

Fallecimientos, malos tratos infantiles y evolución neurológica adversa tras un fenómeno con amenaza aparente para la vida

Joshua L. Bonkowsky, MD, PhD^a, Elisabeth Guenther, MD, MPh^b, Francis M. Filloux, MD^a, y Rajendu Srivastava, MD, FRCP, MPH^c

OBJETIVO: Los fenómenos con amenaza aparente para la vida (FAAV) del lactante constituyen un problema significativo para los proveedores de asistencia sanitaria. La valoración y la conducta a seguir ante un FAAV no están bien definidas, y tampoco se ha determinado claramente cuál es su evolución. Nuestros objetivos consistieron en caracterizar los riesgos a corto y largo plazo en cuanto al fallecimiento, a los malos tratos infantiles y a la evolución neurológica anormal en los lactantes que han experimentado un FAAV, así como en identificar las características clínicas que permitan predecir estas evoluciones.

MÉTODOS: Se recogieron datos de los lactantes de 0-12 meses hospitalizados con motivo de un FAAV, durante un período de 5 años. Se valoraron las siguientes evoluciones: fallecimiento, malos tratos infantiles o evolución neurológica adversa (epilepsia crónica o retraso del desarrollo).

RESULTADOS: Reunieron los criterios de inclusión 471 pacientes, cuya evolución se siguió durante un promedio de 5,1 años. Dos pacientes fallecieron después de desarrollar epilepsia crónica y grave retraso del desarrollo. En 54 pacientes (11%) se diagnosticaron malos tratos infantiles, pero sólo 2 de ellos se identificaron en la presentación inicial. Hubo 23 (4,9%) pacientes con evolución neurológica adversa, incluidos 17 (3,6%) con epilepsia crónica y 14 (3,0%) con retraso del desarrollo. De los casos con epilepsia

crónica, el 71% volvió en el plazo de 1 mes tras el FAAV inicial, a causa de un segundo FAAV. La valoración neurológica en el momento de un FAAV tuvo escaso valor para predecir quiénes desarrollarían epilepsia crónica.

CONCLUSIONES: Los lactantes que presentan un FAAV tienen riesgo de sufrir posteriormente malos tratos infantiles y evolución neurológica adversa. Los casos de fallecimiento fueron escasos y sólo ocurrieron en el contexto de un grave retraso del desarrollo y trastornos convulsivos. La valoración neurológica durante la primera hospitalización por FAAV es poco productiva; en cambio, es esencial un estrecho seguimiento del paciente.

Los fenómenos con amenaza aparente para la vida (FAAV) en los lactantes menores de 1 año constituyen un problema significativo en cuanto a su valoración y la conducta a seguir. Un FAAV se define como “un episodio que atemoriza al observador, caracterizado por alguna combinación de apnea (central u ocasionalmente obstructiva), cambio de coloración (habitualmente cianosis o palidez), alteración notable del tono muscular, ahogo o atragantamiento. En algunos casos el observador teme que el niño haya fallecido”¹. Se ha estimado que la incidencia de los FAAV se sitúa entre 0,6 y 9,4/1.000 nacidos vivos, y que estos fenómenos son responsables del 0,6-0,8% de las visitas a los servicios de urgencias en los niños menores de 1 año^{2,3}. Ante un niño con FAAV, los principales problemas a considerar son: “casi-SMSL (síndrome de muerte súbita del lactante)”, convulsiones, anomalías del sistema nervioso central (SNC), problemas cardíacos y malos tratos infantiles^{2,4,5}.

No hay consenso sobre cuál es la valoración diagnóstica necesaria o indicada cuando se presenta un lactante con FAAV^{2,6-8}, en parte por la falta de datos sobre la evolución. Aunque se han descrito los diagnósticos de salida más frecuentes en los casos de FAAV² (reflujo gastroesofágico, causas desconocidas, convulsiones e infecciones de vías respiratorias bajas), no se han realizado estudios a largo plazo sobre el seguimiento de los pacientes con FAAV.

El objetivo del presente estudio consistió en determinar los riesgos, inmediatos y posteriores, de fallecimiento, malos tratos infantiles o evolución neurológica adversa (definida como epilepsia crónica o retraso del desarrollo) después de un FAAV. Además, se trató de

^aUniversity Divisions of ^bPediatric Neurology, ^cPediatric Emergency Medicine, and ^dHospital Medicine, Department of Pediatrics, University of Utah School of Medicine, Salt Lake City, Utah, Estados Unidos.

Partes de este estudio se presentaron en la reunión de Pediatric Academic Societies/American Academy of Pediatrics, celebrada en mayo de 2007, así como en la Pediatric Hospital Medicine Conference en agosto de 2007, y en la Child Neurology Society Meeting en octubre de 2007.

Correspondencia: Joshua L. Bonkowsky, MD, PhD, University of Utah Health Sciences Center, Division of Pediatric Neurology, Department of Pediatrics, 295 Chipeta Way/Williams Building, Salt Lake City, UT 84108, Estados Unidos.

Correo electrónico: joshua.bonkowsky@hsc.utah.edu

descubrir cuáles eran las características que permitirían predecir estas evoluciones.

MÉTODOS

Diseño del estudio

Se revisaron las historias clínicas de todos los lactantes menores de 1 año que habían ingresado por un FAAV entre el 1/1/1999 y el 31/12/2003. El estudio tuvo lugar en un hospital infantil que sirve como único centro pediátrico de referencia para una población infantil estimada de > 1 millón de niños⁹, así como hospital de asistencia primaria infantil para un área urba-

na con > 270.000 niños¹⁰. El hospital está gestionado por un importante sistema sanitario sin ánimo de lucro, integrado verticalmente (Intermountain Healthcare). El estudio fue aprobado por Institutional Review Boards of the University of Utah y Utah Department of Human Services.

Se trató de identificar a todos los pacientes que se presentaron con un FAAV durante el mencionado plazo de 5 años. Dado que el FAAV no es un diagnóstico codificable, se buscaron las historias de niños menores de 12 meses mediante un cribado informatizado, a partir de tres fuentes: palabras clave con los diagnósticos principales del servicio de urgencias, y los códigos de *International Classification of Diseases, Ninth Revision, Clinical Modification* (ICD-9-CM) para la consulta con neurología pediátrica y los diagnósticos de salida del hospital. Las palabras clave y los diagnósticos fueron: FAAV, alteración del estado mental, apnea, crisis de apnea, ahogo, enfermedad por reflujo gastroesofágico (ERGE), hipotonía, somnolencia, otras convulsiones, otros diagnósticos neurológicos, otros diagnósticos respiratorios, palidez, convulsiones, apnea del sueño, rigidez, síncope y falta de respuestas (códigos ICD-9: 327.23, 530.81, 719.5, 770.81, 780.01, 780.09, 780.2, 780.39, 780.57, 780.79, 780.99, 781.3, 782.5, 782.61, 782.62, 784.9, 786.03, 933.1). Los diagnósticos de salida se obtuvieron a partir de los asignados por los médicos de plantilla o los residentes. Se identificó a 1.148 posibles pacientes; no se pudieron localizar 7 historias (fig. 1). Los autores revisaron las 1.141 historias para determinar si los pacientes cumplían los criterios de inclusión o exclusión (v. más adelante). Si un paciente ingresaba en más de 1 ocasión por un FAAV, sólo se incluía el primer ingreso en el análisis.

Se incluyó a los pacientes ≤ 12 meses de edad que presentaban una historia clínica de FAAV. Se definió éste como un episodio súbito con uno o más de los siguientes fenómenos que atemorizaron al cuidador: 1) irregularidad respiratoria (apnea, ahogo, atragantamiento); 2) cambio de coloración (cianosis y palidez); 3) alteración del tono muscular (hipotonía, hipertonia); 4) movimientos anormales (clonus), y 5) alteración del estado mental (falta de respuestas).

Se excluyó a los pacientes por dos clases de motivos. En primer lugar, si tenían antecedentes que pudieran explicar el FAAV (como un trastorno convulsivo). En segundo lugar, si en su presentación en el servicio de urgencias o al ingresar en el hospital existía un diagnóstico aparente que pudiera explicar el FAAV (como bronquiolitis). Los criterios de exclusión completos se enumeran en los datos suplementarios (tabla 4, publicada como información de apoyo en www.pediatrics.org/content/full/122/1/125) y se componen al menos de uno de los siguientes: trastorno pre-existente; bronquiolitis; inestabilidad de las constantes vitales; trastorno convulsivo; patología del SNC; tratamiento con un fármaco antiepileptico; convulsiones febris; dosis erróneas o sobredosis medicamentosas; traumatismos; malos tratos infantiles.

Recogida de datos

Los datos clínicos se resumieron a partir de las historias. Los datos resumidos en la base de datos informatizada de Intermountain Healthcare (Enterprise Data Warehouse-EDW) incluyeron: edad, costes y precios totales de la hospitalización, y duración de la estancia^{11,12}. El coste incurrido por el hospital se ajustó a dólares USA 2003; para ello se utilizó un índice anual de precios al consumo, que se aplicó a los servicios hospitalarios¹³.

Evoluciones

En todos los pacientes de la cohorte FAAV se controlaron las evoluciones de fallecimiento, malos tratos infantiles o evolución neurológica adversa. El período de seguimiento incluyó el inicial (1/1/1999 a 31/12/2003) y otros 2,5 años de seguimiento adicional (1/1/2004 a 31/8/2006).

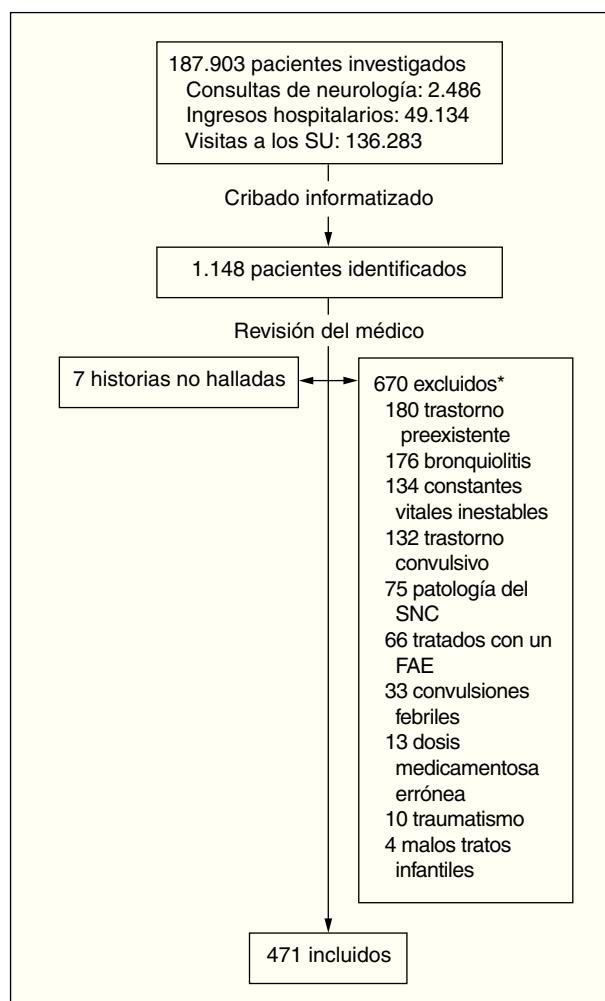


Fig. 1. Incorporación de los pacientes. Los potenciales pacientes con FAAV se identificaron a partir de una palabra clave informatizada y de la búsqueda mediante los códigos ICD-9 en las bases de datos de los diagnósticos en las consultas de neurología pediátrica, en los diagnósticos de salida del hospital y en los diagnósticos principales de salida del servicio de urgencias, correspondientes al período estudiado (v. Métodos, para obtener una lista de los diagnósticos y las palabras clave). Se identificaron 1.148 posibles pacientes de FAAV; en 7 de ellos no pudo hallarse la historia clínica, y se excluyó a 670 pacientes (v. los criterios de exclusión en Métodos). La cohorte final de FAAV estuvo compuesta por 471 pacientes. FAE: fármaco antiepileptico; SNC: sistema nervioso central; SU: servicio de urgencias. *Algunos pacientes excluidos presentaban más de 1 motivo para la exclusión.

Los *fallecimientos* se identificaron a través de EDW y de los registros estatales sanitarios de fallecimientos (Utah State vital records), al cruzar los datos de los pacientes mediante un número de identificación electrónica para cada caso.

Los *malos tratos infantiles* se identificaron a través de EDW y al cruzar los datos de la cohorte FAAV con los registros de Utah Division of Child and Family Services (DCFS), mediante el nombre y la fecha de nacimiento. Los malos tratos infantiles se definieron en el State of Utah DCFS como “un daño físico o mental, no accidental, real o amenazado, descuido en el tratamiento, explotación sexual o abusos sexuales”¹⁴. Todos los casos incluidos en el análisis se confirmaron mediante un proceso estandarizado y formal¹⁴.

La *evolución neurológica adversa* se definió como un retraso del desarrollo o una epilepsia crónica. El *retraso del desarrollo* se definió cuando el paciente había recibido este diagnóstico o los de encefalopatía estática o retraso del lenguaje, constatados en la historia clínica del servicio de neurología infantil del centro, y avalados por un neurólogo pediátrico. La *epilepsia crónica* se definió como cualquier trastorno convulsivo que persistiera durante más de dos años y requiriera un tratamiento continuado con un fármaco antiepileptico. Para determinar las evoluciones neurológicas adversas se valoraron las historias a partir de los registros informatizados de otros ingresos y diagnósticos hospitalarios (en el hospital infantil o en cualquier otro ingreso o visita al servicio de urgencias de los 20 hospitales del Intermountain Healthcare system), mediante revisión de las historias de neurología pediátrica y de los resultados de los electroencefalogramas (EEG). Una evolución positiva en la consulta de neurología pediátrica se definió por el desarrollo de epilepsia crónica, y por el inicio del tratamiento con un fármaco antiepileptico y/o el seguimiento en la clínica de neurología.

Análisis estadístico

Se utilizaron métodos estadísticos descriptivos para caracterizar la cohorte estudiada. Mediante análisis con variable única se compararon las variables predictivas con las variables dicotómicas en la evolución: fallecimiento, malos tratos infantiles o evolución neurológica adversa. En las variables predictivas de distribución no normal, como la edad, se empleó la prueba de la suma de rangos de Wilcoxon. Se utilizó la prueba de χ^2 para las variables predictivas dicotómicas (p. ej., antecedentes familiares de convulsiones) y para calcular las probabilidades relativas. Se calcularon la sensibilidad, especificidad, valor predictivo positivo (VPP), valor predictivo negativo (VPN) e intervalos de confianza del 95% binomiales, para cada prueba clínica (consulta con neurología, EEG, imágenes del SNC o inicio de un fármaco antiepileptico), frente a la evolución de epilepsia crónica. Para los análisis se utilizó el programa SAS (SAS Institute, Inc., Cary, NC), versión 9.1.3.

RESULTADOS

Características basales y seguimiento

En la figura 1 se muestra la identificación de la población estudiada. Entre un total de 187.903 pacientes, se

TABLA 1. Características demográficas, de hospitalización y de seguimiento, seleccionadas en los lactantes con un FAAV

Característica	Valor
Sexo, n (%)	
Masculino	233 (49)
Femenino	238 (51)
Edad, días	
Media	66
Mediana	40
Raza*, n (%)	
Blanca	372 (79)
Hispana	64 (14)
Islas del Pacífico	6 (1,3)
Negra	4 (0,9)
India norteamericana	3 (0,6)
Asiática	2 (0,4)
Desconocida	7 (1,4)
Prematuros (< 37 semanas), n (%)	105 (22)
Duración de la estancia (media), días	2,4
Coste de la hospitalización (media), dólares	3.460
Duración media del seguimiento, días (años)	1.851 (5,1)

El número total de pacientes fue 471.

*La distribución racial es compatible con la existente en la población de Utah²⁷.

identificó a 1.148 con un FAAV, 471 de los cuales reunían los criterios de inclusión.

En la tabla 1 se presentan las características demográficas de los 471 pacientes. El promedio de edad de presentación fue de 66 días (límites 1 día a 364 días). La duración media de la hospitalización fue de 2,4 días. El promedio de seguimiento de la cohorte estudiada fue de 5,1 años (límites 2,6 a 7,6 años). Los diagnósticos de salida se muestran en la tabla 5 (publicada como información de apoyo en www.pediatrics.org/content/full/122/1/125).

Evoluciones estudiadas

Los resultados acerca del fallecimiento, malos tratos infantiles y evolución neurológica adversa se resumen en la tabla 2.

Fallecieron dos pacientes. En ambos casos el desenlace guardó relación con problemas respiratorios crónicos e insuficiencia bulbar, asociados a su trastorno convulsivo subyacente y grave retraso del desarrollo. El fallecimiento ocurrió 18 meses y 5,5 años después de la hospitalización inicial por FAAV. Los diagnósticos de salida del FAAV fueron de “bronquiolitis” y “movimientos anormales”. Ninguno de los dos pacientes había iniciado un tratamiento antiepileptico en su presentación inicial por un FAAV. En nuestra cohorte

TABLA 2. Fallecimientos, malos tratos infantiles y evolución neurológica adversa en la cohorte FAAV

Evolución	Número (%)
Muerte	2 (0,42)
Malos tratos infantiles	54 (11)
Malos tratos físicos	4 (0,9)
Abusos sexuales	6 (1,3)
Malos tratos durante el año siguiente al FAAV	17 (3,6)
Problemas neurológicos crónicos	23 (4,9)
Epilepsia crónica	17 (3,6)
Retraso del desarrollo	14 (3)

FAAV: fenómenos con amenaza aparente para la vida.

El número total de pacientes fue de 471. Ocho pacientes presentaban simultáneamente epilepsia crónica y retraso del desarrollo.

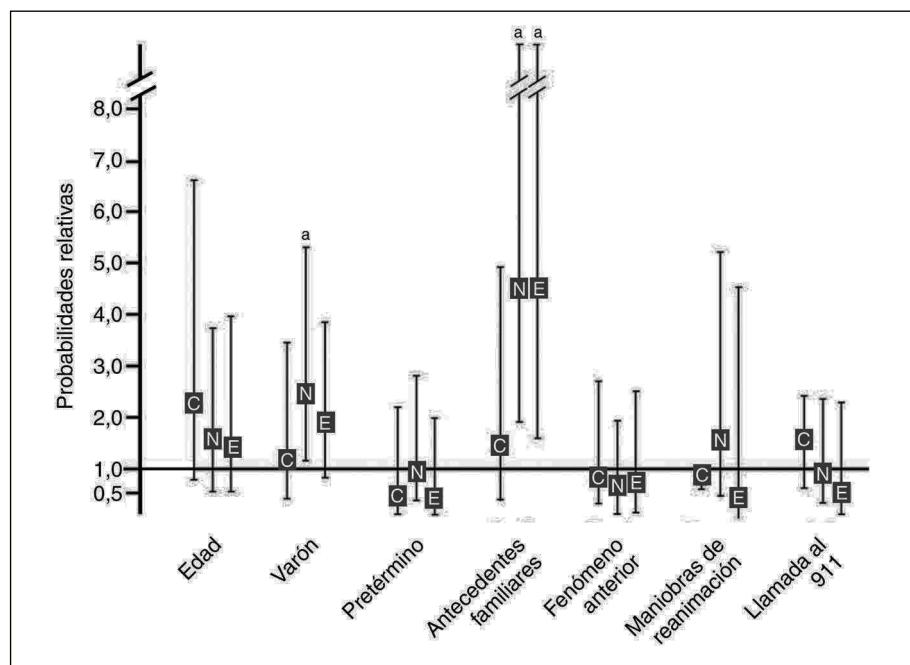


Fig. 2. Probabilidades relativas según las características clínicas para predecir los malos tratos infantiles, la evolución neurológica adversa o la epilepsia crónica. Se calcularon las probabilidades relativas para los lactantes que habían sufrido malos tratos infantiles en el plazo de 1 año tras el FAAV ("C"), para los lactantes con evolución neurológica adversa (retraso del desarrollo y/o epilepsia crónica) ("N") o con epilepsia crónica ("E"), en comparación con la cohorte FAAV no afectada. * $p < 0,001$. Se muestran los límites para los intervalos de confianza del 95%. "Llamada al 911" se refiere a los padres que llamaron a dicho número durante un FAAV. Véase la tabla 6, publicada como información de soporte en www.pediatrics.org/content/full/122/1/125, para obtener una lista completa de las probabilidades relativas, intervalos de confianza del 95% y valores de p .

de FAAV no hubo casos del síndrome de muerte súbita del lactante.

Posteriormente se halló que 54 (11%) de los 471 pacientes fueron víctimas de malos tratos infantiles, incluidos 4 (0,9%) pacientes con malos tratos físicos y 6 (1,3%) con abusos sexuales. Los 44 pacientes restantes sufrieron otros tipos de malos tratos: exposición a la violencia doméstica, poner en peligro al niño o vigilarlo inadecuadamente, malos tratos a un hermano, maltrato emocional y síndrome de Munchausen por poderes. En 17 (3,6%) pacientes se descubrieron malos tratos infantiles en el plazo de 1 año tras su hospitalización por FAAV. En 2 pacientes el diagnóstico de malos tratos físicos se realizó durante su primer ingreso.

Aparecieron problemas neurológicos adversos en 23 (4,9%) pacientes, incluidos 17 con epilepsia crónica y 14 con retraso del desarrollo (8 pacientes presentaban ambos problemas).

Factores clínicos predictivos de las evoluciones

En la figura 2 se presentan las asociaciones entre las características clínicas en el momento de la presentación

y los malos tratos infantiles, la evolución neurológica adversa o la epilepsia crónica.

En cuanto a los malos tratos infantiles en el plazo de 1 año después del FAAV, no hubo ninguna característica clínica predictiva. Los factores predictivos significativos en relación con la evolución neurológica adversa (retraso del desarrollo y/o epilepsia crónica) fueron los antecedentes familiares de convulsiones y el sexo masculino (OR 4,5 y 2,4; IC del 95% 1,9 a 11,1 y 1,1 a 5,3, respectivamente). El único factor predictivo significativo de la epilepsia crónica fue la historia familiar de convulsiones (OR 4,5, IC del 95% 1,6 a 12,2).

Valoración intrahospitalaria

Los hallazgos primarios y los resultados de la valoración neurológica de los pacientes hospitalizados en la cohorte de FAAV se muestran en la tabla 3.

De los 471 pacientes, en 137 (29%) se realizó una consulta neurológica; en 12 de ellos apareció luego una epilepsia crónica. El hecho de realizar una consulta neurológica presentó una sensibilidad del 71% (IC del 95% 44% a 90%) para predecir quiénes desarrollarían epilepsia.

TABLA 3. Rendimiento de la valoración neurológica intrahospitalaria en los pacientes con FAAV

	Número (%)	Sensibilidad, % (IC 95%)	Especificidad, % (IC 95%)	Valor predictivo positivo, % (IC 95%)	Valor predictivo negativo, % (IC 95%)
Consulta neurológica obtenida	137 (29)	71 (44-90)	73 (68-77)	8,8 (4,6-15)	99 (96-100)
Consulta neurológica positiva	52 (11)	42 (15-72)	62 (53-71)	9,6 (3,2-21)	92 (84-97)
EEG anormal (N = 156)	6	15 (2-45)	97 (93-99)	33 (4,3-77)	93 (87-96)
Imágenes del SNC anormales (N = 199)	5	6,7 (0,2-32)	98 (95-100)	25 (0,6-81)	93 (88-96)
Prescripción FAE	23 (4,9)	30 (10-56)	96 (94-98)	22 (7,5-44)	9,07 (95-99)

EEG: electroencefalograma; FAE: fármaco antiepiléptico; IC: intervalo de confianza; SNC: sistema nervioso central.
Sensibilidad, especificidad y valores predictivos positivo y negativo para los pacientes de la cohorte FAAV que desarrollaron epilepsia crónica ($n = 17$). La "consulta neurológica positiva" fue para la evolución de epilepsia crónica, y fue positiva si se prescribió un FAE y/o se programó un seguimiento en la clínica de neurología pediátrica.

TABLA 4. Criterios de exclusión

1.	Trastorno preexistente
a.	Trastorno genético o metabólico con afectación del SNC
b.	Cardiopatía
c.	Patología pulmonar que requería oxigenoterapia a domicilio
d.	Enfermedad por reflujo gastroesofágico conocida y sometida a tratamiento, con una historia clínica en la presentación compatible con vómito o reflujo
2.	Bronquiolitis o neumonía
a.	Tos y/o congestión en la presentación
b.	Radiografía de tórax anormal en la presentación
3.	Inestabilidad de las constantes vitales en el servicio de urgencias
a.	Hipoxia
b.	Bradicardia
c.	Hipotensión
d.	Insuficiencia respiratoria que requirió intubación
e.	Fiebre y 1 al menos de los siguientes: pleocitosis en el LCR, análisis de orina anormal, hemograma anormal
4.	Trastorno convulsivo
a.	Historia conocida de convulsiones
b.	Convulsión en el servicio de urgencias
c.	Historia de convulsiones convincente para el médico del servicio de urgencias y edad superior a 6 meses
5.	Patología del SNC
a.	Historia conocida de patología intracraneal o del SNC
b.	Paciente portador de una derivación ventrículo-peritoneal o ventrículo-auricular
c.	Hidrocefalia
d.	Anomalías estructurales del cerebro
6.	Tratamiento anterior con fármacos antiepilepticos
a.	Incluidas las benzodiacepinas administradas antes del ingreso en el hospital, ya sea en el servicio de urgencias, ya por paramédicos
7.	Convulsiones febriles (asociadas con fiebre en un paciente mayor de 6 meses)
8.	Errores medicamentosos
a.	Ingestión conocida
b.	Sobredosis medicamentosa
9.	Traumatismo
10.	Malos tratos infantiles conocidos
a.	Estudios de imágenes en el momento del ingreso compatibles con malos tratos infantiles

SNC: sistema nervioso central

sia crónica; sin embargo, el valor predictivo positivo (VPP) fue bajo (8,8%; IC del 95% 4,6% a 15%). El resultado de la consulta neurológica presentó menos sensibilidad y especificidad que el hecho de solicitarla.

Se practicó un EEG a 156 (33%) pacientes, con resultado anormal en 6 (1,3%). Dos de los pacientes con EEG desarrollaron epilepsia crónica, pero en 11 de los casos con epilepsia crónica el EEG era normal. El EEG tuvo una sensibilidad del 15% y un VPP de 33% (IC del 95% 2% a 45% y 4,3% a 48%, respectivamente).

Los estudios de imágenes del SNC, como TC craneal, RMN cerebral y ecografía craneal, se realizaron en 199 (42%) pacientes. Las imágenes del SNC fueron anormales en 4 casos, incluidos 2 pacientes en quienes se diagnosticaron malos tratos infantiles (traumatismo no accidental) y 1 paciente que desarrolló epilepsia crónica. La sensibilidad y el VPP de las imágenes anormales del SNC para predecir la epilepsia crónica fueron de 6,7% y 25% (IC del 95% 0,2% a 32% y 0,6% a 81%, respectivamente).

No hubo ningún caso en que la RMN revelara una anomalía previamente no detectada. Aunque la RMN puso en claro la patología subyacente del SNC en algunos pacientes (p. ej., displasia cortical), no añadió sensibilidad alguna (en comparación con la TC) para detectar nueva patología.

En 23 (4,9%) pacientes se inició tratamiento con un fármaco antiepileptico; 5 de ellos desarrollaron epilepsia

crónica. La prescripción de un fármaco antiepileptico con ocasión del primer FAAV tuvo unos valores bajos de sensibilidad (30%) y VPP (22%) para predecir el desarrollo de epilepsia crónica (IC del 95% 10% a 56% y 7,5% a 44%, respectivamente). De los pacientes que desarrollaron epilepsia crónica, en 5 se inició la administración de un fármaco antiepileptico durante su primera hospitalización. En conjunto, el 71% se diagnosticó en el plazo de 1 mes tras su primera presentación, al acudir por un segundo FAAV, y se inició entonces el tratamiento con un fármaco antiepileptico (datos no publicados).

DISCUSIÓN

En el presente estudio se obtuvieron cuatro hallazgos principales. En primer lugar, de los pacientes con FAAV cuyo aspecto era normal, 1 de cada 9 sufrió posteriormente malos tratos infantiles, y 1 de cada 20 presentó una evolución neurológica adversa. Segundo, la valoración neurológica intrahospitalaria tuvo escaso valor para predecir la evolución neurológica adversa. En tercer lugar, la mayoría de los pacientes que desarrollaron epilepsia crónica se presentaron de nuevo en el plazo de 1 mes tras el FAAV inicial. Finalmente, la presencia de un FAAV no fue un factor de riesgo para el SMSL. Hasta donde alcanzan nuestros conocimientos, el presente estudio abarca la cohorte más numerosa con FAAV cuya evolución se haya controlado durante más tiempo desde el alta hospitalaria.

En nuestro estudio, el 11% de los pacientes sufrió luego malos tratos infantiles, incluido un 0,9% con malos tratos físicos. El riesgo de malos tratos físicos es notablemente superior a las tasas basales publicadas¹⁵ (0,02%), y es similar al hallado en otras publicaciones sobre los FAAV^{4,16}. De modo similar, las tasas de evolución neurológica adversa, incluidas las de epilepsia crónica y retraso del desarrollo, son significativamente más elevadas que las basales que se han descrito^{17,18}. Otros estudios sobre FAAV han mostrado unas tasas igualmente altas de evolución neurológica adversa¹⁹⁻²².

TABLA 5. Diagnósticos de salida en los pacientes con FAAV (n = 471)

Diagnóstico	Número (%)
Reflujo gastroesofágico	190 (40)
Apnea	79 (17)
FAAV	42 (8,9)
Bronquiolitis	28 (5,9)
Convulsión	28 (5,9)
Cianosis	20 (4,3)
Espasmo respiratorio	14 (3)
Convulsión	14 (3)
Ahogo	7 (1,5)
Infección ^a	6 (1,3)
Respiración periódica	5 (1,1)
Movimientos anormales	4 (0,85)
Hipocalcemia	4 (0,85)
Sin enumerar	4 (0,85)
Todas las demás categorías ^b (cada una < 0,85%)	26 (5,5)

FAAV: fenómenos con amenaza aparente para la vida.

^aIncluye 1 caso de cada una de las siguientes: meningitis bacteriana, tosferina, sepsis, infección del tracto urinario, virus sincitial respiratorio e infección viral.

^bIncluye ≤ 3 casos de: hemorragia de los ganglios basales, torticolis benigno del lactante, espasmo respiratorio, arritmia cardíaca, disnea, crisis de hipotonía, hipoxia, somnolencia, malestar general, reacción medicamentosa, mioclonias, movimientos neonatales normales, traumatismo no accidental, estenosis pilórica, problemas respiratorios, mioclonia del sueño y síncope.

TABLA 6. Probabilidades relativas, intervalos de confianza del 95% y valores de p para las características clínicas predictivas de los malos tratos infantiles, la evolución neurológica adversa o la epilepsia crónica

Característica clínica	Malos tratos infantiles		Evolución neurológica adversa		Epilepsia crónica	
	OR (IC 95%)	p	OR (IC 95%)	p	OR (IC 95%)	p
Edad	2,3 (0,77-6,6)	0,20	1,6 (0,67-3,7)	0,39	1,4 (0,54-3,9)	0,63
Sexo masculino	1,2 (0,46-3,4)	0,80	2,4 (1,1-5,3)	0,0047	1,8 (0,84-3,7)	0,085
Pretermínio	0,49 (0,11-2,2)	0,54	0,97 (0,35-2,7)	1,0	0,45 (0,10-2,0)	0,38
Antecedentes familiares	1,4 (0,38-4,9)	0,71	4,5 (1,9-11,1)	0,0018	4,5 (1,6-12)	0,0060
Fenómeno anterior	0,86 (0,27-2,7)	1,0	0,71 (0,26-1,9)	0,64	0,79 (0,25-2,5)	0,79
Maniobras de reanimación	0,90 (0,88-0,93)	0,38	1,5 (0,42-5,2)	0,47	0,59 (0,077-4,6)	> 0,99
Llamada al 911	1,4 (0,48-4,2)	0,56	0,85 (0,31-2,3)	1,0	0,65 (0,18-2,3)	0,77

IC: intervalo de confianza; OR: probabilidad relativa.

Se calcularon las probabilidades relativas para los lactantes que habían sufrido malos tratos infantiles en el plazo de 1 año tras el FAAV, así como para los lactantes con evolución neurológica adversa (retraso del desarrollo y/o epilepsia crónica) o epilepsia crónica, en comparación con la cohorte FAAV no afectada. Las OR se calcularon por comparación entre el grupo afectado y los restantes pacientes de la cohorte no afectados. Las OR para la edad se calcularon por comparación entre las medianas de edades del grupo afectado y las de toda la cohorte FAAV (menos los pacientes afectados). "Antecedentes familiares" indica una historia familiar de convulsiones. "Llamada al 911" indica que los padres telefonearon a dicho número al ocurrir el FAAV.

Estas elevadas tasas de malos tratos infantiles y evolución neurológica adversa ocurrieron en nuestro estudio a pesar de haber excluido a los pacientes con un diagnóstico explicativo previo (como un trastorno convulsivo conocido) y a los pacientes con un diagnóstico aparente en el momento de la presentación (sepsis, anomalías electrolíticas, pacientes inestables). En estos casos, el problema diagnóstico es mínimo y su tratamiento viene impuesto por los antecedentes o los hallazgos clínicos obvios. En vez de ello, nuestra cohorte estaba compuesta por lactantes con buen estado general y sin anomalías clínicas aparentes en el momento de su presentación. El estudio demuestra que existen riesgos significativos a corto y largo plazo para estos pacientes con buen aspecto.

El enfoque óptimo sobre la conducta a seguir en relación con los malos tratos infantiles en los pacientes hospitalizados con un FAAV requiere nuevas investigaciones. Aunque no pudimos determinar una relación causal entre un FAAV y los malos tratos infantiles, los datos sugieren que los pacientes que sufren un FAAV se hallan "en riesgo". La práctica de TC, examen de fondo de ojo o el empleo de un "equipo de protección infantil" hospitalario ofrecen unas posibles opciones para los pacientes con FAAV^{4,23-24}.

La valoración neurológica intrahospitalaria de los pacientes con FAAV tiene una baja sensibilidad y ofrece escaso rendimiento en el momento de la presentación inicial. El único factor clínico predictivo de la evolución neurológica adversa y de la epilepsia crónica fue la historia familiar de convulsiones. Sin embargo, la asociación entre el hecho de realizar una consulta neurológica y el desarrollo subsiguiente de epilepsia crónica sugiere que existen factores clínicos sutiles, que llevan a la solicitud de consulta. Como hecho de interés, las recomendaciones de consulta tuvieron unas cifras bajas de sensibilidad y valor predictivo para la probabilidad de desarrollar epilepsia crónica. Dado que la mayoría de los pacientes con FAAV que desarrollan epilepsia crónica presentan un segundo FAAV en el plazo de 1 mes tras el fenómeno inicial, el posponer el inicio de un fármaco antiepiléptico evitaría las potenciales morbilidades asociadas con la exposición innecesaria a estas medicaciones.

El fallecimiento fue una evolución infrecuente en la cohorte FAAV y sólo se produjo en pacientes que desarrollaron epilepsia crónica y encefalopatía estática. No

hubo ningún caso de SMSL, en concordancia con otros estudios recientes a este respecto^{3,25,26}.

Los puntos fuertes del presente estudio son el gran tamaño de la cohorte y el seguimiento prolongado (más de 5 años). Además, pudimos seguir globalmente e identificar a los pacientes en busca de otras evoluciones posteriores, debido a que una mayoría significativa de pacientes de Utah reciben asistencia en el mismo sistema sanitario, que mantiene archivos (lo que incluye ingresos, visitas a los servicios de urgencias, visitas clínicas a neurología pediátrica y resultados de EEG y radiológicos) en un formato de registro electrónico para sus 20 hospitales. Además, el centro donde se realizó el estudio es el único hospital infantil de nivel terciario en Utah y recibe pacientes remitidos desde Wyoming, Idaho, Montana y algunas zonas de Nevada, Colorado y Arizona. También se pudo seguir a los pacientes a través de las remisiones a la clínica de neurología pediátrica (existe tan sólo otra clínica de neurología pediátrica en Utah). Finalmente, se pudo relacionar nuestra cohorte con las bases de datos del departamento de sanidad estatal de Utah, para valorar las evoluciones de fallecimiento y malos tratos infantiles.

Nuestro estudio presenta también varias limitaciones. En primer lugar, los datos se recogieron retrospectivamente. Segundo, debido a que FAAV no constituye un diagnóstico codificable, se utilizaron palabras clave y diagnósticos afines para identificar a los pacientes, lo que puede dejar casos sin descubrir. En tercer lugar, el seguimiento se limitó a los pacientes que se presentaron de nuevo al mismo sistema sanitario o a la clínica de neurología pediátrica. Es posible que se perdieran pacientes para el seguimiento si se trasladaron a otro Estado o acudieron a otro sistema sanitario. Cuarto, fue difícil generar un grupo de control significativo para comparar las evoluciones (como la de malos tratos infantiles), dados los estrictos criterios de inclusión para la cohorte FAAV.

CONCLUSIONES

En resumen, hallamos que los pacientes con FAAV presentan un mayor riesgo de sufrir malos tratos infantiles y evolución neurológica adversa, pero el riesgo de fallecimiento es mínimo, y sólo está relacionado con el desarrollo de epilepsia crónica y grave retraso del desarrollo. Nuestro estudio sugiere que para el tratamiento

de los FAAV hay que mantener un elevado índice de sospecha por la posibilidad de malos tratos infantiles, y considerar la realización de pruebas de cribado a este respecto. La valoración neurológica de los pacientes hospitalizados por un primer FAAV, incluida la consulta con neurología pediátrica, así como el EEG y los estudios de imágenes del SNC, presentan un bajo rendimiento. Recomendamos una estrecha comunicación con el proveedor de asistencia primaria con respecto a los riesgos de malos tratos infantiles o evolución neurológica adversa.

AGRADECIMIENTOS

Los doctores Guenther y Srivastava percibieron las becas NIH K23 HD43145 y K23 HD052553, de National Institutes of Child Health and Human Development. La investigación fue subvencionada parcialmente por Children's Health Research Center, University of Utah.

Estamos en deuda con N. Forsythe y el Utah Department of Human Services por su colaboración para recoger los datos sobre malos tratos infantiles; con P. Gesteland, por su ayuda en la búsqueda en las bases de datos; con C. Newberry, por su colaboración en el análisis de las historias, y con H. Cornelli, M. Dean, R. Holubkov y P. Young, por su revisión crítica del trabajo.

BIBLIOGRAFÍA

- National Institutes of Health Consensus Development Conference on Infantile Apnea and Home Monitoring, Sept 29 to Oct 1, 1986. *Pediatrics*. 1987;79(2):292-9.
- McGovern MC, Smith MB. Causes of apparent life threatening events in infants: a systematic review. *Arch Dis Child*. 2004;89(11):1043-8.
- Mitchell EA, Thompson JM. Parental reported apnoea, admissions to hospital and sudden infant death syndrome. *Acta Paediatr*. 2001;90(4):417-22.
- Pitetti RD, Maffei F, Chang K, Hickey R, Berger R, Pierce MC. Prevalence of retinal hemorrhages and child abuse in children who present with an apparent life-threatening event. *Pediatrics*. 2002;110(3):557-62.
- Dewolfe CC. Apparent life-threatening event: a review. *Pediatr Clin North Am*. 2005;52(4):1127-46.
- Brand DA, Altman RL, Purtill K, Edwards KS. Yield of diagnostic testing in infants who have had an apparent lifethreatening event [revisión en *Pediatrics*. 2005;116(3): 802-803]. *Pediatrics*. 2005;115(4):885-93.
- Kahn A. Recommended clinical evaluation of infants with an apparent life-threatening event: consensus document of the European Society for the Study and Prevention of Infant Death, 2003. *Eur J Pediatr*. 2004;163(2):108-15.
- Claudius I, Keens T. Do all infants with apparent lifethreatening events need to be admitted [revisión en *Pediatrics*. 2007;119(6):1270]? *Pediatrics*. 2007;119(4):679-83.
- Norlin C, Osborn LM. Organizational responses to managed care: issues for academic health centers and implications for pediatric programs. *Pediatrics*. 1998;101(4 pt 2):805-11.
- Governor's Office of Planning and Budget. Age distribution in Utah [consultado 27/9/2007]. Disponible en: <http://governor.utah.gov/dea/Publications/05%20Census%20Briefs/2%20Age%20Distribution.pdf>
- Classen DC, Pestotnik SL, Evans RS, Lloyd JF, Burke JP. Adverse drug events in hospitalized patients: excess length of stay, extra costs, and attributable mortality. *JAMA*. 1997;277(4): 301-6.
- Harbarth S, Burke JP, Lloyd JF, Evans RS, Pestotnik SL, Samore MH. Clinical and economic outcomes of conventional amphotericin B-associated nephrotoxicity. *Clin Infect Dis*. 2002;35(12):e120-7.
- Drummond M, Stoddart G, Labelle R, Cushman R. Health economics: an introduction for clinicians. *Ann Intern Med*. 1987;107(1):88-92.
- Utah Department of Human Services. DCFS Practice Guidelines [consultado 27/9/2006]. Disponible en: www.hspolicy.utah.gov/dcfs
- Barlow KM, Minns RA. Annual incidence of shaken impact syndrome in young children. *Lancet*. 2000;356(9241): 1571-2.
- Altman RL, Brand DA, Forman S, et al. Abusive head injury as a cause of apparent life-threatening events in infancy. *Arch Pediatr Adolesc Med*. 2003;157(10):1011-5.
- Camfield CS, Camfield PR, Gordon K, Wirrell E, Dooley JM. Incidence of epilepsy in childhood and adolescence: a population-based study in Nova Scotia from 1977 to 1985. *Epilepsia*. 1996;37(1):19-23.
- Aicardi J. The etiology of developmental delay. *Semin Pediatr Neurol*. 1998;5(1):15-20.
- Okada K, Miyako M, Honma S, Wakabayashi Y, Sugihara S, Osawa M. Discharge diagnoses in infants with apparent lifethreatening event. *Pediatr Int*. 2003;45(5):560-3.
- Gray C, Davies F, Molyneux E. Apparent life-threatening events presenting to a pediatric emergency department. *Pediatr Emerg Care*. 1999;15(3):195-9.
- Davies F, Gupta R. Apparent life threatening events in infants presenting to an emergency department. *Emerg Med J*. 2002;19(1):11-6.
- Samuels MP, Poets CF, Noyes JP, Hartmann H, Hewertson J, Southall DP. Diagnosis and management after life threatening events in infants and young children who received cardiopulmonary resuscitation. *BMJ*. 1993;306(6876):489-92.
- Tien I, Bauchner H, Reece RM. What is the system of care for abused and neglected children in children's institutions? *Pediatrics*. 2002;110(6):1226-31.
- Campbell KA, Berger RP, Ettaro L, Roberts MS. Cost-effectiveness of head computed tomography in infants with possible inflicted traumatic brain injury. *Pediatrics*. 2007; 120(2):295-304.
- Kiechl-Kohlendorfer U, Hof D, Peglow UP, Traweger-Ravanelli B, Kiechl S. Epidemiology of apparent life threatening events. *Arch Dis Child*. 2005;90(3):297-300.
- Alm B, Norvenius SG, Wennergren G, et al. Changes in the epidemiology of sudden infant death syndrome in Sweden 1973-1996. *Arch Dis Child*. 2001;84(1):24-30.
- US Census Bureau. Census 2000 data for the state of Utah [consultado 15/10/2007]. Disponible en: www.census.gov/census2000/states/ut.html