

Invaginación intestinal en un lactante con diagnóstico de botulismo. Reporte de un caso

Intussusception in infant with diagnostic botulism. A case report

Dra. Roxana G. Spini^a, Dra. Verónica Ferraris^a, Dra. María P. Glasman^a, Dra. Guillermina Orofino^a,
Dra. Alejandra Casanovas^b y Dr. Gustavo Debaisi^c

RESUMEN

El botulismo es un importante problema de salud pública en Argentina. Es una enfermedad potencialmente letal y de difícil diagnóstico. Existen casos de presentación infrecuente de dicha enfermedad, como el abdomen agudo.

Exponemos el caso de un niño de 4 meses, que consultó por constipación de 3 días de evolución, asociada a decaimiento y regular actitud alimentaria de 12 horas de evolución. Presentaba tono muscular conservado, sin alteraciones en la succión ni deglución, según la referencia materna. Se constató sensorio alternante y abdomen agudo, por lo que ingresó a quirófano con sospecha de invaginación intestinal, la cual fue confirmada mediante desinvaginación neumática. Durante la internación, el paciente evolucionó desfavorablemente y presentó llanto débil, hipotonía progresiva e insuficiencia respiratoria, por lo que requirió cuidados intensivos. Se aisló *Clostridium botulinum* en la muestra de materia fecal y toxina botulínica tipo A en el suero. Recibió toxina antibotulínica equina como tratamiento, con recuperación total a los 25 días de haber ingresado.

Palabras clave: botulismo, hipotonía muscular, *Clostridium botulinum*, invaginación.

ABSTRACT

Botulism is an important public health problem in Argentina. It is a potentially fatal disease, and its diagnosis may be difficult. There are rare presentation forms of the disease, such as acute abdomen.

We present a 4-month baby with a 3-day constipation condition, associated with weakness and abnormal eating attitude in the last 12 hours. The baby presented preserved muscle tone, with no changes in sucking or deglutition according to the mother's

observations. Altered sensorium and acute abdomen were found; the patient was entered into the operating room with presumptive diagnosis of intussusception, which was confirmed by pneumatic desinvagination. During hospitalization, the patient did not make good progress and presented weak cry, progressive hypotonia and respiratory failure requiring intensive care. *Clostridium botulinum* was isolated from the stool sample and botulinum toxin type A was isolated from serum. The patient was treated with equine botulinum toxin. Twenty five days after admission, he was totally recovered.

Key words: botulism, muscle hypotonia, *Clostridium botulinum*, intestinal invagination.

<http://dx.doi.org/10.5546/aap.2015.e286>

INTRODUCCIÓN

El botulismo es una enfermedad paralizante debida a neurotoxinas secretadas por *Clostridium botulinum*. Existen siete toxinas designadas desde la letra A hasta la G, de las cuales los tipos A, B, E y F provocan la mayoría de los casos en el hombre.¹⁻³ También se han identificado casos producidos por otras especies, como *C. baratii* y *C. butyricum* (productores de neurotoxina F y E).⁴ Existen formas fisiopatogénicas, según el mecanismo de infección: alimentaria, de heridas, del lactante, toxemia intestinal en el niño mayor y adulto, inhalatoria e iatrogénica; el botulismo del lactante es la más frecuente.^{2,4-7}

Si bien la tríada de orientación diagnóstica de esta enfermedad es constipación, hipotonía y reflejo fotomotor lento, existen cuadros clínicos de presentación infrecuente, como el abdomen agudo.

Exponemos el caso de un niño de 4 meses, previamente sano, con un cuadro clínico de abdomen agudo como forma de presentación de botulismo del lactante.

CASO CLÍNICO

Paciente de 4 meses y medio, previamente sano, que consultó al servicio de guardia por mala actitud alimentaria y decaimiento de 12 horas de evolución. Al momento del ingreso, se constató sensorio alternante y abdomen distendido y doloroso, con antecedente de constipación de tres

a. Residencia de Clínica Pediátrica.

b. Residencia de Hematología Pediátrica.

c. Unidad de Cuidados Intensivos.

Hospital General de Niños Pedro de Elizalde.
Ciudad Autónoma de Buenos Aires.

Correspondencia:

Dra. Roxana Gabriela Spini: roxanaspini@intramed.net

Financiamiento: Ninguno.

Conflicto de intereses: Ninguno que declarar.

Recibido: 11-2-2015

Aceptado: 13-5-2015

días de evolución, afebril. El lactante convivía con ambos padres en una casa en construcción, precaria y no contaban con agua potable. Se alimentaba con lactancia materna exclusiva y los padres negaron haberle dado miel en el chupete u otro tipo de infusiones. No consultaron previamente a ninguna institución. Se realizaron análisis de laboratorio: $8000/\text{mm}^3$ leucocitos (60% de linfocitos), 9 g/dl de hemoglobina, 32% de hematocrito, $364\,000/\text{mm}^3$ plaquetas. Quick 100%; KPPT 32 segundos y medio interno dentro de los parámetros normales; radiografía de tórax (normal) y de abdomen de pie (Figura 1) sin aire distal. La ecografía abdominal mostró un intestino distendido, peristaltismo presente y una imagen en flanco izquierdo que podría corresponder a invaginación intestinal. El paciente ingresó a quirófano con sospecha de invaginación intestinal, la cual fue confirmada mediante desinvaginación neumática, con buena tolerancia al procedimiento. Se internó para la evaluación clínica del período posquirúrgico.

A las 48 horas de haber ingresado, el paciente persistía con alteración de sensorio, se encontraba

hiporreactivo, con llanto débil e hipotonía aguda. Al momento del examen físico, presentaba respiración superficial, ausencia de reflejos tusígeno y nauseoso, y parálisis flácida con predominio en los miembros superiores. Con diagnóstico presuntivo de botulismo, se decidió su pase a cuidados intensivos, donde se realizó una intubación endotraqueal y recibió asistencia respiratoria mecánica (ARM) por insuficiencia respiratoria.

Se realizó una tomografía de alta resolución de cerebro, sin evidencias de imágenes patológicas, por lo que se descartó una patología neurológica estructural. Se descartó también un proceso infeccioso del sistema nervioso central mediante una punción lumbar (normal), reacción en cadena de la polimerasa (*polymerase chain reaction* –PCR, por sus siglas en inglés–) para herpes y enterovirus en líquido cefalorraquídeo (negativos). Se realizó una búsqueda de tóxicos en la orina (negativos) y se derivaron al Hospital Malbrán muestras de suero para la búsqueda de la toxina botulínica (positiva, toxina tipo A). Se investigó la presencia en la materia fecal de poliovirus (negativo) y de *Clostridium botulinum* (positivo). Se realizó un electromiograma del nervio cubital, en el que se constató una disminución de la amplitud compatible con compromiso presináptico de placa, signo característico de botulismo.

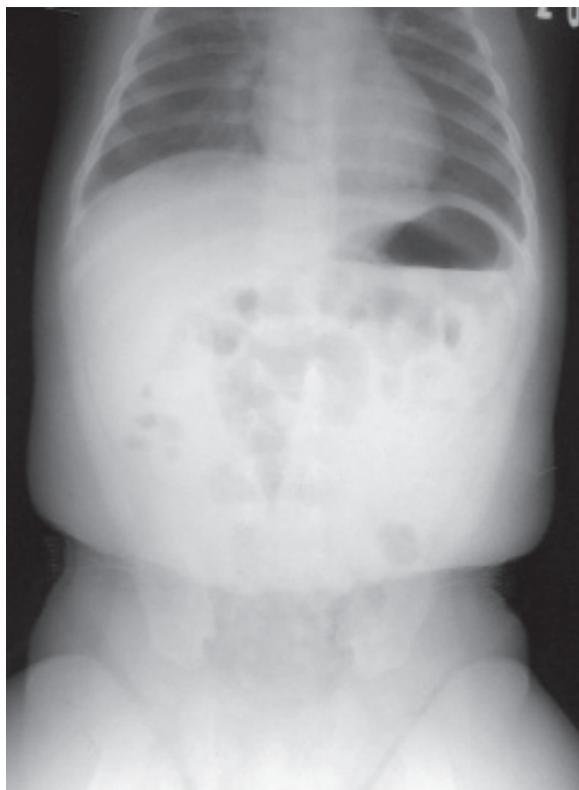
El paciente recibió la toxina antibotulínica equina de 500 u/kg endovenosa, sin complicaciones. Se realizaron enemas evacuantes para fomentar la eliminación de la toxina y esporas del intestino colonizado.

Al sexto día pospasaje de la antitoxina, el paciente presentó mejoría clínica, y se constataron movimientos oculares espontáneos, recuperación de los reflejos y, por último, movilidad activa de los miembros superiores. Permaneció con ARM 12 días, luego con ventilación no invasiva 5 días y se recuperó totalmente a los 25 días de haber ingresado. Se otorgó el alta hospitalaria con seguimiento ambulatorio por estimulación temprana, kinesioterapia motora y toxicología. Se dieron medidas medioambientales a la familia para evitar nuevos casos.

DISCUSIÓN

El botulismo es un problema de salud pública en Argentina (el segundo país de mayor incidencia luego de EE. UU.), donde ha sido reconocido en el año 1922.^{1,4,5} En nuestro país, entre 1982 y 2011, han sido notificados 659 casos de botulismo del lactante. Esta forma clínica

FIGURA 1. Radiografía de abdomen de pie: sin aire distal



afecta principalmente a menores de 1 año, y el 90% de los casos se presenta en los menores de 6 meses.⁸⁻¹⁰

El principal reservorio de *Clostridium botulinum* es el suelo, aunque se considera que la fuente de esporas puede ser multifactorial: polvo ambiental, alimentos contaminados, miel y algunas hierbas medicinales.^{1,4-6} Existen casos en los que no ha podido establecerse la fuente.⁸

Se considera factor de riesgo para el botulismo infantil el hábitat en zonas rurales o cercanas a lugares de construcción, ya que estas circunstancias ambientales aumentarían el riesgo de ingesta de esporas.^{6,8} Se han investigado factores del huésped que podrían influir en la vulnerabilidad del intestino infantil a la infección por *Clostridium botulinum*: los niños que reciben lactancia materna en comparación con los que no la reciben podrían tener mayor riesgo de ser colonizados debido al menor pH que tienen en la luz intestinal, pero a la vez, estos tienen mayor inmunidad de barrera, por lo que presentan una enfermedad más leve.⁸ Además, la inmadurez de la microbiota intestinal predisponente a esa edad y cambios en la motilidad intestinal (como estreñimiento, antecedente de cirugía intestinal) crean una condición favorable para la germinación de las esporas y, como consecuencia, la producción de toxina.⁶

Se estima que las esporas de *Clostridium botulinum* ingeridas en los lactantes llegan al intestino grueso y, en condiciones de anaerobiosis, son capaces de germinar, reproducirse y producir toxinas.^{6,8} Se planteó también la hipótesis de que la producción de toxina en el ciego podría paralizar inicialmente la válvula ileocecal y permitir el reflujo de la toxina en el intestino delgado, donde la absorción es más eficiente.⁶ Si analizamos en detalle la fisiopatología, nuestro paciente no solo presentaba factores de riesgo ambientales, sino que también presentaba todos los factores de riesgo del huésped. La parálisis de la válvula ileocecal puede haber favorecido la inflamación de las placas de Peyer y haber provocado, de esta forma, la invaginación ileocecal, lo que generó un círculo vicioso entre el estreñimiento, la parálisis de la válvula, la cirugía abdominal y la absorción de toxinas, y fomentó así la germinación de las esporas.⁸

Todas las formas de botulismo manifiestan el mismo síndrome clínico de parálisis simétrica de nervios craneales seguido de parálisis flácida simétrica descendente de los músculos voluntarios, que puede progresar con compromiso respiratorio y muerte, en ausencia de fiebre.^{1,4,6,9,10} No

obstante, se han observado casos de distensión abdominal y abdomen agudo como forma inicial infrecuente de la enfermedad.^{9,11,12}

En una revisión de 4 casos de botulismo de lactantes en menores de 6 meses, se manifestaron con hipotonía, rechazo al alimento, letargo y estreñimiento, excepto uno de ellos, que presentaba deposiciones normales. Los padres de dos eran jardineros. El diagnóstico inicial fue botulismo para dos de ellos, sepsis para el tercero e invaginación para el último caso. Tres requirieron intubación y ventilación mecánica, y todos recibieron el tratamiento antitoxina, con excelente recuperación.¹¹

Fenicia et al., reportaron dos casos de pacientes jóvenes (9 y 19 años) con abdomen agudo como forma de presentación de infección botulínica. Ambos pacientes, con diagnóstico inicial de apendicitis, fueron intervenidos y se encontró como hallazgo en los dos casos un divertículo de Meckel. Durante la evolución posquirúrgica, se observó parálisis de los músculos faciales y de los miembros superiores en uno de los casos y alteración del sensorio con estado comatoso en el otro, y los dos requirieron cuidados intensivos. En ambos casos, se aisló *Clostridium butyricum*, productor de toxina E.¹²

El diagnóstico de botulismo infantil se realiza evidenciando el *Clostridium botulinum* y su toxina en heces; en suero, solo es posible detectar la toxina.^{4,6,10} El electromiograma ayuda y apoya el diagnóstico y no se descarta en caso de normalidad.^{2,4,10} Es necesario considerar el botulismo infantil entre los diagnósticos diferenciales de los niños con parálisis flácida.⁶

El tratamiento con suero antitoxina equina heteróloga (única disponible en Argentina) se basa en neutralizarla y debería ser instaurado ante todo paciente grave con la confirmación clínica de laboratorio.⁵ La dosis indicada en lactantes es 500 UI/kg de antitoxina A.

Nuestra paciente presentó invaginación intestinal en el contexto de un cuadro de botulismo infantil, y se manifestó el abdomen agudo como principal diagnóstico. Si bien son dos entidades diferentes, podrían estar relacionadas. Los datos presentes en la literatura son aún escasos e insuficientes para llevar a conclusiones definitivas, por lo que merecen ser evaluados adecuadamente en estudios futuros. ■

REFERENCIAS

1. Tornese M, Rossi ML, Coca F, Cricelli C, et al. Epidemiología y factores de riesgo asociados al botulismo de los alimentos y al botulismo infantil: ¿Dónde y cuándo? *Rev Chil Infectol* 2008;25(1):22-7.

2. Arriagada D, Wilhelm J, Donoso A. Botulismo infantil. Comunicación de un caso clínico y revisión de la literatura. *Rev Chil Infectol* 2009;26(2):162-7.
3. Sagua MD, Lúquez C, Barzola CP, Bianco MI, et al. Caracterización fenotípica de cepas de Clostridium botulinum aisladas de casos de botulismo del lactante en Argentina. *Rev Argent Microbiol* 2009;41(3):141-7.
4. Vanella de Cuetos E y Piovano M. Botulismo [Curso virtual]. Programa de educación a distancia E.C.Cri. Módulo Infecciones. Sociedad Argentina de Pediatría. Comité de Emergencias y Cuidados Críticos; 2012.
5. Argentina. Ministerio de Salud. Programa Nacional de Prevención y Control de las Intoxicaciones. Guía de prevención, diagnóstico, tratamiento y vigilancia epidemiológica del botulismo del lactante. Buenos Aires: Ministerio de Salud; 2012.
6. Fenicia L, Anniballi F. Infant botulism. *Ann Ist Super Sanita* 2009;45(2):134-46.
7. Schwartz KL, Austin JW, Science M. Constipation and poor feeding in an infant with botulism. *CMAJ* 2012;184(17):1919-22.
8. Pocheville I. Botulismo. En Asociación Española de Pediatría, ed. *Protocolos diagnósticos y terapéuticos en pediatría. Tomo 2: Infectología*. Madrid: AEP; 2001:23-8.
9. Pisanti R, Vitiello R, Formicola S, Pisanti A. Infant botulism mimicking an acute abdomen. *Infez Med* 2009;17(4):254-6.
10. Abdulla CD, Ayubi A, Zulfiquer F, Santhanam G, et al. Infant botulism following honey ingestion. *BMJ Case Rep* 2012;2012. pii: bcr1120115153.
11. Clemmens MR, Bell L. Infant botulism presenting with poor feeding and lethargy: a review of 4 cases. *Pediatr Emerg Care* 2007;23(7):492-4.
12. Fenicia L, Franciosa G, Pourshaban M, Aureli P. Intestinal toxemia botulism in two young people, caused by Clostridium butyricum type E. *Clin Infect Dis* 1999;29(6):1381-7.