* 2009; 30(6):423-6.
10. Hatano A, Rikitake M, Komori M, Irie T, et al. Traumatic perilymphatic fistula with the luxation of the stapes into the vestibule. *Auris Nasus Larynx.* 2009; 36(4):474-8.

Germinoma en un paciente con emaciación y retraso de crecimiento. A propósito de un caso

Germinoma in a patient with emaciation and growth retardation. Case report

Dra. Antonella Y. Ciucio^a y Dra. Norma Schenone^b

RESUMEN

Los tumores del sistema nervioso central representan la segunda enfermedad oncológica más habitual en niños y adolescentes. Entre los tumores intracraneales, los de células germinales son infrecuentes. Los síntomas que desencadenan son cefalea, náuseas, vómitos, déficits hormonales, alteraciones visuales, pérdida de peso, pobre crecimiento y pubertad precoz. Menos frecuentemente, producen trastornos del movimiento o psiquiátricos. Algunos de estos tumores pueden ser asintomáticos un largo período, lo que desencadena un diagnóstico tardío.

Se presenta a una paciente femenina de 14 años con pérdida de peso y falla del crecimiento, con diagnóstico erróneo de trastorno de la conducta alimentaria. Tras estudios pertinentes, se arribó al diagnóstico de germinoma del sistema nervioso central. Al ser esta patología infrecuente y de presentación variable, requiere alto sentido de alerta por parte de la familia involucrada y del equipo de salud para evitar retrasos en el diagnóstico y el tratamiento.

Palabras clave: neoplasias encefálicas, germinoma, insuficiencia de crecimiento, hipopituitarismo, pediatría.

ABSTRACT

Central nervous system tumors are the second most frequent oncological disease among children and teenagers. Among the intracranial tumors, the germ cells ones are infrequent. The symptoms they cause are headaches, nausea and vomiting, hormonal deficits, visual disturbances, weight loss, poor growth and early puberty. Less frequently, they produce movement or psychiatric disorders. Some of these tumors can be asymptomatic for a long period leading to a late diagnosis. The case of a 14-year-old female patient is presented. She showed weight loss and growth failure, with wrong diagnosis of eating disorder. After proper study methods, we arrived to central nervous system germinoma diagnosis. Because this pathology is rare and has a variable form of presentation, it requires that the family involved and the health team to be alert, to avoid delays in diagnosis and treatment.

a. Residencia de Clínica Pediátrica, Comité de Docencia e Investigación.

b. Médica de planta de Clínica Pediátrica, Sector de Internación (CEM 4).

Hospital General de Niños Pedro de Elizalde, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.

Correspondencia:

Dra. Antonella Ciucio: antonellacyucio@gmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 17-7-2020

Aceptado: 26-10-2020

Key words: brain neoplasms, germinoma, failure to thrive, hypopituitarism, pediatrics.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.e171>

Cómo citar: Ciucio AY, Schenone N. Germinoma en un paciente con emaciación y retraso de crecimiento. A propósito de un caso. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):e171-e175.

INTRODUCCIÓN

Los tumores del sistema nervioso central (SNC) representan la segunda enfermedad oncológica más frecuente en los niños y en los adolescentes, después de las leucemias. Los tipos histológicos más habituales son los gliomas y los tumores embrionarios, y los tumores de células germinales (TCG) son infrecuentes.^{1,2}

Según el Registro Oncopediátrico Hospitalario Argentino 2000-2016, la tasa anual de incidencia de TCG del SNC es de 0,7 por cada 1 000 000 en los niños menores de 15 años; son más frecuentes en los varones y en los niños pequeños, y decrece la incidencia cuanto más aumenta la edad.¹⁻³

Los síntomas que se presentan con mayor frecuencia son cefalea, náuseas, vómitos, déficits hormonales, alteraciones visuales, pérdida de peso, pobre crecimiento y pubertad precoz. Menos frecuentemente, producen trastornos del movimiento o psiquiátricos. Algunos son asintomáticos durante largo período, lo que lleva al diagnóstico tardío.^{2,4,5}

Se presenta el caso clínico de una paciente femenina de 14 años con pérdida de peso y falla del crecimiento, con diagnóstico tardío de germinoma del SNC.

CASO CLÍNICO

Paciente femenina de 14 años con pérdida de peso progresiva de 2 años de evolución, reagudizada en los últimos meses, asociada a inestabilidad emocional. Fue derivada por su pediatra de cabecera para internación con diagnóstico presuntivo de trastorno de la conducta alimentaria.

Refirió haber comenzado con trastornos alimenticios hacía, aproximadamente, dos años,

coincidente con la separación de sus padres, con pérdida de apetito progresiva y rechazo a todo tipo de alimentos en los últimos meses. Como antecedente, se detectó mal progreso de la talla de 5 años de evolución, con abordaje diagnóstico insuficiente. Presentaba seguimiento pediátrico y psicológico previo, con diferentes profesionales.

En el examen físico, presentó regular estado general, eucárdica, eupneica, normotensa, con adelgazamiento extremo, pálida, sin desarrollo puberal. El resto del examen físico, sin particularidades. Antropometría: peso de 17,8 kg ($Z = -5$ desvíos estándar $-DE$), talla de 131 cm ($Z = -4$ DE), índice de masa corporal de 10 ($Z = -3$ DE). Adecuación peso/talla del 60 %.

Se internó e inició el seguimiento con el Servicio de Clínica, Nutrición y Salud Mental. Se indicó una dieta hipercalórica más fórmula hidrolizada nocturna por sonda nasogástrica, sin aumento de peso significativo.

Durante la internación, presentó vómitos alimenticios matinales, poliuria y polidipsia. También se evidenció la alteración en la visión periférica, con pupilas midriáticas hiporreactivas y fondo de ojo normal.

Se realizaron estudios de laboratorio: Na^+ sérico de 149 mEq/l, Na^+ en orina de 28 mEq/l

con densidad urinaria de 1000. Perfil hormonal: cortisol sérico de 2,8 ug/dl; factor de crecimiento insulínico tipo 1 (*insulin-like growth factor-1; IGF-1*, por sus siglas en inglés): 52,1 ng/ml; proteína transportadora 1 del factor de crecimiento similar a la insulina (*insulin-like growth factor-binding protein-1; IGFBP-1*, por sus siglas en inglés): 1,61 ng/ml; BP3: -3,87 ug/ml; prolactina sérica: 100 ng/ml; hormona estimulante de la tiroides (*thyroid-stimulating hormone; TSH*, por sus siglas en inglés): 1,3 mUI/dl; T4 libre: 0,56 ng/dl.

Debido al cuadro clínico presentado en la internación y a los antecedentes, se realizó una tomografía axial computada (TAC) de cerebro sin contraste, en la que se observó tumoración a nivel selar (*Figura 1*), y una resonancia nuclear magnética (RNM) de cerebro, que evidenció una lesión expansiva con componentes sólidos y quísticos selar y supraselar (*Figura 2*), por lo que se sospechó craneofaringioma. También se solicitaron marcadores tumorales: subunidad beta de la gonadotropina coriónica humana (*beta subunit of human chorionic gonadotropin; beta-HCG*, por sus siglas en inglés) de 36,67, alfa fetoproteína de 1,38 ng/ml. Con diagnóstico presuntivo de panhipopituitarismo y diabetes insípida secundario a un tumor cerebral,

FIGURA 1. Tomografía axial computada cerebral sin contraste



Se observa, a nivel selar, una imagen con extensión superior, hiperdensa, finamente heterogénea de bordes netos lobulados. No se evidencia desviación de la línea media (flecha roja).

Extraído del Servicio de Imágenes del Hospital General de Niños Pedro de Elizalde, Ciudad Autónoma de Buenos Aires (CABA), Argentina.

inició tratamiento hormonal sustitutivo con levotiroxina, hidrocortisona y desmopresina.

El Servicio de Neurocirugía decidió realizar la toma de biopsia y la eventual extirpación del tumor. Se realizó una craneotomía, y se observó una tumoración de gran tamaño, poco friable, en contacto con nervios ópticos y vasos sanguíneos, sin posibilidad de extirpación. Resultado de la biopsia: germinoma puro.

Posteriormente, se realizó una RNM de columna vertebral con contraste, en la cual se evidenciaron lesiones nodulares de intensidad intermedia a nivel de D7-8 y L2-3, compatibles con metástasis. La paciente inició el tratamiento quimioterápico, al que, luego de 3 meses, se asoció radioterapia, con buena respuesta. Posteriormente, a 6 meses de tratamiento, se logró la remisión completa, con una sustancial mejoría clínica respecto a los síntomas visuales, la recuperación nutricional y los síntomas psicológicos. Continuó con tratamiento hormonal sustitutivo.

DISCUSIÓN

Los tumores del SNC representan la segunda enfermedad oncológica más habitual en los niños y en los adolescentes. Los más frecuentes son los gliomas (el 53,1 %) y los tumores embrionarios (el 13,8 %). Los TCG son infrecuentes (el 3,8 %).^{1,2} Estos últimos se agrupan en germinomas puros

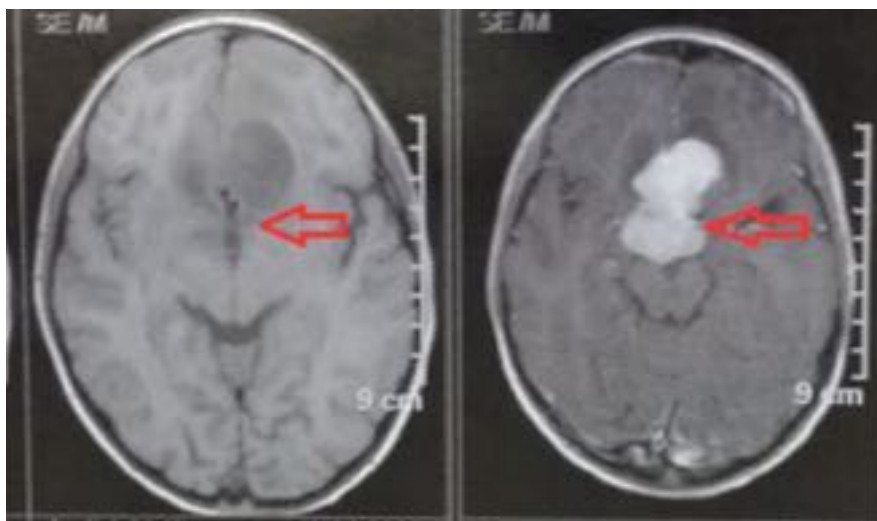
y no germinomatosos (teratomas, carcinomas embrionarios, del seno endodérmico y coriocarcinomas). Se localizan, en su mayoría, en la región supraselar (el 40 % de los germinomas y el 28 % no germinomatosos), seguida por la región pineal (el 33 % de los germinomas y el 23 % no germinomatosos).^{4,6}

Los síntomas que se presentan con mayor frecuencia por estos tumores son cefalea, náuseas y vómitos, seguidos por poliuria, polidipsia, diplopía, cambios en la agudeza o en el campo visual, fatiga, pérdida de peso, pobre crecimiento y pubertad precoz. El perfil de los síntomas se relaciona con la ubicación del tumor:

- Región supraselar: caracterizados por deficiencias hormonales, presentan un pródromo prolongado. Diabetes insípida, hipotiroidismo, déficit de hormona de crecimiento, pubertad precoz o, menos frecuentemente, retraso puberal.
- Región pineal: síntomas de hipertensión endocraneana y alteraciones visuales.
- Tumores multifocales: síntomas de ambas regiones.^{4,8}

Menos frecuentemente, se encuentran síntomas como trastornos del movimiento, enuresis, anorexia, y trastornos psiquiátricos, como cambios de comportamiento o del estado de ánimo. Se han reportado también casos de síndrome diencefálico.^{2,5,7} En el caso clínico

FIGURA 2. Resonancia nuclear magnética de cerebro



Se observan tiempos T1 a la izquierda y T2 a la derecha. En ambos, se muestra, a nivel selar y supraselar, una lesión expansiva con contornos lobulados, con componente sólido-quístico de, aproximadamente, 26,3 x 51,1 x 41,4 mm. Presenta realce de su aspecto sólido con contraste. Se observa un efecto de masa y edema perilesional (flecha roja).

Extraído del Servicio de Imágenes del Hospital General de Niños Pedro de Elizalde, CABA, Argentina.

presentado, la paciente ingresó con sospecha de trastorno de la conducta alimentaria de causa psicógena, aunque, al analizar retrospectivamente el caso, se evidenció retraso del crecimiento previo a la pérdida de peso, lo cual no condijo con el diagnóstico inicial.

La mayoría de los TCG cerebrales son diagnosticados dentro de los dos meses del primer síntoma reportado, aunque, en alrededor del 12 %, el diagnóstico se produce después de un año o más. Se considera diagnóstico tardío luego de 6 meses,^{2,4,8} como ocurrió en nuestro caso, teniendo en cuenta el retraso del crecimiento como primer signo.

Por lo general, cuando existen síntomas de hipertensión endocraneana, se piensa inmediatamente en un tumor del SNC, por lo que diferentes trabajos, como el de Sethi y colaboradores (con 70 pacientes) y el de Crawford y colaboradores (con 30), han estudiado los factores asociados al retraso en el diagnóstico de TCG. Entre estos, se contempla el sexo femenino, la ubicación supraselar, el tipo histológico germinoma puro y la presentación clínica con retraso del crecimiento, poliuria, síntomas de hipotiroidismo, anorexia y síntomas psiquiátricos (trastorno alimentario, depresión, trastorno obsesivo-compulsivo, ansiedad).^{4,8}

Se observó que los pacientes con estos síntomas tenían erróneamente el diagnóstico de diabetes insípida o *mellitus*, retraso del crecimiento hormonal, hipotiroidismo central, insuficiencia suprarrenal central, migraña, embarazo, anorexia nerviosa o psicosis, lo que retrasaba el diagnóstico oportuno. Estos pacientes solían ver a un mayor número de médicos antes del descubrimiento del tumor, como pediatras, médicos de Urgencias, neurólogos, oftalmólogos, endocrinólogos, entre otros.^{4,8}

Nuestra paciente, desde el inicio de los síntomas, consultó a múltiples profesionales, como pediatras y especialistas en salud mental. Ellos, debido al conflicto familiar, la disminución de la ingesta y el adelgazamiento, consideraron el cuadro como probable trastorno de la conducta alimentaria, sin evaluar que presentaba velocidad de crecimiento alterada de 5 años de evolución.

El diagnóstico completo incluye neuroimagen (TAC y RNM con contraste), dosaje de marcadores tumorales y determinación histológica por biopsia. La evaluación del eje hormonal es indispensable para instaurar el tratamiento sustitutivo.⁹⁻¹¹

Respecto al tratamiento, este difiere según

la localización, el tipo histológico y la presencia de tumores múltiples. Puede utilizarse radio- o quimioterapia, además de la cirugía.^{12,13} Los germinomas son radiosensibles, por lo que tanto el localizado como el metastásico pueden tratarse con dosis reducidas de radiación craneoespinal sola o con quimioterapia.¹² Ambos tratamientos tienen influencia significativa en la supervivencia a largo plazo, y se logra la exclusión de la cirugía en algunos casos.¹³ La paciente descrita inició con el tratamiento quimioterápico, y se sumó, después de la estabilización clínica, la radioterapia. De esta forma, se logró la remisión tumoral.

La tasa de supervivencia para los pacientes con TCG del SNC a 5 años es del 95,3 % en los germinomas y del 77,6 % en aquellos con TCG no germinomatosos, sin diferencias según el sexo, la edad o el sitio del tumor primario.^{14,15} En los pacientes con diagnóstico tardío, se observa una disminución de la supervivencia libre de eventos a largo plazo. Además, aumentan las probabilidades de tener enfermedad diseminada al momento del diagnóstico.^{4,8}

El caso clínico expuesto es de una paciente con un germinoma del SNC, con una presentación infrecuente, con falla de crecimiento, retraso puberal y panhipopituitarismo de varios años de evolución, que fue erróneamente diagnosticado como trastorno de la conducta alimentaria, lo que retrasó el diagnóstico del germinoma.

Al ser esta patología infrecuente y con formas de presentación variables, requiere de un alto sentido de alerta de la familia involucrada y, por parte del equipo de salud, un ejercicio diagnóstico exhaustivo, que evite retrasos en el diagnóstico y en el tratamiento, teniendo en cuenta las diversas presentaciones diferentes al síndrome de hipertensión endocraneana, como se expone en el caso clínico descrito. ■

Agradecimientos

Al Dr. Héctor Cairoli, jefe de Sala de Internación (CEM 4) del Hospital General de Niños Pedro de Elizalde, por sus aportes en el manejo clínico de la paciente descrita. Al Dr. Nicolás Grisolia, jefe de residentes de Clínica Pediátrica del Hospital Pedro de Elizalde, por su colaboración en la redacción de este trabajo.

REFERENCIAS

- Ostrom Q, Gittleman H, Xu J, Kromer C, et al. CBTRUS Statistical Report: Primary Brain and Other Central Nervous System Tumors Diagnosed in the United States in 2009-2013. *Neuro Oncol.* 2016; 18(Suppl 5):v1-75.
- Zumel-Marne A, Kundi M, Castaño-Vinyals G, Alguacil J, et

- al. Clinical presentation of young people (10–24 years old) with brain tumors: results from the international MOBI-Kids study. *J Neurooncol.* 2020; 147(2):427-40.
3. Moreno F, Chaplin MA. Registro Oncopediátrico Hospitalario Argentino. 6.^{ta} ed. Ciudad Autónoma de Buenos Aires: Instituto Nacional del Cáncer; 2018.
 4. Sethi R, Marino R, Niemierko A, Tarbell N, et al. Delayed Diagnosis in Children with Intracranial Germ Cell Tumors. *J Pediatr.* 2013; 163(5):1448-53.
 5. Malbari F, Gershon T, Garvin J, Allen J, et al. Psychiatric manifestations as initial presentation for pediatric CNS germ cell tumors, a case series. *Childs Nerv Syst.* 2016; 32(8):1359-62.
 6. Louis D, Ohgaki H, Wiestler O, Cavenee K, et al. The 2007 WHO Classification of Tumours of the Central Nervous System. *Acta Neuropathol.* 2007; 114(2):97-109.
 7. Moreno Villares J, Fernández Carrión F, Gallego Fernández M, Muñoz González A, et al. Síndrome diencefálico: una causa poco común de malnutrición. *An Pediatr.* 2002; 56(5):466-71.
 8. Crawford J, Santi M, Vezina G, Myseros J, et al. CNS germ cell tumor (CNSGCT) of childhood: Presentation and delayed diagnosis. *Neurology.* 2007; 68(20):1668-73.
 9. Calaminus G, Bamberg M, Harms D, Jürgens H, et al. AFP/beta-HCG secreting CNS germ cell tumors: long-term outcome with respect to initial symptoms and primary tumor resection. Results of the cooperative trial MAKEI 89. *Neuropediatrics.* 2005; 36(2):71-7.
 10. Awa R, Campos F, Arita K, Sugiyama K, et al. Neuroimaging diagnosis of pineal region tumors—quest for pathognomonic finding of germinoma. *Neuroradiology.* 2014; 56(7):525-34.
 11. Allen J, Chacko J, Donahue B, Dhall G, et al. Diagnostic sensitivity of serum and lumbar CSF bHCG in newly diagnosed CNS germinoma. *Pediatr Blood Cancer.* 2012; 59(7):1180-2.
 12. Calaminus G, Kortmann R, Worch J, Nicholson J, et al. SIOP CNS GCT 96: final report of outcome of a prospective, multinational nonrandomized trial for children and adults with intracranial germinoma, comparing craniospinal irradiation alone with chemotherapy followed by focal primary site irradiation for patients with localized disease. *Neuro Oncol.* 2013; 15(6):788-96.
 13. Calaminus G, Bamberg M, Jürgens H, Kortmann R, et al. Impact of surgery, chemotherapy and irradiation on long term outcome of intracranial malignant non-germinomatous germ cell tumors: results of the German Cooperative Trial MAKEI 89. *Klin Padiatr.* 2004; 216(3):141-9.
 14. Lee SH, Jung K, Ha J, Oh CM, et al. Nationwide Population-Based Incidence and Survival Rates of Malignant Central Nervous System Germ Cell Tumors in Korea, 2005-2012. *Cancer Res Treat.* 2017; 49(2):494-501.
 15. Acharya S, DeWees T, Shinohara ET, Perkins S. Long-term outcomes and late effects for childhood and young adulthood intracranial germinomas. *Neuro Oncol.* 2015; 17(5):741-6.

Dengue en los inicios de la pandemia de COVID-19 en la Argentina

Dengue at the beginning of the COVID-19 pandemic in Argentina

Dra. Griselda Berberian^a

RESUMEN

A 11 años del primer brote de dengue en Buenos Aires, el 20 de marzo de 2020, mientras se iniciaba la cuarentena obligatoria por COVID-19, dengue pasó a ser la causa más común de consulta por fiebre. La nueva ola de casos de dengue ya se encontraba entre las predicciones de la Organización Panamericana de la Salud en función del aumento en la región de las Américas que se venía presentando desde el año anterior. La llegada del SARS-CoV-2 a principios de marzo, sumada al brote de dengue que ya estaba en curso, resultó en un nuevo desafío para el sistema de salud, mientras comenzaba un paradigma con planes de adaptación a la nueva infección pandémica en el país. La superposición de infecciones con potencial epidémico, como dengue, recuerda la importancia de no desatender otras enfermedades endémicas, emergentes y reemergentes a la sombra del nuevo fenómeno epidemiológico.

Palabras clave: COVID-19, dengue, coinfección.

ABSTRACT

Eleven years after the first dengue outbreak in Buenos Aires, on March 20, 2020, while the mandatory quarantine for COVID-19 began dengue became the most common cause of fever consultation. The new wave of dengue cases was already among the predictions of the Pan American Health Organization based on the increase in the region of the Americas that had been occurring since the previous year. The arrival of SARS-CoV-2 at the beginning of March, added to the dengue outbreak that was already underway, made a new challenge for the health system while a new paradigm was initiated with adaptation plans to the new pandemic infection in the country. The overlapping of infections with epidemic potential such as dengue recalls the importance of not neglecting other endemic, emerging and re-emerging diseases in the shadow of the new epidemiological phenomenon.

Key words: COVID-19, dengue, coinfection.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.131>

Cómo citar: Berberian G. Dengue en los inicios de la pandemia de COVID-19 en la Argentina. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):131-138.

INTRODUCCIÓN

Dengue es una infección viral causada por el virus dengue (DENV serotipos 1-4), transmitida por mosquitos del género *Aedes*, en especial, el *Aedes aegypti* (*Aa*), y es la primera enfermedad en frecuencia dentro de las arbovirosis (enfermedades virales transmitidas por artrópodos). Es una enfermedad de distribución mundial, y, de acuerdo con las estimaciones de la Organización Mundial de la Salud (OMS), más de la mitad del planeta vive en zonas de riesgo de infección, con una distribución prevalente en las regiones tropicales y subtropicales (Figura 1).

El riesgo de dengue está en relación directa con la presencia del vector, el virus y de los huéspedes susceptibles. La Argentina reúne los factores necesarios para la presencia y propagación de la enfermedad: adquiere relevancia estacional año tras año y ha pasado de ser un país joven en dengue hace más de una década a formar parte de un país con circulación viral endémica.

En cuanto al vector, es el *Aa* el más frecuentemente asociado al ciclo de la transmisión, aunque hay otros dentro del género, como el *Aedes albopictus*, que se caracterizan, entre otras cosas, por presentar una mayor adaptabilidad ambiental a zonas más templadas, pero sin relevancia epidemiológica en el país. El *Aa* también es transmisor de otras varias arbovirosis, como la fiebre amarilla, zika, chikungunya, y otros, como el mayaro, que es causante de encefalitis.

El 20 de marzo de 2020, durante la semana epidemiológica (SE) número 12, en coincidencia con el inicio de la cuarentena obligatoria por

a. Servicio de Epidemiología e Infectología del Hospital de Pediatría "Prof. Dr. Juan P. Garrahan", Ciudad de Buenos Aires, Argentina.

Correspondencia:
Dra. Griselda Berberian:
griselberberian@yahoo.com.ar

Financiamiento:
Ninguno.

Conflicto de intereses:
Ninguno que declarar.

Recibido: 20-8-2020
Aceptado: 20-10-2020

coronavirus 19 (*coronavirus disease 19; COVID-19*, por sus siglas en inglés), dengue pasó a ser el motivo de consulta más frecuente por fiebre. Este incremento en la Ciudad Autónoma de Buenos Aires (CABA) se presentó en coincidencia con el aumento del número de casos en todo el país de

arbovirosis, que fue, desde el inicio del año 2020, entre 7 y 9 veces mayor que en las temporadas anteriores, en su mayoría, asociado a dengue, con un pico de prevalencia que se presentó entre las SE 11 y 17.^{1,2} (Figuras 2 y 3)

FIGURA 1. Distribución mundial de dengue. Organización Mundial de la Salud, 2016

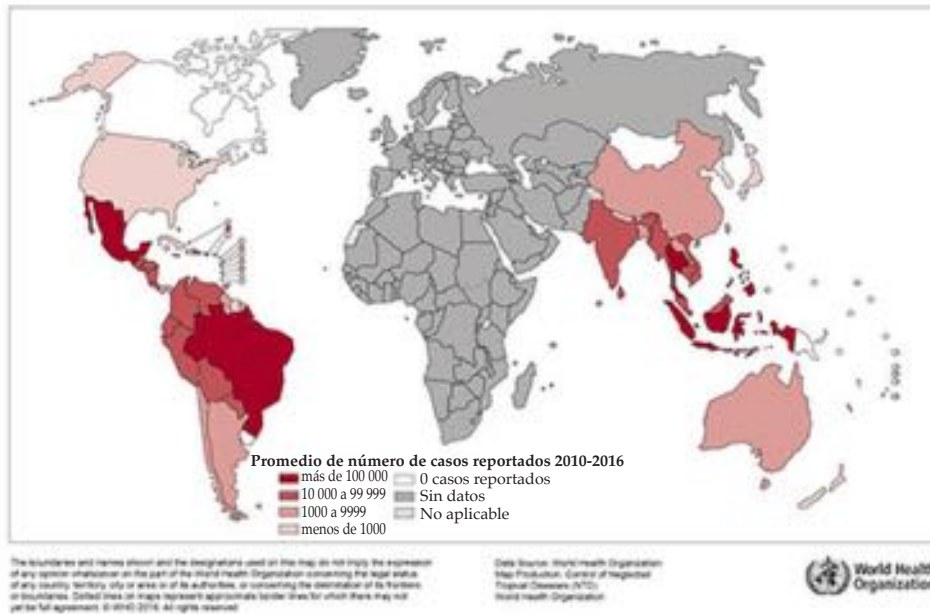
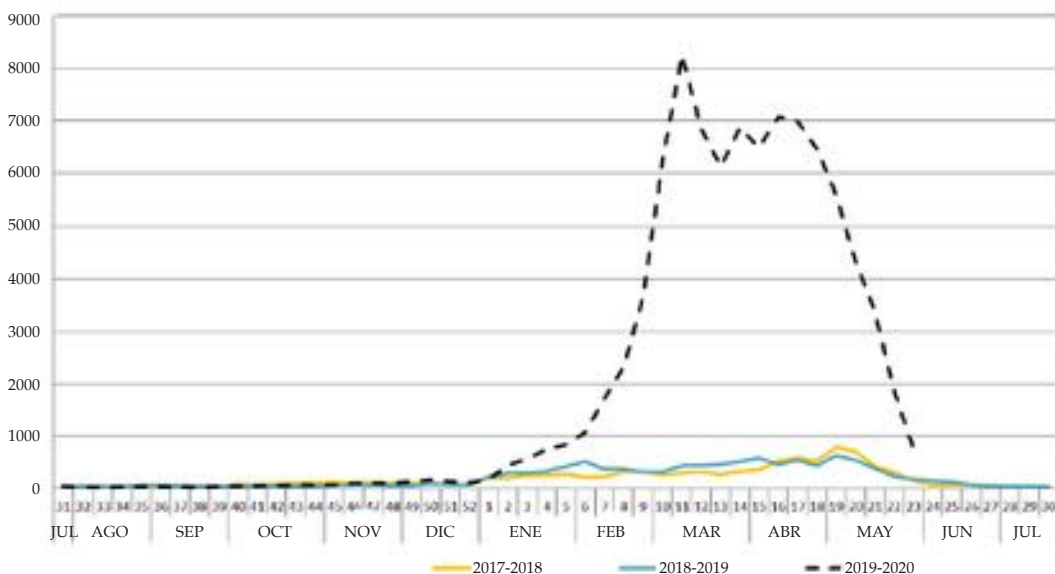


FIGURA 2. Casos de arbovirus notificados por semana epidemiológica de inicio de síntomas o consulta. Período entre semanas epidemiológicas 31 y 30. Años 2017, 2018, 2019 y 2020



Fuente: Elaboración propia del Área de Vigilancia de la salud de la Dirección Nacional de Epidemiología e Información Estratégica sobre la base de información proveniente del Sistema Nacional de Vigilancia de la Salud (SNVS) –Módulos C2 y SIVILA– y del SNVS^{2.0}.

Dengue en las Américas

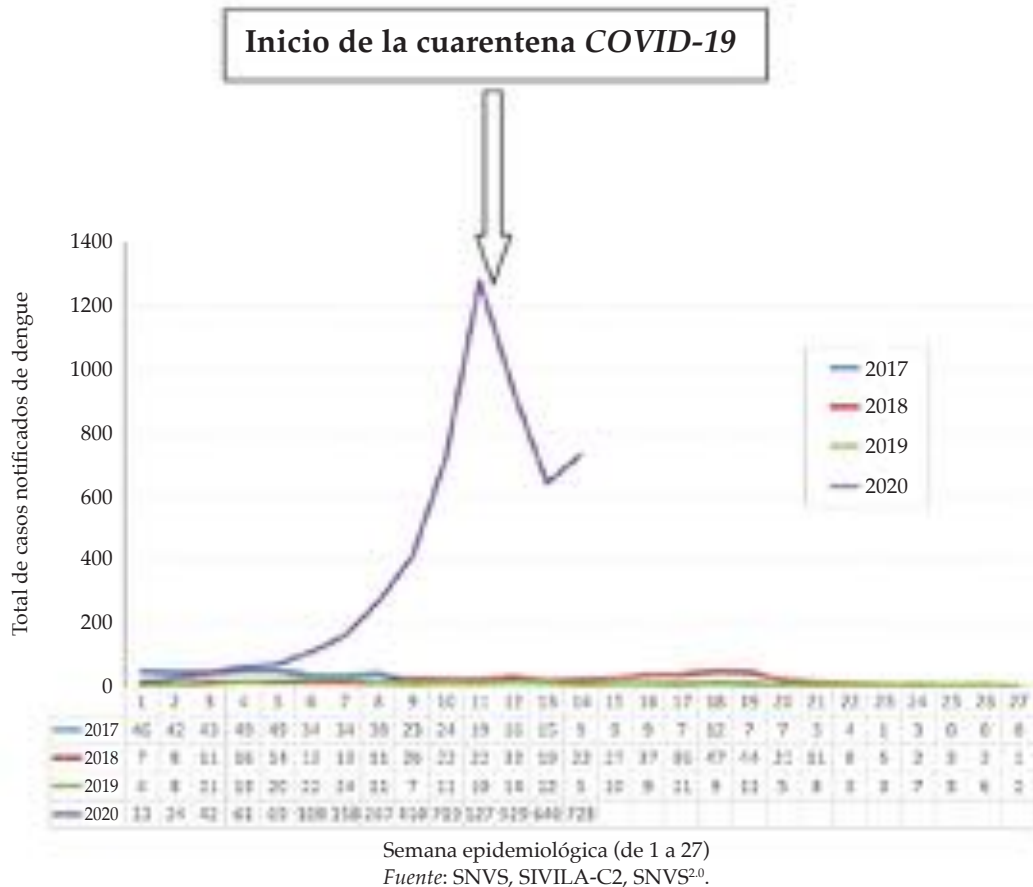
El 15 de agosto de 2019, la Organización Panamericana de la Salud (OPS/OMS) alertó sobre el inicio de un nuevo ciclo epidémico de dengue en la Región de las Américas, con un incremento de casos significativo en varios territorios de la región.³ Es así que, en 2019 (SE 1-52), se registraron las mayores cifras históricas de dengue en la Región de las Américas, que superaron en un 30 % el año epidémico 2015, con 3 139 335 casos, 28 169 (el 0,9 %) formas graves, 1538 defunciones y un índice de letalidad del 0,049 %. Los 5 países con tasas más altas de infección por 100 000 habitantes fueron Nicaragua (2962), Belice (2173), Honduras (1230), Brasil (737) y El Salvador (428). Considerando el número total de casos de dengue del año 2019, el Cono Sur fue el más afectado, con 2423 841 infectados, de los cuales 2 226 914 (el 91 %) correspondieron a Brasil, 16 100 a Bolivia, 10 800 a Paraguay y 3 209

a la Argentina. Los 4 países registraron más casos de dengue que en los dos años precedentes, y, en el caso particular de Brasil, notificó el mayor número de casos de la historia.⁴

En 2020, entre las SE 1 y 21 (10 de junio), se reportaron 1 645 678 casos de arbovirosis en las Américas. Correspondieron a dengue el 96 %, con 1 600 000 casos, seguido por 37 279 de chikungunya y 7452 de zika, y se presentaron nuevamente en el Cono Sur la mayor parte de los casos de la región.⁵

Durante 2020, Brasil, Paraguay y Bolivia fueron los países limítrofes que presentaron el mayor número de casos de dengue. Correspondieron a Brasil 1 040 481 (el 65 %); a Paraguay, 218 798 (el 14 %), y a Bolivia, 82 460 (el 5 %), con tasas de 370, 660 y 735/100 000 habitantes, respectivamente. Bolivia y Paraguay fueron los países que presentaron mayores tasas/100 000 habitantes. Brasil con circulación

FIGURA 3. Dengue en la Ciudad Autónoma de Buenos Aires, 2017-2020



de los 4 serotipos virales; en Paraguay, DENV 1, DENV 2 y DENV 4, y, en Bolivia, DENV 1 y DENV 2 fueron los serotipos prevalentes. La prevalencia de serotipos se vio luego reflejada en

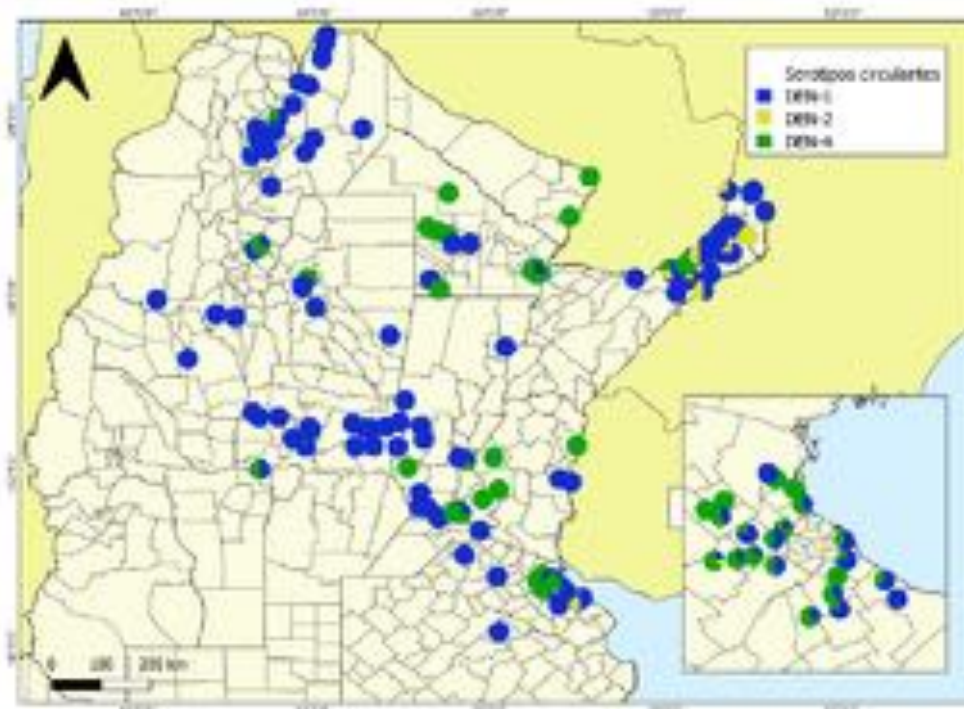
la Argentina con el inicio de los casos 2020 y la presencia de serotipos DENV 1, DENV 2 y DENV 4, con predominio del DENV 1, como en los años anteriores (Figuras 4.y 5).

FIGURA 4. Distribución de casos reportados de dengue y proporción de dengue grave por año de notificación. Región de las Américas, 1999-2020 (hasta la semana epidemiológica 21 de 2020)



Fuente: Datos ingresados a la Plataforma de Información de Salud para las Américas (PLISA, OPS/OMS) por los ministerios e institutos de salud de los países y territorios de la región. La información detallada por país está disponible en: <https://bit.ly/2UHpBBd>.

FIGURA 5. Serotipos identificados en casos sin antecedentes de viaje en la Argentina, de la semana epidemiológica 31-2019 a la 15-2020. Boletín Integrado de Vigilancia 493: semana 15, 2020



Fuente: SNVS e información provista por referentes provinciales.

Dengue en la Argentina

En la Argentina, los casos de dengue del año 2020 representan el tercer brote epidémico y el más importante que se haya presentado en el país. Iniciaron su tendencia ascendente desde la SE 1, con el pico entre las SE 11 y 17. Entre las SE 1 y 33 de 2020, se notificaron 91 114 casos sospechosos y 59 277 (el 65 %) positivos por laboratorio o criterio clínico-epidemiológico, con el 0,16 % de formas graves y una tasa de letalidad del 0,049 %, correspondiente a 25 defunciones. Las tasas más altas correspondieron a las regiones del Noroeste Argentino (NOA), con 345/100 000, seguido por el Noreste Argentino (NEA), con 248/100 000 habitantes, aunque el mayor número de casos se presentó en la zona central del país, con 19 000 casos, inicialmente, con antecedente de viaje al exterior, que pasó, al poco tiempo, a la adquisición por transmisión local y autóctona.^{5,6}

Dengue y COVID-19

Volviendo al inicio de la cuarentena en la Argentina, el 20 de marzo de 2020, al dengue que ya estaba circulando en el país se le agregó el coronavirus de tipo 2 causante del síndrome respiratorio agudo grave (*severe acute respiratory syndrome coronavirus 2*; SARS-CoV-2, por sus siglas en inglés), que ingresaba de a poco desde el exterior, donde la visión pandémica ya estaba francamente instalada. El incremento estacional de dengue, que se hizo visible en febrero de 2020, se adelantó al primer caso en la Argentina de COVID-19, que fue el 3 de marzo de 2020. Se inició una superposición de patologías, ya descrita en distintas publicaciones, y se agregaron nuevos desafíos al enfoque diagnóstico-terapéutico inicial, así como al de la población en general.

Esta situación resulta más preocupante, especialmente, en las comunidades de menores recursos, que se encuentran más vulnerables a presentar ambas patologías, como una verdadera sindemia. Además, debido a que COVID-19 y dengue pueden tener una evolución desfavorable, en especial, en los pacientes con comorbilidades, la superposición de ambas podría favorecer los requerimientos de cuidados intensivos, lo que complicaría aún más el sistema de salud.⁷

Hasta el 27 de julio de 2020, Brasil, Chile y la Argentina fueron los 3 países de la subregión del Cono Sur que notificaron más casos acumulados de COVID-19, con 2 935 176 de casos y 99 222 defunciones, en relación inversa con los casos de dengue, que fueron disminuyendo con el transcurso del año por causa, principalmente,

estacional y por el confinamiento.⁸ Como ya fue mencionado, durante el período estival de 2020, la subregión del Cono Sur presentó el brote más importante de dengue, con aumentos respecto del año anterior (2019) del 2426 % para la Argentina y 2698 % para Paraguay.

¿Cuándo empezó a preocupar la presencia de dengue en la Argentina?

A comienzos del siglo xx, dengue comenzó su expansión por América Central y Sudamérica. Llegó a la Argentina en 1916, cuando se conoció el primer brote en el país, introducido a partir de un caso importado de Paraguay.

En relación con la presencia de *Aa* en la Argentina, la gran campaña de erradicación del vector que se realizó en la primera mitad del siglo xx para la prevención de la fiebre amarilla urbana y dengue logró disminuir significativamente su presencia no solo en la Argentina, sino en el continente americano, y se declaró libre del mosquito transmisor en la década de los sesenta. Pero, debido a que varios países no lograron la eliminación, se produjo la reinfestación, con brotes en Centroamérica, Caribe y Sudamérica, con riesgos variables de presencia vectorial dentro de la Argentina que dependieron de factores climáticos, ambientales y de la concentración poblacional.⁹

En la Argentina, desde 1997, se han reportado casos de dengue, principalmente, en las zonas de climas tropicales al norte del país, como Salta, Formosa y Misiones. Se han asistido, en Buenos Aires y en otras provincias, casos importados, en especial, de Paraguay, Bolivia y Brasil.¹⁰

Poco a poco, se fue extendiendo, y, salvo casos aislados en las provincias del NEA y del NOA, dengue no fue un gran motivo de preocupación en la Argentina hasta fines de 2008, cuando avanzó de norte a sur con brotes epidémicos en relación con la temporada estival. Llegó a Buenos Aires, donde no se conocía la enfermedad más allá de reportes de casos esporádicos, en general, importados por viajeros que regresaban de otros países tropicales o, más raramente, del norte del país.

En 1995, se creó el Programa de Prevención del Dengue en Capital Federal a partir de la detección del mosquito *Aa* en la ciudad, con el objetivo de iniciar la vigilancia entomológica, control ambiental, educación sanitaria, vigilancia de casos y actualización diagnóstico-terapéutica para el personal de salud.¹¹ A partir de la temporada 2008-2009 hasta la actualidad, en la Argentina,

dengue se propagó más allá de las zonas tropicales y subtropicales del norte, y llegó hasta zonas más templadas del centro del país, como Córdoba, donde se detectó la primera transmisión autóctona en 2009.¹² Así como en Buenos Aires, donde se presentó en 3 olas epidémicas en los últimos 11 años, con períodos interepidémicos cada vez más cortos y mayor número de casos en los brotes sucesivos.

El avance de dengue a la región del centro del país obedece a una multiplicidad de causas. Los factores ambientales están ampliamente relacionados con el cambio climático que genera el calentamiento global, con el progresivo aumento de temperatura, en especial, en zonas templadas, que favorece el desarrollo vectorial.¹³ Las causas sociales también contribuyen a su presencia, donde el hacinamiento y las condiciones inapropiadas de higiene y vivienda favorecen el desarrollo del vector.^{14,15}

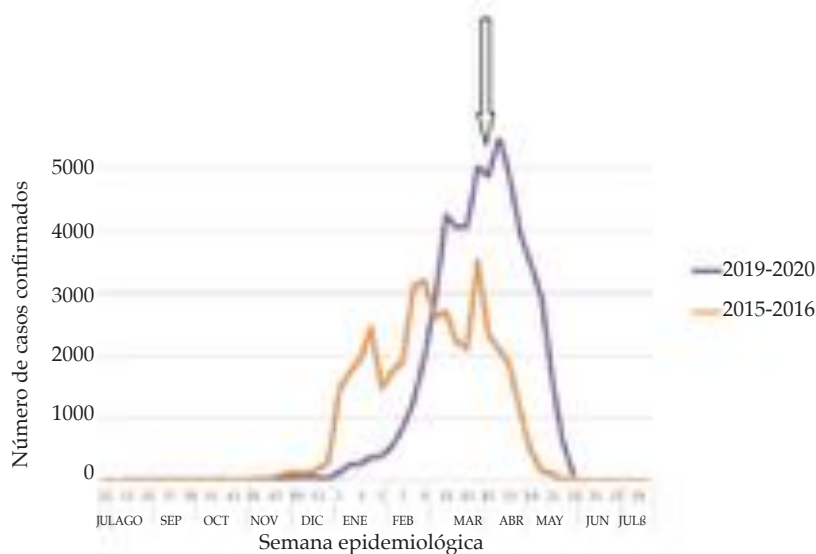
Los movimientos migratorios también tienen un rol importante en la transmisión de dengue, en especial, a zonas templadas, donde los casos importados desde áreas endémicas preceden a la transmisión local.¹⁶ Muchas de estas importaciones ocurren a partir de los viajeros que vienen de las provincias del norte de la Argentina o bien de países vecinos, como Brasil, Bolivia y Paraguay luego de las fiestas y vacaciones estivales, y pasan de las zonas tropicales a las de

climas templados.¹⁷

Los primeros casos de dengue de la temporada, en especial, en Buenos Aires, se relacionan con la aparición de casos en países limítrofes que, con el continuo devenir de movimientos vacacionales por la temporada estival, favorecen el ingreso de los infectados, hecho que, sumado a la presencia del vector y de una población susceptible, permiten el inicio del ciclo de la infección, y continúa luego con la transmisión comunitaria local, como el brote de dengue autóctono en el Área Metropolitana de Buenos Aires, que se originó en Bolivia y provincias del norte argentino en 2009.¹⁸

En 2020, se registró la mayor cantidad de casos de dengue de la historia del país, así como una mayor extensión geográfica y temporal. En el primer brote de la temporada 2008-2009, se reportaron 26 700 casos de dengue en la Argentina. Predominó DENV 1, cuyo foco más importante estuvo en la región del NOA. Siete años más tarde, en 2016, se presentó el segundo brote de dengue, con 41 749 casos; se agregó el NEA, y se sumaron otros arbovirus, como zika y chikungunya, aunque con cifras menores. Cuatro años más tarde, en 2020, se presentó el tercer gran brote de dengue, con 59 277 casos, con el aislamiento de DENV 1 (el 72 %) en su mayoría, pero ya diversificando los serotipos con el DENV 4 (el 26 %) y DENV 2 (el 2 %) (Figura 6).

FIGURA 6. Casos confirmados de dengue por semana epidemiológica. Total del país. Temporadas 2015-2016 y 2019-2020



Fuente: Elaboración propia del Área de Vigilancia de la Salud de la Dirección Nacional de Epidemiología sobre la base de información proveniente del Sistema Nacional de Vigilancia de la Salud (SNVS2.0).

El aumento progresivo del número de casos en cada ciclo epidémico, sumado al acortamiento de los intervalos interepidémicos y la diversificación de serotipos, indica que, probablemente, dengue continuará en el país, siempre y cuando no cambien las situaciones socioambientales, en especial, en función de la erradicación del vector.

El aumento en la progresión de casos reportada en las cifras nacionales, así como en la provincia de Buenos Aires y la CABA, se vio reflejado en las consultas por cuadros febriles con diagnóstico de dengue realizadas en el Hospital de Pediatría “Prof. Dr. Juan P. Garrahan”, donde fueron atendidos 8 pacientes en 2009, 84 en 2016 y 132 en 2020, con infección confirmada por reacción en cadena de la polimerasa (PCR por sus siglas en inglés) o serología, sumado al nexo epidemiológico en 2016, cuando el 38 % del total de los casos fueron reportados como sospechosos.

Prevención

Teniendo en cuenta la carencia, hasta el momento, de un tratamiento antiviral de eficacia probada y vacuna para uso universal con una protección adecuada para todos los serotipos, resulta indispensable la implementación de las medidas de prevención de desarrollo del mosquito durante todo el año, así como el conocimiento de la enfermedad por parte de la población y del sistema de salud para una adecuada intervención y reconocimiento de los signos de alarma como prevención de las complicaciones graves de la enfermedad.

La presencia de las personas en los hogares durante la cuarentena es una buena oportunidad para realizar la limpieza domiciliar y peridomiciliar de todo aquello que puede funcionar como reservorio entomológico. Este hecho debe venir de la mano de programas de mejoramiento de las condiciones sociales en función de una mejor calidad de vida, así como el saneamiento y la protección ambiental que evite todo aquello que hace el hombre para favorecer el efecto invernadero y el progresivo calentamiento global del planeta.

Coexistencia de COVID-19 y dengue

En relación con el dengue en tiempos de pandemia COVID-19, es importante recordar que ambas patologías pueden coexistir en forma epidémica, por lo que la actualización epidemiológica debe ser dinámica y constante. Por tal motivo, debe tenerse en cuenta que la pandemia por COVID-19 puede ser un factor que

influya en la capacidad de respuesta de los países endémicos para dengue en función de diversos motivos tanto en relación con la población como con el sistema de salud.

Desde el punto de vista de la población, la magnitud de la infección por SARS-CoV-2 podría invisibilizar la presencia de dengue dentro de las enfermedades posibles, o bien generar el no querer consultar o consultar tardíamente a los servicios de salud. Por parte del sistema de salud, teniendo en cuenta sus recursos dirigidos, en su mayoría, al control de la pandemia, ello podría desatender otras enfermedades tanto en su prevención como en su diagnóstico temprano. Es por eso por lo que la OPS/OMS insta a los países a continuar con los esfuerzos de vigilancia, diagnóstico y tratamiento adecuado de COVID-19 e incrementar los esfuerzos para facilitar el acceso de los pacientes con dengue y otras arbovirosis a los servicios de salud, lo que favorece una detección oportuna de signos de alarma de dengue sin descuidar las medidas de prevención del SARS-CoV-2.⁷

Este fenómeno podría ser ampliado a otras patologías endémicas, emergentes y reemergentes que podrían estar minimizadas dentro de la visión de la gravedad de la pandemia. Esto, sumado a la implementación de mejoramientos socioambientales, son herramientas esenciales para que los resultados positivos puedan ser sostenidos a través del tiempo. ■

REFERENCIAS

1. Argentina. Ministerio de Salud. Boletín Integrado de Vigilancia de Argentina. 2020; N500 SE 24. [Acceso: 21 de octubre de 2020]. Disponible en: https://www.argentina.gob.ar/sites/default/files/biv_500_se_24.pdf.
2. Argentina. Ministerio de Salud. Boletín Epidemiológico semanal de CABA. 2020; N 190 SE 13. [Acceso: 21 de octubre de 2020]. Disponible en: https://www.buenosaires.gob.ar/sites/gcaba/files/bes_190_se13_vf.pdf.
3. OPS/OMS. Actualización Epidemiológica alerta del 9 de agosto 2019. [Acceso: 21 de octubre de 2020]. Disponible en: <https://www.paho.org/es/documentos/actualizacion-epidemiologica-dengue-9-agosto-2019>.
4. OPS/OMS. Actualización Epidemiológica: Dengue: 7 de febrero 2020. [Acceso: 21 de octubre de 2020]. Disponible en: <https://www.paho.org/es/documentos/actualizacion-epidemiologica-dengue-7-febrero-2020>.
5. OPS/OMS. Actualización Epidemiológica: Dengue y otras arbovirosis: 10 de junio de 2020. [Acceso: 21 de octubre de 2020]. Disponible en: <https://www.paho.org/es/documentos/actualizacion-epidemiologica-dengue-otras-arbovirosis-10-junio-2020>.
6. Argentina. Ministerio de Salud. Boletín Integrado de Vigilancia de Argentina 2020; N510 SE 34, [Acceso: 21 de octubre de 2020]. Disponible en: https://www.argentina.gob.ar/sites/default/files/biv_510_se_34.pdf.
7. Cardona-Ospina J, Arteaga-Livias K, Villamil-Gómez W, Pérez-Díaz C, et al. Dengue and COVID-19, overlapping

- epidemics? An Analysis from Colombia. *J Med Virol.* 2020;1-6. [En prensa].
8. OPS / OMS. Alerta Epidemiológica: Dengue en el contexto de COVID-19. 28 de julio de 2020. [Acceso: 21 de octubre de 2020]. Disponible en: <https://www.paho.org/es/documentos/alerta-epidemiologica-dengue-contexto-covid-19-28-julio-2020>.
 9. Beceyro AC. Distribución geográfica del dengue en Argentina. *Boletín SEA.* 2009; 20(1-2):1-4.
 10. Argentina. Ministerio de Salud, Dirección de Epidemiología. Situación de la Fiebre Amarilla en la República Argentina año 2005. *Boletín Epidemiológico Periódico Edición Especial.* 2007; N41.
 11. Argentina. Ministerio de Salud, Departamento de Epidemiología. Dengue: aspectos clínico-epidemiológicos. Boletín del Gobierno de la ciudad de Buenos Aires. 2007.
 12. Robert M, Tinunin D, Benitez E, Ludueña-Almeida F, et al. Arbovirus emergence in the temperate city of Córdoba, Argentina, 2009-2018. *Sci Data.* 2019; 6(1):276.
 13. Berberian G, Rosanova MT. Impacto del cambio climático en las enfermedades infecciosas. *Arch Argent Pediatr.* 2012; 110(1):39-45.
 14. Schwerdtle P, Bowen K, McMichael C, Sauerborn R. Human mobility and health in a warming world. *J Travel Med.* 2019; 26(1):1-3.
 15. Dunk J, Jones D. Sounding the Alarm on Climate Change, 1989 and 2019. *N Engl J Med.* 2020; 382(3):205-7.
 16. Semenza J, Ebi K. Climate change impact on migration, travel, travel destinations and the tourism industry. *J Travel Med.* 2019; 26(5):taz026.
 17. Seijo A. Dengue 2009: cronología de una epidemia. *Arch Argent Pediatr.* 2009; 107(5):387-89.
 18. Seijo A, Romer Y, Espinosa M, Monroig J, et al. Brote de dengue autóctono en el área Metropolitana de Buenos Aires. Experiencia del Hospital de enfermedades infecciosas FJ Muñiz. *Medicina (B Aires).* 2009; 69:593-600.

Resolución del caso presentado en el número anterior

Miofibromatosis infantil

Infantile myofibromatosis

Dra. Magalí Squitín Tasende^a y Dra. Paula Arighi^a

Colaboradoras: Dra. Paola C. Stefano y Dra. María J. Pertuz Suárez

Resumen del caso clínico

Paciente que había acudido por primera vez al Servicio de Dermatología del Hospital a los siete días de vida por presentar pápulas y nódulos congénitos de distribución generalizada. Allí se le solicitó laboratorio con hemograma, hepatograma, perfil lipídico, reactantes de fase aguda, serologías para virus de la inmunodeficiencia humana (*human immunodeficiency virus*; HIV, por sus siglas en inglés) y prueba serológica para sífilis (*venereal disease research laboratory*; VDRL, por sus siglas en inglés), ecografía abdominal y cerebral, cuyos resultados estuvieron dentro de los límites normales.

La anatomía patológica de la biopsia por *punch* reveló, en la dermis superficial y profunda, una proliferación bifásica de células de núcleos ovoides ahusados con citoplasmas eosinófilos amplios de aspecto miofibroblástico dispuestas en fascículos cortos o nódulos y otra población alrededor de los vasos con una disposición hemangiopericitoide. Dicha lesión se describió como bien circunscrita, sin atipia citológica, necrosis ni actividad mitótica. La inmunohistoquímica fue positiva para actina de músculo liso, y todos estos hallazgos fueron compatibles con miofibromatosis.

Se ampliaron los estudios con ecocardiograma, que informó buena función biventricular con una fracción de acortamiento (FrAc) del 33 %, y

radiografías, en las que se constataron lesiones líticas en el cráneo, la pelvis, los miembros superiores e inferiores. En segunda instancia, se realizaron tomografías de tórax, de abdomen y de pelvis, que evidenciaron múltiples imágenes nodulares hipodensas con realce periférico cercanas a 1 cm en el espesor del plano muscular a nivel glúteo, además de las lesiones osteolíticas previamente descritas en las radiografías (Figura 1). Se determinó que se trataba de una *miofibromatosis* múltiple con compromiso óseo, diagnóstico con el cual se recibió a la paciente en el Consultorio de Seguimiento Clínico.

Miofibromatosis infantil

La miofibromatosis infantil (MFI), si bien infrecuente, es el tumor fibroso más común en la infancia. Aproximadamente, el 60 % de los casos son congénitos, y cerca del 90 % son detectados en el primer año de vida. Es más frecuente en los varones. Por lo general, es esporádica, pero se han descrito patrones de herencia autosómico recesivo y dominante asociadas a mutaciones en los genes *PDGFRB* y *NOTCH3*.¹

FIGURA 1. Imágenes nodulares hipodensas con realce periférico en el espesor de plano muscular a nivel glúteo y osteolíticas en el fémur proximal



a. Hospital de Pediatría SAMIC "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".
Buenos Aires, Argentina.

Correspondencia:

Dra. Magalí Squitín Tasende: magali.squitin@gmail.com

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 16-12-2019

Aceptado: 9-10-2020

Cómo citar: Squitín Tasende M, Arighi P. Miofibromatosis infantil.
Arch Argent Pediatr 2021;119(2):139-140.

La MFI puede ocurrir en tres formas: solitaria (la más frecuente), multicéntrica (sin compromiso visceral) y generalizada (con compromiso visceral). La primera afecta asiduamente la piel o el músculo, y las localizaciones más frecuentes son la cabeza, el cuello y el tronco. La segunda, por lo general, es congénita y es usual que comprometa los músculos, los huesos y el tejido celular subcutáneo (TCS). La tercera se caracteriza por el compromiso visceral.²

Las lesiones superficiales son gomosas, firmes, redondeadas, nodulares, y pueden ser móviles. Las lesiones más profundas son fijas. El diámetro varía de 1 a 7 cm. En algunos casos, la piel por encima puede tener una coloración purpúrica que puede imitar un hemangioma. Las lesiones pueden ser también esclerodermoides.

El diagnóstico se hace sobre la base de las características clínicas y se confirma por la histopatología. Es obligatoria la evaluación adicional para excluir el compromiso visceral.³

Sobre los diagnósticos diferenciales planteados, el xantogranuloma juvenil presenta lesiones semejantes, pero suelen tener coloración anaranjada y telangiectasias en su superficie. Se ubican, habitualmente, en la cara y el tronco superior.

La histiocitosis congénita se caracteriza por lesiones nodulares violáceas diseminadas en la piel que se ulceran y dejan costra con cicatriz. Existe una forma multisistémica con afectación ósea, radiológicamente similar a nuestra paciente.

El molusco contagioso es una infección cutánea viral adquirida que se manifiesta como pápulas cupuliformes, brillantes, menores de 5 mm de diámetro, a menudo, umbilicadas, que, habitualmente, aparecen agrupadas en una o dos áreas del tronco y las extremidades. Al igual que la miofibromatosis, puede presentarse como lesiones solitarias o múltiples.

Otros diagnósticos diferenciales son las lesiones vasculares, como los hemangiomas infantiles (solitarios o múltiples), que, en etapa de regresión, toman una coloración rosada y blanquecina. Dejan algunas telangiectasias residuales, pero, a diferencia de la

miofibromatosis, las lesiones son blandas ante la palpación.⁴

La MFI tiene un pronóstico excelente, incluso cuando existe invasión ósea, pero empeora con el compromiso visceral. No se encontraron, en la bibliografía, casos de formas solitarias que evolucionaran a compromiso visceral.

Las lesiones solitarias suelen extirparse, aunque podrían observarse dado que tienden a involucionar en uno o dos años. Los tumores que comprometen la funcionalidad o causan complicaciones locales pueden ser resecados o sometidos a tratamiento quimioterápico (metotrexato, actinomicina D, ciclofosfamida) y/o radioterapia local. Recientemente, se publicaron casos de MFI con compromiso visceral y mutación del *PDGFRB* que mostraron sustancial respuesta a los inhibidores de la tirosina quinasa, lo que abre la puerta a una nueva terapéutica, pero aún con escasa evidencia.⁵

La recurrencia de la miofibromatosis es inusual, pero puede retrasarse hacia la edad adulta. El seguimiento a largo plazo es recomendado para los pacientes que tienen enfermedad multicéntrica o formas generalizadas de miofibromatosis. En el caso de nuestra paciente, se adoptó una conducta terapéutica expectante y se encuentra bajo seguimiento periódico imagenológico y clínico multidisciplinario (Clínica, Dermatología, Oncología) en nuestra Institución. Por el momento, las lesiones permanecen estables y no han aparecido nuevas. ■

REFERENCIAS

1. Lee JW. Mutations in *PDGFRB* and *NOTCH3* are the first genetic causes identified for autosomal dominant infantile myofibromatosis. *Clin Genet.* 2013;84(4):340-1.
2. Mashiah J, Hadj-Rabia S, Domp Martin A, Harroche A, et al. Infantile myofibromatosis: a series of 28 cases. *J Am Acad Dermatol.* 2014;71(2):264-70.
3. Zhao G, Zhu M, Qin C, Liu X, et al. Infantile Myofibromatosis: 32 Patients and Review of the Literatures. *J Pediatr Hematol Oncol.* 2019 Nov 22. [En prensa].
4. Wyatt AJ, Hansen RC. Pediatric skin tumors. *Pediatr Clin North Am.* 2000;47(4):937-63.
5. Weller JM, Keil VC, Gielen GH, Herrlinger U, et al. *PDGFRB* mutation-associated myofibromatosis: Response to targeted therapy with imatinib. *Am J Med Genet A.* 2019;179(9):1895-7.

ARCH DIS CHILD FETAL NEONATAL ED.
2020 Sep 28:fetalneonatal-2020-319767.

Incidencia de retinopatía del prematuro en Alemania: evaluación de los criterios actuales de detección

Incidence of retinopathy of prematurity in Germany: evaluation of current detection criteria

Larsen PP, Müller A, Lagrèze WA, Holz FG, et al.

RESUMEN

Objetivo. Evaluar los criterios actuales en Alemania, para la detección de la retinopatía del prematuro (ROP) mediante la investigación de la incidencia de ROP que requiera tratamiento en prematuros con edad gestacional (EG) ≥ 30 semanas o edad post menstrual (EPM) < 32 semanas.

Métodos. Se analizaron tres bases de datos: Procedimiento Alemán de Garantía de Calidad en Neonatología (2011-2017; n: 52 461 niños examinados para ROP; 1505 niños tratados por ROP), el Registro Alemán de ROP Retina.net (2011-2018; n: 281 niños tratados) y los programas de detección de dos hospitales universitarios de Alemania (2012-2016; n: 837 niños examinados).

Resultados. En las cohortes analizadas, los prematuros con una EG ≥ 30 semanas representaron entre el 33,1-38,5 % de las poblaciones examinadas, pero solo el 1,40-1,42 % de los casos que requirieron tratamiento para la ROP. En una cohorte de 281 prematuros tratados por ROP, los 4 niños con EG ≥ 30 semanas tenían factores de riesgo adicionales para ROP que incluían oxígeno suplementario prolongado, y/o importantes comorbilidades. Cinco niños (el 1,8 %) fueron tratados a las 32 semanas de EPM y ninguno antes de las 32 semanas de EPM.

Conclusiones. En las cohortes investigadas, los recién nacidos prematuros con EG ≥ 30 semanas tuvieron un riesgo muy bajo o nulo de desarrollar ROP que requiriera tratamiento a menos que estuvieran presentes factores de riesgo adicionales. No se realizó ningún tratamiento antes de las 32 semanas de EPM. Estos hallazgos son de relevancia para la reevaluación continua de los criterios de detección de ROP.

Comentario

En este estudio realizado en Alemania, se analizaron los prematuros ≥ 30 semanas de edad gestacional que presentaron ROP tratadas. Los datos

corresponden a dos hospitales y al Registro Alemán de ROP que, sin duda, debe ser de elevada calidad, como es habitual en Alemania, y están entre los mejores hospitales de Europa.

Los resultados son interesantes, porque señalan que, en todos los países desarrollados, la ROP es poco frecuente en prematuros nacidos luego de las 30 semanas de gestación, y como podemos ver, el porcentaje de prematuros con ROP fue muy bajo. En la cohorte de 281 prematuros tratados por ROP solo 4 eran ≥ 30 semanas y con factores de riesgo adicionales (oxígeno suplementario prolongado y otras comorbilidades).

De la población analizada, 5 prematuros (el 1,8 %) fueron tratados en la semana 32, ninguno antes.

La frecuencia de ROP es bastante mayor en aquellos países de bajo recursos y con muchos problemas sociales. En un estudio de Argentina de 2008, realizado por el Grupo de trabajo colaborativo multicéntrico: Prevención de la Ceguera en la Infancia por Retinopatía del Prematuro, observaron la presencia de ROP en el 12 % de prematuros ≤ 1500 g y en > 1500 g entre 33-36 semanas con oxigenoterapia. Los casos fueron comunicados desde muchas provincias.¹ Es de señalar que, en nuestro país, la ROP es la primera causa de ceguera en la infancia.

Hace unos meses se publicó una revisión sistemática y un metaanálisis que evaluó la asociación entre ROP y bajo peso para la edad gestacional en prematuros < 37 semanas de edad gestacional ingresados en la unidad de cuidados intensivos neonatales. El resultado mostró probabilidades significativamente más altas de ROP grave y ROP que requirió tratamiento en los recién nacidos prematuros de bajo peso. Asimismo, en el análisis de subgrupos de estos prematuros, observaron que los nacidos con < 29 semanas tuvieron incluso mayores probabilidades de ROP de cualquier estadio.²

Un estudio efectuado en el Hospital Italiano evaluó el efecto de los corticoides prenatales sobre la incidencia del ROP en recién nacidos con peso al nacer < 1250 g. Se incluyeron prematuros con un control oftalmológico en madres que recibieron corticoides antes del parto y otras madres que no los recibieron. Los resultados mostraron que no hubo diferencias entre los dos grupos en la incidencia de retinopatía y que los estadios ≥ 3 fueron similares. Esto significó que los corticoides en las madres de prematuros no generaron una diferencia entre ambos grupos. No obstante, se observó que la hemorragia intraventricular tuvo una frecuencia significativamente menor en prematuros cuyas madres recibieron corticoides.³

El registro ROP de Argentina, en el primer

semestre de este año 2020, mostró atrasos en la información de datos epidemiológicos producto de la pandemia que posteriormente se fueron regularizando. No obstante, se pudieron mantener los elevados registros de controles oftalmológicos y su tratamiento en los lugares de asistencia del recién nacido.

José M. Ceriani Cernadas
Editor en Jefe

REFERENCIAS

1. Lomuto CC, Galina L, Brussa M, Quiroga A, et al. Epidemiología de la retinopatía del prematuro en servicios públicos de la Argentina durante 2008. *Arch Argent Pediatr*. 2010;108(1):24-30.
2. Razak A, Faden M. Association of small for gestational age with retinopathy of prematurity: a systematic review and meta-analysis. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed*. 2020;105(3):270-8.
3. Rodríguez DC, Ceriani Cernadas JM, Cravedi V, Fustiñana C. Administración prenatal de corticoides y retinopatía del prematuro. *Arch Argent Pediatr*. 2007;105(3):206-10.

BMJ. 2020 NOV 25;371:M4075.

Edad gestacional e ingresos hospitalarios durante la infancia: estudio con base poblacional de vinculación de registros en Inglaterra (estudio TIGAR)

Gestational age and hospital admissions during childhood: population based, record linkage study in England (TIGAR study)

Coathup V, Boyle E, Carson C, Johnson S, et al.

RESUMEN

Objetivo. Examinar la asociación entre la edad gestacional al nacer y los ingresos hospitalarios hasta la edad de 10 años y la variación de los índices de internación durante la infancia.

Población y métodos. Estudio de cohorte en Inglaterra, con base poblacional, de vinculación de registros. Se incluyeron todos los hospitales del sistema de salud de Inglaterra, Reino Unido. Entre enero de 2005 y diciembre de 2006 hubo 1 018 136 nacimientos simples, vivos. La variable principal fue toda internación hospitalaria desde el nacimiento hasta los 10 años, muerte o fin del estudio (marzo de 2015); la variable secundaria fue la causa principal de hospitalización definida según la clasificación internacional de enfermedades de la Organización Mundial de la Salud, versión 10 (CIE-10) registrada en cada hospitalización.

Resultados. Entre el 1 de enero de 2005 y el 31 de marzo de 2015 hubo 1 315 338 hospitalizaciones; 831 729 (el 63 %) fueron de emergencia; 525 039 (el 52 %) de 10 181 316 niños ingresaron a un hospital al menos una vez durante el periodo del estudio. Las internaciones durante la infancia estuvieron fuertemente asociadas con la edad gestacional al nacer (< 28, 28-29, 30-31, 32, 33, 34, 35, 36, 37, 38, 39, 40, 41 y 42 semanas). En comparación con los niños nacidos de término completo (40 semanas de gestación) los nacidos prematuros extremos (< 28 semanas) tuvieron el más alto índice de hospitalizaciones durante la infancia (índice ajustado 4,92; IC 95 % 4,58 a 5,30). Incluso los nacidos a las 38 semanas tuvieron un índice de hospitalización más alto durante la infancia (1,19; 1,16 a 1,22). La asociación entre la edad gestacional y la hospitalización disminuyó a mayor edad gestacional (interacción $p < 0,001$). Los niños nacidos antes de las 28 semanas tuvieron un índice ajustado de 6,34 (IC 95 % 5,80 a 6,85) en el primer año de vida y disminuyó a 3,28 (2,82 a 3,82) entre los 7 y los 10 años, en comparación con los nacidos a término: para los nacidos a las 38 semanas, el índice ajustado fue 1,29 (1,27 a 1,31) y 1,16 (1,13 a 1,19) en el primer año y entre los 7 y los 10 años, respetivamente. La infección fue la principal causa del exceso de hospitalizaciones en todas las edades, pero en particular durante la infancia. Las enfermedades respiratorias y gastrointestinales también contribuyeron con una gran proporción de ingresos hospitalarios en los dos primeros años de vida.

Conclusiones. La asociación entre la edad gestacional y los índices de hospitalización disminuyeron con la edad, pero un riesgo excesivo permaneció durante la infancia, incluso en niños nacidos a las 38 y 39 semanas de gestación. Las estrategias dirigidas a prevenir y tratar las infecciones en la infancia deberían focalizarse en los niños nacidos prematuros y en aquellos nacidos de término temprano.

Comentario

Recuerdo el llamado telefónico de la madre de Joaquín, un niño de 7 años nacido con 27 semanas y 920 g, para contarme que fue internado por neumonía y le habían indicado ceftriaxone. Me preguntó si por sus antecedentes de prematuridad el antibiótico lo podía perjudicar y si la infección se debía a su inmadurez al nacer. No fue el único caso de llamados de este tipo.

Para responder con propiedad a estas preguntas, nada mejor que analizar el excelente estudio poblacional de cohorte de Cohatup V y col.¹ que utiliza en forma inteligente la base de datos de un millón de nacimientos de 2005 y 2006 en el Reino Unido y la enlaza con todas las internaciones de esos niños hasta llegar a la edad de 10 años.

El estudio demuestra que la madre tenía razón al pensar que 7 años después de nacer Joaquín todavía puede tener mayor predisposición a infecciones e internaciones. Además, en la discusión, los autores reflexionan acerca de la persistente percepción de vulnerabilidad del prematuro por parte de los padres y del equipo de salud.

Los datos son robustos y contundentes: la frecuencia de internaciones es mucho mayor en recién nacidos prematuros que en los de término. Esto es más evidente en los más inmaduros (5 veces más frecuente en los < 28 semanas que en los de 40) pero aún se mantiene un 20-30 % mayor en los de término temprano que representan un gran número de nacimientos.

Los autores demuestran que la diferencia en la necesidad de internaciones disminuye con la edad, aunque sigue siendo demostrable a los 10 años. En los lactantes las infecciones son las causas más frecuentes, seguidas de otros trastornos respiratorios y gastrointestinales. Entre los 7 y 10 años la mayor frecuencia de internaciones en los nacidos prematuros se debía primariamente a lesiones y a trastornos neurológicos, como convulsiones.

Nos sorprendió que del total de niños nacidos en esos 2 años, el 50 % había tenido al menos una internación en los primeros 10 años. Intuitivamente hubiéramos pensado que eran muchos menos. Los neonatólogos tampoco tenemos asumido que la mayor necesidad de internaciones de nuestros prematuros persiste hasta edades tan tardías. Por eso en medicina es siempre mejor basarse en evidencia y datos de gran calidad como los del presente artículo, que hacerlo en intuiciones, pareceres o creencias.

Dr. Néstor E. Vain

Sanatorios de la Trinidad Palermo, San Isidro y Ramos Mejía.

Dra. Fabiana Herbón

Sanatorios de la Trinidad Palermo y Ramos Mejía.

REFERENCIA

1. Coathup V, Boyle E, Carson C, Johnson S, et al. Gestational age and hospital admissions during childhood: population based, record linkage study in England (TIGAR study). *BMJ*. 2020;371:m4075.

JAMA PEDIATR. 2020 Sep 28;174(11):1-7.

Introducción temprana de gluten y enfermedad celíaca en el estudio EAT: un análisis preespecificado del estudio clínico aleatorizado EAT

Early gluten introduction and celiac disease in the EAT study: a prespecified analysis of the EAT randomized clinical trial

Logan K, Perkin MR, Marris T, Radulovic S, et al.

Resumen

Importancia. No hay estrategias para la prevención de la enfermedad celíaca (EC). Las guías clínicas actuales afirman que la edad de introducción de gluten no afecta la prevalencia de EC y se basan en los resultados de varios estudios clínicos aleatorizados, pero la cantidad de gluten y el momento de su introducción diferían entre sí.

Objetivo. Determinar si la introducción temprana de altas dosis de gluten disminuye la prevalencia de EC a los 3 años de edad.

Diseño, lugar y participantes. El estudio de investigación sobre la tolerancia (EAT, por las siglas en inglés de *Enquiring About Tolerance*) fue un estudio clínico aleatorizado abierto. Se reclutaron 1303 niños de la población general de Inglaterra y Gales. El seguimiento fue desde el 2 de noviembre de 2009 hasta el 30 de julio de 2012. Para este estudio, las muestras se recolectaron desde el 1 de noviembre de 2012 hasta el 31 de marzo de 2015 y los datos se analizaron entre el 25 de abril de 2017 y el 17 de septiembre de 2018.

Intervenciones. Los niños fueron aleatorizados a consumir 6 alimentos alergénicos (maní, sésamo, huevo de gallina, leche de vaca, bacalao y trigo) además de leche materna desde los 4 meses (grupo introducción temprana) o evitar estos alimentos y seguir las recomendaciones sobre alimentación infantil del Reino Unido de lactancia materna exclusiva hasta los 6 meses aproximadamente (grupo introducción estándar).

Variables principales y medidas. La evaluación de EC fue un objetivo secundario a priori en el estudio EAT. A los 3 años todos los niños que tenían muestras disponibles de suero fueron estudiados para anticuerpos antitransglutaminasa tipo 2. Los niños con niveles de anticuerpos > 20 UI/l fueron derivados a gastroenterólogos independientes para su futuro estudio.

Resultados. De 1004 niños incluidos en el análisis, 514 fueron varones (el 51,2 %). La

cantidad media (DE) de gluten consumido entre los 4 y 6 meses fue 0,49 (1,4) g/semana en el grupo estándar y 2,66 (1,85) g/semana en el grupo de introducción temprana ($p < 0,001$). La media (DE) del consumo semanal de gluten osciló entre 0,08 (1,00) g/semana a los 4 meses y 0,9 (2,05) g/semana a los 6 meses en el grupo estándar vs. 1,3 (1,54) g/semana a los 4 meses y 4,03 (2,40) g/semana a los 6 meses en el grupo de introducción temprana. De los 516 niños del grupo estándar, 7 (el 1,4 %) tuvieron diagnóstico confirmado de EC vs. ninguno de los 488 niños del grupo de introducción temprana ($p: 0,02$, diferencia de riesgo entre grupos 1,4 %; IC 95 % 0,6-2,6 %).

Conclusiones y relevancia. En este análisis del estudio EAT la introducción de gluten a los 4 meses se asoció con una reducción en la prevalencia de EC. Estos resultados sugieren que el consumo temprano de altas dosis de gluten podría ser considerado como una estrategia para prevenir la EC en futuros estudios.

Comentario

El gluten es un antígeno alimentario encontrado en trigo, cebada y centeno, tiene alto contenido de proteínas ricas en péptidos de gliadina, las cuales son resistentes a la digestión completa por las enzimas digestivas, y pueden causar una respuesta inflamatoria que genera la enfermedad celíaca (EC) en individuos genéticamente susceptibles. No todos los individuos con predisposición genética (con HLA DQ2 o DQ8) desarrollarán la EC, por lo tanto, se han propuesto distintos estudios que evalúan los factores de riesgo ambientales adicionales, como la forma en que el gluten es introducido en la dieta del niño.

Los estudios publicados en su mayoría estudian poblaciones de riesgo para padecer la EC, o sea, estudian a niños con familiares de primer grado con EC, o con HLA DQ2 o DQ8. En los mismos, se analizan distintos aspectos: 1) edad de incorporación de gluten (antes de los 4 meses, o entre los 4 a 6 meses o después de los 7 meses o a los 12 meses), 2) lactancia materna durante la incorporación del gluten, y 3) cantidad de gluten incorporada en los primeros 6 meses (entre los 6 y 12 meses) de la alimentación complementaria.

Del análisis de todos los estudios realizados se observa que el tiempo de introducción de gluten y el tipo de alimentación con gluten no parece influenciar el riesgo de presentar EC, en niños con predisposición genética. La ESPGHAN (European Society for Paediatric Gastroenterology Hepatology and

Nutrition) aclara que en los niños con alto riesgo para desarrollar EC, la temprana introducción del gluten (4 meses vs. 6 meses o 6 meses vs. 12 meses) está asociada con temprano desarrollo de autoinmunidad de EC (respuesta autoinmune con positividad de anticuerpos) y EC, pero la incidencia acumulativa en la niñez más tardía (a los 5 años) es similar, no aumentando el riesgo final.¹

Existen múltiples causas beneficiosas para recomendar la lactancia materna, pero se desconoce por qué en los estudios realizados no se observó un efecto protector de la leche materna, como era esperable.²

En cuanto a la cantidad de gluten en el momento de la introducción, los estudios son escasos y presentan gran heterogeneidad en su evaluación. La ESPGHAN, basada sobre datos observacionales sobre la asociación entre la cantidad de la ingesta de gluten y el riesgo de EC, recomienda que el consumo de grandes cantidades de gluten debería evitarse durante las primeras semanas de la introducción.

El TEDDY Study Group (The Environmental determinants of diabetes in the young) (2016-2019)^{2,3} publicó observaciones que con el aumento de la ingesta de gluten aumenta el riesgo de desarrollar EC. Se demostró que, con el aumento de consumo en 1 g/día por encima de la media, en los primeros dos años de edad, las diferencias de riesgo absoluto eran del 6 % para respuesta autoinmune (positividad de anticuerpos) y para presentación de EC el 7 % más altas a los tres años de edad. Aumento que parece clínicamente importante con un pequeño incremento en la ingesta de gluten; 1 gramo equivale a media rebanada de pan. Los estudios concluyen que la ingesta de altas dosis de gluten hasta los 5 años de edad puede aumentar el riesgo de EC en niños con predisposición genética.³

El estudio publicado recientemente (EAT Study) es el primero que analiza el efecto de la introducción temprana y tardía de altas vs. bajas dosis de gluten en niños de población general, con la hipótesis que la dosis baja de un alérgeno podría generar sensibilización y una dosis alta y temprana podría ser requerida para lograr la tolerancia inmunológica.

En este estudio se observa una prevalencia de EC significativamente aumentada en los niños que recibieron bajas dosis de gluten vs. alta dosis (diferencia del 1,4 %) en el seguimiento hasta los tres años de edad. Y concluye que tempranas y altas dosis de gluten pueden ser una buena estrategia de prevención para EC.

El estudio fue aleatorizado, y con pocos sesgos, y se diferencia de otros estudios porque se realizó en población general. Como debilidades se puede plantear

que se observa que hubo más pérdida de casos a los tres años de edad, en el grupo de alto consumo, que presentó menos casos de EC. Otro punto a aclarar es que se estudió hasta los 3 años y existe la posibilidad que esta diferencia se acorte en los próximos años, como se demostró en el estudio de PREVENT CD, en el cual a partir de los 5 años la presentación de la EC fue similar en ambos grupos de estudio.

Conclusión. El efecto sobre el riesgo que genera la introducción del gluten en niños con riesgo genético, ha sido estudiado desde hace más de 10 años. Requiere de estudios poblacionales extensos, de largo seguimiento y muy costosos, y han podido comprobar que el tiempo de introducción de gluten no afecta el desarrollo de la EC. En cuanto a la cantidad de incorporación hay resultados contradictorios como lo demuestran el estudio TEDDY y el estudio EAT, pero ¿son comparables? son poblaciones distintas. Futuros estudios aleatorizados son requeridos para definir estrategias de prevención.

Hoy los expertos recomiendan en niños con riesgo genético, la incorporación junto a la alimentación complementaria, a los 6 meses de edad para nuestras normas nutricionales, si es posible durante la lactancia materna y si bien los datos son aún poco claros, comenzando con pequeñas cantidades, con aumentos progresivos hasta los 12 meses de edad.¹

Estudios prospectivos importantes, con diversas intervenciones, para tener en cuenta:

BABYDIET:⁴ 150 familiares de primer grado con DBT tipo 1, con HLA de riesgo para EC. Se comparó la introducción gluten a los 6 meses vs. a los 12 meses. No se estudió la cantidad de gluten. No se encontraron diferencias.

CELIPREV:⁵ 707 familiares de primer grado con EC, con HLA de riesgo para EC. Se comparó la introducción de gluten a los 6 meses vs. a los 12 meses. No se estudió la cantidad de gluten, pero la media fue 3,2 g/día a los 9 meses. Dosis alta pero luego de los 6 meses. No se encontraron diferencias.

PREVENT CD:⁶ 944 niños con HLA de riesgo para EC. Seguimiento: 12 años. Se comparó la introducción de gluten entre los 4 a 6 meses vs. mayor de 6 meses. Recomendó mantener un consumo bajo de 100 mg/día

o sea 0,7 g/semana. Y 3,5/semana a los 7 meses. No se encontraron diferencias. La incorporación temprana de gluten genera temprano desarrollo de EC.

TEDDY: 773 niños con HLA de riesgo para EC. Se comparó la introducción de gluten a los 4 meses vs. mayor de 6 meses. No hubo diferencias en el tiempo de introducción, ni en lactancia. Alta ingesta de gluten los dos primeros años de vida aumentó el riesgo de EC.^{2,3}

EAT: 1004 niños en población general. Se comparó la introducción de gluten entre los 4 a 6 meses vs. mayor de 6 mes. Dosis a los 4 a 5 meses de 0,08 vs. 1,3 g/semana. Entre los 4 a 6 meses la dosis media fue de 0,49 vs. 2,66 g/semana. A los 7 meses fue de 5,13 vs. 6,3 g/semana. Aumento de prevalencia de EC en niños con baja dosis de gluten.

Dra. María del Carmen Toca

Ex Jefa de la Sección de Gastroenterología Pediátrica del Hospital Nacional Alejandro Posadas.
Buenos Aires, Argentina.

REFERENCIAS

1. Szajewska H, Shamir R, Mearin L, Ribes-Koninckx, et al. Gluten Introduction and the risk of coeliac disease: a position paper by the European Society for Pediatric Gastroenterology, Hepatology, and Nutrition. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2016;62(3):507-13.
2. Aronsson CA, Lee HS, Segerstad EM, Uusitalo U, et al. Association of gluten intake during the first 5 years of life with incidence of celiac disease autoimmunity and celiac disease among children at increased risk. *JAMA.* 2019; 322(6):514-23.
3. Aronsson CA, Lee HS, Koletzko S, Uusitalo U, et al. Effects of gluten intake on risk of celiac disease: a case-control study on a Swedish birth cohort. *Clin Gastroenterol Hepatol.* 2016;14(3):403-9.e3.
4. Beyerlein A, Chmiel R, Hummel S, Winkler Ch, et al. Timing of gluten introduction and islet autoimmunity in young children: updated results from the BABYDIET study. *Diabetes Care.* 2014;37(9): e194-5.
5. Lionetti E, Castellaneta S, Francavilla R, Pulvirenti A, et al. Introduction of gluten, HLA status, and the risk of celiac disease in children. *N Engl J Med.* 2014;371(14):1295-303.
6. Vriezinga SL, Auricchio R, Bravi E, Castillejo G, et al. Randomized Feeding intervention in infants at high risk for celiac disease. *N Engl J Med.* 2014;371(14):1304-15.

Archivos hace 75 años

*Facultad de Ciencias Médicas de Buenos Aires, Instituto de Pediatría y Puericultura
Profesor: Dr. Juan F. Garatán*

ENFISEMA MEDIASTINICO Y SUBCUTANEO EN EL CURSO DE UNA CRISIS ASMÁTICA. OBSERVACION CLINICA *

POR LIA

DOCS. ALFREDO E. LARGUIA y ERNESTO T. ROJO

Una noción bien difundida es que la mayoría de las observaciones de enfisema subcutáneo, originado a partir de las cavidades pleurales, han tenido su origen en traumas del tórax, en maniobras intempestivas de la cirugía torácica, en traqueotomías, punciones, etc., o bien son consecutivos a la colapsoterapia del pulmón tuberculoso y en especial al neumotórax valvular hipertensivo, también de origen baciloso.

Los casos de enfisema subcutáneo y mediastínico de origen no tuberculoso ni traumático o accidental, no son de observación corriente. Recien casi siempre en niños o sujetos jóvenes y han sido descritos en el curso de neumonías¹, bronconeumonías^{2,3}, gripe, sarampión⁴, coqueluche, difterias malignas⁵, consecutivos a fiebres tíficas⁶, como consecuencia de la introducción de cuerpos extraños en las vías aéreas, etc.

La aparición del enfisema subcutáneo y mediastínico, como síntoma o complicación de crisis de asma bronquial, es de observación mucho menos frecuente aún, y ha sido señalada sólo en contadas ocasiones.

Entre nosotros, Schwiczer y Serni⁷, en 1937, presentaron a la Sociedad Argentina de Pediatría una observación en una niña de 3 años, y muy recientemente Fongó y Kospide⁸ en una revisión de conjunto sobre el tema han podido reunir sólo 31 casos en la literatura mundial, a los cuales agregan ellos 2 nuevas observaciones en sujetos de 22 y 26 años.

Este número relativamente bajo de observaciones, nos ha hecho creer que pueda tener interés el relato de un nuevo caso, que de sintomatología inicial espectacular, tuvo afortunadamente una evolución favorable.

La historia clínica resumida de nuestro enfermo es la siguiente:

Juan C. F., 11 años. Reg. Gen. 21865. Historia 607. Ingresó el 23 de mayo de 1945.

Antecedentes hereditarios: Como dato de interés cabe señalar que la madre, desde los 4 meses de nacer Juan C. hasta hace 3 años, ha padecido frecuentes crisis de asma bronquial.

Antecedentes personales: A los 2 años tuvo su primer acceso de bron-

* Comunicación presentada a la Sociedad Argentina de Pediatría, en la sesión del 28 de agosto de 1945.

quinta asmática y, desde entonces hasta la fecha, periódicamente se la repitió. A los 2 años tuvo suspensión y a los 3 coqueluche.



Figura 1



Figura 2



Figura 3

Enfermedad actual: Se inició hace 24 horas con un acceso asmático de mediana intensidad. Por la noche, a las 20 horas, la diuresis se acentúa en forma llamativa y el niño acusa un dolor sordo, persistente, en la región psoasica, acompañado de estado nauseoso que le hace vomitar una hora más tarde. Los padres le notan un cambio en la voz —voz nasal dicca— y el niño se queja de dolor en la garganta, que se acentúa durante los movimientos de deglución. A media noche —4 horas más tarde, le notan una hinchazón en la región supraclavicular izquierda y supraesternal, hinchazón crepitante que rápidamente se extiende a todo el cuello, la cara, al tórax y a la parte superior del abdomen. Visto por un médico a las 5 de la mañana, no encontró nada de particular en los lauces que justificara el dolor a la

deglución e inyectó al niño con $\frac{1}{2}$ mg. de adrenalina subcutánea, que le disminuyó la fatiga. Se decide su internación en este Instituto.

LANGUIA - SOÑO - ENFISEMA MEDIASTÍNICO

37

Estado actual (23 de mayo de 1945): Ingresa al Servicio presentando un cuadro agudo, con angustia respiratoria, febril, quejoso y agitado, con 120 pulsaciones por minuto y tos seca, intensa y frecuente. Llaman de inmediato la atención la existencia de una tumefacción generalizada que abarca la cara, el cuello y el tórax. La cara aparece inusualmente deformada, los párpados tumefactos e hinchados apenas le permiten abrir los ojos. El cuello está aumentado de volumen y los huesos supraclaviculares casi bochardos. La hinchazón se extiende al tórax, por delante y atrás, y llega por la pared anterior del abdomen hasta el umbiligo y lateralmente hasta las crestas ilíacas. La palpación de todas las zonas distendidas, revela una crepitación borbujosa, muy característica, y prácticamente inconfundible, de enfisema subcutáneo generalizado.

La auscultación pulmonar, muy dificultosa debido a la ruidosa crepitación que provoca la más leve presión, crepitación que tapa los ruidos pulmonares y cardíacos, no permite en realidad obtener ningún dato de interés.



Radiografía 1



Radiografía 2

El resto del examen somático, evidencia un niño ligeramente decaído, con tórax algo globuloso, pálido un cianosis y con una faringitis mucopurulenta.

Como primeras medidas terapéuticas se procuró sedar al enfermo y calmar su tos, lo que se logró con la inyección subcutánea de $\frac{1}{4}$ cg. de morfina y la administración cada 4 horas de V gotas de solución de sodato de codeína al 1 %.

Mejorado el cuadro agudo y ya el niño más tranquilo, se obtuvieron las radiografías 1 y 2, cuatro horas después de su ingreso. Al día siguiente se sacaron las fotografías 1 y 2, en las que se observa bien el enfisema cutáneo, ya bastante reducido.

Durante los días siguientes el enfisema fué reduciéndose, mejoró el estado general del enfermo y 6 días después de su ingreso el aire subcutáneo había desaparecido totalmente (Fig 3), el niño estaba sin fiebre y sólo se escuchaban algunos crepantes roncros y sibilancias en ambos pulmones.

Se prescribieron los siguientes exámenes complementarios:



Radiografía 1

Reacción de Mantoux al 1 %: Positiva ++.

En el líquido de lavado gástrico examinado en 2 oportunidades no se observaron bacilos ácido-alcohol resistentes.

En sangre se constató una mediana eosinofilia (12 %). El examen de orina resultó normal.

Enterosedimentación: 10 y 13 mm.

En la radiografía 1, se observa claramente el gran enfisema que diseca los distintos planos músculoaponeuroticos del tórax y de la base del cuello. A nivel del mediastino superior, a ambos lados de la sombra de los grandes vasos de la base, hinchándose,

se observan algunas zonas más claras que, a nuestro juicio, corresponden a la imagen del enfisema mediastínico. En la radiografía lateral (Nº 2) se observa también el aire mediastínico en la parte anterior y posterior de la sombra cardíaca, zonas que aparecen anormalmente clarificadas.

En la radiografía 3, obtenida 20 días después, se constata la total desaparición del aire subcutáneo y mediastínico.

COMENTARIOS

Hemos tenido oportunidad de comprobar la producción de un enfisema mediastínico y subcutáneo generalizado en el curso de una crisis asmática en un niño de 11 años de edad.

El accidente no es de observación frecuente.

Su sintomatología, de comienzo brusco, coincidiendo con otras observaciones publicadas², presentó manifestaciones dolosas precedidas y odinofagia. No se produjo neumotórax concomitante, como lo han comprobado en algunos casos, entre otros los autores uruguayos Piaggio Blanco y García Capurro³.

No es fácil establecer en forma concreta el trayecto seguido por el aire hasta llegar al tejido celular subcutáneo. Se han expuesto diversas hipótesis. En general se acepta que por desgarró de uno o varios alvéolos pulmonares distendidos, con paredes de resistencia y elasticidad disminuidas por un pasado respiratorio crónico, se produce el escape del aire al tejido conjuntivo perivascular de los vasos pulmonares, a lo largo del cual migra hasta llegar al hilo del pulmón, pasa al mediastino, y desde allí llega al tejido celular del cuello, con su distribución ulterior por la cara, tronco, etc. Es decir, que el enfisema subcutáneo tendría origen mediastínico.

Los autores uruguayos citados más arriba, fundándose sobre todo

en la evolución favorable que casi siempre siguen los casos de enfisema subcutáneo que complican al asma, a diferencia de los enfisemas mediastínicos de otra etiología, y en el hecho de que en sus observaciones no han logrado la comprobación radiográfica del aire en el mediastino, piensan que la ruptura alveolar debe producirse en el vértice pulmonar, a cuyo nivel presuponen adheridas las hojas pleurales (el vértice del pulmón es sitio de elección de formaciones cicatriciales), zona desde donde el aire hace irrupción directamente al hueco supraclavicular para extenderse luego al cuello, cara, etc.

Creemos que ambas hipótesis son verosímiles. Si bien la comprobación radiográfica del aire en el mediastino de nuestro enfermo, hace que, en nuestra observación creemos que el enfisema subcutáneo ha tenido origen mediastinal, pensamos con Fongí y Rospide⁸, que no puede negarse en absoluto la patogenia que invocan Piaggio Blanco y García Capurro.

En lo que se refiere a la evolución, ha sido favorable en casi todos los casos. Faulstich y Wagner¹⁰, citan una excepción en una mujer de 54 años, que falleció, pero en la cual la causa de la muerte es discutible.

Las medidas terapéuticas se reducirán, en general, a calmar la disnea y la tos del enfermo. Pasado algún tiempo el aire se reabsorbe en forma espontánea. En casos graves, algunos autores han aconsejado extraer el aire, introduciendo un trocar grueso bajo la piel o practicando pequeñas incisiones en la parte anterior del tórax y realizando luego el amasamiento de las regiones afectadas.

Leveuf y Kohn¹¹, aconsejan, cuando la gravedad del cuadro exija una tentativa para evacuar el aire del mediastino, y como procedimiento quirúrgico de elección, la incisión supraesternal, y a través de ella, la dilatación a dedo del tejido celular mediastinal.

Repetimos que lo corriente es no tener que recurrir a estos procedimientos.

RESUMEN

Se expone la historia clínica de un niño de 11 años de edad, infectado de tuberculosis, quien en el curso de una crisis de asma bronquial, presentó enorme enfisema subcutáneo y mediastínico. Se hacen algunas consideraciones etiológicas del proceso y breves indicaciones terapéuticas.

BIBLIOGRAFÍA

1. A. Rodríguez Castro. "Arch. Lat. Amer. de Ped.", 1946, X, 520.—2. J. M. Castelló Vidal. "Rev. Clínica Española", 1942, V, 277.—3. E. Salazar. "Pediatria", 1931, 183, 1671. (Cit. por Castelló Vidal, 2).—4. O. Correa Léna. "Boa MEd", Rio de Janeiro, 1943, 2, 29.—5. G. Páizos y Trujillo Comares. "Arch. de Méd. des Enfants", 1995, 47, 258. (Resumen en "Am. J. Dis. of Child.", 1942, 63, 755).—6. E. Hernández Iglesias. "Rev. Clínica Española", 1943, IX, 423.—7. F. Siskowitz y O. H. Sener. "Arch. Arg. de Ped.", 1958, I, 506.—8. E. G. Fongí y F. C. Rospide. "La Sem. Méd.", 1945, 28, 46.—9. E. A. Piaggio Blanco y F. García Capurro. "Arch. Urug. de Med. y Cirugía", 1940, 16, 367.—10. W. E. Faulstich y E. J. Wagner. "The Jour. of Allergy", 1936-1937, 8, 287. (Cit. por Fongí y Rospide 8).—11. J. Leveuf y R. Kohn. "Arch. de Méd. des Enfants", 1938, 41, 158.

Revisores de los trabajos recibidos durante el año 2020

El siguiente listado incluye a los profesionales que realizaron la revisión de los trabajos enviados a *Archivos Argentinos de Pediatría*, desde el 13 de noviembre de 2019 hasta el 31 de diciembre de 2020.

La dirección editorial les agradece profundamente a todos la muy importante tarea realizada y les expresa un especial reconocimiento a su dedicación y responsabilidad.

Adragna, Marta

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Agosta, Guillermo

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Agüero, Gonzalo

(Hospital General de Agudos Dr. Cosme Argerich. CABA)

Aguirre, Viviana

(Hospital General de Agudos Dr. Cosme Argerich. CABA)

Aiello, Horacio

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Alda, Ernesto

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

Alonso, Guillermo

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Altcheh, Jaime

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Althabe, María

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Álvarez, Fernando

(Université de Montréal. Canadá)

Álvarez Calatayud, Guillermo

(Hospital Gregorio Marañón. Madrid, España)

Apaz, María Teresa

(Clínica Universitaria Reina Fabiola. Córdoba)

Arbio, María

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Arias Cau, Carolina

(Hospital de Niños Dr. Héctor Quintana. San Salvador de Jujuy, Jujuy)

Armando, Romina

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Arpí, Lucrecia

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Arroyo, Hugo

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Asis, Elizabeth

(Hospital Materno Neonatal de Córdoba Ministro Dr. Ramón Carrillo)

Aznar, Julia

(OSECAC)

Bacciedoni, Viviana

(Hospital Lagomaggiore. Mendoza)

Badías, Carlos

(Centro Médico Grandoli. Rosario, Santa Fe)

Baldini, Luisa

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Balestracci, Alejandro

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

Barboni, Graciela

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

Barrios Skrok, Patricia

(Fundación LACMAT)

Barvosa, Pablo

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Bay, Luisa

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Bellia Munzón, Patricio

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

Berazategui, Juan Pablo

(Sanatorio Anchorena. San Martín, Buenos Aires)

Bevacqua, María

(“Psyche” Neurosciences clinic. Roma, Italia.)

Bezrodnik, Liliana

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Blanco, Osvaldo

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Boer, Marcelo

(Consultorios Médicos Albarracín. San Carlos de Bariloche)

Bogdanowicz, Elizabeth

(Hospital de Clínicas. CABA)

Boggio Marzet, Christian

(Hospital Gral. De Agudos “Dr. I. Pirovano”. CABA)

Boldrini, Héctor Gustavo

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Bontcheff, Alejandra

(Hospital de la Madre y el Niño. Formosa)

Borracci, Raúl

(Clínica La Sagrada Familia. CABA)

Bossi, Lucrecia

(Sociedad Argentina de Pediatría – CEFEN)

Botto, Hugo

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Bozzola, César Martín

(Hospital Británico Buenos Aires. CABA)

Braga, María Laura

(Profesorado Don Bosco de Buenos Aires)

Brener Dik, Pablo

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Brunetto, Oscar

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

Bruno, Miriam

(Hospital Carlos G. Durand. CABA)

Busaniche, Julio

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Cabral, Ana

(Hospital Materno infantil. Mar del Plata)

Cabrerizo, Silvia

(Hospital Posadas. El Palomar, Buenos Aires)

Calvari, Miriam

(Hospital del Niño Jesús. Córdoba)

Cammarata Scalisi, Francisco

(Hospital Regional de Antofagasta. Chile)

Cannizzaro, Claudia

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Cantisano, Claudio

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

Carletto Korber Fabiana

(Universidad de Córdoba)

Casaliba, Silvia

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Casavalle, Patricia

(Hospital de Clínicas José de San Martín. CABA)

Cassella, Ricardo

(Sanatorio Sagrado Corazón)

Castro, Carla

(Hospital Universitario Austral. Pilar, Buenos Aires)

Cazalas, Mariana

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Cédola, María Alejandra

(Clínica San Lucas. Neuquén)

Ceriotto, Mariana

(Hospital Zonal Blas L Dubarry. Mercedes, Buenos Aires)

Chiesa, Ana

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Ciocca, Mirta

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Ciruzzi, María Susana

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Coccia, Paula

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Colella, Mauricio

(Hospital Escuela Eva Perón. Granadero Baigorria)

Converso, Gabriel

(Instituto Universitario del Gran Rosario. Santa Fe)

Cortés Quinchavil, Cristian

(Hospital Carlos van Buren. Valparaíso, Chile)

Costaguta, Alejandro

(Sanatorio de Niños. Rosario, Santa Fe)

Costanzo, Mariana

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Covas, María del Carmen

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

Cribioli, Carolina

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Cuarterolo, Miriam

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Cuestas, Giselle

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

Cuestas, Eduardo

(Hospital Privado de Córdoba)

Cukier, Sebastián

(PANAACEA. Martínez, Buenos Aires)

Curi, Claudia

(Hospital de Niños de la Santísima Trinidad. Córdoba)

D'Alia, Patricia

(Sociedad Argentina de Pediatría. CABA)

Dartiguelongue, Juan

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

De Dios, Ana

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

De Lillo, Leonardo

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

De Vito, Eduardo

(Instituto de Investigaciones Médicas Alfredo Lanari. CABA)

Debaisi, Gustavo

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

Del Río, Ramiro

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Deregibus, Inés

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Di Pinto, Diana

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Dicembrino, Manuela

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Diez, Blanca

(Fleni. CABA)

Ditaranto, Andrés

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Dogliotti, Andrés

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Donato, Hugo

(Hospital del Niño de San Justo. Buenos Aires)

Drake, Ignacio

(Ministerio de Salud)

Duran, Pablo

(CLAP-OPS. Montevideo, Uruguay)

Durand, Consuelo

(Laboratorio Chamoles. CABA)

Elmeaudy, Patricia*(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)***Enríquez, Diego***(SIMMER Simulación Médica Roemmers)***Esandi, María Eugenia***(Universidad Nacional del Sur. Bahía Blanca, Buenos Aires)***Eulmesekian, Pablo***(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)***Exeni, Andrea***(Hospital Universitario Austral. Pilar, Buenos Aires)***Exeni, Ramón***(Hospital del Niño de San Justo. Buenos Aires)***Eymann, Alfredo***(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)***Feliú Torres, Aurora***(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)***Fernández, Adriana***(Hospital de Niños Sor María Ludovica. La Plata, Buenos Aires)***Ferraro, Mabel***(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)***Ferreriros Gago, María***(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)***Ferrucci, Gladys***(Hospital General de Agudos Dr. A. Zubizarreta. CABA)***Figueroa Turienzo, Carlos***(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)***Flores Muñoz, María Antonieta***(Hospital General de México "Dr. Eduardo Liceaga")***Francile, Juan Ignacio***(Hospital Avelino Castelán. Resistencia, Chaco)***Fraquelli, Lidia***(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)***Furnes, Raquel***(Hospital Privado Universitario de Córdoba)***Gaiano, Alejandra***(Hospital Materno Infantil de San Isidro. Buenos Aires)***Galicchio, Miguel***(Hospital de Niños Víctor J. Vilela. Rosario)***Galoppo, Marcela***(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)***García Bournissen, Facundo***(Western University. London, Ontario, Canadá)***García Chervo, Laura***(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)***García Roig, Cristian***(Sanatorio Mater Dei. CABA)***Garnero, Analía***(Hospital de Niños de la Santísima Trinidad. Córdoba)***Ghersin, Silvina***(Sociedad Argentina de Pediatría. CABA)***Giachetti, Ana***(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)***Giúdice, Lidia***(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)***Giugno, Hilda***(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)***Goldfarb, Guillermo***(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)***González, María Aurelia***(Hospital Materno Infantil Ramón Sardá. CABA)***González, Horacio***(Hospital de Niños Sor María Ludovica. La Plata, Buenos Aires)***González, Fernando***(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)***González, Daniel***(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)***González Aguilar, Pablo***(Hospital Privado de Comunidad Mar del Plata)***Goyeneche, Rodolfo***(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)***Grandi, Carlos***(Hospital Materno Infantil Ramón Sardá. CABA)***Gravina, Luis***(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)***Grinenco, Sofía***(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)***Guerchicoff, Marianna***(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)***Gutiérrez, Marcela***(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)***Hassam, Amal***(Hospital Humberto Notti. Mendoza)***Heinen, Fernando***(Hospital Alemán. CABA)***Huckstadt, Victoria***(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)***Iglesias, Judith***(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)***Indart de Arza, Javier***(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)***Intruvini, Silvia***(Centro de Rehabilitación Infantil CETNA (CRI-CETNA) Fleni. CABA)***Irurzun, Inés***(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)***Jaimovich, Sebastián***(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)*

Jorro Barón, Facundo

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

Justich, Pablo

(Hospital La Vega. Murcia, España)

Katsicas, María Martha

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Katz, Mónica

(Universidad Favaloro. CABA)

Klappenbach, Héctor Gustavo

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

Kleppe, Soledad

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Kohn Loncarica, Guillermo

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Lamas, Fernando

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

Landry, Luis

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Larcade, Ramón

(Sanatorio Trinidad Ramos Mejía. Buenos Aires)

Ledesma, Fernanda

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Ledesma, José

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Lejarraga, Horacio

(Universidad de Buenos Aires. CABA)

Lev, Débora

(Ministerio de Salud de la Nación. CABA)

Lezama Echarri, Carol

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Lonegro, Leopoldo

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

López, Paula

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

López Muñoz, Eunice

(Instituto Mexicano del Seguro Social. Ciudad de México)

Lorusso, Ana María

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Loyacono, Nicolás

(Hospital de Clínicas José de San Martín. CABA)

Lozano, Alejandro

(Clínica Universitaria Reina Fabiola. Córdoba)

Lucero Saa, Francisco

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Lución, María

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Lugones, Ignacio

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

Maffey, Alberto

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Mansilla, Celeste

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Mantilla, María Jimena

(CONICET)

Marcos, Alejandra

(Ministerio de Salud de la Ciudad de Buenos Aires)

Mariño, Andrea

(Hospital Municipal de Agudos Dr. Leónidas Lucero.

Bahía Blanca, Buenos Aires)

Martínez Ferro, Marcelo

(Fundación Hospitalaria. CABA)

Martinito, Roxana

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Massimo, Ianina

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Meiorin, Silvia

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Merhar, Claudia

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Moggi, Luis

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Moltedo, José

(Fleni. CABA)

Monteverde, Marta

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Monteverde, Ezequiel

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Moreno, Guillermo

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Moreno, Cecilia

(Universidad Católica Argentina. Mendoza)

Mouesca, Juan Pablo

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

Musso, Carlos

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Nacul, Josefina

(Sanatorio Modelo. San Miguel de Tucumán, Tucumán)

Nasanovsky, Jorge

(Tecnologías de Información y Comunicación, SAP. CABA)

Neira, Pablo

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Nieto, Ricardo

(Hospital Materno Infantil Ramón Sardá. CABA)

Ofman, Gastón

(Fundación INFANT)

Oleastro, Matías

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Oliver, Mónica

(Hospital Alemán. CABA)

Orden, Alicia

(CONICET)

Orgilés, Mireia

(Universidad Miguel Hernández. España)

Orio, Mónica

(Diagnóstico Maipú, CABA)

Ormaechea, María Edurne

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Ortiz, Gonzalo

(Hospital Posadas. El Palomar, Buenos Aires)

Ortiz de Zárate, Marcela

(Hospital Materno Infantil Ramón Sardá. CABA)

Ortiz Gil, Miguel Ángel

(Universidad de Guanajuato. México)

Parera, Victoria

(Hospital de Clínicas José de San Martín. CABA)

Parisi, Claudio

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Pascualini, Diana

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Pasqualini, Titania

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Pochetti, Juliana

(Comité de Medicina del Deporte Infanto Juvenil, SAP)

Ponce, Corina

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Prieto, Myriam

(Comité Nacional de Adolescencia, SAP)

Rabosto, Rocío

(Hospital Orlando Alassia. Santa Fe)

Ramonet, Margarita

(Hospital Posadas. El Palomar, Buenos Aires)

Ramos, Olga

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

Rapetti, María Cristina

(Hospital del Niño de San Justo. Buenos Aires)

Razetti, Juan Carlos

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Rentería, Fernando

(Hospital de Niños Sor María Ludovica. La Plata, Buenos Aires)

Requejo, Flavio

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Richaudeau, Alba

(Hospital Universitario Austral. Pilar, Buenos Aires)

Ripeau, Diego

(Hospital de Clínicas José de San Martín. CABA)

Rocca, Ana

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Rodríguez, Diana

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Rodríguez, Luis

(Centro Infantil del Riñón SRL. San Miguel de Tucumán, Tucumán)

Rodríguez, Susana Patricia

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Rodríguez, Verónica

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

Rodríguez, Hugo

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Rodríguez Núñez, Iván

(Universidad San Sebastián. Concepción, Chile)

Roizen, Mariana

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Romano, Graciela

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Rosental, Carlos

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Rousseau, Marcela

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Roussos, Adriana

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Rovirosa, Alicia

(Centro de Estudios sobre Nutrición Infantil. CABA)

Rowensztein, Hernán

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Rubio Longo, María

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Ruíz, Ana Lía

(Universidad de Buenos Aires. CABA)

Russ, Carlota

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Ruvinsky, Raúl

(Hospital Carlos G. Durand. CABA)

Saa, Gladys

(Hospital Universitario Fundación Favaloro. CABA)

Salim, Maximiliano

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Salomón, Cristina

(Universidad de Cuyo. Mendoza)

Sánchez-Códez, María

(Hospital Universitario Puerta del Mar. Cádiz, España)

Santos, Silvia

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Sarraquigne, María Paula

(Sanatorio de Niños. Rosario, Santa Fe)

Satragno, Daniela

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Schapira, Iris

(Hospital Materno Infantil Ramón Sardá. CABA)

Schteinschnaider, Ángeles

(Fleni. CABA)

Schuldberg, Jacqueline

(AADYND / Centro Médico Villa Urquiza del Niño y la Mujer. CABA)

Sciuccatti, Gabriela

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Segretín, Eliana

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Selandari, Jorge

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Silvera Ruiz, Silene

(Hospital de Niños de la Santísima Trinidad. Córdoba)

Soto Conti, Constanza

(Hospital Materno Infantil Ramón Sardá. CABA)

Spécola, Norma

(Hospital de Niños Sor María Ludovica. La Plata, Buenos Aires)

Speranza, Ana

(Ministerio de Salud)

Stepffer, Carolina

(Hospital General de Niños Pedro de Elizalde. CABA)

Suárez, Hamlet

(Hospital Británico. Montevideo, Uruguay)

Sueiro, Jorge

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Tenembaum, Silvia

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Tonietti, Miriam

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Torres, Silvio

(Hospital Universitario Austral. Pilar, Buenos Aires)

Torres Castro, Rodrigo

(Universidad de Chile)

Trentadue, Julio

(Hospital Universitario Fundación Favaloro. CABA)

Trifone, Liliana

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Uberos, José

(Hospital Universitario San Cecilio. Granada, España)

Usandivaras, Ignacio

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Vagni, Rosana

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Vaiani, Elsa

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Vázquez Rueda, Fernando

(Hospital Universitario Reina Sofía. Córdoba, España)

Vecchiarelli, Carmen

(Sanatorio Otamendi. CABA)

Veinberg, Silvana

(ASHOKA. CABA)

Vericat, Agustina

(Hospital de Niños Sor María Ludovica. La Plata, Buenos Aires)

Verón, David

(Hospital Universitario Austral. Pilar, Buenos Aires)

Villa, Mariana

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Villa de Villafañe, Andrés

(Hospital Universitario Austral. Pilar, Buenos Aires)

Viola, Bettina

(Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez. CABA)

Wahren, Carlos

(Hospital Italiano de Buenos Aires. CABA)

Waisburg, Héctor

(Hospital Dr. Juan P. Garrahan. CABA)

Zapata, María Elisa

(Centro de Estudios sobre Nutrición Infantil. CABA)

Zepeda Toro, Juan

(Hospital San Borja Arriarán. Santiago, Chile)

Colaboradores de la sección *Artículos seleccionados* del año 2020

Los Editores de *Archivos Argentinos de Pediatría* expresamos nuestro agradecimiento a aquellos profesionales que colaboraron con sus comentarios publicados durante el año 2020 y hacen posible la presencia de esta sección.

Bordas Pérez, Adrián

Llapur, Conrado J.

Rodríguez, M. Susana

Caraballo, Roberto

Melamud, Ariel

Salim, Maximiliano

Ceriani Cernadas, José María

Sanaluis Fenelli, Gabriela

Ciammella, Ricardo

Navarro, Lucas David

Torres, Fernando

Giglio, Norberto

Otero, Paula

Urrutia, Luis Eduardo

González, Norma

Pedrouzo, Silvina Beatriz

Lamas, Fernando

Peskins, Valera

Vidaurreta, Santiago M.

Larcade, Ramón

Una alternativa de inferencia bayesiana para el contraste de hipótesis en la investigación pediátrica

A bayesian inference alternative for hypothesis contrast in pediatric research

Sr. Editor:

Uno de los modelos de la estadística bayesiana es el factor Bayes que representa la razón de verosimilitud de la evidencia en el contraste de las hipótesis estadísticas¹ (p., ej. hipótesis alterna vs. hipótesis nula), siendo una alternativa útil para la inferencia estadística en las pruebas frecuentistas de estimación (p., ej. análisis de correlación o prueba estadística de comparación de medias de *t* student) e incluso como una opción metodológica de replicación estadística.²⁻⁴

El factor Bayes es el método idóneo para evaluar más allá de la interpretación dicotómica del rechazo o aceptación de la hipótesis nula clásica (NHST, por sus siglas en inglés) de acuerdo al nivel de significancia “ $p < 0,05$ ”, pues cuantifica el valor de evidencia o certeza en que los datos respaldan tanto a la hipótesis de nulidad como a la hipótesis alterna, mediante el esquema de clasificación de Jeffreys1: “débil”, “moderado”, “fuerte” y “muy fuerte” (Tabla 1).

Un estudio reciente en la presente revista utilizó la prueba estadística de correlación Pearson según el paradigma clásico (también llamado frecuentista) entre el porcentaje de masa grasa (MG) y la fuerza de presión manual relativa (FPMR) en una muestra de niños y adolescentes dividido en grupos etarios y según sexo.⁵ La presente carta tiene como fin presentar dos ejemplos sencillos de reanálisis bayesiano² de los resultados significativos de correlación más próximos al nivel de significancia de $p < 0,05$; estos dos hallazgos fueron en los grupos de menor edad de ambos sexos.

Cuando se cuentan con resultados significativos previos se requiere los coeficientes de correlación (-0,26 y -0,28) y los tamaños de muestra (156 y 180) en mujeres y varones respectivamente reportado por Cossio-Bolaños et al.⁵

Las dos interpretaciones comunes del factor Bayes son: FB10 (a favor de la hipótesis alternativa de correlación) y FB01 (a favor de la hipótesis nula de no correlación) y el FB $FB01 = 0,049$ e IC 95 % [-0,398 a -0,106] en mujeres y $FB10 = 123$ y $FB01 = 0,008$ e IC 95 % [-0,407 a -0,138] en varones. Los resultados bayesianos de la correlación de MG-FPMR en mujeres reportaron una evidencia fuerte (20 veces mayor) y en los varones una evidencia extrema (123 veces mayor) a favor de la hipótesis estadística alterna, y los valores de probabilidad bayesiana de las hipótesis nulas (FB01) presentan una mínima proporción de credibilidad en comparación a las hipótesis de correlación (FB10) para alguna posible interpretación.

También, se estimaron los parámetros del factor Bayes máximo ($maxFBF10 = 39,9$ en mujeres y $maxBF10 = 224,1$ en varones) para determinar la estabilidad de los resultados, cuyos valores similares de respaldo a la hipótesis alterna, afianzan la confiabilidad de los hallazgos obtenidos. Por lo tanto, la presente carta se considera como un gran aporte metodológico inclusivo para difundir la inferencia bayesiana de manera sencilla en la investigación pediátrica y futuros artículos de la presente revista. ■

Cristian A. Ramos-Vera

Área de investigación.

Facultad de Ciencias de la Salud,

Universidad Cesar Vallejo,

Lima, Perú.

Correspondencia: cristony_777@hotmail.com

Tabla 1. Valores de interpretación cuantificable del factor Bayes

>100	Extrema	Hipótesis alternativa
30-100	Muy fuerte	Hipótesis alternativa
10-30	Fuerte	Hipótesis alternativa
3.1-10	Moderado	Hipótesis alternativa
1.1-3	Débil	Hipótesis alternativa
1	0	No evidencia
0.3-0.9	Débil	Hipótesis nula
0.3-0.1	Moderado	Hipótesis nula
0.1-0.03	Fuerte	Hipótesis nula
0.03-0.01	Muy fuerte	Hipótesis nula
<0.01	Extrema	Hipótesis nula

Nota: Creación propia según Jeffreys¹

REFERENCIAS

1. Jeffreys H. Theory of probability. Oxford: Oxford University Press; 1961.
2. Nuzzo RL. An introduction to Bayesian data analysis for correlations. *PM R*. 2017;9(12):1278-82.
3. Ly A, Raj A, Etz A, Marsman M, et al. Bayesian reanalyses from summary statistics: a guide for academic consumers. *Adv Meth Pract Psychol Sci*. 2018;1(3):367-74.
4. Marsmann M, Wagenmakers E-J. Bayesian benefits with JASP. *Eur J Dev Psychol*. 2017;14(5):545-55.
5. Cossio-Bolaños M, Gómez-Campos R, Castelli Correia de Campos LF, Sulla-Torres J, et al. Fuerza muscular y porcentaje de grasa corporal en niños y adolescentes de la región del Maule, Chile. *Arch Argent Pediatr*. 2020;118(5):320-26.

Réplica a la carta al Editor en la Revista Archivos Argentinos de Pediatría al artículo "Fuerza muscular y porcentaje de grasa corporal en niños y adolescentes de la región del Maule, Chile"

Correspondencia:

Rossana Gómez Campos: rossaucamp@gmail.com

Estimado Editor:

En respuesta a la carta denominada: *Una alternativa de inferencia bayesiana para el contraste de hipótesis en la investigación pediátrica*, respecto a las observaciones y los comentarios realizados por parte de Ramos-Vera, agradecemos sus valiosos aportes en relación al estudio publicado por Cossio-Bolaños et al.¹

El enfoque bayesiano es una alternativa para la estimación de coeficientes de correlación en la que se incorporan conocimientos de estudios previos para mejorar la estimación² (probabilidad inversa) y se utiliza por lo general, siempre que las estimaciones de los parámetros sean inciertas o las observaciones estén contaminadas por un error de medición, por lo que el coeficiente de correlación de Pearson puede subestimar gravemente la verdadera fuerza de una asociación.³

En ese sentido, el estudio de Cossio-Bolaños et al.¹ describió los parámetros estadísticos pertinentes y el proceso de evaluación de las variables de fuerza de prensión manual y escaneo por DXA, evidenciaron valores inferiores al 2 %; además, el tamaño de muestra fue probabilístico, lo que permitió las estimaciones de los parámetros descritos por Ramos-Vera, pues, muchas veces los estudios no ofrecen tales informaciones, por lo que dificulta ajustarse al modelo.

En la actualidad, hay muchas razones para promover nuevas alternativas para mejorar gradualmente las estimaciones de magnitudes e incertidumbre en los resultados de estudios pediátricos, siendo una alternativa, el efectuar meta-análisis utilizando la inferencia bayesiana, por lo que, su uso y aplicación en un conjunto de estudios podría ser de mayor utilidad para los investigadores en poblaciones pediátricas.

Dr. Marco Cossio-Bolaños^a,
Dra. Rossana Gómez-Campos^a,
José Sulla-Torres^b,
Dr. Vitor Pires-Lopes^c

a. Universidad Católica del Maule, Talca, Chile.

b. Universidad Católica de Santa María, Arequipa, Perú.

c. Research Center in Sports Sciences Health Sciences and Human Development (CIDESD), Sport Science Department, Polytechnic Institute of Bragança, Portugal.

REFERENCIAS

1. Cossio-Bolaños M, Gómez-Campos R, Castelli Correia de Campos LF, Sulla-Torres J, et al. Fuerza muscular y porcentaje de grasa corporal en niños y adolescentes de la región del Maule, Chile. *Arch Argent Pediatr*. 2020;118(5):320-6.
2. Schisterman EF, Moysich KB, England LJ, Rao M. Estimation of the correlation coefficient using the Bayesian Approach and its applications for epidemiologic research. *BMC Med Res Methodol*. 2003;3:5.
3. Matzke D, Ly A, Selker R, Weeda WD, et al, Bayesian Inference for Correlations in the Presence of Measurement Error and Estimation Uncertainty. *Collabra Psychol*. 2017;3(1):25.

No todo está perdido... el ejemplo de personas con trisomía 21 ante la pandemia

Estimado Editor

Desde el pasado año hasta la actualidad, nuestros estilos de vida en general han evidenciado un cambio radical, ante la aparición de la pandemia que produce el síndrome respiratorio agudo severo por coronavirus 2 (SARS-CoV-2, por sus siglas en inglés). Ante esto, nuestro equipo de trabajo se enfocó en estudiar la forma en que se podrían ver afectadas algunas entidades genéticas, entre ellos los individuos con trisomía 21, resaltando los cuidados especiales que deben recibir ante las múltiples características fisiopatológicas descritas y que aún continúan en estudio en esta población de riesgo, las que refuerzan su vulnerabilidad.¹ Igualmente, el grupo de Rodiers y De Cauwer en Bélgica, a través de una Carta al Editor a los *Archivos Argentinos de Pediatría* refuerzan esta idea haciendo mención a siete razones para preocuparse por un desastre.² Ambos artículos destacan que las medidas preventivas no farmacológicas mantienen un rol importante para controlar y evitar la propagación de la infección, y con especial beneplácito se hace mención de los hallazgos encontrados por Ortega et al.³ de la *Trisomy 21 Research Society*, denominado "Lecciones de los individuos con síndrome de Down en la pandemia del COVID-19".

Esta situación plantea desafíos particulares para las personas con discapacidad intelectual y la población con trisomía 21, corresponde la forma más común de origen genético. Según una encuesta, realizada por la *Trisomy 21 Research Society*, el número de infecciones por SARS-CoV-2 en personas con esta entidad genética se redujo

sustancialmente después de la primera ola de infección entre marzo y mayo de 2020, e incluso después del resurgimiento de las infecciones en septiembre del mismo año. Este grupo intuye que la disminución de las tasas de infección se podría explicar por ciertos rasgos conductuales como la constancia, la tenacidad y el compromiso con las tareas, no encontrados en individuos con otras alteraciones genéticas que cursan con discapacidad intelectual.⁴ Además, los individuos con trisomía 21 también comparten una tendencia a imitar y repetir comportamientos que pueden conducir a la ritualización y al perfeccionismo.⁵ Por lo tanto, el patrón de función cognitiva asociado con este fenotipo conductual podría promover el cumplimiento con las medidas preventivas recomendadas contra la propagación del SARS-CoV-2.³

El grupo de investigación de Ortega et al.³ destaca que los individuos con trisomía 21, muestran un alto grado de compromiso cuando se integran hábitos que son transmitidos como importantes o beneficiosos. Estas nociones no se pueden extrapolar a personas con trisomía 21 con déficit intelectual grave o profundo o en los casos que presenten concomitantemente demencia, o cuando la información relacionada con la pandemia no se ha comunicado de manera adecuada. El éxito en la disminución de número de infección en los individuos con trisomía 21, depende sin duda del cumplimiento de las medidas recomendadas, de la forma de intervención adecuada tanto de los miembros de la familia, como el énfasis realizado por los profesionales de la salud.

La correspondencia de Ortega et al.³ publicada el pasado mes de diciembre en *Lancet Neurology*, enfatiza que las personas con trisomía 21 podrían estar dando sin duda una lección al resto de la población. La persistencia en el aseo y la higiene, que muestran los individuos con trisomía 21, les ayuda a aprender y adoptar las medidas de protección recomendadas frente a esta infección. Este patrón de comportamiento debe servir como ejemplo útil para todos.

El personal que tratan y siguen a los individuos con trisomía 21 reconocemos sin inconvenientes este comportamiento particular que exhiben estos individuos. Por otra parte, se puede agregar que los niños pequeños y la asociación con autismo en algunos de ellos, se pueden considerar como factores de riesgo. Seguramente estas familias se encuentran más sensibilizadas y sin duda desempeñan un rol

activo dentro de este proceso. El personal de salud igualmente tiene como responsabilidad brindar las indicaciones apropiadas para evitar el contagio. Por otra parte, este trabajo debe ser reforzado por las asociaciones de individuos con la entidad genética a través de campañas educativas para mejorar aún la situación. Mostrar estos resultados podrán servir como estímulo, e incluso se puede invitar a la población general a seguir este patrón de conducta, que sin duda beneficiará a todos en este período crucial en el resurgimiento de la pandemia.

*Prof. Francisco Cammarata-Scalisi^a,
Prof. Dr. Antonio Cárdenas Tadich^a,
T.M. Maykol Araya Castillo^b y
Dr. Michele Callea^c*

- Servicio de Pediatría, Hospital Regional de Antofagasta, Chile.
- Laboratorio Clínico, Hospital Regional de Antofagasta, Chile.
- Unit of Dentistry, Bambino Gesù Children's Hospital, IRCCS, Rome, Italy.

REFERENCIAS

- Cammarata-Scalisi F, Cárdenas Tadich A, Medina M, Callea M. La trisomía 21 y la enfermedad por coronavirus de 2019 (COVID-19). *Arch Argent Pediatr*. 2020;118(4):230-1.
- Rodiers A, De Cauwer H. Trisomy 21 and the coronavirus disease 2019 (COVID-19): seven reasons to worry for a disaster. *Arch Argent Pediatr*. 2020;118(6):e593-4.
- Ortega MC, Borrel JM, Bermejo TJ, González-Lamuño D, et al. Spanish Trisomy 21 Research Society COVID-19 Taskforce. Lessons from individuals with Down syndrome during COVID-19. *Lancet Neurol*. 2020;19(12):974-5.
- Grieco J, Pulsifer M, Seligsohn K, Skotko B, et al. Down syndrome: Cognitive and behavioral functioning across the lifespan. *Am J Med Genet C Semin Med Genet*. 2015;169(2):135-49.
- Wishart JG. Socio-cognitive understanding: a strength or weakness in Down's syndrome? *J Intellect Disabil Res*. 2007;51(Pt 12):996-1005.

Reevaluar los casos de pacientes que han consumido dióxido de cloro para combatir COVID-19

Re-evaluate cases of patients that have used chlorine dioxide to fight COVID-19

Estimado señor Editor:

He leído atentamente el comentario enviado a esta sección sobre el engaño peligroso del que serían objeto las personas que consumen el dióxido de cloro (ClO₂, gas soluble en agua o CDS) para combatir COVID-19 u otras enfermedades.¹ Como biólogo he estado interesado en el tema

de antivirales, por ejemplo, antigripales como el *iota*-carragenano obtenido de algas marinas rodófitas.² Recientemente he sabido del uso del dióxido de cloro para este mismo fin, incluyendo el COVID-19 y he realizado una revisión sobre el tema, dado la controversia que ha generado en el ambiente médico. Esta revisión ha sido publicada³ y en ella reconozco que el producto tiene una acción oxidante y que por ello deben tomarse las precauciones necesarias. Sin embargo, encuentro necesario precisar algunos antecedentes que parecen faltar en el análisis recientemente publicado en esta revista. Entre ellos la alusión a que, existiendo numerosas diferencias entre microorganismos patógenos y células humanas, *“ninguna de estas explicaría por qué el ClO₂ ejercería su actividad sobre ese gran y diverso conjunto de microorganismos patógenos (incluyendo al coronavirus de COVID-19) y no sobre células humanas”*. Al respecto, en el año 2013, investigadores europeos publicaron un trabajo donde postulan que tal especificidad del dióxido de cloro se debe al mucho mayor tamaño y mayor número celular en los tejidos humanos.⁴ Este aspecto de toxicidad tamaño-dependiente es corroborado por los pacientes que han consumido dióxido de cloro y manifiestan leves perturbaciones digestivas. Estas son precisamente derivadas del cambio de flora bacteriana intestinal, dado que estos microorganismos sí son afectados por el contacto con el oxidante. En cambio, el mayor tamaño y mayor número de células del resto del organismo (más barreras celulares) las protege de una acción radical por el oxidante. Así, a las concentraciones propuestas de CDS, éste sí actúa contra pequeñas células y más aún si están aisladas.

Respecto de que no se explica con argumentos científicos por qué el gas actuaría sobre otras enfermedades estoy de acuerdo que falta teoría para tanta acción empírica. Una vía posible de hipótesis a probar, por ejemplo, para el caso de algunos tipos de cáncer, sería la de la modificación de los microambientes tumorales que parecen necesitar un pH particular.⁵ Este microambiente sería modificado por agentes externos, como el CDS, inhibiendo los tumores. Otras enfermedades también causadas por microorganismos (parásitos u otros virus como en la enfermedad de Chagas o sida) tendrían la misma explicación del efecto del tamaño y número de células.⁴

Otro aspecto relevante que debería enfatizarse es que los estudios de ausencia de toxicidad aguda o crónica del CDS está confirmada por varios estudios citados por Martínez (2020).³ En

ellos se han hecho análisis que muestran ausencia de efectos deletéreos en rasgos fisiológicos como pulso, frecuencia respiratoria, temperatura, o ausencia de cambios en parámetros bioquímicos como los niveles de glucosa, nitrógeno ureico, fosfatos, fosfatasa alcalina, transaminasas o excreciones tiroideas. Ni tampoco hemólisis o anemia, a dosis de 24 ppm por día, por dos semanas. El CDS demostró ser seguro también en agua potable dada a 198 personas por 115 días.³ Estos estudios permitirían entonces sentar las bases éticas para hacer, por ejemplo, estudios farmacocinéticos que evalúen por ejemplo el equilibrio iónico a nivel sanguíneo en elementos como el cloro u otros iones monovalentes asociados a estos equilibrios (potasio, sodio). Por otra parte, de los dos estudios de toxicidad citados en la carta al editor,¹ el primero de ellos, sobre genotoxicidad en células, mostró que hubo más toxicidad en tratamientos con agua potable, sin dióxido de cloro que en agua tratada con dióxido de cloro y el otro estudio citado está basado en un caso de accidente de casa, con un bebé de un año, que tomó un producto *a base* de dióxido de cloro, sin especificar qué producto, ni en qué concentración. El mismo estudio señala que, tres meses después, tampoco había secuelas de ningún tipo en el niño.

Ahondando más sobre la toxicidad, se señala en la carta al editor¹ que *“Si algo no es útil o es muy tóxico (aunque sea en un pequeño porcentaje), se descarta”*. Lamentablemente la experiencia nos muestra que, en temas de medicamentos, la realidad es que sí se usan compuestos tóxicos, algunos muy tóxicos, que van desde el simple paracetamol hasta los productos anticancerígenos de las quimioterapias que debilitan al organismo hasta niveles muy graves. Es el caso de las terapias que dejan al organismo con bajos niveles de glóbulos blancos (neutropenia). Para recuperar estos se usa a menudo un compuesto (filgrastim, estimulador de colonias de granulocitos) que tiene otros graves efectos secundarios (desde dolores múltiples hasta ruptura del bazo), que se suman a los efectos de las quimioterapias tradicionales. Los medicamentos antiepilépticos también tienen graves efectos secundarios, sólo por mencionar algunos. Los trastornos digestivos descritos en dosis leves de dióxido de cloro no se comparan a los trastornos de los medicamentos recién descritos.

Finalmente, es importante señalar aquí el seguimiento de pacientes que, en respeto de la declaración de Helsinki, han firmado una

descarga notarial de responsabilidad, frente a la ingesta de CDS para tratar el COVID-19.³ Es el caso de Ecuador, donde en mayo de 2020 hubo 100 pacientes que se sanaron de COVID-19, en sólo cuatro días, sin secuelas o efectos secundarios graves.³ Es cierto que en esa oportunidad no hubo un estudio de doble ciego o de casos controles. Sin embargo, los resultados obtenidos de curación, y en tan poco tiempo, muestra que es legítimo seguir investigando sobre este gas. Incluso podría ser en estudios usando modelos animales, como el caso de otros estudios de antivirales que usan hurones, especie que transmite el virus de COVID-19 pero que no cursa la enfermedad.⁶ La ventaja de usar estos organismos es que en ellos los posibles efectos nocivos del gas no se mezclarían con los efectos nocivos de la enfermedad. Así el tratamiento experimental estaría más focalizado en asegurar la desaparición de la carga viral y asegurar una mínima transmisibilidad, permitiendo al mismo tiempo evaluar más claramente los posibles efectos secundarios.

Los casos de pacientes COVID-19 que ya han usado el CDS con vigilancia médica³ deberían reevaluarse y así motivar a nuevos estudios con más análisis de farmacodinámica en pacientes enfermos de COVID-19 u otras afecciones virales y en voluntarios sanos. Con ello obtener así todos los antecedentes que se necesitan para determinar el uso o no uso de este producto. La osadía de pacientes y médicos al invocar el protocolo internacional de Helsinki y usar este producto contra el COVID-19 en Ecuador puede cuestionarse, pero sus resultados fueron prometedores y dado las circunstancias socioeconómicas del COVID-19 y su alta mutabilidad, deberían hacer valer un financiamiento serio para considerar seriamente esta controvertida molécula. Estudios que son prometedores debido a la baja toxicidad del CDS y aun sabiendo que hay vacunas, dado la mencionada mutabilidad del virus.⁷ ■

Enrique A. Martínez

Universidad Católica del Norte, Coquimbo, Chile
emartinez@foyer-sufferchoix.fr

REFERENCIAS

1. Cáceres Guido P. Dióxido de cloro: ¿tratamiento universal o engaño peligroso?. *Arch Argent Pediatr*. 2021;119(1):e109-10.
2. Eccles R, Meier C, Jawad M, Weinmüllner R, et al. Efficacy and safety of an antiviral Iota-Carrageenan nasal spray: a randomized, double-blind, placebo-controlled exploratory study in volunteers with early symptoms of the common cold. *Respir Res*. 2010;11(1):108.
3. Martínez E. A New Perspective for Prevention and to Cure COVID-19 Patients: Encouraging Medical Teams to Contact Healed People Treated with Chlorine Dioxide in Solution (CDS). *Integr J Med Sci*. 2020;7:229.
4. Noszticzus Z, Wittmann M, Kály-Kullai K, Beregvári Z, et al. Chlorine Dioxide Is a Size-Selective Antimicrobial Agent. *PLoS One*. 2013;8(11):e79157.
5. Chafea SC, McDonald PC, Dedhar S. pH regulators of the tumoral microenvironment: A general overview. En: Supuran CT, Carradori S (eds). *pH-Interfering Agents as Chemosensitizers in Cancer Therapy*. London: Academic Press; 2020:13-33.
6. Cox RM, Wolf JD, Plemper RK. Therapeutically administered ribonucleoside analogue MK-4482/EIDD-2801 blocks SARS-CoV-2 transmission in ferrets. *Nat Microbiol*. 2021;6(1):11-8.
7. To KKW, Hung IFN, Ip JN, Chu AWH, et al. Coronavirus Disease 2019 (COVID-19) Re-infection by a Phylogenetically Distinct Severe Acute Respiratory Syndrome Coronavirus 2 Strain Confirmed by Whole Genome Sequencing. *Clin Infect Dis*. 2020;ciaa1275.

EN RESPUESTA

El dióxido de cloro no puede ser usado de forma sistémica contra enfermedades humanas
Chlorine dioxide cannot be used systemically against human diseases

Sr. Editor de Archivos Argentinos de Pediatría

A continuación, mi respuesta a la carta de Enrique A. Martínez. En primer lugar, Martínez hace alusión a la "revisión" que publicó en la revista *Integrative Journal of Medical Science (IJMS)*. En realidad, se trata de un artículo de opinión con ciertos elementos que no alcanzan para definirla como revisión; aunque, si lo fuera, sería una breve y no sistemática, que incluye datos de fuentes que, en gran medida, no son propias de un artículo científico.

La revista IJMS apenas puede encontrarse en la web, y pertenece a un grupo cuyas revistas son conocidas como "predatory", no sujetas a revisión seria y profesional por pares. Así, casi cualquier cosa que de allí surja debe ser leída con la desconfianza propia de quien lee solo una opinión personal en una fuente no confiable. Esta revista, que antes se llamaba "International Journal of Medicine and Surgery", no solo no está indizada en Medline/Pubmed, sino que tampoco lo está en bases otras confiables tales como Embase, Web of Science, Scopus o Science Direct. Ningún científico con mínima formación podría dar por válida una publicación en esa revista, a pesar de lo cual Martínez la usa para validar su opinión.

Aunque considerando que lo anterior podría eximirme de responder, continuaré.

El texto de Martínez (IJMS) indica, textualmente, que “...where patients suffering COVID-19 have been successfully treated with CDS (chlorine dioxide in solution)”, dando por cierto que existen pacientes que realmente han sido tratados exitosamente contra el COVID-19 con CDS, aunque no incluye ninguna referencia luego de esa contundente frase. Los datos de recopilación de información de pacientes a los que Martínez luego hace referencia pertenecen a los registros de una asociación llamada AEMEMI (Asociación Ecuatoriana de Médicos Expertos en Medicina Integrativa). Martínez referencia un sitio web de vídeos (difícil de abrir porque es bloqueado por considerarse “inseguro” por navegadores web), que posee, entre otras cosas, testimonios de personas que dicen haber recibido dióxido de cloro (ClO_2) para tratar COVID-19. El estudio nombrado en ese vídeo (clinicaltrial.gov NCT04343742) que iba a reclutar a unos 20 pacientes, habría logrado incluir a más de 100, y aunque dice haber terminado en junio de 2020, aun no se publicó más que en esa web de vídeos. Vale recordar que el 80 % de los infectados por SARS-CoV-2 se recuperan sin complicaciones importantes, por lo que afirmar que tratamientos para COVID-19 son efectivos sin tener grupo control arroja resultados que difícilmente pueden considerarse válidos. También podríamos ahondar en cómo la AEMEMI realiza y valida sus métodos diagnósticos, ya que no es explicado en el vídeo, pero no hay aquí suficiente espacio para ello.

Otro artículo que referencia Martínez (Noszticzius et al., *Plos One* 2013) remarca la diferencia que hace el ClO_2 al actuar sobre bacterias *versus* células humanas, marcando que estas no son bioquímicas sino que se basan en tamaños. En realidad, no hace más que explicar un fenómeno conocido hace casi 200 años, la Ley de Difusión de Fick, que indica que el tamaño de las moléculas, así como otros factores (temperatura, distancia, tipo de barreras y otros factores) influyen en la forma en la que sucede el fenómeno de difusión de las mismas. Además, ese trabajo se enmarca en un análisis que destaca que unos pocos minutos de contacto del ClO_2 sería suficientes como bactericida, y al volatilizarse rápidamente impediría su penetración al organismo, evitando los efectos citotóxicos, motivo por el cual lo proponen como un posible uso como antiséptico local (ya existen formulaciones como desinfectante tópico bucal que parecen contar con buena

evidencia de seguridad y eficacia). Esto no hace más que ratificar que la toxicidad del ClO_2 debe ser prioridad en su consideración clínica, y que su uso tópico sería posible debido a que su volatilidad también impide la toxicidad sistémica asociada a este compuesto. En resumen, lo que Martínez muestra como una prueba a favor del uso del ClO_2 , no es más que una prueba en contra de su uso.

En cuanto a la falta de estudios de toxicidad aguda y crónica, Martínez nuevamente hace referencia a su texto, el de *IJMS* anteriormente mencionado. Se basa en 6 artículos, 4 de los cuales son del grupo de Lubbers et al. de la década de 1980. Todos ellos (varios con evidentes problemas éticos), a la fecha no han servido para revertir la evidencia de toxicidad que luego se sumó. Así, y en relación a los artículos sobre toxicidad que referencíé en mi Carta a *Archivos Argentinos de Pediatría*, debo destacar que me encontré limitado por la cantidad de referencias que esta revista pone como máximo para las Cartas. Igualmente pude listar algunos de los múltiples efectos tóxicos que han sido reportados. Es muy sencillo encontrar decenas de artículos e informes de organismos regulatorios e institutos de investigación de excelencia que muestran clara evidencia sobre toxicidad. Aunque nuevamente el límite de referencias es aquí un condicionante, me limito a sugerir búsquedas sencillas en Pubmed y Google Scholar, en el que se encontrarán documentos del CDC, OPS/OMS, UPC, NIH, NAS-US, ANMAT, y muchos artículos (Couri 1982, Buschini 2004, Ouhoumane 2004, Marabini 2006, Bathina 2013, Sapone 2016, Lardieri 2020, Srivastav 2020 y Hagiwara 2020, entre otros).

En cuanto a la toxicidad de fármacos actualmente en uso, desde ya que existen muchos con considerable toxicidad. De todos se conoce cada vez mejor su relación eficacia/toxicidad, por lo cual se pueden utilizar modelando dicha relación, intentando minimizar los eventos adversos, y aumentando la probabilidad de alcanzar su eficacia terapéutica. Asimismo, los mecanismos de acción van siendo cada vez más claramente explicados, basándose tanto en una básica lógica fisiopatológica y farmacológica como en experimentación seria y reproducible. De todo esto adolece el ClO_2 . En todo caso, de lo que se trata es de no sumar compuestos que están claramente asociados a toxicidad sin agregar ningún efecto beneficioso fuertemente evidenciado. Es cierto que durante

muchos años hubo limitado control regulatorio y epidemiológico, posibilitando que muchas moléculas hayan sido incluidas en la práctica clínica aunque hoy quizás no serían permitidas. Esto, que afortunadamente mejoró enormemente en las últimas décadas, no implica que se deban autorizar compuestos que se han mostrado claramente tóxicos, como es el caso del ClO₂. La ciencia verdadera y de calidad creciente aprende de sus errores. Intentar agregar nuevos compuestos (que se destacan por su toxicidad) al arsenal farmacoterapéutico es aferrarse a los mismos errores que se cometieron del pasado.

Así entonces, ratifico, no hay evidencia suficiente de seguridad que hoy indique que el ClO₂ está en situación de pasar a ensayos clínicos en pacientes humanos. Además, la falta de evidencia para el caso del COVID-19, ha sido adecuadamente estudiada en una recomendable revisión que acaba de ser publicada.¹ Al contrario, la bibliografía relacionada a toxicidad es abrumadora.

Así las cosas, aunque no descarto que algún día esto cambie (porque la evolución de la ciencia a veces puede ser impredecible), según lo que hoy está disponible en medios confiables, el ClO₂ es suficientemente tóxico como para no ser considerado para su evaluación en humanos de forma sistémica, y quienes por diversos motivos lo han usado no han sido objeto de ninguna publicación en ningún medio científico fiable. ■

Paulo Cáceres Guido.

Unidad de Farmacocinética Clínica, y

Grupo de Medicina Integradora.

Hospital de Pediatría "Prof. Dr. Juan P. Garrahan".

Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.

caceresguido@gmail.com

REFERENCIAS

1. Burela A, Hernández Vásquez A, Comandé D, Peralta V, et al. Chlorine dioxide and chlorine derivatives for the prevention or treatment of COVID-19: a systematic review. *Rev Peru Med Exp Salud Publica*. 2020;37(4):605-10.

Recomendaciones para el diagnóstico y tratamiento de la urticaria en pediatría

Recommendations for the diagnosis and treatment of urticaria in children

Comité Nacional de Alergia

RESUMEN

La urticaria es una de las afecciones cutáneas más comunes en niños. Se define urticaria aguda cuando persiste hasta 6 semanas, y crónica, cuando la duración es mayor.

Afecta al 25 % de la población. La forma aguda es la más frecuente. La crónica representa el 0,1 %, con mayor predominio en mujeres (60 %).

Se subdivide en urticaria crónica inducible cuando hay un desencadenante externo específico y urticaria crónica espontánea si este no está presente.

Aunque la fisiopatología es compleja, la degranulación del mastocito se considera un evento clave.

Los antihistamínicos anti-H1 de segunda generación son la primera línea de tratamiento tanto en la urticaria aguda como en la crónica. En pacientes no respondedores, se considerarán otras terapias.

Se hará énfasis en urticaria crónica dada la dificultad en su diagnóstico, el aumento de su prevalencia y la gran afectación que produce en la calidad de vida de los niños.

Palabras clave: urticaria, niño, pediatría, pruebas cutáneas, autoinmunidad.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2021.S54>

Cómo citar: Comité Nacional de Alergia. Recomendaciones para el diagnóstico y tratamiento de la urticaria en pediatría. *Arch Argent Pediatr* 2021;119(2):S54-S66.

Texto completo como Suplemento de *Archivos Argentinos de Pediatría*, en formato electrónico, en su sitio web (véase sección "Suplementos")
