Por una niñez y adolescencia sanas, en un mundo mejor

Archivos Argentinos de Pediatría

Publicación oficial de la Sociedad Argentina de Pediatría

Acceso abierto

ISSN 0325-0075
ISSN 1668-3501

Editorial
Todas las investigaciones que involucran seres humanos requieren aprobación ética, especialmente en pediatría
F. Ferrero

Comentarios
Profilaxis antibiótica continua en pacientes con reflujo vesicoureteral: menos es más
A. Balestracci, et al.

Corticoides prenatales: afinando la puntería
N. E. Vain, et al

Artículos originales
Niños hospitalizados con influenza en un hospital pediátrico de Argentina durante 2019-2022: ¿qué ha cambiado luego de la pandemia por COVID-19?
X. Juárez, et al.

Prevalencia de patología urogenital en la consulta ambulatoria de varones adolescentes. Estudio descriptivo transversal
G. Agüero, et al.

Análisis del desarrollo infantil temprano según el marco de cuidado cariñoso y sensible, por quintiles de riqueza y regiones de Argentina (2019-2020)
M. E. Herrera Vegas, et al.

Utilidad y confiabilidad del cuestionario PreViAs para la evaluación de la visión en neonatos y lactantes turcos
S. Erol, et al.

Utilización de los medios de comunicación y actitudes frente a las pantallas en niños de 36-72 meses: estudio descriptivo transversal
Z. Kardas, et al.

Encuesta nacional para pediatras de Argentina: vacunación en la práctica diaria, percepción de conocimientos y barreras
Á. Gentile, et al.

Comunicación breve
Controles de salud durante la pandemia e impacto clínico del COVID-19 en niños con enfermedad neuromuscular
M. S. Fernández Sardá, et al.

Artículo especial
Violencia y maltrato infantil. El aporte del médico radiólogo al abordaje integral multidisciplinario
M. C. Branda, et al.

Actualización
Depresión puerperal: impacto en la madre gestante y en el desarrollo físico, emocional y cognitivo posnatal de sus hijas/os. Una mirada ecológica
P. J. Cafiero, et al.

Reportes de casos
Disfunciones del metabolismo del surfactante pulmonar: caso clínico pediátrico
C. Cambaceres, et al.

***Shock* séptico: complicación atípica de duplicación del tracto alimentario**
F. Imaz, et al.

Histiocitosis de células de Langerhans en un paciente con lesión perianal. Caso clínico
N. A. Breppe, et al.

Compromiso inmunológico en pacientes con síndrome de Down. Serie de casos
C. M. Merhar, et al.

Fractura craneal deprimida congénita ("fractura ping-pong") en neonatos como diagnóstico diferencial de maltrato físico
A. Morikone, et al.

Diagnóstico prenatal de clorhidrorrea congénita: reporte de caso
Q. Cheng, et al.

¿Cuál es su diagnóstico?
Teratoma mediastínico: la importancia de la sospecha y el diagnóstico precoz
F. Prado, et al.

Cartas al Editor

Artículos seleccionados
Resúmenes y comentarios

***Archivos* hace 75 años**
Un caso de forma meníngea en la acidosis infantil primitiva
C. Torres Umaña

Actron®
Pediátrico 4%

Sin T.A.C.C.

Medicamento Libre de Gluten

Aliviar la fiebre y el dolor de tus pacientes es más simple



Con un Práctico dosificador

Tapa de seguridad

EL SABOR + ELEGIDO*

Sabor frutilla y cereza

Prospecto Médico

*"Fuente: Alyami H, et al. (2018) Current opinions and recommendations of pediatric healthcare professionals." PLoS ONE 13(2): e0193292.

Información completa para prescribir disponible en prospecto médico.



farm-X®

Cicatrizante

Reparadora

Farm-X repara y cicatriza la piel con la calidad y eficacia de siempre.



DERMATOLÓGICAMENTE TESTEADO

Farm-X Polvo

FÓRMULA
Cada 100 g: Óxido de zinc 20 g, Undecilenato de zinc 10 g, Propionato de sodio 3 g, Ácido Salicílico 0.60 g, excipientes c.s.
PRESENTACIÓN:
Envase conteniendo 50 g.

Indicaciones

- Dermatosis agudas secretantes.
- Heridas accidentales y post-quirúrgicas.
- Quemaduras.
- Escaras por decúbito.
- Úlceras varicosas.
- Micosis de los pliegues y espacios interdigitales.
- Balanopostitis.
- Intértrigos de los pliegues en lactantes, niños y adultos.
- Dermatitis del pañal.



Farm-X Crema

FÓRMULA
Cada 100 g: Óxido de zinc 5 g, Undecilenato de zinc 2.5 g, Propionato de sodio 0.85 g, Ácido Salicílico 0.50 g, excipientes c.s.
PPRESENTACIÓN:
Envase conteniendo 50 g.

Indicaciones

- Heridas accidentales y post-quirúrgicas.
- Quemaduras.
- Úlceras varicosas.
- Eritrodermias.
- Micosis en general.
- Dermatitis por contacto.
- Dermatitis del pañal.
- Protección integral de la piel.

SEGUINOS
farm_x_crema
farmxcrema

LABORATORIOS FELIPE BAJER
Más de 60 años al servicio de la salud
bajerlaboratorios.com.ar

FX-GRAF-1021-P01

dermaglós

Sin T.A.C.C.

VITAMINA A • VITAMINA E • ALANTOÍNA



DESCUENTO EN OBRAS SOCIALES

INCLUIDO EN PLAN MATERNO INFANTIL

MARCA Nº 1

RECOMENDADA POR MÉDICOS.*

*FUENTE: CLOSE UP OCT 2022.



PROTECCIÓN NATURAL

REPELENTE NATURAL DE INSECTOS A BASE DE ACEITE ESENCIAL DE CITRONELA

SEGUINOS
AuloGelioAR
AuloGelioAR

PROTECCIÓN PARA TODA LA FAMILIA



Repele y ahuyenta moscas, mosquitos, bichos colorados, pulgas, jejenes y tábanos.
Para toda la familia.
Especialmente indicado para embarazadas, bebés y niños.

MODO DE USO: APLICAR SOBRE LA PIEL, EVITANDO EL CONTACTO CON LOS OJOS Y LABIOS.

- REFORZAR CADA 120 min.
- SE PUEDE APLICAR SOBRE LA PIEL
- 6M — A PARTIR DE LOS 6 MESES.
- NO MANCHA LA ROPA

AG-GRAF-1021-M01

LABORATORIOS FELIPE BAJER
Más de 60 años al servicio de la salud
bajerlaboratorios.com.ar

Producto cosmético autorizado por el Ministerio de Salud. ANTE CUALQUIER DUDA CONSULTE A SU MÉDICO Y/O FARMACÉUTICO. LEA ATENTAMENTE EL PROSPECTO.

Sociedad Argentina
de Pediatría



Por una niñez y
adolescencia sanas,
en un mundo mejor

Sociedad Argentina de Pediatría

Por una niñez y adolescencia sanas, en un mundo mejor

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

COMISIÓN DIRECTIVA
PERÍODO 2023-2025

Presidente
Dr. Miguel Javier Indart de Arza

Vicepresidente 1°
Dra. Verónica Sabina Giubergia

Vicepresidente 2°
Dra. Fabiana Gabriela Molina

Secretaria General
Dra. Lucrecia Georgina Arpí

Prosecretario General
Dr. Manuel Rocca Rivarola

Tesorera
Dra. Elizabeth Patricia Bogdanowicz

Secretaria de Comités y Grupos de Trabajo
Dra. Myriam Prieto

Secretaria de Relaciones Institucionales
Dra. Constanza Paola Soto Conti

Secretario de Educación Continua
Dr. Juan Bautista Dartiguelongue

Secretaria de Filiales y Delegaciones
Dra. Analía Susana Arturi

Secretario de Actas
Dr. Alejandro Eugenio Pace

Secretario de Medios y Relaciones Comunitarias
Dr. Juan Pablo Mouesca

Vocal 1°
Dr. Nicolás Molina Favero

Vocal 2°
Dra. Silvina Cipriani

Vocal 3°
Dra. Silvina Elisabet Bianco

Director del Consejo de Publicaciones y Biblioteca:
Dr. Fernando Ferrero

Producción gráfica
IDEOGRAFICA SERVICIOS EDITORIALES
ideografica1988@gmail.com

Archivos Argentinos de Pediatría
Publicación oficial de la Sociedad Argentina de Pediatría

ISSN 0325-0075
ISSN 1668-3501

Editor
Dr. Fernando Ferrero (Ciudad de Buenos Aires, Argentina)

Editora Asociada
Dra. Norma E. Rossato (Ciudad de Buenos Aires, Argentina)

Editores Asistentes
Dra. Verónica Aguerre (Ciudad de Buenos Aires, Argentina)
Dra. Paula Domínguez (Ciudad de Buenos Aires, Argentina)
Dr. Pablo Durán (Montevideo, Uruguay)
Dr. Mariano Ibarra (Ciudad de Buenos Aires, Argentina)
Dr. Conrado Llapur (Tucumán, Argentina)
Dra. Paula Otero (Ciudad de Buenos Aires, Argentina)
Dra. Susana Rodríguez (Ciudad de Buenos Aires, Argentina)
Dra. María Elina Serra (Ciudad de Buenos Aires, Argentina)

Comité Editorial
Dr. Adolfo Aguirre Correa (Mendoza, Argentina)
Dr. Luis Alberto Ahumada (Córdoba, Argentina)
Dr. Ernesto Alda (Bahía Blanca, Buenos Aires, Argentina)
Dr. Fernando Álvarez (Montreal, Canadá)
Dr. Marcelo Boer (Bariloche, Río Negro, Argentina)
Dra. Miriam Edith Bruno (Ciudad de Buenos Aires, Argentina)
Dr. Raúl Bustos (Montevideo, Uruguay)
Dr. Dioclécio Campos Júnior (Brasilia, Brasil)
Dr. José A. Castro-Rodríguez (Santiago de Chile, Chile)
Dra. Elena Cisaruk de Lanzotti (Rosario, Santa Fe, Argentina)
Dr. Horacio S. Falciglia (Cincinnati, Ohio, EE. UU.)
Dr. Facundo Garcia Bournissen (Ontario, Canadá)
Dr. Horacio Federico González (La Plata, Buenos Aires, Argentina)
Dr. Pablo Justich (Murcia, España)
Dr. Pablo Lapunzina (Madrid, España)
Dra. Alicia Mistchenko (Ciudad de Buenos Aires, Argentina)
Dra. Susan Niermeyer (Colorado, EE. UU.)
Dr. Víctor Penchaszadeh (New York, EE. UU.)
Dr. Alberto Roseto (Compiègne, Francia)
Dr. Máximo Vento (Valencia, España)

Consejo Asesor
Dr. José María Ceriani Cernadas (Presidente)
(Ciudad de Buenos Aires, Argentina)
Dr. Ramón Exeni (San Justo, Argentina)
Dra. Hebe González Pena (Ciudad de Buenos Aires, Argentina)
Dr. Carlos Wahren (Ciudad de Buenos Aires, Argentina)

Secretaría: *Cecilia Marcos y Analía Lorena Cerracchio*
Corrección de estilo: *Roxana Carbone*

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: -- ejemplares.

Inscripción Registro de la Propiedad Intelectual: Nº 682.782. Registro Nacional de Instituciones: Nº 0159. Inscripción Personas Jurídicas: NC 4029 - Resolución Nº 240/63. Inscripción Derecho de Autor Nº 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.

Los artículos que integran esta revista están bajo una licencia de *Creative Commons* Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional, excepto que se especifique los contrario.

Esta publicación no puede ser reproducida o trasmitida 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

Índice

Junio 2024;122(3)

Acceso abierto

Archivos Argentinos de Pediatría
Publicación oficial de la Sociedad Argentina de Pediatría

Editorial

Todas las investigaciones que involucran seres humanos requieren aprobación ética, especialmente en pediatría
Fernando Ferrero **e202310277**

Comentarios

Profilaxis antibiótica continua en pacientes con reflujo vesicoureteral: menos es más
Alejandro Balestracci, Laura Beaudoin **e202310242**

Corticoides prenatales: afinando la puntería
Néstor E. Vain, Fernando Althabe **e202310272**

Artículos originales

Niños hospitalizados con influenza en un hospital pediátrico de Argentina durante 2019-2022: ¿qué ha cambiado luego de la pandemia por COVID-19?
Ximena Juárez, María F. García Causarano, Carmen Burundarena, Patricia Dondoglio, Luciana Montoto Piazza, Gretel Wenk, Emilce Haleblian, María J. Rial, Aldo Cancellara **e202310130**

Prevalencia de patología urogenital en la consulta ambulatoria de varones adolescentes. Estudio descriptivo transversal
Gonzalo Agüero, Ignacio Eymann, Florencia Lakatos **e202310103**

Análisis del desarrollo infantil temprano según el marco de cuidado cariñoso y sensible, por quintiles de riqueza y regiones de Argentina (2019-2020)
María E. Herrera Vegas, María E. Zapata, María C. Nessier, Agustina Marconi, Alicia Rovirosa, Paula Gómez **e202310081**

Utilidad y confiabilidad del cuestionario PreViAs para la evaluación de la visión en neonatos y lactantes turcos
Sara Erol, Pelin Çelik, Eray Kılıç, Merve Küçükoğlu Keser, Ali K. Tehçi, Zeynep Özdereli, Mehmet Sayın, Ayşegül N. Çıtak Kurt **e202310085**

Utilización de los medios de comunicación y actitudes frente a las pantallas en niños de 36-72 meses: estudio descriptivo transversal
Zehra Kardas, Nagihan Erdog Sahin, Meda Kondolot **e202310122**

Encuesta nacional para pediatras de Argentina: vacunación en la práctica diaria, percepción de conocimientos y barreras
Ángela Gentile, Vanesa E. Castellano, María del V. Juárez, Sofía Diana Menéndez, Juan I. Degiuseppe, María F. Lución, Rodolfo P. Moreno **e202310204**

Comunicación breve

Controles de salud durante la pandemia e impacto clínico del COVID-19 en niños con enfermedad neuromuscular
M. Sol Fernández Sardá, Manuela Dicembrino, Verónica Aguerre **e202310214**

Artículo especial

Violencia y maltrato infantil. El aporte del médico radiólogo al abordaje integral multidisciplinario
María C. Branda, Loreley Fernández **e202303026**

Actualización

Depresión puerperal: impacto en la madre gestante y en el desarrollo físico, emocional y cognitivo posnatal de sus hijas/os. Una mirada ecológica
Pablo J. Cafiero, Pablo Justich Zabala **e202310217**

Reportes de casos

Disfunciones del metabolismo del surfactante pulmonar: caso clínico pediátrico
Carlos Cambaceres, Victoria Viggiano, Camila Parellada, Florencia Esteguy, Sebastián García, Claudio Castaños **e202310084**

***Shock* séptico: complicación atípica de duplicación del tracto alimentario**
Francisco Imaz, Enrique Buela, Antonella Scarpin, Agustina Santángelo, Paula Marino, Lucrecia Barbosa **e202310123**

Histiocitosis de células de Langerhans en un paciente con lesión perianal. Caso clínico
Nicolás A. Breppe, Paula Gaviot, Darío O. Rodríguez, Paola Ripa **e202310178**

Compromiso inmunológico en pacientes con síndrome de Down. Serie de casos
Claudia M. Merhar, Diana I. Liberatore **e202310063**

Fractura craneal deprimida congénita ("fractura ping-pong") en neonatos como diagnóstico diferencial de maltrato físico
Alicia Morikone, Juan P. Mouesca **e202310139**

Diagnóstico prenatal de clorhidrorrea congénita: reporte de caso
Qianqian Cheng, Chongquan Huang **e202310167**

¿Cuál es su diagnóstico?

Teratoma mediastínico: la importancia de la sospecha y el diagnóstico precoz
Federico Prado, Julieta Bogado, Eliana F. Laurino, María B. Leone, Marta Lavergne **e202310235B**

Cartas al Editor

Especificación formativa de la escala de evaluación de problemas de conducta alimentaria
José A. Martínez, Laura Martínez

Respuesta de los autores
Catalina Le Roy, Arnoldo Riquelme

Pubertad precoz en pandemia por COVID-19. ¿Ha terminado otra pandemia?
Guillermo Alonso, María Benedetto, Alfredo Eymann, Sergio Terrasa **e202310300**

Artículos seleccionados

Resúmenes y comentarios **e202310278**

Archivos hace 75 años

Un caso de forma meníngea en la acidosis infantil primitiva
C. Torres Umaña **e202410373**

Contents

June 2024;122(3)

Open access

Archivos Argentinos de Pediatría
Publicación oficial de la Sociedad Argentina de Pediatría

Editorial

Ethical approval for all studies involving human participants, especially in pediatrics
Fernando Ferrero **e202310277**

Comments

Continuous antibiotic prophylaxis in patients with vesicoureteral reflux: Less is more
Alejandro Balestracci, Laura Beaudoin **e202310242**

Antenatal corticosteroids: Sharpening our aim
Néstor E. Vain, Fernando Althabe **e202310272**

Original articles

Children with influenza admitted at a children's hospital in Argentina in the 2019–2022 period: What has changed after the COVID-19 pandemic?
Ximena Juárez, María F. García Causarano, Carmen Burundarena, Patricia Dondoglio, Luciana Montoto Piazza, Gretel Wenk, Emilce Haleblian, María J. Rial, Aldo Cancellara **e202310130**

Prevalence of urogenital disease in male adolescent outpatient visits. A descriptive, cross-sectional study
Gonzalo Agüero, Ignacio Eymann, Florencia Lakatos **e202310103**

Analysis of early childhood development according to the nurturing care framework, by wealth quintiles and regions of Argentina (2019–2020)
María E. Herrera Vegas, María E. Zapata, María C. Nessier, Agustina Marconi, Alicia Rovirosa, Paula Gómez **e202310081**

The utility and reliability of the PreVIAs questionnaire for the assessment of vision in Turkish neonates and infants
Sara Erol, Pelin Çelik, Eray Kılıç, Merve Küçükoğlu Keser, Ali K. Tehçi, Zeynep Özdereli, Mehmet Sayın, Ayşegül N. Çıtak Kurt **e202310085**

Media use and attitudes towards screens in children aged 36-72 months; a cross-sectional, descriptive study
Zehra Kardas, Nagihan Erdog Sahin, Meda Kondolot **e202310122**

National survey for pediatricians in Argentina: Vaccination in daily practice, perception of knowledge and barriers
Ángela Gentile, Vanesa E. Castellano, María del V. Juárez, Sofía Diana Menéndez, Juan I. Degiuseppe, María F. Lución, Rodolfo P. Moreno **e202310204**

Brief report

Health checkups during the pandemic and clinical impact of COVID-19 in children with neuromuscular disease
M. Sol Fernández Sardá, Manuela Dicembrino, Verónica Aguerre **e202310214**

Special article

Child maltreatment and violence. Contributions from radiologists to a comprehensive multidisciplinary approach
María C. Branda, Loreley Fernández **e202303026**

Review

Postpartum depression: Impact on pregnant women and the postnatal physical, emotional, and cognitive development of their children. An ecological perspective
Pablo J. Cafiero, Pablo Justich Zabala **e202310217**

Case reports

Pulmonary surfactant metabolism dysfunction: A pediatric clinical case report
Carlos Cambaceres, Victoria Viggiano, Camila Parellada, Florencia Esteguy, Sebastián García, Claudio Castaños **e202310084**

Septic shock: an atypical complication of alimentary tract duplication
Francisco Imaz, Enrique Buela, Antonella Scarpin, Agustina Santángelo, Paula Marino, Lucrecia Barbosa **e202310123**

Langerhans cell histiocytosis in a patient with perianal lesion. A case report
Nicolás A. Breppe, Paula Gaviot, Darío O. Rodríguez, Paola Ripa **e202310178**

Immune compromise in patients with Down syndrome. A case series
Claudia M. Merhar, Diana I. Liberatore **e202310063**

Congenital depressed skull fracture ("ping-pong" fracture) in newborn infants as a differential diagnosis of physical abuse
Alicia Morikone, Juan P. Mouesca **e202310139**

Prenatal diagnosis of congenital chloride diarrhea: A case report
Qianqian Cheng, Chongquan Huang **e202310167**

What is your diagnosis?

Mediastinal teratoma: the importance of suspicion and early diagnosis
Federico Prado, Julieta Bogado, Eliana F. Laurino, María B. Leone, Marta Lavergne **e202310235B**

Letters

Formative specification of the Behavioral Pediatrics Feeding Assessment Scale
José A. Martínez, Laura Martínez

Replay to the letter
Catalina Le Roy, Arnoldo Riquelme

Precocious puberty in the COVID-19 pandemic. Has another pandemic ended?
Guillermo Alonso, María Benedetto, Alfredo Eymann, Sergio Terrasa **e202310300**

Selected papers from current literature

Abstracts and commentaries **e202310278**

Archivos 75 years ago

A case of meningeal form in a primitive infantile acidosis
C. Torres Umaña **e202410373**

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310277

Todas las investigaciones que involucran seres humanos requieren aprobación ética, especialmente en pediatría

Fernando Ferrero[a]

Cada vez que escribimos un artículo intentamos que el título exprese lo más fielmente su contenido y/o el mensaje que se pretende transmitir. En esta ocasión no tuve otra opción que repetir el título del excelente editorial de John Fletcher en el *CMAJ*.[1] No se me ocurrió nada más contundente que refleje la necesidad que enuncia.

Llama la atención que aún en 2024 se siga discutiendo sobre la necesidad o no de someter a la evaluación de un comité de ética en investigación (CEI) un proyecto de investigación antes de llevarlo a cabo.

Seguramente hoy en día nadie cuestionaría la necesidad de aprobación ética previa para un estudio que implique una intervención farmacológica contra placebo, auspiciado por la industria farmacéutica. Sin embargo, fuera de este ejemplo tan claro, todo parece ser discutible: ¿Y si se comparan dos drogas y ambas tienen indicación autorizada? ¿Y si el estudio es iniciado por un investigador de un organismo académico? ¿Y si sólo se utilizan datos de los registros clínicos de pacientes?

La historia ha mostrado que el riesgo para los participantes en investigaciones no depende exclusivamente del diseño o el auspiciante. El paradigma de ello es el estudio de Tuskegee, estrictamente observacional y auspiciado por una entidad gubernamental, que avergüenza a la comunidad científica.[2]

Aún hoy, algunos investigadores, por desconocimiento, desinterés o autosuficiencia buscan en la profundidad de las reglamentaciones para ver si puede considerarse que su investigación "...*se limita al estudio de los sistemas de salud, programas oficiales de salud pública o la vigilancia de la salud pública*",[3] y por lo tanto estar exenta de aprobación ética previa. No pueden entender que si piensan enviar sus resultados a una publicación científica (buscando así la generalización de ese conocimiento), lo más probable es que se trate de una investigación; de lo contrario el informe debería limitarse a las autoridades de la institución en la cual trabajan.

Pero, lo más importante, es que si existe la menor duda sobre si una investigación requiere o no evaluación ética previa, se debe recurrir necesariamente a un CEI.[3]

Siguiendo esta línea de pensamiento, ya nadie duda que para publicar un reporte de caso se requiere la autorización del sujeto o sus representantes legales para utilizar sus datos de salud. Sin embargo, cuando se desea publicar estudios basados en "datos" de pacientes, que han recibido un "estándar de cuidado" y que se han obtenido de sus registros de salud, pareciera que tal permiso es innecesario. Es lamentablemente frecuente que se olvide que esos "datos" no pertenecen a los investigadores ni a la institución donde el paciente se asistió, le pertenecen a los pacientes, y que para utilizarlos

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10277
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10277.eng

Cómo citar: Ferrero F. Todas las investigaciones que involucran seres humanos requieren aprobación ética, especialmente en pediatría. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310277.

[a] *Editor, Archivos Argentinos de Pediatría.*

***Correspondencia para** Fernando Ferrero: fferrero.publicaciones@sap.org.ar*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

en investigación, se les debe pedir permiso.

Es probable que en muchas oportunidades contactar a cientos de pacientes asistidos hace varios años atrás puede ser extremadamente difícil. También es cierto que la investigación puede ser lo suficientemente importante como para justificar que igualmente se lleve a cabo si se disocia adecuadamente la información que pueda identificar a los individuos. Pero es un CEI el único que puede y debe velar por estos puntos: la pertinencia y factibilidad de la investigación, la idoneidad de los investigadores y lo apropiado del mecanismo para proteger los datos y la intimidad de las personas. El CEI es el único que puede autorizar el uso de datos de los pacientes con fines de investigación.

Las terribles circunstancias que dieron origen al código de Nuremberg[4] y el informe Belmont,[5] muestran a las claras que, en lo que respecta a la investigación con seres humanos (o con sus datos), siempre es importante una mirada independiente a la del investigador.

Los comités de ética en investigación son los organismos en los que la sociedad descansa la responsabilidad de velar por los intereses de los participantes en investigaciones. El objetivo de la evaluación ética de un proyecto de investigación es prevenir la posibilidad de daño a los participantes. Si la misma se efectúa después, ya concluido el estudio, seguramente será tarde.

Las publicaciones científicas también tienen su responsabilidad en velar por estos intereses de los participantes (conscientes o no) en una investigación. Su responsabilidad es no dar a conocer investigaciones en las que no les conste que hayan sido conducidas de manera ética.

Tanto la Declaración de Helsinki ("*Principio 36: Los informes sobre investigaciones que no se ciñan a los principios descritos en esta Declaración no deben ser aceptados para su publicación.*")[6] como las normativas del Comité Internacional de Editores de Revistas Médicas -ICMJE- (las revistas deben asegurarse que los autores aclaren "*si los procedimientos seguidos estaban de acuerdo con las normas éticas del comité responsable de la investigación humana y con la Declaración de Helsinki*")[7] establecen que las investigaciones que no han seguido las normas éticas no deben ser aceptadas para su publicación. La normativa argentina sigue los mismos principios ("*Los editores de revistas científicas no deberían publicar resultados de estudios realizados sin respeto por las normas éticas*").[3]

Más aún, recordando que toda evaluación de una investigación debe ser previa a su desarrollo, el Comité de Ética en Publicación -COPE- también ha dejado claramente establecido que la aprobación ética retrospectiva no es aceptable.[8]

Finalmente, y por tratarse ésta de una revista pediátrica, no debe olvidarse que, las investigaciones que involucran menores de edad, lo hacen en una población vulnerable sobre la que es necesaria una protección adicional y un refuerzo de todas las garantías éticas.

Siguiendo con un camino empezado hace décadas, Archivos Argentinos de Pediatría mantiene y renueva su compromiso de no aceptar manuscritos de investigaciones que no cuenten con la adecuada aprobación ética. ■

REFERENCIAS

1. Fletcher J. Ethical approval for all studies involving human participants. *CMAJ.* 2015;187(2):91.
2. Tobin MJ. Fiftieth Anniversary of Uncovering the Tuskegee Syphilis Study: The Story and Timeless Lessons. *Am J Respir Crit Care Med.* 2022;205(10):1145-58.
3. Argentina. Ministerio de Salud. Resolución 1480/2011. Guía para la investigación en salud humana. Buenos Aires, 13 de septiembre de 2011. [Consulta: 17 de octubre de 2023]. Disponible en: https://www.argentina.gob.ar/normativa/nacional/resoluci%C3%B3n-1480-2011-187206/actualizacion
4. International Tribunal of Nuremberg. The Nuremberg Code (1947). International Research Code of Ethics. Permissible Medical Experiments. *BMJ.* 1996;313:1448.
5. The National Commission for the Protection of Human Subjects of Biomedical and Behavioral Research. Ethical Principles and Guidelines for the Protection of Human Subjects of Research. [Consulta: 31 de octubre de 2023]. Disponible en: https://www.hhs.gov/ohrp/sites/default/files/the-belmont-report-508c_FINAL.pdf
6. Asociación Médica Mundial. Declaración de Helsinki de la AMM – Principios éticos para las investigaciones médicas en seres humanos. 64ª Asamblea General, Fortaleza, Brasil, octubre 2013. [Consulta: 17 de octubre de 2023]. Disponible en: https://www.wma.net/es/policies-post/declaracion-de-helsinki-de-la-amm-principios-eticos-para-las-investigaciones-medicas-en-seres-humanos/
7. International Committee of Medical Journal Editors. Preparing a Manuscript for Submission to a Medical Journal. [Consulta: 31 de octubre de 2023]. Disponible en: https://www.icmje.org/recommendations/browse/manuscript-preparation/preparing-for-submission.html#d
8. Committee on Publication Ethics. Retrospective ethical approval? [Consulta: 19 de octubre de 2023]. Disponible en: https://publicationethics.org/case/retrospective-ethical-approval

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310277

Ethical approval for all studies involving human participants, especially in pediatrics

Fernando Ferrero[a]

Whenever we write an article, we want to make sure that the title expresses its content and/or the message it is trying to convey as faithfully as possible. This time, I had no choice but to paraphrase the title of an excellent editorial by John Fletcher in the *CMAJ*.[1] I could not think of other more forceful wording that would otherwise reflect the need described by Fletcher.

It is striking that, even now in 2024, there is still conflict about whether an investigation should or should not be submitted for evaluation by a Research Ethics Committee (REC) before conducting it.

Surely, nowadays, no one would question the need for prior ethical approval for a study involving a pharmacological intervention versus placebo, sponsored by the pharmaceutical industry. However, outside of this very clear example, everything seems that could be discussed: What if 2 drugs are compared and both have an approved indication? What if the study is initiated by an investigator from an academic institution? What if only data from clinical patient records are used?

History has demonstrated that the risks to study participants do not depend exclusively on the study design or kind of sponsor. The paradigm of this is evidenced by the Tuskegee Study, a strictly observational, government-sponsored study that became a shame for the scientific community.[2]

Even today, some investigators, out of ignorance, disinterest, or self-sufficiency, search the depths of regulations to see if their research can be considered to be "...*limited to the study of health systems, official public health programs, or public health surveillance,*"[3] and should therefore be exempt from prior ethical approval. They cannot understand that if they intend to send their results to a scientific journal (thus seeking the generalization of such knowledge), it is most likely to be research; otherwise, their report should be limited to the authorities of the institution where they work.

But, most importantly, if there is the slightest doubt as to whether or not research requires prior ethical approval, a REC must necessarily be consulted.[3]

Along this line of thought, no one doubts anymore that, in order to publish a case report, the authorization of the patient or their legal representatives is required in order to use their health information. However, when someone wishes to publish studies based on "data" from patients who received "standard of care" and which have been obtained from their medical records, it would seem that such authorization is unnecessary. Unfortunately, it is often forgotten that these "data" do not belong to the investigators or the institution where the patient was treated; these data belong to the patient and, in order to use them in a study, permission must be requested.

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10277.eng

To cite: Ferrero F. Ethical approval for all studies involving human participants, especially in pediatrics. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310277.

[a] Editor, Archivos Argentinos de Pediatría.

Correspondence to *Fernando Ferrero: fferrero.publicaciones@sap.org.ar*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

Most likely, many times, contacting hundreds of patients seen several years ago can be extremely difficult. It is also true that the study may be relevant enough to justify that it should still be carried out if any information that may identify individuals is adequately disassociated. But only a REC can and should monitor these concerns: the relevance and feasibility of the study, the qualification of the investigators, and the appropriateness of the mechanism used to protect the data and patients' privacy. Only the REC can authorize the use of patient information for research purposes.

The terrible circumstances that gave rise to the Nuremberg Code[4] and the Belmont Report[5] clearly showed that, when it comes to research involving human participants (or their data), it is always important to have the perspective of someone who is independent from the investigator.

Research Ethics Committees are the bodies on which society rests its responsibility to look after the interests of research participants. The goal of conducting an ethical evaluation for a study is to prevent the possibility of any harm to participants. If done later, after the study has been completed, it will probably be too late.

Scientific journals also have a responsibility to look after the interests of people who participate (whether aware of it or not) in research. Their responsibility is not to publish any study that has not been clearly conducted in an ethical manner.

Both the Declaration of Helsinki ("*Principle 36: Reports of research not in accordance with the principles of this Declaration should not be accepted for publication"*)[6] and the regulations of the International Committee of Medical Journal Editors (ICMJE) (journals should encourage authors to state "*whether procedures were conducted in accordance with the ethical standards of the committee responsible for human research and the Declaration of Helsinki*")[7] establish that any study that did not follow the ethical standards should not be accepted for publication. The Argentine regulations follow the same principles ("*Editors of scientific journals should not publish results of studies conducted in disregard of ethical standards"*).[3]

Moreover, keeping in mind that any study evaluation must be conducted prior to its development, the Committee on Publication Ethics has also clearly stated that retrospective ethical approval is not acceptable.[8]

Finally, since this is a pediatric scientific journal, it should not be forgotten that studies in children and adolescents involve a vulnerable population that requires additional protection and reinforcement of all ethical guarantees.

Following a path that began decades ago, *Archivos Argentinos de Pediatria* maintains and renews its commitment not to accept study manuscripts that fail to comply with the corresponding ethical approval. ■

REFERENCES

1. Fletcher J. Ethical approval for all studies involving human participants. *CMAJ.* 2015;187(2):91.
2. Tobin MJ. Fiftieth Anniversary of Uncovering the Tuskegee Syphilis Study: The Story and Timeless Lessons. *Am J Respir Crit Care Med.* 2022;205(10):1145-58.
3. Argentina. Ministerio de Salud. Resolución 1480/2011. Guía para la investigación en salud humana. Buenos Aires, 13 de septiembre de 2011. [Accessed on: October 17th, 2023]. Available at: https://www.argentina.gob.ar/normativa/nacional/resoluci%C3%B3n-1480-2011-187206/actualizacion
4. International Tribunal of Nuremberg. The Nuremberg Code (1947). International Research Code of Ethics. Permissible Medical Experiments. *BMJ.* 1996;313:1448.
5. The National Commission for the Protection of Human Subjects of Biomedical and Behavioral Research. Ethical Principles and Guidelines for the Protection of Human Subjects of Research. [Accessed on: October 31st, 2023]. Available at: https://www.hhs.gov/ohrp/sites/default/files/the-belmont-report-508c_FINAL.pdf
6. Asociación Médica Mundial. Declaración de Helsinki de la AMM – Principios éticos para las investigaciones médicas en seres humanos. 64ª Asamblea General, Fortaleza, Brasil, octubre 2013. [Accessed on: October 17th, 2023]. Available at: https://www.wma.net/es/policies-post/declaracion-de-helsinki-de-la-amm-principios-eticos-para-las-investigaciones-medicas-en-seres-humanos/
7. International Committee of Medical Journal Editors. Preparing a Manuscript for Submission to a Medical Journal. [Accessed on: October 31st, 2023]. Available at: https://www.icmje.org/recommendations/browse/manuscript-preparation/preparing-for-submission.html#d
8. Committee on Publication Ethics. Retrospective ethical approval? [Accessed on: October 19th, 2023]. Available at: https://publicationethics.org/case/retrospective-ethical-approval

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310242

Profilaxis antibiótica continua en pacientes con reflujo vesicoureteral: menos es más

Alejandro Balestracci[a,b], *Laura Beaudoin*[a]

El objetivo de la administración de profilaxis antibiótica continua (PAC) en pacientes con reflujo vesicoureteral (RVU) es disminuir la recurrencia de pielonefritis y el desarrollo de cicatrices renales. Si bien se han llevado a cabo varios ensayos clínicos sobre el tema, sus resultados son dispares debido a la heterogeneidad de sus diseños y a diferencias en las características de los pacientes incluidos (sexo, grado de RVU, edad, etc.). Entre los más relevantes, el estudio RIVUR fue un ensayo clínico multicéntrico, doble ciego, controlado con placebo que evaluó 607 pacientes (solo el 8 % de sexo masculino) entre 2 y 71 meses con RVU grado I-IV diagnosticado luego de haber presentado un episodio de infección del tracto urinario (ITU). En el grupo de intervención la PAC redujo un 50 % el riesgo de recurrencia, con un mayor beneficio en los casos cuya ITU índice fue febril y en aquellos con disfunción vesicointestinal.[1] El estudio PRIVENT, otro ensayo clínico controlado con placebo doble ciego que incluyó 576 pacientes (no todos con RVU), demostró una reducción modesta (6 %) de recurrencia en el grupo de intervención, independientemente de la presencia de RVU.[2] Debe destacarse que ambos estudios tenían predominio de mujeres y de RVU de bajo grado (I-III), por lo que se trataba de poblaciones de bajo riesgo, dificultando generalizar estos resultados a pacientes con mayor gravedad.[1,2] Por el contrario, otros estudios no mostraron beneficio o, como ocurrió en el Swedish Reflux Study que incluyó 203 pacientes entre 1 y 2 años con RVU grado III–IV, el beneficio solo se observó en niñas. Asimismo, una revisión de Cochrane que incluyó los estudios mencionados anteriormente demostró ausencia de beneficio de la PAC para prevenir la recurrencia.[3] Recientemente, se publicaron los resultados del estudio PREDICT, un nuevo ensayo clínico abierto (antibiótico vs. no tratamiento) que involucró 292 pacientes (el 77 % varones) de 1 a 5 meses de edad con RVU grado III-V que no habían presentado ITU.[4] Por consiguiente, se trató de una cohorte que difería de las anteriores, en las cuales predominaban pacientes de sexo femenino, de mayor edad, que ya habían presentado al menos una ITU y que tenían RVU de bajo grado. Como resultado, se observó que la PAC redujo significativamente el riesgo de ITU (*hazard ratio* 0,55; IC95 % 0,35-0,86); este beneficio fue mayor en las niñas con RVU grado IV o V. Notoriamente, el 64,4 % de los pacientes sin tratamiento no desarrollaron ITU, por lo que el número necesario a tratar fue de 7 pacientes durante 2 años para prevenir un episodio de ITU; finalmente los autores

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10242
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10242.eng

Cómo citar: Balestracci A, Beaudoin L. Profilaxis antibiótica continua en pacientes con reflujo vesicoureteral: menos es más. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310242.

[a] *Unidad de Nefrología, Hospital General de Niños Dr. Pedro de Elizalde. Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina;*
[b] *Subcomisión de Investigación, Sociedad Argentina de Pediatría. Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.*

***Correspondencia para** Alejandro Balestracci: abalestracci@yahoo.com.ar*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

concluyeron que si bien los resultados fueron numéricamente significativos, su beneficio clínico fue dudoso.

A su vez, para el otro objetivo fundamental de la PAC, que consiste en prevenir el daño renal, ninguno de estos estudios ha demostrado ser útil. Sin embargo, esta medida de resultado fue un objetivo secundario de los mismos, por lo que carecieron de adecuado poder para obtener conclusiones sólidas. Un metaanálisis que incluyó 1076 niños confirmó lo encontrado en los estudios individuales, sin embargo el tamaño muestral analizado también resultó insuficiente ya que se hubieran necesitado 8000 pacientes para alcanzar una potencia adecuada.[5]

No menos importante en la evaluación de riesgo-beneficio de esta estrategia es la posibilidad de inducir resistencia bacteriana y de modificar la microbiota intestinal. En este sentido, un metaanálisis publicado en el año 2018 demostró que la PAC aumentó 6,4 veces el riesgo de multirresistencia antibiótica. En la misma línea, en el reciente estudio PREDICT, los pacientes del grupo intervención que presentaron ITU tuvieron un mayor rescate de bacterias no-*Escherichia coli* y con mayor resistencia antibiótica.[4] Por último, otros factores que deben considerarse antes de iniciar PAC, son el estado de control de esfínteres, la adherencia percibida a la medicación, la elección de los cuidadores, la duración del tratamiento y el costo de la medicación.[6] En relación a esto último, un análisis de costo-efectividad basado en los datos del estudio RIVUR concluyó que el tratamiento en los niños con RVU de bajo grado (I-III) no resultó ser costo-efectivo.

Deberíamos preguntarnos si los resultados de estas investigaciones son extrapolables al medio en el que desempañamos nuestra práctica clínica habitual. La mayoría de estos estudios se basaron en la administración de trimetoprima-sulfametoxazol, que podría no ser la mejor opción si la resistencia antibiótica local al mismo es alta. Por otro lado, se han incluido pacientes en quienes el diagnóstico de RVU se realizó a partir de hallazgos ecográficos prenatales sin que hubieran presentado una ITU índice; en nuestra experiencia muchas veces no contamos con un estudio ecográfico prenatal confiable y la gran mayoría de los pacientes que recibimos tiene el antecedente de ya haber presentado una o varias infecciones. Otro punto a tener en cuenta es la celeridad con la que probablemente hayan sido tratadas las nuevas infecciones en los pacientes enrolados. Es esperable que ante el desarrollo de una ITU, los pacientes en protocolo hayan sido tratados rápidamente, tanto porque sus cuidadores fueron alertados para el reconocimiento precoz de los síntomas de infección como a que presumiblemente contaron con alta accesibilidad a la atención médica. Dado que es sabido que la demora en la iniciación del tratamiento favorece al desarrollo de daño parenquimatoso,[6] es probable que esta situación haya influenciado en el desarrollo de nuevas escaras renales en los participantes. De manera similar, la posibilidad de tratamiento precoz también pudo haber disminuido la posibilidad de hospitalización. Finalmente, debe considerarse que la tasa de adherencia al tratamiento en el contexto de una investigación suele ser mayor a la del mundo real, siendo este otro aspecto que puede incidir en los resultados que se obtengan en la práctica clínica usual.

En conclusión, la evidencia disponible nos ha hecho pasar de la indicación universal de la PAC en los pacientes con RVU a un uso selectivo en pacientes de riesgo.[7] Estudios que permitan una mejor estratificación de los grupos de riesgo permitirá reducir aún más sus indicaciones, las cuales podrían ser considerablemente más precisas con el aporte de investigaciones locales. ■

REFERENCIAS

1. RIVUR Trial Investigators; Hoberman A, Greenfield SP, Mattoo TK, et al. Antimicrobial prophylaxis for children with vesicoureteral reflux. *N Engl J Med*. 2014;370(25):2367-76.
2. Craig JC, Simpson JM, Williams GJ, Lowe A, et al. Antibiotic prophylaxis and recurrent urinary tract infection in children. *N Engl J Med*. 2009;361(18):1748-59.
3. Williams G, Craig JC. Long-term antibiotics for preventing recurrent urinary tract infection in children. *Cochrane Database Syst Rev*. 2019;4(4):CD001534.
4. Morello W, Baskin E, Jankauskiene A, Yalcinkaya F, et al. Antibiotic Prophylaxis in Infants with Grade III, IV, or V Vesicoureteral Reflux. *N Engl J Med*. 2023;389(11):987-97.
5. Hewitt IK, Pennesi M, Morello W, Ronfani L, Montini G. Antibiotic Prophylaxis for Urinary Tract Infection-Related Renal Scarring: A Systematic Review. *Pediatrics*. 2017;139(5):e20163145.
6. Mattoo TK, Shaikh N, Nelson CP. Contemporary Management of Urinary Tract Infection in Children. *Pediatrics*. 2021;147(2):e2020012138.
7. Ramírez F, Exeni A, Alconcher L, Coccia P, et al. Guía para el diagnóstico, estudio y tratamiento de la infección urinaria: actualización 2022. *Arch Argent Pediatr*. 2022;120(5):S69-87.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310242

Continuous antibiotic prophylaxis in patients with vesicoureteral reflux: Less is more

Alejandro Balestracci[a,b], *Laura Beaudoin*[a]

The objective of administering continuous antibiotic prophylaxis (CAP) to patients with vesicoureteral reflux (VUR) is to reduce the recurrence of pyelonephritis and prevent the development of kidney scarring. Although this topic has been the subject of several clinical trials, their results are disparate due to the heterogeneity of their designs and the differences in the characteristics of the patients included (sex, VUR grade, age, etc.). Among the most relevant trials, the RIVUR study was a multicenter, double-blind, placebo-controlled clinical trial that assessed 607 patients (only 8% were males) aged 2 to 71 months with grade I–IV VUR diagnosed after an episode of urinary tract infection (UTI). In the intervention group, CAP reduced the risk of recurrence by 50%, with a greater benefit for patients whose index UTI developed with fever and for those with enterovesical dysfunction.[1] The PRIVENT study, another double-blind, placebo-controlled clinical trial involving 576 patients (not all with VUR), demonstrated a modest reduction (6%) of recurrence in the intervention group, regardless of the presence of VUR.[2] It is worth noting that both the RIVUR and the PRIVENT studies had a predominance of women and low-grade VUR (I–III), so they were low-risk populations, making it difficult to generalize their results to patients with greater severity.[1,2] In contrast, other studies showed no benefit or, as observed in the Swedish Reflux Study, which included 203 patients aged 1 to 2 years with grade III–IV VUR, the benefit was observed in girls only. In addition, a Cochrane review that included all the studies mentioned above showed that CAP is not beneficial to prevent recurrence.[3] Recently, the results of the PREDICT study were published, which was a new open-label clinical trial (antibiotic versus no therapy) with 292 patients (77%, males) aged 1-5 months with grade III-V VUR who had not developed UTI.[4] Therefore, the cohort in the PREDICT study differed from previous populations, who were predominantly female, older, had already had at least 1 UTI episode, and had low-grade VUR. As a result, it was observed that CAP significantly reduced the risk of UTI (hazard ratio: 0.55, 95% CI: 0.35–0.86); such benefit was greater in girls with grade IV or V VUR. Notably, 64.4% of untreated patients did not develop UTI, so the number needed to treat was 7 patients for 2 years to prevent an episode of UTI; finally, the authors concluded that although the results were numerically significant, the clinical benefit was doubtful.

In turn, none of those studies proved useful for the other fundamental objective of CAP, which is to prevent kidney damage. However, this outcome measure was a secondary objective of those

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10242.eng

To cite: Balestracci A, Beaudoin L. Continuous antibiotic prophylaxis in patients with vesicoureteral reflux: Less is more. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310242.

[a] *Unit of Nephrology, Hospital General de Niños Dr. Pedro de Elizalde, City of Buenos Aires, Argentina;* [b] *Subcommittee of Research of the Sociedad Argentina de Pediatría, City of Buenos Aires, Argentina.*

***Correspondence to** Alejandro Balestracci: abalestracci@yahoo.com.ar*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

studies, so they lacked adequate power to draw solid conclusions. A meta-analysis that included 1076 children confirmed the findings of the individual studies, however, the sample size analyzed was also insufficient, as 8000 patients would have been necessary to reach an adequate power.[5]

Another, not less important factor in the risk-benefit assessment of this strategy is the possibility of inducing bacterial resistance and modifying the gut microbiota. In this regard, a meta-analysis published in 2018 showed that CAP increased the risk of multidrug resistance by 6.4-fold. Along the same line, in the recent PREDICT study, patients in the intervention group who developed a UTI had a higher level of isolation of non-*Escherichia coli* bacteria and a higher antibiotic resistance.[4] Finally, other factors that should be considered before initiating CAP include sphincter control status, perceived medication adherence, choice of caregivers, treatment duration, and cost of medication.[6] In relation to the latter, a cost-effectiveness analysis based on data from the RIVUR study concluded that treatment in children with low-grade VUR (I–III) was not cost-effective.

We should ask ourselves whether the results of those studies may be extrapolated to the setting in which we conduct our daily clinical practice. Most studies were based on the administration of trimethoprim-sulfamethoxazole, which may not be the best option if local antibiotic resistance to these drugs is high. In addition, the diagnosis of VUR in some patients included was based on prenatal ultrasound findings, without an index UTI; in our experience, many times, a reliable prenatal ultrasound is not available and the vast majority of the patients we see have a history of having already presented 1 or more infections. Another point to consider is the speed with which new infections in enrolled patients have probably been treated. It is to be expected that, when a UTI developed, the patients included in clinical trials would have been treated quickly, both because their caregivers were alerted to the early recognition of the symptoms of infection and because they presumably had high accessibility to medical care. Given that it is known that a delayed treatment initiation favors the development of parenchymal damage,[6] it is likely that this situation influenced the development of new kidney scarring in study participants. Similarly, the possibility of early treatment may also have decreased the likelihood of hospitalization. Finally, it is worth noting that the rate of treatment adherence in the context of a study is usually higher than in the real world, and this is another aspect that may have an impact on the results obtained in routine clinical practice.

To conclude, the available evidence has shifted from the universal indication of CAP in patients with VUR to a selective use in patients at risk.[7] Studies that allow a better stratification of risk groups will further reduce CAP indications, which could be considerably more precise with the contribution of local studies. ■

REFERENCES

1. RIVUR Trial Investigators; Hoberman A, Greenfield SP, Mattoo TK, et al. Antimicrobial prophylaxis for children with vesicoureteral reflux. *N Engl J Med*. 2014;370(25):2367-76.
2. Craig JC, Simpson JM, Williams GJ, Lowe A, et al. Antibiotic prophylaxis and recurrent urinary tract infection in children. *N Engl J Med*. 2009;361(18):1748-59.
3. Williams G, Craig JC. Long-term antibiotics for preventing recurrent urinary tract infection in children. *Cochrane Database Syst Rev*. 2019;4(4):CD001534.
4. Morello W, Baskin E, Jankauskiene A, Yalcinkaya F, et al. Antibiotic Prophylaxis in Infants with Grade III, IV, or V Vesicoureteral Reflux. *N Engl J Med*. 2023;389(11):987-97.
5. Hewitt IK, Pennesi M, Morello W, Ronfani L, Montini G. Antibiotic Prophylaxis for Urinary Tract Infection- Related Renal Scarring: A Systematic Review. *Pediatrics*. 2017;139(5):e20163145.
6. Mattoo TK, Shaikh N, Nelson CP. Contemporary Management of Urinary Tract Infection in Children. *Pediatrics*. 2021;147(2):e2020012138.
7. Ramírez F, Exeni A, Alconcher L, Coccia P, et al. Guía para el diagnóstico, estudio y tratamiento de la infección urinaria: actualización 2022. *Arch Argent Pediatr*. 2022;120(5):S69-87.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310272

Corticoides prenatales: afinando la puntería

Néstor E. Vain[a], *Fernando Althabe*[b]

A partir del estudio original de Liggins y Howie en 1972 que demostró que los corticoides antenatales mejoraban la sobrevida en los nacimientos prematuros, los obstetras y neonatólogos de distintas partes del mundo adoptaron progresivamente esta práctica.[1] Esto ocurrió mucho más rápido en Sudamérica, Europa, Nueva Zelanda y Australia, que en Norteamérica. El Colegio de Obstetricia y Ginecología de Estados Unidos se demoró más de 20 años para enunciar una recomendación formal para su uso.[2]

El impacto de los corticoides antenatales acelerando la maduración pulmonar resultó tan positivo que, observando sus efectos inmediatos (la disminución de la frecuencia y gravedad del síndrome de dificultad respiratoria del prematuro), su uso se extendió incluso a los embarazos pretérmino tardíos y las cesáreas programadas a término. Ensayos clínicos aleatorizados mostraron beneficios marginales en estas últimas dos poblaciones.[3,4] Sin embargo, en estos casos, su uso se siguió liberalizando. ¿Por qué?

Los obstetras y neonatólogos "amamos" los corticoides prenatales: una enorme información científica y larga experiencia demuestran que la betametasona o la dexametasona, administradas a embarazadas con amenaza de parto prematuro, disminuyen francamente la incidencia y gravedad del síndrome de dificultad respiratoria y la morbimortalidad en recién nacidos prematuros, especialmente en los menores de 32 semanas de edad gestacional. La mayoría de nosotros diría que los corticoides antenatales son la medicación con mejor relación beneficio-costo en perinatología. Desgraciadamente, no existe ningún fármaco que produzca beneficios en todas las poblaciones en que se usa sin incurrir en algún riesgo. Ya en 2014, Althabe y colaboradores desarrollaron un gran ensayo clínico aleatorizado por grupos (*clusters*) en 6 países, en regiones con cuidado perinatal subóptimo, con el objetivo de escalar el uso de corticoides prenatales a la mayor parte de los nacimientos pretérminos tempranos. El estudio demostró que el uso de una intervención multifacética que incluía capacitación en la identificación de mujeres en riesgo de parto prematuro aumentó el uso de corticoides al 45 % de los recién nacidos pretérmino. Pero la intervención también aumentó substancialmente el uso de corticoides en mujeres que habían sido identificadas como de alto riesgo de parto pretérmino, pero en quienes el nacimiento finalmente ocurrió al término. La desafortunada e inesperada consecuencia fue que la mortalidad neonatal aumentó en un 12 % en la población general.[5] Como consecuencia de los resultados

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10272
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10272.eng

Cómo citar: Vain NE, Althabe F. Corticoides prenatales: afinando la puntería. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310272.

[a] *Responsable de Neonatología, Sanatorios de la Trinidad Palermo, San Isidro y Ramos Mejía. Director de la Carrera de Médico Especialista en Neonatología, Facultad de Medicina, Universidad de Buenos Aires. Buenos Aires, Argentina;* [b] *Consultor del Programa de Reproducción Humana (HRP) de la Organización Mundial de la Salud.*

***Correspondencia para** Néstor E. Vain: nestorvain@gmail.com*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

de este estudio, la OMS recomienda el tratamiento prenatal con corticosteroides a las mujeres con alto riesgo de parto pretérmino (entre 24-34 semanas) cuando se cumplan las condiciones que incluyen una evaluación precisa de la edad gestacional y una alta probabilidad de parto pretérmino en los 7 días siguientes.[6]

Posteriormente en 2020, el ensayo ACTION I de la OMS, diseñado para administrar corticoides prenatales siguiendo la recomendación y condiciones mencionadas, ratificó su beneficio y seguridad en contextos de bajos recursos.[7] En este ensayo, sólo el 10 % de los recién nacidos que recibieron corticoides prenatales nacieron al término. En términos prácticos, la administración de corticoides prenatales está recomendada para embarazos menores de 34 semanas, cuando existe una probabilidad muy alta (90 %) de que el nacimiento ocurra en los siguientes 7 días. Si esta probabilidad es incierta, tal vez sea mejor abstenerse.

Además de los cuestionamientos mencionados arriba, aparecen otras preocupaciones para las y los que participamos en las decisiones en el manejo de embarazos con riesgo de nacimiento prematuro: un estudio poblacional en Finlandia mostró que la administración de corticoides antenatales se asocia a mayor frecuencia de trastornos mentales y de comportamiento en los niños.[8] Otra investigación desarrollada en Canadá llega a conclusiones similares.[9] Un metanálisis que incluyó estudios aleatorizados y de cohorte con seguimiento del neurodesarrollo a largo plazo, concluyó que el uso de un curso de corticoides antenatales se asociaba a un mejor neurodesarrollo en casos de un nacimiento extremadamente prematuro pero un riesgo significativamente mayor de trastornos neurocognitivos y psicológicos en el caso de nacimientos pretérminos tardíos y de término (lo cual ocurría en el 50 % de los que habían recibido corticoides).[10] En el mismo sentido, otros estudios demuestran que la administración en embarazos pretérminos tardíos aumenta entre 3 y 6 veces el riesgo de hipoglucemia.[11]

Más recientemente, Yao y colaboradores nos alertan sobre el mayor riesgo de infecciones graves durante todo el primer año de vida en niños cuyas madres habían recibido corticoides prenatales.[12] Es un análisis de una gran cohorte de Taiwan, con casi 2 millones de nacimientos, de los cuales 45 000 recibieron corticoides prenatales. El estudio muestra un 32 % de aumento relativo en las infecciones graves durante los primeros 6 meses de vida en los niños expuestos, comparados a los no expuestos, con un intervalo de confianza al 95 % entre el 18 % y el 47 %. Es importante destacar que este aumento se observó no sólo en niños nacidos pretérmino sino también al término. El aumento en el riesgo de infecciones fue mayor en aquellos niños nacidos a término. Otro llamado de atención es que el 40 % de los embarazos que recibieron corticoides llegaron al término.

¿Será posible que la dosis de betametasona (o dexametasona) que administramos sea excesiva? Si bien no tenemos certezas, un ensayo clínico aleatorizado multicéntrico desarrollado en Francia en 3200 embarazos, no logró demostrar que administrar la mitad de la dosis habitual de betametasona sea equivalente a la que venimos usando desde hace años.[13]

¿Y qué debemos hacer? Primero, no dejar de reconocer el enorme valor que los corticoides prenatales tienen en situaciones de cuidado perinatal apropiado. Segundo: no tomarlos como inocuos y esforzarnos para afinar mejor la puntería: usarlos cuando las chances de nacimiento muy prematuro son verdaderamente altas ya que en ese grupo los beneficios superan claramente los riesgos. Por otra parte, parecería razonable evitarlos después de las 34 semanas de embarazo y más aún en cesáreas programadas en recién nacidos de término, hasta que nuevas evidencias aclaren el panorama.

Finalmente, no desaprovechemos la enseñanza de esta larga historia. Es claro que el impacto muy favorable de los corticoides antenatales en el corto plazo nos seduce a todas y todos, pero un aprendizaje importante de las publicaciones citadas en este editorial para quienes desarrollamos estudios clínicos, es la importancia del seguimiento a largo plazo de las poblaciones sobre las que investigamos una intervención. ■

REFERENCIAS

1. Liggins GC, Howie RN. A controlled trial of antepartum glucocorticoid treatment for prevention of the respiratory distress syndrome in premature infants. *Pediatrics*. 1972;50(4):515-25.
2. ACOG committee opinion. Antenatal corticosteroid therapy for fetal maturation. Number 147--December 1994. Committee on Obstetric Practice. American College of Obstetricians and Gynecologists. *Int J Gynaecol Obstet*. 1995;48(3):340-2.
3. Gyamfi-Bannerman C, Thom EA, Blackwell SC, Tita AT, et al. Antenatal Betamethasone for Women at Risk for Late Preterm Delivery. *N Engl J Med.* 2016;374(14):1311-20.
4. Stutchfield P, Whitaker R, Russell I. Antenatal betamethasone and incidence of neonatal respiratory

distress after elective caesarean section: pragmatic randomised trial. *BMJ*. 2005;331(7518):662.
5. Althabe F, Belizán JM, McClure EM, Hemingway-Foday J, et al. A population-based, multifaceted strategy to implement antenatal corticosteroid treatment versus standard care for the reduction of neonatal mortality due to preterm birth in low-income and middle-income countries: the ACT cluster-randomised trial. *Lancet*. 2015;385(9968):629-39.
6. World Health Organization. WHO Recommendations on antenatal corticosteroids for improving preterm birth outcomes. Geneva: WHO; 2022. Licence: CC BY-NC-SA 3.0 IGO.
7. WHO ACTION Trials Collaborators, Oladapo OT, Vogel JP, Piaggio G, Nguyen MH, et al. Antenatal Dexamethasone for Early Preterm Birth in Low-Resource Countries. *N Engl J Med*. 2020;383(26)2514-25.
8. Räikkönen K, Gissler M, Kajantie E. Associations Between Maternal Antenatal Corticosteroid Treatment and Mental and Behavioral Disorders in Children. *JAMA*. 2020;323(19):1924-33.
9. Aviram A, Murphy K, McDonald S, Asztalos E, et al. Antenatal corticosteroids and neurodevelopmental outcomes in late preterm births. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed*. 2022;107(3):250-5.
10. Ninan K, Liyanage SK, Murphy KE, Asztalos EV, McDonald SD. Evaluation of Long-term Outcomes Associated with Preterm Exposure to Antenatal Corticosteroids: A Systematic Review and Meta-analysis. *JAMA Pediatr*. 2022;176(6):e220483.
11. Battarbee AN, Sandoval GJ, Gyamfi-Bannerman C, Blackwell SC, et al. Mechanism of neonatal hypoglycemia after late preterm steroids: are fetal metabolic effects responsible? *Am J Obstet Gynecol*. 2022;227(2):347-9.e4.
12. Yao TC, Chang SM, Wu CS, Tsai YF, et al. Association between antenatal corticosteroids and risk of serious infection in children: nationwide cohort study. *BMJ*. 2023;382:e075835.
13. Schmitz T, Doret-Dion M, Sentilhes L, Parant O, et al. Neonatal outcomes for women at risk of preterm delivery given half dose versus full dose of antenatal betamethasone: a randomised, multicentre, double-blind, placebo-controlled, non-inferiority trial. *Lancet.* 2022;400(10352):592-604.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310272

Antenatal corticosteroids: Sharpening our aim

Néstor E. Vain[a], *Fernando Althabe*[b]

Since the original study by Liggins and Howie in 1972 that demonstrated that antenatal corticosteroids improved survival in preterm births, obstetricians and neonatologists worldwide progressively adopted this practice.[1] This happened much faster in South America, Europe, New Zealand, and Australia than in North America. It took more than 20 years for the American College of Obstetricians and Gynecologists to issue a formal recommendation on their use.[2]

The impact of antenatal corticosteroids in accelerating lung maturation was so positive that, observing their immediate effects (a decrease in the frequency and severity of respiratory distress syndrome among preterm infants), their use was extended even to late preterm pregnancies and scheduled C-sections at term. Randomized clinical trials showed marginal benefits in the latter 2 populations.[3,4] However, in these cases, their use continued to be quite frequent. Why?

Obstetricians and neonatologists "love" antenatal corticosteroids: a vast scientific information and long experience demonstrate that betamethasone or dexamethasone, given to pregnant women with threatened preterm labor, markedly decrease the incidence and severity of respiratory distress syndrome and morbidity and mortality among preterm infants, especially those younger than 32 weeks of gestation. Most of us would say that antenatal corticosteroids are the most cost-effective drug in perinatology. Unfortunately, there is no drug that causes benefits in all populations in which it is used without incurring some risks. Already in 2014, Althabe et al. developed a large cluster-randomized clinical trial in 6 countries, in regions with suboptimal perinatal care, with the objective of scaling up the use of antenatal corticosteroids to most early preterm births. That study demonstrated that the use of a multifaceted intervention that included training in the identification of women at risk for preterm delivery increased corticosteroid use to 45% of preterm infants. However, that intervention also substantially increased corticosteroid use in women who had been identified as being at high risk for preterm delivery, but whom ultimately gave birth at term. The unfortunate and unexpected consequence was that neonatal mortality increased by 12% in the general population.[5] As a consequence of the results of that study, the World Health Organization (WHO) recommends antenatal corticosteroid management for women at high risk for preterm delivery (between 24 and 34 weeks of gestation) when certain conditions are met, including an accurate assessment of gestational age and a high probability of preterm delivery in the next 7 days.[6]

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10272.eng

To cite: Vain NE, Althabe F. Antenatal corticosteroids: Sharpening our aim. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310272.

[a] *Head of Neonatology, Sanatorios de la Trinidad Palermo, San Isidro, and Ramos Mejía. Director of the Medical Specialization in Neonatology, School of Medicine, Universidad de Buenos Aires. Buenos Aires, Argentina;* [b] *Advisor for the Human Reproduction Programme (HRP) of the World Health Organization.*

Correspondence to *Néstor E. Vain: nestorvain@gmail.com*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

Subsequently, in 2020, the WHO ACTION-I trial, designed to administer antenatal corticosteroids following the aforementioned recommendation and conditions, ratified their benefit and safety in low-resource settings.[7] In that trial, only 10% of newborn infants who received antenatal corticosteroids were born at term. In practical terms, the administration of antenatal corticosteroids is recommended for pregnancies of less than 34 weeks of gestation, when there is a very high probability (90%) that birth will occur in the next 7 days. If such probability is uncertain, it may be better to refrain from their use.

In addition to the issues mentioned above, there are other concerns for those of us who participate in decisions on the management of pregnancies at risk for preterm birth: a population-based study conducted in Finland showed that the administration of antenatal corticosteroids is associated with a higher frequency of mental and behavioral disorders in children.[8] Another study carried out in Canada reached similar conclusions.[9] A meta-analysis that included randomized and cohort studies with long-term neurodevelopmental follow-up concluded that the use of a cycle of antenatal corticosteroids was associated with improved neurodevelopment in cases of extremely preterm birth, but also with a significantly increased risk of neurocognitive and psychological disorders in the case of late preterm and term births (which occurred in 50% of cases who had received corticosteroids).[10] Similarly, other studies show that the administration in late preterm pregnancies increases the risk of hypoglycemia by 3–6 times.[11]

More recently, Yao et al. alerted to the increased risk of serious infections during the entire first year of life in infants whose mothers had received antenatal corticosteroids.[12] That study was an analysis of a large cohort from Taiwan, with almost 2 million births, of which 45 000 had received antenatal corticosteroids. That study showed a 32% relative increase in serious infections during the first 6 months of life in exposed versus unexposed infants, with a 95% confidence interval between 18% and 47%. Importantly, such increase was observed not only in infants born preterm, but also in those born at term. The increase in the risk of infections was greater in infants born at term. Other call for attention is that 40% of the pregnancies that received corticosteroids reached term gestation.

Is it perhaps that the betamethasone (or dexamethasone) dose is excessive? Although we are not certain, a multicenter randomized clinical trial conducted in France in 3200 pregnancies failed to demonstrate that administering half the usual dose of betamethasone is equivalent to the dose that has been used for years.[13]

What should we do? First of all, we must not fail to recognize the enormous value of antenatal corticosteroids in situations of appropriate perinatal care. Second of all, we should take into account that antenatal corticosteroids are not harmless and we should strive to perfect our aim: they should be used when the chances of very preterm birth are really high, since the benefits clearly outweigh the risks in that group. In addition, it would seem reasonable to avoid them after 34 weeks of gestation and even more so in scheduled C-sections in term newborns, until new evidence clarifies the picture.

Finally, let us not waste the lessons of this long history. It is clear that the very favorable impact of antenatal corticosteroids in the short term is appealing, but an important lesson learned from the publications cited in this editorial for those of us who develop clinical studies is the importance of long-term follow-up of the populations subjected to a study intervention. ■

REFERENCES

1. Liggins GC, Howie RN. A controlled trial of antepartum glucocorticoid treatment for prevention of the respiratory distress syndrome in premature infants. *Pediatrics*. 1972;50(4):515-25.
2. ACOG committee opinion. Antenatal corticosteroid therapy for fetal maturation. Number 147--December 1994. Committee on Obstetric Practice. American College of Obstetricians and Gynecologists. *Int J Gynaecol Obstet*. 1995;48(3):340-2.
3. Gyamfi-Bannerman C, Thom EA, Blackwell SC, Tita AT, et al. Antenatal Betamethasone for Women at Risk for Late Preterm Delivery. *N Engl J Med.* 2016;374(14):1311-20.
4. Stutchfield P, Whitaker R, Russell I. Antenatal betamethasone and incidence of neonatal respiratory distress after elective caesarean section: pragmatic randomised trial. *BMJ.* 2005;331(7518):662.
5. Althabe F, Belizán JM, McClure EM, Hemingway-Foday J, et al. A population-based, multifaceted strategy to implement antenatal corticosteroid treatment versus standard care for the reduction of neonatal mortality due to preterm birth in low-income and middle-income countries: the ACT cluster-randomised trial. *Lancet*. 2015;385(9968):629-39.
6. World Health Organization. WHO Recommendations on antenatal corticosteroids for improving preterm birth outcomes. Geneva: WHO; 2022. Licence: CC BY-NC-SA 3.0 IGO.
7. WHO ACTION Trials Collaborators, Oladapo OT, Vogel JP, Piaggio G, Nguyen MH, et al. Antenatal Dexamethasone for Early Preterm Birth in Low-Resource Countries. *N Engl J Med*. 2020;383(26)2514-25.
8. Räikkönen K, Gissler M, Kajantie E. Associations Between Maternal Antenatal Corticosteroid Treatment and Mental and Behavioral Disorders in Children. *JAMA*.

2020;323(19):1924-33.
9. Aviram A, Murphy K, McDonald S, Asztalos E, et al. Antenatal corticosteroids and neurodevelopmental outcomes in late preterm births. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed*. 2022;107(3):250-5.
10. Ninan K, Liyanage SK, Murphy KE, Asztalos EV, McDonald SD. Evaluation of Long-term Outcomes Associated with Preterm Exposure to Antenatal Corticosteroids: A Systematic Review and Meta-analysis. *JAMA Pediatr*. 2022;176(6):e220483.
11. Battarbee AN, Sandoval GJ, Gyamfi-Bannerman C, Blackwell SC, et al. Mechanism of neonatal hypoglycemia after late preterm steroids: are fetal metabolic effects responsible? *Am J Obstet Gynecol*. 2022;227(2):347-9.e4.
12. Yao TC, Chang SM, Wu CS, Tsai YF, et al. Association between antenatal corticosteroids and risk of serious infection in children: nationwide cohort study. *BMJ*. 2023;382:e075835.
13. Schmitz T, Doret-Dion M, Sentilhes L, Parant O, et al. Neonatal outcomes for women at risk of preterm delivery given half dose versus full dose of antenatal betamethasone: a randomised, multicentre, double-blind, placebo-controlled, non-inferiority trial. *Lancet*. 2022;400(10352):592-604.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310130

Niños hospitalizados con influenza en un hospital pediátrico de Argentina durante 2019-2022: ¿qué ha cambiado luego de la pandemia por COVID-19?

Ximena Juárez[a], María F. García Causarano[a], Carmen Burundarena[a], Patricia Dondoglio[a], Luciana Montoto Piazza[b], Gretel Wenk[b], Emilce Haleblian[b], María J. Rial[b], Aldo Cancellara[a]

RESUMEN

Introducción. Durante 2020 y 2021, la circulación de los virus influenza se mantuvo por debajo de lo esperado en todo el mundo. En Argentina, en el año 2022 observamos una circulación ininterrumpida de influenza todo el año. Nuestros objetivos fueron describir los patrones de circulación y las características clínicas de niños internados con influenza.

Población y métodos. Estudio retrospectivo, analítico, observacional. Se incluyeron todos los niños internados en un centro pediátrico con detección del virus influenza durante los años 2019-2022.

Resultados. Se internaron 138 pacientes en 4 años; en 2019 se observó una tasa del 4,5/1000 egresos hospitalarios mientras que en 2022, fue del 15,1/1000. En 2020 y 2021 no hubo casos. En el 2019 la mayoría de los casos ocurrieron en invierno, la causa de la internación fue la infeccción respiratoria aguda baja (IRAB) en el 79 % y se detectó influenza A en el 92 % de los casos. En el 2022, la mayoría de los casos ocurrieron en primavera, el 62 % presentó IRAB y en el 56 % se detectó influenza A. Ambos períodos tuvieron similares frecuencias de vacunación y de comorbilidades.

Conclusiones. En el 2022 se registraron más internaciones por influenza, lo que podría corresponder a que se realizaron métodos diagnósticos moleculares, que son más sensibles, y se observó un cambio en la estacionalidad con más casos en primavera. En 2019 predominó influenza A en infecciones del tracto respiratorio inferior, mientras que en el 2022 influenza A y B fueron similares, y hubo más formas extrapulmonares.

Palabras clave: *influenza; gripe humana; virus influenza A; virus influenza B.*

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10130
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10130.eng

Cómo citar: Juárez X, García Causarano MF, Burundarena C, Dondoglio P, et al. Niños hospitalizados con influenza en un hospital pediátrico de Argentina durante 2019-2022: ¿qué ha cambiado luego de la pandemia por COVID-19? *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310130.

[a] Servicio de Infectología; [b] Laboratorio; Hospital General de Niños Pedro de Elizalde, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.

Correspondencia para *Ximena Juárez: ximenasjuarez@gmail.com*

Financiamiento: *Ninguno.*

Conflicto de intereses: *Ninguno que declarar.*

Recibido: *17-6-2023*
Aceptado: *11-8-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

INTRODUCCIÓN

El virus influenza causa brotes epidémicos anuales de enfermedad respiratoria en otoño-invierno en países templados y los niños juegan un rol importante en la transmisión por la alta tasa de ataque, porque diseminan el virus durante más tiempo y presentan títulos más altos que los adultos.[1] Si bien puede ser grave en todas las edades, representan una mayor carga de enfermedad: se estima que el 20-45 % de los niños se infecta comparado con el 10-20 % de los adultos, y cada año aproximadamente 870 000 niños son hospitalizados en todo el mundo debido a la influenza.[2-5] La población pediátrica supone una importante carga asistencial y consumo de recursos para el sistema sanitario, en atención primaria y ámbito hospitalario.[3,6,7] La tasa de hospitalización y la morbilidad son mayores en niños menores de 2 años y con patología pulmonar crónica, cardiopatías congénitas u otras enfermedades cardiovasculares, metabólicas, renales, hepáticas, hematológicas, neurológicas, neuromusculares e inmunológicas.[8]

El virus influenza ocasiona un espectro clínico amplio, desde cuadros leves como el resfriado y, en niños pequeños, puede causar cuadros semejantes a sepsis, bronquiolitis y neumonía.[8] Asimismo, puede provocar, tanto en niños sanos como en aquellos con comorbilidades, complicaciones a nivel del aparato respiratorio, como falla respiratoria y muerte.[9] En un porcentaje menor, causa manifestaciones extrapulmonares, como neurológicas, cardíacas y músculo-esqueléticas.[10]

Las medidas de confinamiento implementadas para reducir la diseminación del SARS-CoV-2 impactaron también en la transmisión del virus de la gripe; durante los años 2020 y 2021 la circulación de los virus influenza se mantuvo por debajo de lo esperado en todo el mundo.[11]

En América del Sur, la actividad de virus respiratorios también fue baja, exceptuando el SARS-CoV-2, que se mantuvo en niveles moderados a elevados.[12-15] En Argentina, las notificaciones de enfermedad de tipo influenza, bronquiolitis y neumonía, en 2021 fueron menores a las registradas en años previos;[16] en el año 2022 observamos una circulación ininterrumpida de influenza con un gran aumento de casos en septiembre-octubre.[17]

Nuestro objetivo fue describir el patrón de circulación y las características clínicas de niños internados con detección del virus influenza durante los años 2019-2022.

POBLACIÓN Y MÉTODOS

Estudio observacional, analítico y retrospectivo. Se incluyeron niños menores de 18 años internados en el Hospital Elizalde, un centro pediátrico situado en la Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina, entre el 1 de enero de 2019 y el 31 de diciembre de 2022.

Se realizó la búsqueda a través de los registros del Laboratorio de Biología Molecular y Virología de pacientes con detección del virus influenza mediante métodos moleculares como la reacción en cadena de la polimerasa con transcripción inversa en tiempo real (RT-qPCR) o inmunofluorescencia directa en muestras de hisopado nasofaríngeo o aspirados nasofaríngeos tomadas dentro de las primeras 48 horas del ingreso al hospital o del inicio de los síntomas para los niños con adquisición del virus en la comunidad o en el ámbito hospitalario, respectivamente.

Durante el 2019, se realizó inmunofluorescencia directa a todos los pacientes internados con síntomas respiratorios y RT-qPCR únicamente a los pacientes en Unidad de Terapia Intensiva (UTI), Neonatología e inmunosuprimidos (mediante RT-qPCR multiplex [LightMix Modular®] en el equipo Cobas z480 Roche). Para aquellos que ingresaron a ventilación mecánica desde el año 2020, se realizó panel de PCR múltiple de (Biofire® FilmArray Panel Neumonía) y para pacientes en sala común con comorbilidades y según disponibilidad del recurso, Biofire® Filmarray Panel Respiratorio. A partir de mayo del 2022 se realizó RT-qPCR a todos los pacientes internados con síntomas respiratorios (kit Allplex SARS-CoV2/FluA/FluB/RSV Assay con el termociclador CFX96).

Se recolectaron los datos de las historias clínicas a fin de evaluar las variables: fecha de ingreso al hospital, edad, sexo, comorbilidades para gripe, forma clínica de presentación, estado de vacunación para influenza, coinfecciones y evolución durante la internación.

Se describen las variables estudiadas utilizando proporciones con sus intervalos de confianza del 95 %. Para variables continuas, se utilizó promedio y desviación estándar (DE), o mediana y rango intercuartílico (RIC), según correspondiera. Para los datos categóricos, se utilizaron proporciones con sus intervalos de confianza del 95 % y la prueba de chi-cuadrado con la corrección de Yates. El análisis se realizó con el programa Epi Info versión 7.

El presente trabajo contó con la aprobación del Comité de Docencia y Ética del hospital.

RESULTADOS

Durante el período de estudio, se detectó influenza en 170 niños; 14 se excluyeron por ser ambulatorios y 18 por falta de datos. Se analizaron los datos de 138 pacientes.

En relación con la distribución temporal de los casos, el 28 % ocurrió en el año 2019, con el 92 % de influenza A, y el 72 % en el año 2022, con el 56 % de influenza A. Durante los años 2020 y 2021, no hubo casos. En el 2019, el 87 % de las internaciones se produjo en otoño-invierno, mientras que en el 2022, solo el 38 % ocurrió en esos meses (*Figura 1*).

El promedio de edad fue de 56 meses (DE 46); el 38 % fueron menores de 2 años, con una relación varón/mujer de 1:1,02. El 59 % (81) de los pacientes presentaron comorbilidades; la más frecuente fue la patología pulmonar previa en un 58 % (47) (*Figura 2*).

Se identificaron 91 niños con indicación de vacunación antigripal de acuerdo con los lineamientos del Ministerio de Salud. En 71 se obtuvieron datos del carnet de inmunizaciones y solo el 38 % (27) de estos niños se encontraban vacunados.

El 90 % (124) de los aislamientos correspondieron a infecciones adquiridas en la comunidad.

El porcentaje de positividad anual fue similar en ambos períodos, tanto por PCR como inmunofluorescencia. Para PCR fue del 8 % (2019) y el 7 % (2022), y para inmunofluorescencia del 2 % (2019) y el 1 % (2022). Sin embargo, se destaca un aumento en la proporción de muestras que fueron procesadas con métodos moleculares (del 14 % al 60 %).

La forma clínica más frecuente de presentación fue la infección respiratoria aguda baja (IRAB) en el 67 % (92). En el 19 % (26), se presentó como una infección del tracto respiratorio superior y, en el 14 % (20), como manifestaciones extrapulmonares de gripe: miositis en 9, gastrointestinales en 5, neurológicas en 5 y enfermedad de Kawasaki en 1 paciente (*Tabla 1*).

Se internaron 9 pacientes con miositis por influenza, con distribución similar entre ambos sexos y un promedio de edad de 98 meses (DE 24). Todos presentaron dolor en miembros inferiores y aumento de los valores de creatinina-

Figura 1. Distribución temporal de casos y tipos de virus influenza según semana epidemiológica. Años 2019 y 2022

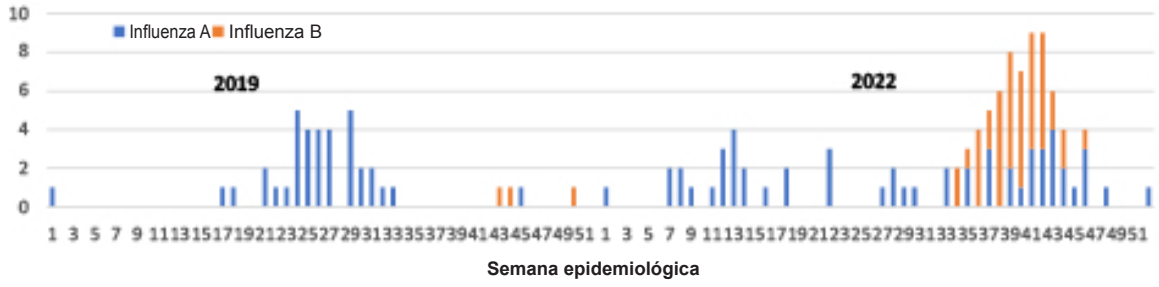
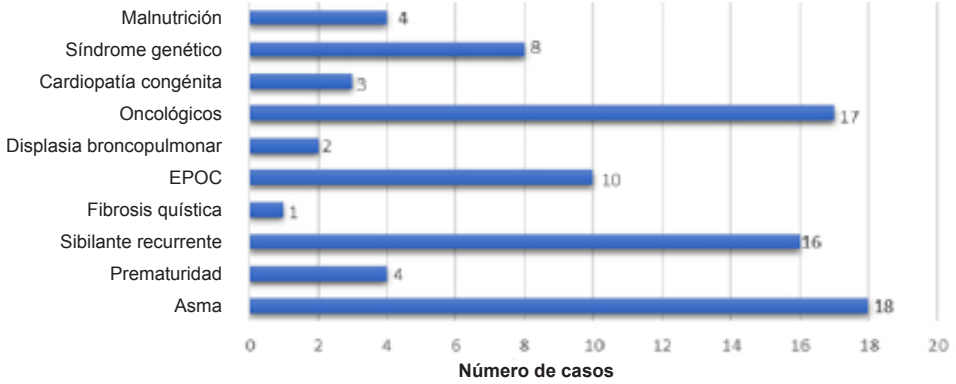


Figura 2. Comorbilidades (n = 81)



EPOC: enfermedad pulmonar obstructiva crónica.

Tabla 1. Comparación entre formas pulmonares (n = 92) y extrapulmonares (n = 46)

	Formas pulmonares (IRAB)	Extrapulmonares	*p*
Sexo	55 % varones	60 % mujeres	
Edad promedio (meses)	42 (DE 41)	84 (DE 44)	*p* <0,01
Influenza A	70 (76 %)	21 (46 %)	*p* <0,01 OR 3,8 (1,8-8)
Vacunación	20 (22 %)	12 (26 %)	NS
Comorbilidades	55 (60 %)	26 (56 %)	NS
Complicaciones	17 (18 %)	7 (15 %)	NS
Oseltamivir	64 (70 %)	16 (35 %)	*p* <0,01 OR 4,2 (2-9)

IRAB: infección respiratoria aguda baja. DE: desviación estándar. NS: diferencia no significativa.

cinasa (CPK) con una mediana al ingreso de 3200 U/l (RIC 2928-6371). Ninguno presentó complicaciones. En 8 casos se detectó influenza B.

En las formas gastrointestinales, el motivo de internación fue la intolerancia a la vía oral y deshidratación. Se detectaron 2 influenza A y 3 influenza B en secreciones respiratorias.

Todas las formas neurológicas se presentaron en niñas, 4 de ellas con antecedente de enfermedad neurológica previa (epilepsia) y con un promedio de edad de 60 meses (DE 46). El motivo de internación fue la presencia de convulsiones, 3 de ellas con fiebre dentro de las 24 horas del evento. En 1 de ellas se realizó estudio de líquido cefalorraquídeo (LCR) por sospecha de encefalitis y presentó citoquímico normal y PCR negativa para virus influenza. Se detectaron 4 casos de influenza A y 1 de influenza B. En los 5 casos se realizó tomografía axial computarizada (TAC) y fue normal.

Un niño de 5 años se internó con fiebre de 4 días asociada a hemorragia conjuntival bilateral, exantema morbiliforme en tronco y queilitis, por lo que se sospechó síndrome inflamatorio multisistémico asociado a COVID-19 (SIM-C) vs. enfermedad de Kawasaki. Presentó además catarro de vía aérea superior y se detectó influenza B en secreciones nasofaríngeas, con PCR para adenovius, SARS-CoV-2, virus respiratorio sincitial (VSR) negativas. Serologías virales (virus de la inmunodeficiencia humana, Epstein-Barr, citomegalovirus) negativas. El ecocardiograma fue normal y recibió gammaglobulina (IVIG) y ácido acetilsalicílico (AAS); completó seguimiento durante 6 meses sin complicaciones.

El 22 % (20) de IRAB requirió cuidados intensivos (UTIP) y fue más frecuente en niños de menor edad (*Tabla 2*). Permanecieron en ventilación mecánica un promedio de 13,44 días (DE 7,7). El 55 % (11) de los niños con requerimiento de UTIP presentaron coinfecciones; 5 fueron bacterianas, la más frecuente fue *Streptococcus pneumoniae* en 2 pacientes, seguida de *Haemophillus influenzae* (1), *Streptococcus pyogenes* (1) y *Staphylococcus*

Tabla 2. Comparación entre internación en UTIP (n = 20) vs. no UTIP (n = 118)

	UTIP	No UTIP	*p*
Edad (meses)	17 (RIQ 7-39)	51 (RIQ 16-102)	P <0,01
Tipo	Influenza A 14 Influenza B 6	Influenza A 77 Influenza B 41	NS
IRAB	20	65	NS
Presencia de coinfecciones	11	10	NS
Vacunación	3	29	NS
Comorbilidades	11	70	NS

NS: diferencia no significativa; IRAB: infección respiratoria aguda baja.

aureus meticilino resistente (1).

El 59 % de los pacientes en forma global recibieron oseltamivir; todos los niños en UTIP recibieron tratamiento antiviral durante 5 días. La media global de estancia hospitalaria fue de 9,7 días (DE 9,9).

Falleció una paciente de 11 meses, sibilante recurrente, no vacunada y con rescate de influenza A. Presentaba, además, bacteriemia por *Haemophilus influenzae.*

DISCUSIÓN

En nuestro país, fue notable la casi ausencia de circulación viral durante el invierno de 2020. Según datos oficiales, en el año 2021, hubo un aumento en las notificaciones clínicas de enfermedad tipo influenza, bronquiolitis y neumonía respecto al 2020, pero en menor número que en años previos, con casos aislados de adenovirus, parainfluenza, metapneumovirus e influenza.[16] En nuestro hospital, durante el 2020 no se detectaron virus respiratorios habituales en niños internados con IRAB, pero se internaron más de 500 casos de infecciones por SARS-CoV-2 con una estacionalidad similar a la de los virus respiratorios con un pico alrededor de la semana epidemiológica (SE) 26.[18]

Al analizar la distribución del virus influenza durante los años previos en nuestro país, se observa que, para el período 2015 a 2019, se registra un ascenso en el número de casos a partir de la SE 16-24 con un pico variable según el año, en invierno. Desde el inicio de la pandemia por COVID-19, en Argentina, la actividad de influenza se mantuvo baja. Sin embargo, a partir de las últimas semanas del año 2021 y el inicio del 2022, se registró un ascenso del número de casos.[19] En nuestra serie, la distribución de casos en el 2019 fue comparable con los registros nacionales de años previos y en el 2022 observamos una pérdida de estacionalidad con circulación durante todo el año, con mayor cantidad de casos en primavera.

En coincidencia con datos nacionales, donde el mayor número de casos se detectó en niños menores de 5 años,[19] en nuestra serie la edad promedio fue de 4,6 años.

En el 2022 registramos, en nuestro hospital, una tasa de incidencia superior al 2019, esto puede deberse en parte a que en este período se amplió el uso de técnicas moleculares con mayor sensibilidad, pero también datos nacionales muestran que hubo mayor cantidad de casos.[17]

En nuestra serie, el 41 % de los pacientes fueron previamente sanos, similar a lo reportado en la literatura.[7,8]

Como consecuencia de la pandemia por COVID-19, 23 millones de niños no recibieron las vacunas correspondientes en el 2020 y al menos 17 millones no recibieron ninguna vacuna.[20] Según datos de la Dirección de Control de Enfermedades Inmunoprevenibles (DICEI) en el año 2019 la cobertura de 1.ª y 2.ª dosis de antigripal para niños de 6-24 meses fue del 91 % y el 75 %, con descenso al 85 % y al 69 % para el 2020.[21]

La IRAB fue la manifestación más común de los pacientes internados con influenza y se presentó en el 67 % de los casos. El 14 % de los pacientes tuvo manifestaciones extrapulmonares. La más frecuente fue la miositis, que es una forma benigna y autolimitada de la enfermedad que se manifiesta con impotencia funcional y elevación en los valores séricos CPK. En el 88 % de nuestros pacientes se detectó influenza B, similar a lo que describe Kerr J *et al.*,[22] en un estudio publicado en el año 2021 que incluyó 49 casos; el 85 % fueron por influenza B. Las manifestaciones del aparato gastrointestinal son frecuentes en niños y pueden presentarse en el 10-30 %.[23] En nuestra serie, 5 niños se internaron con diarrea, dolor abdominal y vómitos; 3 estaban deshidratados. Todos presentaron cuadro de catarro de vías aéreas superiores con buena evolución.

La infección por influenza puede conducir a una variedad de manifestaciones neurológicas, que incluyen formas graves y progresivas, como la encefalopatía necrotizante aguda (ANE), así como síndromes posinfecciosos.[10] En nuestro trabajo, 5 pacientes presentaron manifestaciones neurológicas, lo que representa el 3,6 % de los pacientes internados, una frecuencia inferior a la reportada por otros trabajos que informaron cifras de 7,6-16 %.[24,25] La mayoría presentó condiciones neurológicas previas; la manifestación clínica más común fueron las convulsiones febriles y se detectó con mayor frecuencia influenza A, al igual que en otras series.[24,25]

En la literatura, Banday *et al.*[26] revisa 43 casos de enfermedad de Kawasaki asociados a influenza, con una edad promedio de 41 meses, mayor frecuencia en varones y un 60 % de formas incompletas, compromiso de las arterias coronarias en el 50 %, buena respuesta a la IVIG y sin complicaciones por el uso de AAS. El caso presentado de nuestra serie era un varón de 5 años, con una forma incompleta de

la enfermedad, sin manifestaciones cardíacas ni complicaciones a largo plazo.

Las coinfecciones del virus influenza con otros virus y bacterias se asocian a formas más graves de la enfermedad. Se han descrito en el 26 % de los niños que se internan y en el 50 % de los que requieren cuidados intensivos,[27] similar a nuestro trabajo. En nuestra serie, al igual que lo reportado por la literatura, la coinfección más frecuente fue con *S. pneumoniae.*[28]

El 22 % requirió UTIP y el 75 % fueron menores de 3 años, con detección en el 80 % de influenza A, similar a otros trabajos.[29] En nuestra serie, hubo una paciente fallecida: una lactante sibilante de 11 meses no vacunada con bacteriemia por *H. influenzae* y rescate de influenza A.

El oseltamivir es el antiviral de elección para influenza A y B, y debe ofrecerse en forma precoz a todos los niños hospitalizados por dicha causa, así como también a aquellos con formas complicadas o progresivas.[8] En nuestra serie solo el 59 % de los niños recibió oseltamivir.

El trabajo presenta limitaciones. Al ser un estudio retrospectivo, no contamos con seguimiento de los casos para evaluar secuelas a largo plazo. Por otro lado, dado que se utilizaron distintos métodos diagnósticos con diferente sensibilidad, esto podría sobreestimar el número de casos.

CONCLUSIONES

Luego de la pandemia por COVID-19, se observó un comportamiento diferente del virus influenza. Se registraron más internados por esta causa en el 2022 con respecto al 2019, pero esto podría deberse a que se analizó una mayor proporción de muestras de niños internados con métodos moleculares más sensibles. Se observó un comportamiento diferente en el patrón de circulación viral, ya que en el 2019 la mayoría de las infecciones ocurrieron en época invernal y en 2022, en primavera. Sin embargo, el período pospandemia analizado es muy corto para definir un cambio real. En el 2019, la mayoría de los niños presentaron IRAB y se detectó influenza A. En el 2022 se registraron más formas extrapulmonares y una frecuencia similar de influenza A y B. La cobertura de vacunación y las comorbilidades fueron similares en ambos períodos. ■

REFERENCIAS

1. Dawood F, Bresee J. *Influenza Viruses*. In Long SS, Prober CG, Fischer M (eds). Principles and Practice of Pediatric Infectious Diseases. 5th ed. St. Philadelphia: Elsevier; 2018:1181-90.e5.
2. Sociedad Argentina de Pediatría. Gripe: actualización 2022. [Consulta: 12 de junio de 2023]. Disponible en:https://www.sap.org.ar/uploads/documentos/documentos_gripe-actualizacion-abril-2022-296.pdf
3. Ruf BR, Knuf M. The burden of seasonal and pandemic influenza in infants and children. *Eur J Pediatr*. 2014;173(3):265-76.
4. Fraaij PL, Heikkinen T. Seasonal influenza: the burden of disease in children. *Vaccine*. 2011;29(43):7524-8.
5. Lafond KE, Nair H, Rasooly MH, Valente F, et al. Global Role and Burden of Influenza in Pediatric Respiratory Hospitalizations, 1982-2012: A Systematic Analysis. *PLoS Med.* 2016;13(3):e1001977. Erratum in: *PLoS Med*. 2016;13(6):e1002060.
6. Arostegi Kareaga N, Montes M, Pérez-Yarza EG, Sardón O, et al. Características clínicas de los niños hospitalizados por infección por virus Influenza. *An Pediatr (Barc)*. 2005;62(1):5-12.
7. Munoz FM. Influenza virus infection in infancy and early childhood. *Paediatr Respir Rev*. 2003;4(2):99-104.
8. American Academy of Pediatrics. *Influenza* infections. In: Kimberlin DW, Barnett ED, Lynfield R, Sawyer MH, eds. Red Book: 2021 Report of the Committee on Infectious Diseases. Itasca, IL: American Academy of Pediatrics: 2021:447-57.
9. Mistry RD, Fischer JB, Prasad PA, Coffin SE, Alpern ER. Severe complications in influenza-like illnesses. *Pediatrics*. 2014;134(3):e684-90.
10. Sellers SA, Hagan RS, Hayden FG, Fischer WA 2nd. The hidden burden of influenza: A review of the extra-pulmonary complications of influenza infection. *Influenza Other Respir Viruses*. 2017;11(5):372-93.
11. Organización Panamericana de la Salud/Organización Mundial de la Salud. Informe de situación de Influenza SE41 de 2020. Actualización Regional: Influenza y Otros virus respiratorios octubre 2020. [Consulta: de 3 mayo de 2022]. Disponible en: https://www.paho.org/es/documentos/actualizacion-regional-influenza-semana-epidemiologica-41-20-octubre-2020
12. Van Brusselen D, De Troeyer K, Ter Haar E, Vander Auwera A, et al. Bronchiolitis in COVID-19 times: a nearly absent disease? *Eur J Pediatr*. 2021;180(6):1969-73.
13. Hills T, Kearns N, Kearns C, Beasley R. Influenza control during the COVID-19 pandemic. *Lancet*. 2020;396(10263):1633-4.
14. Yeoh DK, Foley DA, Minney-Smith CA, Martin AC, et al. Impact of Coronavirus Disease 2019 Public Health Measures on Detections of Influenza and Respiratory Syncytial Virus in Children During the 2020 Australian Winter. *Clin Infect Dis*. 2021;72(12):2199-202.
15. Olsen SJ, Azziz-Baumgartner E, Budd AP, Brammer L, et al. Decreased Influenza Activity During the COVID-19 Pandemic - United States, Australia, Chile, and South Africa, 2020. *MMWR Morb Mortal Wkly Rep*. 2020;69(37):1305-9.
16. Argentina. Ministerio de Salud. Boletín integrado de vigilancia 2021;570;SE40. [Consulta: 31 de mayo de 2023]. Disponible en: https://bancos.salud.gob.ar/recurso/boletin-integrado-de-vigilancia-n570-se40-2021
17. Argentina. Ministerio de Salud. Comunicación epidemiológica, 18 de noviembre de 2022. Aumento de casos de influenza. [Consulta: 2 de junio de 2023]. Disponible en: https://bancos.salud.gob.ar/sites/default/files/2022-11/Comunicacion-epidemiologica_influenza22-11-2022.pdf

18. Ferrero F, Ossorio MF. Is there a place for bronchiolitis in the COVID-19 era? Lack of hospitalizations due to common respiratory viruses during the 2020 winter. *Pediatr Pulmonol*. 2021;56(7):2372-3.
19. Argentina. Ministerio de Salud. Actualización epidemiológica, 16 de marzo de 2022. Circulación de Influenza en contexto de la pandemia de COVID-19. [Consulta: 4 de junio de 2023] disponible en: https://bancos.salud.gob.ar/sites/default/files/2022-03/Actualizacion-influenza-16-03-2022.pdf
20. UNICEF. La pandemia de COVID-19 causa un importante retroceso en la vacunación infantil, según nuevos datos de la OMS y UNICEF. [Consulta: 28 de mayo de 2023]. Disponible en: https://www.unicef.org/es/comunicados-prensa/pandemia-covid19-causa-importante-retroceso-en-vacunacion-infantil
21. Argentina. Ministerio de Salud. Dirección de Control de Enfermedades Inmunoprevenibles. Coberturas de Vacunación por Jurisdicción. Calendario Nacional de Vacunación 2009-2020. [Consulta: 28 de mayo de 2023]. Disponible en: https https://bancos.salud.gob.ar/sites/default/files/2021-12/coberturas-de-vacunacion-por-jurisdiccion-cnv-2009-2020.pdf
22. Kerr J, Macartney K, Britton PN. Influenza-associated myositis: a single-centre, 5-year retrospective study. *Eur J Pediatr*. 2021;180(2):577-84.
23. Kondrich J, Rosenthal M. Influenza in children. *Curr Opin Pediatr*. 2017;29(3):297-302.
24. Jantarabenjakul W, Paprad T, Paprad T, Anugulruengkitt S, et al. Neurological complications associated with influenza in hospitalized children. *Influenza Other Respir Viruses*. 2023;17(1):e13075.
25. Antoon JW, Hall M, Herndon A, Johnson DP, et al. Prevalence, Risk Factors, and Outcomes of Influenza-Associated Neurologic Complications in Children. *J Pediatr*. 2021;239:32-8.e5.
26. Banday AZ, Arul A, Vignesh P, Singh MP, et al. Kawasaki disease and influenza-new lessons from old associations. *Clin Rheumatol*. 2021;40(7):2991-9.
27. Klein EY, Monteforte B, Gupta A, Jiang W, et al. The frequency of influenza and bacterial coinfection: a systematic review and meta-analysis. *Influenza Other Respir Viruses*. 2016;10(5):394-403.
28. Hsing TY, Lu CY, Chang LY, Liu YC, et al. Clinical characteristics of influenza with or without Streptococcus pneumoniae co-infection in children. *J Formos Med Assoc*. 2022;121(5):950-7.
29. Shi T, Nie Z, Huang L, Fan H, et al. Mortality risk factors in children with severe influenza virus infection admitted to the pediatric intensive care unit. *Medicine (Baltimore)*. 2019;98(35):e16861.

Original article

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310130

Children with influenza admitted at a children's hospital in Argentina in the 2019–2022 period: What has changed after the COVID-19 pandemic?

Ximena Juárez[a], María F. García Causarano[a], Carmen Burundarena[a], Patricia Dondoglio[a], Luciana Montoto Piazza[b], Gretel Wenk[b], Emilce Haleblian[b], María J. Rial[b], Aldo Cancellara[a]

ABSTRACT

Introduction. During 2020 and 2021, the circulation of influenza virus remained below expectations worldwide. In Argentina, in 2022, we observed an uninterrupted circulation of influenza all year round. Our objectives were to describe the circulation patterns and clinical characteristics of hospitalized children with influenza.

Population and methods. Retrospective, analytical, observational study. All children with influenza virus admitted to a children's hospital during the 2019–2022 period were included.

Results. A total of 138 patients were admitted over 4 years; in 2019, the rate of hospital discharges was 4.5/1000, compared to 15.1/1000 in 2022. No cases were recorded in 2020 and 2021. In 2019, most cases were observed in the winter; in 79%, the cause was acute lower respiratory tract infection (ALRTI); influenza A was detected in 92%. In 2022, most cases occurred in the spring; 62% developed ALRTI; and influenza A was detected in 56%. Similar rates of vaccination and comorbidities were observed in both periods.

Conclusions. In 2022, more hospitalizations due to influenza were recorded, which may have correlated with the use of more sensitive molecular diagnostic testing and a change in seasonality, with more cases observed in the spring. In 2019, influenza A predominated in lower respiratory tract infections, while in 2022, cases of influenza A and B were similar, with more extra-pulmonary forms.

Keywords: *influenza; human influenza; influenza A virus; influenza B virus.*

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10130.eng

To cite: Juárez X, García Causarano MF, Burundarena C, Dondoglio P, et al. Children with influenza admitted at a children's hospital in Argentina in the 2019–2022 period: What has changed after the COVID-19 pandemic? *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310130.

[a] Department of Infectious Diseases; [b] Laboratory; Hospital General de Niños Pedro de Elizalde, City of Buenos Aires, Argentina.

Correspondence to *Ximena Juárez: ximenasjuarez@gmail.com*

Funding*: None.*

Conflict of interest*: None.*

Received*: 6-17-2023*
Accepted*: 8-11-2023*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

INTRODUCTION

Influenza virus causes annual epidemic outbreaks of respiratory disease in the autumn-winter season in temperate countries; children play an important role in dissemination because of the high attack rate, because they shed the virus for a longer period and have higher titers than adults.[1] While influenza may be serious at all ages, children account for a greater burden of disease: an estimated 20–45% of children become infected compared to 10–20% of adults, and each year approximately 870 000 children are hospitalized worldwide due to influenza.[2–5] The pediatric population accounts for a significant healthcare burden and resource use for the healthcare system, both in primary care and hospital settings.[3,6,7] The hospitalization rate and morbidity are higher in children younger than 2 years with chronic pulmonary disease, congenital heart disease, or other cardiovascular, metabolic, kidney, liver, hematological, neurological, neuromuscular, and immune diseases.[8]

Influenza virus causes a wide range of clinical manifestations, including mild symptoms, such as colds, whereas, in young children, it may cause sepsis-like symptoms, bronchiolitis, and pneumonia.[8] Likewise, both in healthy children and those with comorbidities, it may cause complications at the respiratory system level, such as respiratory failure and death.[9] In a smaller percentage, influenza virus causes extra-pulmonary manifestations, such as neurological, cardiac, and musculoskeletal symptoms.[10]

The lockdown policy implemented to reduce the dissemination of SARS-CoV-2 also impacted influenza virus transmission; during 2020 and 2021, the circulation of influenza virus remained below expectations worldwide.[11]

In South America, the activity of respiratory viruses was also low, except for SARS-CoV-2, which remained in moderate to high levels.[12–15] In Argentina, reports of influenza-like illness, bronchiolitis, and pneumonia in 2021 were lower than in previous years;[16] in 2022, an uninterrupted circulation of influenza virus, with a large increase in cases in September-October, was observed.[17]

Our objective was to describe the circulation pattern and clinical characteristics of children with influenza virus hospitalized during 2019–2022.

POPULATION AND METHODS

This was an observational, analytical, and retrospective study. Children younger than 18 years old admitted to Hospital Elizalde, a children's hospital located in the City of Buenos Aires, Argentina, between January 1st, 2019 and December 3 1st, 2022 were included.

A search of the records of the Laboratory of Molecular Biology and Virology was conducted for patients in whom influenza virus was detected by molecular testing, such as reverse transcription quantitative polymerase chain reaction (RT-qPCR) or direct immunofluorescence in nasopharyngeal swabs or nasopharyngeal aspirates collected within 48 hours of hospital admission or onset of symptoms in the case of children with community- or hospital-acquired infection, respectively.

During 2019, direct immunofluorescence was performed on all patients hospitalized with respiratory symptoms, whereas RT-qPCR was done only in immunocompromised patients or those admitted to the Intensive Care Unit (ICU) or the Neonatology Unit (using multiplex RT-qPCR [LightMix Modular®] with the Roche Cobas z480 analyzer). For patients requiring mechanical ventilation, since 2020, a multiple PCR panel (Biofire® FilmArray® Pneumonia Panel) was performed, whereas Biofire® Filmarray® Respiratory Panel was used in patients in the general hospitalization ward in patients with comorbidities, depending on resource availability. As of May 2022, an RT-qPCR was performed on all hospitalized patients with respiratory symptoms (Allplex SARS-CoV-2/FluA/FluB/RSV Assay kit with CFX96 thermal cycler).

Data from medical records were collected to assess the following variables: date of hospital admission, age, sex, comorbidities for influenza, clinical presentation, influenza vaccination status, co-infections, and course during hospitalization.

The study variables are described using proportions and their 95% confidence intervals. Continuous variables were described as average and standard deviation (SD) or as median and interquartile range (IQR), as appropriate. Ratios and their corresponding 95% confidence intervals and the χ^2 test with Yates' correction were used for categorical data. Analysis was done using the Epi Info version 7 software.

The study was approved by the hospital's Teaching and Ethics Committee.

RESULTS

During the study period, influenza was detected in 170 children; 14 were excluded because they were outpatients and 18 because of lack of data. Data from 138 patients were analyzed.

In relation to the temporal distribution of cases, 28% occurred in 2019, of which 92% corresponded to influenza A; 72% occurred in 2022, of which 56% corresponded to influenza A. No cases were recorded in 2020 and 2021. In 2019, 87% of hospitalizations occurred in autumn-winter, while in 2022, only 38% occurred in those months (*Figure 1*).

The mean age of patients was 56 months (SD: 46); 38% were younger than 2 years, with a male to female ratio of 1:1.02. Comorbidities were observed in 59% (81) of patients; the most frequent comorbidity was previous pulmonary disease in 58% (47) (*Figure 2*).

Ninety-one children were identified who had an indication for the flu vaccine as per the guidelines of the Ministry of Health. Data from the vaccination cards of 71 children were obtained; only 38% (27) of these children were vaccinated.

Ninety percent (124) of the specimens corresponded to community-acquired infections.

The annual percentage of positivity was similar in both periods, both by PCR and immunofluorescence testing. PCR testing was positive in 8% (2019) and 7% (2022), whereas immunofluorescence testing was positive in 2% (2019) and 1% (2022) of cases. However, there was an increase in the proportion of samples that were processed with molecular methods (from 14% to 60%).

The most frequent clinical form of presentation was acute lower respiratory tract infection (ALRTI) in 67% (92). In 19% (26), the clinical form corresponded to upper respiratory tract infection and, in 14% (20), to extra-pulmonary manifestations of influenza: myositis (9), gastrointestinal (5), neurological (5), and Kawasaki disease (1) (*Table 1*).

Nine patients were hospitalized with influenza-induced myositis, with a similar distribution between both sexes and a mean age of 98 months (SD: 24). All patients had pain in the lower limbs and increased creatinine kinase (CPK) levels with a median value of 3200 U/L (IQR: 2928–6371) at the time of admission. No patient developed complications. Influenza B was detected in 8 cases.

In the gastrointestinal forms, the reason for hospitalization was oral intolerance and dehydration. Influenza A and influenza B were

Figure 1. Temporal distribution of cases and types of influenza virus by epidemiological week. Years 2019 and 2022

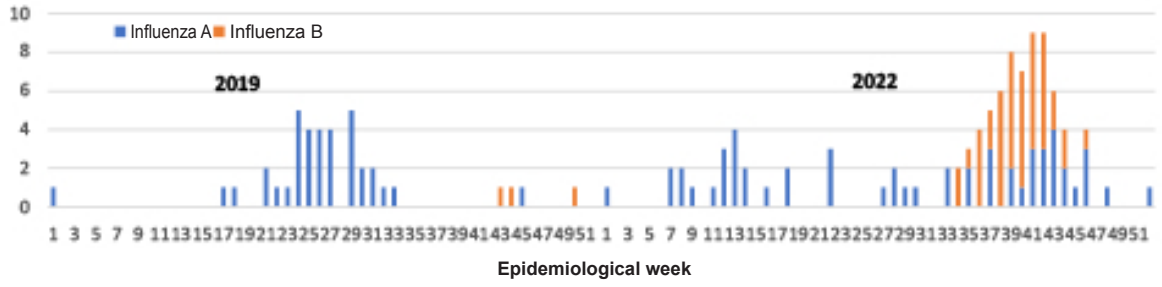
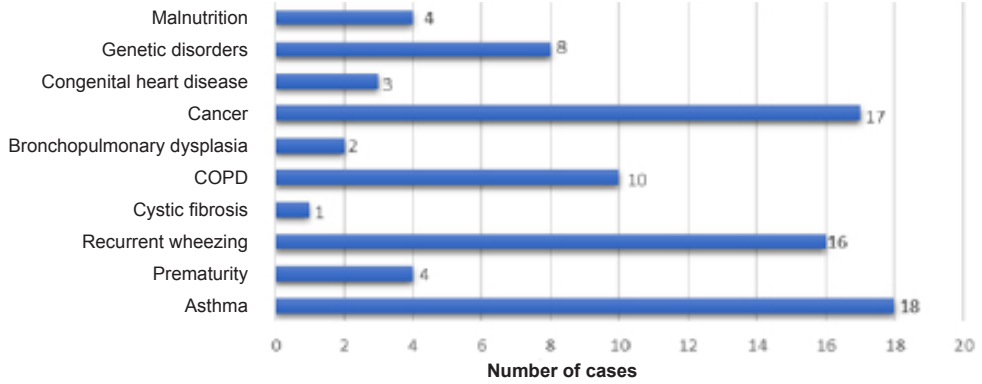


Figure 2. Comorbidities (n = 81)



COPD: chronic obstructive pulmonary disease.

Table 1. Comparison between pulmonary (n = 92) and extra-pulmonary forms (n = 46)

	Pulmonary forms (ALRTI)	Extra-pulmonary forms	*p*
Sex	55% males	60% females	
Average age (months)	42 (SD: 41)	84 (SD: 44)	$p < 0.01$
Influenza A	70 (76%)	21 (46 %)	$p < 0.01$ OR: 3.8 (1.8–8)
Vaccination	20 (22 %)	12 (26 %)	NS
Comorbidities	55 (60 %)	26 (56 %)	NS
Complications	17 (18 %)	7 (15 %)	NS
Oseltamivir	64 (70 %)	16 (35 %)	$p < 0.01$ OR: 4.2 (2-9)

ALRTI: acute lower respiratory tract infection. SD: standard deviation. NS: not significant difference.

detected in 2 and 3 specimens of respiratory tract secretions, respectively.

All neurological forms were reported in girls; 4 of them had a history of previous neurological disease (epilepsy); the average age was 60 months (SD: 46). The reason for hospitalization was the presence of seizures, 3 of them developed fever within 24 hours of the event. A cerebrospinal fluid (CSF) test was done in 1 of them due to suspected encephalitis; the CSF cytochemistry was normal and the PCR for influenza virus was negative. Four cases of influenza A and 1 case of influenza B were detected. A computed tomography (CT) scan was done in all 5 cases, which was normal.

A 5-year-old boy was admitted with fever for the past 4 days associated with bilateral conjunctival hemorrhage, measles-like rash on the trunk, and cheilitis, so multisystemic inflammatory syndrome associated with COVID-19 (MIS-C) versus Kawasaki disease was suspected. He also had upper respiratory tract catarrh. Influenza B was detected in nasopharyngeal secretions, with a negative PCR for adenovirus, SARS-CoV-2, and respiratory syncytial virus (RSV). The viral serologies (human immunodeficiency virus, Epstein-Barr virus, cytomegalovirus) were negative. The echocardiogram was normal. The patient received gamma globulin (IVIG) and acetylsalicylic acid (ASA) and completed a 6-month follow-up period without complications.

Admission to the pediatric intensive care unit (PICU) was required in 22% (20) of ALRTI cases, which was more common in younger children (*Table 2*). Mechanical ventilation was used for an average of 13.44 days (SD: 7.7). Among children who required admission to the PICU, 55% (11) had co-infections; 5 corresponded to bacterial infections; the most common microorganism was *Streptococcus pneumoniae* in 2 patients, followed by *Haemophilus* influenzae (1), *Streptococcus pyogenes* (1), and methicillin-resistant *Staphylococcus aureus* (1).

Overall, 59% of patients received oseltamivir; all children in the PICU received antiviral therapy

Table 2. Comparison between hospitalization in the PICU (n = 20) versus outside the PICU (n = 118)

	PICU	Outside the PICU	*p*
Age (months old)	17 (IQR: 7–39)	51 (IQR: 16-102)	$P < 0.01$
Type	Influenza A 14 Influenza B 6	Influenza A 77 Influenza B 41	NS
ALRTI	20	65	NS
Presence of co-infections	11	10	NS
Vaccination	3	29	NS
Comorbidities	11	70	NS

NS: not significant difference; ALRTI: acute lower respiratory tract infection.

for 5 days. The overall mean length of hospital stay was 9.7 days (SD: 9.9).

An 11-month-old female patient with recurrent wheezing, who had not been vaccinated, and in whom influenza A was detected, died. She also had bacteremia due to *Haemophilus influenzae.*

DISCUSSION

In our country, the near absence of viral circulation during the winter of 2020 was remarkable. According to official data, in 2021, the clinical reports of influenza-like illness, bronchiolitis, and pneumonia increased compared to 2020, but they were fewer than in previous years, with isolated cases of adenovirus, parainfluenza, metapneumovirus, and influenza.[16] In our hospital, in 2020, no usual respiratory viruses were detected in children admitted with ALRTI, but more than 500 patients with SARS-CoV-2 infection were hospitalized with a seasonality similar to that of respiratory viruses, with a peak around epidemiological week (EW) 26.[18]

The analysis of the distribution of influenza virus during the previous years in our country shows that, for the 2015–2019 period, there was an increase in the number of cases as of EW 16–24, with a variable peak depending on the year, in winter. Since the onset of the COVID-19 pandemic, in Argentina, influenza activity has remained low. However, as of late 2021 and early 2022, the number of cases increased.[19] In our series, the distribution of cases in 2019 was similar to national reports from previous years; in 2022, we observed a loss of seasonality with year-round circulation, with higher numbers of cases in the spring.

Consistent with national data, where the highest number of cases was detected in children under 5 years of age;[19] the mean age in our series was 4.6 years.

In 2022, in our hospital, the incidence rate recorded was higher compared to 2019; in part, this may be due to the fact that, in this period, the use of molecular techniques with greater sensitivity has expanded, but also that national data show that there was a higher number of cases.[17]

In our series, 41% of patients were previously healthy, similar to what was reported in the bibliography.[7,8]

As a consequence of the COVID-19 pandemic, 23 000 000 children did not receive the corresponding vaccines in 2020 and at least 17 000 000 children did not receive any vaccine.[20] According to data from the Division for the Control of Vaccine-Preventable Diseases (Dirección de Control de Enfermedades Inmunoprevenibles, DICEI), in 2019, the coverage of the first and second doses of the flu vaccine for children aged 6–24 months was 91% and 75%, respectively, with a decrease to 85% and 69% by 2020.[21]

An ALRTI was the most common manifestation in patients hospitalized with influenza and was present in 67% of cases. Also, 14% of patients developed extra-pulmonary manifestations. The most frequent manifestation was myositis, which is a benign, self-limited form of the disease that presents with functional impotence and increased serum CPK levels. Influenza B was detected in 88% of our patients, similar to what was described by Kerr J. et al.[22] in a study published in 2021 that included 49 cases; 85% were due to influenza B. Gastrointestinal tract manifestations are common in children and may occur in 10–30%.[23] In our series, 5 children were admitted with diarrhea, abdominal pain, and vomiting; 3 were dehydrated. All of them had upper respiratory tract catarrh with a favorable evolution.

Influenza infection may lead to a variety of neurological manifestations, including severe and progressive forms, such as acute necrotizing encephalopathy (ANE), as well as post-infectious syndromes.[10] In our study, 5 patients developed neurological manifestations, which accounts for 3.6% of hospitalized patients; such frequency was lower than the 7.6–16% frequency reported in other studies.[24,25] Most of them had previous neurological conditions; the most common clinical manifestation was febrile seizures; influenza A was detected more frequently, as in other series.[24,25]

In the bibliography, Banday et al.[26] reviewed 43 cases of influenza-associated Kawasaki disease, with a mean age of 41 months, and found a higher frequency in males, incomplete form in 60%, involvement of coronary arteries in 50%, an adequate response to IVIG, and no complications from the use of ASA. The case described in our series referred to a 5-year-old male, with an incomplete form of the disease, without cardiac manifestations or long-term complications.

Co-infections of influenza virus and other viruses and bacteria are associated with more severe forms of the disease. These have been described in 26% of hospitalized children and in 50% of those requiring intensive care,[27] similar to

what was reported in our study. In our series, as mentioned in the bibliography, the most frequent co-infection corresponded to *S. pneumoniae*.[28]

Among our patients, 22% required admission to the PICU; 75% were under 3 years of age; and influenza A was detected in 80%, similar to the observations of other studies.[29] In our series, 1 patient died: an 11-month-old female infant with wheezing, bacteremia due to *H. influenzae*, influenza A detection, and who had not been vaccinated.

Oseltamivir is the antiviral therapy of choice for influenza A and B and should be offered early to all children hospitalized due to influenza A and B, as well as to those with complicated or progressive forms.[8] In our series, only 59% of children received oseltamivir.

This study has limitations. Given the retrospective nature of this study, it was not possible to obtain follow-up data to assess long-term sequelae. In addition, since different diagnostic methods with a varying sensitivity were used, the number of cases may have been overestimated.

CONCLUSIONS

After the COVID-19 pandemic, the influenza virus showed a different behavior. More hospitalizations due to influenza were recorded in 2022 compared to 2019, but this could be due to a higher proportion of samples from hospitalized children being tested with more sensitive molecular methods. A different behavior was observed in the pattern of virus circulation, with most infections occurring in the winter of 2019 and in the spring of 2022. However, the studied post-pandemic period is too short to define an actual change. In 2019, most children developed ALRTI and influenza A virus was detected. In 2022, more extra-pulmonary forms and a similar frequency of influenza A and B were recorded. Vaccination coverage and comorbidities were similar in both periods. ■

REFERENCES

1. Dawood F, Bresee J. *Influenza Viruses*. In Long SS, Prober CG, Fischer M (eds). Principles and Practice of Pediatric Infectious Diseases. 5th ed. St. Philadelphia: Elsevier; 2018:1181-90.e5.
2. Sociedad Argentina de Pediatría. Gripe: actualización 2022. [Accessed on: June 12th, 2023]. Available at: https://www.sap.org.ar/uploads/documentos/documentos_gripe-actualizacion-abril-2022-296.pdf
3. Ruf BR, Knuf M. The burden of seasonal and pandemic influenza in infants and children. *Eur J Pediatr*. 2014;173(3):265-76.
4. Fraaij PL, Heikkinen T. Seasonal influenza: the burden of disease in children. *Vaccine*. 2011;29(43):7524-8.
5. Lafond KE, Nair H, Rasooly MH, Valente F, et al. Global Role and Burden of Influenza in Pediatric Respiratory Hospitalizations, 1982-2012: A Systematic Analysis. *PLoS Med*. 2016;13(3):e1001977. Erratum in: *PLoS Med*. 2016;13(6):e1002060.
6. Arostegi Kareaga N, Montes M, Pérez-Yarza EG, Sardón O, et al. Características clínicas de los niños hospitalizados por infección por virus Influenza. *An Pediatr (Barc)*. 2005;62(1):5-12.
7. Munoz FM. Influenza virus infection in infancy and early childhood. *Paediatr Respir Rev*. 2003;4(2):99-104.
8. American Academy of Pediatrics. *Influenza* infections. In: Kimberlin DW, Barnett ED, Lynfield R, Sawyer MH, eds. Red Book: 2021 Report of the Committee on Infectious Diseases. Itasca, IL: American Academy of Pediatrics: 2021:447-57.
9. Mistry RD, Fischer JB, Prasad PA, Coffin SE, Alpern ER. Severe complications in influenza-like illnesses. *Pediatrics*. 2014;134(3):e684-90.
10. Sellers SA, Hagan RS, Hayden FG, Fischer WA 2nd. The hidden burden of influenza: A review of the extra-pulmonary complications of influenza infection. *Influenza Other Respir Viruses*. 2017;11(5):372-93.
11. Organización Panamericana de la Salud/Organización Mundial de la Salud. Informe de situación de Influenza SE41 de 2020. Actualización Regional: Influenza y Otros virus respiratorios octubre 2020. [Accessed on: May 3rd, 2022]. Available at: https://www.paho.org/es/documentos/actualizacion-regional-influenza-semana-epidemiologica-41-20-octubre-2020
12. Van Brusselen D, De Troeyer K, Ter Haar E, Vander Auwera A, et al. Bronchiolitis in COVID-19 times: a nearly absent disease? *Eur J Pediatr*. 2021;180(6):1969-73.
13. Hills T, Kearns N, Kearns C, Beasley R. Influenza control during the COVID-19 pandemic. *Lancet*. 2020;396(10263):1633-4.
14. Yeoh DK, Foley DA, Minney-Smith CA, Martin AC, et al. Impact of Coronavirus Disease 2019 Public Health Measures on Detections of Influenza and Respiratory Syncytial Virus in Children During the 2020 Australian Winter. *Clin Infect Dis*. 2021;72(12):2199-202.
15. Olsen SJ, Azziz-Baumgartner E, Budd AP, Brammer L, et al. Decreased Influenza Activity During the COVID-19 Pandemic - United States, Australia, Chile, and South Africa, 2020. *MMWR Morb Mortal Wkly Rep*. 2020;69(37):1305-9.
16. Argentina. Ministerio de Salud. Boletín integrado de vigilancia 2021;570;SE40. [Accessed on: May 31st, 2023]. Available at: https://bancos.salud.gob.ar/recurso/boletin-integrado-de-vigilancia-n570-se40-2021
17. Argentina. Ministerio de Salud. Comunicación epidemiológica, 18 de noviembre de 2022. Aumento de casos de influenza. [Accessed on: June 2nd, 2023]. Available at: https://bancos.salud.gob.ar/sites/default/files/2022-11/Comunicacion-epidemiologica_influenza22-11-2022.pdf
18. Ferrero F, Ossorio MF. Is there a place for bronchiolitis in the COVID-19 era? Lack of hospitalizations due to common respiratory viruses during the 2020 winter. *Pediatr Pulmonol*. 2021;56(7):2372-3.
19. Argentina. Ministerio de Salud. Actualización epidemiológica, 16 de marzo de 2022. Circulación de Influenza en contexto de la pandemia de COVID-19. [Accessed on: June 4th, 2023] Available at: https://bancos.salud.gob.ar/sites/default/files/2022-03/Actualizacion-influenza-16-03-2022. pdf
20. UNICEF. La pandemia de COVID-19 causa un importante retroceso en la vacunación infantil, según nuevos datos de la OMS y UNICEF. [Accessed on: May 28th, 2023]. Available at: https://www.unicef.org/es/comunicados-

prensa/pandemia-covid19-causa-importante-retroceso-en-vacunacion-infantil
21. Argentina. Ministerio de Salud. Dirección de Control de Enfermedades Inmunoprevenibles. Coberturas de Vacunación por Jurisdicción. Calendario Nacional de Vacunación 2009-2020. [Accessed on: May 28th, 2023]. Available at: https://bancos.salud.gob.ar/sites/default/files/2021-12/coberturas-de-vacunacion-por-jurisdiccion-cnv-2009-2020.pdf
22. Kerr J, Macartney K, Britton PN. Influenza-associated myositis: a single-centre, 5-year retrospective study. *Eur J Pediatr*. 2021;180(2):577-84.
23. Kondrich J, Rosenthal M. Influenza in children. *Curr Opin Pediatr*. 2017;29(3):297-302.
24. Jantarabenjakul W, Paprad T, Paprad T, Anugulruengkitt S, et al. Neurological complications associated with influenza in hospitalized children. *Influenza Other Respir Viruses*. 2023;17(1):e13075.
25. Antoon JW, Hall M, Herndon A, Johnson DP, et al. Prevalence, Risk Factors, and Outcomes of Influenza-Associated Neurologic Complications in Children. *J Pediatr*. 2021;239:32-8.e5.
26. Banday AZ, Arul A, Vignesh P, Singh MP, et al. Kawasaki disease and influenza-new lessons from old associations. *Clin Rheumatol.* 2021;40(7):2991-9.
27. Klein EY, Monteforte B, Gupta A, Jiang W, et al. The frequency of influenza and bacterial coinfection: a systematic review and meta-analysis. *Influenza Other Respir Viruses*. 2016;10(5):394-403.
28. Hsing TY, Lu CY, Chang LY, Liu YC, et al. Clinical characteristics of influenza with or without Streptococcus pneumoniae co-infection in children. *J Formos Med Assoc*. 2022;121(5):950-7.
29. Shi T, Nie Z, Huang L, Fan H, et al. Mortality risk factors in children with severe influenza virus infection admitted to the pediatric intensive care unit. *Medicine (Baltimore)*. 2019;98(35):e16861.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310103

Prevalencia de patología urogenital en la consulta ambulatoria de varones adolescentes. Estudio descriptivo transversal

Gonzalo Agüero[a], *Ignacio Eymann*[a], *Florencia Lakatos*[a]

RESUMEN

Introducción. El examen genital en varones es una evaluación clínica simple y rápida para detectar patología urogenital. Los datos sobre prevalencia de patología urogenital en varones adolescentes son limitados. Nuestro objetivo fue describir la prevalencia de patología urogenital en varones adolescentes.

Población y métodos. Estudio descriptivo transversal en el Servicio de Adolescencia de un hospital público de la Ciudad de Buenos Aires. Se evaluaron retrospectivamente las historias clínicas (HC) de varones de 9 a 20 años atendidos entre 2008 y 2018; se incluyeron las que tenían examen genital. Se recabaron datos de edad, estadio puberal, orquidometría, patología urogenital antes de la adolescencia y al momento de la consulta. La prevalencia se expresó en porcentaje e intervalo de confianza del 95 % (IC95%). Se estimó necesario incluir 1167 HC como muestra poblacional.

Resultados. Se evaluaron 2129 HC; se incluyeron 1429. En 686 casos no se hizo el examen genital. La población tuvo una mediana de edad de 12 años (rango intercuartílico 11-14 años). En 72 varones (5,7 %; IC95% 4,5-7,2), se halló una enfermedad genitourinaria antes de la adolescencia. Se detectó al menos una patología urogenital en 272 adolescentes (14,8 %; IC95% 13,1-16,7); las más frecuentes fueron adherencia balanoprepucial 5,3 % (IC95% 4,2-6,6), varicocele 2,7 % (IC95% 2-3,7) y fimosis 1,8 % (IC95% 1,2-2,6).

Conclusiones. El examen genital permitió detectar que el 14,8 % de los varones adolescentes atendidos presentó alguna patología urogenital. Las entidades más frecuentes fueron adherencia balanoprepucial, varicocele y fimosis.

Palabras clave: *adolescente; anomalías urogenitales; prepucio; varicocele; fimosis.*

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10103
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10103.eng

Cómo citar: Agüero G, Eymann I, Lakatos F. Prevalencia de patología urogenital en la consulta ambulatoria de varones adolescentes. Estudio descriptivo transversal. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310103.

[a] *Servicio de Adolescencia, Hospital General de Agudos Dr. C. Argerich, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.*

Correspondencia para *Gonzalo Agüero: aguerogonzalo@gmail.com*

Financiamiento*: Ninguno.*

Conflicto de intereses*: Ninguno que declarar.*

Recibido*: 31-5-2023*
Aceptado*: 15-8-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

INTRODUCCIÓN

El examen genital en varones adolescentes permite evaluar el desarrollo puberal y detectar problemas urogenitales, tanto en los controles periódicos de salud como ante la presencia de síntomas. El personal médico debe estar familiarizado con la fisiología del desarrollo sexual masculino y los principales problemas urogenitales, para poder reconocer, tratar y, si es apropiado, derivar a especialistas.[1-4]

Durante la adolescencia, los hallazgos en el examen genital incluyen tanto patologías no resueltas de la niñez –como fimosis, hidrocele, hernia inguinal, hipospadias y criptorquidia–[5] como otras características de la adolescencia, como varicocele, orquiepididimitis, espermatocele y escroto agudo.[6-8]

Para brindar una atención médica de calidad, es indispensable conocer el perfil de problemas de salud de la población asistida. Las publicaciones originales sobre prevalencia de patología urogenital en adolescentes son escasas. Nuestro objetivo primario fue describir su prevalencia en nuestra población y, secundariamente, describir las características del desarrollo puberal en los adolescentes en quienes se encontró patología.

POBLACIÓN Y MÉTODOS

Diseño

Estudio descriptivo transversal y retrospectivo, realizado en el Servicio de Adolescencia de un hospital público de la Ciudad de Buenos Aires, que brinda atención médica a personas de entre 9 y 20 años. Los datos corresponden a las consultas ambulatorias, programadas y de demanda espontánea, del período 2008-2018, que se obtuvieron de forma retrospectiva del archivo de historias clínicas del servicio (a partir de 2019 se utilizó una historia clínica electrónica unificada para todos los efectores públicos). No se contabilizaron las consultas de urgencia realizadas en la guardia del hospital. El estudio fue aprobado por el Comité de Ética en Investigación institucional.

Criterios de inclusión: historias clínicas de varones adolescentes de 9 a 20 años, en los que se realizó examen genital, independientemente del motivo de consulta (incluye consultas por síntomas urogenitales y hallazgos del examen físico).

Criterios de exclusión: historias clínicas con datos incompletos (fecha, edad, examen genital) o con letra ilegible.

Variables

Edad en años cumplidos. El desarrollo puberal se clasificó según los estadios de Tanner y, cuando estuvo disponible, se registró volumen testicular (ml) medido con orquidómetro de Prader. Patología urogenital: se evaluó el antecedente de patología urogenital padecida durante la infancia o la niñez, y la patología hallada durante el primer examen genital realizado en la consulta al Servicio de Adolescencia, independientemente de su gravedad.

Análisis de datos

Las variables categóricas se expresaron en frecuencias y porcentajes con intervalo de confianza del 95 % (IC95%) y se compararon con la prueba de chi-cuadrado. Las variables continuas se expresaron como mediana y rango intercuartílico (RIC) debido a la distribución no gaussiana de los datos (prueba de Kolmogorov-Smirnov) y se compararon con pruebas no paramétricas. Valores de p <0,05 fueron considerados como estadísticamente significativos. Se estimó la prevalencia de las patologías urogenitales, definida como la proporción de casos al momento de la evaluación genital. Se utilizó el programa SPSS versión 21 (SPSS Inc., Chicago, United States, 2012).

Cálculo muestral

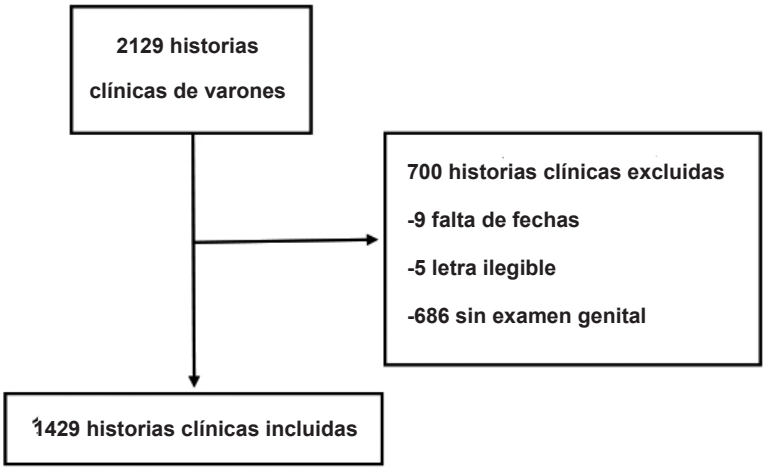
Se estimó a partir de un intervalo de confianza para una proporción. Nos basamos en el varicocele, una de las patologías urológicas más características de la adolescencia. Su menor prevalencia (≈1 %) ocurre a los 10 años de edad.[9] Sobre la base de una población estimada en 5000 historias clínicas, con una proporción esperada del 1 % (mínimo 0,5 %, máximo 1,5 %), un nivel de confianza del 95 % y una precisión del 1 %, se requirió incluir 1167 historias clínicas de varones adolescentes. Se realizó un muestreo no probabilístico, consecutivo, y se registró el primer examen genital realizado a cada paciente.

RESULTADOS

Un total de 2129 varones realizaron al menos una consulta al Servicio de Adolescencia durante el período de estudio. Se incluyeron 1429 historias clínicas de varones adolescentes en los que se realizó examen genital (*Figura 1*), correspondientes a consultas programadas o espontáneas.

Se detectó el antecedente de patología

Figura 1. Flujograma de evaluación de historias clínicas de varones adolescentes



urogenital en la infancia o la niñez en 72 pacientes (5,7 %, IC95% 4,5-7,2): hernia inguinal (22), fimosis (11), criptorquidia (10), torsión del testículo o sus apéndices (7), hidrocele (5).

Mediante examen genital, se hallaron 212 pacientes (14,8 %, IC95% 13,1-16,7) con alguna patología urogenital; se destacaron los problemas del prepucio y el varicocele (*Tabla 1*). De los 39 casos de varicocele, en 28 se registró el grado (2 grado 1, 12 grado 2 y 14 grado 3) y el lado (izquierdo). En la *Tabla 2*, se muestran los datos de edad y el desarrollo puberal de la población estudiada, y en la *Tabla 3* se muestra la comparación en función de los 3 problemas genitourinarios más frecuentes.

DISCUSIÓN

El examen genital en adolescentes varones es esencial para la evaluación del desarrollo puberal y la detección de patología urogenital en la consulta médica.[3,4] Dicho procedimiento debe adaptarse a la edad y el nivel de desarrollo de cada paciente, incluir la estadificación de Tanner, la orquidometría de Prader y la búsqueda de problemas por áreas (pene, contenido escrotal, región inguinal y perineal).[2-4]

La bibliografía sobre prevalencia de enfermedades urogenitales durante la adolescencia es escasa. La mayoría de los estudios fueron realizados por equipos quirúrgicos y urológicos, en poblaciones o patologías específicas.[6,8,10,11] En este trabajo, presentamos

Tabla 1. Prevalencia de patología urogenital en 1429 varones adolescentes

Patología urogenital	Frecuencia (%)	IC95%
Adherencia balanoprepucial	76 (5,3)	4,2-6,6
Varicocele	39 (2,7)	2-3,7
Fimosis	26 (1,8)	1,2-2,6
Espermatocele	13 (0,9)	0,5-1,5
Testículo retráctil	12 (0,8)	0,5-1,4
Monorquidia	8 (0,6)	0,3-1,1
Retraso puberal/hipogonadismo	8 (0,6)	0,3-1,1
Hernia inguinal	7 (0,5)	0,2-1
ITS	7 (0,5)	0,2-1
Criptorquidia	7 (0,5)	0,2-1
Hidrocele	4 (0,3)	0,1-0,7
Otras	12 (0,8)	0,5-1,4

IC95%: intervalo de confianza del 95 %. ITS: infecciones de transmisión sexual.
La categoría "Otras" abarca diferentes patologías con menos de 3 casos. Se halló un total de 219 problemas urogenitales en 212 varones adolescentes.

Tabla 2. Edad, volumen testicular y desarrollo puberal en adolescentes sin y con patología urogenital

	Total (n = 1429)	Sin PUG (n = 1217)	Con PUG (n = 212)	Valor de *p**
Edad (años)				
Mediana (RIC)	12 (11-14)	12 (11-14)	12 (12-13)	0,115
VT derecho (ml)				
Mediana (RIC)	10 (4-15)	10 (4-15)	5 (3-12)	<0,001
VT izquierdo (ml)				
Mediana (RIC)	8 (4-15)	10 (4-15)	6 (3-10)	<0,001
Estadios de Tanner	**Total**	**Sin PUG**	**Con PUG**	**Valor de *p*****
G1	358 (26,9 %)	293 (25,9 %)	65 (32,6 %)	
G2	286 (21,6 %)	238 (21,1 %)	48 (24,1 %)	
G3	277 (20,8 %)	244 (21,6 %)	33 (16,6 %)	0,141
G4	226 (17,0 %)	198 (17,5 %)	28 (14,1 %)	
G5	182 (13,7 %)	157 (13,9 %)	25 (12,6 %)	

PUG: patología urogenital. VT: volumen testicular. RIC: rango intercuartílico. G: estadio genital.
*Comparación entre adolescentes con y sin PUG: *prueba de Kruskal-Wallis para muestras independientes (medianas); **prueba de chi-cuadrado (frecuencias).*

Tabla 3. Comparación de adolescentes sin patología urogenital y adolescentes con adherencias, varicocele, fimosis

	Sin PUG (n = 1217)	ABP (n = 76)	Valor de *p***	Varicocele (n = 39)	Valor de *p***	Fimosis (n = 26)	Valor de *p***
Edad (años)*	12 (11-14)	11 (10-12)	<0,001	12 (12-13,5)	0,287	12 (11-13)	0,265
Estadios de Tanner	**Sin PUG**	**ABP**	**Valor de *p******	**Varicocele**	**Valor de *p******	**Fimosis**	**Valor de *p******
G1	293 (25,9 %)	28 (37,8 %)		3 (8,1 %)		3 (8,1 %)	
G2	238 (21,1 %)	29 (39,2 %)		4 (10,8 %)		4 (10,8 %)	
G3	244 (21,6 %)	10 (13,5 %)	<0,001	13 (35,1 %)	0,015	13 (35,1 %)	0,350
G4	198 (17,5 %)	6 (8,1 %)		11 (29,7 %)		11 (29,7 %)	
G5	157 (13,9 %)	1 (1,4 %)		6 (16,2 %)		6 (16,2 %)	

ABP: adherencia balanoprepucial. VT: volumen testicular.
**Mediana (rango intercuartílico).*
***Prueba de Kruskal-Wallis para muestras independientes (medianas).*
****Prueba de chi-cuadrado (frecuencias).*

la prevalencia de patología urogenital en varones adolescentes atendidos en el ámbito ambulatorio del sistema público de salud de la Ciudad de Buenos Aires.

La población estudiada tuvo una mediana de edad de 12 años, pese a que el Servicio de Adolescencia atiende a pacientes de hasta 20 años inclusive. Es sabido que los varones adolescentes realizan menos exámenes de salud a medida que aumenta su edad;[12] esto podría resultar en una población clínica donde predominan adolescentes tempranos y medios, con menor proporción de adolescentes tardíos.

Un tercio de las historias clínicas evaluadas no tuvieron examen genital y esto representa una oportunidad perdida en el contexto de los controles periódicos de salud. Los varones adolescentes suelen acceder con menor frecuencia al sistema de salud en comparación con las mujeres adolescentes. Por eso es importante que, cuando lo hagan, se realice un examen físico completo que permita diagnosticar, asesorar y brindar el tratamiento adecuado de los problemas genitourinarios.[12,13] Si bien no corresponde al objetivo del trabajo, especulamos cuáles fueron las causas para no realizar dicha práctica. En nuestra experiencia, el examen genital a veces se difiere para consultas ulteriores ante patologías agudas no relacionadas (fiebre, broncoespasmo) y luego no se concreta. Además, muchos varones inicialmente rechazan el examen genital por pudor. Este último aspecto es una

dificultad habitual y debe ser contemplado en adolescentes que concurren a controles de salud y no exclusivamente por sintomatología urogenital.[14]

Un 5,7 % de los pacientes tuvo algún problema urogenital antes de la adolescencia. Las más frecuentes fueron hernia inguinal, fimosis, criptorquidia, en coincidencia con la bibliografía.[5] El 14,8 % de los adolescentes tuvo algún problema urogenital al momento de la consulta. Los hallazgos más prevalentes fueron los problemas del prepucio y el varicocele. Es de destacar la baja prevalencia de infecciones de transmisión sexual (su diagnóstico es más frecuente por pruebas de laboratorio) y de patología quirúrgica (su atención suele realizarse en los servicios de urgencias).

Los varones con patología urogenital tuvieron edad y desarrollo puberal similar que los varones con examen genital normal, pero con menor tamaño testicular. Probablemente esto se deba a que muchas condiciones influyeron negativamente en el crecimiento testicular (monorquidia, varicocele, hipogonadismo, criptorquidia, atrofia testicular).

Respecto a los problemas del prepucio no retráctil y adherencias prepuciales, su historia natural fue documentada a mediados del siglo xx por Gairdner (1949) y Oster (1968): la fimosis es más prevalente en la infancia y la niñez, mientras que las adherencias del prepucio lo son en la niñez y la adolescencia. La mayoría de los varones tendrá un prepucio retráctil al llegar a la adolescencia y cerca del 3 % tendrá adherencias persistentes.[15]

Una revisión sistemática reciente[16] informó que la prevalencia de fimosis luego de los 18 años es del 0,5 % al 13 % y que los diferentes criterios diagnósticos contribuyen al amplio rango de prevalencia, incluso a edades comparables.

El estudio de Yang *et al.*[10] sobre el desarrollo prepucial evaluó de manera transversal 10 421 varones chinos de 0 a 18 años. En el grupo de 11 a 18 años, hallaron una prevalencia de fimosis del 6,8 % y de otras patologías urogenitales del 4,1 %. En un estudio transversal realizado en Chile sobre la evolución natural del prepucio en 1968 varones de 0 a 21 años,[17] la adherencia prepucial fue la morfología más común en niños preescolares (3-5 años) y escolares (6-12 años), seguida por la fimosis. Ambas disminuyeron progresivamente con la edad, de modo que el 95 % de los varones de 18 a 21 años tuvo un prepucio de tipo adulto, sin estrecheces ni adherencias. En conjunto, estas observaciones sugieren que no deberían tratarse las fimosis en forma temprana, salvo que presente síntomas (balanitis a repetición, balanitis xerótica obliterans).[18,19]

En nuestra población también predominaron la adherencia balanoprepucial (5 %) y la fimosis (1,8 %), aunque en diferentes proporciones En concordancia con su historia natural,[15] los varones con adherencias prepuciales tuvieron menor edad y menor desarrollo puberal que los varones sin problemas urogenitales, debido a que representan un grupo de adolescentes más pequeños y las adherencias disminuyen, en muchos casos espontáneamente, a medida que se avanza en la adolescencia. Por su parte, varones con fimosis tuvieron edad y desarrollo puberal similares a los varones sin problemas genitourinarios, probablemente porque los casos que llegan hasta la adolescencia no remiten si no reciben tratamiento adecuado.

A diferencia de las entidades anteriores, la prevalencia de varicocele es muy baja en niños prepúberes (<1 %) y aumenta durante la pubertad hasta alcanzar una prevalencia cercana al 15 %, similar a la observada en adultos.[9,20] La mayoría de estos varones no presentan síntomas y son identificados mediante el examen físico o un autoexamen.[18] Kumanov *et al.* realizaron un estudio transversal en Bulgaria con 6200 varones de 0-19 años y hallaron una prevalencia de varicocele del 7,9 % en el grupo de adolescentes entre 10 y 19 años.[21] En nuestra población, el varicocele fue el segundo hallazgo más frecuente con una prevalencia del 3 %, menor a la reportada en la bibliografía. Los varones con varicocele tuvieron edad similar al grupo sin patología urogenital, pero con desarrollo puberal mayor. Asumimos que esta diferencia se debe a que el varicocele es una patología propia de la pubertad media;[9,18,19] en contraste con el grupo de varones sin patología urogenital, donde hubo mayor proporción de adolescentes tempranos y prepuberales.

El tratamiento del varicocele en niños y adolescentes plantea algunas controversias. Existe evidencia moderada de sus resultados en términos de volumen testicular y concentración de espermatozoides. Los datos actuales no demuestran la superioridad de ninguna de las técnicas quirúrgicas con respecto al éxito del tratamiento. Los resultados a largo plazo, incluida la paternidad y la fertilidad, aún se desconocen.[22]

Finalmente, un estudio multicéntrico realizado

en Italia con 4897 varones de 18-19 años halló patología andrológica en el 31,7 % de los casos:[23] varicocele (17,5 %), testículos móviles (4,1 %), frenillo prepucial corto (3,2 %), volumen testicular <12 ml (1,2 %), espermatocele (1,1 %) y fimosis (1 %).

En conjunto, los diferentes reportes muestran que la prevalencia de las patologías urogenitales en adolecentes varía según los países, la población en estudio, la edad y, probablemente, el desarrollo puberal.

Implicancias para la práctica

El examen genital asociado a la estadificación de Tanner y la orquidometría de Prader resultan prácticas esenciales durante la atención médica ambulatoria de niños y varones adolescentes, pues un porcentaje no despreciable presenta algún problema genitourinario.

Limitaciones

No se pudieron descartar sesgos de selección e información debido al carácter retrospectivo del estudio. Tampoco se pudo estimar la variabilidad entre diferentes observadores al momento de diagnosticar las diferentes patologías. Se incluyeron todos los hallazgos registrados en las historias clínicas, independientemente de la gravedad. Es probable que algunas entidades leves, como las pápulas perladas peneanas, adherencias prepuciales mínimas o varicoceles de grado 1, estén subrepresentadas en las historias clínicas. La población estudiada corresponde a varones atendidos ambulatoriamente en un servicio de adolescencia del sistema público de salud; no es posible saber si estos hallazgos son representativos para la población general de adolescentes, por lo que es necesario realizar estudios longitudinales a gran escala para caracterizar con mayor precisión la patología urogenital durante la adolescencia.

CONCLUSIONES

En esta muestra de varones adolescentes atendidos ambulatoriamente, se halló mediante el examen genital que el 14,8 % presentó alguna patología urogenital; se destacaron el varicocele y los problemas relacionados al prepucio, como adherencias y fimosis. ■

Agradecimientos

A todas las personas que trabajan en el Servicio de Adolescencia del hospital.

REFERENCIAS

1. Hiebra M, Pasqualini D. Adolescentes (10 a 21 años). En Boggiano E, Breitman F, Andrade M, Comité Nacional de Pediatría Ambulatoria. Manual para la supervisión de niños, niñas y adolescentes. Buenos Aires: FUNDASAP; 2010:237-47.
2. Marcell A, Wibbelsman C, Seigel W, Committee on Adolescence. Male Adolescent Sexual and Reproductive Health Care. *Pediatrics* 2011;128(6):e1658-76.
3. Bell D, Breland D, Ott M. Adolescent and Young Adult Male Health: A Review. *Pediatrics*. 2013;132(3):535-46.
4. Society for Adolescent Health and Medicine, Marcell AV, Bell DL, Joffe A, SAHM Male Health Special Interest Group. The Male Genital Examination: A Position Paper of the Society for Adolescent Health and Medicine. *J Adolesc Health.* 2012;50(4):424-5.
5. Wan S, Wang Y, Gu S. Epidemiology of Male Genital Abnormalities: A Population Study. *Pediatrics*. 2014;133(3):e624-7.
6. Mónaco M, Verdugo F, Bodell M, Avendaño E, et al. Prevalencia de anomalías genitales en futbolistas jóvenes. *An Pediatr (Barc).* 2015;82(1):e181-3.
7. Espinoza Vega M. Trastornos urológicos en el varón adolescente. *Adolescere.* 2019;7(3):45-50.
8. Zampieri N, Camoglio F. Pediatric-adolescent andrology: Single centre experience. *Arch Ital Urol Androl*. 2020;92(2):97.
9. Alsaikhan B, Alrabeeah K, Delouya G, Zini A. Epidemiology of varicocele. *Asian J Androl*. 2016;18(2):179-81.
10. Yang C, Liu X, Wei G. Foreskin development in 10.421 chinese boys aged 0-18 years. *World J Pediatr*. 2009;5(4):312-5.
11. Oddo A, Ruedrich E, Zust C, Marugg L, et al. Prevalence of preoperative penile abnormalities among voluntary male medical circumcision patients in Swaziland. *J Pediatr Surg*. 2017;52(8):1332-4.
12. Grubb LK, Powers M, Committee on Adolescence. Emerging Issues in Male Adolescent Sexual and Reproductive Health Care. *Pediatrics.* 2020;145(5):e20200627.
13. Tregunna R, Wood D. Five common urological problems affecting adolescent men. *Trends Urol Men's Health.* 2021;12(4):16-9.
14. Marcell A, Burstein G, Committee on Adolescence. Sexual and Reproductive Health Care Services in the Pediatric Setting. *Pediatrics*. 2017;140(5):e20172858.
15. Baky Fahmy M. Phimosis. In Baky Fahmy M. Normal and abnormal prepuce. Cham, Switzerland: Springer; 2020: 163-178.
16. Morris B, Matthews J, Krieger J. Prevalence of Phimosis in Males of All Ages: Systematic Review. *Urology*. 2020;135:124-32.
17. Soriano H, O'Ryan M, Torres J, Fanta E, et al. Evolución natural del prepucio. *Rev Chil Pediatr.* 1987;58(2):154-6.
18. Ruiz E, Moldes J, de Badiola F, Puigdevall JC. Dificultades y controversias en el manejo del prepucio en la infancia y adolescencia. *Arch Argent Pediatr.* 2001;99(1):80-3.
19. Metcalfe P, Elyas R. Foreskin management. Survey of Canadian pediatric urologists. *Can Fam Physician.* 2010;56(8):e290-5.
20. Sack B, Schäfer M, Kurtz M. The dilemma of adolescent varicoceles: Do they really have to be Repaired? *Curr Urol Rep.* 2017;18(5):38.
21. Kumanov P, Robeva R, Tomova A. Adolescent Varicocele: Who Is at Risk? *Pediatrics.* 2008;121(1):e53-7.
22. Franco A, Proietti F, Palombi V, Savarese G, et al. Varicocele: To treat or not to treat? *J Clin Med.* 2023;12(12):4062.
23. Mondaini N, Silvani M, Zenico T, Gallo F, et al. Genital diseases awareness in young male students: Is information necessary to protect them? *Arch Ital Urol Androl.* 2013;85(1):14-9.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310103

Prevalence of urogenital disease in male adolescent outpatient visits. A descriptive, cross-sectional study

Gonzalo Agüero[a], *Ignacio Eymann*[a], *Florencia Lakatos*[a]

ABSTRACT

Introduction. The male genital exam is a simple and quick assessment to look for urogenital disease. Data on the prevalence of urogenital disease in male adolescents are limited. Our objective was to describe the prevalence of urogenital disease in male adolescents.

Population and methods. Descriptive, cross-sectional study conducted at the Department of Adolescence of a public hospital in the City of Buenos Aires. The medical records of male patients aged 9 to 20 years seen between 2008 and 2018 were retrospectively reviewed; all those with a genital exam were included. Data on age, pubertal stage, orchidometry, and urogenital disease before adolescence and at the time of consultation were recorded. The prevalence was described as percentage and 95% confidence interval (CI). As per estimations, 1167 medical records had to be included to establish the population sample.

Results. A total of 2129 medical records were assessed and 1429 were included. No genital exam had been conducted in 686 cases. The median age of the population was 12 years (interquartile range: 11–14 years). Urogenital disease before adolescence was detected in 72 boys (5.7%; 95% CI: 4.5–7.2). Urogenital disease was found in 272 adolescents (14.8%; 95% CI: 13.1–16.7); the most common conditions were balanopreputial adhesions in 5.3% (95% CI: 4.2–6.6), varicocele in 2.7% (95% CI: 2–3.7), and phimosis in 1.8% (95% CI: 1.2–2.6).

Conclusions. A genital exam allowed to detect that 14.8% of adolescent boys had a urogenital disease. The most common conditions were balanopreputial adhesions, varicocele, and phimosis.

Keywords: *adolescent; urogenital abnormalities; foreskin; varicocele; phimosis.*

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10103.eng

To cite: Agüero G, Eymann I, Lakatos F. Prevalence of urogenital disease in male adolescent outpatient visits. A descriptive, cross-sectional study. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310103.

[a] *Department of Adolescence, Hospital General de Agudos Dr. C. Argerich, City of Buenos Aires, Argentina.*

Correspondence to *Gonzalo Agüero: aguerogonzalo@gmail.com*

Funding*: None.*

Conflict of interest*: None.*

Received*: 5-31-2023*
Accepted*: 8-15-2023*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

INTRODUCTION

A genital exam in adolescent boys allows to assess pubertal development and detect any urogenital problem, both during regular health checkups and in the presence of symptoms. Health care providers should be familiar with the physiology of male sexual development and most common urogenital problems in order to recognize, treat, and, if appropriate, refer patients to specialists.[1–4]

During adolescence, findings in the genital exam include both unresolved childhood conditions —such as phimosis, hydrocele, inguinal hernia, hypospadias, and cryptorchidism—[5] and other characteristics of adolescence, such as varicocele, orchiepididymitis, spermatocele, and acute scrotum.[6–8]

To provide quality health care, it is critical to know the profile of health conditions in the assisted population. Original publications on the prevalence of urogenital disease in adolescents are scarce. Our primary objective was to describe the prevalence of urogenital disease in our population and our secondary objective was to describe the characteristics of pubertal development in male adolescents with positive findings.

POPULATION AND METHODS

Design

This was a descriptive, cross-sectional, and retrospective study conducted at the Department of Adolescence of a public hospital in the City of Buenos Aires that provides care to individuals aged 9 to 20 years. Data corresponded to outpatient consultations, both scheduled and walk-ins, for the 2008–2018 period and were obtained retrospectively from the department's medical records (single electronic medical records have been used in all public health care facilities since 2019). Visits to the hospital emergency room were not included. The study was approved by the Institutional Ethics and Research Committee.

Inclusion criteria: medical records of male adolescents aged 9 to 20 years who had a genital exam, regardless of the reason for consultation (including visits due to urogenital symptoms and physical examination findings).

Exclusion criteria: medical records with missing data (date, age, genital exam) or illegible.

Variables

Age in years. Pubertal development was classified as per Tanner stages and, if available, testicular volume (mL) was measured using the Prader orchidometer. Urogenital disease: the history of urogenital disease suffered during infancy or childhood was evaluated, as well as the pathology found during the first genital exam performed during the consultation at the Adolescence Service, regardless of its severity.

Data analysis

Categorical variables were expressed as frequency and percentages and 95% confidence interval (CI), and compared using the χ^2 test. Continuous variables were described as median and interquartile range (IQR) due to non-Gaussian data distribution (Kolmogorov-Smirnov test) and compared with non-parametric tests. *P* values lower than 0.05 were considered statistically significant. The prevalence of urogenital disease was estimated, which was defined as the number of cases at the time of the genital exam. The SPSS software, version 21 (SPSS Inc., Chicago, United States, 2012) was used.

Sample size

The sample size was estimated based on a confidence interval for a proportion. It was estimated based on varicocele, a urogenital disease typical of adolescence. Its lower prevalence (≈1%) takes place at 10 years of age.[9] Considering an estimated population of 5000 medical records, an expected proportion of 1% (minimum: 0.5%, maximum: 1.5%), a 95% confidence level, and a precision of 1%, 1167 medical records of male adolescents were required. A consecutive non-probabilistic sampling was performed, and the first genital exam done in each patient was recorded.

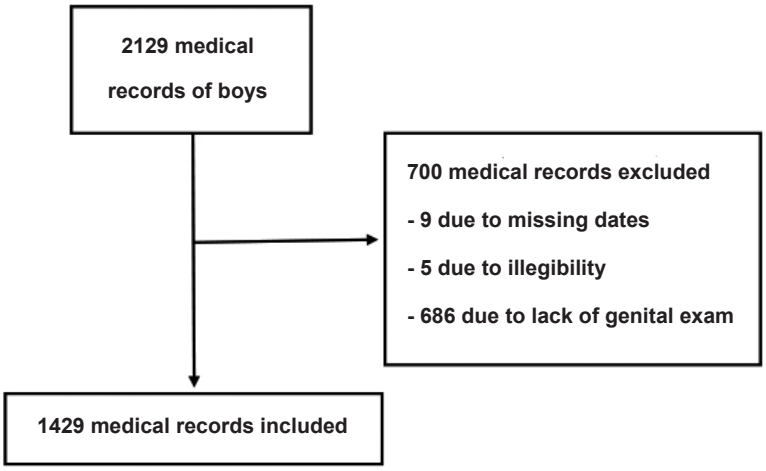
RESULTS

A total de 2129 boys had a visit with the Department of Adolescence during the study period. The medical records of 1429 male adolescents who had a genital exam were included (*Figure 1*); visits corresponded to scheduled appointments or walk-ins.

A history of infant or childhood urogenital disease was observed in 72 patients (5.7%, 95% CI: 4.5–7.2): inguinal hernia (22), phimosis (11), cryptorchidism (10), torsion of the testis or testicular appendages (7), hydrocele (5).

The genital exam helped to find a urogenital disease in 212 patients (14.8%, 95% CI: 13.1–16.7); foreskin problems and varicocele were prevalent (*Table 1*). Of the 39 cases of varicocele,

Figure 1. Flow chart for the assessment of medical records of male adolescents



grade (grade 1: 2, grade 2: 12, and grade 3: 14) and side (left side) were recorded in 28. *Table 2* shows data for age and pubertal development of the study population; and *Table 3* shows a comparison of the 3 most common urogenital conditions.

DISCUSSION

A genital exam in male adolescents is critical for the assessment of pubertal development and the detection of urogenital disease during the medical consultation.[3,4] This procedure should be adapted to the age and developmental level of each patient and include Tanner staging, the Prader orchidometry, and the search for problems by area (penis, scrotal contents, inguinal and perineal region).[2–4]

The bibliography on the prevalence of urogenital disease during adolescence is scarce. Most studies were carried out by surgical and urological teams, in specific populations or conditions.[6,8,10,11] In this study, we describe the prevalence of urogenital disease in male adolescents seen as outpatients in the public health system of the City of Buenos Aires.

The median age of the study population was 12 years, although the Department of Adolescence sees patients up to 20 years of age. It is known that male adolescents have fewer health examinations as their age increases;[12] this could result in a clinical population where early and middle adolescents predominate, with a lower

Table 1. Prevalence of urogenital disease in 1429 male adolescents

Urogenital disease	Frequency (%)	95% CI
Balanopreputial adhesions	76 (5.3)	4.2–6.6
Varicocele	39 (2.7)	2-3.7
Phimosis	26 (1.8)	1.2-2.6
Spermatocele	13 (0.9)	0.5-1.5
Retractile testis	12 (0.8)	0.5-1.4
Monorchism	8 (0.6)	0.3-1.1
Delayed puberty/hypogonadism	8 (0.6)	0.3-1.1
Inguinal hernia	7 (0.5)	0.2-1
STI	7 (0.5)	0.2-1
Cryptorchidism	7 (0.5)	0.2-1
Hydrocele	4 (0.3)	0.1-0.7
Other	12 (0.8)	0.5-1.4

CI: confidence interval. STI: sexually transmitted infections.
"Other" encompasses varying conditions observed in less than 3 patients. A total of 219 urogenital conditions were observed in 212 male adolescents.

Table 2. Age, testicular volume, and pubertal stage of adolescents with and without urogenital disease

	Total (n = 1429)	No UGD (n = 1217)	UGD (n = 212)	*p* value*
Age (years)				
Median (IQR)	12 (11–14)	12 (11–14)	12 (12–13)	0.115
Right TV (mL)				
Median (IQR)	10 (4–15)	10 (4–15)	5 (3–12)	< 0.001
Left TV (mL)				
Median (IQR)	8 (4–15)	10 (4–15)	6 (3–10)	< 0.001
Tanner stage	**Total**	**No UGD**	**UGD**	***p* value****
G1	358 (26.9%)	293 (25.9%)	65 (32.6%)	
G2	286 (21.6%)	238 (21.1%)	48 (24.1%)	
G3	277 (20.8%)	244 (21.6%)	33 (16.6%)	0.141
G4	226 (17.0%)	198 (17.5%)	28 (14.1%)	
G5	182 (13.7%)	157 (13.9%)	25 (12.6%)	

UGD: urogenital disease. TV: testicular volume. IQR: interquartile range. G: genital stage.
*Comparison between adolescents with and without UGD: *Kruskal-Wallis test for independent samples (median); **χ^2 test (frequency).*

Table 3. Comparison between adolescents without urogenital disease and those with adhesions, varicocele, phimosis

	No UGD (n = 1217)	BPA (n = 76)	*p* value**	Varicocele (n = 39)	*p* value**	Phimosis (n = 26)	*p* value**
Age (years)*	12 (11–14)	11 (10–12)	< 0.001	12 (12–13.5)	0.287	12 (11–13)	0.265
Tanner stage	**No UGD**	**BPA**	***p* value*****	**Varicocele**	***p* value*****	**Phimosis**	***p* value*****
G1	293 (25.9%)	28 (37.8%)		3 (8.1%)		3 (8.1%)	
G2	238 (21.1%)	29 (39.2%)		4 (10.8%)		4 (10.8%)	
G3	244 (21.6%)	10 (13.5%)	< 0.001	13 (35.1%)	0.015	13 (35.1%)	0.350
G4	198 (17.5%)	6 (8.1%)		11 (29.7%)		11 (29.7%)	
G5	157 (13.9%)	1 (1.4%)		6 (16.2%)		6 (16.2%)	

BPA: balanopreputial adhesions. TV: testicular volume.
*Median (interquartile range).
**Kruskal-Wallis test for independent samples (median).
***χ^2 test (frequency).

proportion of late adolescents.

One third of reviewed medical records did not include a genital exam; this is a missed opportunity in the context of regular health checkups. Male adolescents tend to access the healthcare system less frequently compared to female adolescents. It is therefore important that, when they do, a complete physical examination is performed to diagnose, advise, and provide appropriate treatment for urogenital conditions.[12,13] Although it is not included in this study's objectives, we speculate on the reasons for not conducting this practice. In our experience, the genital exam is sometimes postponed for later consultations when faced with unrelated acute conditions (fever, bronchospasm), but then it is not carried out. In addition, many boys initially reject the genital exam out of shyness. This last aspect is a common difficulty and should be considered in adolescents who attend health checkups and not exclusively due to urogenital symptoms.[14]

Approximately 5.7% of patients had a urogenital disease before adolescence. The most frequent conditions were inguinal hernia, phimosis, cryptorchidism, which is consistent with the bibliography.[5] A total of 14.8% of the adolescents had a urogenital disease at the time of the consultation. The most prevalent findings were foreskin problems and varicocele. It is worth noting the low prevalence of sexually transmitted infections (most often diagnosed by laboratory

tests) and surgical conditions (usually treated at the emergency department).

The age and pubertal development of boys with urogenital disease were similar to those of boys with a normal genital exam, although their testicular size was smaller. This is probably because many conditions negatively influenced testicular growth (monorchism, varicocele, hypogonadism, cryptorchidism, testicular atrophy).

Regarding the problems of non-retractile foreskin and preputial adhesions, their natural history was documented in the mid-20th century by Gairdner (1949) and Oster (1968): phimosis is more prevalent in infancy and childhood, while preputial adhesions are more prevalent in childhood and adolescence. Most boys will have retractile foreskin by adolescence and approximately 3% will have persistent adhesions.[15]

According to a recent systematic review,[16] the prevalence of phimosis after 18 years of age is 0.5–13% and different diagnostic criteria contribute to the wide range of prevalence, even at similar ages.

The study by Yang et al.[10] on preputial development conducted a cross-sectional assessment of 10 421 Chinese boys aged 0 to 18 years. In the 11–18 years age group, they found that the prevalence of phimosis was 6.8% and that of other urogenital conditions, 4.1%. A cross-sectional study conducted in 1968, in Chile, on the natural evolution of the foreskin of boys aged 0–21 years[17] found that preputial adhesions were the most common morphology in preschool (3–5 years) and schoolchildren (6–12 years), followed by phimosis. Both decreased progressively with age, so that 95% of boys aged 18–21 years had an adult-type foreskin, without narrowing or adhesions. Considered together, these observations suggest that phimosis should not be treated early unless it presents with symptoms (recurrent balanitis, balanitis xerotica obliterans).[18,19]

In our population, balanopreputial adhesions (5%) and phimosis (1.8%) also predominated, although in different proportions. Consistent with their natural history,[15] boys with preputial adhesions were younger and had a lower pubertal development than those without urogenital disease, because they account for a smaller group of adolescents and adhesions decrease, in many cases spontaneously, as adolescence progresses. In addition, boys with phimosis had a similar age and pubertal development than boys without urogenital disease, probably because cases that reach adolescence do not resolve if they do not receive an adequate treatment.

Unlike the conditions mentioned above, the prevalence of varicocele is very low in prepubertal boys (< 1%) and increases during puberty until reaching a prevalence close to 15%, similar to that observed in adults.[9,20] Most of these boys have no symptoms and are identified on physical examination or self-examination.[18] In Bulgaria, Kumanov et al. conducted a cross-sectional study in 6200 boys aged 0-19 years and found a prevalence of varicocele of 7.9% in the group of adolescents aged 10-19 years.[21] In our population, varicocele was the second most common finding, with a prevalence of 3%, lower than that reported in the bibliography. Boys with varicocele had a similar age to the group without urogenital disease, but with a greater pubertal development. It is assumed that such difference is due to the fact that varicocele is a condition typical of middle puberty;[9,18,19] in contrast to the group of boys without urogenital disease, which included a higher proportion of early and prepubertal adolescents.

The treatment of varicocele in children and adolescents raises some controversies. There is moderate evidence of its results in terms of testicular volume and sperm concentration. Current data do not demonstrate the superiority of any surgical technique in terms of treatment success. Long-term outcomes, including paternity and fertility, are still unknown.[22] Finally, a multicenter study conducted in Italy in 4897 boys aged 18 and 19 years found andrological disease in 31.7% of cases:[23] varicocele (17.5%), mobile testes (4.1%), short frenulum (3.2%), testicular volume < 12 mL (1.2%), spermatocele (1.1%), and phimosis (1%).

Overall, the different reports evidence that the prevalence of urogenital disease in adolescents varies depending on the country, study population, age, and, probably, pubertal development.

Implications for practice

A genital exam associated with Tanner staging and the Prader orchidometry are essential practices during outpatient medical care of male children and adolescents because a non-negligible percentage present some urogenital disease.

Limitations

Given the retrospective nature of this study, it is not possible to rule out any selection or information bias. It was also not possible to estimate the variability between different observers when diagnosing the different conditions. All findings recorded in the medical records were included, regardless of their severity. Some mild conditions, such as pearly penile papules, minimal preputial adhesions or grade 1 varicocele, are likely to be under-represented in medical records. The study population corresponds to boys seen as outpatients at the Department of Adolescence of the public health system; it is not possible to know whether these findings are representative of the general adolescent population, so large-scale, longitudinal studies are required to more accurately characterize urogenital disease during adolescence.

CONCLUSIONS

In this sample of outpatient male adolescents, the genital exam allowed to find a urogenital disease in 14.8% of patients; varicocele and foreskin problems, such as adhesions and phimosis, prevailed. ■

Acknowledgments

We would like to thank everyone working at the hospital's Department of Adolescence.

REFERENCES

1. Hiebra M, Pasqualini D. Adolescentes (10 a 21 años). In Boggiano E, Breitman F, Andrade M, Comité Nacional de Pediatría Ambulatoria. Manual para la supervisión de niños, niñas y adolescentes. Buenos Aires: FUNDASAP; 2010:237-47.
2. Marcell A, Wibbelsman C, Seigel W, Committee on Adolescence. Male Adolescent Sexual and Reproductive Health Care. *Pediatrics* 2011;128(6):e1658-76.
3. Bell D, Breland D, Ott M. Adolescent and Young Adult Male Health: A Review. *Pediatrics*. 2013;132(3):535-46.
4. Society for Adolescent Health and Medicine, Marcell AV, Bell DL, Joffe A, SAHM Male Health Special Interest Group. The Male Genital Examination: A Position Paper of the Society for Adolescent Health and Medicine. *J Adolesc Health.* 2012;50(4):424-5.
5. Wan S, Wang Y, Gu S. Epidemiology of Male Genital Abnormalities: A Population Study. *Pediatrics*. 2014; 133(3):e624-7.
6. Mónaco M, Verdugo F, Bodell M, Avendaño E, et al. Prevalencia de anomalías genitales en futbolistas jóvenes. *An Pediatr (Barc).* 2015;82(1):e181-3.
7. Espinoza Vega M. Trastornos urológicos en el varón adolescente. *Adolescere.* 2019;7(3):45-50.
8. Zampieri N, Camoglio F. Pediatric-adolescent andrology: Single centre experience. *Arch Ital Urol Androl.* 2020;92(2):97.
9. Alsaikhan B, Alrabeeah K, Delouya G, Zini A. Epidemiology of varicocele. *Asian J Androl.* 2016;18(2):179-81.
10. Yang C, Liu X, Wei G. Foreskin development in 10.421 Chinese boys aged 0-18 years. *World J Pediatr.* 2009;5(4):312-5.
11. Oddo A, Ruedrich E, Zust C, Marugg L, et al. Prevalence of preoperative penile abnormalities among voluntary male medical circumcision patients in Swaziland. *J Pediatr Surg*. 2017;52(8):1332-4.
12. Grubb LK, Powers M, Committee on Adolescence. Emerging Issues in Male Adolescent Sexual and Reproductive Health Care. *Pediatrics.* 2020;145(5):e20200627.
13. Tregunna R, Wood D. Five common urological problems affecting adolescent men. *Trends Urol Men's Health.* 2021;12(4):16-9.
14. Marcell A, Burstein G, Committee on Adolescence. Sexual and Reproductive Health Care Services in the Pediatric Setting. *Pediatrics*. 2017;140(5):e20172858.
15. Baky Fahmy M. Phimosis. In Baky Fahmy M. Normal and abnormal prepuce. Cham, Switzerland: Springer; 2020: 163-178.
16. Morris B, Matthews J, Krieger J. Prevalence of Phimosis in Males of All Ages: Systematic Review. *Urology*. 2020;135:124-32.
17. Soriano H, O'Ryan M, Torres J, Fanta E, et al. Evolución natural del prepucio. *Rev Chil Pediatr.* 1987;58(2):154-6.
18. Ruiz E, Moldes J, de Badiola F, Puigdevall JC. Dificultades y controversias en el manejo del prepucio en la infancia y adolescencia. *Arch Argent Pediatr.* 2001;99(1):80-3.
19. Metcalfe P, Elyas R. Foreskin management. Survey of Canadian pediatric urologists. *Can Fam Physician.* 2010;56(8):e290-5.
20. Sack B, Schäfer M, Kurtz M. The dilemma of adolescent varicoceles: Do they really have to be Repaired? *Curr Urol Rep.* 2017;18(5):38.
21. Kumanov P, Robeva R, Tomova A. Adolescent Varicocele: Who Is at Risk? *Pediatrics.* 2008;121(1):e53-7.
22. Franco A, Proietti F, Palombi V, Savarese G, et al. Varicocele: To treat or not to treat? *J Clin Med.* 2023;12(12):4062.
23. sMondaini N, Silvani M, Zenico T, Gallo F, et al. Genital diseases awareness in young male students: Is information necessary to protect them? *Arch Ital Urol Androl.* 2013;85(1):14-9.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310081

Análisis del desarrollo infantil temprano según el marco de cuidado cariñoso y sensible, por quintiles de riqueza y regiones de Argentina (2019-2020)

María E. Herrera Vegas[a], *María E. Zapata*[a], *María C. Nessier*[a], *Agustina Marconi*[b], *Alicia Rovirosa*[a], *Paula Gómez*[a]

RESUMEN

Introducción. Uno de los principales desafíos para la primera infancia es brindar cuidados adecuados que reduzcan desigualdades y promuevan desarrollo infantil temprano (DIT). El objetivo del trabajo fue describir relaciones entre los cuidados que reciben niños y niñas de 3 y 4 años, según el marco para el cuidado cariñoso y sensible (NC, por sus siglas en inglés), y sus niveles de DIT en Argentina, considerando región y quintiles de riqueza.

Población y métodos. Estudio analítico observacional de corte transversal, a partir de las bases de datos de la Encuesta Nacional de Niñas, Niños y Adolescentes (MICS) Argentina 2019-2020. Se seleccionaron 11 indicadores de NC y se estimó el nivel de DIT utilizando el Índice de Desarrollo Infantil Temprano (ECDI) para un análisis estadístico descriptivo.

Resultados. En 2638 niños y niñas de 3 y 4 años evaluados, el promedio de acceso a indicadores de cuidados fue del 79,1 %; el acceso fue alto en 7 indicadores (entre el 84,2 % y el 97,9 %) y medio en 4 (entre el 46,9 % y el 65,1 %); la mayor frecuencia fue contar con registro de nacimiento (97,9 %) y la menor, la cobertura de seguro de salud (46,9 %). El 87,9 % alcanzó niveles adecuados de ECDI. Los resultados registran diferencias según quintiles de riqueza y regiones.

Conclusiones. Los resultados evidencian desigualdades de acceso a cuidados y en DIT adecuado de niños y niñas de 3 y 4 años de áreas urbanas de Argentina según la región donde viven y el nivel de riqueza de sus hogares.

Palabras clave: *Argentina; cuidado del niño; desarrollo infantil; protección a la infancia; pobreza infantil.*

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10081
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10081.eng

Cómo citar: Herrera Vegas ME, Zapata ME, Nessier MC, Marconi A, et al. Análisis del desarrollo infantil temprano según el marco de cuidado cariñoso y sensible, por quintiles de riqueza y regiones de Argentina (2019-2020). *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310081.

[a] *Centro de Estudios sobre Nutrición Infantil Dr. Alejandro O'Donnell, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina;* [b] *University of Wisconsin-Madison, Madison, Estados Unidos.*

Correspondencia para *María E. Herrera Vegas: meherreravegas@cesni.org.ar*

Financiamiento: *Ninguno.*

Conflicto de intereses*: Ninguno que declarar.*

Recibido*: 2-5-2023*
Aceptado*: 6-9-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

INTRODUCCIÓN

En 2016, el marco global *Nurturing Care* o cuidado cariñoso y sensible (NC por sus siglas en inglés) fue propuesto por la Serie de Desarrollo de la Primera Infancia de la revista *The Lancet,*[1,2] y luego adoptado y oficializado por la Organización Mundial de la Salud, UNICEF y el Banco Mundial en 2018.[3] El marco NC incluye cinco dimensiones: salud, nutrición, atención receptiva, oportunidades para el aprendizaje y seguridad y protección. Se aplica al monitoreo y evaluación de las condiciones creadas por políticas, programas, servicios públicos y la comunidad,[3] y la influencia de dichas condiciones en el desarrollo infantil temprano (DIT).

La información disponible y más reciente, basada en la Encuesta de Indicadores Múltiples por Conglomerados (MICS por sus siglas en inglés) de UNICEF[4] y en indicadores del marco NC, muestra que el 65,8 % de niños y niñas de 3 y 4 años en la Argentina recibe cuidados mínimos,[5] y que el 86,2 % tiene un nivel adecuado según el indicador ECDI.

A pesar de contar con estas medidas, poco se conoce sobre la correspondencia entre NC y DIT. Si bien las mediciones de DIT en Argentina cuentan con antecedentes de encuestas, investigaciones y estudios de organismos internacionales,[6-8] para diagnóstico e intervención en el ámbito clínico, el país aún no cuenta con información suficiente a nivel poblacional sobre el cuidado que reciben niños y niñas.

Muchas de las políticas y acciones de prevención y atención para la primera infancia carecen de evidencias, junto a un déficit de políticas de monitoreo y evaluación o sistematización de información de los sectores intervinientes.[9,10] En particular, en Argentina gran parte de la población infantil nace y vive en situación de pobreza monetaria y resulta el grupo etario más afectado en las últimas 3 décadas. Las cifras de pobreza para este grupo alcanzan entre el 38,3 % y el 78,8 %, mientras que para la población general oscilan entre el 24,4 % y el 63,7 %.[12]

El objetivo del presente trabajo fue describir la relación entre los cuidados que reciben niños y niñas de 3 y 4 años, según el marco NC, y sus niveles de DIT adecuado en Argentina en 2019-2020, considerando diferencias entre las regiones donde habitan y el quintil de riqueza de sus hogares.

POBLACIÓN Y MÉTODOS

Estudio analítico observacional y de corte transversal. Se empleó como fuente secundaria la base de datos de Encuesta MICS realizada en la Argentina en 2019-2020, que tomó una muestra probabilística polietápica por conglomerados para áreas urbanas de las seis regiones de la Argentina. Se empleó la base de datos del cuestionario de menores de 5 años (n = 6343 niños/as) y del cuestionario del hogar, que recopila información demográfica.[4] Para este análisis, se consideraron niños y niñas de 3 y 4 años, sin dificultades funcionales que no requieren cuidados adicionales y específicos.

Se seleccionaron las variables según las recomendaciones de la guía propuesta por el marco NC, que presenta un conjunto de indicadores basados en vigilancia y seguimiento de los Objetivos de Desarrollo Sostenible (ODS) para la dimensión de NC.[3] Adicionalmente, se consideraron criterios e indicadores empleados en la definición del índice de NC, a partir de variables de la MICS y el programa *Demographic and Health Surveys* (DHS).[5] Fueron seleccionados 11 indicadores para las 5 dimensiones de NC; se incluyó al menos 2 por dimensión (*Tabla 1*). Para categorizar cada indicador, se consideraron los puntajes del índice NC del análisis realizado por McCoy, D. *et al.*[5] entre 137 países. Considerando que los países se proponen expandir estos cuidados para un acceso universal (el 100 % de la población infantil), a los fines de este trabajo, se definió como un acceso “alto” indicadores entre el 70 % y el 100 %; “medio”, entre el 40 % y el 69 %, y “bajo”, del 0 % hasta el 39 %.

Para conocer niveles de DIT, se utilizó el indicador ECDI siguiendo las especificaciones de la MICS;[4] se construyó un ECDI global para cada niño/a de la muestra según los 10 hitos en los 4 dominios (*Tabla 2*). Las variables región y quintil de riqueza fueron obtenidas de la base de datos; se consideró el quintil 1 (Q1) como el más pobre y el quintil 5 (Q5) como el más rico. Las regiones se agruparon en seis: Área Metropolitana de Buenos Aires (AMBA), Pampeana, Cuyo, Noroeste (NOA), Noreste (NEA) y Patagonia.

Se realizó análisis descriptivo en Microsoft Office Excel 2007 y SPSS v20 considerando el ponderador de la base de datos. En primer lugar, se analizaron las frecuencias generales para cada variable bajo estudio y, luego, en niños y niñas con DIT adecuado, se evaluaron las diferencias según quintil de riqueza y regiones.

Tabla 1. Indicadores y variables seleccionadas por dimensión del marco cuidado cariñoso y sensible (NC)

Dimensión		Indicador	Definición
1. Buena salud			
	1	Cobertura de seguro de salud	Porcentaje de hogares donde algún miembro de la familia tiene cobertura de salud de obra social, PAMI o prepaga
	2	Realización de control de salud en el último año	Porcentaje de niños/as que asistieron a controles de salud en los últimos 12 meses
2. Nutrición adecuada			
	3	Ausencia de retraso de crecimiento (*stunting*)	Porcentaje de niños/as con puntaje Z de altura para la edad ≥-2 desviaciones estándar de la mediana del patrón de crecimiento infantil de la OMS. Se excluyen valores <-6 y >6 DE.
	4	Ausencia de emaciación o sobrepeso	Porcentaje de niños/as con puntaje Z de peso para la altura >-2 y <+2 desviaciones estándar de la mediana del patrón de crecimiento infantil de la OMS, emaciación o sobrepeso respectivamente. Se excluyen valores <-5 y >5 DE
3. Atención receptiva			
	5	Estimulación temprana y atención receptiva	Porcentaje de niños/as con los cuales se han realizado cuatro o más actividades para promover estimulación temprana y atención receptiva en los últimos 3 días con (a) cualquier adulto miembro del hogar (b) padre (c) madre
	6	Supervisión adecuada	Porcentaje de niños/as que no fueron dejados solos o bajo la supervisión de otro niño de menor de 10 años de edad durante más de una hora al menos una vez la semana pasada
4. Oportunidades de aprendizaje temprano			
	7	Disponibilidad de libros infantiles (≥3)	Porcentaje de niños/as que tienen 3 o más libros infantiles
	8	Disponibilidad de juguetes (≥2 tipos)	Porcentaje de niños/as que juegan con 2 o más tipos de juguetes
	9	Asistencia a educación para la primera infancia	Porcentaje de niños/as que asisten a un programa de educación de la primera infancia
5. Seguridad y protección			
	10	Ausencia de castigo físico	Porcentaje de niños/as que no experimentaron agresión y/o castigo físico de sus cuidadores durante el último mes
	11	Registro de nacimiento	Porcentaje de niños/as cuyo nacimiento fue registrado ante una autoridad civil

DE: desviación estándar; OMS: Organización Mundial de la Salud.

Fuente: Elaboración propia, basada en la sección 3 "Definiciones e indicadores", páginas 20-32[4] y otros marcos adoptados.[3,5]

Consideraciones éticas

El trabajo se guía por el Protocolo Ético de la encuesta MICS de UNICEF.[4] Su empleo como fuente secundaria, de acceso abierto (https://mics.unicef.org/surveys), no requirió revisión por un comité de ética.

Tabla 2. Criterios para la construcción del Indicador de Desarrollo Infantil Temprano (ECDI)

Dominio	Hitos seleccionados que se espera que niños/as alcancen entre los 3 y 4 años de edad	Criterio para definir desarrollo adecuado
Alfabético-numérico	... el/la niño/a puede identificar/nombrar al menos diez letras del alfabeto ... el/la niño/a puede leer al menos cuatro palabras simples y populares ... el/la niño/a conoce el nombre y reconoce los símbolos de todos los números del 1 al 10.	≥2 hitos
Físico	... el/la niño/a puede levantar un objeto pequeño con dos dedos, como un palo o una piedra del suelo ...la madre/cuidadora no indica que el/la niño/a a veces está demasiado enfermo/a para jugar	≥1 hito
Aprendizaje	... el/la niño/a sigue instrucciones simples sobre cómo hacer algo correctamente ... al/a la niño/a se le da algo que hacer, si puede hacerlo de manera independiente	≥1 hito
Socioemocional	...el/la niño/a se lleva bien con otros/as niños y niñas ...el/la niño/a no patea, muerde o golpea a otros/as niños y niñas … el/la niño/a no se distrae fácilmente	≥2 hitos
Puntaje global	**Cantidad de dominios con referencias definidas como adecuadas**	≥3 dominios

Fuente: *Elaboración propia, basada en UNICEF - SIEMPRO, 2021, pág. 157.*

RESULTADOS

La muestra analizada quedó conformada por 2638 niños y niñas de 3 y 4 años, entre cuyas características se destaca un 54,1 % de hogares del Q1 y Q2 de riqueza, y el 44,9 % de las madres con estudios hasta nivel secundario incompleto (*Tabla 3*).

El promedio de acceso a los 11 indicadores de cuidados de NC fue del 79,1 %, con 7 indicadores en categoría de acceso alto (entre el 84,2 % y el 97,9 %) y 4 en categoría media (entre el 46,9 % y el 65,1 %). El contar con registro de nacimiento (97,9 %) y la disponibilidad de juguetes en el hogar (95,7 %) alcanza a casi la totalidad de niños y niñas, mientras que la ausencia de castigos físicos (56,1 %) y el contar con cobertura de seguro de salud (46,9 %) presentan accesos más bajos en indicadores de cobertura media. Del total de niños y niñas, el 87,9 % alcanza niveles adecuados de DIT según ECDI (*Tabla 4*).

Al observar por regiones, el NOA registra menor proporción de niños con ECDI adecuado (81,1 %) y la región Pampeana, la mayor. Por quintiles de riqueza, los hogares muestran que el 84,9 % del Q1 logran un ECDI adecuado frente al 87,8 % del Q5 (*Tabla 5*).

El acceso por regiones según cada indicador NC muestra que el porcentaje promedio en niños y niñas con ECDI adecuado es más bajo en el NEA (72,7 %) y el NOA (75,3 %). En el NEA, en cobertura de seguro de salud (35,0 %; IC95% 28,8-41,2), asistencia a centros y jardines infantiles (44,4 %; IC95% 38,1-51,0), disponibilidad de libros infantiles (47,0 %; IC95% 40,7-53,6), acceso a actividades de estimulación temprana (79,8 %; IC95% 74,1-84,6) y control anual de salud (81,6 %; IC95% 76,1-86,1). En el NOA, en ausencia de sobrepeso y emaciación (83,6 %; IC95% 79,1-87,3), cuidado adecuado con supervisión adulta (90,6 %; IC95% 87,1-93,4), disponibilidad de juguetes en el hogar (93,3 %; IC95% 90,2-95,6) y ausencia de castigos físicos (44,8 %; IC95% 39,4-50,1).

En contraposición, los porcentajes de acceso más altos se observan en Cuyo y en la Patagonia. En Cuyo, en registro de nacimiento (99,4 %; IC95% 97,4-99,9), ausencia de sobrepeso y emaciación (91,7 %; IC95% 87,4-95,6), cuidado adecuado con supervisión adulta (96,5 %; IC95% 93,1-98,6), ausencia de retraso de crecimiento (95,0 %; IC95% 91,4-97,8) y control anual de salud (95,0 %; IC95% 90,9-97,5). En la Patagonia, en disponibilidad de juguetes (97,6 %; IC95% 93,1-99,2), cobertura de seguro de salud (59,1 %; IC95% 50,1-68,0), actividades de estimulación temprana (88,6 %; IC95% 81,7-93,4) y disponibilidad de libros (70,4 %; IC95% 61,0-77,8) (*Figura 1A*).

Al considerar hogares según quintil de riqueza, el promedio del acceso a indicadores NC es del 72,4 % en el Q1 comparado con el 92,4 % del Q5 (*Figura 1B*). El Q1 tiene los valores

Tabla 3. Características sociodemográficas de niños y niñas de 3 y 4 años de localidades urbanas de la Argentina 2019-2020

Variable	Categoría	TOTAL N (n = 2638)	%	ECDI Desarrollo adecuado (n = 2320)	ECDI Desarrollo no adecuado (n = 318)
Edad	3 años (36 a 47 meses)	1297	49,2 (47,3-51,1)	84,6 (82,5-86,5)	15,4 (13,5-17,5)
	4 años (48 a 59 meses)	1341	50,8 (48,9-52,7)	91,2 (89,6-92,6)	8,8 (7,4-10,4)
Sexo	Varón	1380	52,3 (50,4-54,2)	86,5 (84,6-88,2)	13,5 (11,8-15,4)
	Mujer	1258	47,7 (45,8-49,6)	89,5 (87,6-91,0)	10,5 (8,9-12,3)
Región	AMBA	856	32,4 (30,7-34,3)	87,7 (85,4-89,8)	12,3 (10,2-14,6)
	Pampeana	868	32,9 (31,1-34,7)	91,0 (89,0-92,8)	9,0 (7,2-11,0)
	Cuyo	184	7,0 (6,0-8,0)	87,9 (82,8-92,1)	12,1 (7,9-17,2)
	NEA	238	9,0 (8,0-10,2)	89,9 (85,6-93,3)	10,1 (6,7-14,4)
	NOA	359	13,6 (12,3-15,0)	81,0 (76,8-84,9)	19,0 (15,1-23,2)
	Patagonia	133	5,0 (4,3-5,9)	84,6 (77,3-89,6)	15,4 (10,4-22,7)
Quintiles del índice de riqueza	Más pobre (Q1)	828	31,4 (29,6-33,2)	84,9 (82,3-87,2)	15,1 (12,8-17,7)
	Segundo (Q2)	598	22,7 (21,1-24,3)	88,3 (85,5-90,7)	11,7 (9,3-14,5)
	Medio (Q3)	503	19,1 (17,6-20,6)	89,2 (86,3-91,7)	10,8 (8,3-13,7)
	Cuarto (Q4)	357	13,5 (12,3-14,9)	92,6 (89,7-95,1)	7,4 (4,9-10,3)
	Más rico (Q5)	351	13,3 (12,0-14,6)	87,9 (84,3-91,1)	12,1 (9,1-16,0)
Titular de derecho AUH	Sí	1116	42,3 (40,4-44,2)	87,6 (85,5-89,4)	12,4 (10,6-14,5)
	No	1521	57,7 (55,8-59,5)	88,2 (86,5-89,8)	11,8 (10,2-13,5)
Máximo nivel educativo materno	Hasta secundario incompleto	1184	44,9 (43,0-46,8)	83,2 (81,0-85,2)	16,8 (14,8-19,0)
	Secundario completo/terciario/ universitario incompleto	1078	40,9 (39,0-42,7)	91,3 (89,5-92,9)	8,7 (7,1-10,5)
	Terciario/universitario completo	367	13,9 (12,6-15,3)	93,1 (90,3-95,4)	6,9 (4,6-9,7)
Máximo nivel educativo, jefe/a del hogar	Hasta secundario incompleto	1410	53,4 (51,5-55,3)	84,3 (82,3-86,1)	15,7 (13,9-17,7)
	Secundario completo/terciario/ universitario incompleto	894	33,9 (32,1-35,7)	91,3 (89,3-93,0)	8,7 (7,0-10,7)
	Terciario/universitario completo	319	12,1 (10,9-13,4)	94,1 (91,0-96,3)	5,9 (3,7-9,0)
Sexo, jefe/a del hogar	Varón	1221	46,3 (44,4-48,2)	88,6 (86,7-90,2)	11,4 (9,8-13,3)
	Mujer	1418	53,7 (51,8-55,7)	87,4 (85,6-89,0)	12,6 (11,0-14,4)
Pertenencia o descendencia indígena de jefe/a de hogar*	Sí	156	5,9 (5,1-6,9)	88,6 (82,8-92,8)	11,4 (7,2-17,2)
	No	2405	91,2 (90,0-92,2)	87,8 (86,5-89,1)	12,2 (10,9-13,5)

AMBA: Área Metropolitana de Buenos Aires; NEA: Noreste; NOA: Noroeste; AUH: asignación universal por hijo.
Fuente: Elaboración propia, basada en datos obtenidos de MICS 2019-2020.

más bajos, incluida cobertura de seguro de salud (20,2 %; IC95% 17,4-23,4), ausencia de retraso de crecimiento (84,6 %; IC95% 81,8-87,1), actividades de estimulación temprana (77,3 %; IC95% 74,2-80,2), disponibilidad de libros (46,9 %; IC95% 43,3-50,4), ausencia de castigo físico (48,7 %; IC95% 45,1-52,2) y registro de nacimiento (97,0 %; IC95% 95,4-97,9). Los niños y las niñas del Q5 tienen los valores más altos en todos los indicadores.

Las brechas más amplias se observan para cobertura de seguro de salud (Q1 20,0 %; IC95% 17,4-23,4. Q5 86,8 %; IC95% 82,9-90,1), disponibilidad de libros (Q1 46,9 %; IC95% 43,3-50,4. Q5 95,2 %; IC95% 92,5-95,1), ausencia de castigos físicos (Q1 48,7 %; IC95% 45,1-52,2. Q5 75,2 %; IC95% 70,3-79,6) y asistencia a un centro de cuidado infantil (Q1 61,1 %; IC95% 56,6-65,4. Q5 84,1 %; IC95% 79,9-87,7). No hay diferencias significativas en ausencia de sobrepeso y emaciación (Q1 87,2 %; IC95% 84,5-89,5. Q5 89,0 %; IC95% 85,0-92,3) y en registro de nacimiento (Q1 97,0 %; IC95% 95,4-97,9. Q5 99,5 %; IC95% 98,1-99,9).

Tabla 4. Acceso a indicadores del marco cuidado cariñoso y sensible (NC) en niños y niñas de 3 y 4 años según nivel de desarrollo infantil temprano para cada indicador de cuidado cariñoso y sensible (NC) en Argentina 2019-2020 (porcentaje e intervalo de confianza del 95 %)

			Acceso por indicador. Totales			ECDI por indicador	
Dimensión	**Variable**	**Categoría**	**n = 2638**	**% (IC95%)**	**Categoría de acceso**	**Desarrollo adecuado (n = 2320)**	**Desarrollo no adecuado (n = 318)**
Salud	Cobertura de seguro de salud	No	1395	52,9 (51,0-54,8)		87,1 (85,3-88,8)	12,9 (11,2-14,7)
		Sí	1238	46,9 (45,0-48,8)	Medio	88,8 (86,9-90,4)	11,2 (9,5-13,0)
	Realización de control de salud en el último año	No	256	9,7 (8,6-10,9)		84,6 (80,0-88,8)	15,4 (11,2-20,0)
		Sí	2380	90,2 (89,0-91,3)	Alto	88,3 (87,0-89,6)	11,7 (10,4-13,0)
Nutrición	Ausencia de retraso de crecimiento	No	244	10,0 (8,8-11,2)		87,3 (82,7-91,0)	12,7 (9,0-17,3)
		Sí	2203	90,0 (88,8-91,2)	Alto	88,1 (86,8-89,5)	11,9 (10,5-13,2)
	Ausencia de sobrepeso/emaciación	No	367	15,2 (13,8-16,7)		93,2 (90,3-95,4)	6,8 (4,6-9,7)
		Sí	2044	84,8 (83,3-86,2)	Alto	87,6 (86,1-89,0)	12,4 (11,0-13,9)
Atención receptiva	Actividades de estimulación temprana	No	395	15,0 (13,7-16,4)		77,0 (72,9-81,1)	23,0 (19,1-27,4)
		Sí	2243	85,0 (83,6-86,3)	Alto	89,9 (88,5-91,0)	10,1 (8,9-11,4)
	Cuidado adecuado	No	162	6,2 (5,3-7,1)		87,7 (81,9-92,0)	12,3 (8,0-18,1)
		Sí	2476	93,8 (92,9-94,7)	Alto	88,0 (86,6-89,2)	12,0 (10,8-13,4)
Oportunidades de aprendizaje	Disponibilidad de libros infantiles (≥3)	No	920	34,9 (33,1-36,7)		82,2 (79,6-84,5)	17,8 (15,4-20,3)
		Sí	1718	65,1 (63,3-66,9)	Medio	91,0 (89,6-92,3)	9,0 (7,7-10,4)
	Disponibilidad de juguetes (≥2 tipos)	No	114	4,3 (3,6-5,1)		89,7 (83,9-94,8)	10,3 (5,9-17,1)
		Sí	2524	95,7 (94,9-96,4)	Alto	87,9 (86,5-89,1)	12,1 (10,9-13,5)
	Asistencia a centro o jardín infantil	No	933	35,4 (33,6-37,2)		84,7 (82,4-87,0)	15,3 (13,1-17,7)
		Sí	1705	64,6 (62,8-66,4)	Medio	89,7 (88,2-91,1)	10,3 (8,9-11,8)
Seguridad y protección	Ausencia de castigo físico	No	1159	43,9 (42,0-45,8)		86,2 (84,2-88,2)	13,8 (11,8-15,8)
		Sí	1479	56,1 (54,2-58,0)	Medio	89,3 (87,6-90,8)	10,7 (9,2-12,4)
	Registro de nacimiento	No	54	2,1 (1,6-2,6)		76,7 (65,4-87,2)	23,3 (14,2-36,6)
		Sí	2584	97,9 (97,4-98,4)	Medio	88,2 (86,9-89,4)	11,8 (10,6-13,1)

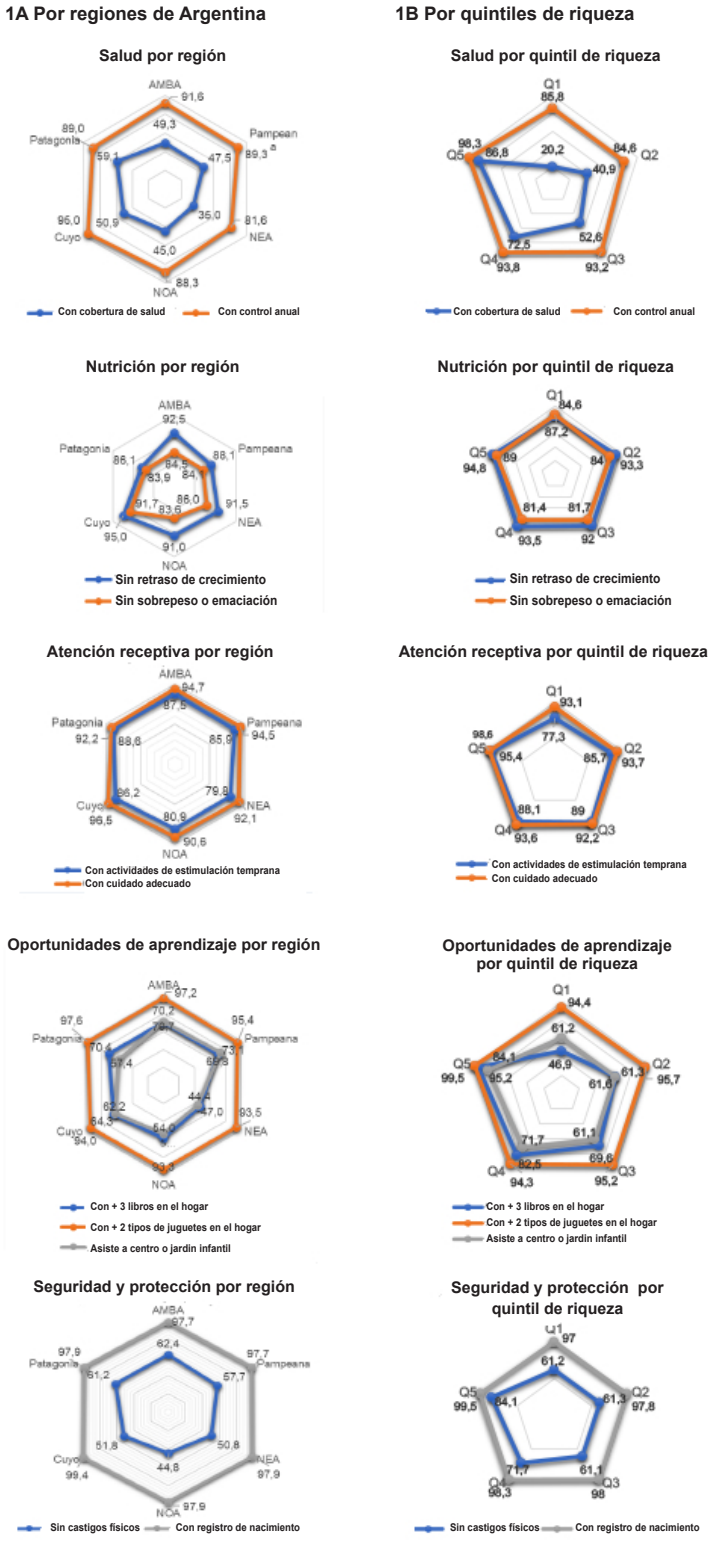
Fuente: Elaboración propia, basada en datos obtenidos de MICS 2019-2020. Categoría de acceso "alto" (70 % a 100 %) y "medio" (40 % al 69 %), creadas según indicador NC.[4]

Tabla 5. Niveles de desarrollo infantil temprano según el indicador de Desarrollo Infantil Temprano (ECDI), por quintiles de riqueza y regiones

	Desarrollo adecuado (n = 2320)		Desarrollo no adecuado (n = 318)		Total (n = 2638)	
Quintiles del índice de riqueza	**Recuento**	**% (IC95%)**	**Recuento**	**% (IC95%)**	**Recuento**	**%**
Más pobre (Q1)	703	84,9 (82,3-87,2)	125	15,1 (12,8-17,7)	828	100,0
Segundo (Q2)	528	88,3 (85,5-90,7)	70	11,7 (9,3-14,5)	598	100,0
Medio (Q3)	449	89,3 (86,3-91,7)	54	10,7 (8,3-13,7)	503	100,0
Cuarto (Q4)	331	92,6 (89,7-95,1)	26	7,3 (4,9-10,3)	357	100,0
Más rico (Q5)	309	87,8 (84,3-91,1)	43	12,2 (9,1-16,0)	352	100,0
Regiones argentinas						
Área Metropolitana de Buenos Aires (AMBA)	751	87,7 (85,4-89,8)	105	12,3 (10,2-14,6)	856	100,0
Pampeana	790	91,0 (89,0-92,8)	78	9,0 (7,2-11,0)	868	100,0
Cuyo	162	88,0 (82,8-91,1)	22	12,0 (7,9-17,2)	184	100,0
Noreste (NEA)	214	89,9 (85,6-93,3)	24	10,1 (6,7-14,4)	238	100,0
Noroeste (NOA)	291	81,1 (76,8-84,9)	68	18,9 (15,1-23,2)	359	100,0
Patagonia	112	84,2 (77,3-89,6)	21	15,8 (10,4-22,7)	133	100,0

Fuente: Elaboración propia, basada en datos obtenidos de MICS 2019-2020.

Figura 1. Porcentaje de acceso a indicadores del marco cuidado cariñoso y sensible (NC) en niños y niñas de 3 y 4 años con Indicador de Desarrollo Infantil Temprano (ECDI) adecuado por región de la Argentina y quintiles de riqueza 2019-2020



AMBA: Área Metropolitana de Buenos Aires; NEA: Noreste; NOA: Noroeste.
Fuente: Elaboración propia, basada en datos obtenidos de MICS 2019-2020.

DISCUSIÓN

Como medida del estado general de bienestar,[13] los resultados señalan que niños y niñas de 3 y 4 años de conglomerados urbanos de la Argentina reciben cuidados cariñosos y sensibles mínimos mayormente en niveles altos y que, dentro de los que alcanzan niveles adecuados de DIT, el acceso es desigual según la región donde viven y el nivel de riqueza de sus hogares.

A pesar de los avances en acceso, los resultados demuestran que la equidad pretendida por la expansión de servicios para primera infancia en las últimas décadas no es suficiente en los grupos de mayor vulnerabilidad. Según surge de la interpretación de resultados de la tabla 3, es necesario considerar, por un lado, la densidad poblacional, por la cual el 65,4 % de niños niñas viven en la región Pampeana (32,9 %) y el AMBA (32,4 %), mientras que en el norte reside el 22,6 %, entre el NOA (13,6 %) y el NEA (9,0 %). Y, por otro lado, la proporción relativa de los quintiles más pobres (Q1-Q2) dentro de cada región, con el 86,3 % de niños y niñas del NEA y el 60,4 % del NOA (mayor parte de la población infantil), el 54,3 % de la región Pampeana y el 51,1 % del AMBA (mitad de la población infantil).[4] Estas proporciones reflejan dos problemas diferenciados en cada región. La región Pampeana y el AMBA se caracterizan por la desigualdad de acceso a cuidados y ECDI adecuado en la mitad de los hogares del Q1 y Q2. Es decir, exige esfuerzos sectoriales efectivos y focalizados en la mitad de la población infantil. En el NEA y el NOA, al prevalecer la pobreza estructural en la mayor parte de la población infantil, el menor acceso a cuidados en ambas regiones afecta proporcionalmente a más niños y niñas, y es menor la población con ECDI adecuado en el NOA.

Las diferencias según quintiles de riqueza señalan una tendencia positiva en acceso a cuidados y ECDI entre el Q1 y el Q4, en tanto que en el Q5 con un mayor nivel de acceso la tendencia en DIT no se sostiene, a pesar de que las evidencias validan la relación,[14-16] lo cual requiere mayor indagación en futuras investigaciones. En los quintiles más pobres, los indicadores presentan mayor dependencia de cuidadores en el hogar como ámbito principal para niños y niñas en situación de pobreza.[17] La menor asistencia a centros y jardines infantiles, la mayor presencia de castigos físicos, la menor disponibilidad de materiales adecuados y actividades en el hogar encuentran desafíos en el conocimiento de este entorno y la cobertura de políticas y programas.

En relación con el estado antropométrico, el 15,2 % de los niños y niñas presentaron peso inadecuado, principalmente sobrepeso (13,0 %). Esta problemática se encuentra extendida a nivel mundial y regional,[18] que no varía según quintil de riqueza, lo que estaría señalando un problema sistémico y de calidad estructural, no de acceso.

Las evidencias de este trabajo buscan retroalimentar y fortalecer la toma de decisiones, con acciones que promuevan mejor calidad de acceso a salud y nutrición, educación temprana, promoción de crianzas positivas y oportunidades de aprendizaje, en pos de alcanzar un desarrollo infantil pleno.

Tras 5 años de su lanzamiento, el marco NC cuenta con adaptaciones y operacionalizaciones[19] cuyo propósito es obtener una aproximación entre condiciones creadas por políticas de crianza, el nivel de acceso y su aporte al DIT. En este contexto, se encuentran índices multidimensionales de NC que comparan cuidados entre países de ingresos bajos y medios,[5] o entre municipios, como por ejemplo el utilizado en investigaciones realizadas en Brasil, que seleccionaron 31 indicadores para conformar el Índice *Município Amigo da Primeira Infância* (IMAPI) para monitorear 5570 municipios y diagnosticar desigualdades regionales[20] similares a las evidenciadas en este trabajo. En Chile, también se relevaron antecedentes del Programa Chile Crece Contigo[21] y en Colombia, a partir de la estrategia “de Cero a Siempre”, se relevó la preocupación por castigos físicos hacia niños y niñas.[22] Otros estudios recientes analizan la correspondencia de indicadores NC con niveles de DI en Brasil,[23] con resultados convergentes con los indicadores seleccionados en este trabajo. En esta línea, los resultados facilitan constructos descriptivos que pueden contribuir a propiciar consensos sobre el modo en el cual los indicadores seleccionados impactan en dimensiones de DIT[24] de niños y niñas de Argentina.

Entre las limitaciones del trabajo, vale señalar que en Argentina existen escasas evidencias que aporten cualidades y matices de la frecuencia, la calidad o la capacidad de respuesta de la atención que reciben los niños[5] en intervenciones específicas o en validación de indicadores e instrumentos. Estas vacancias que se verifican en otros contextos y consensos[5] limitan la

interpretación de resultados en evaluaciones de DIT, que son poco acompañadas de datos sistematizados por proveedores de servicios para la primera infancia.[13,15] Por esta razón, los resultados deben interpretarse según los indicadores específicos seleccionados y cortes utilizados.[5] Una segunda limitación es que la muestra abarca solo zonas urbanas, con indicadores que el aislamiento provocado por la pandemia por COVID-19 puede haber agravado. La necesidad de sumar datos provinciales y municipales contribuye al conocimiento de políticas escasamente entrelazadas entre sectores y niveles de gobierno.

Las fortalezas de este trabajo permiten destacar la representatividad nacional de la muestra, resultados recientemente obtenidos, indicadores pertinentes, situados territorialmente y multisectoriales, según la mejor evidencia disponible del modelo NC. Asimismo, se destaca la necesidad de diseño e implementación de políticas multisectoriales, con su monitoreo, evaluación y sistemas según la Ley 27611 de Atención y Cuidado Integral de la Salud durante el Embarazo y la Primera Infancia.[25]

CONCLUSIONES

Los resultados evidencian desigualdades de acceso a cuidados y en DIT adecuado de niños y niñas de 3 y 4 años de áreas urbanas de Argentina, según la región donde viven y el nivel de riqueza de sus hogares. El acceso a cuidados es desigual entre regiones, especialmente en el NEA y el NOA, pero no asociable a un menor ECDI. La influencia del nivel socioeconómico explica parcialmente la falta de relación en algunas regiones, pero se requieren futuros estudios. ■

REFERENCIAS

1. Black MM, Walker S, Fernald L, Andersen C, et al. Early Childhood Development Coming of Age: Science Through the Life Course. *Lancet*. 2017;389(10064):77-90.
2. Britto PR, Lye SJ, Proulx K, Yousafzai A, et al. Nurturing care: promoting early childhood development. *Lancet*. 2017;389(10064):91-102.
3. Organización Panamericana de la Salud, Organización Mundial de la Salud. El cuidado cariñoso y sensible para el desarrollo en la primera infancia. Marco para ayudar a los niños y niñas a sobrevivir y prosperar a fin de transformar la salud y el potencial humano. Washington DC: OPS, 2021. [Consulta: 29 de marzo de 2023]. Disponible en: https://iris.paho.org/handle/10665.2/55218
4. UNICEF, SIEMPRO. Encuesta Nacional de Niñas, Niños y Adolescentes (MICS) 2019-20. [Consulta: 29 de marzo de 2023]. Disponible en: https://www.unicef.org/argentina/media/12071/file/MICS%202019-2020.pdf
5. McCoy DC, Seiden J, Cuartas J, Pisani L, Waldman M. Estimates of a multidimensional index of nurturing care in the next 1000 days of life for children in low-income and middle-income countries: a modelling study. *Lancet Child Adolesc Health*. 2022;6(5):324-34.
6. Argentina. Ministerio de Salud. Encuesta Nacional de Nutrición y Salud (ENNYS). Documento de resultados, 2007. [Consulta: 31 de marzo de 2023]. Disponible en: https://bancos.salud.gob.ar/recurso/encuesta-nacional-de-nutricion-y-salud-documento-de-resultados-2007
7. Lejarraga H, Kelmansky D, Passcucci MC, Masautis A, et al. Evaluación del desarrollo psicomotor del niño en grupos de población como indicador positivo de salud. *Arch Argent Pediatr*. 2016;114(1):23-9.
8. Lejarraga H, Kelmansky D, Masautis A, Nunes F. Índice de desarrollo psicomotor en menores de seis años en las provincias argentinas. *Arch Argent Pediatr*. 2018;116(2):e251-6.
9. Herrera Vegas ME. Sistemas Alimentarios Sostenibles y Primera Infancia. Condiciones de vida, situación alimentaria y desarrollo infantil en Argentina: bases para una teoría del cambio e intervenciones. Buenos Aires: Fundación Alimentaris; 2020. [Consulta: 31 de marzo de 2023]. Disponible en: https://www.sistemasalimentariossostenibles.org/descargas/2022/SAS-Informe-Diagnostico.pdf
10. Herrera Vegas ME. Políticas de Asistencia Alimentaria y Programas relacionados, antes de la pandemia. En Salvia A, Britos S, Diaz-Bonilla E (eds). Reflexiones sobre las políticas alimentarionutricionales de la Argentina, antes y durante la pandemia del COVID-19. Washingtong DC: International Food Policy Research Institute, 2020:66-90. [Consulta: 1 de abril de 2023]. Disponible en: https://www.ifpri.org/es/publication/reflexiones-sobre-las-pol%C3%ADticas-alimentarionutricionales-de-la-argentina-antes-y-durante
11. Diálogo Interamericano, CIPPEC. Argentina: Informe de progreso de Políticas de Primera Infancia. Agenda Regional para el Desarrollo Integral de la Primera Infancia. 2019. [Consulta: 1 de abril de 2023]. Disponible en: https://www.thedialogue.org/wp-content/uploads/2019/09/Argentina-Layout-3_9.5.19.pdf
12. Poy S, Tuñón I, Sánchez ME. Pobreza infantil en la Argentina (1992-2019): tendencia y disparidades regionales. *Poblac Soc*. 2021;28(1):188-216.
13. Fernald LCH, Prado E, Kariger P, Raikes A. A Toolkit for Measuring Early Childhood Development in Low- and Middle-Income Countries. Washington DC: International Bank for Reconstruction and Development / World Bank; 2017. [Consulta: 1 de abril de 2023]. Disponible en: https://openknowledge.worldbank.org/bitstream/handle/10986/29000/WB-SIEF-ECD-MEASUREMENT-TOOLKIT.pdf?sequence=1&isAllowed=y
14. Lejarraga H, Kelmansky D. Desarrollo Infantil en Argentina: Epidemiología y propuestas para el sector salud. Buenos Aires: Paidós; 2021.
15. Regalia F, Vegas E, Araujo MC, López-Boo F, et al. Documento de Marco Sectorial de Desarrollo Infantil Temprano. *Banco Interamericano de Desarrollo, Sector Social.* 2019. [Consulta: 8 de abril de 2023]. Disponible en: https://idbdocs.iadb.org/wsdocs/getdocument.aspx?docnum=EZSHARE-9695416-18
16. Secretaría Nacional de Niñez, Adolescencia y Familia y Fondo de las Naciones Unidas para la Infancia. Encuesta de Indicadores Múltiples por Conglomerados 2011/2012. Informe Final, 2014. [Consulta: 6 de septiembre de 2023]. Disponible en: https://www.unicef.org/argentina/informes/encuesta-de-indicadores-m%C3%BAltiples-por-conglomerados-2011-2012-0
17. Kalil A, Duncan GJ, Ziol-Guest KM. Early Childhood

Poverty: Short and Long-Run Consequences Over the Lifespan. In Shanahan M, Mortimer J, Kirkpatrick Johnson M (eds). Handbook of the Life Course. Wisconsin: Springer, 2016:341-54.
18. Fondo de las Naciones Unidas para la Infancia. El sobrepeso en la niñez: Un llamado para la prevención en América Latina y el Caribe. Ciudad de Panamá: UNICEF; 2021.
19. WHO, UNICEF, World Bank Group, ECDAN, Partnership for Maternal, Newborn and Child Health. Operationalizing Nurturing Care for Early Childhood Development: The role of the health sector alongside other sectors and actors. Geneva, 2019. [Consulta: 6 de septiembre de 2023]. Disponible en: https://nurturing-care.org/wp-content/uploads/2019/07/Operationalizing-NC.pdf
20. Buccini G, Kubo SE, Pedroso J, Bertoldo J, et al. Sociodemographic inequities in nurturing care for early childhood development across Brazilian municipalities. *Matern Child Nutr.* 2022;18(Suppl 2):e13232.
21. Molina Milman H, Castillo CA, Torres Sansotta A, Valenzuela Delpiano P, Murray J. Scaling up an early childhood development programme through a national multisectoral approach to social protection: lessons from Chile Crece Contigo. *BMJ.* 2018;363:k4513.
22. Nores M, Fernandez C. Building capacity in health and education systems to deliver interventions that strengthen early child development. *Ann N Y Acad Sci.* 2018;1419(1):57-73.
23. Venancio SI, Teixeira JA, de Bortoli MC, Bernal RTI. Factors associated with early childhood development in municipalities of Ceará, Brazil: a hierarchical model of contexts, environments, and nurturing care domains in a cross-sectional study. *Lancet Reg Health Am.* 2021;5:100139.
24. Schady N. Early Childhood Development in Latin America and the Caribbean. World Bank Policy Research, Working Paper 3869, 2006. [Consulta: 8 de abril de 2023] Disponible en: https://documents1.worldbank.org/curated/en/589551468016812642/pdf/wps3869.pdf
25. Ley Nº 27.611. Ley Nacional de Atención y Cuidado Integral de la Salud durante el Embarazo y la Primera Infancia. Boletín Oficial de la República Argentina. Buenos Aires, Argentina, 15 de enero de 2021. [Consulta: 8 de abril de 2023] Disponible en: https://www.boletinoficial.gob.ar/detalleAviso/primera/239809/20210115

Original article

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310081

Analysis of early childhood development according to the nurturing care framework, by wealth quintiles and regions of Argentina (2019–2020)

María E. Herrera Vegas[a], *María E. Zapata*[a], *María C. Nessier*[a], *Agustina Marconi*[b], *Alicia Rovirosa*[a], *Paula Gómez*[a]

ABSTRACT

Introduction. One of the main challenges for early childhood is to provide adequate care to reduce inequalities and promote an early childhood development (ECD). The objective of this study was to describe the relationship between the care provided to children aged 3 and 4 years according to the nurturing care (NC) framework and their ECD levels in Argentina, considering the region and wealth quintiles.

Population and methods. This was an observational, cross-sectional analytical study based on data from the National Survey of Children and Adolescents (MICS) of Argentina 2019–2020. A total of 11 NC indicators were selected; the level of ECD was estimated using the Early Childhood Development Index (ECDI) for a descriptive, statistical analysis.

Results. In 2638 children aged 3 and 4 years assessed, the average access to care indicators was 79.1%; access was high for 7 indicators (between 84.2% and 97.9%) and middle for 4 indicators (between 46.9% and 65.1%); the highest and lowest frequency corresponded to having a birth certificate (97.9%) and health insurance coverage (46.9%), respectively. Adequate ECDI levels were observed in 87.9%. Results show differences by wealth quintile and region.

Conclusions. The results evidence inequalities in terms of access to care and an adequate ECD of children aged 3 and 4 years from urban areas of Argentina, depending on the region where they live and their household wealth level.

Keywords: *Argentina; child care; child development; child protection; child poverty.*

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10081.eng

To cite: Herrera Vegas ME, Zapata ME, Nessier MC, Marconi A, et al. Analysis of early childhood development according to the nurturing care framework, by wealth quintiles and regions of Argentina (2019–2020). *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310081.

[a] *Child Nutrition Study Center Dr. Alejandro O'Donnell, City of Buenos Aires, Argentina;* [b] *University of Wisconsin-Madison, Madison, United States.*

Correspondence to *María E. Herrera Vegas: meherreravegas@cesni.org.ar*

Funding*: None.*

Conflict of interest*: None.*

Received*: 5-2-2023*
Accepted*: 9-6-2023*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

INTRODUCTION

In 2016, the global Nurturing Care framework was proposed by *The Lancet* Early Childhood Development Series[1,2] and was then adopted and formalized by the World Health Organization, the UNICEF, and the World Bank in 2018.[3] The NC framework includes 5 domains: health, nutrition, responsive care, learning opportunities, and safety and protection. It is used to monitor and assess the conditions created by policies, programs, public services, and the community,[3] and the influence of such conditions on early childhood development (ECD).

According to the most recent available information, based on the UNICEF Multiple Indicator Cluster Surveys (MICS)[4] and NC framework indicators, 65.8% of children aged 3 and 4 years in Argentina receive minimal nurturing care[5] and 86.2% has an adequate ECD level as per the ECDI.

In spite of such measurements, there is little information about the correlation between NC and ECD. Although ECD measurements in Argentina are based on a history of surveys, investigations, and studies conducted by international organizations,[6~8] there is not enough information available about child care at a population level to make a diagnosis and establish interventions in the clinical setting.

Many of the policies and actions for early childhood prevention and care lack evidence, together with deficient monitoring and assessment policies or systematization of information from the sectors involved.[9,10] In particular, in Argentina, a large part of the child population is born and lives in a situation of monetary poverty and is the most affected age group in the past 3 decades. Poverty figures for this group reach between 38.3% and 78.8%, while for the general population they range between 24.4% and 63.7%.[12]

The objective of this study was to describe the relationship between the care received by children aged 3 and 4 years, as per the NC framework, and an adequate ECD level in Argentina in 2019–2020, considering the differences among the regions where they live and their household wealth quintile.

POPULATION AND METHODS

Observational, cross-sectional, analytical study. The database from the MICS conducted in Argentina in 2019–2020 was used as a secondary source. That MICS took a multistage probability sample of urban areas from the 6 Argentine regions. The database of the questionnaire for children younger than 5 years (n = 6343 children) and the household questionnaire, which collects demographic information, were used.[4] This analysis included children aged 3 and 4 years without functional difficulties and who do not require additional and specific care.

Variables were selected according to the recommendations of the guide proposed by the NC framework, which presents a set of indicators based on monitoring and follow-up of the Sustainable Development Goals (SDGs) for the NC domain.[3] Criteria and indicators used to define the NC index, based on the MICS variable and the Demographic and Health Surveys (DHS) program[5] were also considered. Eleven indicators were selected for the 5 NC domains; at least 2 indicators per domain were included (*Table 1*). Each indicator was categorized according to the NC index scores from the analysis conducted by McCoy, D. et al.[5] in 137 countries. Considering that countries aim to expand this care to universal access (100% of the child population), for the purposes of this study, "high" access was defined as indicators between 70% and 100%; "middle", between 40% and 69%; and "low", from 0% to 39%.

To determine ECD levels, the ECDI indicator was used following the MICS specifications;[4] a global ECDI was developed for each child in the sample according to the 10 milestones in the 4 domains (*Table 2*). The region and wealth quintile variables were obtained from the database; quintile 1 (Q1) was considered the poorest and quintile 5 (Q5), the richest. Six regions were established: Metropolitan Area of Buenos Aires (AMBA), Pampa, Cuyo, Northwest (NOA), Northeast (NEA), and Patagonia.

A descriptive analysis was done using the Microsoft Office Excel 2007 and the SPSS v20 software considering the weighted database. First of all, the overall frequencies were analyzed for each study variable and then differences by wealth quintile and region were assessed in children with an adequate ECD.

Ethical considerations

This study was conducted in accordance with the Ethics Protocol of the UNICEF MICS.[4] Its open access use as secondary source (https://mics.unicef.org/surveys) did not require the review by an ethics committee.

Table 1. Indicators and variables selected by domain of the nurturing care framework

Domain		Indicator	Definition
1. Adequate health			
	1	Health insurance coverage	Percentage of households with at least one family member with health insurance coverage through a labor union, the Pensioners Welfare Institute (PAMI), or a private company
	2	Health checkup in the past year	Percentage of children who had a health checkup in the past 12 months
2. Adequate nutrition			
	3	Absence of growth stunting	Percentage of children with a Z-score for height-for-age ≥ -2 standard deviations (SDs) from the median child growth standard proposed by the WHO. Values < -6 and > 6 SDs were excluded.
	4	Absence of wasting or overweight	Percentage of children with a Z-score for weight-for-height > -2 and < +2 SDs from the median child growth standard proposed by the WHO, wasting, or overweight, respectively. Values < -5 and > 5 SDs were excluded.
3. Responsive care			
	5	Early stimulation and responsive care	Percentage of children with whom 4 or more activities to promote early stimulation and responsive care have been carried out in the past 3 days, with (a) any adult household member (b) their father (c) their mother
	6	Adequate supervision	Percentage of children who were not left alone or under the supervision of another child younger than 10 years old for more than 1 hour at least once in the past week
4. Early learning opportunities			
	7	Availability of children books (≥ 3)	Percentage of children who have 3 or more children books
	8	Availability of toys (≥ 2 types)	Percentage of children who play with 2 or more types of toys
	9	Attendance to early childhood education facility	Percentage of children who attend an early childhood education facility
5. Safety and protection			
	10	Absence of corporal punishment	Percentage of children who did not suffered aggression or corporal punishment from their caregivers in the past month
	11	Birth certificate	Percentage of children whose birth was recorded before a vital statistics agency

SD: standard deviation; WHO: World Health Organization.

Source: Developed by the authors based on section 3 "Definitions and indicators," pp. 20–32[4] and other frameworks adopted.[3,5]

RESULTS

The analyzed sample consisted of 2638 children aged 3 and 4 years. Of them, 54.1% of their households were in Q1 and Q2 of wealth and 44.9% of their mothers had not completed secondary education (*Table 3*).

The average access to the 11 NC indicators was 79.1%; 7 indicators were in the high access category (between 84.2% and 97.9%) and 4, in the middle access category (between 46.9% and 65.1%). Having a birth certificate (97.9%) and the availability of toys at home (95.7%) encompasses almost all children, whereas the absence of corporal punishment (56.1%) and having health

Table 2. Criteria for the development of the early childhood development index (ECDI)

Domain	Selected milestones expected in children between 3 and 4 years of age	Criterion to define adequate development
Alphanumeric	… the child identifies/names at least 10 letters of the alphabet ... the child reads at least 4 simple, popular words ... the child knows the name and recognizes the symbols of all the numbers from 1 to 10	≥ 2 milestones
Physical	... the child lifts a small object with 2 fingers, such as a stick or a stone off the ground ... the mother/caregiver does not mention that the child is sometimes too sick to play	≥ 1 milestone
Learning .	... the child follows simple instructions about how to do something correctly .. the child is given something to do, if able to do it independently	≥ 1 milestone
Socio-emotional .	... the child gets along well with other children .. the child does not kick, bite, or hit other children … the child is not easily distracted	≥ 2 milestones
Overall score	**Number of domains whose references were defined as adequate**	≥ 3 domains

Source: Developed by the authors based on UNICEF - SIEMPRO, 2021, p. 157.

insurance coverage (46.9%) showed lower levels of access in medium coverage indicators. Adequate ECD levels were observed in 87.9% of children (*Table 4*).

When analyzed by region, the NOA shows a lower proportion of children with an adequate ECDI (81.1%), while the Pampa has the highest proportion. When analyzed by wealth quintile, 84.9% of households in Q1 have an adequate ECDI versus 87.8% in Q5 (*Table 5*).

The access by region as per each NC indicator shows that the average percentage of children with an adequate ECDI is lower in the NEA (72.7%) and the NOA (75.3%). In the NEA, it corresponds to health insurance coverage (35.0%, 95% CI: 28.8–41.2), attendance to day care center or kindergarten (44.4%, 95% CI: 38.1–51.0), availability of children books (47.0%, 95% CI: 40.7–53.6), access to early stimulation activities (79.8%, 95% CI: 74.1–84.6), and annual health checkup (81.6%, 95% CI: 76.1–86.1). In the NOA, it corresponds to the absence of overweight and wasting (83.6%, 95% CI: 79.1–87.3), adequate care under adult supervision (90.6%, 95% CI: 87.1–93.4), availability of toys at home (93.3%, 95% CI: 90.2–95.6), and absence of corporal punishment (44.8%, 95% CI: 39.4–50.1).

On the contrary, the highest access percentages are observed in Cuyo and Patagonia. In Cuyo, it corresponds to having a birth certificate (99.4%, 95% CI: 97.4–99.9), absence of overweight and wasting (91.7%, 95% CI: 87.4–95.6), adequate care under adult supervision (96.5%, 95% CI: 93.1–98.6), absence of growth stunting (95.0%, 95% CI: 91.4–97.8), and annual health checkup (95.0%, 95% CI: 90.9–97.5). In Patagonia, it corresponds to availability of toys at home (97.6%, 95% CI: 93.1–99.2), health insurance coverage (59.1%, 95% CI: 50.1–68.0), early stimulation activities (88.6%, 95% CI: 81.7–93.4), and availability of children books (70.4%, 95% CI: 61.0–77.8) (*Figure 1A*).

When considering households by wealth quintile, the average access to NC indicators was 72.4% in Q1 versus 92.4% in Q5 (*Figure 1B*). Q1 showed the lowest values, including health insurance coverage (20.2%, 95% CI: 17.4–23.4), absence of growth stunting (84.6%, 95% CI: 81.8–87.1), early stimulation activities (77.3%, 95% CI: 74.2–80.2), availability of children books (46.9%, 95% CI: 43.3–50.4), absence of corporal punishment (48.7%, 95% CI: 45.1–52.2), and birth certificate (97.0%, 95% CI: 95.4–97.9). Children in Q5 show higher values across all indicators.

The widest gaps were observed in relation to health insurance coverage (Q1 20.0%, 95% CI: 17.4–23.4; Q5 86.8%, 95% CI: 82.9–90.1), availability of child books (Q1 46.9%, 95% CI: 43.3–50.4; Q5 95.2%, 95% CI: 92.5–95.1), absence of corporal punishment (Q1 48.7%, 95% CI: 45.1–52.2; Q5 75.2%, 95% CI: 70.3–79.6), and attendance to a

Table 3. Sociodemographic characteristics of children aged 3 and 4 years from urban areas of Argentina 2019–2020

Variable	Category	TOTAL N (n = 2638)	%	ECDI Adequate development (n = 2320)	ECDI Inadequate development (n = 318)
Age	3 years (36 to 47 months)	1297	49.2 (47.3–51.1)	84.6 (82.5–86.5)	15.4 (13.5–17.5)
	4 years (48 to 59 months)	1341	50.8 (48.9–52.7)	91.2 (89.6–92.6)	8.8 (7.4–10.4)
Sex	Male	1380	52.3 (50.4–54.2)	86.5 (84.6–88.2)	13.5 (11.8–15.4)
	Female	1258	47.7 (45.8–49.6)	89.5 (87.6–91.0)	10.5 (8.9–12.3)
Region	AMBA	856	32.4 (30.7–34.3)	87.7 (85.4–89.8)	12.3 (10.2–14.6)
	Pampa	868	32.9 (31.1–34.7)	91.0 (89.0–92.8)	9.0 (7.2–11.0)
	Cuyo	184	7.0 (6.0–8.0)	87.9 (82.8–92.1)	12.1 (7.9–17.2)
	NEA	238	9.0 (8.0–10.2)	89.9 (85.6–93.3)	10.1 (6.7–14.4)
	NOA	359	13.6 (12.3–15.0)	81.0 (76.8–84.9)	19.0 (15.1–23.2)
	Patagonia	133	5.0 (4.3–5.9)	84.6 (77.3–89.6)	15.4 (10.4–22.7)
Wealth index quintiles	Poorest (Q1)	828	31.4 (29.6–33.2)	84.9 (82.3–87.2)	15.1 (12.8–17.7)
	Second (Q2)	598	22.7 (21.1–24.3)	88.3 (85.5–90.7)	11.7 (9.3–14.5)
	Third (Q3)	503	19.1 (17.6–20.6)	89.2 (86.3–91.7)	10.8 (8.3–13.7)
	Fourth (Q4)	357	13.5 (12.3–14.9)	92.6 (89.7–95.1)	7.4 (4.9–10.3)
	Richest (Q5)	351	13.3 (12.0–14.6)	87.9 (84.3–91.1)	12.1 (9.1–16.0)
Beneficiary of UCA	Yes	1116	42.3 (40.4–44.2)	87.6 (85.5–89.4)	12.4 (10.6–14.5)
	No	1521	57.7 (55.8–59.5)	88.2 (86.5–89.8)	11.8 (10.2–13.5)
Maximum level of education completed by the mother	Up to incomplete secondary education	1184	44.9 (43.0–46.8)	83.2 (81.0–85.2)	16.8 (14.8–19.0)
	Complete secondary education/incomplete tertiary/university education	1078	40.9 (39.0–42.7)	91.3 (89.5–92.9)	8.7 (7.1–10.5)
	Complete tertiary/university education	367	13.9 (12.6–15.3)	93.1 (90.3–95.4)	6.9 (4.6–9.7)
Maximum level of education completed by the head of household	Up to incomplete secondary education	1410	53.4 (51.5–55.3)	84.3 (82.3–86.1)	15.7 (13.9–17.7)
	Complete secondary education/incomplete tertiary/university education	894	33.9 (32.1–35.7)	91.3 (89.3–93.0)	8.7 (7.0–10.7)
	Complete tertiary/university education	319	12.1 (10.9–13.4)	94.1 (91.0–96.3)	5.9 (3.7–9.0)
Sex, head of household	Male	1221	46.3 (44.4–48.2)	88.6 (86.7–90.2)	11.4 (9.8–13.3)
	Female	1418	53.7 (51.8–55.7)	87.4 (85.6–89.0)	12.6 (11.0–14.4)
Head of household who is indigenous or descendant of indigenous peoples*	Yes	156	5.9 (5.1–6.9)	88.6 (82.8–92.8)	11.4 (7.2–17.2)
	No	2405	91.2 (90.0–92.2)	87.8 (86.5–89.1)	12.2 (10.9–13.5)

AMBA: Metropolitan Area of Buenos Aires; NEA: Northeast region of Argentina; NOA: Northwest region of Argentina; UCA: universal child allowance.
Source: Developed by the authors based on data from MICS 2019–2020.

day care center or kindergarten (Q1 61.1%, 95% CI: 56.6–65.4; Q5 84.1%, 95% CI: 79.9–87.7). No significant differences were observed in relation to absence of overweight and wasting (Q1 87.2%, 95% CI: 84.5–89.5; Q5 89.0%, 95% CI: 85.0–92.3) and birth certificate (Q1 97.0%, 95% CI: 95.4–97.9; Q5 99.5%, 95% CI: 98.1–99.9).

DISCUSSION

As a measure of general well-being,[13] the results indicate that children aged 3 and 4 years in urban areas in Argentina receive minimal nurturing care, mostly at high levels, and that, among those who reach adequate ECD levels, access is unequal according to the region where they live and their household wealth level.

Table 4. Access to indicators of nurturing care framework in children aged 3 and 4 years by level of early childhood development for each nurturing care indicator in Argentina 2019–2020 (percentage and 95% confidence interval)

Domain	Variable	Access by indicator. Total				ECDI by indicator	
		Category	n = 2638	% (95% CI)	Category of access	Adequate development (n = 2320)	Inadequate development (n = 318)
Health	Health insurance coverage	No	1395	52.9 (51.0–54.8)		87.1 (85.3–88.8)	12.9 (11.2–14.7)
		Yes	1238	46.9 (45.0–48.8)	Middle	88.8 (86.9–90.4)	11.2 (9.5–13.0)
	Health checkup in the past year	No	256	9.7 (8.6–10.9)		84.6 (80.0–88.8)	15.4 (11.2–20.0)
		Yes	2380	90.2 (89.0–91.3)	High	88.3 (87.0–89.6)	11.7 (10.4–13.0)
Nutrition	Absence of growth stunting	No	244	10.0 (8.8–11.2)		87.3 (82.7–91.0)	12.7 (9.0–17.3)
		Yes	2203	90.0 (88.8–91.2)	High	88.1 (86.8–89.5)	11.9 (10.5–13.2)
	Absence of overweight/ wasting	No	367	15.2 (13.8–16.7)		93.2 (90.3–95.4)	6.8 (4.6–9.7)
		Yes	2044	84.8 (83.3–86.2)	High	87.6 (86.1–89.0)	12.4 (11.0–13.9)
Responsive care	Early stimulation activities	No	395	15.0 (13.7–16.4)		77.0 (72.9–81.1)	23.0 (19.1–27.4)
		Yes	2243	85.0 (83.6–86.3)	High	89.9 (88.5–91.0)	10.1 (8.9-11.4)
	Adequate care	No	162	6.2 (5.3–7.1)		87.7 (81.9–92.0)	12.3 (8.0–18.1)
		Yes	2476	93.8 (92.9–94.7)	High	88.0 (86.6–89.2)	12.0 (10.8–13.4)
Learning opportunities	Availability of children books (≥ 3)	No	920	34.9 (33.1–36.7)		82.2 (79.6–84.5)	17.8 (15.4–20.3)
		Yes	1718	65.1 (63.3–66.9)	Middle	91.0 (89.6–92.3)	9.0 (7.7–10.4)
	Availability of toys ≥ 2 types)	No	114	4.3 (3.6–5.1)		89.7 (83.9–94.8)	10.3 (5.9–17.1)
		Yes	2524	95.7 (94.9–96.4)	High	87.9 (86.5–89.1)	12.1 (10.9–13.5)
	Attendance to day care center or kindergarten	No	933	35.4 (33.6–37.2)		84.7 (82.4–87.0)	15.3 (13.1–17.7)
		Yes	1705	64.6 (62.8–66.4)	Middle	89.7 (88.2–91.1)	10.3 (8.9–11.8)
Safety and protection	Absence of corporal punishment	No	1159	43.9 (42.0–45.8)		86.2 (84.2–88.2)	13.8 (11.8–15.8)
		Yes	1479	56.1 (54.2–58.0)	Middle	89.3 (87.6–90.8)	10.7 (9.2–12.4)
	Birth certificate	No	54	2.1 (1.6–2.6)		76.7 (65.4–87.2)	23.3 (14.2–36.6)
		Yes	2584	97.9 (97.4–98.4)	Middle	88.2 (86.9–89.4)	11.8 (10.6–13.1)

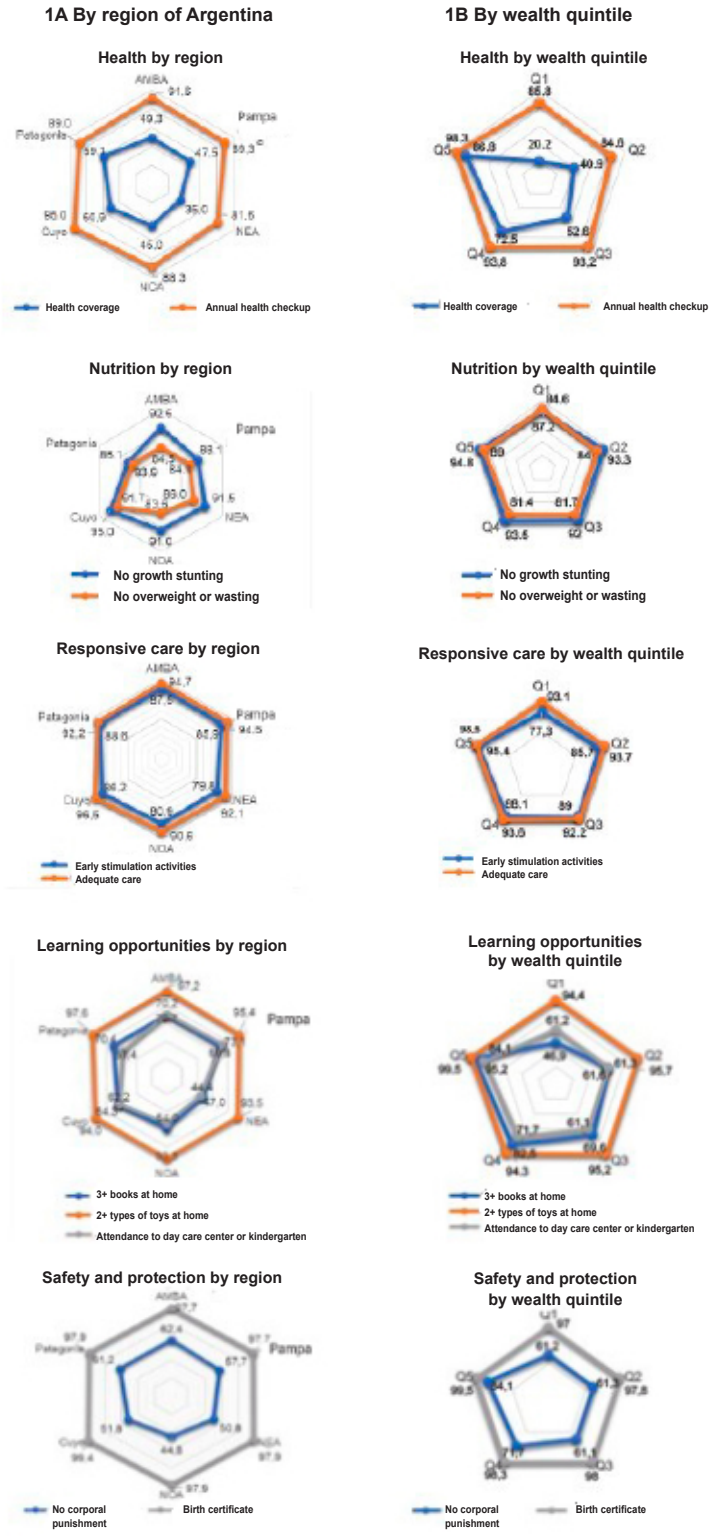
Source: Developed by the authors based on data from MICS 2019–2020. "High" (70–100%) and "middle" (40–69%) categories of access created based on NC indicator.[4]

Table 5. Levels of early childhood development based on the Early Childhood Development Index (ECDI), by wealth quintile and region

	Adequate development (n = 2320)		Inadequate development (n = 318)		Total (n = 2638)	
Wealth quintile index	Count	% (95% CI)	Count	% (95% CI)	Count	%
Poorest (Q1)	703	84.9 (82.3–87.2)	125	15.1 (12.8–17.7)	828	100.0
Second (Q2)	528	88.3 (85.5–90.7)	70	11.7 (9.3–14.5)	598	100.0
Third (Q3)	449	89.3 (86.3–91.7)	54	10.7 (8.3–13.7)	503	100.0
Fourth (Q4)	331	92.6 (89.7–95.1)	26	7.3 (4.9–10.3)	357	100.0
Richest (Q5)	309	87.8 (84.3–91.1)	43	12.2 (9.1–16.0)	352	100.0
Regions of Argentina						
Metropolitan Area of Buenos Aires (AMBA)	751	87.7 (85.4–89.8)	105	12.3 (10.2–14.6)	856	100.0
Pampa	790	91.0 (89.0–92.8)	78	9.0 (7.2–11.0)	868	100.0
Cuyo	162	88.0 (82.8–91.1)	22	12.0 (7.9–17.2)	184	100.0
Northeast (NEA)	214	89.9 (85.6–93.3)	24	10.1 (6.7–14.4)	238	100.0
Northeast (NOA)	291	81.1 (76.8–84.9)	68	18.9 (15.1–23.2)	359	100.0
Patagonia	112	84.2 (77.3–89.6)	21	15.8 (10.4–22.7)	133	100.0

Source: Developed by the authors based on data from MICS 2019–2020.

Figure 1. Percentage of access to the nurturing care framework indicators in children aged 3 and 4 years with an adequate early childhood development index (ECDI) by region of Argentina and wealth quintiles 2019–2020



AMBA: Metropolitan Area of Buenos Aires; NEA: Northeast region of Argentina; NOA: Northwest region of Argentina.
Source: Developed by the authors based on data from MICS 2019–2020.

Despite the advances in access, the results show that the equity intended by the expansion of early childhood services in recent decades is not enough for the most vulnerable groups. According to the interpretation of the results shown in *Table 3*, it is necessary to consider, on the one side, population density, as 65.4% of children live in the Pampa region (32.9%) and the AMBA (32.4%), while 22.6% live in the north, between the NOA (13.6%) and the NEA (9.0%). And, on the other side, the relative proportion of the poorest quintiles (Q1–Q2) in each region: 86.3% of children in the NEA and 60.4% in the NOA (most of the child population), 54.3% in the Pampa, and 51.1% in the AMBA (half of the child population) in Q1 and Q2.[4] Such proportions reflect 2 distinct problems in each region. The Pampa and the AMBA are characterized by unequal access to care and an adequate ECDI in 50% of the households in Q1 and Q2. That is to say, effective and localized sectoral efforts are required in half of the child population. In the NEA and NOA, as structural poverty prevails in most of the child population, a lower access to care in both regions affects proportionally more children, and the population with an adequate ECDI is lower in the NOA.

Differences according to wealth quintiles show a positive trend in access to care and ECDI between Q1 and Q4, while the higher level of access in Q5 does not result in the maintenance of the ECD trend, despite evidence validating the relationship,[14–16] which requires further investigation in future studies. In the poorest quintiles, the indicators show greater dependence on caregivers at home as the main setting for children in a poverty situation.[17] A lower attendance to day care centers and kindergartens, a greater presence of corporal punishment, and less availability of adequate materials and activities at home are challenges in the knowledge of this environment and the coverage of policies and programs.

Regarding anthropometric status, 15.2% of the children had an inadequate weight, mainly overweight (13.0%). This is a widespread problem at a regional and global level,[18] and does not vary according to the wealth quintile, which would indicate a systematic and structural quality problem, not an access problem.

The evidence from this study seeks to provide feedback and strengthen decision-making, with actions that promote better quality access to health and nutrition, early education, promotion of positive parenting and learning opportunities, in order to achieve full child development.

Five years after its launch, the NC framework has been adapted and operationalized[19] to obtain an approximation between conditions created by parenting policies, the level of access, and its contribution to ECD. In this context, multidimensional NC indexes compare care between low- and middle-income countries[5] or between municipalities, such as the one used in investigations conducted in Brazil, which selected 31 indicators to develop the Index of Early Childhood Friendly Municipality (Índice Munícipio Amigo da Primeira Infância, IMAPI) to monitor 5570 municipalities and diagnose regional inequalities[20] similar to those found in this study. Also, a study analyzed the history of the Chile Crece Contigo program[21] in Chile and another study examined the concern for corporal punishment in children based on the de Cero a Siempre strategy in Colombia.[22] Other recent studies analyzed the correspondence between NC indicators and child development levels in Brazil,[23] whose results converged with the indicators selected for this study. In this line, the results provide descriptive constructs that contribute to developing consensus on how the selected indicators impact on ECD domains[24] in children in Argentina.

Among the limitations of the study, it is worth noting that, in Argentina, there is little evidence that provides characteristics and nuances of the frequency, quality, or responsiveness of the care received by children[5] in specific interventions or in the validation of indicators and instruments. These gaps, found in other contexts and consensuses,[5] limit the interpretation of results in the assessment of ECD, which is little accompanied by systematized data from early childhood service providers.[13,15] For this reason, the results should be interpreted according to the specific indicators selected and the cut-off points used.[5] A second limitation of this study is that the sample covers only urban areas, with indicators that may have exacerbated by the lockdown established during the COVID-19 pandemic. The need to include provincial and municipal data contributes to the knowledge of policies that are poorly related across the sectors and levels of government.

The strengths of this study are that the sample was representative at a national level; results have been recently collected; indicators were relevant, territorially located, and multisectoral,

according to the best available evidence of the NC model. It is also worth mentioning that there is a need to design and implement multisectoral policies, with monitoring, assessment, and systems established as per Law 27611 for the Comprehensive Health Care and Control of Pregnancy and Early Childhood.[25]

CONCLUSIONS

According to the results, there are inequalities in terms of access to care and an adequate ECD of children aged 3 and 4 years from urban areas of Argentina, depending on the region where they live and their household wealth level. Access to care is unequal among regions, especially in the NEA and NOA, but it is not associated with a lower ECDI. The impact of socio-economic level partially explains the lack of relation in certain regions, but future studies are required. ■

REFERENCES

1. Black MM, Walker S, Fernald L, Andersen C, et al. Early Childhood Development Coming of Age: Science Through the Life Course. *Lancet*. 2017;389(10064):77-90.
2. Britto PR, Lye SJ, Proulx K, Yousafzai A, et al. Nurturing care: promoting early childhood development. *Lancet*. 2017;389(10064):91-102.
3. Organización Panamericana de la Salud, Organización Mundial de la Salud. El cuidado cariñoso y sensible para el desarrollo en la primera infancia. Marco para ayudar a los niños y niñas a sobrevivir y prosperar a fin de transformar la salud y el potencial humano. Washington DC: OPS, 2021. [Accessed on: March 29th, 2023]. Available at: https:// iris.paho.org/handle/10665.2/55218
4. UNICEF, SIEMPRO. Encuesta Nacional de Niñas, Niños y Adolescentes (MICS) 2019-20. [Accessed on: March 29th, 2023]. Available at: https://www.unicef.org/argentina/ media/12071/file/MICS%202019-2020.pdf
5. McCoy DC, Seiden J, Cuartas J, Pisani L, Waldman M. Estimates of a multidimensional index of nurturing care in the next 1000 days of life for children in low-income and middle-income countries: a modelling study. *Lancet Child Adolesc Health*. 2022;6(5):324-34.
6. Argentina. Ministerio de Salud. Encuesta Nacional de Nutrición y Salud (ENNYS). Documento de resultados, 2007. [Accessed on: March 31st, 2023]. Available at: https://bancos.salud.gob.ar/recurso/encuesta-nacional-de-nutricion-y-salud-documento-de-resultados-2007
7. Lejarraga H, Kelmansky D, Passcucci MC, Masautis A, et al. Evaluación del desarrollo psicomotor del niño en grupos de población como indicador positivo de salud. *ArchArgent Pediatr*. 2016;114(1):23-9.
8. Lejarraga H, Kelmansky D, Masautis A, Nunes F. Índice de desarrollo psicomotor en menores de seis años en las provincias argentinas. *Arch Argent Pediatr*. 2018;116(2):e251-6.
9. Herrera Vegas ME. Sistemas Alimentarios Sostenibles y Primera Infancia. Condiciones de vida, situación alimentaria y desarrollo infantil en Argentina: bases para una teoría del cambio e intervenciones. Buenos Aires: Fundación Alimentaris; 2020. [Accessed on: March 31st, 2023]. Available at: https://www.sistemasalimentariossostenibles.org/descargas/2022/SAS-Informe-Diagnostico.pdf
10. Herrera Vegas ME. Políticas de Asistencia Alimentaria y Programas relacionados, antes de la pandemia. In Salvia A, Britos S, Diaz-Bonilla E (eds). Reflexiones sobre las políticas alimentarionutricionales de la Argentina, antes y durante la pandemia del COVID-19. Washington DC: International Food Policy Research Institute, 2020:66-90. [Accessed on: April 1st, 2023]. Available at: https://www.ifpri.org/es/publication/reflexiones-sobre-las-pol%C3%ADticas-alimentarionutricionales-de-la-argentina-antes-y-durante
11. Diálogo Interamericano, CIPPEC. Argentina: Informe de progreso de Políticas de Primera Infancia. Agenda Regional para el Desarrollo Integral de la Primera Infancia. 2019. [Accessed on: April 1st, 2023]. Available at: https://www.thedialogue.org/wp-content/uploads/2019/09/Argentina-Layout-3_9.5.19.pdf
12. Poy S, Tuñón I, Sánchez ME. Pobreza infantil en la Argentina (1992-2019): tendencia y disparidades regionales. *Poblac Soc*. 2021;28(1):188-216.
13. Fernald LCH, Prado E, Kariger P, Raikes A. A Toolkit for Measuring Early Childhood Development in Low- and Middle-Income Countries. Washington DC: International Bank for Reconstruction and Development / World Bank; 2017. [Accessed on: April 1st, 2023]. Available at: https://openknowledge.worldbank.org/bitstream/handle/10986/29000/WB-SIEF-ECD-MEASUREMENT-TOOLKIT.pdf?sequence=1&isAllowed=y
14. Lejarraga H, Kelmansky D. Desarrollo Infantil en Argentina: Epidemiología y propuestas para el sector salud. Buenos Aires: Paidós; 2021.
15. Regalia F, Vegas E, Araujo MC, López-Boo F, et al. Documento de Marco Sectorial de Desarrollo Infantil Temprano. *Banco Interamericano de Desarrollo, Sector Social*. 2019. [Accessed on: April 8th, 2023]. Available at: https://idbdocs.iadb.org/wsdocs/getdocument.aspx?docnum=EZSHARE-9695416-18
16. Secretaría Nacional de Niñez, Adolescencia y Familia y Fondo de las Naciones Unidas para la Infancia. Encuesta de Indicadores Múltiples por Conglomerados 2011/2012. Informe Final, 2014. [Accessed on: September 6th, 2023]. Available at: https://www.unicef.org/argentina/informes/encuesta-de-indicadores-m%C3%BAltiples-por-conglomerados-2011-2012-0
17. Kalil A, Duncan GJ, Ziol-Guest KM. Early Childhood Poverty: Short and Long-Run Consequences Over the Lifespan. In Shanahan M, Mortimer J, Kirkpatrick Johnson M (eds). Handbook of the Life Course. Wisconsin: Springer, 2016:341-54.
18. Fondo de las Naciones Unidas para la Infancia. El sobrepeso en la niñez: Un llamado para la prevención en América Latina y el Caribe. Ciudad de Panamá: UNICEF; 2021.
19. WHO, UNICEF, World Bank Group, ECDAN, Partnership for Maternal, Newborn and Child Health. Operationalizing Nurturing Care for Early Childhood Development: The role of the health sector alongside other sectors and actors. Geneva, 2019. [Accessed on: September 6th, 2023]. Available at: https://nurturing-care.org/wp-content/uploads/2019/07/Operationalizing-NC.pdf
20. Buccini G, Kubo SE, Pedroso J, Bertoldo J, et al. Sociodemographic inequities in nurturing care for early childhood development across Brazilian municipalities. *Matern Child Nutr*. 2022;18(Suppl 2):e13232.
21. Molina Milman H, Castillo CA, Torres Sansotta A, Valenzuela Delpiano P, Murray J. Scaling up an early childhood development programme through a national multisectoral approach to social protection: lessons from Chile Crece Contigo. *BMJ*. 2018;363:k4513.
22. Nores M, Fernandez C. Building capacity in health and education systems to deliver interventions that strengthen

early child development. *Ann N Y Acad Sci.* 2018;1419(1):57-73.
23. Venancio SI, Teixeira JA, de Bortoli MC, Bernal RTI. Factors associated with early childhood development in municipalities of Ceará, Brazil: a hierarchical model of contexts, environments, and nurturing care domains in a cross-sectional study. *Lancet Reg Health Am.* 2021;5:100139.
24. Schady N. Early Childhood Development in Latin America and the Caribbean. World Bank Policy Research, Working Paper 3869, 2006. [Accessed on: April 8th, 2023] Available at: https://documents1.worldbank.org/curated/en/589551468016812642/pdf/wps3869.pdf
25. Ley Nº 27.611. Ley Nacional de Atención y Cuidado Integral de la Salud durante el Embarazo y la Primera Infancia. Boletín Oficial de la República Argentina. Buenos Aires, Argentina, 15 de enero de 2021. [Accessed on: April 8th, 2023] Available at: https://www.boletinoficial.gob.ar/detalleAviso/primera/239809/20210115

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310085

Utilidad y confiabilidad del cuestionario PreViAs para la evaluación de la visión en neonatos y lactantes turcos

Sara Erol[a], Pelin Çelik[b], Eray Kılıç[c], Merve Küçükoğlu Keser[d], Ali K. Tehçi[d], Zeynep Özdereli[e], Mehmet Sayın[f], Ayşegül N. Çıtak Kurt[g]

RESUMEN

Introducción. La evaluación de la visión en los niños durante el periodo preverbal, con un método fácil de usar y basado en la evidencia, permitiría el diagnóstico temprano y la intervención en los trastornos visuales. El objetivo del estudio fue determinar la utilidad y confiabilidad de la versión en idioma turco del cuestionario Preverbal Visual Assessment (PreViAs), desarrollado para evaluar la visión en niños preverbales.

Población y métodos. El cuestionario PreViAs se administró a los cuidadores primarios de niños nacidos de término, antes de los 24 meses de edad. Se registraron sus respuestas.

Resultados. Se analizaron los datos de 278 participantes para evaluar la consistencia interna del cuestionario PreViAs. Se encontró un alto nivel de consistencia con un alfa de Cronbach de 0,958 para el puntaje total, lo que sugiere una fuerte coherencia interna. Los valores del alfa de Cronbach para cada dominio fueron: 0,890 – 0,913 – 0,951 y 0,922 para la atención visual, la comunicación visual, el procesamiento visual y la coordinación visomotora respectivamente; esto indica una buena consistencia interna para cada subdominio.

Conclusión. La versión en idioma turco del cuestionario PreViAs es útil y confiable para evaluar la visión durante el periodo preverbal.

Palabras clave: pesquisa; visión; lactante; encuestas y cuestionarios; trastornos de la visión.

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10085
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10085.eng

Cómo citar: Erol S, Çelik P, Kılıç E, Küçükoğlu Keser M, et al. Utilidad y confiabilidad del cuestionario PreViAs para la evaluación de la visión en neonatos y lactantes turcos. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310085.

[a] Departamento de Pediatría, División de Neonatología, Facultad de Medicina, Ankara Yildirim Beyazit University, Ankara Bilkent City Hospital, Ankara, Turquía; [b] Departamento de Pediatría, División de Pediatría del Desarrollo y Comportamiento, Facultad de Medicina, Ankara Yildirim Beyazit University, Ankara Bilkent City Hospital, Ankara, Turquía; [c] Departamento de Terapia Física y Rehabilitación, División de Rehabilitación Visual, Ankara Bilkent City Hospital, Ankara, Turquía; [d] Departamento de Pediatría, Ankara Bilkent City Hospital, Ankara, Turquía; [e] Departamento de Pediatría, División de Pediatría del Desarrollo y Comportamiento, Ankara Bilkent City Hospital, Ankara, Turquía; [f] Facultad de Medicina, Ankara Yildirim Beyazit University, Ankara Bilkent City Hospital, Ankara, Turquía; [g] Departamento de Pediatría, División de Neurología Infantil, Facultad de Medicina, Ankara Yildirim Beyazit University, Ankara Bilkent City Hospital, Ankara, Turquía.

Correspondencia para *Sara Erol: sarasurmeli@gmail.com*

Financiamiento*: Ninguno.*

Conflicto de intereses*: Ninguno que declarar.*

Recibido*: 8-5-2023*
Aceptado*: 13-9-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

INTRODUCCIÓN

A nivel mundial hay 2200 millones de personas con discapacidad visual.[1] Aproximadamente dos tercios de los trastornos visuales de la infancia son prevenibles y tratables.[2] Si no son detectados y tratados en los primeros meses de vida, pueden causar la pérdida permanente de la visión. Existen diferencias importantes entre los países en la causa de la discapacidad visual en los niños.[3]

La causa cortical/cerebral es la más común de discapacidad visual de la infancia en los países desarrollados y la prevalencia está en aumento en los países en vías de desarrollo.[4] En paralelo con esta tendencia, también en Turquía la discapacidad visual cerebral se ha convertido en la causa dominante de pérdida de la visión en lactantes y niños. En todos los casos, la evaluación temprana de la visión es crítica para el seguimiento y tratamiento adecuados.

La evaluación de la visión en los niños es parte esencial de la atención médica.[6] Con frecuencia es sinónimo de medición de la agudeza visual. En los lactantes preverbales, la evaluación se determina por su conducta visual y no por su agudeza visual.[7] La observación de la conducta visual en la sala de examinación y las respuestas por parte de la familia sobre la historia visual del lactante, permiten detectar los trastornos visuales en esta etapa.

Existen varios instrumentos y métodos recomendados para evaluar la visión en los lactantes.[7,8] Los más confiables son la observación de las reacciones del niño ante los estímulos ambientales, el reflejo de fijación,[9] y la prueba de la mirada preferencial.[10] Para detectar y tratar los trastornos prevenibles de la visión durante la infancia, es esencial asegurar el acceso a los servicios de salud que realizan estos exámenes. Sin embargo, durante la pandemia por COVID-19, cuando el acceso a los centros médicos fue muy restringido, se hizo evidente la importancia de los métodos de evaluación a distancia.

En este sentido, se desarrollaron y perfeccionaron algunos cuestionarios para medir la función visual de los lactantes como parte de su control clínico. Uno de estos, el cuestionario de evaluación visual preverbal PreViAs (por las siglas en inglés de Preverbal Visual Assessment) se desarrolló en 2014. Es una prueba práctica con demostrada validez y confiabilidad.[11,12]

El objetivo de este estudio fue adaptar y determinar la utilidad y confiabilidad del PreViAs en su versión en idioma turco. A través de este proceso, podrá estar disponible en forma amplia para la detección temprana y el monitoreo de los trastornos visuales de la infancia un método de bajo costo y fácil de usar.

POBLACIÓN Y MÉTODOS

Material. El cuestionario PreViAs fue desarrollado por Pueyo et al. en 2014; se utiliza para monitorear el desarrollo visual y detectar conductas visuales alteradas en niños preverbales, hasta los 24 meses de edad. Consiste en un total de 30 preguntas (*Tabla 1*) sobre 4 dominios de desempeño visual: atención visual (AV), comunicación visual (CV), coordinación visomotora (CVM) y procesamiento visual (PV). Las respuestas de los cuidadores primarios se registran como "sí" o "no" y el puntaje corresponde a las respuestas positivas. Cada una de ellas tiene un puntaje de 1, mientras que a las respuestas negativas se les asigna un puntaje de 0. El puntaje total se calcula por la suma de todos los puntajes positivos. El máximo que se puede obtener es de 30 puntos. Los puntajes totales por cada dominio difieren según las preguntas incluidas. Para el subdominio AV es de 11 puntos, para CV es de 5 puntos, para CMV es de 13 puntos y para PV es de 20 puntos.[11]

Para determinar las propiedades psicométricas y los puntos de corte del PreViAs en idioma turco, la versión en idioma inglés fue traducida al turco por dos profesionales independientes. Luego se compararon y editaron ambas traducciones, un profesional nativo inglés con dominio del idioma turco, hizo la traducción inversa. El equipo investigador comparó este cuestionario con el original y obtuvo la versión final. Se puede solicitar una copia de la versión en idioma turco al primer autor de esta investigación.

Antes de comenzar el estudio, el PreViAS se administró a 20 familias que concurrieron a los consultorios externos de Pediatría del Desarrollo para un control de rutina. Los padres no tuvieron dificultades en comprender y contestar las preguntas y pudieron completar el cuestionario sin ayuda.

Métodos. El estudio incluyó niños con desarrollo normal, con edades entre 0-24 meses que concurrieron al Ankara Bilkent City Hospital para las inmunizaciones de rutina; no se incluyeron los nacidos prematuros o con trastornos oftalmológicos graves. Los niños incluidos se dividieron en grupos de edades de 0-1 mes, 1-2 meses, 2-4 meses, 4-6 meses, 6-9 meses, 9-12 meses, 12-18 meses y 18-

Tabla 1. Cuestionario Preverbal Visual Assessment (PreViAs)

Preguntas	Dominio
1. ¿Muestra interés por las luces y fija su mirada en ellas?	AV
2. ¿Mantiene su mirada (al menos unos pocos segundos) sobre objetos o personas?	AV
3. ¿Es capaz de mirar hacia una fuente de sonidos?	AV
4. ¿Es capaz de mover rápidamente sus ojos entre dos personas u objetos?	AV, CVM
5. ¿Sigue el movimiento de un objeto cercano que se desplaza lentamente en sentido horizontal y vertical?	VA, VMC
6. ¿Mira sus propias manos?	AV, CVM, PV
7. ¿Trata de alcanzar juguetes u objetos con sus manos?	AV, CVM
8. ¿Recoge y manipula objetos y muestra interés en ellos?	AV, CVM, PV
9. ¿Se vuelve hacia una fuente de sonido colocada detrás de él/ella?	AV, CVM, PV
10 ¿Se mira en un espejo?	AV, CV
11. ¿Mira las figuras en un libro de cuentos?	AV, PV
12. ¿Sonríe cuando la madre o el padre se acercan, sin emitir ningún sonido?	CV
13. ¿Sonríe cuando alguien se le acerca sonriendo?	CV
14. ¿Imita gestos y saludos?	CV, PV
15. ¿Reacciona ante extraños, los mira fijo o se muestra avergonzado?	CV
16. ¿Mira a su alrededor cuando un objeto cae cerca suyo?	CVM, PV
17. ¿Juega con objetos que saca y pone dentro de un recipiente?	CVM, PV
18. ¿Señala a personas, objetos o dibujos que le interesan?	CVM, PV
19. ¿Sabe dónde están guardadas en la casa, las cosas que le interesan como juguetes, libros, ropa o comida?	CVM, PV
20. ¿Hace garabatos sobre un papel con lápiz o lapicera?	CVM, PV
21. ¿Imita la pintura con algunos trazos?	CVM, PV
22. ¿Sabe dónde están sus manos, orejas boca y ojos?	CVM, PV
23. ¿Reconoce a personas u objetos familiares?	PV
24. ¿Reacciona de antemano en situaciones habituales como saber que va a comer o salir a la calle cuando ve el cochecito para bebé?	PV
25. ¿Mira a una persona conocida cuando la nombran?	PV
26. ¿Busca el interruptor para activar un juguete o encender la luz?	PV
27. ¿Se reconoce en una fotografía suya?	PV
28. ¿Identifica algunos dibujos como animales, una casa, etc.?	PV
29. ¿Reconoce cuando dos cosas son similares?	PV
30. ¿Se interesa en armar un rompecabezas simple?	PV

Dominio	Preguntas
AV	1, 2, 3, 4, 5, 6, 7, 8, 9, 10, 11
CV	10, 12, 13, 14, 15
CVM	4, 5, 6, 7, 8, 9, 16,17, 18
PV	6, 8, 9, 11, 14, 16, 17, 18, 18, 20, 21, 22, 23, 24, 25, 26, 27, 28, 29, 30

AV: atención visual; CV: comunicación visual; CVM: coordinación visomotora; PV: procesamiento visual.

24 meses. El estudio se desarrolló entre octubre de 2021 y septiembre de 2022 en la ciudad capital de Turquía.

Se obtuvo la autorización de los desarrolladores del cuestionario PreViAs, de acuerdo con las guías éticas establecidas en la Declaración de Helsinki y con la aprobación del Comité Ética en Investigación Clínica del hospital (Protocolo N° E2-21-249). Se obtuvo el consentimiento por escrito de todos los padres antes de la recolección de los datos.

Análisis estadístico. Se determinó un tamaño muestral mínimo de 246 participantes para un intervalo de confianza del 95 % y un margen de error del 5 %. Todos los análisis estadísticos se hicieron con el paquete IBM SPSS Statistics 25. Para las estadísticas descriptivas se utilizaron la media y el desvío estándar para las variables continuas y la relación de frecuencias para las categóricas. La consistencia interna de los puntajes globales y de cada uno de los dominios se determinaron mediante el alfa de Cronbach.

RESULTADOS

Un total de 390 niños con sus padres fueron invitados a participar en el estudio; 112 fueron excluidos por los antecedentes de prematuridad o trastorno oftalmológico congénito. Se incluyeron

278 niños en el análisis final; 156 (56,1 %) eran varones. La edad gestacional al nacer fue entre 37 y 42 semanas y el rango de peso de nacimiento fue de 2000 a 4800 g. Los niños incluidos tuvieron un rango de edad de 0 a 24 meses con una mediana de 139 días (*Tabla 2*).

El análisis de consistencia interna mostró un alfa de Cronbach de 0,958 para el puntaje total (alta consistencia). Para los diferentes dominios los valores del alfa de Cronbach fueron: 0,89 para AV, 0,913 para CV, 0,951 para PV y 0,922 para CVM (consistencia buena) (*Tabla 3*). En la *Tabla 4* se presentan los puntajes promedio y los valores de corte para cada grupo de edades.

DISCUSIÓN

Los trastornos visuales, tanto oculares como cerebrales, han mostrado tener efectos negativos sobre el desarrollo neurocognitivo y la función cognitiva en la infancia. Esto representa un problema de salud global que puede afectar el bienestar general.[13] En respuesta a esta situación,

Tabla 2. Características clínicas de los lactantes (n: 278)

Variable	
Género masculino (n, %)	156 (56,1)
Edad cronológica en días (mediana, rango)	139 (2-736)
Edad gestacional en semanas (mediana, rango)	39 (37-42)
Peso al nacer en gramos (mediana, rango)	3300 (2000-4800)

Tabla 3. Consistencia interna del cuestionario PreViAs

Dominio	Preguntas	Número	Valor del alfa de Cronbach
Todos	Todas	30	0,958
AV	1, 2, 3, 4, 5, 6, 7, 8, 9, 10, 11	11	0,890
CV	10, 12, 13, 14, 15	5	0,913
CVM	4, 5, 6, 7, 8, 9, 16, 17, 18, 19, 20, 21, 22	13	0,922
PV	6, 8, 9, 11, 14, 16, 17, 18, 19, 20, 21, 22, 23, 24, 25, 26, 27, 28, 29, 30	20	0,951

AV: atención visual; CV: comunicación visual; CVM: coordinación visomotora; PV: procesamiento visual.

Tabla 4. Puntaje medio y punto de corte del cuestionario PreViAs para cada grupo de edades

	0-1 m (N = 43)	1-2 m (N = 24)	2-4 m (N = 34)	4-6 m (N = 38)	6-9 m (N = 33)	9-12 m (N = 33)	12-18 m (N = 43)	18-24 m (N = 30)
Puntaje total.								
Media (DE)	3,14 (1,81)	6,50 (2,67)	9,21 (2,82)	12,61 (3,85)	18,97 (4,94)	20,76 (4,64)	22,63 (5,79)	25,63 (4,88)
Media - 2DE	-	1,16	3,57	4,91	9,09	11,48	11,05	15,87
AV								
Media (DE)	3,02 (1,82)	5,75 (2,15)	7,68 (2,03)	9,13 (1,88)	10,21 (1,54)	10,55 (0,94)	10,42 (1,42)	10,30 (1,18)
Media - 2DE	-	1,45	3,62	5,37	7,13	8,67	7,58	7,94
CV								
Media (DE)	0,12 (0,39)	0,96 (1,52)	1,47 (1,28)	2,71 (1,49)	4,42 (1,00)	4,79 (0,89)	4,58 (1,16)	4,80 (0,66)
Media - 2DE	-	-	-	-	2,42	3,01	2,26	3,48
CVM								
Media (DE)	1,16 (1,04)	3,08 (1,67)	4,91 (1,71)	6,18 (2,06)	9,21 (2,57)	10,36 (1,95)	10,95 (2,60)	11,60 (2,04)
Media - 2DE	-	-	1,49	2,06	4,07	6,46	5,75	7,52
PV								
Media (DE)	0,40 (0,49)	1,67 (1,20)	3,03 (1,47)	4,89 (2,62)	9,70 (4,16)	11,12 (4,04)	13,19 (4,70)	16,27 (4,27)
Media - 2DE	-	-	0,09	-	1,38	3,04	3,79	7,73

DE: desviación estándar; AV: atención visual; CV: comunicación visual; CVM: coordinación visomotora; PV: procesamiento visual.

en el año 1999, la Organización Mundial de la Salud y la Agencia Internacional para la Prevención de la Ceguera lanzaron el programa VISION 2020 para eliminar en todo el mundo las pérdidas de visión que fueran prevenibles hacia el año 2020.[1,14] El programa enfatiza la importancia del cuidado primario del ojo durante la infancia, e incluye la concientización y atención a la pesquisa visual como una práctica fundamental para la detección temprana y la prevención de los trastornos visuales.

Las guías clínicas actualizadas de la pesquisa visual en pediatría, refuerzan la importancia de identificar los factores de riesgo de trastornos visuales, la prueba del reflejo rojo, el examen pupilar, la evaluación de la fijación y el examen externo de los ojos antes de cumplir un año de edad. En los niños que no pasan las pruebas de pesquisa o están en riesgo de discapacidad visual, hay indicación de un examen completo para identificar las causas que no se pueden detectar a través de pruebas de pesquisa.[15]

Algunos métodos de pesquisa e instrumentos pueden ser aplicados por personas no expertas pero capacitadas, incluidas las familias, dado que el diagnóstico es crítico para una intervención efectiva. Es habitual que se usen cuestionarios como método de evaluación de las funciones visuales y su impacto en la calidad de vida durante la infancia. Estos cuestionarios están en general enfocados sobre algunas enfermedades oculares específicas, pérdida de la visión o calidad de vida general. En la revisión de la literatura, es evidente que los cuestionarios pensados para evaluar las conductas visuales en la infancia están desarrollados para niños pequeños y en edad escolar.[16-18]

El cuestionario PreViAS utilizado en este estudio está validado para evaluar la visión en el periodo preverbal y se aplicó en niños menores de 24 meses.[11,12] Decidimos elegir este cuestionario porque es un método sencillo para medir las funciones visuales en la infancia temprana.

La versión en idioma inglés del PreViAS, fue desarrollada y publicada en España. Se utilizó en estudios para evaluar el desarrollo visual en niños de término en el periodo prevebal[19] y en comparaciones entre niños nacidos pretérmino y de término.[20] También se empleó como un instrumento para detectar en forma temprana problemas de conducta visual en niños muy prematuros con alteraciones micro y macroestructurales cerebrales.[21] Con la adaptación del cuestionario al idioma turco y la demostración de su confiabilidad hemos contribuido a su posible uso generalizado en todo el mundo, en el futuro.

Los niños incluidos en este estudio difieren de los de otros estudios. Pueyo et al. formaron grupos con intervalos de 2 meses hasta los 6 meses y luego en intervalos de 3 meses, mientras que Kim et al. lo hicieron con intervalos de 6 meses.[11,19] Estos estudios muestran que las funciones visuales que aumentan con la edad durante la infancia, se reflejan también en los puntajes del PreViAs. En nuestro estudio, dividimos los 6 primeros meses de desarrollo visual rápido en intervalos más cortos para resaltar el periodo neonatal, lo que es diferente a otros estudios. Examinamos la etapa de los 6 a los 12 meses durante el cual se desarrolla la visión funcional, en periodos de 3 meses y, la etapa relativamente estable de los 12 a los 24 meses de los niños sanos, en periodos de 6 meses. Este agrupamiento fue apropiado para evaluar la visión funcional dado que los resultados de estos grupos de edad fueron similares a los reportados en la literatura.

La práctica estándar incluye el seguimiento de la función visual en los niños prematuros y de término durante la infancia y la edad escolar. Sin embargo, la evaluación visual funcional no es habitual que se haga en el periodo neonatal.[22,23] Los estudios realizados en esa etapa, tendieron a emplear líneas blancas y negras[24] y la medición de los potenciales evocados visuales.[25] En los últimos años, los estudios sobre la función visual en el periodo neonatal han evolucionado por el aumento de los trastornos visuales cerebrales como causa principal de discapacidad visual.[26]

Se han empleado diferentes instrumentos, en particular en niños prematuros, o con riesgo de parálisis cerebral[27] y en neonatos con riesgo de lesión neurológica.[28] Nuestra separación del grupo neonatal trata de enfatizar la aplicabilidad del cuestionario para esta etapa. La difusión amplia de métodos fáciles como el PreViAs en el seguimiento de los recién nacidos puede aumentar la concientización sobre su funcionamiento visual.

Una limitación de este estudio es que está basado solo en los datos informados por los padres. Estudios futuros deberían incluir una evaluación directa para tener una medición más completa de las propiedades psicométricas y de la estructura del PreViAs. Mientras que la confiabilidad se mostró aceptable tanto en

nuestro estudio como en otros previos, el análisis de validez como el análisis factorial confirmatorio no se pudo hacer por la presencia de demasiados ítems comunes en los diferentes dominios. Futuras investigaciones deberán enfocar la evaluación de validez de criterio-referencia del cuestionario PreViAs.

CONCLUSIÓN

Para lograr el diagnóstico temprano y la intervención en las causas prevenibles de pérdida de la visión y de ceguera durante el periodo preverbal, es esencial utilizar métodos de pesquisa visual de probada efectividad y realizar exámenes oftalmológicos completos cuando esté indicado.

El uso de la versión en idioma turco del PreViAS como un método válido para evaluar en forma objetiva la función visual de los lactantes, junto con nuevos estudios en otras poblaciones, pueden reforzar la aceptación de este cuestionario como un nuevo enfoque de la pesquisa visual y su uso en combinación con otras técnicas y evaluaciones oftalmológicas. ■

Agradecimientos

A todos los niños y sus familias por sus contribuciones y cooperación en este estudio.

REFERENCIAS

1. World Health Organization. World report on vision, 2019. Geneva. [Consulta: 13 de septiembre de 2023]. Disponible en: https://www.who.int/publications-detail-redirect/world-report-on-vision
2. GBD 2019 Blindness and Vision Impairment Collaborators; Vision Loss Expert Group of the Global Burden of Disease Study. Causes of blindness and vision impairment in 2020 and trends over 30 years, and prevalence of avoidable blindness in relation to VISION 2020: the Right to Sight: an analysis for the Global Burden of Disease Study. *Lancet Global Health*. 2021;9(2):e144-60.
3. Burton MJ, Ramke J, Marques AP, Bourne RRA et al. The Lancet Global Health Commission on Global Eye Health: vision beyond 2020. *Lancet Global Health*. 2021;9(4):e489-551.
4. Chang MY, Borchert MS. Advances in the evaluation and management of cortical/cerebral visual impairment in children. *Surv Ophthalmol*. 2020;65(6):708-24.
5. Ozen Tunay Z, Ustunyurt Z, Idil A. Causes of severe visual impairment in infants and methods of management. *Eye (London)*. 2021;35(4):1191-7.
6. Hudak ML, Committee On Child Health Financing. Scope of Health Care Benefits for Neonates, Infants, Children, Adolescents, and Young Adults Through Age 26. *Pediatrics*. 2022;150(3):e2022058881.
7. Bennett CR, Bex PJ, Bauer CM, Merabet LB. The Assessment of Visual Function and Functional Vision. *Semin Pediatr Neurol*. 2019;31:30-40.
8. Swaminathan M, Jayaraman D, Jacob N. Visual function assessment, ocular examination, and intervention in children with developmental delay: A systematic approach. Part 1. *Indian J Ophthalmol*. 2019;67(2):196-203.
9. Donahue SP, Nixon CN, Section on Opthamology AAoP, Committee on Practice and Ambulatory Medicine AAoP, et al. Visual System Assessment in Infants, Children, and Young Adults by Pediatricians. *Pediatrics*. 2016;137(1):28-30.
10. Quinn GE, Berlin JA, James M. The Teller acuity card procedure. Three testers in a clinical setting. *Ophthalmology*. 1993;100(4):488-94.
11. Pueyo V, García-Ormaechea I, González I, Ferrer C, et al. Development of the Preverbal Visual Assessment (PreViAs) questionnaire. *Early Hum Dev*. 2014;90(4):165-8.
12. García-Ormaechea I, González I, Dupláa M, Andres E, Pueyo V. Validation of the Preverbal Visual Assessment (PreViAs) questionnaire. *Early Hum Dev*. 2014;90(10):635-8.
13. Sonksen PM, Dale N. Visual impairment in infancy: impact on neurodevelopmental and neurobiological processes. *Dev Med Child Neurol*. 2002;44(11):782-91.
14. Malik ANJ, Mafwiri M, Gilbert C. Integrating primary eye care into global child health policies. *Arch Dis Child*. 2018;103(2):176-80.
15. Loh AR, Chiang MF. Pediatric Vision Screening. *Pediatr Rev*. 2018;39(5):225-34.
16. Hatt SR, Leske DA, Castañeda YS, Wernimont SM, et al. Development of Pediatric Eye Questionnaires for Children With Eye Conditions. *Am J Ophthalmol*. 2019;200:201-17.
17. Angeles-Han ST, Griffin KW, Harrison MJ, Lehman TJ, et al. Development of a vision-related quality of life instrument for children ages 8-18 years for use in juvenile idiopathic arthritis-associated uveitis. *Arthritis Care Res (Hoboken)*. 2011;63(9):1254-61.
18. Sacchetti M, Baiardini I, Lambiase A, Aronni S, et al. Development and testing of the quality of life in children with vernal keratoconjunctivitis questionnaire. *Am J Ophthalmol*. 2007;144(4):557-63.
19. Kim E, Lee J, Park HY, Lee J, et al. Visual Development of Healthy Full-Term Infants under 24 Months of Age Using the Preverbal Visual Assessment Questionnaire. *Dev Neurosci*. 2022;44(1):39-48.
20. Lee J, Kim MG, Park HY, Nam KE, et al. Visual assessment of preterm and full-term infants under the age of 12 months using the Preverbal Visual Assessment questionnaire. *Early Hum Dev*. 2021;153:105289.
21. Chandwani R, Harpster K, Kline JE, Mehta V, et al. Brain microstructural antecedents of visual difficulties in infants born very preterm. *Neuroimage Clin*. 2022;34:102987.
22. Ricci D, Romeo DM, Gallini F, Groppo M, et al. Early visual assessment in preterm infants with and without brain lesions: correlation with visual and neurodevelopmental outcome at 12 months. *Early Hum Dev*. 2011;87(3):177-82.
23. Jonas DE, Amick HR, Wallace IF, Feltner C, et al. Vision Screening in Children Aged 6 Months to 5 Years: Evidence Report and Systematic Review for the US Preventive Services Task Force. *JAMA*. 2017;318(9):845-58.
24. Ricci D, Romeo DM, Serrao F, Cesarini L, et al. Application of a neonatal assessment of visual function in a population of low risk full-term newborn. *Early Hum Dev*. 2008;84(4):277-80.
25. Kato T, Okumura A, Hayakawa F, Kuno K, Watanabe K. The evolutionary change of flash visual evoked potentials in preterm infants with periventricular leukomalacia. *Clin Neurophysiol*. 2005;116(3):690-5.
26. Fontana C, De Carli A, Ricci D, Dessimone F, et al. Effects of Early Intervention on Visual Function in Preterm Infants: A Randomized Controlled Trial. *Front Pediatr*. 2020;8:291.
27. Chorna OD, Guzzetta A, Maitre NL. Vision Assessments and Interventions for Infants 0-2 Years at High Risk for Cerebral Palsy: A Systematic Review. *Pediatr Neurol*. 2017;76:3-13.
28. Rossi A, Gnesi M, Montomoli C, Chirico G et al. Neonatal Assessment Visual European Grid (NAVEG): Unveiling neurological risk. *Infant Behav Dev*. 2017;49:21-30.

Original article

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310085

The utility and reliability of the PreViAs questionnaire for the assessment of vision in Turkish neonates and infants

Sara Erol[a], Pelin Çelik[b], Eray Kılıç[c], Merve Küçükoğlu Keser[d], Ali K. Tehçi[d], Zeynep Özdereli[e], Mehmet Sayın[f], Ayşegül N. Çıtak Kurt[g]

ABSTRACT

Introduction: Evaluating the visual functions of children with an easy-to-use and evidence-based method during the preverbal period will enable early diagnosis and intervention of visual impairments. The aim of this study is to determine the utility and reliability of the Turkish version of the Preverbal Visual Assessment (PreViAs) questionnaire, which was developed to evaluate the visual functioning of preverbal infants.

Population and Methods: The PreViAs questionnaire was administered to primary caregivers of term infants under 24 months of age, and their responses were recorded.

Results: Data from the 278 participating infants were analyzed to assess the internal consistency of the PreViAs questionnaire. Results showed a high level of consistency with Cronbach's alpha value of 0.958 for the total score, suggesting strong internal coherence. In addition, the Cronbach's alpha values for each domain were 0.890, 0.913, 0.951, and 0.922 for visual attention, visual communication, visual processing, and visual-motor coordination, respectively, indicating good internal consistency for each subdomain.

Conclusion: The Turkish version of the PreViAs questionnaire is useful and reliable for assessing functional vision during the preverbal period.

Keywords: vision screening; infant; surveys and questionnaires; vision disorders.

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10085.eng

To cite: Erol S, Çelik P, Kılıç E, Küçükoğlu Keser M, et al. The utility and reliability of the PreViAs questionnaire for the assessment of vision in Turkish neonates and infants. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310085.

[a] Department of Pediatrics, Division of Neonatology, Ankara Yildirim Beyazit University Faculty of Medicine, Ankara Bilkent City Hospital, Ankara, Turkey. [b] Department of Pediatrics, Division of Developmental and Behavioral Pediatrics, Ankara Yildirim Beyazit University Faculty of Medicine, Ankara Bilkent City Hospital, Ankara, Turkey; [c] Department of Physical Therapy and Rehabilitation, Division of Vision Rehabilitation, Ankara Bilkent City Hospital, Ankara, Turkey; [d] Department of Pediatrics, Ankara Bilkent City Hospital, Ankara, Turkey; [e] Department of Pediatrics, Division of Developmental and Behavioral Pediatrics, Ankara Bilkent City Hospital, Ankara, Turkey; [f] Ankara Yildirim Beyazit University Faculty of Medicine, Ankara Bilkent City Hospital, Ankara, Turkey; [g] Department of Pediatrics, Division of Child Neurology, Ankara Yildirim Beyazit University Faculty of Medicine, Ankara Bilkent City Hospital, Ankara, Turkey.

Correspondence to *Sara Erol: sarasurmeli@gmail.com*

Funding: *None.*

Conflict of interest: *None.*

Received: *5-8-2023*
Accepted: *9-13-2023*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

INTRODUCTION

There are 2.2 billion people all over the world who suffer from visual impairment.[1] Approximately two-thirds of childhood visual impairments are avoidable and treatable.[2] Undetected and untreated vision problems in the first few months of life can cause permanent vision loss. There are significant differences between countries in terms of the causes of childhood visual impairment.[3] Cortical/cerebral visual impairment (CVI) is the most common cause of visual impairment during childhood in developed countries, and its prevalence is increasing in developing countries.[4] As a result, in parallel with this trend, cerebral visual impairment has become the dominant cause of severe visual impairment in infants and children in Turkey as well.[5] However, regardless of the cause, early evaluation of children's visual functions is critical for follow-up and treatment.

Visual assessment in children is an essential part of medical care.[6] The evaluation of vision is often synonymous with the measurement of visual acuity. However, visual examination of preverbal infants is difficult because they cannot express their visual complaints. For preverbal infants, the assessment of vision is determined by their visual behavior rather than visual acuity.[7] Observing the infant's visual behavior in the examination room and obtaining answers from the family regarding the baby's vision history are diagnostic for detecting visual impairment in infants.

Various tools and methods are recommended for evaluating the visual functions of infants.[7,8] Observation of the child's reactions to environmental stimuli in the examination room, fixation reflex,[9] and preferential looking[10] are the most reliable methods for assessing visual function in infants. Providing access to health services that offer these examinations is essential for detecting and treating preventable vision impairments during childhood. However, during the COVID-19 pandemic, when access to medical centers was severely restricted, the importance of online assessment methods for patients became evident. At this point, some enhanced questionnaires have been developed to measure the visual function of infants as part of the clinical assessment. One of these questionnaires, the Preverbal Visual Assessment (PreViAs) questionnaire, was developed in 2014 to evaluate the visual functions of preverbal infants. It is a practical test with proven validity and reliability.[11,12]

The aim of this study was to adapt and determine the utility and reliability of the PreViAs questionnaire in Turkish. Through this process, this inexpensive and user-friendly method will become widely available for the early detection and monitoring of preventable visual disorders during infancy.

POPULATION AND METHODS

Material: The PreViAs questionnaire, developed by Pueyo et al. in 2014, is used to monitor visual development and detect abnormal visual behavior in preverbal infants under 24 months of age. The questionnaire presented in *Table 1* consists of a total of 30 questions across four visual performance domains: visual attention (VA), visual communication (VC), visual-motor coordination (VMC), and visual processing (VP), answered by parents or primary caregivers. Responses to the questionnaire are recorded as either "yes" or "no," and scoring is based on the number of positive answers. Each positive response is given a score of 1, and negative responses are given a score of 0. The overall score is calculated as the sum of the positive scores. The total scores for each domain differ according to the questions that are included, but the maximum total score that can be obtained from the questionnaire is 30 points. The maximum scores for the subdomains are 11 points for VA, 5 points for VC, 13 points for VMC, and 20 points for VP.[11]

To determine the psychometric properties and cut-off points of the PreViAs questionnaire in Turkish, the English version of the questionnaire was first translated into Turkish by two separate authors. The two translations were then compared and edited, and a back-translation was performed by a professional who was a native English speaker and proficient in Turkish. The back-translated questionnaire was then compared with the original questionnaire by the research team, and the final version was created. A copy of Turkish version of PreViAs is available upon request from the first author.

Before starting the study, the PreViAs questionnaire was administered to 20 families attending the developmental pediatrics outpatient clinic for routine follw-up. It was observed that parents did not have any difficulties in understanding or answering the questions, and they were able to complete the questionnaire without assistance.

Methods: Our study included typically developing children aged 0-24 months, except for those born prematurely or with severe ophthalmic

Table 1. The Preverbal Visual Assessment (PreViAs) questionnaire

Questions	Domain
1. Is your child interested in lights and fixes the eyes on them?	VA
2. Does he/she keep the eyes (for at least a few seconds) on objects or persons?	VA
3. Is he/she able to look towards a sound source?	VA
4. Is he/she able to move the eyes quickly between two persons or two objects?	VA, VMC
5. Does he/she follow the movement of a nearby object moving slowly horizontally and vertically?	VA, VMC
6. Does your child observe his/her own hands?	VA, VMC, VP
7. Does he/she try to reach for toys or objects with his/her hands?	VA, VMC
8. Does he/she pick up and manipulate objects, showing interest in them?	VA, VMC, VP
9. Does he/she turn to a sound source placed behind him/her?	VA, VMC, VP
10. Does he/she look in a mirror?	VA, VC
11. Does he/she look at the pictures of a storybook?	VA, VP
12. Does your child smile when his/her mother or father get close without making any sound?	VC
13. Does your child smile to people who approach him/her smiling?	VC
14. Does he/she imitate gestures or greetings?	VC, VP
15. Does he/she react to strangers by staring at them or being embarrassed?	VC
16. Does he look at the ground when an object is dropped near him/her?	VMC, VP
17. Does he/she play with objects taking them in and out of a container?	VMC, VP
18. Does he/she point to people, objects, or drawings that interest him/her?	VMC, VP
19. Does he/she know where things that interest him are kept at home, as his toys, books, clothing, or food?	VMC, VP
20. Does your child scribble with a pencil or a pen on paper?	VMC, VP
21. Does he/she imitate painting some strokes?	VMC, VP
22. Does he/she know where his/her hands, ears, mouth, eyes, … are?	VMC, VP
23. Does he/she recognize familiar objects or people?	VP
24. Does your child react in advance to common situations, such as knowing he/she will eat or go to the street when he/she sees the baby trolley?	VP
25. Does he/she look at a known person if named?	VP
26. Does he/she look for what turn things on like a toy switch, light switch, …?	VP
27. Does he/she recognize himself in a photo?	VP
28. Does he/she identify several drawings (like animals, a house, …)?	VP
29. Does he/she know what two things are similar?	VP
30. Is your child interested in making a simple puzzle?	VP

Domain	Questions
VA	1 2 3 4 5 6 7 8 9 10 11
VC	10 12 13 14 15
VMC	4 5 6 7 8 9 16 17 18 19 20 21 22
VP	6 8 9 11 14 16 17 18 19 20 21 22 23 24 25 26 27 28 29 30

VA: visual attention; VC: visual communication; VMC: visual-motor coordination; VP: visual processing.

diseases, who presented to Ankara Bilkent City Hospital for routine vaccinations. The study included infants who were divided into age groups of 0-1 month, 1-2 months, 2-4 months, 4-6 months, 6-9 months, 9-12 months, 12-18 months, and 18-24 months. Participants were recruited between October 2021 and September 2022 in the capital city of Turkey.

This study was conducted with permission from the developers of the PreViAs questionnaire, in accordance with the ethical guidelines established by the Declaration of Helsinki, and it was approved by the Ankara Bilkent City Hospital Clinical Research Ethics Committee (Protocol number: E2-21-249). Written consent was obtained from all parents before data collection.

Statistical analysis: The sample size was determined to be a minimum of 246 participants using the confidence interval equation for a 95% confidence level and a 5% margin of error. All statistical analyses were performed using the IBM SPSS Statistics 25 package. In descriptive statistics, mean and standard deviation values were defined for continuous variables, and frequency-ratio values were defined for categorical variables. The internal consistency of the scores for the global and all domains were determined using Cronbach's alpha.

RESULTS

In this study, a total of 390 infants and their parents were invited to participate in the study, but 112 infants were excluded due to a history of premature birth or congenital eye disease. Therefore, 278 infants were included in the final analysis, consisting of 156 (56.1%) boys. The infants included in the study were born between 37 and 42 weeks, with birth weights ranging from 2000 to 4800 grams. The age of the infants ranged from 0 to 24 months, with a median age of 139 days (*Table 2*).

The internal consistency analysis showed Cronbach's alpha value of 0.958 for the total score, indicating high consistency. For each domain, the Cronbach's alpha values were 0.890 for VA, 0.913 for VC, 0.951 for VP, and 0.922 for VMC, indicating good consistency. Please refer to *Table 3* for the detailed results. *Table 4* presents the mean scores and cut-off scores for each age group of the PreViAs questionnaire.

Table 2. Clinical characteristics of the infants (n = 278)

Variable	
Gender (n, %)	Male 156 (56.1)
Chronological age, days (median, range)	139 (2-736)
Gestational age, weeks (median, range)	39 (37-42)
Birth weight, grams (median, range)	3300 (2000-4800)

Table 3. The internal consistency of the PreViAs questionnaire by Cronbach's alpha

	Item No	Items n	Cronbach's alpha value
Total	All items	30	0.958
VA	First 11 items	11	0.890
VC	10, 12, 13, 14, 15	5	0.913
VMC	4, 5, 6, 7, 8, 9, 16, 17, 18, 19, 20, 21, 22	13	0.922
VP	6, 8, 9, 11, 14, 16, 17, 18, 19, 20, 21, 22, 23, 24, 25, 26, 27, 28, 29, 30	20	0.951

VA: visual attention; VC: visual communication; VMC: visual-motor coordination; VP: visual processing.

Table 4. The mean score and cutoff score of the PreViAs questionnaire for each age group

	0-1 months (N = 43)	1-2 months (N = 24)	2-4 months (N = 34)	4-6 months (N = 38)	6-9 months (N = 33)	9-12 months (N = 33)	12-18 months (N = 43)	18-24 months (N = 30)
Total score								
Mean (SD)	3.14 (1.81)	6.50 (2.67)	9.21 (2.82)	12.61 (3.85)	18.97 (4.94)	20.76 (4.64)	22.63 (5.79)	25.63 (4.88)
Mean - 2SD	-	1.16	3.57	4.91	9.09	11.48	11.05	15.87
VA								
Mean (SD)	3.02 (1.82)	5.75 (2.15)	7.68 (2.03)	9.13 (1.88)	10.21 (1.54)	10.55 (0.94)	10.42 (1.42)	10.30 (1.18)
Mean - 2SD	-	1.45	3.62	5.37	7.13	8.67	7.58	7.94
VC								
Mean (SD)	0.12 (0.39)	0.96 (1.52)	1.47 (1.28)	2.71 (1.49)	4.42 (1.00)	4.79 (0.89)	4.58 (1.16)	4.80 (0.66)
Mean - 2SD	-	-	-	-	2.42	3.01	2.26	3.48
VMC								
Mean (SD)	1.16 (1.04)	3.08 (1.67)	4.91 (1.71)	6.18 (2.06)	9.21 (2.57)	10.36 (1.95)	10.95 (2.60)	11.60 (2.04)
Mean - 2SD	-	-	1.49	2.06	4.07	6.46	5.75	7.52
VP								
Mean (SD)	0.40 (0.49)	1.67 (1.20)	3.03 (1.47)	4.89 (2.62)	9.70 (4.16)	11.12 (4.04)	13.19 (4.70)	16.27 (4.27)
Mean - 2SD	-	-	0.09	-	1.38	3.04	3.79	7.73

SD: standard deviation; VA: visual attention; VC: visual communication; VMC: visual-motor coordination; VP: visual processing.

DISCUSSION

Visual impairments, both ocular and cerebral, have been shown to have negative effects on neurocognitive development and cognitive function in childhood, and this issue represents a global health problem that can impair overall well-being.[13] In response to this, the VISION 2020 program was launched in 1999 by the World Health Organization and the International Agency for the Prevention of Blindness, with the goal of eliminating preventable blindness worldwide by the year 2020.[1,14] The program emphasizes the importance of primary eye care in childhood, including awareness and attention to vision screening as a fundamental practice for early detection and prevention of visual impairments. Revised pediatric eye screening guidelines emphasize the importance of identifying risk factors for visual impairment and red reflex testing, pupillary examination, assessment of fixation and following behavior, as well as external examination of the eye in children under the age of one. Instrumental examinations such as photo screening or autorefraction may be recommended for screening after the age of 1 year. However, in infants who cannot pass the screening tests or are at risk of low vision, there is an indication for a comprehensive examination to identify reasons that cannot be detected through screening tests.[15]

Some vision screening methods and tools can be applied by trained laypersons, including families, and early diagnosis is critical for effective intervention. Questionnaires are a method commonly used to evaluate visual functions and their impact on quality of life in childhood. These questionnaires are often focused on specific eye diseases, low vision, or overall quality of life. In the literature review, it is evident that questionnaires aimed at assessing childhood visual behaviors are typically developed for school-aged and young children.[16-18] The PreViAs questionnaire utilized in our study is validated for assessing vision in the preverbal period and has been used to evaluate the visual functions of infants under 24 months of age.[11,12] We chose to use the PreViAs questionnaire in our study because it is a straightforward method for measuring visual functions in early childhood.

The English version of PreViAs, which has been developed in Spanish and published in English, has been used in studies evaluating visual development in healthy, full-term preverbal infants[19] and in comparisons of vision between preterm and term infants.[20] PreViAs has also been used as an assessment tool to detect early visual behavioral problems in very preterm infants with the presence of micro and macrostructural brain difficulties.[21] By adapting the questionnaire to Turkish and demonstrating its reliability, we have contributed to its potential widespread use around the world in the future.

The infant groups in our study differ from those in other studies. Pueyo et al. determined their groups at 2-month intervals until the first 6 months, and then at 3-month intervals, while Kim et al. formed groups at 6-month intervals.[11,19] These studies show that visual functions that increase with age in infancy are also reflected in PreViAs scores. In our study, we classified the first 6 months of rapid vision development with shorter intervals to emphasize the neonatal period, which differed from both studies. We examined the 6-12 month period, during which functional vision develops, at 3-month intervals, and the relatively stable 12-24 month period in healthy children at 6-month intervals. Our grouping was found to be appropriate for evaluating functional vision, as the results in these age groups were similar to those reported in the literature.

Standard practice involves following up on the visual function of preterm and term babies during infancy or school age. However, functional visual assessment is not commonly performed during the neonatal period.[22,23] Studies evaluating vision during this time have tended to use black and white stripes[24] and visual evoked potential measurements.[25] In recent years, studies on visual function in the neonatal period have evolved due to the rise of cerebral visual impairment as the leading cause of low vision.[26] Different tools are used, particularly in preterm infants, infants with cerebral palsy risk[27], and newborns with neurological risks.[28] Our study's separate grouping of the neonatal period aims to emphasize the questionnaire's usability for this age group. The widespread use of easy methods such as PreViAs in newborn follow-up may increase awareness of newborns' visual functioning.

One limitation of this study is its reliance solely on parent-reported data. Future studies should include a direct evaluation for a more comprehensive assessment of PreViAs psychometric properties and structure. While the reliability of the PreViAs questionnaire has been found to be acceptable in both our study and previous research, validity analysis such as confirmatory factor analysis cannot be performed

due to the presence of too many common items across domains. Thus, future investigations may focus on evaluating the criterion-reference validity of the PreViAs questionnaire.

CONCLUSION

To achieve early diagnosis and intervention for preventable causes of low vision and blindness during the preverbal period, it is essential to utilize vision screening methods with proven effectiveness and conduct comprehensive ophthalmological examinations when indicated. The use of the Turkish version of PreViAs as a valid method to objectively evaluate infants' functional vision, together with new studies in different populations, may strengthen the acceptance of this questionnaire as a new vision screening approach and its use in combination with other techniques and ophthalmological assessments. ■

Acknowledgments

The authors would like to thank all the infants and their families for their contributions and cooperation in this study.

REFERENCES

1. World Health Organization. World report on vision, 2019. Geneva. [Accessed on: september 13, 2023]. Available at: https://www.who.int/publications-detail-redirect/world-report-on-vision
2. GBD 2019 Blindness and Vision Impairment Collaborators; Vision Loss Expert Group of the Global Burden of Disease Study. Causes of blindness and vision impairment in 2020 and trends over 30 years, and prevalence of avoidable blindness in relation to VISION 2020: the Right to Sight: an analysis for the Global Burden of Disease Study. *Lancet Global Health*. 2021;9(2):e144-60.
3. Burton MJ, Ramke J, Marques AP, Bourne RRA et al. The Lancet Global Health Commission on Global Eye Health: vision beyond 2020. *Lancet Global Health*. 2021;9(4):e489-551.
4. Chang MY, Borchert MS. Advances in the evaluation and management of cortical/cerebral visual impairment in children. *Surv Ophthalmol*. 2020;65(6):708-24.
5. Ozen Tunay Z, Ustunyurt Z, Idil A. Causes of severe visual impairment in infants and methods of management. *Eye (London).* 2021;35(4):1191-7.
6. Hudak ML, Committee On Child Health Financing. Scope of Health Care Benefits for Neonates, Infants, Children, Adolescents, and Young Adults Through Age 26. *Pediatrics*. 2022;150(3):e2022058881.
7. Bennett CR, Bex PJ, Bauer CM, Merabet LB. The Assessment of Visual Function and Functional Vision. *Semin Pediatr Neurol*. 2019;31:30-40.
8. Swaminathan M, Jayaraman D, Jacob N. Visual function assessment, ocular examination, and intervention in children with developmental delay: A systematic approach. Part 1. *Indian J Ophthalmol.* 2019;67(2):196-203.
9. Donahue SP, Nixon CN, Section on Opthamology AAoP, Committee on Practice and Ambulatory Medicine AAoP, et al. Visual System Assessment in Infants, Children, and Young Adults by Pediatricians. *Pediatrics*. 2016;137(1):28-30.
10. Quinn GE, Berlin JA, James M. The Teller acuity card procedure. Three testers in a clinical setting. *Ophthalmology*. 1993;100(4):488-94.
11. Pueyo V, García-Ormaechea I, González I, Ferrer C, et al. Development of the Preverbal Visual Assessment (PreViAs) questionnaire. *Early Hum Dev*. 2014;90(4):165-8.
12. García-Ormaechea I, González I, Duplá M, Andres E, Pueyo V. Validation of the Preverbal Visual Assessment (PreViAs) questionnaire. *Early Hum Dev.* 2014;90(10):635-8.
13. Sonksen PM, Dale N. Visual impairment in infancy: impact on neurodevelopmental and neurobiological processes. *Dev Med Child Neurol.* 2002;44(11):782-91.
14. Malik ANJ, Mafwiri M, Gilbert C. Integrating primary eye care into global child health policies. *Arch Dis Child*. 2018;103(2):176-80.
15. Loh AR, Chiang MF. Pediatric Vision Screening. *Pediatr Rev*. 2018;39(5):225-34.
16. Hatt SR, Leske DA, Castañeda YS, Wernimont SM, et al. Development of Pediatric Eye Questionnaires for Children With Eye Conditions. *Am J Ophthalmol*. 2019;200:201-17.
17. Angeles-Han ST, Griffin KW, Harrison MJ, Lehman TJ, et al. Development of a vision-related quality of life instrument for children ages 8-18 years for use in juvenile idiopathic arthritis-associated uveitis. *Arthritis Care Res (Hoboken)*. 2011;63(9):1254-61.
18. Sacchetti M, Baiardini I, Lambiase A, Aronni S, et al. Development and testing of the quality of life in children with vernal keratoconjunctivitis questionnaire. *Am J Ophthalmol*. 2007;144(4):557-63.
19. Kim E, Lee J, Park HY, Lee J, et al. Visual Development of Healthy Full-Term Infants under 24 Months of Age Using the Preverbal Visual Assessment Questionnaire. *Dev Neurosci.* 2022;44(1):39-48.
20. Lee J, Kim MG, Park HY, Nam KE, et al. Visual assessment of preterm and full-term infants under the age of 12 months using the Preverbal Visual Assessment questionnaire. *Early Hum Dev*. 2021;153:105289.
21. Chandwani R, Harpster K, Kline JE, Mehta V, et al. Brain microstructural antecedents of visual difficulties in infants born very preterm. *Neuroimage Clin*. 2022;34:102987.
22. Ricci D, Romeo DM, Gallini F, Groppo M, et al. Early visual assessment in preterm infants with and without brain lesions: correlation with visual and neurodevelopmental outcome at 12 months. *Early Hum Dev*. 2011;87(3):177-82.
23. Jonas DE, Amick HR, Wallace IF, Feltner C, et al. Vision Screening in Children Aged 6 Months to 5 Years: Evidence Report and Systematic Review for the US Preventive Services Task Force. *JAMA*. 2017;318(9):845-58.
24. Ricci D, Romeo DM, Serrao F, Cesarini L, et al. Application of a neonatal assessment of visual function in a population of low risk full-term newborn. *Early Hum Dev*. 2008;84(4):277-80.
25. Kato T, Okumura A, Hayakawa F, Kuno K, Watanabe K. The evolutionary change of flash visual evoked potentials in preterm infants with periventricular leukomalacia. *Clin Neurophysiol*. 2005;116(3):690-5.
26. Fontana C, De Carli A, Ricci D, Dessimone F, et al. Effects of Early Intervention on Visual Function in Preterm Infants: A Randomized Controlled Trial. *Front Pediatr.* 2020;8:291.
27. Chorna OD, Guzzetta A, Maitre NL. Vision Assessments and Interventions for Infants 0-2 Years at High Risk for Cerebral Palsy: A Systematic Review. *Pediatr Neurol.* 2017;76:3-13.
28. Rossi A, Gnesi M, Montomoli C, Chirico G et al. Neonatal Assessment Visual European Grid (NAVEG): Unveiling neurological risk. *Infant Behav Dev*. 2017;49:21-30.

Arch Argent Pediatr 2023;122(3):e202310122

Utilización de los medios de comunicación y actitudes frente a las pantallas en niños de 36-72 meses: estudio descriptivo transversal

Zehra Kardas[a], *Nagihan Erdog Sahin*[a], *Meda Kondolot*[b]

RESUMEN

Introducción. La edad en que los niños son introducidos a los dispositivos de comunicación es cada vez más temprana. Las investigaciones sobre los hábitos relacionados con ellos, en niños pequeños, son importantes. El objetivo de este estudio fue describir los hábitos sobre el uso de dispositivos mediáticos (edad de comienzo, tiempo frente a las pantallas, preferencias populares) de niños preescolares y explorar la relación con las características familiares.

Población y métodos. Estudio descriptivo transversal: Los padres de niños de 36-72 meses que asistían a los centros de cuidado infantil en Kayseri, una ciudad central de Anatolia, Turquía, completaron un cuestionario sobre los hábitos familiares y de los niños, relacionados con los medios de comunicación.

Resultados. Se incluyeron 858 cuestionarios. El 28 % de los niños utilizaban pantallas por más de 2 h/día; el 36 % fueron introducidos a los dispositivos de comunicación antes de los 2 años de edad. La televisión fue el dispositivo más usado (95 %), y los dibujos animados, el programa elegido en el 86,7 %. Los hijos de padres con educación superior tuvieron menos tiempo de pantallas frente a la televisión, la computadora o el teléfono móvil ($p = 0,012$; $p = 0,007$; $p < 0,01$ para la madre y $p = 0,049$; $p = 0,032$; $p = 0,04$ para el padre respectivamente). La introducción de libros en los primeros 6 meses de edad se asoció con menor tiempo diario frente a las pantallas ($p = 0,011$; $p = 0,009$; $p = 0,002$ para televisión, computadora y teléfono móvil, respectivamente). El tiempo de los padres frente a la televisión se correlacionó positivamente con el de los niños ($p < 0,05$; r: 0,354).

Conclusión. El nivel de educación de los padres, el tiempo que ellos dedican a las pantallas y la introducción de libros en etapas tempranas se relacionaron con los hábitos de los niños frente a los dispositivos mediáticos. Se necesitan estudios amplios para explicar esta relación con mayor claridad.

Palabras clave: *niño; tiempo de pantalla; medios de comunicación.*

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10122
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10122.eng

Cómo citar: Kardas Z, Erdog Sahin N, Kondolot M. Utilización de los medios de comunicación y actitudes frente a las pantallas en niños de 36-72 meses: estudio descriptivo transversal. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310122.

[a] *Departamento de Pediatría, Unidad de Pediatría Social, Kayseri City Education and Research Hospital, Kayseri, Turquía;* [b] *Departamento de Pediatría, Unidad de Pediatría Social, Erciyes University, Facultad de Medicina, Kayseri, Turquía.*

Correspondencia para *Nagihan Erdoğ Şahin: dr.nagihansahin@yahoo.com*

Financiamiento*: ninguno.*

Conflicto de intereses*: ninguno que declarar.*

Recibido*: 12-6-2023*
Aceptado*: 26-9-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

INTRODUCCIÓN

En el siglo XXI, los niños están rodeados por un medio rico en diversas clases de equipamiento digital;[1] a algunos niños se les pide que sonrían frente a las cámaras antes incluso de ser presentados a sus abuelos. La edad en que un niño es introducido a los dispositivos de comunicación es cada vez más temprana.[2] Sin embargo, los estudios han mostrado que mirar programas de televisión, aunque sean educativos, no es beneficioso para niños menores de 2 años de edad.[3] Además, en aquellos de 2 años o más, el uso prolongado de los dispositivos mediáticos puede provocar problemas en el desarrollo del lenguaje, trastornos de sueño y de la atención, y cambios generales de la conducta.[4,5] Aunque puede ser imposible eliminar en la vida de los niños totalmente el uso de dispositivos, este se debería supervisar y adecuar a su edad y sus necesidades. El contenido consumido a través de estos medios es tan importante como el tiempo dedicado a ello. Estudios previos mostraron que tener un nivel socioeconómico más bajo o una familia uniparental, aumentan el tiempo que los niños pasan frente a las pantallas.[6-8]

Kaiser et al., demostraron que las conductas familiares frente a los dispositivos mediáticos, influyen sobre los hábitos de los niños.[6] El uso que los padres hacen de estos medios juega un papel importante en el desarrollo del niño y determina la calidad de las interacciones entre el niño y sus padres. Se ha sugerido que el tiempo prolongado de pantallas de los padres reduce la interacción con su hijo e impacta negativamente en el tiempo de conversación y, por lo tanto, en las habilidades lingüísticas.[10,11] Además, el uso familiar de estos dispositivos reduce los periodos de atención del niño durante el juego, aunque él no los use.[12] La infancia es un periodo importante y valioso en la vida durante el cual se debería buscar en forma cuidadosa un desarrollo integral de la generación futura.

El objetivo de esta investigación fue describir los hábitos relacionados con el uso de dispositivos mediáticos (edad de introducción, tiempo frente a las pantallas, preferencias populares) de niños preescolares de Kayseri, una ciudad de Anatolia, en Turquía, y explorar su relación con las características familiares.

POBLACIÓN Y MÉTODOS

El estudio descriptivo y transversal incluyó a los padres de niños de 36-72 meses de edad que concurrieron a cualquier centro de cuidado infantil en Kayseri, una ciudad central de Anatolia, Turquía, entre abril de 2019 y mayo de 2020. Fue aprobado por el Comité de Ética de la Facultad de Medicina de la Erciyes University (2019/217). Las instituciones educativas preescolares de la provincia fueron divididas en grupos según las culturas regionales y el nivel de ingresos de los padres (nivel socioeconómico alto, medio o bajo). La visita a las escuelas contó con la autorización de la Dirección Provincial de Educación Nacional. Los investigadores fueron dos pediatras que invitaron a 1000 padres a contestar el cuestionario. No se incluyó a los padres de niños con discapacidades físicas, trastornos neurosiquiátricos o del desarrollo. Un total de 858 padres consintieron en participar y dieron su consentimiento informado por escrito. Los participantes no recibieron incentivos económicos.

Cuestionario

Se entregó a los padres un cuestionario para completar con preguntas abiertas, respuestas dicotómicas (sí/no) y respuestas de opciones múltiples. Solo uno de los padres completó el cuestionario.

El cuestionario fue desarrollado por los investigadores y comprende tres partes. La primera trata sobre las características sociodemográficas de los participantes (nivel de educación y socioeconómico de los padres, número de hermanos, nivel de educación del cuidador). Los ingresos familiares se categorizaron en uno de cuatro grupos según los valores de la línea nacional de pobreza (1500 liras turcas) en el momento del estudio. La segunda parte se refiere a los dispositivos de comunicación más populares entre los niños (televisión -TV-, teléfono móvil, computadora, tableta), la aplicación más popular, la edad en que los niños son introducidos a estos dispositivos, el tiempo de pantalla diario de los niños y los hábitos de los padres con respecto a estos medios. La tercera parte incluye aspectos generales de salud (trastornos del sueño, índice de masa corporal) y hábitos de lectura.

Tamaño muestral

Se determinó previamente que, en el área de la investigación, cerca del 65 % de los niños de 36-72 meses de edad tenían acceso a internet en sus hogares.[13] El total de niños que concurrían a los centros de cuidado infantil fue provisto por la Dirección Provincial de Educación Nacional

(n: 26 500). Se calculó un tamaño muestral mínimo de 698 niños para un nivel de error de 0,05, una potencia de 0,80 y un valor de tolerancia de 0,05.

Análisis estadístico

Se evaluó la distribución normal de los datos con las pruebas de Shapiro-Wilk y Kolmogrow-Smirnov. La homogeneidad de varianzas se evaluó con la prueba de Levene. La comparación binaria entre variables cuantitativas se hizo con la prueba U de Mann-Whitney y dos pruebas t de muestras independientes. Para comparar más de dos grupos se utilizó la prueba H de Kruskal Wallis. Se aplicó el análisis $\chi 2$ (chi-cuadrado) de Pearson para comparar datos categóricos. La prueba de Dunn-Bonferroni se utilizó en las comparaciones múltiples. Los datos se evaluaron con el programa SPSS 25.0. Se consideró significativo un valor de $p < 0,05$.

RESULTADOS

Se incluyeron 858 niños preescolares de diferentes niveles socioeconómicos. La edad media fue de 66 meses; el 52,8 % fueron varones. El cuidador de los niños, cuando no estaban en el centro de cuidado infantil, era un abuelo en el 29 % de los casos, una persona no perteneciente a la familia en el 31 % y el restante 39 % era uno de los padres (*Tabla 1*).

El 25 % de los niños fueron introducidos a los dispositivos mediáticos entre los 12-24 meses y el 11 % antes de los 12 meses; un total del 36 % comenzó a utilizar estos dispositivos antes de los 2 años de edad. El 28 % usaban pantallas más de 2 h/día. El dispositivo más frecuente fue la TV (95 %). La elección del programa dependía del dispositivo utilizado. Los programas más populares fueron los dibujos animados en la TV (86,7 %, los dibujos y vídeos en computadoras y tabletas (38,5 %), y los juegos en los teléfonos móviles (47,8 %). En la *Tabla 2* se muestran las preferencias y actitudes de los niños frente a las pantallas.

El tiempo ante la TV y la computadora fue diferente entre los géneros, y más prolongado en los varones ($p = 0,005$; $p = 0,001$, respectivamente) (*Tabla 3*). No se encontró asociación entre la edad de introducción y el tiempo de pantalla con TV, computadoras y teléfonos móviles ($p = 0,370$; $p = 0,858$; $p = 0,777$, respectivamente). Sin embargo, el tiempo de pantalla frente a la TV, la computadora y el teléfono móvil de los niños que compartieron la lectura de libros en los primeros 6 meses, fue significativamente más corto que en aquellos que comenzaron estas lecturas después de los 36 meses ($p = 0,011$; $p = 0,009$; $p = 0,002$, respectivamente) (*Tabla 3*).

La duración del uso de TV, computadora y teléfono móvil fue significativamente menor en los niños cuyas madres tenían un nivel de educación superior (pregrado) ($p = 0,012$; $p = 0,007$; $p < 0,01$, respectivamente). Lo mismo se observó en los padres con más alto nivel de educación (pregrado) ($p = 0,049$; $p = 0,032$; $p = 0,04$ respectivamente). A medida que aumentaba el nivel de educación de los cuidadores, el tiempo de exposición de los niños ante la TV y el teléfono móvil se acortaba ($p = 0,017$; $p = 0,03$ respectivamente) (*Tabla 3*).

El nivel ocupacional de la madre se asoció con los hábitos de los niños. Aquellos cuyas madres estaban en el hogar, pasaban más tiempo frente a la TV y la computadora ($p = 0,001$; $p = 0,012$; respectivamente). En el grupo de mayor ingreso, el tiempo frente a la TV fue significativamente más corto que en el grupo por debajo de la línea de pobreza ($p = 0,003$) y el uso del teléfono móvil disminuía a medida que aumentaba el nivel de ingresos ($p = 0,001$).

Los tiempos de exposición a los dispositivos de comunicación fueron similares entre los grupos con y sin problemas del sueño ($p = 0,097$; $p = 0,245$; $p = 0,259$ respectivamente para TV, computadora y teléfono móvil).

En forma particular, el tiempo de los niños frente a la TV se correlacionó positivamente con el de sus padres ($p < 0,05$; r: 0,354). El tiempo de los padres frente a la TV tuvo una correlación positiva débil con el tiempo de los niños frente a computadoras y teléfonos móviles ($p < 0,05$, $r = 0,074$; $p < 0,05$; r: 0,198 respectivamente). Además, el tiempo de los padres en internet tuvo una correlación positiva débil con el tiempo de los niños frente a TV, computadoras y teléfonos móviles ($p < 0,05$; r: 0,087; $p < 0,05$; r: 0,141; $p < 0,05$; r: 0,197, respectivamente) (*Tabla 4*).

El tiempo de los niños frente a la pantalla, no se correlacionó con la edad de las madres ($p > 0,05$; $p > 0,05$ respectivamente). Sin embargo, el tiempo de los niños frente a computadoras y teléfonos móviles fue mayor a medida que aumentaba la edad de los padres, con una correlación débil ($p < 0,05$; r: 0,141; $p < 0,05$; r: 0,197; respectivamente) (*Tabla 4*).

Tabla 1. Características sociodemográficas de los participantes

	N = 858	%
Género de los niños		
Femenino	405	47,2
Masculino	453	52,8
Edad (meses)		
36-47	38	4,4
48-60	132	15,3
61-72	688	80,1
Número de hermanos		
0	151	17,6
1	491	57,2
2	181	21,1
≥3	35	4
Edad de la madre (años)		
21-30	186	21,6
31-40	603	70,2
41-50	69	8
Edad del padre (años)		
26-35	317	36,9
36-45	483	56,2
46-57	58	6,7
Principal cuidador (fuera del horario escolar)		
Madre y/o padre	336	39,1
Abuelo	252	29,3
Cuidador	270	31,4
Nivel de educación de la madre		
Primario	113	13,2
Secundario	266	31
Universitario	477	55,6
Otro	2	0,2
Nivel de educación del padre		
Primario	99	11,5
Secundario	242	28,2
Universitario	512	59,7
Otro	5	0,6
Nivel de educación del cuidador		
Primario	235	27,4
Secundario	285	33,2
Universitario	321	37,4
Otro	17	2,0
Situación laboral de la madre		
Empleada	322	37,5
Trabaja en el hogar	536	62,5
Ingresos mensuales		
Debajo de la línea de pobreza (<1500 TRY)	39	4,6
Igual o superior a la línea de pobreza (1500-4500 TRY)	398	46,4
Ingreso medio (4500-10 000 TRY)	373	43,5
Ingreso alto (>10 000 TRY)	48	5,6
Problemas de salud		
No	783	91,3
Sí	75	8,7

TRY: liras turcas.

Tabla 2. Uso de los medios de comunicación y preferencias de los niños

	N = 858	%
Tiempo frente a la televisión (minutos)		
No usa	40	4,6
≤30	75	8,7
>30 - ≤120	499	58,1
>120 - ≤180	138	16,0
>180	106	12,3
Tiempo frente a la computadora (minutos)		
No usa	368	42,8
≤30	133	15,5
>30 - ≤120	284	33,1
>120 - ≤180	40	4,6
>180	33	3,8
Tiempo con el teléfono móvil (minutos)		
No usa	321	37,4
≤30	197	22,9
>30 - ≤120	290	33,7
>120 - ≤180	28	3,2
>180	22	2,5
Edad de introducción de los dispositivos mediáticos (meses)		
0-6	27	3,2
6-12	67	7,8
12-24	213	24,8
24-36	228	26,6
>36	323	37,6
Edad de introducción de la lectura (meses)		
0-6	87	10,2
6-12	164	19,1
12-24	266	31
24-36	175	20,4
>36	166	19,3
Preferencias en la televisión		
Dibujos animados	744	86,7
Avisos publicitarios	5	0,6
Programas musicales	11	1,3
Series para televisión	74	8,6
Otra	24	2,8
Preferencias en la computadora o tableta		
Juegos	262	30,5
Dibujos animados	330	38,5
Navegar por internet	50	5,8
Música	20	2,4
Otra	196	22,8
Preferencias en el teléfono móvil		
Juegos	410	47,8
Sacar fotos	111	12,9
Música	37	4,3
Navegar por internet	83	9,7
Otra	217	25,3

DISCUSIÓN

Este estudio examinó el uso de dispositivos mediáticos en niños preescolares de 36-72 meses y su asociación con las características de los padres, sus cuidadores y su hogar.

La edad en que los niños son introducidos al uso de estos dispositivos es cada vez más temprana.[14] La Academia Americana de Pediatría (AAP) estableció que el 90 % de los niños en EE. UU. ya habían comenzado a mirar televisión a los 2 años.[15] También un estudio coreano encontró que la mayoría de los niños comienzan a utilizar

Tabla 3. Tiempo que pasa el niño ante la televisión, la computadora y el teléfono móvil y relación con otras variables

Variables	Televisión N = 818		Computadora N = 490		Teléfono móvil N = 537	
	Tiempo (min)	Valor de p	Tiempo (min)	Valor de p	Tiempo (min)	Valor de p
Género						
Masculino	120 (60-180)	0,005*	60 (30-120)	0,001*	60 (30-110)	0,151
Femenino	120 (60-150)		60 (30-105)		60 (30-60)	
Edad de introducción de los dispositivos (meses)						
0-6	60 (60-97,5)	0,370	90 (30-170)	0,858	60 (40-90)	0,777
6-12	120 (60-180)		60 (60-120)		60 (30-60)	
12-24	120 (60-180)		60 (30-120)		60 (30-60)	
24-36	120 (60-150)		60 (30-120)		60 (30-90)	
>36	120 (60-150)		60 (30-120)		60 (30-90)	
Edad de introducción de la lectura de libros						
0-6	85 (60-120)[a]	0,011**	60 (30-75)[a]	0,009**	30(20-60)[a]	0,002**
6-12	120 (60-180)		60 (30-120)		60 (30-60)	
12-24	120 (60-150)		60 (30-120)		60 (30-60)	
24-36	120 (60-180)		60 (60-120)		60 (30-120)	
>36	120 (60-180)[b]		60 (60-120)[b]		60 (30-120)[b]	
Nivel de educación de la madre						
Primario	120 (60-180)[a]	0,012**	60 (37,5-150)	0,007**	60 (30-120)[a]	<0,01**
Secundario	120 (60-180)		60 (55-120)[a]		60 (30-120)	
Universitario	120 (60-150)[b]		60 (30-120)[b]		60 (30-60)[b]	
Situación laboral de la madre						
Empleada	90 (60-120)	0,001*	60 (30-97,5)	0,012*	60 (30-60)	0,195
Tareas del hogar	120 (60-180)		60 (30-120)		60 (30-70)	
Nivel de educación del padre						
Primario	120 (60-180)[a]	0,049**	75(60-120)[a]	0,032**	60 (50-120)[a]	0,04**
Secundario	120 (60-180)		60 (30-120)		60 (30-120)	
Universitario	120 (60-150)[b]		60 (30-120)[b]		60 (30-60)[b]	
Nivel de educación del cuidador						
Primario	120 (60-180)[a]	0,017**	60 (30-120)	0,077	60 (30-120)[a]	0,003**
Secundario	120 (60-150)		60 (30-120)		60 (30-90)	
Universiario	120 (60-130)[b]		60 (30-120)		60 (30-60)[b]	
Ingreso mensual						
Debajo de la línea de pobreza	60 (60-120)	0,003**	60 (30-160)	0,07	60 (30-120)	0,001**
Igual o superior a la línea de pobreza	120 (60-180)[a]		60 (60-120)		60 (30-120)[a]	
Ingreso medio	120 (60-150)		60 (30-120)		60 (30-60)[b]	
Ingreso alto	90 (60-120)[b]		60 (30-120)		40 (15-60)	
Trastornos del sueño						
No	120 (60-150)	0,097	90 (30-120)	0,245	60 (30-80)	0,259
Sí	120 (60-180)		90 (40-120)		60 (30-120)	

Los valores están expresados como mediana (1.er–3.er cuartiles).
**Prueba de Mann Whitney; valor de p estadísticamente significativo <0,05. ** Prueba H de Kruskal Wallis, valor de p estadísticamente significativo <0,05. [a b:] Diferentes superíndices en la misma columna indican diferencias significativas entre ambos grupos.*

Tabla 4. Tiempo que pasa el niño frente a la televisión, la computadora y el teléfono móvil, y relación con otras variables

Variables	Tiempo frente a la televisión	Tiempo frente a la computadora	Tiempo frente al teléfono móvil
Tiempo de los padres frente a la televisión	r = 0,354 **p <0,05**	r = 0,074 **p <0,05**	r = 0,198 **p <0,05**
Tiempo de los padres en internet	r = 0,087 **p <0,05**	r = 0,141 **p <0,05**	r = 0,197 **p <0,05**
Edad de la madre	r = 0,038 p >0,05	r = 0,006 p >0,05	r = 0,040 p >0,05
Edad del padre	r = -0,005 p >0,05	r = 0,077 **p <0,05**	r = 0,089 **p <0,05**
Índice de masa corporal	r = -0,087 **p = 0,044**	r = 0,024 p >0,05	r = -0,005 p >0,05

la TV y el teléfono celular antes de los 2 años.[2] En nuestro estudio, el 25 % de los niños fueron introducidos a los dispositivos mediáticos entre los 12-24 meses, y, aproximadamente un 11 %, antes de los 12 meses de edad.

La AAP recomienda que los padres comiencen a compartir lecturas con sus hijos todos los días en la infancia temprana (a los 6 meses) y continúen hasta el ingreso escolar para apoyar en sus niños el lenguaje socioemocional y el desarrollo temprano de la alfabetización.[16]

Este estudio mostró que el tiempo que los niños pasan frente a las pantallas es significativamente menor en quienes comienzan la lectura compartida en los primeros meses. Por eso, esta actividad podría estar asociada con el tiempo de pantallas y el manejo de los hábitos mediáticos. Hay estudios que demostraron la relación entre el uso de pantallas y los hábitos de lectura de los niños y sus padres.[17,18]

En este estudio los niños varones estuvieron más tiempo ante la TV y la computadora, pero algunos estudios mostraron que las conductas ante los medios son similares en ambos géneros.[19]

El nivel de educación de los padres se relacionó con el tiempo de pantallas significativamente. El uso de TV, computadora y teléfono móvil fue más breve en los niños cuyas madres y padres tenían educación superior (pregrado). Esto coincide con los hallazgos de otros estudios previos.[6,8,20,21] Además, los niveles de educación de los cuidadores que no eran familiares, también influenciaron las conductas de los niños en relación con los medios. Por lo tanto, un nivel alto de educación podría influir sobre la atención de los padres con respecto a lo hábitos mediáticos de los niños.

Los estudios previos mostraron diferentes resultados sobre el impacto del ingreso familiar en el uso de dispositivos.[9,22] Un estudio encontró que tanto la duración como el contenido de los dispositivos mediáticos eran diferentes según el ingreso familiar. Los niños de familias de altos ingresos preferían programas educacionales, mientras que los niños de familias de bajos ingresos, preferían programas de entretenimiento.[23] Nuestro estudio mostró que el uso de la TV y el teléfono móvil era más corto en el grupo de altos ingresos.

Otros estudios demostraron que las conductas mediáticas de los padres afectaban las de los niños.[6] En las familias con adicción mediática grave, los niños leían menos.[6,24] De acuerdo con nuestro estudio, el tiempo de uso de los dispositivos mediáticos por los niños se correlacionó con el de los padres, como se encontró en otros estudios.[11] También se ha mostrado que a medida que aumentaba el tiempo dedicado por los padres a los medios, disminuía el tiempo en que se presta atención a los niños con el consiguiente impacto en el número de interacciones padre-hijo.[10,11]

Se sabe que el uso prolongado de dispositivos mediáticos tiene efectos perjudiciales en niños pequeños, incluso si son educativos.[4,21] Mientras que estos efectos son diferentes según el tiempo de exposición y el contenido consumido,[21] el contenido tiene varios efectos perjudiciales sobre los niños que pueden verse afectados por los cambios rápidos en las figuras, la música y la animación.[25] El uso excesivo de pantallas impacta sobre las habilidades lingüísticas, las conductas del sueño, el desarrollo cognitivo, el

peso y el tiempo de atención.[5] En este estudio, el tiempo de exposición fue similar entre los niños con y sin trastornos del sueño. Se preguntó a las familias si sus niños tenían problemas con el sueño y se pidió que explicaran la situación que ellos definían como problemática. La mayoría de los padres estaban preocupados porque sus hijos se acostaban tarde. Sin embargo, esta situación descripta como un trastorno del sueño se basó solo sobre la opinión de los padres y fue subjetiva. Por el método utilizado en nuestro estudio no se puede decir que haya una relación clara entre el tiempo de pantalla y los trastornos del sueño.

Tampoco se encontró correlación entre el índice de masa corporal y el uso mediático, lo que fue consistente con los resultados de una revisión anterior.[20] Esto podría explicarse por la gran actividad física propia de los niños preescolares.

Las conductas mediáticas de los niños no se asociaron con la edad de sus madres; sin embargo, a medida que aumentaba la edad paterna, también lo hacía el tiempo de pantallas, en particular con computadoras y teléfonos móviles. Por lo tanto, mientras que la atención de las madres sobre el uso de dispositivos mediáticos podría ser independiente de su edad, los padres jóvenes serían los más atentos a su uso.

Este estudio tiene algunas limitaciones. Una de ellas es que el cuestionario usado para la recolección de los datos no está validado. Mientras hay cuestionarios disponibles para evaluar el uso de dispositivos mediáticos en niños de más edad, no los hay para el grupo etario de este estudio. Otra limitación es que los datos se obtuvieron a través de una encuesta y pueden estar afectados por el factor de recuerdo de los padres. Sin embargo, dada la importancia de estudiar los hábitos mediáticos de los niños de 36-72 meses, y la amplia distribución socioeconómica de las familias incluidas, la muestra del estudio se considera un buen indicador de la población general. Estudios futuros deberán buscar el desarrollo de una escala apropiada para esta edad para evaluar el uso mediático en este rango o llevar a cabo un estudio longitudinal para seguir los cambios en las conductas mediáticas de los niños.

En conclusión, se observó que los niveles educacionales de los padres y cuidadores, la edad de comienzo de la lectura de libros y el tiempo familiar de uso de TV o internet, se asociaron con los tiempos de exposición de los niños a las pantallas. Los niños cuyos padres y cuidadores tenían mayor nivel educacional y los niños con comienzo temprano de la lectura, pasaban menos tiempo frente a la TV, la computadora y el teléfono móvil. A medida que el uso familiar de TV e internet aumentaba, también lo hacía el uso de pantallas por parte de los niños. Por eso es importante el aumento de la atención de la familia y los cuidadores sobre las actitudes ante los medios e introducir la lectura en forma temprana, para adquirir hábitos mediáticos saludables. ■

Agradecimientos

Los autores agradecen al Dr. Maruf Göğebakan por sus contribuciones al análisis estadístico.

REFERENCIAS

1. Reid Chassiakos YL, Radesky J, Christakis D, Moreno MA, Cross C. COUNCIL ON COMMUNICATIONS AND MEDIA. Children and Adolescents and Digital Media. *Pediatrics*. 2016;138(5):e20162593.
2. Chang H, Park E, Yoo H, Lee J, Shein Y. Electronic Media Exposure and Use among Toddlers. *Psychiatry Investig*. 2018;15(6):568-73.
3. Christakis DA. The effects of infant media usage: what do we know and what should we learn? *Acta Paediatr*. 2009;98(1):8-16.
4. Council on Communications and Media. Media Use in School-Aged Children and Adolescents. *Pediatrics*. 2016;138(5):e20162592.
5. Owens J, Maxim R, McGuinn M, Nobile C, et al. Television-Viewing Habits and Sleep Disturbance in School Children. *Pediatrics*. 1999;104(3):e27.
6. Rideout VJ, Hamel E. Electronic Media in the Lives of Infants, Toddlers, Preschoolers and Their Parents. Menlo Park, CA: Kaiser Family Foundation; 2006.
7. Mistry KB, Minkovitz CS, Strobino DM, Borzekowski DL. Children's television exposure and behavioral and social outcomes at 5.5 years: does timing of exposure matter? *Pediatrics*. 2007;120(4):762-9.
8. Certain LK, Kahn RS. Prevalence, correlates and trajectory of television viewing among infants and toddlers. *Pediatrics*. 2002;109(4):634-42.
9. Anand S, Krosnick JA. Demographic Predictors of Media Use Among Infants, Toddlers and Preschoolers. *Am Behav Sci*. 2005;48(5):539-61.
10. Anderson DR, Evans MK. Peril and Potential of Media for Infants and Toddlers. *Zero to three*. 2001;22(2):10-16.
11. Kirkorian HL, Pempek TA, Murphy LA, Schmidt ME, Anderson DR. The impact of background television on parent-child interaction. *Child Dev*. 2009;80(5):1350-9.
12. Schmidt ME, Pempek TA, Kirkorian HL, Lund AF, Anderson DR. The effects of background television on the toy play behavior of very young children. *Child Dev*. 2008;79(4):1137-51.
13. Gündoğdu Z, Seytepe Ö, Pelit BM, Doğru H et al. Media Use By Preschool-Aged Children. *Kocaeli Üniversitesi Sağlık Bilimleri Dergisi*. 2016;2:6-10.
14. Livingstone S, Marsh J, Plowman L, Ottovordemgentschenfelde S, Fletcher-Watson B. Young Children (0-8) and Digital Technology: a qualitative

exploratory study – national report - UK. London: London School of Economics and Political Science; 2014.
15. Media Education. American Academy of Pediatrics. Committee on Public Education. *Pediatrics*. 1999;104(2):341-3.
16. Council on Early Childhood, High PC, Klass P. Literacy promotion: an essential component of primary care pediatric practice. *Pediatrics*. 2014; 134(2):404–9.
17. Sarı E, Ayhan Başer D, Yalcin SS. Father's reading beliefs and child's media usage habits. *Int J Environ Health Res*. 2023;12:1-13.
18. McArthur BA, Browne D, McDonald S, Tough S, Madigan S. Longitudinal associations between screen use and reading in preschool-aged children. *Pediatrics*. 2021;147(6): e2020011429.
19. Lee DY, Roh HW, Kim SJ, Park EJ, et al. Trends in digital media use in Korean preschool children. *J Korean Med Sci*. 2019;34(41):e263.
20. Paudel S, Jancey J, Subedi N, Leavy J. Correlates of mobile screen media use among children aged 0-8: a systematic review. *BMJ Open*. 2017;7(10):e014585.
21. Hosokawa R, Katsura T. Association between mobile technology use and child adjustment in early elementary school age. *PLoS ONE*. 2018;13(7):e0199959.
22. Vandewater EA, Rideout VJ, Wartella EA, Huang X, et al. Digital childhood: electronic media and technology use among infants, toddlers, and preschoolers. *Pediatrics*. 2007;119(5):e1006-15.
23. Rideout V. Zero to Eight: Children's Media Use in America. San Francisco, CA: Common Sense Media; 2013.
24. Vandewater EA, Bickham DS, Lee JH, Cummings HM et al. When the television is always on: heavy television exposure and young children's development. *Am Behav Sci.* 2005;48(5):562-77.
25. Sigmundová D, Sigmund E, Badura P, Vokáčová J, et al. Weekday-weekend patterns of physical activity and screen time in parents and their pre-schoolers. *BMC Public Health*. 2016;16(1):898.

Original article

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310122

Media use and attitudes towards screens in children aged 36-72 months; a cross-sectional, descriptive study

Zehra Kardas[a], *Nagihan Erdog Sahin*[a], *Meda Kondolot*[b]

ABSTRACT

Introduction: The age at which children are introduced to media devices is becoming increasingly earlier. Studies regarding the media habits of young children have gained importance. The aim of the study was to describe the screen media habits (age of introduction media, time spend with screen, popular choices) of preschool children and to explore their relationship with household characteristics.

***Population and methods*:** Cross-sectional descriptive study; the parents of children aged 36-72 months who attended childcare centers in Kayseri, a central Anatolian city in Türkiye, completed a questionnaire on media habits of families and children.

Results: There were 858 questionaires included. The proportion of children using screen media more than 2 h/day was 28%; 36% of children were introduced to media devices before the age of two. The most frequently used media tool was television (95%) and the program watched was cartoons for TV (86.7%). Children of highly educated parents had shorter TV, computer and smartphone screen time ($p = 0.012$, $p = 0.007$, $p < 0.01$ for mother and $p = 0.049$, $p = 0.032$, $p = 0.04$ for father respectively). Introducing books in the first 6 months was associated with shorter daily screen time ($p = 0.011$, $p = 0.009$, $p = 0.002$ for TV, computer and smartphone ,respectively). Parent's time spent on TV was positively correlated with children's time spent on TV ($p < 0.05$, $r = 0.354$).

Conclusion: Parents' education levels, parents' screen time and introducing book in early age was related to children's media habits. Comprehensive studies are needed to explain this relationship more clearly.

Keywords: *child; screen time; comunications media.*

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10122.eng

To cite: Kardas Z, Erdog Sahin N, Kondolot M. Media use and attitudes towards screens in children aged 36-72 months; a cross-sectional, descriptive study. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310122.

[a] *Department of Pediatrics, Social Pediatrics Unit, Kayseri City Education and Research Hospital, Kayseri, Turkey.*
[b] *Department of Pediatrics, Social Pediatrics Unit, Erciyes University Faculty of Medicine, Kayseri, Turkey.*

Correspondence to *Nagihan Erdoğ Şahin: dr.nagihansahin@yahoo.com*

Funding: *None.*

Conflict of interest: *None.*

Received: *6-12-2023*
Accepted: *9-26-2023*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

INTRODUCTION

In the 21st century, children are surrounded by a rich environment containing many kinds of digital equipment,[1] with some children being taught to smile for cameras before they're even introduced to their grandparents. The age at which children are introduced to media devices is decreasing continuously.[2] However, studies have shown that watching television (TV) programs, even educational ones, has no benefit for children under 2 years of age.[3] Furthermore, in children aged 2 years and older, prolonged use of media devices can cause problems in speaking skills, sleep behavior and attention and result in overall behavior changes.[4,5] While it may be impossible to eliminate media use from children's lives entirely, their use of media devices should be supervised and based on their age and needs. The content being consumed on these devices is as important as the time spent on them. Previous studies have shown that having a lower socioeconomic status or a single parent increases the time children spend in front of a screen.[6-8] Furthermore, parents' education levels are associated with children's media use.[9]

Kaiser et al. demonstrated that household media behavior influences children's media habits.[6] Parents' media use plays an important role in child development and determines the quality of parent-child interactions. It has been suggested that high screen time among parents reduces parent-child interaction, which, in turn, negatively impacts children's talk time and, therefore, their language skills.[10,11] Furthermore, family media use reduces a child's attention period during play, even if they do not use media themselves.[12] Childhood is an important and valuable period of human life. Development during this period should be directed carefully to ensure a well-rounded future generation.

The aim of the study was to describe the screen media habits (e.g., age of introduction media, time spend with screen, popular choices) of preschool children in Kayseri, an Anatolian province in Turkey, and to explore their relationship with household characteristics.

POPULATION AND METHODS

This cross-sectional, descriptive study involved the parents of children aged 36–72 months who attended any childcare center in Kayseri. This study was conducted between April 2019 and May 2020 in Kayseri, a central Anatolian city in Turkey and it was approved by the ethics committee of the Erciyes University School of Medicine (2019/217). Educational preschool institutions in the province were divided into groups according to the regional culture and parents' income level (high, middle, or low socioeconomic levels). Schools were visited with the permissions from the Provincial Directorate of National Education. The researchers were two pediatricians who asked 1000 parents to participate in the questionnaire. Parents of children with physical disabilities, neuropsychiatric disorders or developmental disorders were excluded from the study. In total, 858 eligible parents agreed to participate in the study. All parents gave written informed consent for themselves and their children. Participants were not provided with a financial incentive to participate.

Questionnaire

A self-completion questionnaire containing a mixture of open-ended, dichotomous (yes/no), and multiple-choice questions was provided to the parents. Only the mother and/or father were asked to complete the questionnaire.

The questionnaire was organized by the researchers and comprised three parts. The first part involved questions on the sociodemographic characteristics of the participants. For example, parents' education and socioeconomic levels, number of siblings, and caregivers' education levels were assessed. Parents' monthly incomes were categorized into one of four groups based on values of the national poverty line (1500 Turkish Lira/TL) at the time of the study.The second part involved questions regarding the most popular media device among children (TV, smartphone, or computer/tablet), the most popular media device application, the age children were introduced to media devices, children's daily screen time, and the media habits of the parents. The third part included general health (e.g., sleep problems and body mass index) and reading habit questions.

Sample size

It had been previously determined that, in the research area, about 65% of children aged 36–72 months accessed the internet in their home environment.[13] The total number of children in childcare centers in the city center was provided by the Provincial Directorate of National Education (n = 26 500). Assuming an error level of 0.05, a power of 0.80, and a tolerance value of 0.05, the minimum sample size required for the study was calculated to be 698.

Statistical analysis

The normal distribution of the data was evaluated using the Shapiro-Wilk and Kolmogrow-Smirnov tests. Variance homogeneity was assessed using the Levene test. The binary comparison of quantitative variables was achieved via a Mann-Whitney U test and two independent samples t-tests. The Kruskal Wallis H test was used for comparisons between more than two groups. Pearson's χ2 (chi-square) analysis was used to compare categorical data. The Dunn-Bonferroni test was applied for multiple comparisons. The data were evaluated using the SPSS 25.0 program. The significance level was set as $p < 0.05$.

RESULTS

This study included 858 preschool children from different socioeconomic statuses. Their mean age was 66 months, and 52.8% were male. Regarding the children's caregivers when not at their childcare centers, 29% were cared for by their grandparents, 31% were cared for by a non-family caregiver, and the remaining 39% were cared for by their parents (mother and/or father) (*Table 1*).

In this study, 25% of children were introduced to media devices between the ages of 12–24 and 11% were introduced before the age of 12 months; a total of 36% of children started using media devices before the age of two. The proportion of children using screen media more than 2h/day was 28%. The most frequently used media device was television (95%). Children's program choices changed based on the media device used. The most popular programs across devices were cartoons for TV (86.7%), cartoons and videos for computers/tablets (38.5%) and games for smartphones (47.8%). Preferences and attitudes of children related with screen media are shown in *Table 2*.

The duration of TV and computer use differed significantly between genders; and it was longer in boys ($p = 0.005$ and $p = 0.001$, respectively) (*Table 3*). There was no association between the age media device use began and time spent on TVs, computers, and smartphones ($p = 0.370$, $p = 0.858$, $p = 0.777$, respectively). However, the screen time of children for television, computer and smart phone who shared reading books in the first 6 months was significantly shorter than children who shared reading books after 36 months ($p = 0.011$, $p = 0.009$, $p = 0.002$, respectively) (*Table 3*).

The duration of TV, computer and smart phone use was significantly shorter in the children of mothers with higher education (undergraduate) ($p = 0.012$, $p = 0.007$, $p < 0.01$, respectively). Similarly, duration of TV, computer and smart phone use was significantly shorter in fathers with higher education (undergraduate) ($p = 0.049$, $p = 0.032$, $p = 0.04$ respectively). As the education level of caregivers increased, the exposure time of children to TV and smartphone was shortened ($p = 0.017$, $p = 0.003$ respectively) (*Table 3*).

Mothers' employment statuses were associated with children's media habits. Children with stay-at-home mothers spent longer time on television and computer ($p = 0.001$, $p = 0.012$, respectively). In the high-income group, the duration of watching TV was significantly shorter than the group above the national poverty threshold ($p = 0.003$) and the duration of smart phone use decreased as the income level increased ($p = 0.001$).

Media devices exposure times were found to be similar in the group with and without sleep problems ($p = 0.097$, $p = 0.245$, $p = 0.259$ respectively for TVs, computers, and smartphones).

Especially the time spent by children on TVs was positively correlated with their parents' TV use ($p < 0.05$, $r = 0.354$). Parents' time spent on TV was weak positive correlated with the time spent by children on computers and smartphones ($p < 0.05$, $r = 0.074$; $p < 0.05$, $r = 0.198$ respectively). Furthermore, parents' time spent on internet was weak positive correlated with the time spent by children on TVs, computers, and smartphones ($p < 0.05$, $r = 0.087$; $p < 0.05$, $r = 0,141$; and $p < 0.05$, $r = 0.197$, respectively) (*Table 4*).

Children's screen time was not correlated with the age of their mothers ($p>0.05$, $p>0.05$, $p>0.05$ respectively). However, the time children spent on computers and smartphones increased as their fathers' age increased and there was a weak correlation ($p < 0.05$, $r = 0.141$; $p < 0.05$, $r = 0.197$, respectively) (*Table 4*).

DISCUSSION

In this study, the media device use habits of preschool children's aged 36–72 months and their association with parent', child care provider' and household characteristics' were examined.

The age that children are introduced to media devices is becoming increasingly younger.[14] The American Academy of Pediatrics (AAP) stated that 90% of children in the United States have

Table 1. Sociodemographic characteristics of participants

	N = 858	%
Sex/gender of children		
Female	405	47.2
Male	453	52.8
Age (months)		
36-47	38	4,4
48-60	132	15,3
61-72	688	80,1
Number of siblings		
0	151	17,6
1	491	57,2
2	181	21,1
≥3	35	4
Mother's age (year)		
21-30	186	21,6
31-40	603	70,2
41-50	69	8
Father's age (year)		
26-35	317	36,9
36-45	483	56,2
46-57	58	6,7
Main caregiver (except during school hours)		
Mother and/or father	336	39,1
Grandparent	252	29,3
Caregiver	270	31,4
Mother's education Level		
Primary	113	13,2
High school	266	31
Undergraduate	477	55,6
Else	2	0,2
Father's education level		
Primary	99	11,5
High school	242	28,2
Undergraduate	512	59,7
Else	5	0,6
Caregiver's education Level		
Primary	235	27,4
High school	285	33,2
Undergraduate	321	37,4
Else	17	2,0
Mother's employment status		
Employe	322	37,5
Housewife	536	62,5
Income per month		
Below the national poverty threshold (<1500 tl)	39	4,6
Above the national poverty threshold (1500-4500 tl)	398	46,4
Middle income (4500-10000 tl)	373	43,5
High income (>10000 tl)	48	5,6
Health problem		
No	783	91,3
Yes	75	8,7

Table 2. Media use features and preferences of children related with screen media

	N = 858	%
Time spent on TV (minutes)		
Not use	40	4,6
≤30	75	8,7
>30 - ≤120	499	58,1
>120 - ≤180	138	16,0
>180	106	12,3
Time spent on computer (minutes)		
Not use	368	42,8
≤30	133	15,5
>30 - ≤120	284	33,1
>120 - ≤180	40	4,6
>180	33	3,8
Time spent on smartphone (minutes)		
Not use	321	37,4
≤30	197	22,9
>30 - ≤120	290	33,7
>120 - ≤180	28	3,2
>180	22	2,5
Media introducing age (months)		
0-6	27	3,2
6-12	67	7,8
12-24	213	24,8
24-36	228	26,6
>36	323	37,6
Books introducing age (months)		
0-6	87	10,2
6-12	164	19,1
12-24	266	31
24-36	175	20,4
>36	166	19,3
Most popular choice on TV		
Cartoons	744	86,7
Advertisement	5	0,6
Music programm	11	1,3
TV series	74	8,6
Else	24	2,8
Most popular choice on PC/tablet		
Games	262	30,5
Cartoons	330	38,5
Internet surfing	50	5,8
Music	20	2,4
Else	196	22,8
Most popular choice on smartphone		
Games	410	47,8
Taking photos	111	12,9
Music	37	4,3
Internet surfing	83	9,7
Else	217	25,3

already begun watching TV by the age of 2.[15] Similarly, a Korean study found that most children begin to use TV and smartphone devices before the age of 2.[2] In the current study, 25% of children were introduced to media devices between the ages of 12–24, with approximately 11% introduced before the age of 12 months.

The AAP recommends that parents start daily shared reading with their children in early infancy (as young as 6 months) and continue until school entry age to support children's social-emotional, language, and early literacy skill development.[16]

Table 3. Relationship between children's time spent with TV, computer, smartphone, and other variables

Variables	TV N = 818		Computer N = 490		Smartphone N = 537	
	Time spent on (min)	p value	Time spent on (min)	p value	Time spent on (min)	p value
Gender						
Male	120 (60-180)	0.005*	60 (30-120)	0.001*	60 (30-110)	0.151
Female	120 (60-150)		60 (30-105)		60 (30-60)	
Media introducing age (months)						
0-6	60 (60-97.5)	0.370	90 (30-170)	0.858	60 (40-90)	0.777
6-12	120 (60-180)		60 (60-120)		60 (30-60)	
12-24	120 (60-180)		60 (30-120)		60 (30-60)	
24-36	120 (60-150)		60 (30-120)		60 (30-90)	
>36	120 (60-150)		60 (30-120)		60 (30-90)	
Age of start reading books (months)						
0-6	85 (60-120)[a]	0.011**	60 (30-75)[a]	0.009**	30(20-60)[a]	0.002**
6-12	120 (60-180)		60 (30-120)		60 (30-60)	
12-24	120 (60-150)		60 (30-120)		60 (30-60)	
24-36	120 (60-180)		60 (60-120)		60 (30-120)	
>36	120 (60-180)[b]		60 (60-120)[b]		60 (30-120)[b]	
Mothers' education level						
Primary	120 (60-180)[a]	0.012**	60 (37.5-150)	0.007**	60 (30-120)[a]	<0.01**
High school	120 (60-180)		60 (55-120)[a]		60 (30-120)	
Undergraduate	120 (60-150)[b]		60 (30-120)[b]		60 (30-60)[b]	
Mothers'employment status						
Employe	90 (60-120)	0.001*	60 (30-97.5)	0.012*	60 (30-60)	0.195
Housewife	120 (60-180)		60 (30-120)		60 (30-70)	
Fathers'education level						
Primary	120 (60-180)[a]	0.049**	75(60-120)[a]	0.032**	60 (50-120)[a]	0.04**
High school	120 (60-180)		60 (30-120)		60 (30-120)	
Undergraduate	120 (60-150)[b]		60 (30-120)[b]		60 (30-60)[b]	
Caregivers' education level						
Primary	120 (60-180)[a]	0.017**	60 (30-120)	0.077	60 (30-120)[a]	0.003**
High school	120 (60-150)		60 (30-120)		60 (30-90)	
Undergraduate	120 (60-130)[b]		60 (30-120)		60 (30-60)[b]	
Monthly household income						
Below the national poverty threshold	60 (60-120)	0.003**	60 (30-160)	0.07	60 (30-120)	0.001**
Above the national poverty threshold	120 (60-180)[a]		60 (60-120)		60 (30-120)[a]	
Middle income	120 (60-150)		60 (30-120)		60 (30-60)[b]	
High income	90 (60-120)[b]		60 (30-120)		40 (15-60)	
Sleep problems						
No	120 (60-150)	0.097	90 (30-120)	0.245	60 (30-80)	0.259
Yes	120 (60-180)		90 (40-120)		60 (30-120)	

Values are expressed as median (1st-3rd quartiles).
**Mann Whitney test, statistically significant P value < 0.05 ** Kruskal Wallis H test, statistically significant p value < 0.05.*
Different superscripts (a, b) in a same column indicate statistically significant difference among groups.

Table 4. Relationship between children's time spent with TV, computer, smartphone, and other variables

Variables	Time spent on TV	Time spent on computer	Time spent on smartphone
Parent's time spent on TV	r = 0.354 **p <0.05**	r = 0.074 **p <0.05**	r = 0.198 **p <0.05**
Parent's time spent on internet	r = 0.087 **p <0.05**	r = 0,141 **p <0.05**	r = 0.197 **p <0.05**
Mother age	r = 0.038 p >0.05	r = 0.006 p >0.05	r = 0.040 p >0.05
Father age	r = -0.005 p >0.05	r = 0.077 **p <0.05**	r = 0.089 **p <0.05**
Body mass index (BMI)	r = -0.087 **p = 0.044**	r = 0.024 p >0.05	r = -0.005 p >0.05

This study has shown that children's screen time significantly shorter who shared reading books in the early months. For this reason, shared reading with the children in early infancy may also associated with screen time and managing media habits. There were studies demonstrated that relationship between screen use and reading habits of children and parents.[17,18]

In this study male children were found spend more time watching TV and computer. But a few studies have shown that media behaviors are similar by gender.[19]

The results of the current study demonstrated that parents' education levels related the time spent on media devices significantly. The duration of TV, computer and smartphone use was shorter in the children of mothers and fathers with higher education (undergraduate). This is in line with the findings of previous studies.[6,8,20,21] Furthermore, the education levels of non-parental caregivers also influenced children's media device behaviors. Consequently, high education level may affect parental awareness of their children's media habits.

Previous studies have reported different results regarding the impact of family income on children's media device use.[9,22] One study found that both the duration of use and content of media devices differed based on a family's income. Children from high-income families preferred educational programs, while children from low-income families preferred entertainment programs.[23] Our study has shown that TV and smartphone use time shorter in the high-income group.

Previous studies have demonstrated that parents' media behaviors affect those of children.[6] Children in families with serious media addictions read less.[6,24] According to the current study, children's media device use time was correlated with the time spent by their parents on media devices, which is in line with the findings of other studies.[11] Furthermore, previous studies have shown that as the time spent by parents' on media devices increases, the time spent paying attention to their children decreases, which consequently impacts the number of parent-child interactions.[10,11]

It is well-known that prolonged media device use has harmful effects on young children, even educational programs.[4,21] While these effects differ based on the time spent on media devices and the content consumed,[21] content is known to have several harmful effects on children, as they can be impacted by rapidly changing features, such as music and animation.[25] Excessive media use impacts children's language skills, sleep behaviors, cognitive development, weight, and attention span.[5] Media devices exposure times were found to be similar in the group with and without sleep problems in our study. In this study, families were asked whether their children had sleep problems and to explain the situation they defined as sleep problems. Most parents complained that their children were going to bed at late hours. However, this situation described as a sleep problem was based only on parental discourse and it was subjective. Due to the method used in our study, it cannot be said whether there is a clear relationship between screen time and sleep problems.

However, no correlation was found between BMI and media device use, which was consistent with the results of an earlier review.[20] This may

be due to the more physically active nature of preschool-age children.

Children's media behaviors were not associated with their mothers' age; however, as the age of their father increased, children's screen time increased, particularly on computers and smartphones. Therefore, while mothers' awareness of media device use may be independent of age, younger fathers may be more aware of this use.

There were some limitations in this study. One of the limitations is that the questionnaire used for data collection is unvalidated. While there are questionnaires available for evaluating media use among older children, they were not suitable for the age range assessed in the current study. Other limitation is the data were obtained through a survey file; it can be affected by the remembering factor of parents. However, due to the importance of studying media use among children aged 36–72 months and the wide socioeconomic distribution of families included in the study, the study sample is considered a good indicator of the wider population. Future studies should look to develop an age-appropriate scale to evaluate media use in this age range or conduct a longitudinal survey to follow changes in the media device behaviors of children.

In conclusion, it was observed that parental education levels, caregiver education levels, the age of starting to read books and parental TV/internet usage times were associated with screen media times of children. Children with parents and caregivers with higher levels of education and children with an early reading age spent less time on TV, computer and phone. In addition, as parents' TV and internet usage time increased, children's screen media usage time increased as well. As a result, raising the awareness of parents/caregivers about media attitudes and introduce children to reading at an early age is important for children to acquire the healthy media habits. ■

Acknowledgments

The authors thank Dr. Maruf Göğebakan for his contributions to the statistical analyses.

REFERENCES

1. Reid Chassiakos YL, Radesky J, Christakis D, Moreno MA, Cross C; COUNCIL ON COMMUNICATIONS AND MEDIA. Children and Adolescents and Digital Media. *Pediatrics.* 2016;138(5):e20162593.
2. Chang H, Park E, Yoo H, Lee J, Shin Y. Electronic Media Exposure and Use among Toddlers. *Psychiatry Investig.* 2018;15(6):568-73.
3. Christakis DA. The Effects of Infant Media Usage: What Do We Know and What Should We Learn? *Acta Paediatr.* 2009;98(1):8-16.
4. Council on Communications and Media. Media Use in School-Aged Children and Adolescents. *Pediatrics.* 2016;138(5):e20162592.
5. Owens J, Maxim R, McGuinn M, Nobile C, et al. Television-Viewing Habits and Sleep Disturbance in School Children. *Pediatrics.* 1999;104(3):e27.
6. Rideout VJ, Hamel E. The Media Family: Electronic Media in the Lives of Infants, Toddlers, Preschoolers and Their Parents. Menlo Park, CA: Kaiser Family Foundation; 2006.
7. Mistry KB, Minkovitz CS, Strobino DM, Borzekowski DL. Children's television exposure and behavioral and social outcomes at 5.5 years: does timing of exposure matter? *Pediatrics.* 2007;120(4):762-9.
8. Certain LK, Kahn RS. Prevalence, correlates and trajectory of television viewing among infants and toddlers. *Pediatrics.* 2002;109(4):634-42.
9. Anand S, Krosnick JA. Demographic predictors of media use among infants, toddlers and preschoolers. *Am Behav Sci.* 2005;48(5):539-61.
10. Anderson DR, Evans MK. Peril and Potential of Media for Infants and Toddlers. *Zero Three*. 2001;22:10-6.
11. Kirkorian HL, Pempek TA, Murphy LA, Schmidt ME, Anderson DR. The impact of background television on parent-child interaction. *Child Dev*. 2009;80(5):1350-9.
12. Schmidt ME, Pempek TA, Kirkorian HL, Lund AF, Anderson DR. The effects of background television on the toy play behavior of very young children. *Child Dev*. 2008;79(4):1137-51.
13. Gündoğdu Z, Seytepe Ö, Pelit BM, Doğru H, et al. Media use by preschool-aged children. *Kocaeli* Üniversitesi *Sağlık Bilimleri Dergisi.* 2016;2(2):6-10.
14. Livingstone S, Marsh J, Plowman L, Ottovordemgentschenfelde S, Fletcher-Watson B. Young Children (0-8) and Digital Technology: a qualitative exploratory study – national report - UK. London: London School of Economics and Political Science; 2014.
15. Media Education. American Academy of Pediatrics. Committee on Public Education. *Pediatrics.* 1999;104(2 Pt 1):341-3.
16. Council on Early Childhood, High PC, Klass P. Literacy promotion: an essential component of primary care pediatric practice. *Pediatrics*. 2014;134(2):404-9.
17. Sarı E, Ayhan Başer D, Yalcin SS. Father's reading beliefs and child's media usage habits. *Int J Environ Health Res.* 2023;12:1-13.
18. McArthur BA, Browne D, McDonald S, Tough S, Madigan S. Longitudinal associations between screen use and reading in preschool-aged children. *Pediatrics.* 2021;147(6):e2020011429.
19. Lee DY, Roh HW, Kim SJ, Park EJ, et al. Trends in digital media use in Korean preschool children. *J Korean Med Sci.* 2019;34(41):e263.
20. Paudel S, Jancey J, Subedi N, Leavy J. Correlates of mobile screen media use among children aged 0-8: a systematic review. *BMJ Open*. 2017;7(10):e014585.
21. Hosokawa R, Katsura T. Association between mobile technology use and child adjustment in early elementary school age. *PLoS One.* 2018;13(7):e0199959.
22. Vandewater EA, Rideout VJ, Wartella EA, Huang X, et al. Digital childhood: electronic media and technology use among infants, toddlers, and preschoolers. *Pediatrics.* 2007;119(5):e1006-15.
23. Rideout V. Zero to Eight: Children's Media Use in America. San Francisco, CA: Common Sense Media; 2013.
24. Vandewater EA, Bickham DS, Lee JH, Cummings HM, et al. When the television is always on: heavy television

exposure and young children's development. *Am Behav Sci.* 2005;48(5):562-77.
25. Sigmundová D, Sigmund E, Badura P, Vokáčová J, et al. Weekday- weekend patterns of physical activity and screen time in parents and their pre-schoolers. *BMC Public Health*. 2016;16(1):898.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310204

Encuesta nacional para pediatras de Argentina: vacunación en la práctica diaria, percepción de conocimientos y barreras

Ángela Gentile[a,b], *Vanesa E. Castellano*[a,b], *María del V. Juárez*[a,b], *Sofía Diana Menéndez*[a,b], *Juan I. Degiuseppe*[a,c], *María F. Lución*[a,b], *Rodolfo P. Moreno*[a]

RESUMEN

Introducción. El descenso de las coberturas de vacunación fue muy significativo en la última década. Los pediatras son una pieza fundamental para recuperar coberturas y aumentar la confianza en la vacunación.

Objetivos. Describir la percepción de los pediatras acerca del conocimiento y prácticas sobre vacunas, e identificar barreras en el acceso.

Métodos. Estudio analítico observacional, mediante encuesta en línea. Se incluyeron variables del perfil del profesional, capacitación y barreras en inmunizaciones.

Resultados. Participaron 1696 pediatras (tasa de respuesta: 10,7 %), media de 50,4 años. El 78,7 % fueron mujeres. El 78,2 % contaba con ≥10 años de ejercicio profesional. El 78,4 % realizaba atención ambulatoria y el 56,0 % en el subsector privado. El 72,5 % realizó una capacitación en los últimos 2 años.

Se manifestaron "capacitados" para transmitir a sus pacientes los beneficios de las vacunas: 97,2 %; objetivos de campañas: 87,7 %; contraindicaciones: 82,4 %; efectos adversos: 78,9 %; recupero de esquemas: 71,2 %; notificación de ESAVI: 59,5 %. La proporción fue estadísticamente superior, en todos los aspectos, en pediatras con ≥10 años de ejercicio y en aquellos con capacitación reciente ($p \leq 0,01$).

Barreras identificadas en el acceso a la vacunación: falsas contraindicaciones (62,3 %); falta temporaria de vacunas (46,4 %); motivos culturales (41,4 %); horario restringido del vacunatorio (40,6 %).

Conclusiones. La percepción del grado de capacitación fue variable según el aspecto de la vacunación. Aquellos con mayor tiempo de ejercicio profesional y con actualización reciente se manifestaron con mayor grado de capacidad. Se identificaron múltiples barreras frecuentes asociadas al acceso en la vacunación.

Palabras clave: *cobertura de vacunación; pediatras; esquemas de inmunización; barreras de acceso a los servicios de salud; encuestas y cuestionarios.*

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10204
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10204.eng

Cómo citar: Gentile Á, Castellano VE, Juárez MV, Diana Menéndez S, et al. Encuesta nacional para pediatras de Argentina: vacunación en la práctica diaria, percepción de conocimientos y barreras. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310204.

[a] *Observatorio de la infancia y la adolescencia. Sociedad Argentina de Pediatría, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina;* [b] *División Promoción y Protección de la Salud, Área Epidemiología, Hospital General de Niños Ricardo Gutiérrez, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina;* [c] *Departamento de Virología, Instituto Nacional de Enfermedades Infecciosas (INEI-ANLIS Dr. Carlos G. Malbrán), Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.*

Correspondencia para *Vanesa Castellano: vane0108@hotmail.com*

Financiamiento: *Ninguno.*

Conflicto de intereses*: Ninguno que declarar.*

Recibido*: 28-8-2023*
Aceptado*: 18-11-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

INTRODUCCIÓN

Las vacunas constituyen una de las medidas sanitarias más beneficiosas para la humanidad al prevenir enfermedades que antes causaban grandes epidemias, muertes y secuelas.[1]

El impacto negativo de la pandemia por SARS-CoV-2 sobre las coberturas de vacunas incluidas en el Calendario Nacional fue significativo en toda la población, y especialmente en los niños. En el año 2020, se registró un descenso promedio de 10 puntos en las coberturas nacionales de vacunación de todas las vacunas respecto a la media del período entre los años 2015 y 2019, en el cual ya se registraba un descenso de las coberturas.[2,3] Durante el año 2021, se observó una leve recuperación en todos los grupos etarios, pero sin alcanzar niveles prepandémicos, por lo cual las coberturas no permiten alcanzar el objetivo de inmunidad colectiva o "efecto rebaño".[4]

La causa de la caída de las coberturas de vacunación es multifactorial. Entre algunos factores, se destacan los vinculados al acceso, la disminución de las consultas médicas que posibiliten la indicación de las vacunas, las falsas contraindicaciones, el desconocimiento o baja percepción de riesgo por parte de la población. También, se identifican factores vinculados a la falta de confianza no solo en las vacunas, sino también en el sistema de salud.[2]

El objetivo de este estudio fue describir la percepción de los pediatras acerca de sus conocimientos y prácticas sobre vacunas en la atención de los pacientes, e identificar las barreras que consideran que se presentan en el acceso a la vacunación en Argentina.

MÉTODOS

Se realizó un estudio analítico, observacional, de corte transversal, mediante un cuestionario autoadministrado en línea. La población incluyó a médicos pediatras que fuesen miembros de la Sociedad Argentina de Pediatría (SAP). Se excluyeron aquellos que no se encontraban desempeñando activamente tareas asistenciales. El cuestionario fue distribuido en formato digital a través del correo electrónico oficial de la SAP.

Se registraron variables relacionadas con el perfil del pediatra, como datos demográficos (edad, sexo, residencia), años de ejercicio profesional, subespecialidad, zona de atención (urbana, rural y/o semirrural), principal tipo de atención que desempeñaba (ambulatoria, guardia y/o internación) y subsector de salud en el cual trabajaba (público y/o privado). Se indagó sobre actitudes relacionadas a la capacitación en inmunizaciones: fuente de información utilizada para actualización, tiempo transcurrido desde la última actualización formal, existencia de fuentes para recibir información actualizada con respecto a campañas específicas y coberturas de vacunación de la región/filial a la que pertenece.

También fueron consultados sobre la disponibilidad de un referente de consulta en materia de inmunizaciones, la percepción de su capacidad para explicar a los pacientes y sus familias los distintos temas relacionados a la vacunación: beneficios, contraindicaciones, potenciales efectos adversos de las vacunas, notificación de eventos supuestamente atribuibles a la vacunación e inmunización (ESAVI), recupero de esquemas y objetivos de las campañas de vacunación específicas.

Otros aspectos indagados sobre la práctica diaria incluyeron el hábito para revisar constancias de vacunación de los diferentes integrantes de la familia y las dificultades que se presentaban en relación con el tiempo de consulta y la lectura de carnets. Finalmente, se exploró la percepción sobre las potenciales barreras en inmunizaciones. Estas fueron clasificadas de acuerdo a su relación con el centro de vacunación, con la capacitación de este y con las familias.

Validación del cuestionario

El cuestionario fue confeccionado mediante la herramienta REDCap.[5] La validación de forma del cuestionario se realizó a través de una muestra de 5 pediatras, directores de región SAP, para asegurar que fuera comprensible, relevante y apropiado para los participantes del estudio. Posteriormente, se llevó a cabo un análisis de confiabilidad (mediante test-retest) con 20 pediatras que respondieron 2 veces el cuestionario, con una semana de diferencia, para evaluar el grado de correlación y estabilidad de cada ítem.

En el *Anexo* se detalla la versión definitiva de la encuesta (*Material suplementario*).

Análisis de datos

Se describieron las variables continuas con media y desviación estándar (DE), y las categóricas, con frecuencia e intervalos de confianza del 95 % (IC95%) de los datos relevados. Por otra parte, se analizaron las siguientes asociaciones mediante el análisis del *odds-ratio* (OR) con sus intervalos de confianza

(IC95%): I) Perfil del pediatra y tiempo de la última actualización en vacunas; II) perfil del pediatra y la percepción de capacidad para explicar aspectos de las vacunas y uso de tiempo en consulta; III) tiempo desde la última actualización en inmunizaciones y la percepción de capacidad para explicar aspectos de las vacunas.

Se evaluaron posibles factores de confusión mediante regresión logística múltiple.

Los datos fueron analizados con el paquete estadístico STATA versión 14.

El estudio fue aprobado por el Comité de Ética en Investigación y el Comité de Docencia e Investigación del Hospital General de Niños Ricardo Gutiérrez (N.º de PRIISA: 7532).

RESULTADOS

Entre octubre y diciembre del año 2022, se envió a 16 334 pediatras el cuestionario por medio del correo electrónico de difusión de noticias de la SAP. Respondieron un total de 1746 (tasa de respuesta: 10,7 %), de los cuales se excluyeron 50 sujetos (22 no se encontraban trabajando activamente y 28 no ejercían de manera asistencial); por lo tanto, se analizaron 1696 encuestas.

El 45,2 % de los encuestados pertenecía a la región metropolitana; el 78,4 % realizaba principalmente atención ambulatoria y en el subsector privado (56,0 %). El 78,6 % de los encuestados tenían 10 años o más de ejercicio profesional (*Tabla 1*).

Tabla 1. Características demográficas y profesionales (N = 1696)

Edad		Media 50,4 (DE 15,2)
Sexo	Femenino	1325 (78,7)
	Masculino	357 (21,2)
	Prefiere no responder	1 (0,1)
Años de ejercicio como pediatra	Menos de 5 años	174 (10,3)
	5-9 años	186 (11,1)
	10-20 años	444 (26,4)
	Más de 20 años	878 (52,2)
Región SAP de atención	Región Metropolitana	761 (45,2)
	Región Centro Cuyo	247 (14,7)
	Región Litoral	210 (12,4)
	Región Noroeste	120 (7,1)
	Región Pampeana Sur	109 (6,5)
	Región Noreste	81 (4,8)
	Región Pampeana Norte	56 (3,3)
	Región Patagónica Atlántica	52 (3,1)
	Región Patagónica Andina	49 (2,9)
Principal zona de atención*	Urbana	1609 (94,9)
	Semirrural	129 (7,6)
	Rural	35 (2,1)
Subespecialidad	Sí ¨	476 (28,4)
	No	1198 (71,6)
Sector principal del sistema de atención en que se desempeña	Atención ambulatoria privada, obras sociales y prepagas	856 (50,8)
	Atención ambulatoria pública	466 (27,6)
	Guardia ámbito público	131 (7,8)
	Internación pública	131 (7,8)
	Guardia ámbito privado, obras sociales y prepagas	58 (3,4)
	Internación privada, obras sociales y prepagas	31 (1,8)
	Otras	13 (0,8)

Los resultados están expresados en N (%)

**Multirrespuesta.*

¨361 (77 %) realizaban ambos tipos de atención; 65 (13,9 %) atendían solo la subespecialidad y 43 (9,2 %) atendían solo clínica pediátrica.

DE: desviación estándar.

N: número.

En la *Tabla 2*, se detallan los aspectos relacionados a las fuentes de información y actualizaciones sobre inmunizaciones.

Cuando se indagó acerca de la posibilidad de consultar dudas de vacunas, el 22,9 % (n = 384) contestó que carecía de referente. De aquellos que sí disponían de uno, el 56,9 % (n = 965) respondió que se trataba mayormente de un colega; el 26,1 % (n = 442), que se trataba del vacunador o la vacunadora, y el 8,8 % (n = 136), que se trataba de otros.

En el análisis, tener 10 o más años de ejercicio profesional se asoció significativamente con haber realizado una capacitación formal

Tabla 2. Fuentes de información y actualizaciones en inmunizaciones

Pregunta	Ítems	N (%)
¿Qué fuente/s utiliza para buscar información actualizada en vacunas? *	Guías de recomendación o consensos (organismos internacionales, sociedades científicas, normas hospitalarias, recomendaciones ministeriales)	1346 (79,4)
	Otras actualizaciones (PRONAP, Up to Date, Medscape, etc.)	1030 (60,7)
	Curso sobre inmunizaciones	964 (56,8)
	Congresos y/o jornadas científicas	819 (48,3)
	Recomendaciones de colegas y especialistas	342 (20,2)
	Trabajos originales (publicaciones en revistas científicas)	269 (15,8)
	Recomendaciones de agentes de propaganda médica de la industria farmacéutica	128 (7,5)
	Otra	18 (1,1)
	Ninguna	2 (0,1)
¿Cuándo realizó la última actualización formal sobre temas relacionados a la vacunación del Calendario Nacional oficial (excluya capacitación en vacunas COVID-19)?	En el último año	806 (48)
	Entre 1 y 2 años	412 (24,5)
	Entre 2 y 5 años	298 (17,7)
	Más de 5 años	104 (6,2)
	Nunca realicé una actualización en el tema	23 (1,4)
	No recuerdo	38 (2,3)
¿Recibe información actualizada con respecto a campañas de vacunación específicas?	Sí	1533 (91,7)
	No	138 (8,3)
¿De qué forma recibe información actualizada? *	Correos electrónicos de la Sociedad Argentina de Pediatría	1353 (79,8)
	Correos electrónicos de Ministerios de Salud y/o áreas de epidemiología de su jurisdicción	828 (48,8)
	Mensajes de WhatsApp enviados por compañeros de trabajo/colegas	478 (28,2)
	Videoconferencias/webinar	369 (21,8)
	Correos electrónicos de servicios de vacunación de su lugar de trabajo/centros de vacunación privados	366 (21,6)
	Redes sociales	338 (19,9)
	Correos electrónicos de otras sociedades científicas	313 (18,5)
	Otra	17 (1)
¿Considera que obtiene información actualizada y oportuna con respecto a las coberturas de vacunación de la región donde ejerce?	Sí	1259 (74,8)
	No	424 (25,2)
¿De qué forma obtiene información actualizada sobre coberturas? Puede marcar más de una opción.	Informes de la Sociedad Argentina de Pediatría	1075 (63,4)
	Informes de Ministerios de Salud y/o áreas de epidemiología de su jurisdicción	851 (50,2)
	En su lugar de trabajo	396 (23,4)
	Informes de otras sociedades científicas	246 (14,5)
	Organismos internacionales (OMS, OPS, UNICEF, etc.)	204 (12)
	Otra	21 (1,2)

**Posibilidad de multirrespuesta.*
OMS: Organización Mundial de la Salud.
OPS: Organización Panamericana de la Salud.

en vacunas en los últimos 2 años (OR = 1,3; *p* = 0,04). No se encontraron diferencias entre los años de ejercicio profesional y las áreas y/o sectores de trabajo. Tampoco se observaron diferencias significativas entre el subsector (*p* = 0,7) y el tipo de atención (*p* = 0,13) que realizaban, y tener algún referente de consulta en vacunas.

En la *Figura 1* se describe el grado de capacitación autopercibida de los pediatras encuestados acerca de diferentes aspectos de la vacunación.

Tener 10 o más años de ejercicio profesional o haber recibido una actualización reciente resultaron predictores independientes (*p* ≤ 0,01) de percibirse más capacitados en todos los aspectos de la práctica de vacunación. En la *Tabla 3* se describen las asociaciones.

De la población encuestada, el 54,0 % (n = 911) refirió preguntar acerca de los esquemas de vacunación de otros integrantes de la familia. Por otra parte, el 37,5 % (n = 632) lo hacía en algunas ocasiones y el 8,5 % (n = 143) no lo hacía. Principalmente consultaban por hermanos (n = 837, 49,4 %), personas gestantes (n = 585, 34,5 %), cuidadores (n = 580, 34,2 %), convivientes inmunosuprimidos (n = 571, 33,7 %) y adultos mayores (n = 386, 22,8 %).

El 43,8 % (n = 735) consideró insuficiente el tiempo de consulta para poder verificar el estado de vacunación de sus pacientes. Respecto al cumplimiento de la indicación de vacunación en una consulta previa, el 82,2 % (n = 1382) contestó que controlaba siempre que se hubiera efectivizado; el 17,3 % (n = 291) refirió que lo hacía dependiendo del motivo de consulta, y el 0,5 % (n = 8) no controlaba posteriormente la aplicación.

Los pediatras con 10 años o más de ejercicio profesional refirieron en mayor proporción que consultaban sobre los esquemas de vacunación de la familia (OR = 2,8; *p* <0,01), que controlaban siempre las indicaciones de vacunas en próximas consultas (OR = 1,4; *p* = 0,01) y que consideraban

Figura 1. Percepción de capacitación del pediatra para el abordaje de temas relacionados a la vacunación

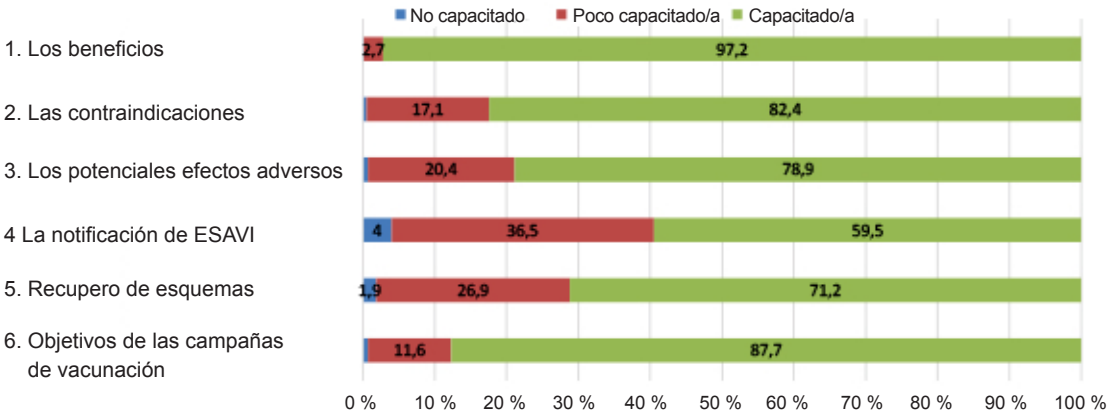


Tabla 3. Asociación* entre años de ejercicio y actualización con percepción de capacidad

Capacitados en	Años de ejercicio N (%)		OR (IC95%)	Actualización en los últimos 2 años N (%)		OR (IC95%)
	≥ 10 años	< 10 años		Sí	No	
Beneficios	1291 (97,7)	341 (95,3)	**2,1 (1,1-4,1)**	1215 (98,27)	437 (94,4)	**3,4 (1,8-6,4)**
Contraindicaciones	1134 (86,4)	241 (67,5)	**3,1 (2,3-4)**	1057 (87,4)	317 (69,1)	**3,1 (2,4-4,0)**
Efectos adversos	1089 (83,2)	225 (63)	**2,9 (2,2-3,8)**	1002 (83,1)	311 (67,8)	**2,3 (1,8-3,0)**
Notificación de ESAVI	859 (65,2)	137 (38,5)	**3 (2,3-3,8)**	784 (64,7)	209 (45,4)	**2,2 (1,8-2,8)**
Recupero de esquemas	1028 (78,1)	163 (45,7)	**4,2 (3,3-5,5)**	935 (77,1)	255 (55,4)	**2,7 (2,1-3,4)**
Objetivos de campañas	1191 (90,8)	273 (76,5)	**3 (2,2-4,2)**	1106 (91,5)	357 (77,8)	**3,1 (2,2-4,2)**

**No se observó efecto confundidor en el modelo de regresión logística múltiple.*
N: número.
ESAVI: eventos supuestamente atribuibles a la vacunación o inmunización.

suficiente el tiempo de consulta para las vacunas (OR = 2,2; *p* <0,01).

El 88,7 % (n = 1504) de los encuestados refirió tener una o más dificultades para la lectura de los certificados. Las principales dificultades fueron los múltiples registros/carnets/documentos por paciente para verificar las dosis recibidas, los carnets dañados y/o lectura ilegible, las diferencias en los formatos de los carnets de vacunas y las dificultades para reconocer la vacuna por la forma de registros (*Tabla 4*).

Se identificaron como las principales barreras en el acceso a la vacunación: falsas contraindicaciones (62,3 %); falta temporaria de vacunas (46,4 %); motivos culturales (41,4 %); horario restringido del vacunatorio (40,6 %) (*Figura 2*).

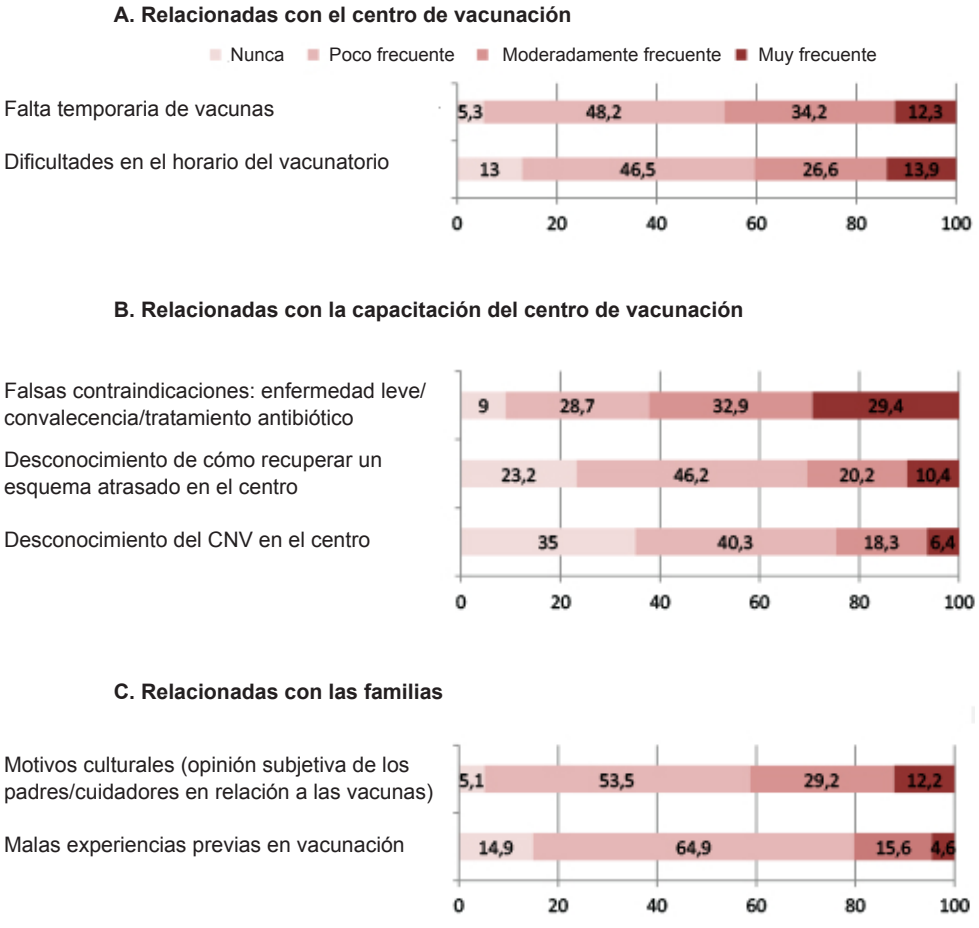
Tabla 4. Dificultades en la lectura de carnets de vacunación

¿Qué dificultades encuentra para la lectura del/de los carnet/s de vacunación durante la consulta?* (N = 1696)	Múltiples registros/carnets/documentos por paciente para verificar las dosis recibidas	1034 (61 %)
	Carnets dañados y/o lectura Ilegible	1013 (59,7 %)
	Diferencias en los formatos de los carnets de vacunas	815 (48,1 %)
	Dificultades para reconocer la vacuna por la forma de registros (marca, nombre genérico, laboratorio, etc.)	754 (44,5 %)
	No encuentra dificultades	192 (11,3 %)
	Otra**	30 (1,8 %)*

Posibilidad de multirrespuesta.

*** No traen el carnet a la consulta (n = 12), carnets extranjeros (n = 3), pérdida de carnet (n = 3), sin espacio (n = 3), otras (n = 9).*

Figura 2. Barreras percibidas en el acceso a la vacunación



CNV: Calendario Nacional de Vacunación.

DISCUSIÓN

Este estudio permitió evaluar distintos aspectos relacionados con los saberes, actitudes y prácticas cotidianas de los pediatras con respecto a las inmunizaciones.

La mayoría de los encuestados fueron mujeres, de 50 años de edad y más de 10 años de ejercicio profesional. Las áreas principales de desempeño fueron el sector ambulatorio y algo más de la mitad correspondieron al subsector privado. Este perfil profesional coincide con estudios previos realizados en la misma población objetivo, al igual que la distribución regional de los encuestados; la mayor proporción de encuestados corresponde a la región metropolitana de la SAP.[6]

Los programas de inmunizaciones de la región, el desarrollo de nuevas vacunas y la posibilidad de incorporarlas al calendario son dinámicos y representan un desafío para los profesionales.[7] En este contexto, observamos que gran parte de los pediatras encuestados refirió contar con un referente profesional para consultas y, en su mayoría, fueron colegas. En cuanto a la fuente de información sobre vacunas, las guías de recomendación o consensos, y la recepción de correos de la SAP fueron las principales fuentes de consulta y de recepción de información sobre campañas de vacunación, respectivamente. Esto resalta la importancia del rol de las sociedades científicas en la elaboración y difusión de los distintos documentos científicos, y concretamente en Argentina marca el rol de la SAP en la capacitación y educación continua de los pediatras.[8,9] Adicionalmente, la gran mayoría se actualizó formalmente en vacunas en los últimos 2 años, lo que implica la necesidad de educación continua, como una herramienta fundamental.

En cuanto a la disponibilidad de datos de coberturas de vacunación a nivel local, la mayoría refirió no contar con esta información en forma oportuna. Esto podría ser una barrera para la implementación de estrategias en los niveles locales.

Es de destacar que en Latinoamérica las vacunas cuentan con altos niveles de aceptación y confianza por parte de la población, en comparación con otras partes del mundo. Sin embargo, la población general manifiesta más dudas respecto de la seguridad de las vacunas que de su efectividad.[10] En nuestro estudio, cuando se evaluó la percepción sobre las habilidades para abordar aspectos de inmunizaciones para los temas vinculados a la seguridad, los pediatras manifestaron sentirse "*poco capacitados*" en un porcentaje considerable de varios de los temas consultados. Esta condición podría implicar un abordaje inadecuado en la consulta pediátrica para estos aspectos, considerando que los profesionales cumplen un rol clave para generar confianza en las familias acerca de las vacunas.[11,12]

Por otro lado, casi un 30 % de los encuestados refirió estar "*poco capacitado*" sobre el recupero de esquemas atrasados, lo cual resalta una vez más la importancia de la capacitación en este escenario de bajas coberturas de vacunación.[13]

Cabe destacar que se observó una asociación significativa entre mayor percepción de capacidad para todos los ítems indagados y los años de ejercicio profesional, como también con la actualización reciente en vacunas. En cuanto a los pediatras con mayor cantidad de años de ejercicio profesional, es probable que, además de la experiencia, otros factores puedan estar influenciando este resultado, como por ejemplo, la percepción de riesgo de enfermedades inmunoprevenibles que fueron frecuentes y/o graves décadas atrás (brotes de meningitis, sarampión y enfermedades invasivas por bacterias capsuladas).[14-16] También se observó que este mismo grupo presentó diferencias en la práctica diaria respecto a los más jóvenes, con mayores acciones frente a la vacunación de la familia y el control de los certificados. Este hallazgo marca la importancia de dirigir la capacitación en vacunas con herramientas novedosas y adaptadas a este grupo joven de profesionales. Recuperar la visión holística por parte del pediatra considerando al paciente y su familia es fundamental para poder alcanzar el objetivo de obtener altas coberturas de vacunación en la población.

En este estudio, también se destaca la dificultad percibida por los pediatras en relación con la lectura de los certificados de vacunación. En este sentido, la implementación del registro nominal electrónico de vacunación de todas las personas es fundamental para poder asegurar la calidad, oportunidad y disponibilidad del dato tanto para los pediatras como para los pacientes y sus familias.[17,18]

Por otro lado, se identificaron barreras frecuentes para la vacunación vinculadas al centro de vacunación, al personal de salud y a las familias, lo que demuestra, al igual que otros estudios,[19] que múltiples causas están asociadas

a las bajas coberturas de vacunación y que su abordaje debe ser amplio.

Nuestro estudio presenta algunas limitaciones. En primer lugar, se ha realizado solamente en afiliados de la SAP, lo que podría no ser representativo de la totalidad de los pediatras argentinos y otros profesionales que están involucrados en las inmunizaciones de los niños, niñas y adolescentes, como médicos de familia y enfermeros. Por otra parte, la tasa de respuesta de este estudio fue cercana al 11 %, lo que puede afectar la representatividad de la muestra y generar un sesgo de selección. Sin embargo, la tasa de respuesta coincide con la esperada para este tipo de encuestas con modalidad de reclutamiento pasivo y sin recompensa.[20-22]

La confianza en el sistema de salud fue reportada como un determinante de la aceptación de las vacunas y la falta de indicación médica fue un factor de riesgo para la reticencia.[19] En este sentido, los pediatras pueden ser el gran motor de cambio de actitudes y percepciones de las personas en relación con la vacunación.

CONCLUSIONES

La mayoría de los encuestados realizaron una capacitación reciente y su principal fuente de información fueron las guías y los consensos específicos. Aproximadamente, un cuarto de ellos no recibe información actualizada acerca de vacunas ni cuentan con un referente de consulta.

La percepción del grado de capacitación fue variable de acuerdo con el aspecto de la vacunación. Globalmente, se sintieron menos capacitados en la seguridad y el recupero de esquemas. La mayoría encontró dificultades en la lectura de los certificados y declararon múltiples barreras frecuentes asociadas al acceso en la vacunación.

Aquellos con mayor tiempo de ejercicio profesional y actualización reciente en vacunas se manifestaron con mayor grado de capacidad en todos los temas. ■

Agradecimientos

A los directores de región Dr. Alberto Libanio, Dra. María Martha Rottini, Dr. Alejandro Severini, Dra. Mirta Moreschi, Dra. Marcela Regnando, que participaron del proceso de validación de forma y contenido.

A todos los pediatras que dedicaron su tiempo para responder la encuesta.

Material suplementario disponible en: https://www.sap.org.ar/docs/publicaciones/archivosarg/2024/10204_AO_Gentile_Anexo.pdf

REFERENCIAS

1. Gentile A. Las vacunas una herramienta de Equidad: ¿cómo aumentar las coberturas de vacunación? *Noticias Metropolitanas*. 2023;XXXIV(86):30-3.
2. SAP/UNICEF. 1er Informe especial del Observatorio de la Infancia y la Adolescencia: "Coberturas de vacunación un desafío para el pediatra". Febrero 2022. [Consulta: 22 de junio de 2023]. Disponible en: https://www.sap.org.ar/observatorio.php
3. Argentina. Dirección de Control de Enfermedades Inmunoprevenibles. Informe sobre el impacto de la pandemia por SARS-CoV-2 en las coberturas nacionales de vacunación de Argentina. Ministerio de Salud. 2021. [Consulta: 11 de julio de 2023]. Disponible en: https://bancos.salud.gob.ar/sites/default/files/2021-12/2021-12-informe-impacto-de-la-pandemia-sobre-cobertura-vacunacion-2020.pdf
4. SAP/UNICEF. 2do Informe especial del Observatorio de la Infancia y la Adolescencia: "El desafío de recuperar las coberturas de vacunación en Argentina". Actualización 2023. [Consulta: 22 de junio de 2023]. Disponible en: https://www.sap.org.ar/observatorio.php
5. Research Electronic Data Capture (REDCap). [Consulta: 22 de junio de 2023]. Disponible en: https://www.project-redcap.org/
6. Sociedad Argentina de Pediatría. Encuesta de ejercicio profesional 2021. [Consulta: 22 de junio de 2023]. Disponible en: https://www.sap.org.ar/uploads/archivos/general/files_encuesta-ejercicio-profes-221122_1669658480.pdf
7. Organización Panamericana de la Salud. Inmunización en las Américas. Resumen 2021. [Consulta: 22 de junio de 2023]. Disponible en: https://iris.paho.org/handle/10665.2/55693
8. Comité Nacional de Infectología, Grupo de Trabajo de Inmunología. Consenso sobre actualización de inmunizaciones en pacientes con inmunodeficiencias primarias. *Arch Argent Pediatr*. 2018;116(Supl 2):S20-33.
9. Comité Nacional de Infectología. Actualización en vacunas 2021: recomendaciones y desafíos. Ciudad Autónoma de Buenos Aires: Sociedad Argentina de Pediatría; 2021.
10. Organización Panamericana de la Salud. Seguridad de Vacunas. [Consulta: 22 de junio de 2023]. Disponible en: https://www.paho.org/es/temas/seguridad-vacunas
11. Gentile A, Pacchiotti AC, Giglio N, Nolte MF, et al. Vaccine hesitancy in Argentina: Validation of WHO scale for parents. *Vaccine*. 2021;39(33):4611-9.
12. Dubé E, Laberge C, Guay M, Bramadat P, et al. Vaccine hesitancy: an overview. *Hum Vaccin Immunother*. 2013;9(8):1763-73.
13. Argentina. Ministerio de Salud. Informe general sobre enfermedades inmunoprevenibles. *Boletín Epidemiológico Nacional*. 2023;SE23(657):46-83. [Consulta: 26 de junio de 2023]. Disponible en: https://bancos.salud.gob.ar/recurso/boletin-epidemiologico-nacional-657-se-23
14. Organización Panamericana de la Salud. Sarampión: Datos clave. [Consulta: 3 de julio de 2023]. Disponible en: https://www.paho.org/es/temas/sarampion
15. Organización Panamericana de la Salud. Poliomielitis: Datos clave. [Consulta: 3 de julio de 2023]. Disponible en: https://www.paho.org/es/temas/poliomielitis
16. Argentina. Ministerio de Salud. Distribución de serotipos en ENI (enfermedad neumocócica invasiva, incluyendo meningitis) en menores de 5 años. *Boletín Epidemiológico*

Nacional. 2022;SE50(632):57-63. [Consulta: 3 de julio de 2023]. Disponible en: bancos.salud.gob.ar/sites/default/files/2022-12/BEN_632_SE_50.pdf
17. Argentina. Ministerio de Salud. Sistema Integrado de Información sanitaria Argentina. Registro Federal de Vacunación Nominalizado. [Consulta: 3 de julio de 2023]. Disponible en: https://sisa.msal.gov.ar/sisa/
18. Rizzato Lede DA, Pedernera FA, López E, Speranza CD, et al. Mi Argentina/Mi Salud: The Argentinian Citizen Digital Health Portal. *Stud Health Technol Inform*. 2020;270:1011-5.
19. Guzman-Holst A, DeAntonio R, Prado-Cohrs D, Juliao P. Barriers to vaccination in Latin America: A systematic literature review. *Vaccine*. 2020;38(3):470-81.
20. Sánchez Carrión JJ, Segovia Guisado JM. La participación y la influencia del recordatorio en las encuestas panel online a estudiantes universitarios. *Empiria*. 2008;16:135-61.
21. Arroyo Menéndez M, Finkel Morgenstern L. Encuestas por Internet y nuevos procedimientos muestrales. *Panorama Social*. 2019;30:41-53.
22. Ley 3301. Protección de Derechos de Sujetos en Investigaciones en Salud. Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina, 26 de noviembre de 2009. [Consulta: 3 de julio de 2023]. Disponible en: https://buenosaires.gob.ar/normativas-del-sistema-de-salud/normativas-de-investigacion-en-salud

Original article

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310204

National survey for pediatricians in Argentina: Vaccination in daily practice, perception of knowledge and barriers

Ángela Gentile[a,b], *Vanesa E. Castellano*[a,b], *María del V. Juárez*[a,b], *Sofía Diana Menéndez*[a,b], *Juan I. Degiuseppe*[a,c], *María F. Lución*[a,b], *Rodolfo P. Moreno*[a]

ABSTRACT

Introduction. The decline in vaccination coverage has been very significant in the past decade. Pediatricians play a key role in catching-up coverage and increasing confidence in vaccination.

Objectives. To describe pediatricians' perceptions of vaccine knowledge and practices and to identify barriers to access.

Methods. Observational, analytical study using an online survey. Variables related to professional profile, training and barriers to vaccination were included.

Results. A total of 1696 pediatricians participated (response rate: 10.7%). Their mean age was 50.4 years; 78.7% were women; 78.2% had ≥ 10 years of experience; 78.4% provided outpatient care and 56.0%, in the private subsector; and 72.5% received training in the past 2 years.

Respondents described themselves as "trained" in convey the following aspects to their patients: benefits of vaccines: 97.2%; campaign objectives: 87.7%; contraindications: 82.4%; adverse effects: 78.9%; catch-up vaccination: 71.2%; reporting of events supposedly attributable to vaccination or immunization: 59.5%. The proportion was statistically higher in all aspects, among pediatricians with ≥ 10 years of experience and those who received training recently ($p \leq 0.01$).

The barriers identified in access to vaccination were false contraindications (62.3%), temporary vaccine shortage (46.4%), cultural reasons (41.4%), and restricted vaccination center hours (40.6%).

Conclusions. The perception of the level of training varied depending on the vaccination-related aspect. Pediatricians with more years of professional experience and those who received recent updates perceived themselves as more trained. Multiple barriers associated with access to vaccination were identified.

Keywords: *vaccination coverage; pediatricians; vaccination schedules; barriers in access to health care services; surveys, and questionnaires.*

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10204.eng

To cite: Gentile Á, Castellano VE, Juárez MV, Diana Menéndez S, et al. National survey for pediatricians in Argentina: Vaccination in daily practice, perception of knowledge and barriers. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310204.

[a] *Observatory of Childhood and Adolescence. Sociedad Argentina de Pediatría, City of Buenos Aires, Argentina;* [b] *Unit of Health Promotion and Protection, Department of Epidemiology, Hospital General de Niños Ricardo Gutiérrez, City of Buenos Aires, Argentina;* [c] *Department of Virology, National Infectious Disease Institute (Instituto Nacional de Enfermedades Infecciosas, INEI), National Administration of Health Institutes and Labs (Administración Nacional de Laboratorios e Institutos de Salud, ANLIS) "Dr. Carlos G. Malbrán," City of Buenos Aires, Argentina.*

Correspondence to *Vanesa Castellano: vane0108@hotmail.com*

Funding*: None.*

Conflict of interest*: None.*

Received*: 8-28-2023*
Accepted*: 11-18-2023*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

INTRODUCTION

Vaccines are one of the most beneficial health measures for humankind because they prevent diseases that previously caused major epidemics, deaths, and sequelae.[1]

The negative impact of the SARS-CoV-2 pandemic on the coverage of vaccines included in the national vaccination schedule was significant in the entire population, especially in children. In 2020, the national vaccination coverage decreased an average of 10 points for all vaccines compared to the average for the period between 2015 and 2019, when coverage was already declining.[2,3] During 2021, a slight catch-up was observed in all age groups, but pre-pandemic levels have not been reached; therefore, coverage does not allow to achieve the objective of collective immunity or "herd immunity".[4]

The cause of the drop in vaccination coverage is multifactorial. Some factors that are worth noting include those related to access, the decrease in medical consultations that facilitate vaccine indications, false contraindications, lack of knowledge or low perception of risk on the part of the population. In addition, factors related to the lack of trust, not only in vaccines, but also in the healthcare system, have been identified.[2]

The objective of this study was to describe the perception of pediatricians of their knowledge and practices regarding vaccines in patient care and to identify the barriers in access to vaccination in Argentina.

METHODS

This was an analytical, observational, cross-sectional study using an online self-administered questionnaire. The population included pediatricians who were members of the Sociedad Argentina de Pediatría (SAP). Pediatricians who were not actively involved in healthcare activities were excluded. The questionnaire was distributed only via the SAP's official e-mail account.

Variables related to the pediatrician's profile were recorded, such as demographic data (age, sex, place of residence), years of professional experience, subspecialty, area of care (urban, rural, or semi-rural), main type of care provided (outpatient, on-call, or inpatient), and care subsector in which they worked (public or private). The survey included questions related to training in vaccination: source of information used for updates, time elapsed since the most recent formal update, existence of sources to receive updated information regarding specific vaccination campaigns, and vaccine coverage in the region where they work.

Participants were also asked about the availability of an expert whom they could ask about vaccination, the perception of their ability to explain to patients and their families different vaccination-related topics: vaccine benefits, contraindications, potential adverse effects; reporting of adverse event following immunization (AEFI), catch-up vaccinations, and objectives of specific vaccination campaigns.

Other aspects about daily practice included the habit of reviewing the vaccination records of all family members and difficulties in relation to office visit time and legibility of vaccination cards. Finally, the perception of potential barriers to vaccination was explored. Barriers were classified according to whether they were related to the vaccination center, its training, and the families.

Questionnaire validation

The REDCap tool was used to develop the questionnaire.[5] The questionnaire format was validated in a sample of 5 pediatricians, who were SAP region directors, to ensure that it was understandable, relevant, and appropriate for the study participants. Subsequently, a test-retest reliability analysis was carried out in 20 pediatricians who completed the questionnaire twice, 1 week apart, to assess each item's degree of correlation and stability.

The *Annex* corresponds to the final survey version (*Supplementary material*).

Data analysis

Continuous variables were described as mean and standard deviation (SD), while categorical variables were expressed as frequency and 95% confidence intervals (95% CI) for collected data. In addition, the following associations were analyzed using odds ratios (OR) and their 95% CI: i) pediatrician profile and time since their most recent update on vaccination; ii) pediatrician profile and perceived ability to explain aspects of vaccines and use of office visit time; iii) time since the most recent update on vaccination and perceived ability to explain vaccine-related aspects.

Potential confounding factors were assessed using a multiple logistic regression model.

Data were analyzed using the STATA, version 14, statistical software package.

This study was approved by the Research

Ethics Committee and the Research Teaching Committee of Hospital de Niños Dr. Ricardo Gutiérrez (PRIISA no.: 7532).

RESULTS

Between October and December 2022, 16 334 pediatricians received the questionnaire via the SAP's newsletter e-mail account. A total of 1746 pediatricians completed the questionnaire (response rate: 10.7%); of these, 50 were excluded (22 were not actively working and 28 did not practice medicine); therefore, 1696 surveys were analyzed.

It was noted that 45% of respondents worked in the Metropolitan region; 78.4% provided mainly outpatient care and worked in the private subsector (56.0%); 78.6% had 10 years or more of professional experience (*Table 1*).

Table 2 details the aspects related to the sources of information and updates on vaccination.

When asked about the possibility of clearing doubts about vaccines, 22.9% (n = 384) of respondents indicated that they did not have an expert representative available. Among those who had expert for consultations, 56.9% (n = 965) said such representative was a colleague; 26.1% (n = 442) a vaccinator; and 8.8% (n = 136) someone else.The analysis showed that having 10 or more years of professional experience was significantly associated with having received formal training about vaccines in the past 2 years

Table 1. Demographic and professional characteristics. N = 1696

Age (years)		Mean 50.4 (SD 15.2)
Sex	Female	1325 (78.7)
	Male	357 (21.2)
	Would rather not answer	1 (0.1)
Years of experience as pediatrician	Less than 5 years	174 (10.3)
	5 to 9 years	186 (11.1)
	10 to 20 years	444 (26.4)
	More than 20 years	878 (52.2)
SAP region	Metropolitan region	247 (14.7)
	Center-Cuyo region	210 (12.4)
	Litoral region	210 (12.4)
	Northwest region	120 (7.1)
	South Pampa region	109 (6.5)
	Northeast region	81 (4.8)
	North Pampa region	56 (3.3)
	Atlantic Patagonia region	52 (3.1)
	Andean Patagonia region	49 (2.9)
Main area of care*	Urban	1609 (94.9)
	Semi-rural	129 (7.6)
	Rural	35 (2.1)
Pediatric subspecialty	Yes **	476 (28.4)
	No	1198 (71.6)
Main area of the healthcare system where they work	Outpatient care in the sector of social security health insurance organizations and private health insurance companies	856 (50.8)
	Outpatient care in the public sector	466 (27.6)
	On call in the public sector	131 (7.8)
	Hospitalization in the public sector	131 (7.8)
	On call in the sector of workers' unions health insurance organizations and private health insurance companies	58 (3.4)
	Hospitalization in the sector of workers' unions health insurance organizations and private health insurance companies	31 (1.8)
	Other	13 (0.8)

**Multiple answers.*

***361 (77%) provided both types of health care; 65 (13.9%) provided only specialty care and 43 (9.2%) worked only as clinical pediatricians.*

SD: standard deviation.

N: number; (%): percentage.

(OR = 1.3, p = 0.04). No differences were observed between the years of professional experience and the work areas or subsectors. Also, no significant differences were noted between the subsector (p = 0.7) and the type of care (p = 0.13) and having an expert available for consultation on vaccines.

Figure 1 describes the perceived level of training among surveyed pediatricians regarding different aspects of vaccination.

Having 10 or more years of professional experience or having received a recent update were independent predictors ($p \leq 0.01$) of the perception of being more trained in all the aspects

Table 2. Sources of information and updates on vaccination

Question	Items	N = 1696 (%)
What sources do you use to keep yourself updated on vaccines? *	Recommendation guidelines or consensuses (international organizations, scientific societies, hospital protocols, ministerial recommendations)	1346 (79.4)
	Other updates (PRONAP, UpToDate, Medscape, etc.).	1030 (60.7)
	Class on vaccination	964 (56.8)
	Scientific conferences or meetings	819 (48.3)
	Recommendations from colleagues and specialists	342 (20.2)
	Original articles (publications in scientific journals)	269 (15.8)
	Recommendations from pharmaceutical sales representatives	128 (7.5)
	Other	18 (1.1)
	None	2 (0.1)
When did you receive the most recent update on the official national vaccination schedule (excluding training on COVID-19 vaccines)?	In the past year	806 (48)
	Between 1 and 2 years ago	412 (24.51)
	Between 2 and 5 years ago	298 (17.7)
	More than 5 years	104 (6.2)
	I have never received any update on this topic	23 (1.4)
	I do not remember	38 (2.3)
Do you regularly receive updated information about specific vaccination campaigns?	Yes	1533 (91.7)
	No	138 (8.3)
How do you receive updated information? *	E-mails from the Sociedad Argentina de Pediatría	1353 (79.8)
	E-mails from the Ministry of Health or the Department of Epidemiology in your district	828 (48.8)
	WhatsApp messages from colleagues/ co-workers	478 (28.2)
	Videoconferences/webinars	369 (21.8)
	E-mails from vaccination units in your place of work/private vaccination centers	366 (21.6)
	Social media	338 (19.9)
	E-mails from other scientific societies	313 (18.5)
	Other	17 (1)
Do you think that you obtain updated and timely information regarding vaccination coverage in the region where you practice?	Yes	1259 (74.8)
	No	424 (25.2)
How do you obtain updated information on vaccination coverage?	Reports by the Sociedad Argentina de Pediatría	1075 (63.4)
	Reports by the Ministry of Health or the Department of Epidemiology in your district	851 (50.2)
	Your place of work	396 (23.4)
	Reports by other scientific societies	246 (14.5)
	International organizations (WHO, PAHO, UNICEF, etc.)	204 (12)
	Other	21 (1.2)

**Multiple answers allowed.*
WHO: World Health Organization.
PAHO: Pan American Health Organization.

related to vaccination. *Table 3* describes the associations.

Among the surveyed population, 54.0% (n = 911) mentioned asking about other family members' vaccination schedules. However, 37.5% (n = 632) asked this occasionally and 8.5% (n = 143) did not ask. They mainly asked about siblings (n = 837, 49.4%), pregnant women (n = 585, 34.5%), caregivers (n = 580, 34,2%), immunocompromised household members (n = 571, 33,7%), and older adults (n = 386, 22.8%).

The office visit time to ask about patients' vaccination status was considered insufficient by 43.8% of respondents (n = 735). In relation to compliance with a vaccine indication from a previous visit, 82.2% of respondents (n = 1382) stated that they always checked compliance; 17.3% (n = 291) said that they checked only depending on the reason for consultation; and 0.5% (n = 8) did not check that the indicated vaccine had been given.

A higher proportion of pediatricians with 10 years or more of professional experience mentioned that they asked about family members' vaccination schedules (OR = 2.8, $p < 0.01$), that they always checked vaccine indications in follow-up visits (OR = 1.4, $p = 0.01$), and that they believed that the office visit time was enough to ask about vaccines (OR = 2.2, $p < 0.01$).

In addition, 88.7% of surveyed pediatricians (n = 1504) mentioned difficulties when reading vaccination cards. The main difficulties were the multiple records/cards/documents per patient to verify doses given, damaged or illegible cards, differences in vaccine card formats, and difficulties in recognizing the vaccine due to recording format (*Table 4*).

The following were the main barriers identified in access to vaccination: false contraindications (62.3%), temporary vaccine shortage (46.4%), cultural reasons (41.4%), and restricted vaccination center hours (40.6%) (*Figure 2*).

Figure 1. Perception of pediatricians' training to address vaccination-related aspects

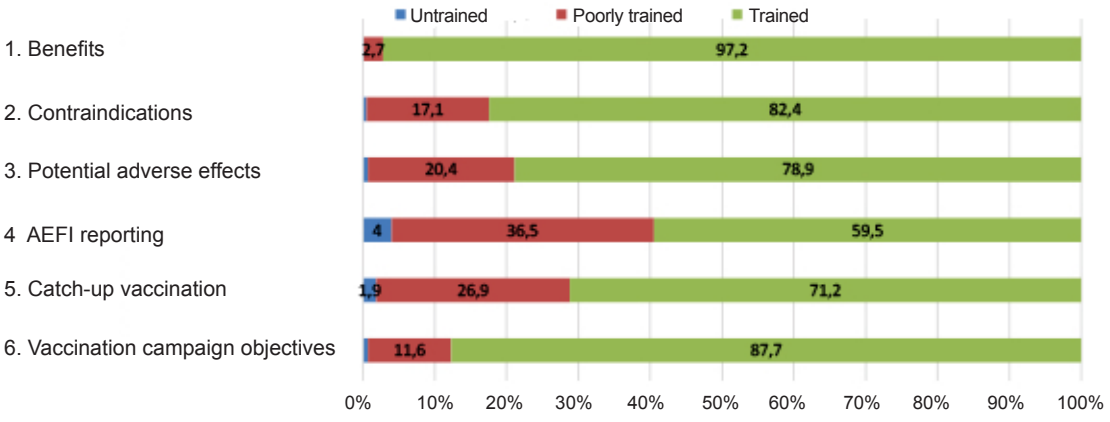


Table 3. Association* between years of experience and updates with the perception of being trained

Trained in	Years of experience N (%)		OR (95% CI)	Updated in the past 2 years N (%)		OR (95% CI)
	≥ 10 years	< 10 years		Yes	No	
Benefits	1291 (97.7)	341 (95.3)	**2.1 (1.1–4.1)**	1215 (98.27)	437 (94.4)	**3.4 (1.8–6.4)**
Contraindications	1134 (86.4)	241 (67.5)	**3.1 (2.3–4)**	1057 (87.4)	317 (69.1)	**3.1 (2.4–4.0)**
Adverse effects	1089 (83.2)	225 (63)	**2.9 (2.2–3.8)**	1002 (83.1)	311 (67.8)	**2.3 (1.8–3.0)**
AEFI reporting	859 (65.2)	137 (38.5)	**3 (2.3–3.8)**	784 (64.7)	209 (45.4)	**2.2 (1.8–2.8)**
Catch-up vaccination	1028 (78.1)	163 (45.7)	**4.2 (3.3–5.5)**	935 (77.1)	255 (55.4)	**2.7 (2.1–3.4)**
Campaign objectives	1191 (90.8)	273 (76.5)	**3 (2.2–4.2)**	1106 (91.5)	357 (77.8)	**3.1 (2.2–4.2)**

**No confounding effect was observed in the multiple logistic regression model.*

N: number.

AEFI: adverse events following immunization.

DISCUSSION

This study allowed us to assess different aspects related to the knowledge, attitudes, and daily practices of pediatricians regarding vaccination.

Most of the respondents were women, were 50 years old, and had more than 10 years of professional experience. Their main working areas were the outpatient sector, with slightly more than 50% working in the private subsector. Such professional profile is consistent with previous studies carried out in the same target population, and so is respondents' regional distribution; most participants worked in the SAP's metropolitan region.[6]

The region's vaccination programs, the development of new vaccines, and the possibility of introducing them into the vaccination schedule

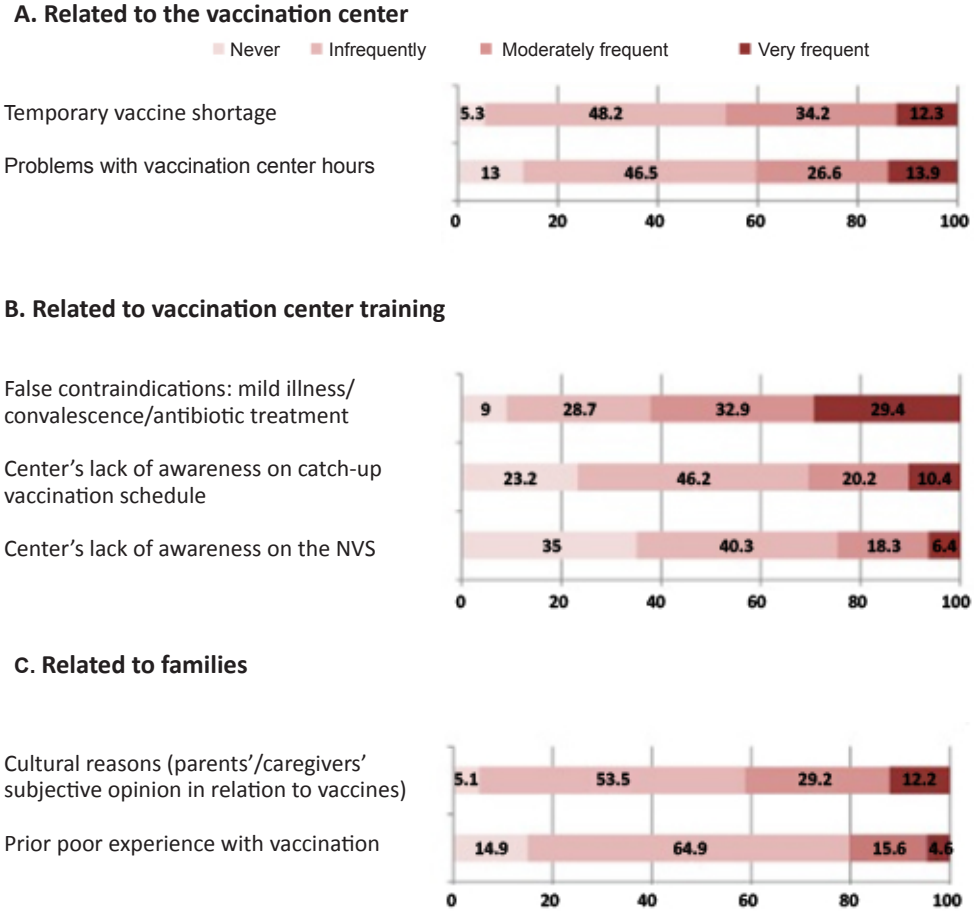
Table 4. Difficulties in vaccination card legibility

What difficulties do you have when reading vaccination cards during the office visit?* (N = 1696)	Multiple records/cards/documents per patient to check vaccine doses given to the patient	1034 (61%)
	Damaged or illegible cards	1013 (59.7 %)
	Differences in vaccination card formats	815 (48.1 %)
	Difficulties to recognize vaccine due to recording differences (brand, generic name, pharmaceutical company, etc.)	754 (44.5 %)
	No difficulties	192 (11.3 %)
	Other**	30 (1.8%)*

Multiple answers allowed.

*** They forget to bring the card to the office (n = 12), foreign cards (n = 3), lost cards (n = 3), no empty fields left (n = 3), other (n = 9).*

Figure 2. Barriers perceived in access to vaccination



NVS: National Vaccination Schedule.

are dynamic and represent a challenge for healthcare providers.[7] In this context, it was observed that most surveyed pediatricians reported having a professional expert for consultations, and most of them were colleagues. Regarding the source of information on vaccines, the main sources of consultation and information on vaccination campaigns were recommendation guidelines or consensuses and e-mails from the SAP, respectively. This highlights the importance of the role of scientific societies in the development and dissemination of the different scientific documents, and specifically in Argentina, the role of the SAP in the training and continuing education of pediatricians.[8,9] In addition, most respondents had received formal training in vaccination in the past 2 years, which implies the need for continuing education as a fundamental tool.

Regarding the availability of vaccination coverage data at a local level, most respondents reported not having such information in a timely manner. This could be a barrier to the implementation of strategies at the local level.

It is worth noting that vaccines in Latin America have high levels of acceptance and trust by the population, compared to other regions of the world. However, the general population expresses more doubts about the safety of vaccines than about their effectiveness.[10] In our study, when assessing perception of being trained to address vaccination issues regarding safety, pediatricians reported feeling "poorly trained" in a considerable percentage of several of the aspects surveyed. This condition may imply an inadequate approach to these aspects in pediatric office visits, considering that healthcare providers play a key role in developing confidence in vaccines among families.[11,12]

In addition, almost 30% of the respondents reported being "poorly trained" in relation to catch-up vaccination, which once again highlights the importance of training in this scenario of low vaccination coverage.[13]

It is worth noting that there was a significant association between a greater perception of being trained regarding all the items surveyed and the years of professional experience as well as having recently received an update on vaccines. As for pediatricians with more years of professional practice, it is likely that, in addition to experience, other factors may be influencing this result, such as the perceived risk of vaccine-preventable diseases that were frequent or serious decades ago (outbreaks of meningitis, measles, and invasive diseases caused by encapsulated bacteria).[14–16] It was also observed that, in daily practice, this same group acted differently than younger pediatricians, with more actions regarding family members' vaccination and vaccination card control. This finding highlights the importance of providing vaccine training using new tools adapted to this young group of healthcare providers. Pediatricians should regain an holistic approach, considering patients and their families; this is critical to achieve the objective of obtaining high vaccination coverage in our population.

This study also highlights the difficulty perceived by pediatricians when reading vaccination cards. In this sense, the implementation of the electronic vaccination registry for all individuals is critical to ensure the quality, timeliness, and availability of data for pediatricians, patients, and their families.[17,18]

In addition, frequent barriers to vaccination were identified linked to the vaccination center, healthcare staff, and families; this demonstrates, as in other studies,[19] that multiple causes are associated with low vaccination coverage and that they should be addressed comprehensively.

This study has certain limitations. First of all, it was been carried out only with SAP members, who may not be representative of all Argentine pediatricians and other healthcare providers involved in the vaccination of children and adolescents, such as family physicians and nurses. Second of all, the response rate in this study was close to 11%, which may affect the representativeness of the sample and result in a selection bias. However, the response rate is consistent with that expected for this type of survey, with a passive recruitment modality and no rewards.[20–22]

Trust in the healthcare system was reported as a determinant of vaccine acceptance and lack of medical indication was a risk factor for hesitancy.[19] In this regard, pediatricians may be the driving force in changing people's attitudes and perceptions regarding vaccination.

CONCLUSIONS

Most of the survey respondents had received recent training and their main source of information was specific guidelines and consensuses. Approximately 25% of them do not receive updated information about vaccines and do not have an expert available for consultation.

The perception of the level of training varied

depending on the vaccination-related aspect. Overall, they felt less trained in terms of safety and catch-up vaccination. Most respondents had difficulties when reading vaccination cards and reported multiple frequent barriers associated with access to vaccination.

Pediatricians with more years of professional experience and those who received recent updates about vaccines described themselves as being more trained in all aspects. ■

Acknowledgments

We would like to thank regional directors Alberto Libanio, M.D., María Martha Rottini, M.D., Alejandro Severini, M.D., Mirta Moreschi, M.D., and Marcela Regnando, M.D., for their participation in the format and content validation process.

We would also like to thank all the pediatricians who took the time to complete the survey.

Supplementary material available at: https://www.sap.org.ar/docs/publicaciones/archivosarg/2024/10204_AO_Gentile_Anexo.pdf

REFERENCES

1. Gentile A. Las vacunas una herramienta de Equidad: ¿cómo aumentar las coberturas de vacunación? *Noticias Metropolitanas*. 2023; XXXIV (86):30-3
2. SAP/UNICEF. 1er Informe especial del Observatorio de la Infancia y la Adolescencia: "Coberturas de vacunación un desafío para el pediatra". February 2022. [Accessed on: June 22nd, 2023]. Available at: https://www.sap.org.ar/observatorio.php
3. Argentina. Dirección de Control de Enfermedades Inmunoprevenibles. Informe sobre el impacto de la pandemia por SARS-CoV-2 en las coberturas nacionales de vacunación de Argentina. Ministerio de Salud. 2021. [Accessed on: July 11th, 2023]. Available at: https://bancos.salud.gob.ar/sites/default/files/2021-12/2021-12-informe-impacto-de-la-pandemia-sobre-cobertura-vacunacion-2020.pdf
4. SAP/UNICEF. 2do Informe especial del Observatorio de la Infancia y la Adolescencia: "El desafío de recuperar las coberturas de vacunación en Argentina". Actualización 2023. [Accessed on: June 22nd, 2023]. Available at: https://www.sap.org.ar/observatorio.php
5. Research Electronic Data Capture (REDCap). [Accessed on: June 22nd, 2023]. Available at: https://www.project-redcap.org/
6. Sociedad Argentina de Pediatría. Encuesta de ejercicio profesional 2021. [Accessed on: June 22nd, 2023]. Available at: https://www.sap.org.ar/uploads/archivos/general/files_encuesta-ejercicio-profes-221122_1669658480.pdf
7. Organización Panamericana de la Salud. Inmunización en las Américas. Resumen 2021. [Accessed on: June 22nd, 2023]. Available at: https://iris.paho.org/handle/10665.2/55693
8. Comité Nacional de Infectología, Grupo de Trabajo de Inmunología. Consenso sobre actualización de inmunizaciones en pacientes con inmunodeficiencias primarias. *Arch Argent Pediatr*. 2018;116(Supl 2): S20-33.
9. Comité Nacional de Infectología. Actualización en vacunas 2021: recomendaciones y desafíos. Ciudad Autónoma de Buenos Aires: Sociedad Argentina de Pediatría; 2021.
10. Organización Panamericana de la Salud. Seguridad de Vacunas. [Accessed on: June 22nd, 2023]. Available at: https://www.paho.org/es/temas/seguridad-vacunas
11. Gentile A, Pacchiotti AC, Giglio N, Nolte MF, et al. Vaccine hesitancy in Argentina: Validation of WHO scale for parents. *Vaccine*. 2021;39(33):4611-9.
12. Dubé E, Laberge C, Guay M, Bramadat P, et al. Vaccine hesitancy: an overview. *Hum Vaccin Immunother*. 2013;9(8):1763-73.
13. Argentina. Ministerio de Salud. Informe general sobre enfermedades inmunoprevenibles. Boletín Epidemiológico Nacional. 2023; SE23(657):46-83. [Accessed on: June 26th, 2023]. Available at: https://bancos.salud.gob.ar/recurso/boletin-epidemiologico-nacional-657-se-23
14. Organización Panamericana de la Salud. Sarampión: Datos clave. [Accessed on: July 3rd, 2023]. Available at: https://www.paho.org/es/temas/sarampion
15. Organización Panamericana de la Salud. Poliomielitis: Datos clave. [Accessed on: July 3rd, 2023]. Available at: https://www.paho.org/es/temas/poliomielitis
16. Argentina. Ministerio de Salud. Distribución de serotipos en ENI (enfermedad neumocócica invasiva, incluyendo meningitis) en menores de 5 años. Boletín Epidemiológico Nacional. 2022; SE50(632):57-63. [Accessed on: July 3rd, 2023]. Available at: bancos.salud.gob.ar/sites/default/files/2022-12/BEN_632_SE_50.pdf
17. Argentina. Ministerio de Salud. Sistema Integrado de Información sanitaria Argentina. Registro Federal de Vacunación Nominalizado. [Accessed on: July 3rd, 2023]. Available at: https://sisa.msal.gov.ar/sisa/
18. Rizzato Lede DA, Pedernera FA, López E, Speranza CD, et al. Mi Argentina/Mi Salud: The Argentinian Citizen Digital Health Portal. *Stud Health Technol Inform*. 2020;270:1011-5.
19. Guzman-Holst A, DeAntonio R, Prado-Cohrs D, Juliao P. Barriers to vaccination in Latin America: A systematic literature review. *Vaccine*. 2020;38(3):470-81.
20. Sánchez Carrión JJ, Segovia Guisado JM. La participación y la influencia del recordatorio en las encuestas panel online a estudiantes universitarios. *Empiria*. 2008;16:135-61.
21. Arroyo Menéndez M, Finkel Morgenstern L. Encuestas por Internet y nuevos procedimientos muestrales. *Panorama Social*. 2019;30:41-53.
22. Ley 3301. Protección de Derechos de Sujetos en Investigaciones en Salud. Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina, 26 de noviembre de 2009. [Accessed on: July 3rd, 2023]. Available at: https://buenosaires.gob.ar/normativas-del-sistema-de-salud/normativas-de-investigacion-en-salud

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310214

Controles de salud durante la pandemia e impacto clínico del COVID-19 en niños con enfermedad neuromuscular

M. Sol Fernández Sardá[a], *Manuela Dicembrino*[a], *Verónica Aguerre*[a]

RESUMEN

Introducción. Los niños con enfermedad neuromuscular (ENM) requieren cuidados crónicos de salud (CCS) y podrían presentar COVID-19 grave.

Objetivos. Describir CCS para niños con ENM durante la pandemia y evolución del COVID-19 en este grupo.

Población y métodos. Cohorte prospectiva unicéntrica. Se incluyeron pacientes de 2-18 años, con ≥ 1 año de seguimiento previo a la pandemia. Se recolectaron variables demográficas, relativas a los CCS y al COVID-19 mediante historias clínicas y encuestas telefónicas.

Resultados. Se incluyeron 226 pacientes; el 71 % varones, mediana de edad 11,3 años. Presentaban distrofias musculares (55,7 %) y atrofia muscular espinal (23 %). Comparando el primer año de pandemia con el previo, el 30 % no realizó controles médicos y el 25 % no realizó kinesioterapia. Otros disminuyeron la frecuencia.

Hubo 52 casos de COVID-19. Fueron sintomáticos el 82 %: el 88,4 % leves/moderados y el 11,6 % graves. No hubo fallecidos.

Conclusiones. La pandemia impactó negativamente en los CCS y los casos de COVID-19 fueron mayormente leves.

Palabras clave: *COVID-19; enfermedad pulmonar; enfermedad crónica; distrofias musculares; pérdida de seguimiento.*

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10214
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10214.eng

Cómo citar: Fernández Sardá MS, Dicembrino M, Aguerre V. Controles de salud durante la pandemia e impacto clínico del COVID-19 en niños con enfermedad neuromuscular. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310214.

[a] *Servicio de Neumonología, Hospital de Pediatría S.A.M.I.C. Prof. Dr. Juan P. Garrahan, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.*

Correspondencia para *M. Sol Fernández Sardá: mariasolfs@gmail.com*

Financiamiento*: Ninguno.*

Conflicto de intereses*: Ninguno que declarar.*

Recibido*: 6-9-2023*
Aceptado*: 8-10-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

INTRODUCCIÓN

En marzo de 2020, la Organización Mundial de la Salud declaró la enfermedad por SARS-CoV-2 o COVID-19 (por sus siglas en inglés) como pandemia.[1] Existe evidencia de que la mayoría de la población pediátrica cursa la enfermedad leve; sin embargo, niños con enfermedades neuromusculares (ENM) podrían no seguir esta tendencia.[2,3]

Las ENM se caracterizan por la afectación de algún componente de la unidad motora y su principal manifestación es la debilidad muscular. La causa más frecuente de hospitalizaciones y de muerte es la insuficiencia respiratoria aguda y crónica, respectivamente. Las intervenciones respiratorias adecuadas disminuyen la morbimortalidad y mejoran la calidad de vida.[4,5]

Durante la pandemia, en Argentina se aplicaron medidas sanitarias de aislamiento social preventivo obligatorio (ASPO) y distanciamiento social preventivo obligatorio (DISPO),[6] particularmente entre marzo de 2020 y marzo de 2021, que colateralmente trajeron aparejadas dificultades en el acceso a los cuidados de salud de otras patologías.[7]

El objetivo de este estudio es describir el impacto de la pandemia en el acceso a los cuidados crónicos de salud para niños con ENM y la gravedad del COVID-19 en esta población.

POBLACIÓN Y MÉTODOS

Estudio descriptivo, observacional, de cohorte prospectiva, unicéntrico. Aprobado por el Comité de Docencia y Ética de Investigación del hospital.

Población

Pacientes pediátricos con ENM en seguimiento en el Hospital Juan P. Garrahan, de la Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina. Muestreo consecutivo.

Criterios de inclusión

- Pacientes de 2 a 18 años con ENM confirmada.
- ≥ 1 año de seguimiento previo al ASPO durante la pandemia (marzo de 2020).
- Consentimiento para participar del estudio.

Criterios de exclusión

- Comorbilidades no relacionadas a enfermedad de base (inmunodeficiencia primaria, síndrome de Down o insuficiencia adrenal).
- Imposibilidad de ser contactados luego de un máximo de 10 llamados telefónicos o en forma presencial.

Se contactó telefónicamente a los cuidadores de los niños entre el 01 de octubre de 2021 y el 30 de marzo de 2022. Se solicitó verbalmente consentimiento informado y se administró una encuesta para evaluar el impacto de la pandemia en los cuidados crónicos de la salud (marzo de 2020-marzo de 2021) y la evolución clínica del COVID-19 en aquellos niños que lo hubieran presentado (*Material suplementario 1*). La primera serie de llamados telefónicos se realizó durante octubre de 2021-enero de 2022. A quienes se logró contactar en dicha oportunidad, se les realizó un segundo llamado en febrero-marzo de 2022, debido al aumento de contagios por la variante ómicron, para volver a interrogarlos sobre una posible infección o reinfección por SARS-CoV-2 (*Material suplementario 2*).

Variables analizadas

- Los datos demográficos y relativos al estado clínico basal se registraron a partir de las historias clínicas (HC). Compromiso respiratorio: requerimiento de ventilación domiciliaria y porcentaje del teórico de capacidad vital forzada (CVF %). Se consideró compromiso respiratorio grave a la presencia de CVF < 50 % del valor predicho y/o requerimiento de soporte ventilatorio. Otras comorbilidades: compromiso cardiológico asociado, sobrepeso (índice de masa corporal [IMC] > 1 desviación estándar [DE]) u obesidad (IMC > 2 DE) y tratamiento con corticoides orales.
- Acceso a los cuidados de salud: datos obtenidos a partir de las encuestas. Se compararon los cuidados crónicos de la salud el primer año de pandemia (marzo de 2020-marzo de 2021) con respecto al año previo. Se registraron: frecuencia de controles de salud, frecuencia de kinesioterapia, realización de exámenes complementarios solicitados, intervenciones terapéuticas, cirugías programadas y vacunación.
- Infección por SARS-CoV-2: datos obtenidos a partir de las encuestas. Se consideraron casos de COVID-19 aquellos con prueba positiva de PCR o antígeno. Se registraron los síntomas definidos por el Ministerio de Salud de la Nación;[8] se clasificó la gravedad de la enfermedad en leve, moderada y grave de acuerdo a los Institutos Nacionales de Salud de Estados Unidos (NIH por sus siglas en inglés).[9] Se registró hospitalización y mortalidad.

Análisis estadístico

Todos los datos fueron registrados y almacenados en REDCap (versión 12.1.2)[10] y analizados en R Studio versión 4.2.1. Las variables categóricas se expresaron como valor absoluto y porcentaje; y las cuantitativas, como mediana y rango intercuartílico acorde a la distribución de la muestra.

RESULTADOS

Cumplieron los criterios de inclusión 344 pacientes. Fueron excluidos 2 por comorbilidades no relacionadas a su enfermedad de base (1 inmunodeficiencia primaria, 1 hipoplasia suprarrenal congénita) y 116 por imposibilidad de contacto telefónico o presencial. Ingresaron 226 pacientes.

Las características demográficas de los pacientes se resumen en la *Tabla 1*.

Durante el primer año de pandemia, se vieron afectados todos los aspectos considerados referentes a los cuidados de salud (*Tabla 2*).

La evolución de los casos de infección o enfermedad por SARS-CoV-2 se describe en la *Tabla 3*.

Los 5 pacientes que refirieron un curso grave de COVID-19 presentaron como enfermedad de base distrofia muscular de Duchenne (DMD) (2/5),

Tabla 1. Características clínicas de los pacientes

Características clínicas	n = 226
Sexo masculino - n (%)	161 (71,0)
Edad - años*	11,3 (8,5-14,8)
Enfermedad de base - n (%)	
Distrofias musculares	126 (55,7)
DMD	83 (36,7)
Otras	43 (19,0)
AME	52 (23,0)
Miopatías congénitas	45 (19,9)
Otras ENM	3 (1,3)

** Variable con distribución no normal, expresada como mediana y rango intercuartílico.*
DMD: distrofia muscular de Duchenne; AME: atrofia muscular espinal; ENM: enfermedad neuromuscular; n: número.

Tabla 2. Acceso a cuidados crónicos de salud entre marzo de 2020 y marzo de 2021

Acceso a cuidados crónicos de salud	n = 226
Controles de salud - n (%) *	
No realizaron	72 (32,0)
Realizaron con menor frecuencia	108 (48,0)
Realizaron con frecuencia habitual	45 (20,0)
Kinesiología - n (%)	
No realizaron	56 (24,8)
Realizaron con menor frecuencia	102 (45,1)
Realizaron con frecuencia habitual	68 (30,1)
Exámenes complementarios - n (%) **	175 (77,4)
No realizaron	96 (54,8)
Realizaron algunos	33 (18,8)
Realizaron todos	46 (26,3)
Cirugías programadas - n (%) ***	39 (17,2)
No realizaron	14 (35,9)
Pospusieron	13 (33,3)
Realizaron	12 (30,8)
Vacunación antigripal - n (%) *	177 (78,6)

n: número.
Datos referidos por los cuidadores principales de los pacientes.
** n = 225*
*** n= 175 pacientes con indicación de realizarse exámenes complementarios.*
**** n = 39 pacientes con cirugías programadas.*

Tabla 3. Características de los pacientes y de los casos de COVID-19

Pacientes que cursaron COVID-19	**n = 47**
Compromiso respiratorio grave previo - n (%)	17 (36,2)
Comorbilidades - n (%)	
Sobrepeso/obesidad *	21 (45,6)
Uso prolongado de corticoides	15 (31,9)
Vacunación COVID-19 - n (%) **	32 (68,0)
Casos de COVID-19 **	n = 52
Asintomáticos - n (%)	9 (17,3)
Sintomáticos - n (%)	43 (82,7)
Fiebre	30 (69,7)
Cefalea	21 (48,8)
Congestión nasal	19 (44,1)
Tos	18 (41,8)
Duración de síntomas - días ***	3,5 (2-5)
Clasificación NIH	
Leve	37 (86,0)
Moderado	1 (2,3)
Grave	5 (11,6)
Hospitalización - n (%)	10 (19,2)
Unidad de cuidados intensivos	3 (30)
Duración hospitalización - días ***	6 (4-11)
Muertes por COVID-19	0 (0)

n: número

NIH: siglas en inglés de Institutos Nacionales de Salud de Estados Unidos.

** n = 46*

*** Datos referidos por los cuidadores principales de los pacientes.*

**** Variable con distribución no normal, expresada como mediana y rango intercuartílico.*

atrofia muscular espinal (AME) (2/5) (uno tipo 2 y otro no-5q) y enfermedad de Steinert (1/5); 3 tenían requerimiento de soporte ventilatorio crónico; 3 eran mujeres, con una mediana de edad de 14,3 años (5,8-16,8). Todos los casos fueron referidos durante el primer pico epidémico asociado a la variante delta. Cuatro refirieron no tener la vacuna contra COVID-19 al momento de la infección. Todos refirieron menor frecuencia o suspensión completa de controles médicos y tratamientos kinésicos.

DISCUSIÓN

Se presentan los resultados de una cohorte prospectiva unicéntrica de niños con ENM seguida en una institución de alta complejidad.

El lineamiento general en el seguimiento de los pacientes con ENM durante la pandemia fue que continuaran recibiendo medicación y terapias habituales.[11,12] En nuestro estudio, se observó un impacto negativo en el acceso a los cuidados crónicos de la salud en el 80 % de los pacientes durante el primer año de la pandemia. Este hallazgo está en concordancia con otros artículos publicados, en los que se evidenció el mismo resultado en la población general[13] y particularmente en los pacientes con ENM, considerados como grupo de riesgo.[3,11] Los tratamientos intrahospitalarios, como la aplicación de nusinersen en niños con AME o las cirugías programadas, se vieron afectados, por un lado, debido a que la concurrencia al hospital se consideró como una situación de riesgo de contagio de COVID-19[11] y, por otro, debido al redireccionamiento de recursos para responder a la emergencia y a los cuidados críticos. La frecuencia de la kinesioterapia se vio afectada en el 70 % de nuestros pacientes. La telemedicina se incorporó estratégica y paulatinamente como alternativa para continuar con las terapias habituales en los pacientes con ENM.[11]

En relación con el curso del COVID-19, un estudio multicéntrico nacional (n = 2690) reportó que el 67 % de los casos pediátricos fueron

asintomáticos o leves. De los hospitalizados (n = 1542), el 7,4 % fueron graves o críticos, la mayoría con comorbilidades como enfermedad neurológica crónica.[3]

Los pacientes con ENM se incluyen dentro del grupo vulnerable de presentar enfermedad grave por SARS-CoV-2; algunos autores consideran de mayor riesgo a quienes presentan debilidad de los músculos respiratorios con enfermedad restrictiva, uso de soporte ventilatorio, debilidad orofaríngea, uso de tratamientos inmunosupresores y presencia de comorbilidades graves.[11,12,14]

En nuestro estudio, observamos que el 11 % de los casos presentó una forma grave de COVID-19. En coincidencia, un estudio multicéntrico realizado en España, que reclutó 29 niños con ENM y COVID-19, reportó que el 90 % presentó síntomas leves; los 3 pacientes con mayor compromiso tenían diagnóstico de AME tipo 1 y edad de 1 a 3 años.[15]

Según los resultados obtenidos, podemos conjeturar que la edad pediátrica actuaría como factor protector atenuando la gravedad de la enfermedad aun en pacientes con compromiso respiratorio previo.

Este estudio es el primero a nivel nacional en analizar dos problemáticas relevantes durante la pandemia: la accesibilidad a los cuidados de salud y la morbilidad asociada al COVID-19 en una cohorte de niños con ENM. Debido a la dinámica epidemiológica observada en el período analizado, las variables relacionadas con la enfermedad asociada a SARS-CoV-2 se midieron en dos momentos diferentes, en términos de serotipos predominantes y la posibilidad de inmunización activa, que podría haber determinado una evolución clínica diferente.

El trabajo presenta limitaciones: un 33 % de los niños que cumplían criterios de inclusión no pudieron ser contactados; aun así se incluyó un número considerable de pacientes. El número de casos de COVID-19 fue bajo, por lo cual no se aplicaron pruebas de inferencia estadística; los resultados son descriptivos. La encuesta utilizada se confeccionó para los fines del estudio, dada la ausencia de herramientas validadas. Finalmente, por tratarse de una encuesta, puede existir sesgo de información.

CONCLUSIONES

La pandemia por SARS-CoV-2 generó una marcada reducción en el acceso a los cuidados crónicos de salud en esta población. La mayoría de los niños con ENM desarrollaron una forma leve de COVID-19. ■

Agradecimientos

Los autores agradecen al Programa de Métodos en Investigación Epidemiológica, Clínica y Operativa (MECOR) por el acompañamiento para llevar a cabo este artículo.

Material suplementario disponible en: https://www.sap.org.ar/docs/publicaciones/archivosarg/2024/10214_CB_Fernandez-Sarda_Anexo.pdf

REFERENCIAS

1. Organización Mundial de la Salud. *Nuevo coronavirus 2019*. [Consulta: 30 de noviembre de 2022]. Disponible en: https://www.who.int/es/emergencies/diseases/novel-coronavirus-2019
2. Centers for Disease Control and Prevention. *Information for pediatric healthcare providers*. CDC. 2022. [Consulta: 30 de noviembre de 2022]. Disponible en: https://www.cdc.gov/coronavirus/2019-ncov/hcp/pediatric-hcp.html
3. Gentile Á, Juárez M del V, Romero Bollón L, Cancellara AD, et al. Estudio multicéntrico de casos confirmados de COVID-19: datos preliminares de 2690 pacientes pediátricos en Argentina durante el primer año de la pandemia. *Arch Argent Pediatr.* 2022;**120**:80–8.
4. Comité de Neumonología, Grupo de Trabajo de Kinesiología, Grupo de Trabajo de Discapacidad, Comité de Gastroenterología, Comité de Nutrición de la Sociedad Argentina de Pediatría. Consenso de cuidados respiratorios en enfermedades neuromusculares en niños. *Arch Argent Pediatr.* 2014;112(Supl):91-111.
5. Hull J, Aniapravan R, Chan E, Chatwin M, et al. British Thoracic Society guideline for respiratory management of children with neuromuscular weakness. *Thorax*. 2012;67 Suppl 1:i1-40.
6. Argentina. Ministerio de Salud. *Otras medidas de gobierno*. 2020. [Consulta: 30 de noviembre de 2022]. Disponible en: https://www.argentina.gob.ar/coronavirus/medidas-gobierno/otras
7. Gualano MR, Corradi A, Voglino G, Bert F, Siliquini R. Beyond COVID-19: a cross-sectional study in Italy exploring the covid collateral impacts on healthcare services. *Health Policy.* 2021;125(7):869-76.
8. Argentina. Ministerio de Salud. *Nueva actualización de la definición de caso sospechoso COVID 19*. 31 mayo 2021. [Consulta: 30 de noviembre de 2022]. Disponible en: https://www.argentina.gob.ar/noticias/nueva-actualizacion-de-la-definicion-de-caso-sospechoso-de-covid-19-0
9. National Institutes of Health. *Coronavirus Disease 2019 (COVID-19) Treatment Guidelines*. [Consulta: 30 de noviembre de 2022]. Disponible en: https://www.covid19treatmentguidelines.nih.gov/
10. Harris PA, Taylor R, Minor BL, Elliott V, et al. The REDCap consortium: building an international community of software platform partners. *J Biomed Inform.* 2019;95:103208.
11. Costamagna G, Abati E, Bresolin N, Comi GP, Corti S. Management of patients with neuromuscular disorders at the time of the SARS-CoV-2 pandemic. *J Neurol.* 2021;268(5):1580-91.
12. Guidon AC, Amato AA. COVID-19 and neuromuscular disorders. *Neurology.* 2020;94(22):959-69.

13. Chiesa V, Antony G, Wismar M, Rechel B. COVID-19 pandemic: health impact of staying at home, social distancing and 'lockdown' measures-a systematic review of systematic reviews. *J Public Health (Oxf)*. 2021;43(3):e462-81.
14. Damian MS, Members of the Executive Board of the WMS. *Covid-19 and people with neuromuscular disorders: World Muscle Society position and advice*. World Muscle Society. 2022. [Consulta: 30 de noviembre de 2022]. Disponible en: https://www.worldmusclesociety.org/file/a191281a-66a0-4071-b2f8-eba90363d6e4/2020-05-11-WMS-Covid-19-advice.pdf
15. Natera-de Benito D, Aguilera-Albesa S, Costa-Comellas L, García-Romero M, et al. COVID-19 in children with neuromuscular disorders. *J Neurol.* 2021;268(9):3081-5.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310214

Health checkups during the pandemic and clinical impact of COVID-19 in children with neuromuscular disease

M. Sol Fernández Sardá[a], *Manuela Dicembrino*[a], *Verónica Aguerre*[a]

ABSTRACT

Introduction. Children with neuromuscular disease (NMD) require chronic health care (CHC) and may develop severe COVID-19.

Objectives. To describe CHC for children with NMD during the pandemic and the course of COVID-19 in this group.

Population and methods. Prospective, single-center cohort. Patients aged 2 to 18 years with ≥ 1 year of follow-up prior to the pandemic were included. Demographic variables in relation to CHC and COVID-19 were collected from medical records and via telephone surveys.

Results. A total of 226 patients with a median age of 11.3 years were included; 71% were males. They had muscular dystrophy (55.7%) and spinal muscular atrophy (23%). When comparing the first year of the pandemic with the previous year, 30% did not have a health checkup and 25% did not receive kinesiotherapy. Others did, but with a lower frequency.

A total of 52 COVID-19 cases were reported; 82% were symptomatic: 88.4% were mild/moderate and 11.6%, severe. No patient died.

Conclusions. The pandemic had a negative impact on CHC, and COVID-19 cases were mostly mild.

Keywords: *COVID-19; lung disease; chronic disease; muscular dystrophies; lost-to-follow-up.*

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10214.eng

To cite: Fernández Sardá MS, Dicembrino M, Aguerre V. Health checkups during the pandemic and clinical impact of COVID-19 in children with neuromuscular disease. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310214.

[a] *Department of Pulmonology, Hospital de Pediatría S.A.M.I.C. Prof. Dr. Juan P. Garrahan, City of Buenos Aires, Argentina.*

Correspondence to *M. Sol Fernández Sardá: mariasolfs@gmail.com*

Funding*: None.*

Conflict of interest*: None.*

Received*: 9-6-2023*
Accepted*: 10-8-2023*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

INTRODUCTION

In March 2020, the World Health Organization declared the pandemic of COVID-19 (caused by SARS-CoV-2).[1] There is evidence that most of the pediatric population develops mild disease; however, children with neuromuscular disease (NMD) may not follow such trend.[2,3]

NMDs are characterized by the involvement of some component of the motor unit and their main manifestation is muscle weakness. The most frequent cause of hospitalization and death is acute and chronic respiratory failure, respectively. Appropriate respiratory interventions reduce morbidity and mortality and improve the quality of life.[4,5]

During the pandemic, Argentina established preventive and mandatory social isolation and preventive and mandatory social distancing policies,[6] particularly between March 2020 and March 2021, which in turn led to difficulties in access to health care for other conditions.[7]

The objective of this study was to describe the impact of the pandemic on access to chronic health care for children with NMD and the severity of COVID-19 in this population.

POPULATION AND METHODS

This was a descriptive, observational, prospective, and single-center cohort study. The study was approved by the hospital's Ethics and Teaching Research Committee.

Population

Pediatric patients with NMD receiving follow-up at Hospital Juan P. Garrahan in the City of Buenos Aires, Argentina. Consecutive sampling.

Inclusion criteria

- Patients aged 2 to 18 years with confirmed NMD.
- ≥ 1 year of follow-up prior to the implementation of the social isolation policy during the pandemic (March 2020).
- Consent for study participation.

Exclusion criteria

- Comorbidities not related to the underlying disease (primary immunodeficiency, Down syndrome, or adrenal insufficiency).
- Impossibility for contact after a maximum 10 phone calls or in-person visits.

The caregivers of children were contacted via phone call between 10/10/2021 and 03/30/2022. An oral informed consent was requested, and a survey was administered to assess the impact of the pandemic on chronic health care (March 2020-March 2021) and the clinical course of COVID-19 in those children who had presented with COVID-19 (*Supplementary material 1*). The first series of phone calls took place between October 2021 and January 2022. Caregivers who were contacted in that period received a second phone call between February and March 2022, due to the increase in COVID-19 cases related to the Omicron variant, to ask them again about a possible infection or reinfection by SARS-CoV-2 (*Supplementary material* 2).

Analyzed variables

- Data on demographic characteristics and baseline clinical condition were obtained from the medical records (MRs). Respiratory compromise: ventilation requirement at home and percentage of theoretical values of forced vital capacity (FVC %). Severe respiratory compromise was defined as the presence of a FVC < 50% of the predicted value or ventilatory support requirement. Other comorbidities: associated heart compromise, overweight (body mass index [BMI] > 1 standard deviation [SD]) or obesity (BMI > 2 SDs), and oral corticosteroid treatment.
- Access to health care: data collected from surveys. Chronic health care in the first year of the pandemic (March 2020-March 2021) was compared to the previous year. The following data were recorded: frequency of health checkups, frequency of kinesiotherapy, supplementary tests requested, therapeutic interventions, elective surgeries, and vaccinations.
- SARS-CoV-2 infection: data were collected from the surveys. COVID-19 cases were defined as those with a positive PCR or antigen test. The symptoms defined by the National Ministry of Health were recorded;[8] the severity of the disease was classified as mild, moderate, or severe according to the U.S. National Institutes of Health (NIH).[9] Hospitalization and mortality were recorded.

Statistical analysis

All data were recorded and stored in REDCap (version 12.1.2)[10] and analyzed using the R Studio software, version 4.2.1. Categorical variables were described as absolute value and percentage; while quantitative variables were expressed as

median and interquartile range depending on the sample distribution.

RESULTS

A total of 344 patients met the inclusion criteria. Two patients were excluded due to comorbidities not related to their underlying disease (1 had primary immunodeficiency and 1 had congenital adrenal hypoplasia) and 116 because in-person or phone contact was not possible. A total of 226 patients were included.

The demographic characteristics of patients are summarized in *Table 1*.

During the first year of the pandemic, all aspects related to health care were affected (*Table 2*).

The course of SARS-CoV-2 infection or disease is described in *Table 3.*

The 5 patients who referred a severe course of COVID-19 had Duchenne muscular dystrophy (DMD) (2/5), spinal muscular atrophy (SMA) (2/5) (1 had SMA type 2 and 1 had non-5q SMA), and Steinert's disease (1/5) as underlying disease; 3 had chronic ventilatory support requirement; 3 were female; and the median age was 14.3 years (5.8–16.8). All cases were referred during the first peak of the pandemic, associated with the Delta variant. Four patients

Table 1. Clinical characteristics of patients

Clinical characteristics	n = 226
Male - n (%)	161 (71.0)
Age - years old *	11.3 (8.5–14.8)
Underlying disease - n (%)	
Muscular dystrophies	126 (55.7)
DMD	83 (36.7)
Other	43 (19.0)
SMA	52 (23.0)
Congenital myopathies	45 (19.9)
Other NMDs	3 (1.3)

** Variable with non-normal distribution, described as median and interquartile range.*
DMD: Duchenne muscular dystrophy; SMA: spinal muscular atrophy; NMD: neuromuscular disease; n: number.

Table 2. Access to chronic health care between March 2020 and March 2021

Access to chronic health care	n = 226
Health checkups - n (%) *	
Not performed	72 (32.0)
Less frequent	108 (48.0)
Same frequency	45 (20.0)
Kinesiotherapy - n (%)	
Not performed	56 (24.8)
Less frequent	102 (45.1)
Same frequency	68 (30.1)
Supplementary tests - n (%) **	175 (77.4)
Not performed	96 (54.8)
Some tests	33 (18.8)
All tests	46 (26.3)
Elective surgery - n (%) ***	39 (17.2)
Not performed	14 (35.9)
Delayed	13 (33.3)
Performed	12 (30.8)
Flu vaccine - n (%) *	177 (78.6)

n: number.
Data referred by the patients' primary caregivers.
** n = 225*
*** n = 175 patients had indications for supplementary tests.*
**** n = 39 patients had scheduled elective surgeries.*

Table 3. Characteristics of patients and COVID-19 cases

Patients who presented with COVID-19	n = 47
Prior severe respiratory compromise - n (%)	17 (36.2)
Comorbidities - n (%)	
Overweight/obesity *	21 (45.6)
Prolonged corticosteroid use	15 (31.9)
COVID-19 vaccine - n (%) **	32 (68.0)
COVID-19 cases **	n = 52
Asymptomatic - n (%)	9 (17.3)
Symptomatic - n (%)	43 (82.7)
Fever	30 (69.7)
Headache	21 (48.8)
Nasal congestion	19 (44.1)
Cough	18 (41.8)
Symptom duration - days ***	3.5 (2–5)
NIH classification	
Mild	37 (86.0)
Moderate	1 (2.3)
Severe	5 (11.6)
Hospitalization - n (%)	10 (19.2)
Intensive care unit	3 (30)
Length of stay - days ***	6 (4–11)
COVID-19 deaths	0 (0)

n: number.
NIH: United States National Institutes of Health.
** n = 46*
*** Data referred by the patients' primary caregivers.*
**** Variable with non-normal distribution, described as median and interquartile range.*

referred that they had not received the COVID-19 vaccine at the time of the infection. All patients referred a lower frequency or complete interruption of health checkups and kinesiotherapy.

DISCUSSION

Here we describe the results of a prospective, single-center cohort of children with NMD followed at a tertiary care children's hospital.

The general guideline in the follow-up of patients with NMD during the pandemic was that they continue to receive their usual medication and therapies.[11,12] In our study, a negative impact on access to chronic health care was observed in 80% of patients during the first year of the pandemic. This finding is consistent with other published studies, which showed the same results in the general population,[13] particularly in patients with NMD, who are considered a risk group.[3,11] Hospital treatments, such as the administration of nusinersen in children with SMA or elective surgeries, were affected, on the one hand, because hospital attendance was considered a risk situation for COVID-19 infection[11] and, on the other hand, because resources were redistributed to respond to emergency and critical care. The frequency of kinesiotherapy was affected in 70% of our patients. Telemedicine was introduced strategically and gradually as an alternative to continue with the usual therapies for patients with NMD.[11]

Regarding the course of COVID-19, a national. multicenter study (n = 2690) reported that 67% of pediatric cases were asymptomatic or mild. Among those who were hospitalized (n = 1542), 7.4% had a severe or critical course, mostly due to comorbidities, such as chronic neurological disease.[3]

Patients with NMD are part of the vulnerable group for severe COVID-19; according to some authors, children with respiratory muscle weakness and restrictive disease, ventilatory support requirement, oropharyngeal weakness, use of immunosuppressive treatments, and

presence of severe comorbidities are at higher risk.[11,12,14]

In our study, we observed that 11% of the cases presented a severe form of COVID-19. Consistent with this, a multicenter study conducted in Spain, which recruited 29 children with NMD and COVID-19, reported that 90% developed mild symptoms; the 3 patients with greater involvement had a diagnosis of type 1 SMA and were 1 to 3 years old.[15]

According to our results, we may assume that pediatric age would act as a protective factor attenuating the severity of COVID-19, even in patients with previous respiratory compromise.

This is the first study conducted at the national level that analyzed 2 relevant issues during the pandemic: accessibility to health care and COVID-19-associated morbidity in a cohort of children with NMD. Due to the epidemiological dynamics observed in the study period, the variables related to COVID-19 were measured at 2 different times, in terms of predominant serotypes and the possibility of active immunization, which could have led to a different clinical course.

This study has limitations: 33% of the children who met the inclusion criteria could not be contacted; nevertheless, a considerable number of patients were included. The number of COVID-19 cases was low, so statistical inference tests were not applied, and the results are descriptive. An *ad-hoc* survey was used for the purposes of the study because there were no validated tools available. Finally, due to their nature, surveys may be affected by an information bias.

CONCLUSIONS

The SARS-CoV-2 pandemic led to a marked reduction in access to chronic health care in this population. Most children with NMD developed a mild form of COVID-19. ■

Acknowledgments

The authors would like to thank the Epidemiological, Clinical, and Operational Research Methods Program (Programa de Métodos en Investigación Epidemiológica, Clínica y Operativa, MECOR) for their help with this article.

Supplementary material available at: https://www.sap.org.ar/docs/publicaciones/ archivosarg/2024/10214_CB_Fernandez-Sarda_ Anexo.pdf

REFERENCES

1. Organización Mundial de la Salud. *Nuevo coronavirus 2019*. [Accessed on: November 30th, 2022]. Available at: https://www.who.int/es/emergencies/diseases/novel-coronavirus-2019
2. Centers for Disease Control and Prevention. *Information for pediatric healthcare providers*. CDC. 2022. [Accessed on: November 30th, 2022]. Available at: https://www.cdc.gov/coronavirus/2019-ncov/hcp/pediatric-hcp.html
3. Gentile Á, Juárez M del V, Romero Bollón L, Cancellara AD, et al. Estudio multicéntrico de casos confirmados de COVID-19: datos preliminares de 2690 pacientes pediátricos en Argentina durante el primer año de la pandemia. *Arch Argent Pediatr.* 2022;120:80–8.
4. Comité de Neumonología, Grupo de Trabajo de Kinesiología, Grupo de Trabajo de Discapacidad, Comité de Gastroenterología, Comité de Nutrición de la Sociedad Argentina de Pediatría. Consenso de cuidados respiratorios en enfermedades neuromusculares en niños. *Arch Argent Pediatr.* 2014;112(Supl):91-111.
5. Hull J, Aniapravan R, Chan E, Chatwin M, et al. British Thoracic Society guideline for respiratory management of children with neuromuscular weakness. *Thorax.* 2012;67 Suppl 1:i1-40.
6. Argentina. Ministerio de Salud. *Otras medidas de gobierno*. 2020. [Accessed on: November 30th, 2022]. Available at: https://www.argentina.gob.ar/coronavirus/medidas-gobierno/otras
7. Gualano MR, Corradi A, Voglino G, Bert F, Siliquini R. Beyond COVID-19: a cross-sectional study in Italy exploring the covid collateral impacts on healthcare services. *Health Policy.* 2021;125(7):869-76.
8. Argentina. Ministerio de Salud. *Nueva actualización de la definición de caso sospechoso COVID 19*. 31 mayo 2021. [Accessed on: November 30th, 2022]. Available at: https://www.argentina.gob.ar/noticias/nueva-actualizacion-de-la-definicion-de-caso-sospechoso-de-covid-19-0
9. National Institutes of Health. *Coronavirus Disease 2019 (COVID-19) Treatment Guidelines*. [Accessed on: November 30th, 2022]. Available at: https://www.covid19treatmentguidelines.nih.gov/
10. Harris PA, Taylor R, Minor BL, Elliott V, et al. The REDCap consortium: building an international community of software platform partners. *J Biomed Inform.* 2019;95:103208.
11. Costamagna G, Abati E, Bresolin N, Comi GP, Corti S. Management of patients with neuromuscular disorders at the time of the SARS-CoV-2 pandemic. *J Neurol.* 2021;268(5):1580-91.
12. Guidon AC, Amato AA. COVID-19 and neuromuscular disorders. *Neurology.* 2020;94(22):959-69
13. Chiesa V, Antony G, Wismar M, Rechel B. COVID-19 pandemic: health impact of staying at home, social distancing and 'lockdown' measures-a systematic review of systematic reviews. *J Public Health (Oxf).* 2021;43(3):e462-81.
14. Damian MS, Members of the Executive Board of the WMS. *Covid-19 and people with neuromuscular disorders: World Muscle Society position and advice.* World Muscle Society. 2022. [Accessed on: November 30th, 2022]. Available at: https://www.worldmusclesociety.org/file/a191281a-66a0-4071-b2f8-eba90363d6e4/2020-05-11-WMS-Covid-19-advice.pdf
15. Natera-de Benito D, Aguilera-Albesa S, Costa-Comellas L, García-Romero M, et al. COVID-19 in children with neuromuscular disorders. *J Neurol.* 2021;268(9):3081-5.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202303026

Violencia y maltrato infantil. El aporte del médico radiólogo al abordaje integral multidisciplinario

María C. Branda[a], *Loreley Fernández*[a]

RESUMEN

El maltrato infantil es definido por la Organización Mundial de la Salud (OMS) como "el abuso y la desatención que sufren los niños menores de 18 años. Incluye todo tipo de maltrato físico y/o emocional […] que resulte en un daño real o potencial para la salud, la supervivencia, el desarrollo o la dignidad del niño".

Al examinar los rastros corporales del maltrato físico, siguiendo los mecanismos de lesión más frecuentemente implicados, es posible detectar patrones radiológicos típicos. La evaluación imagenológica del hueso en reparación permite inferir cronologías para correlacionar con los datos obtenidos en la anamnesis. Los profesionales de la salud deben detectar oportunamente lesiones radiológicas sospechosas y activar de forma temprana el resguardo del menor.

Nuestro propósito es realizar una revisión sobre las publicaciones recientes referidas al estudio imagenológico en niños de quienes se sospeche que puedan ser víctimas de violencia física.

Palabras clave: *abuso infantil; fracturas óseas; síndrome del bebé sacudido.*

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-03026
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-03026.eng

Cómo citar: Branda MC, Fernández L. Violencia y maltrato infantil. El aporte del médico radiólogo al abordaje integral multidisciplinario. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202303026.

[a] *Servicio de Diagnóstico por Imágenes, Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.*

***Correspondencia para** María C. Branda: cecibranda@gmail.com*

***Financiamiento**: Ninguno.*

***Conflicto de intereses**: Ninguno que declarar.*

***Recibido**: 6-2-2023*
***Aceptado**: 3-4-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

INTRODUCCIÓN

En la serie "Violencia contra niñas, niños y adolescentes (NNyA)", Unicef define la violencia como una forma de ejercicio del poder mediante el empleo de la fuerza (física, psicológica, económica, política, sexual, etc.), con consecuencias individual y socialmente nocivas, que implica la existencia de una asimetría de poder de quien ejerce la violencia hacia quien no puede defenderse o repelerla.[1]

El seguimiento a largo plazo de víctimas de abuso infantil ha arrojado datos significativos que muestran tasas más altas, en comparación con la población infantil general, de déficit intelectual, afectación académica con una mayor incidencia de conductas agresivas o dificultades sociales en aquellos niños que han sufrido uno o más episodios en su vida.[2]

La OMS estima que, en algunas partes del mundo, el homicidio de lactantes y niños pequeños es más del doble que el de niños mayores, de entre 5 y 14 años. Esta tasa de homicidios es mayor en África (4/100 000), seguida de Norteamérica (3,4/100 000), América Latina (1,7/100 000) y finalmente Europa (1,3/100 000).[3]

En Argentina, durante el período comprendido entre octubre de 2020 y septiembre de 2021, se registraron 45 589 llamados a la línea 102 (dispositivo federal de atención especializada sobre los derechos de niñas, niños y adolescentes). En orden de frecuencia, los principales motivos de consulta fueron el maltrato físico, la negligencia, consultas legales, abuso sexual, maltrato psicológico, maltrato emocional y abandono.[4]

El abordaje del maltrato infantil requiere un enfoque multidisciplinario. En nuestro país, cada institución de salud establece la forma de proceder ante un niño con sospecha de maltrato, tomando en consideración los protocolos vigentes a nivel mundial. En un futuro sería de gran importancia la creación de un consenso nacional que abarque todos los pasos que deben recorrer los NNyA con vulneración de derechos desde su primer contacto con el equipo de salud.

En relación con las responsabilidades legales, el artículo 30 de la ley 26061 establece que el equipo de salud tiene el deber de comunicar a las autoridades correspondientes el conocimiento de vulneración de derechos de NNyA, bajo apercibimiento de incurrir en la responsabilidad por dicha omisión.[5]

Dentro del enfoque multidisciplinario, el médico radiólogo representa un eslabón fundamental en el diagnóstico: debe saber reconocer las lesiones esqueléticas que puedan sugerir maltrato físico con la posibilidad de diferenciarlas de otras de mecanismo accidental y tiene la obligación legal de informarlo. Asimismo, debe asegurar que las condiciones de adquisición de las imágenes sean óptimas y repetir o adicionar imágenes o incidencias que sean necesarias para el abordaje integral de la especialidad. El fracaso en la oportunidad de detección radiológica de estas lesiones esqueléticas podría ser motivo para que el niño sea expuesto nuevamente a un ambiente peligroso y potencialmente fatal.[6]

CRIBADO RADIOLÓGICO INICIAL Y DE SEGUIMIENTO

Luego de las cutáneas, las fracturas constituyen las segundas lesiones, en frecuencia, detectadas en niños víctimas de abuso físico.[7] La falta de correlación entre las lesiones que presenta el niño y el relato de lo ocurrido por parte de los padres o tutores debe siempre generarle al pediatra un manto de sospecha. Algunas fracturas en la infancia son altamente específicas o fuertemente sugerentes de ser lesiones no accidentales (fracturas costales posteriores, metafisarias, escapulares, esternales y de los procesos espinosos vertebrales) y pueden, en algunos casos, comportarse como silentes desde el punto de vista clínico.[8]

Varias publicaciones en la literatura médica ofrecen un algoritmo para el cribado radiológico de lesiones óseas, a fin de realizar una evaluación inicial integral en aquellos pacientes pediátricos de quienes se sospecha que puedan ser víctimas de abuso físico.[5] *The American College of Radiology* (ACR) describe al menos 21 incidencias radiológicas convencionales que deben realizarse a niños menores de 2 años de quienes se sospeche que podrían ser víctimas de traumatismo no accidental. Incluye las siguientes incidencias axiales:

- Anteroposterior (AP) y lateral de cráneo.
- Lateral de la columna cervical.
- AP, lateral, oblicua derecha e izquierda de tórax.
- Lateral de columna lumbosacra.
- AP de abdomen y pelvis.

Y las siguientes incidencias de miembros superiores e inferiores:

- AP de húmeros.
- AP de antebrazos (incluido codo y muñeca).
- AP de manos.

- AP de fémures.
- AP de ambas tibias (incluida rodilla y tobillo).
- AP de pies.[5]

Es importante recordar que, debido a la alta exposición a la radiación, resulta imprescindible, dentro del rol del médico radiólogo, tomar todas las precauciones necesarias para el cuidado del paciente. Se deberá utilizar una técnica adecuada, de alta resolución, con bajas dosis de radiación, utilizando colimador y protección plomada que limite la radiación a las áreas de interés, con especial énfasis, cuando sea posible, en el cuidado del área gonadal.[9]

Estas imágenes iniciales deben adquirirse idealmente durante las primeras 24 horas desde la sospecha y deben ser evaluadas dentro de las 24 horas de adquiridas por 2 médicos radiólogos con experiencia en imágenes pediátricas, quienes podrían adicionar, en caso de ser necesario, alguna imagen o incidencia complementaria.[10]

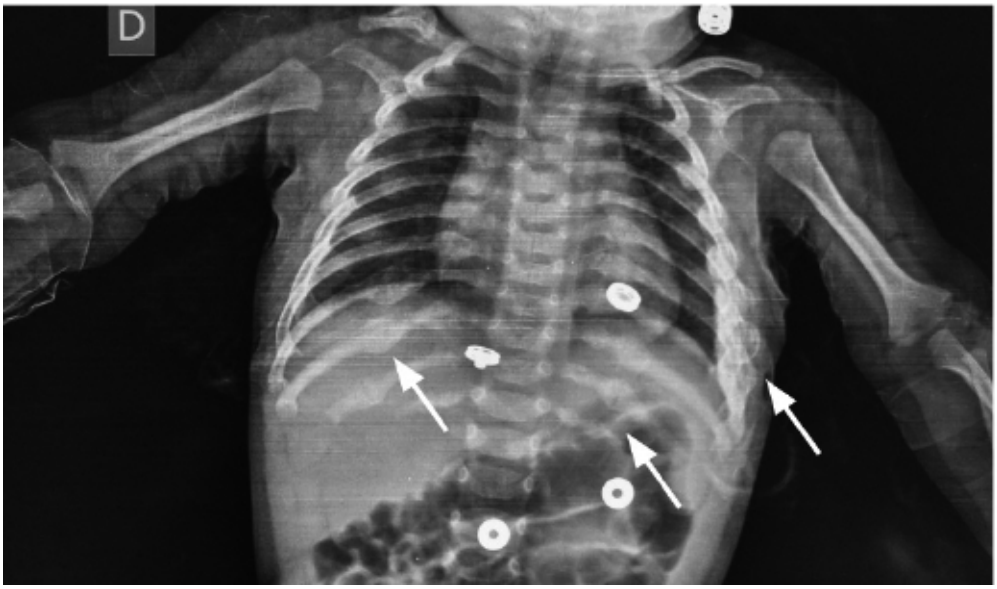
Al momento de analizar las imágenes, es mandatorio conocer cómo es la evolución radiológica de una lesión ósea: la osificación subperióstica se identifica desde los 4 días, con pico a los 10-14 días; la absorción del trazo fracturario y la aparición del callo blando, luego de 14-21 días; el callo duro tiene pico de presentación entre los 21-42 días luego de la lesión. El estadio final de remodelación ósea recién será esperable luego de transcurrido 1 año del evento. En este punto, es interesante aclarar que dichos hallazgos no aplican de forma inequívoca a lesiones metafisarias, en las que un 20 % puede normalizarse en el seguimiento a las 2 semanas; la mayoría se repara a los 3 meses sin dejar secuela.[7]

En algunos casos, resulta dificultoso el diagnóstico radiológico inicial, por lo que están descritas las imágenes radiográficas de seguimiento (11 a 14 días luego de las iniciales) para evaluar evolución y así llegar a conclusiones firmes. Esto puede aplicarse con especial utilidad en costillas y miembros; se excluye la incidencia de cráneo, las columnas cervical y lumbosacra, y la pelvis si en el primer cribado realizado no se encontraron lesiones óseas.[10]

Para realizar una correcta interpretación de las lesiones, además de identificarlas y estimar su antigüedad, es fundamental que el radiólogo infantil conozca la edad del niño y sus antecedentes médicos, para poder discernir el mecanismo implicado en la lesión.[7] Debe excluir diagnósticos diferenciales que puedan ocasionar lesiones similares, teniendo en cuenta el relato de lo sucedido y la historia clínica del paciente.[7] Tiene, además, la responsabilidad de redactar informes completos, precisos y que resulten claros para todo el equipo de salud.[9]

Resulta relevante acotar que, en caso de diagnóstico de maltrato infantil, las mismas

Figura 1. Fracturas en arcos costales



Radiografía de tórax de frente. Se observan múltiples fracturas de arcos costales medios y posteriores (flechas).

indicaciones de cribado radiológico son sugeridas para aplicarlas a menores de 2 años convivientes, que también estén en riesgo de ser víctimas de maltrato.[10]

Por último, en relación con la evaluación cráneo-cerebral, debido a que las lesiones cerebrales pueden ser clínicamente ocultas, la Academia Americana de Pediatría (AAP) aconseja fuertemente la realización de una tomografía computada (TC) de cerebro sin contraste en niños menores de 1 año con sospecha de abuso físico.[8]

LESIONES ESPECÍFICAS DE MALTRATO INFANTIL

Ya en el año 1946 John Caffey describió la asociación de múltiples fracturas en huesos largos y la presencia de hematoma subdural en niños víctimas de maltrato, y en 1957 adicionó las fracturas metafisarias.[11]

La AAP describe lesiones óseas altamente específicas de maltrato físico: las fracturas costales posteriores, las clásicas fracturas metafisarias, las escapulares, esternales y de los procesos espinosos vertebrales.[8]

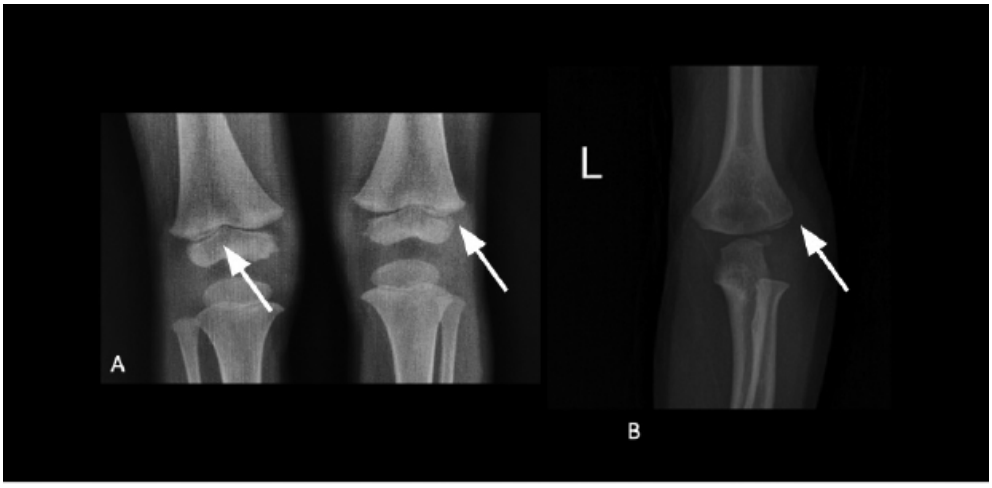
En relación con el mecanismo de producción de las fracturas costales posteriores, se dan en lactantes sostenidos firmemente en el tórax y sacudidos con fuerza. Fue descrito en 1972 por Caffey, dentro del "síndrome del niño sacudido".[12] Por otro lado, las clásicas fracturas metafisarias son las que involucran la capa esponjosa primaria de las metáfisis y son resultado del tironeo y torcedura del miembro de forma vigorosa. Dependiendo de la incidencia radiológica, son identificadas las lesiones con apariencia en "asa de balde" o "en esquina".[8] Por último, las fracturas escapulares, esternales y de apófisis espinosas son producto de lesiones por golpe directo.[7]

La presencia de múltiples fracturas y en distintos tiempos de curación son descriptas por la AAP como de moderado riesgo. Deben ser analizadas en relación con la edad y los antecedentes clínicos, considerándose siempre el maltrato como diagnóstico diferencial. Lo mismo aplica para las separaciones epifisarias, fracturas craneanas complejas, fracturas de cuerpos vertebrales y digitales.[8]

Si bien las fracturas más frecuentes en niños víctimas de maltrato son las diafisarias de huesos largos, estas son descritas como de baja especificidad para maltrato, al igual que las claviculares, las craneales lineales y la neoformación ósea subperióstica. Es importante destacar que estas lesiones deberán ser contextualizadas considerando la edad del niño, los antecedentes, la correlación entre la lesión y los datos obtenidos, y la presencia de otras lesiones.[8]

En cuanto a las lesiones craneanas e intracerebrales como consecuencia de maltrato físico, se dan por 2 mecanismos principales: pueden deberse a impacto directo en el cráneo –que provoca trazos fracturarios craneales

Figura 2. Fracturas metafisarias



Radiografías de frente de ambas rodillas y de codo izquierdo. Se visualizan fracturas metafisarias en "asa de balde" (flechas), distales de fémures (A) y distal de húmero (B).

Figura 3. Lesiones encefálicas



Tomografía computada de cráneo sin contraste, imágenes axiales. A: Hematoma subdural (flecha) con desplazamiento de línea media. B: Hemorragia subaracnoidea (flecha).

y lesiones cerebrales adyacentes– o por el mecanismo de sacudida, caracterizado por ocasionar hematomas subdurales de distribución difusa y lesiones parenquimatosas.[13] Este último mecanismo de sacudida, ya descrito en asociación a fracturas costales paravertebrales, obliga además a realizar un fondo de ojos para pesquisar hemorragias retinianas.[12]

Por último, dentro de las lesiones abdominales, se encuentran perforaciones de asas intestinales, hematoma duodenal o yeyunal, laceraciones hepáticas, esplénicas y pancreáticas. Si bien no son específicas de lesiones por maltrato, se han reportado como la segunda causa de mortalidad en abuso infantil.[3] Los mecanismos de lesión en general implican golpes directos sobre el abdomen o fuerza brusca de desaceleración y son más frecuentes de encontrar en niños que deambulan.[14] Si bien la ecografía de abdomen es el primer estudio para realizar ante la sospecha de maltrato con lesión abdominal, la TC de abdomen con contraste endovenoso es el estudio indicado.[3]

DIAGNÓSTICOS DIFERENCIALES

Resulta relevante mencionar algunas particularidades del desarrollo óseo y variantes de la normalidad que pueden simular lesiones por maltrato. A modo de ejemplo, dentro de las imágenes que provocan mayor confusión, se encuentran la reacción perióstica fisiológica de huesos largos muy marcada en algunos lactantes; la persistencia de la sutura metópica, escamosa, la sincondrosis occipital y los centros de osificación esternales.[15]

Existen, además, condiciones patológicas con lesiones similares a las vinculadas con maltrato infantil: las alteraciones metafisarias propias de la osteogénesis imperfecta, el raquitismo, la sífilis y las displasias óseas; la formación ósea subperióstica de la enfermedad de Caffey, la leucemia y la osteomielitis; hematomas subdurales intracraneales en contexto de partos distócicos.[15]

La gran mayoría de estas condiciones pueden identificarse habiendo realizado una evaluación integral, recabado exhaustivamente el historial clínico del paciente y evaluado minuciosamente las imágenes.

CONCLUSIONES

Las fracturas ocupan el segundo lugar entre las lesiones detectadas en niños que son víctimas de abuso físico. En menores de 2 años, las lesiones óseas pueden comportarse clínicamente silentes, por lo que se ha descrito un cribado

inicial de radiografías esqueléticas, al que se adiciona en menores de 1 año la indicación de una TC craneoencefálica.

El abordaje de NNyA que son víctimas de maltrato es multidisciplinario. La falta de correlación entre las lesiones y el relato de lo ocurrido por parte de sus cuidadores debe alertar al pediatra, quien trabajará en conjunto con el médico radiólogo infantil con la finalidad de reconocer las lesiones óseas, en especial las de mayor especificidad para maltrato físico. El trabajo en conjunto permitirá, además, la evaluación integral para descartar otros diagnósticos diferenciales.

El equipo de salud es responsable legalmente en la detección de situaciones de abuso infantil y en la comunicación a las autoridades correspondientes. El fracaso podría tener consecuencias graves o fatales en las infancias. ■

Agradecimientos

Al Dr. Luciano Di Agresti, abogado del Gobierno de la Ciudad de Buenos Aires, por facilitar datos estadísticos actualizados que fueron de gran relevancia para la confección del artículo.

REFERENCIAS

1. Fondo de las Naciones Unidas para los Niños (UNICEF). Un análisis de los datos del Programa. Las Víctimas contra Las Violencias. 2020-2021. Serie Violencia contra niños, niñas y adolescentes. N° 9. 2021. [Acceso: 18 de enero de 2023]. Disponible en https://www.unicef.org/argentina/media/12506/file/Factsheet%20Nro.9%20-%20Serie%20Violencia%20contra%20ni%C3%B1os,%20ni%C3%B1as%20y%20adolescentes.pdf
2. Troiano M. Child Abuse. *Nurs Clin North Am.* 2011; 46(4):413-22.
3. Stoopen M, García Mónaco R, Moënne K. Avances en Diagnóstico por imágenes: urgencias pediátricas. Ciudad Autónoma de Buenos Aires: Journal, 2015.
4. Secretaría Nacional de Niñez, Adolescencia y Familia. Informe Llamadas a las líneas provinciales de atención especializada en derechos de niñas, niños y adolescentes. Ciudad Autónoma de Buenos Aires: Ministerio de Desarrollo Social, 2021. [Acceso: 18 de enero de 2023]. Disponible en: https://www.argentina.gob.ar/sites/default/files/senaf_-_informe_de_llamadas_linea_102_22_dic_2021.pdf
5. Argentina. Ministerio de Salud. Lineamientos para el abordaje de las violencias contra niños, niñas y adolescentes desde el sistema de salud. Ciudad Autónoma de Buenos Aires: MINSAL, 2015.
6. The American College of Radiology. ACR-SPR Practice parameter for the performance and interpretation of skeletal surveys in children. 2021. [Acceso: 18 de enero de 2023]. Disponible en: https://www.acr.org/-/media/ACR/Files/Practice-Parameters/Skeletal-Survey.pdf
7. Marine MB, Forbes-Amrhein MM. Fractures of child abuse. *Pediatr Radiol.* 2021; 51(6):1003-13.
8. Flaherty EG, Perez-Rossello JM, Levine MA, Hennrikus WL, et al. Evaluating children with fractures for child physical abuse. *Pediatrics.* 2014; 133(2):e477-89.
9. Wanner MR, Marine MB, Hibbard RA, Ouyang F, et al. Compliance With Skeletal Surveys for Child Abuse in General Hospitals: A Statewide Quality Improvement Process. *AJR Am J Roentgenol.* 2019; 212(5):976-81.
10. The Royal College of Radiologists. The radiological investigation of suspected physical abuse in children. 2017. [Acceso: 18 de enero de 2023]. Disponible en: https://www.rcr.ac.uk/publication/radiological-investigation-suspected-physical-abuse-children
11. Roche AJ, Fortin G, Labbé J, Brown J, Chadwick D. The Work of Ambroise Tardieu: The first definitive description of child abuse. *Child Abuse Negl.* 2005; 29(4):325-34.
12. Rufo Campos M. El síndrome del niño sacudido. *Cuad Med Forense.* 2006; 12(43-44):39-45.
13. Donnelly L. Diagnóstico por Imagen: Pediatría. 2nd ed. Madrid: Marbán, 2013.
14. Manan MR, Rahman S, Komer L, Manan H, Iftikhar S. A Multispecialty Approach to the Identification and Diagnosis of Nonaccidental Trauma in Children. *Cureus*. 2022; 14(7):e27276.
15. Delgado Álvarez I, Barber Martínez de la Torre I, Vázquez Méndez É. El papel del radiólogo ante el niño maltratado. Protocolo de imagen y diagnóstico diferencial. *Radiología.* 2016; 58(S2):119-28.

Special article

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202303026

Child maltreatment and violence. Contributions from radiologists to a comprehensive multidisciplinary approach

María C. Branda[a], *Loreley Fernández*[a]

ABSTRACT

The World Health Organization (WHO) defines child maltreatment as "the abuse and neglect that occurs to children under 18 years of age. It includes all types of physical and/or emotional ill-treatment [...], which results in actual or potential harm to the child's health, survival, development or dignity."

By examining the bodily traces of physical abuse, following the most frequently involved mechanisms of injury, it is possible to identify typical radiological patterns. The imaging studies of the bone under repair allows inferring a timeline that may be correlated to the data obtained during history taking. Health care providers should detect suspicious radiological lesions in a timely manner and promptly activate the safeguarding of the child.

Our objective was to review recent publications on the imaging studies of children suspected of being victims of physical violence.

Keywords: *child abuse, fractures; shaken baby syndrome.*

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-03026.eng

To cite: Branda MC, Fernández L. Child maltreatment and violence. Contributions from radiologists to a comprehensive multidisciplinary approach. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202303026.

[a] *Department of Diagnostic Imaging, Hospital de Niños Ricardo Gutiérrez, City of Buenos Aires, Argentina.*

Correspondence to *María C. Branda: cecibranda@gmail.com*

Funding*: None.*

Conflict of interest*: None.*

Received*: 2-6-2023*
Accepted*: 4-3-2023*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

INTRODUCTION

In their series titled "Violence against children and adolescents," the UNICEF defines violence as a form of exercising power through the use of force (physical, psychological, economic, political, sexual, etc.), with individually and socially harmful consequences, which implies the presence of an asymmetry of power between the one who exercises violence and the one who cannot defend themselves or repel it.[1]

The long-term follow-up of child abuse victims has yielded significant data showing higher rates, compared to the general child population, of intellectual deficit, academic impairment, and a higher incidence of aggressive behaviors or social difficulties among those children who have suffered one or more episodes in their lifetime.[2]

The WHO estimates that, in some parts of the world, the homicide of infants and young children more than doubles that of older children, aged 5–14 years. The rate of these homicides is higher in Africa (4/100 000), followed by North America (3.4/100 000), Latin America (1.7/100 000), and finally Europe (1.3/100 000).[3]

In Argentina, between October 2020 and September 2021, a total of 45 589 calls to the 102 hotline (the federal system of specialized care for the rights of children and adolescents) were recorded. In order of frequency, the main reasons for consultation were physical abuse, neglect, legal questions, sexual abuse, psychological abuse, emotional abuse, and neglect.[4]

Addressing child maltreatment requires a multidisciplinary approach. In Argentina, each health care facility establishes how to proceed when faced with a child suspected of abuse, taking into consideration the protocols in force worldwide. In the future, it would be very relevant to develop a national consensus that covers all the steps that children and adolescents whose rights are violated must go through, since their first contact with the health care team.

In relation to legal responsibilities, section 30 of Act 26061 establishes that the health care team is obligated to report any case of violation of the rights of children and adolescents to the corresponding authorities, under penalty of incurring in a liability for any such omission.[5]

Within the multidisciplinary approach, radiologists play a fundamental role in diagnosis: they must be able to recognize skeletal lesions that may suggest physical maltreatment with the possibility of differentiating them from others resulting from accidents and are legally obligated to report them. Likewise, radiologists must ensure optimal imaging conditions and repeat or add any images or incidences necessary for the comprehensive approach of their specialty. Failure to timely detect these skeletal lesions in the X-rays may result in the child being re-exposed to a dangerous and potentially fatal environment.[6]

INITIAL AND FOLLOW-UP X-RAY SCREENING

After skin lesions, bone fractures are the second most common lesions detected in child victims of physical abuse.[7] The lack of correlation between the lesions in the child and the account of what happened by the parents or legal guardians should always lead to suspicion by pediatricians. Some fractures in childhood are highly specific or strongly suggestive of being non-accidental injuries (posterior rib, metaphyseal, scapular, sternal, and spinous process fractures) and, in some cases, they are clinically silent.[8]

Several publications in the medical literature have provided an algorithm for X-ray screening of bone lesions for a comprehensive initial assessment of pediatric patients suspected of being victims of physical abuse.[5] The American College of Radiology (ACR) describes at least 21 conventional X-ray images that should be obtained in children under 2 years of age who are suspected victims of non-accidental trauma. They include the following axial images:

- Anteroposterior (AP) and lateral views of the skull.
- Lateral view of the cervical spine.
- AP, lateral, right and left oblique views of the chest.
- Lateral view of the lumbosacral spine.
- AP view of the abdomen and pelvis.

And the following images of upper and lower extremities:

- AP view of the humerus.
- AP view of the forearms (including elbow and wrist).
- AP view of the hands.
- AP view of the femora.
- AP view of the tibiae (including knee and ankle).
- AP view of the feet.[5]

It is important to note that, due to the high exposure to radiation, it is essential, within the role of radiologists, to take all the necessary precautions regarding patient care. An appropriate technique should be used, considering a high

resolution and low radiation doses, using a collimator and lead shield that limits radiation to the areas of interest, with special emphasis, whenever possible, on protecting the gonadal area.[9]

These initial images should ideally be acquired within 24 hours of suspicion and should be assessed within 24 hours of obtaining them by 2 radiologists with experience in pediatric imaging, who may add, if necessary, a complementary image or incidence.[10]

When analyzing the images, it is mandatory to know the radiological course of bone lesions: subperiosteal ossification is identified after 4 days, with a peak at 10–14 days; the absorption of the fracture line and the development of a soft callus, after 14–21 days; and a hard callus has a peak presentation between 21–42 days after the lesion. The final stage of bone remodeling can only be expected 1 year after the event. At this point, it is worth clarifying that such findings do not apply unequivocally to metaphyseal lesions; approximately 20% of these may normalize at follow-up at 2 weeks and most are repaired at 3 months without sequelae.[7]

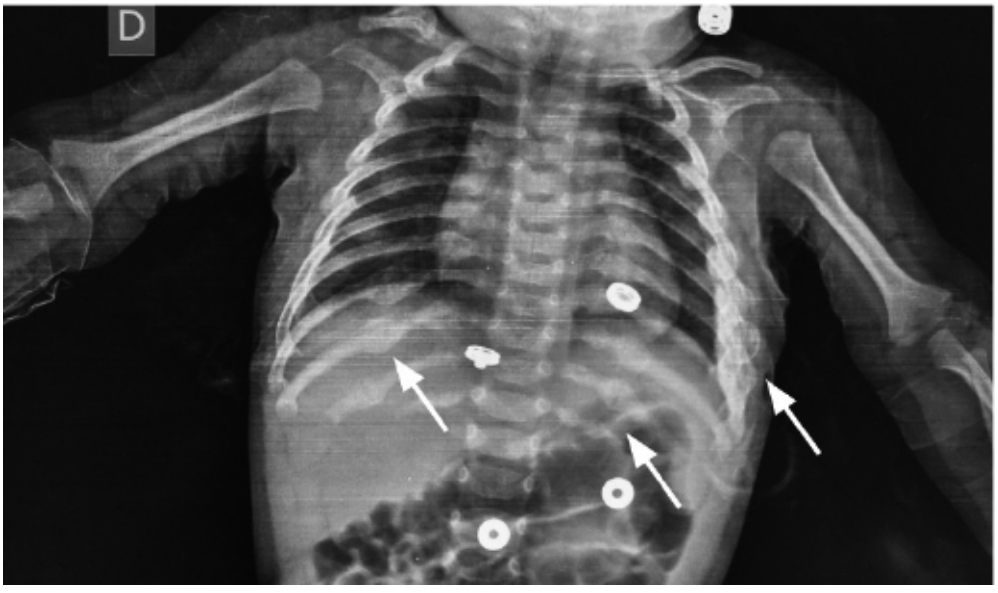
In some cases, the initial radiological diagnosis is difficult, so follow-up X-ray images (11 to 14 days after the initial ones) have been indicated to assess the course of the lesion and thus reach firm conclusions. This may be considered particularly when examining ribs and extremities; images of skull, cervical and lumbosacral spine, and pelvis are excluded if no bone lesions were observed in the initial screening.[10]

In order to perform a correct interpretation of the lesions, in addition to identifying them and estimating their age, it is critical for pediatric radiologists to know the child's age and medical history, in order to establish the mechanism involved in the lesion.[7] They should rule out differential diagnoses that may cause similar lesions, considering the account of what happened and the patient's medical history.[7] In addition, radiologists are also responsible for writing complete, accurate, and clear reports for the entire health care team.[9]

It is important to note that, in case of diagnosing child abuse, the same X-ray screening indications should be applied to all children under 2 years of age living in the same household, who may also be at risk of being victims of abuse.[10]

Finally, regarding brain and skull assessment, given that brain injuries may be clinically masked, the American Academy of Pediatrics (AAP) strongly advises performing a computed tomography (CT) scan of the brain without contrast in children under 1 year of age suspected of being victims of physical abuse.[8]

Figure 1. Fractures of rib curvatures



Frontal X-ray of the chest. Multiple fractures of middle and posterior rib curvatures (arrows).

SPECIFIC LESIONS FROM CHILD MALTREATMENT

As early as 1946, John Caffey described the association of multiple fractures in long bones and the presence of subdural hematoma in abused children; in 1957, he added metaphyseal fractures.[11]

The AAP describes highly specific bone lesions resulting from physical abuse: posterior rib fractures, typical metaphyseal fractures, scapular fractures, sternal fractures, and spinous process fractures.[8]

Regarding the mechanism of posterior rib fractures, they occur in infants firmly held at the level of the chest and shaken forcefully. This was described by Caffey as part of the "shaken baby syndrome" in 1972.[12] In addition, typical metaphyseal fractures are those that involve the primary spongy layer of the metaphyses and are the result of vigorous pulling and twisting of the extremity. Depending on the X-ray image, lesions with a "bucket handle" or "corner" fracture may be identified.[8] Finally, scapular, sternal, and spinous process fractures are the result of direct blows.[7]

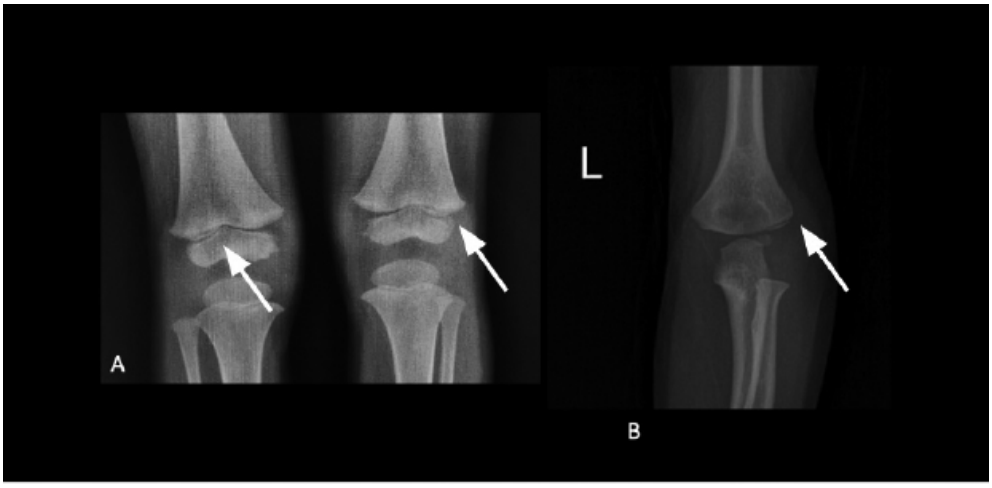
The presence of multiple fractures and different healing times have been described by the AAP as indicating a moderate risk. Such fractures should be analyzed in relation to the patient's age and medical history, and maltreatment should always be taken into account as a differential diagnosis. The same applies to epiphyseal separations, complex skull fractures, vertebral body fractures, and digital fractures.[8]

Although the most frequent fractures in child victims of abuse are diaphyseal fractures of long bones, these have been described as having a low specificity for abuse, like clavicle fractures, linear skull fractures, and subperiosteal bone neoformations. It is worth noting that these lesions should be considered in the context of the child's age, medical history, the correlation between the lesion and the data obtained, and the presence of other lesions.[8]

In relation to skull and brain injuries as a consequence of physical abuse, they usually result from 2 main mechanisms: they may be due to direct impact on the skull—which causes skull fracture traces and adjacent brain injuries—or due to a shaking mechanism, characterized by causing diffusely distributed subdural hematomas and parenchymal lesions.[13] This last shaking mechanism, that has already been described in association with paravertebral rib fractures, also makes it necessary to perform a fundus of the eye to screen for retinal hemorrhage.[12]

Finally, abdominal injuries include perforation of intestinal loops, duodenal or jejunal hematoma, liver, splenic, and pancreatic lacerations. Although these are not specific to lesions from abuse, they have been reported as the second leading cause of mortality in child abuse.[3] In general, the mechanisms of injury involve direct blows to the abdomen or abrupt deceleration force and are more frequently found in children who walk.[14]

Figure 2. Metaphyseal fractures



Frontal X-ray of both knees and left elbow. Metaphyseal fractures described as "bucket handle" (arrows), distal to the femora (A) and distal to the humerus (B).

Figure 3. Brain lesions



Computed tomography scan of the brain without contrast, axial images. A: Subdural hematoma (arrow) with midline displacement. B: Subarachnoid hemorrhage (arrow).

Although an abdominal ultrasound is the first test to be performed when abuse is suspected in the case of abdominal injuries, a CT scan of the abdomen with intravenous contrast is the indicated test.[3]

DIFFERENTIAL DIAGNOSES

It is important to mention some particular characteristics of bone development and variants of normality that may mimic injuries due to maltreatment. For example, the most confusing images include a physiological periosteal reaction of long bones, which is very marked in some infants, the persistence of the metopic suture, the squamous suture, the occipital synchondrosis, and the sternal ossification centers.[15]

There are also pathological conditions with lesions similar to those associated with child abuse: metaphyseal alterations characteristic of osteogenesis imperfecta, rickets, syphilis, and bone dysplasias; subperiosteal bone formation in Caffey's disease, leukemia, and osteomyelitis; intracranial subdural hematomas in the context of dystocia.[15]

Most of these conditions can be identified after a comprehensive assessment, a thorough patient history taking, and a detailed imaging evaluation.

CONCLUSIONS

Fractures are the second most common injury detected in children who are victims of physical abuse. In children under 2 years of age, bone lesions may be clinically silent; therefore, the recommendation is to perform an initial screening using skeletal X-rays; in the case of children under 1 year of age, a computed tomography of the brain should also be indicated.

Children and adolescents victims of maltreatment require a multidisciplinary approach. The lack of correlation between the lesions and the caregivers' account of what happened should alert pediatricians, who will work together with pediatric radiologists in order to recognize bone lesions, especially those with greater specificity for physical abuse. Working together will also allow to make a comprehensive assessment and thus rule out other differential diagnoses.

The health care team is legally responsible for detecting situations of child abuse and for reporting them to the corresponding authorities. Failure to do so could have serious or fatal consequences in these children. ■

Acknowledgments

We would like to thank Luciano Di Agresti, lawyer for the City of Buenos Aires, for

providing us with updated statistical data relevant to the development of this study.

REFERENCES

1. Fondo de las Naciones Unidas para los Niños (UNICEF). Un análisis de los datos del Programa. Las Víctimas contra Las Violencias. 2020-2021. Serie Violencia contra niños, niñas y adolescentes. N° 9. 2021. [Accessed on: January 18th, 2023]. Available at: https://www.unicef.org/ argentina/media/12506/file/Factsheet%20Nro.9%20-%20Serie%20Violencia%20contra%20ni%C3%B1os,%20ni%C3%B1as%20y%20adolescentes.pdf
2. Troiano M. Child Abuse. *Nurs Clin North Am.* 2011; 46(4):413-22.
3. Stoopen M, García Mónaco R, Moënne K. Avances en Diagnóstico por imágenes: urgencias pediátricas. Ciudad Autónoma de Buenos Aires: Journal, 2015.
4. Secretaría Nacional de Niñez, Adolescencia y Familia. Informe llamadas a las líneas provinciales de atención especializada en derechos de niñas, niños y adolescentes. Ciudad Autónoma de Buenos Aires: Ministerio de Desarrollo Social, 2021. [Accessed on: January 18th, 2023]. Available at: https://www.argentina.gob.ar/sites/default/files/senaf_-_informe_de_llamadas_linea_102_22_dic_2021.pdf
5. Argentina. Ministerio de Salud. Lineamientos para el abordaje de las violencias contra niños, niñas y adolescentes desde el sistema de salud. Ciudad Autónoma de Buenos Aires: MINSAL, 2015.
6. The American College of Radiology. ACR-SPR Practice parameter for the performance and interpretation of skeletal surveys in children. 2021. [Accessed on: January 18th, 2023]. Available at: https://www.acr.org/-/media/ACR/Files/ Practice-Parameters/Skeletal-Survey.pdf
7. Marine MB, Forbes-Amrhein MM. Fractures of child abuse. *Pediatr Radiol.* 2021; 51(6):1003-13.
8. Flaherty EG, Perez-Rossello JM, Levine MA, Hennrikus WL, et al. Evaluating children with fractures for child physical abuse. *Pediatrics*. 2014; 133(2):e477-89.
9. Wanner MR, Marine MB, Hibbard RA, Ouyang F, et al. Compliance With Skeletal Surveys for Child Abuse in General Hospitals: A Statewide Quality Improvement Process. *AJR Am J Roentgenol.* 2019; 212(5):976-81.
10. The Royal College of Radiologists. The radiological investigation of suspected physical abuse in children. 2017. [Accessed on: January 18th, 2023]. Available at: https://www.rcr.ac.uk/publication/radiological-investigation-suspected- physical-abuse-children
11. Roche AJ, Fortin G, Labbé J, Brown J, Chadwick D. The Work of Ambroise Tardieu: The first definitive description of child abuse. *Child Abuse Negl.* 2005; 29(4):325-34.
12. Rufo Campos M. El síndrome del niño sacudido. *Cuad Med Forense.* 2006; 12(43-44):39-45.
13. Donnelly L. Diagnóstico por Imagen: Pediatría. 2nd ed. Madrid: Marbán, 2013.
14. Manan MR, Rahman S, Komer L, Manan H, Iftikhar S. A Multispecialty Approach to the Identification and Diagnosis of Nonaccidental Trauma in Children. *Cureus*. 2022; 14(7):e27276.
15. Delgado Álvarez I, Barber Martínez de la Torre I, Vázquez Méndez É. El papel del radiólogo ante el niño maltratado. Protocolo de imagen y diagnóstico diferencial. *Radiología.* 2016; 58(S2):119-28.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310217

Depresión puerperal: impacto en la madre gestante y en el desarrollo físico, emocional y cognitivo posnatal de sus hijas/os. Una mirada ecológica

Pablo J. Cafiero[a], Pablo Justich Zabala[b]

RESUMEN

Los problemas de salud mental materna durante el embarazo, parto y puerperio son un desafío para la salud pública. Su falta de reconocimiento atenta contra el diagnóstico y tratamientos oportunos, e impacta en la madre y el establecimiento del vínculo fundamental del binomio. Debemos reconocer los factores de riesgo (edad, situación socioeconómica, antecedentes psicopatológicos, disfunción familiar, entorno desfavorable), las manifestaciones clínicas y las herramientas de detección. Existen evidencias de que el efecto del estrés, la ansiedad y la depresión durante el embarazo afectan negativamente el neurodesarrollo fetal y condicionan los resultados del desarrollo infantil. Describimos el impacto negativo de la depresión puerperal durante los primeros meses de vida, que afecta el vínculo madre-hija/o, el desarrollo posnatal (emocional, conductual, cognitivo, lenguaje) y el mantenimiento de la lactancia materna. También reconocemos factores protectores que atemperan sus efectos. Es fundamental establecer estrategias preventivas y abordajes diagnósticos y terapéuticos interdisciplinarios para minimizar los riesgos sobre la madre y sus hijas/os.

Palabras clave: *depresión posparto; trastornos del desarrollo infantil; recién nacido; niño.*

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10217
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10217.eng

Cómo citar: Cafiero PJ, Justich Zabala P. Depresión puerperal: impacto en la madre gestante y en el desarrollo físico, emocional y cognitivo posnatal de sus hijas/os. Una mirada ecológica. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310217.

[a] Hospital de Pediatría S.A.M.I.C. Prof. Dr. Juan P. Garrahan, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina; [b] Hospital HLA La Vega, Murcia, España.

Correspondencia para *Pablo Justich Zabala: pablojustich@gmail.com*

Financiamiento*: Ninguno.*

Conflicto de intereses*: Ninguno que declarar.*

Recibido*: 9-9-2023*
Aceptado*: 6-11-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

INTRODUCCIÓN

En 2020, un editorial del doctor Ceriani Cernadas alertaba sobre los riesgos de la depresión posparto y la necesidad de su detección temprana.[1] Esta nueva dimensión en la percepción del binomio madre-hija/o nos permitió ampliar la mirada contextual sobre la salud biopsicosocial, jerarquizando la salud mental materna (SMM) por su gran relevancia en relación con el neurodesarrollo de la niña o el niño.[2]

La depresión puerperal (DP) es un trastorno del estado de ánimo, frecuentemente no reconocido ni tratado; se estima que lo padece un 10-15 % de las gestantes.[3,4] Representa un problema relevante de salud pública, que afecta la salud física y mental materna, así como el desarrollo físico, cognitivo y emocional de la niña o el niño.[5,6]

En el CIE-11 (Clasificación Internacional de Enfermedades, 11.ª revisión), figura dentro del ítem "Trastornos mentales del comportamiento asociados con el embarazo, el parto o el puerperio, sin síntomas psicóticos".[7] En el DSM-5 (*Manual diagnóstico y estadístico de los trastornos mentales*, de la Asociación Americana de Psiquiatría, 2013), no aparece como diagnóstico independiente, figura como especificador "Depresión mayor con comienzo en el postparto"[8] (*Tabla 1*).

La DP suele ocurrir dentro de las 4-6 semanas posparto, aunque puede aparecer dentro del primer año de vida. La etiopatogenia de la DP no es clara; se postula una mayor sensibilidad a fluctuaciones hormonales (descenso abrupto de estrógenos, progesterona y cortisol en las primeras 48 horas posparto), modificaciones en los niveles séricos de citocinas, ácidos grasos, oxitocina y arginina/vasopresina, así como efectos sobre la vía serotoninérgica.[9]

A diferencia de la DP, la denominada tristeza o *"blues"* posparto presenta una prevalencia del 15 % al 85 % y se observa dentro de los primeros 10 días posparto.[10] Asocia cambios del estado de ánimo, irritabilidad, fatiga, confusión y tendencia al llanto. Sus factores de riesgo son depresión prenatal o no asociada al embarazo y disforia premenstrual. Es una condición común, autolimitada, transitoria, que no requiere intervención. Reconocerla es importante porque es un factor de riesgo futuro para DP.

FACTORES DE RIESGO PARA DEPRESIÓN PUERPERAL

El principal factor de riesgo asociado es la historia de depresión en embarazo previo o de DP; el riesgo de recurrencia es del 50-60 % en futuros embarazos. Otros factores de riesgo, aunque no específicos, incluyen edad materna

Tabla 1. Criterios diagnósticos según el DSM-5

A- Cinco (o más) de los síntomas siguientes han estado presentes durante el mismo período de dos semanas y representan un cambio de funcionamiento previo; al menos uno de los síntomas es (1) estado de ánimo depresivo o (2) pérdida de interés o de placer. 1. Estado de ánimo deprimido la mayor parte del día, casi todos los días, según se desprende de la información subjetiva o de la observación por parte de otras personas. (Nota: en niños y adolescentes, el estado de ánimo puede ser irritable). 2. Disminución importante del interés o el placer por todas o casi todas las actividades la mayor parte del día, casi todos los días (como se desprende de la información subjetiva o de la observación). 3. Pérdida importante de peso sin hacer dieta o aumento de peso, o disminución o aumento del apetito casi todos los días. (Nota: en los niños, considerar el fracaso para el aumento de peso esperado). 4. Insomnio o hipersomnia casi todos los días. 5. Agitación o enlentecimiento psicomotor casi todos los días. 6. Fatiga o pérdida de energía casi todos los días. 7. Sentimiento de inutilidad o culpabilidad excesiva o inapropiada (que puede ser delirante) casi todos los días (no simplemente el autorreproche o culpa por estar enfermo). 8. Disminución de la capacidad para pensar o concentrarse, o para tomar decisiones, casi todos los días (a partir de la información subjetiva o de la observación por parte de otras personas). 9. Pensamientos de muerte recurrentes (no solo miedo a morir), ideas suicidas recurrentes sin un plan determinado, intento de suicidio o un plan específico para llevarlo a cabo.
B- Los síntomas causan malestar clínicamente significativo o deterioro en lo social, laboral u otras áreas importantes del funcionamiento.
C- El episodio no se puede atribuir a los efectos fisiológicos de una sustancia o de otra afección médica.
D- El episodio de depresión mayor no se explica mejor por un trastorno esquizoafectivo, esquizofrenia, trastorno esquizofreniforme, trastorno delirante, u otro trastorno especificado o no especificado del espectro de la esquizofrenia y otros trastornos psicóticos.
E- Nunca ha habido un episodio maníaco o hipomaníaco.

DSM-5: Manual diagnóstico y estadístico de los trastornos mentales. 5.ta edición.
Fuente: DSM-5. Disponible en: https://portal.guiasalud.es/egpc/depresion-infancia-diagnostico/

menor a 20 años, historia familiar o personal de enfermedad mental (ansiedad, depresión, trastornos de la personalidad, etc.), historia previa de depresión inapropiadamente tratada, abuso de sustancias, eventos estresantes durante el embarazo o en los 12 meses previos, conflicto marital, desempleo, historia de depresión en la pareja, haber contemplado realizar maniobras abortivas, pérdida de embarazo previo, mala relación de la embarazada con su madre, nacimiento por cesárea, ausencia de lactancia materna, vivir sin pareja, falta de soporte emocional y económico, complicaciones obstétricas, recién nacido (RN) con malformaciones congénitas o prematuridad (especialmente menores de 34 semanas).[3,5,11-13]

Por lo descrito, la DP requiere una mirada holística, ecológica, preventiva, interdisciplinaria e intersectorial, fuertemente orientada a madres provenientes de ambientes vulnerables (tanto por factores relacionados con pobreza como por los motivos de riesgo personales o medioambientales que ella presente), que deberán ser identificados y abordados oportunamente.[14]

Además, existen factores moderadores o protectores de los efectos de la DP, como un mejor nivel socioeconómico o educativo familiar, mayor cohesión familiar, conductas parentales positivas y características temperamentales favorables de su niña/o.[15]

MANIFESTACIONES CLÍNICAS

Clínicamente la DP incluye síntomas depresivos, ansiedad, llanto frecuente y excesivo, tristeza, cambios del estado de ánimo, irritabilidad, problemas de concentración, alteración del patrón de sueño y alimentación, sensación de no poder sobrellevar y manejar la situación, fatiga constante, pérdida de interés en actividades habituales, dificultades relacionales (pareja, familiares, amistades), falta o excesiva preocupación por su bebé o incapacidad para acercarse e interactuar en la forma esperada.[3] Estos síntomas suelen agravarse ante RN muy demandantes o de temperamento más exigente (llanto inconsolable, demanda frecuente de tomas, períodos de sueño breves, etc.).

Es importante considerar la presencia de ideación suicida o pensamientos recurrentes sobre la muerte u obsesivos que focalizan la agresión sobre la/el bebé (observados en más del 60 % de las madres con DP). Estos no suelen representar el deseo de lastimar al RN o infante, pero pueden llevar a conductas evitativas hacia ellos, esforzándose en minimizar pensamientos negativos e intrusivos.[3,4]

En ocasiones, se observa la existencia de un conflicto materno relacionado con sus ideas previas sobre la maternidad, los mandatos sociales y familiares, y por otro lado sus sentimientos reales, que pueden alejarse de esas ideas o mandatos. Estos sentimientos suelen generar vergüenza o miedo a las reacciones de los demás, por lo que suelen disimularse o no mencionarse.[10]

IMPORTANCIA DE LA PESQUISA. ROL DEL EQUIPO DE SALUD

La presencia de DP, sin un abordaje apropiado, puede afectar la relación diádica en construcción entre madre y RN, lo que aumenta el riesgo sobre el desarrollo socioemocional, cognitivo y psicomotor, compromete la normal evolución de los mecanismos fisiológicos de autorregulación y provoca la aparición de problemas conductuales.

En general, se reportan niveles bajos de pesquisa, diagnóstico y tratamiento de la DP, lo cual debe alertarnos sobre las barreras que lo impiden. Algunas causas son falta de experiencia y la incomodidad de los profesionales para abordar condiciones psiquiátricas, escaso tiempo de consulta, baja consideración de la conexión entre DP y potenciales efectos sobre el desarrollo de la niña o el niño en la vida posnatal. Juegan, además, un rol negativo los tabúes que provocan las alteraciones de la salud mental tanto en la sociedad como en los miembros del equipo de salud.

Las consultas obstétricas de seguimiento del embarazo y posparto, y las consultas de seguimiento neonatal/pediátrico del RN son oportunidades que debemos aprovechar para evaluar la situación clínica de la madre. Por este motivo, es crítica la intervención previa y posterior al parto que permita un diagnóstico oportuno y preventivo orientado a proveer los apoyos necesarios que permitan un acercamiento empático y sensible. Son necesarios protocolos de pesquisa sistemática, en particular en mujeres embarazadas con factores de riesgo conocidos, que permitan abordarlas para su diagnóstico y tratamiento.[4,15]

Una de las herramientas de tamizaje más utilizadas, y con versión en español, es la Escala de depresión postnatal de Edimburgo (*Edinburgh Postnatal Depression Scale*, EPDS)[16,17] (*Material suplementario I*). Existen otras escalas, como la

Beck 's Postpartum Depression Screening Scale[18] (*Material suplementario II*) y la *Patient Health Questionnaire* PHQ-9.

Como diagnósticos diferenciales de DP, se mencionan la tristeza o *"blues"* posparto, la psicosis posparto, el trastorno bipolar, alteraciones endocrinológicas (tiroideas), anemia ferropénica, trastorno obsesivo compulsivo, efectos adversos de fármacos, consumo problemático de sustancias, etcétera.

IMPACTO FETAL DE LA SALUD MENTAL DE LA MADRE EN EL EMBARAZO

La depresión materna durante el embarazo se asocia con una mayor prevalencia de cuidados prenatales inadecuados, problemas nutricionales, mayor riesgo de parto prematuro, bajo peso, preeclampsia, aborto espontáneo, consumo problemático de sustancias. Las experiencias tempranas y las influencias ambientales pueden dejar una huella duradera que afectan la arquitectura del cerebro en desarrollo y la salud a largo plazo. Factores como estrés, ansiedad y depresión pueden producir modificaciones epigenéticas y sobre el desarrollo y la programación cerebral que traspasan incluso generaciones.[19-21] Diversos artículos muestran cambios en el sistema nervioso central (SNC) del feto/RN: adelgazamiento de la amígdala, adelgazamiento cortical prefrontal y orbitofrontal, etc.[22,23] Asimismo, se expone al feto a efectos nutricionales, inmunológicos y endocrinológicos (cortisol, hormona liberadora de corticotrofina [CRH]) que producen cambios en el SNC fetal.[24,25] Muchos de estos fueron relacionados con mayor riesgo de alteraciones del neurodesarrollo y/o mentales (trastorno del espectro autista, déficit de atención/hiperactividad, esquizofrenia)[26] (*Figura 1*), así como a mayor impulsividad y menor coeficiente intelectual (CI) en adolescentes.[27,28]

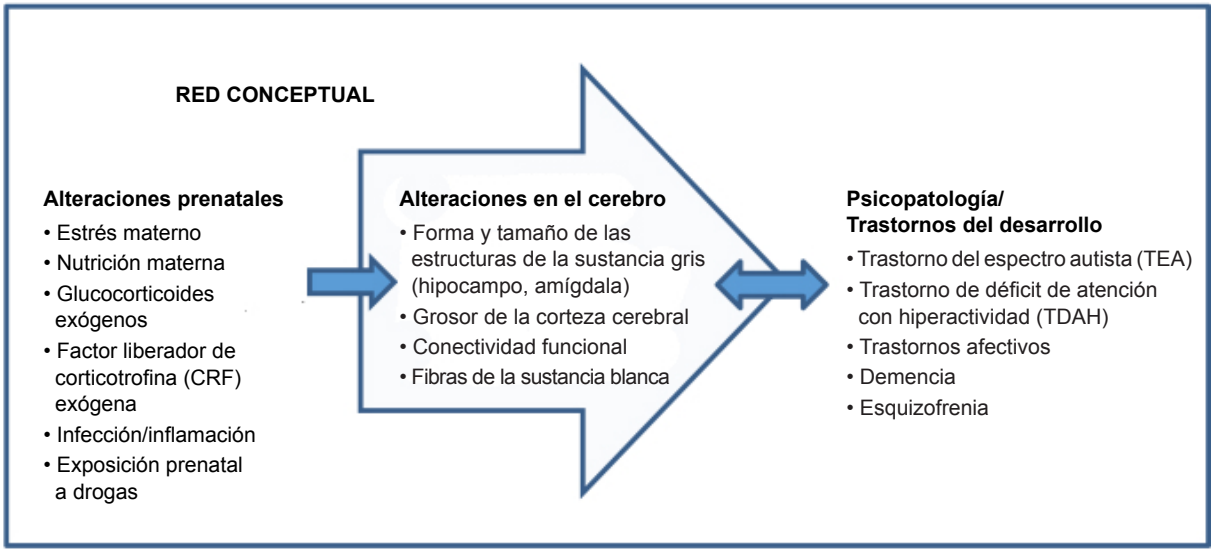
RIESGOS SOBRE EL DESARROLLO DE HIJAS/OS DE MADRES CON DIAGNÓSTICO DE DEPRESIÓN PUERPERAL

En general, las condiciones psiquiátricas parentales tienen un efecto negativo sobre el neurodesarrollo. La dependencia extrema de cuidados cotidianos y del contacto interpersonal en la vida posnatal temprana son claves en el desarrollo cognitivo y emocional, impactan sobre la calidad de construcción del vínculo y el funcionamiento interpersonal.[29,30]

Los efectos físicos reportados incluyen mayor riesgo de retraso de crecimiento pondoestatural, cólicos del lactante más frecuentes e intensos, y alteraciones del sueño. Se informan también inmunizaciones incompletas, más consultas en servicios de emergencias y consultas no programadas más frecuentes con su pediatra.[31]

Los efectos sobre el neurodesarrollo

Figura 1. El rol del estrés en el desarrollo cerebral. Los efectos a largo plazo del entorno gestacional en el cerebro



Modificado y traducido de: Buss C, et al.[26] Disponible original en: https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3574809/

dependen de la gravedad, cronicidad, momento y abordaje terapéutico de la DP, así como de la heterogeneidad de los factores de riesgo y protectores presentes que la potencian o atemperan. Los niveles de pobreza y de adversidad económica juegan un rol clave sobre los efectos negativos futuros de la DP, empeoran su pronóstico en contextos de bajo soporte social y dificultades parentales graves.[6] La cronicidad y gravedad de la exposición a depresión prenatal y posnatal, más allá del año de vida del RN, suponen un factor de riesgo muy importante sobre el neurodesarrollo y sus consecuencias pueden extenderse a la edad escolar y la adolescencia.

Durante el embarazo, el parto, la etapa neonatal y los primeros meses de vida, se establece un vínculo fundamental en el binomio madre-hija/o. Este está influenciado por múltiples factores: contacto y apego, lactancia materna, nutrición, estimulación, cuidados generales, transmisión cultural y afectiva intergeneracional, etc.[32] La alteración sostenida de estos canales de vinculación afectan negativamente este vínculo, modificando el andamiaje biopsicosocial sobre el cual se establece el neurodesarrollo.

La DP puede llevar a percepciones maternas negativas sobre el temperamento del bebé, que pueden generar conductas desfavorables que incluyen impaciencia, hostilidad, poca respuesta a señales, interacciones poco frecuentes y negativas, comunicación inefectiva, prácticas de alimentación inapropiadas y discontinuidad de la lactancia.

Trabajos de hace ya más de dos décadas mostraban un peor rendimiento en áreas mentales y motoras en la escala Bayley de hijas/os de madres con DP luego de 12 meses.[5] Nuevos trabajos muestran que, en algunas formas leves de DP, las madres pueden lograr mantener un medioambiente con cuidados nutritivos y enriquecedores que favorecen el desarrollo del lenguaje, cognitivo, socioemocional y de función adaptativa, sin aparecer diferencias estadísticamente significativas en las investigaciones. Al mismo tiempo, se enfatiza la importancia del rol de otros cuidadores como amortiguadores de los efectos negativos potenciales sobre el neurodesarrollo.[33]

Un estudio en 2017 encontró diferencias significativas en el desarrollo global, social y del lenguaje (sin afectar áreas motoras y de coordinación) en hijas/os de madres con DP respecto del grupo control, siendo el área del lenguaje la más afectada.[34]

Un metaanálisis realizado por Slomian (2019) sobre las consecuencias de la DP encontró evidencias de la influencia negativa en el desarrollo cognitivo y en el lenguaje, tanto por acción directa como por efecto del entorno adverso que ella genera. También se describen alteraciones del desarrollo emocional, conductual (a los 2 años), del desarrollo vincular y fracaso en la lactancia al mes de vida.[1,31]

El estrés, la depresión y la ansiedad maternos han sido asociados con un incremento de la actividad del eje hipotálamo-hipofisario-adrenal (HHA) de su hija/o a diferentes edades: a los 6 meses, a los 5 y a los 10 años. Las interacciones del binomio y el estado psicológico de la madre también influencian la actividad del eje HHA. Con inicio en el primer año, cuando el eje HHA es muy lábil, los cuidados parentales sensitivos/nutritivos se asocian con menor incremento o con activaciones menos prolongadas en reacción a las alteraciones de la vida diaria.[35]

RIESGO SOBRE LAS MADRES NO TRATADAS

Están descritas consecuencias negativas sobre la salud física y mental de las madres sin abordaje terapéutico: peor calidad de vida, problemas para mantener la lactancia materna, depresión persistente, conductas de riesgo (incluido consumo problemático de sustancias), dificultades en la interacción social, ideación suicida.

El suicidio durante el período posparto es menos frecuente que en períodos no puerperales, salvo en las adolescentes. Los intentos de suicidio son 3 veces más frecuentes durante el primer año posparto luego de la muerte fetal o del infante.[10]

La psicosis puerperal (PP) es una emergencia psiquiátrica y ocurre en 1 cada 500 madres en las primeras 2-4 semanas. Requiere una intervención inmediata por el riesgo de infanticidio y suicidio. Es más común en primíparas mayores de 34 años. Las manifestaciones clínicas incluyen cambios del estado de ánimo, alucinaciones, conducta desorganizada, paranoia, funcionamiento y juicio afectados, y pensamiento confuso. Los factores de riesgo descritos incluyen episodios o internaciones previas por psicosis o episodios maníacos, abandono de tratamientos con estabilizadores del estado de ánimo, complicaciones obstétricas, historia familiar de trastorno bipolar o de PP.[1]

El infanticidio es la situación de más

riesgo en la PP, y se asocia a la presencia de alucinaciones de comando y a los efectos del estrés inmanejable que provocan los cuidados del infante. La prevalencia es desconocida. También se reporta asociada a situaciones de DP grave en situaciones de abuso y rechazo del RN no querido o como revancha contra el abusador. La bibliografía menciona que entre un 16 % y un 29 % de las madres que asesinan a sus hijas/os luego se quitan la vida. El neonaticidio es definido como el asesinato del RN dentro de las primeras 24 horas de vida y se asocia a negación del embarazo, disociación/despersonalización, falta de cuidados prenatales y amnesia intermitente del parto.[10]

TRATAMIENTO DE LA DEPRESIÓN PUERPERAL

Fue evaluado el impacto de diferentes acciones del sistema de salud sobre la madre, observando la existencia de acciones tanto negativas como positivas en relación con la DP. Dentro de las negativas, especialmente sobre las madres de riesgo, se encuentran la inseguridad, la falta de empatía, la sobremedicalización del embarazo y del parto, el abuso de exámenes complementarios y la inadecuada contención. Por el contrario, un modelo de atención personalizado –que incluya una actitud contenedora, empática y humanizada, y ajustado a las necesidades de la paciente– constituye un factor protector relevante que contribuirá a una mejor evolución de la SMM.[2,31]

En el tratamiento se emplean diferentes líneas. En primer lugar, la psicoterapia que incluye diferentes enfoques (interpersonal, psicodinámica). En segunda línea, está la farmacoterapia, especialmente los inhibidores de recaptación de serotonina (principalmente sertralina por su menor toxicidad en embarazo y lactancia).[36,37] Por último, existen recursos como la terapia familiar, las unidades madre-bebé y las intervenciones psicoeducativas y de soporte social.[3,4,10,38]

PROPUESTAS PREVENTIVAS Y DE PROMOCIÓN SOBRE LA SALUD MENTAL DE LA MADRE Y EN EL NEURODESARROLLO CON MIRADA EN EL PRESENTE Y EL FUTURO

Existen experiencias que demuestran los beneficios de intervenciones transdisciplinarias y multifactoriales sobre padres y RN de riesgo en la prevención del estrés y la depresión.[39]

Proponemos algunas acciones y lineamientos generales que pueden contribuir a su atención:

1. Establecer políticas públicas activas para la prevención y tratamiento de los problemas de salud mental durante el embarazo, el parto, el puerperio y en los primeros años de vida.
2. Indagar y reflejar en la historia clínica los elementos que nos permitan sospechar y detectar los problemas de SMM.
3. Potenciar los factores protectores sobre niñas, niños y adolescentes (NNyA) ante las situaciones de riesgo.
4. Establecer políticas de licencias parentales que garanticen el apoyo de las necesidades del binomio en esta etapa.
5. Informar y capacitar, tanto al equipo de salud como a las familias, durante los cursos de preparación para el parto, para que sea posible detectar los síntomas de DP oportunamente y orientar sobre las conductas por seguir.
6. Establecer acciones de prevención primaria sobre la población con factores de riesgo.
7. Establecer políticas o programas específicos en hospitales con gran caudal de partos o que atienden embarazos de alto riesgo (modelo de regionalización).[40]
8. Establecer estrategias claras en el marco de la interdisciplina/transdisciplina, actuando en conjunto obstétricas, enfermeras, ginecólogos/obstetras, neonatólogos, pediatras, especialistas en salud mental, trabajadores sociales, etcétera.[41]

CONCLUSIONES

La DP representa un problema prevalente de salud pública, con potenciales consecuencias negativas sobre la madre y el RN/infante. Su abordaje debe ser oportuno y preventivo, orientado a los efectos negativos sobre la madre y sobre el desarrollo físico, cognitivo y emocional de los RN, así como su impacto en el neurodesarrollo (estructural, funcional, epigenético) de los NNyA.

Los miedos, tabúes o prejuicios pueden inhibir a las pacientes a consultar y solicitar ayuda, lo cual reduce las posibilidades de detección e intervención. La información y capacitación del equipo de salud interviniente, desde el inicio del embarazo hasta el primer año de crianza, son fundamentales para reducir los daños que pueden surgir de estas situaciones.

Los pediatras y neonatólogos tenemos un rol fundamental en este proceso, pero para ello

debemos ampliar la mirada más allá del paciente, con un enfoque holístico e integrador. Debemos incorporar la SMM como un ítem relevante en el proceso del desarrollo de las niñas y niños, y prestar atención a esta problemática cuando hallemos trayectorias no esperadas. ■

Agradecimientos

Agradecemos la colaboración desinteresada y altamente constructiva de las Dras. Silvana Napoli, Gabriela Krochik y Flavia Torielli, que enriquecieron notablemente este manuscrito con su paciente dedicación y amplia perspectiva.

Material suplementario disponible en: https://www.sap.org.ar/docs/publicaciones/archivosarg/2024/10217_Act_Cafiero_Anexo.pdf

REFERENCIAS

1. Ceriani Cernadas J. Depresión postparto, los riesgos y su temprana detección. *Arch Argent Pediatr*. 2020;118(3):154-5.
2. Bernard-Bonnin. Maternal depression and child development. *Paediatr Child Health.* 2004;9(8):575-83.
3. Patel M, Bailey R, Jabeen S, Ali S, et al. Postpartum depression: a review. *J Health Care Poor Underserved*. 2012;23(2):534-42.
4. Sharma V, Sharma P. Postpartum depression: diagnostic and treatment issues. *J Obstet Gynaecol Can.* 2012;34(5):436-42.
5. Murray L, Cooper P. Effects of postnatal depression on infant development. *Arch Dis Child.* 1997;77(2):99-101.
6. Cooper P, Murray L. Postnatal depression. *BMJ*. 1998;316(7148):1884-6.
7. Organización Mundial de la Salud. 6E20.Trastornos mentales del comportamiento asociados con el embarazo, el parto o el puerperio, sin síntomas psicóticos. En Clasificación Internacional de Enfermedades. 11ma rev (CIE-11). OMS; 2019/2021. [Consulta: 5 de agosto de 2023]. Disponible en: https://icd.who.int/browse11/l-m/es#/http://id.who.int/icd/entity/1124422593
8. Asociación Americana de Psiquiatría. Guía de Consulta de los criterios diagnóstico del DSM-5. 5a ed. Washington, DC: APA. 2014. [Consulta: 5 de agosto de 2023]. Disponible en: https://www.eafit.edu.co/ninos/reddelaspreguntas/Documents/dsm-v-guia-consulta-manual-diagnostico-estadistico-trastornos-mentales.pdf
9. Trifu S, Vladutiu A, Popescu A. The neuroendocrinological aspects of pregnancy and postpartum depression. *Acta endocrinol(Buchar)*. 2019;15(3):410-5.
10. Pearlstein T, Howard M, Salisbury A, Zlotnick C. Postpartum depression. *Am J Obstet Gynecol*. 2009;200(4):357-64.
11. Huang C, Costeines J, Kaufman J, Ayala C. Parenting Stress, Social Support, and Depression for Ethnic Minority Adolescent Mothers: Impact on Child Development. *J Child Fam Stud.* 2014;23(2):255-62.
12. Xu H, Ding Y, Ma Y, Xin X, Zhang D. Cesarean section and risk of postpartum depression: A meta-analysis. *J Psychosom Res.* 2017;97:118-26.
13. Moameri H, Ostadghaderi M, Khatooni E, Doosti-Irani A. Association of postpartum depression and cesarean section: A systematic review and metaanalysis. *Clin Epidemiol Glob Health*. 2019;7(3):471-80.
14. Hutchens B, Kearney J. Risks factors for Postpartum Depression: An Umbrella Review. *J Midwifery Womens Health.* 2020;65(1):96-108.
15. Scheeder J, Kabir K, Stafford B. Screening for postpartum depression at well-child visits: Is once enough during the first 6 months of life? *Pediatrics.* 2009;123(6):e982-8.
16. Cox JL, Holden JM, Sagovsky R. Detection of postnatal depression. Development of the 10-item Edinburgh Postnatal Depression Scale. *Br J Psychiatry.* 1987;150:782-6.
17. Parsons C, Young K, Rochat T, Kringelbach M, Stein A. Postnatal depression and its effects on child development: a review of evidence from low- and middle-income countries. *Br Med Bull.* 2012;101:57-79.
18. Beck CT, Gable RK. Postpartum Depression Screening Scale: development and psychometric testing. *Nurs Res*. 2000;49(5):272-82.
19. Lautarescu A, Craig M, Glover V. Prenatal stress: Effects on fetal and child brain development. *Int Rev Neurobiol.* 2020;150:17-40.
20. Subcomisión DOHAD – SAP Origen de la Salud y Enfermedad en el Curso de la Vida. – Sociedad Argentina de Pediatría. Concepto de Developmental Origins of Health and Disease: El ambiente en los primeros mil días de vida y su asociación con las enfermedades no transmisibles. *Arch Argent Pediatr.* 2020;118(4):s118-29.
21. Napoli S. Estrés y neurodesarrollo. En: Cafiero PJ. Pediatría del desarrollo y la conducta: De la teoría a la práctica clínica. Ciudad autónoma de Buenos Aires: Journal; 2023:119-29.
22. Chechko N, Stickel S, Hahn L, Schnakenberg P, et al. Results of RIPOD (risk of postpartum depression) study: postpartum follow-ups, risk factors and prediction for clinical cases, and multimodal neuroimaging data. *J Affect Disord*. 2023;12(Suppl):100528.
23. Sandman CA, Buss C, Head K, Poggi Davis E. Fetal exposure to maternal depressive symptoms is associated with cortical thickness in late childhood. *Biol Psychiatry*. 2015;77(4):324-34.
24. Takács L, Kandrnal V, Kaňková Š, Bartos F, Mudrák J. The effects of pre- and post-partum depression on child behavior and psychological development from birth to preschool age: a protocol for a systematic review and meta-analysis. *Syst Rev*. 2020(9):146.
25. Bergman K, Sarkar P, Glover V, O'Connor T. Maternal Prenatal Cortisol and Infant Cognitive Development: Moderation by Infant–Mother Attachment. *Biol Psychiatry*. 2010;67(11):1026-32.
26. Buss C, Entringer S, Swanson JM, Wadhwa PD. The Role of Stress in Brain Development: The Gestational Environment's Long-Term Effects on the Brain. *Cerebrum*. 2012;2012:4.
27. Van Den Bergh BR, Mennes M, Oosterlaan J, Stevens V, et al. High antenatal maternal anxiety is related to impulsivity during performance on cognitive tasks in 14-and 15-year-olds. *Neurosci Biobehav Rev.* 2005;29(2):259-69.
28. Olza Fernández I, Gainza Tejedor I. La teoría de la programación fetal y el efecto de la ansiedad materna durante el embarazo en el neurodesarrollo infantil. *Rev Psiquiatr Infanto-Juv.* 2007;24(2,3,4):176-80.
29. Tuovinen S, Lahti-Pulkkinen M, Girchenko P, Lipsanen J, et al. Maternal depressive symptoms during and after pregnancy and child developmental milestones. *Depress Anxiety*. 2018;35(8):732-41.
30. Faisal-Cury, Tabb K, Ziebold C, Matijasevich A. The impact of postpartum depression and bonding impairment on child development at 12 to 15 months after delivery. *J Affect Disord*. 2021(4):100-25.
31. Slomian J, Honvo G, Emonts P, Reginster JY, Bruyere

O. Consequences of maternal postpartum depression: A systematic review of maternal and infant outcomes. *Women Health (Lond)*. 2019;15:1745506519844044.
32. Oliva-Delgado A. Estado actual de la teoría del apego. *Rev Psiquiatr Psicol Niño Adolesc*. 2004;4(1):65-81.
33. Nix L, Nixon E, Quigley J, O´Keane V. Perinatal depression and children's developmental outcomes at 2 years postpartum. *Early Hum Dev*. 2021;156:105346.
34. González G, Moraes M, Sosa C, Umpierrez E, et al. Depresión materna postnatal y su repercusión en el neurodesarrollo infantil: estudio de cohorte. *Rev Chil Pediatr.* 2017;88(3):360-6.
35. Lupien S, McEwen B, Gunnar M, Heim C. Effects of stress throughout the lifespan on the brain, behaviour and cognition. *Nat Rev Neurosci.* 2009;10(6):434-45.
36. Malo P, Prieto M, Oraá R, Zardoya MJ, et al. Uso de antidepresivos durante el embarazo y la lactancia. *Psiquiatr Biol.* 2018;25(1):20-5.
37. Izbizky G, Otaño L. Uso de nuevos antidepresivos en el embarazo y el riesgo de malformaciones congénitas. *Arch Argent Pediatr.* 2010;108(2):101-3.
38. Letorneau N, Denis CL, Cosic N, Linder J. The effect of perinatal depression treatment for mothers on parenting and child development: a systematic review. *Depress Anxiety*. 2017;34(10):928-66.
39. Ruiz AL, Ceriani Cernadas JM, Cravedi V, Rodriguez D. Estrés y depresión en madres de prematuros: un programa de intervención. *Arch Argent Pediatr*. 2005;103(1):36-45.
40. Speranza AM. Donde nacen y donde mueren los niños en Argentina. En Sociedad Argentina de Pediatría. PRONAP. 2017;1(1):15-52.
41. Lester B, Bigsby R, High P, Wu S. Principles of intervention for preterm infant in the NICU. In 10º Canadian Ross Conference in Pediatrics. Optimizing the Neonatal Intensive Care Environment.Montreal,1996;80:59-72.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310217

Postpartum depression: Impact on pregnant women and the postnatal physical, emotional, and cognitive development of their children. An ecological perspective

Pablo J. Cafiero[a], *Pablo Justich Zabala*[b]

ABSTRACT

Maternal mental health problems during pregnancy, childbirth, and the postpartum period are a challenge for public health. Not recognizing them hinders a timely diagnosis and treatment and has an impact on the mother and the establishment of the fundamental bond of the mother-child dyad. We must recognize the risk factors (age, socioeconomic status, mental health history, family dysfunction, unfavorable environment), clinical manifestations, and screening tools. There is evidence that the effect of stress, anxiety, and depression during pregnancy negatively affect fetal neurodevelopment and condition child developmental outcomes. Here we describe the negative impact of postpartum depression during the first months of life, which affects mother-child bonding, postnatal development (emotional, behavioral, cognitive, language), and the maintenance of breastfeeding. We also recognize protective factors that mitigate its effects. It is essential to establish preventive strategies and interdisciplinary diagnostic and therapeutic approaches to minimize the risks to the mother and her children.

Keywords: *postpartum depression; child development disorders; newborn infant; child.*

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10217.eng

To cite: Cafiero PJ, Justich Zabala P. Postpartum depression: Impact on pregnant women and the postnatal physical, emotional, and cognitive development of their children. An ecological perspective. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310217.

[a] *Hospital de Pediatría S.A.M.I.C. Prof. Dr. Juan P. Garrahan, City of Buenos Aires, Argentina;* [b] *Hospital HLA La Vega, Murcia, Spain.*

Correspondence to *Pablo Justich Zabala: pablojustich@gmail.com*

Funding*: None.*

Conflict of interest*: None.*

Received*: 9-9-2023*
Accepted*: 11-6-2023*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

INTRODUCTION

In 2020, an editorial by Ceriani Cernadas, M.D., warned about the risks of postpartum depression and the need for early detection.[1] This new dimension in the perception of the mother-child dyad allowed us to broaden the contextual view of biopsychosocial health, prioritizing maternal mental health (MMH) due to the great relevance in relation to child neurodevelopment.[2]

Postpartum depression (PPD) is an often unrecognized and untreated mood disorder; it is estimated to affect 10–15% of pregnant women.[3,4] It represents a significant public health problem that affects maternal physical and mental health, as well as the physical, cognitive, and emotional development of the child.[5,6]

According to the International Classification of Diseases, 11th revision (ICD-11), PPD is described under the item "Mental or behavioral disorders associated with pregnancy, childbirth or the puerperium, without psychotic symptoms."[7] The Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, 5th edition, by the American Psychiatric Association, 2013 (DSM-5) does not include it as an independent diagnosis, but lists it as a specifier "Major depressive disorder, with postpartum onset"[8] (*Table 1*).

PPD usually occurs within 4–6 weeks postpartum, although it may appear within the first year postpartum. The etiopathogenesis of PPD is unclear; a greater sensitivity to hormonal fluctuations (sudden drop in estrogen, progesterone, and cortisol in the first 48 hours postpartum), changes in serum levels of cytokines, fatty acids, oxytocin, and arginine/vasopressin, as well as effects on the serotonergic pathway have been described.[9]

In contrast to PPD, the so-called postpartum blues have a prevalence of 15% to 85% and are observed in the first 10 days postpartum.[10] They are associated with mood swings, irritability, fatigue, confusion, and a tendency to cry. The risk factors include prenatal depression or depression not associated with pregnancy and premenstrual dysphoric disorder. It is a common, self-limited, transient condition that does not require intervention. Recognizing the postpartum blues is important because it is a future risk factor for PPD.

RISK FACTORS FOR POSTPARTUM DEPRESSION

The main associated risk factor is a history of PPD or depression in a previous pregnancy; the risk of recurrence is 50–60% in future pregnancies. Other risk factors, although not specific, include maternal age less than 20 years, family or personal history of mental illness

Table 1. Diagnostic criteria as per the DSM-5

A- Five (or more) of the following symptoms during the same 2-week period that are a change from previous functioning; at least 1 of the symptoms is (1) depressed mood or (2) loss of interest or pleasure. 1. Depressed mood most of the day, nearly every day, based on subjective data or as observed by others. (Note: in children and adolescents, it may be irritable mood). 2. Markedly diminished interest/pleasure in all or almost all activities most of the day, nearly every day (based on subjective data or as observed by others). 3. Significant weight loss without dieting or gain, or decrease or increase in appetite nearly every day. (Note: in children, it may be failure to gain weight as expected). 4. Insomnia o hypersomnia nearly every day. 5. Psychomotor agitation or retardation nearly every day. 6. Fatigue or loss of energy nearly every day. 7. Feelings of worthlessness or excessive or inappropriate guilt (which may be delusional) nearly every day (not merely self-reproach or guilt about being sick). 8. Diminished ability to think or concentrate, or indecisiveness, nearly every day (either by their subjective account or as observed by others). 9. Recurrent thoughts of death (not just fear of dying), recurrent suicidal ideation without a specific plan, or a suicide attempt or a specific plan for committing suicide.
B- The symptoms cause clinically significant distress or impairment in social, occupational, or other important areas of functioning.
C- The episode is not attributable to the direct physiological effects of a substance or to another medical condition.
D- The occurrence of the major depressive episode is not better explained by schizoaffective disorder, schizophrenia, schizophreniform disorder, delusional disorder, or other specified and unspecified schizophrenia spectrum and other psychotic disorders.
E- There has never been a manic or hypomanic episode.

DSM-5: Diagnostic and Statistical Manual of Mental Disorders, 5th edition.
Source: DSM-5. Available at: https://portal.guiasalud.es/egpc/depresion-infancia-diagnostico/

(anxiety, depression, personality disorders, etc.), history of inadequately treated depression, substance abuse, stressful events during pregnancy or in the previous 12 months, marital conflict, unemployment, history of depression in the partner, having contemplated abortion, previous pregnancy loss, a bad relationship between the pregnant woman and her mother, C-section delivery, absence of breastfeeding, living without a partner, lack of emotional and economic support, obstetric complications, newborn infant (NBI) with congenital malformations or prematurity (especially with less than 34 weeks of gestation).[3,5,11–13]

Therefore, PPD requires a holistic, ecological, preventive, interdisciplinary, and intersectorial approach, strongly oriented to mothers from vulnerable environments (both due to poverty-related factors and to personal or environmental risk factors), which should be identified and addressed in a timely manner.[14]

In addition, there are moderating or protective factors against the effects of PPD, such as a better family socioeconomic or educational level, greater family cohesion, positive parental behaviors, and favorable temperamental characteristics of the child.[15]

CLINICAL MANIFESTATIONS

Clinically, PPD includes depressive symptoms, anxiety, frequent and excessive crying, sadness, mood swings, irritability, difficulty concentrating, alterations in sleeping and eating patterns, feelings of not being able to cope and manage the situation, constant fatigue, loss of interest in usual activities, relational problems (partner, family, friends), lack of or excessive concern for the baby, or inability to approach and interact as expected.[3] These symptoms are usually aggravated in the case of very demanding NBIs or those with a more challenging nature (inconsolable crying, frequent feedings, short periods of sleep, etc.).

It is important to consider the presence of suicidal ideation or recurrent thoughts about death or obsessive thoughts that focus aggression on the NBI (observed in more than 60% of mothers with PPD). These do not usually represent a desire to harm the baby, but may lead to avoidant behaviors toward them, striving to minimize negative and intrusive thoughts.[3,4]

Sometimes, there is a conflict in the mother related to her previous ideas about motherhood, social and family mandates and, on the other side, her actual feelings, which may be far from those ideas or mandates. These feelings often lead to embarrassment or fear of other people's reactions, so they are often concealed or not mentioned.[10]

IMPORTANCE OF SCREENING. THE ROLE OF THE HEALTH CARE TEAM

The presence of PPD, without an appropriate management, may affect the relationship in the mother and child dyad, which is under development; this increases the risk on socioemotional, cognitive, and psychomotor development, compromises the normal course of physiological mechanisms of self-regulation, and leads to the onset of behavioral problems.

In general, low levels of screening, diagnosis, and treatment of PPD are reported, which should alert us about the barriers that prevent it. Some causes include health care providers' lack of experience and discomfort to address psychiatric conditions, a short consultation time, and lack of awareness of the connection between PPD and potential effects on the child's development in postnatal life. In addition, the taboos that cause mental health disorders both in society and among the health care team members play a negative role.

Obstetric consultations for antenatal care and postpartum follow-up and neonatal/pediatric follow-up of NBIs are opportunities that we should take advantage of to assess the mother's clinical situation. For this reason, intervention before and after childbirth is critical to allow a timely and preventive diagnosis and to provide the necessary support for an empathetic and sensitive approach. Systematic screening protocols are necessary, especially in pregnant women with known risk factors, so that they can be approached for diagnosis and treatment.[4,15]

One of the most common screening tools, whose Spanish version has been validated, is the Edinburgh Postnatal Depression Scale (EPDS)[16,17] (*Supplementary material I*). Other scales are the Beck Postpartum Depression Screening Scale[18] (*Supplementary material II*) and the Patient Health Questionnaire PHQ-9.

Postpartum blues, postpartum psychosis, bipolar disorder, endocrine (thyroid) disorders, iron deficiency anemia, obsessive-compulsive disorder, adverse drug reactions, problematic substance use, etc. have been mentioned as differential diagnoses of PPD.

IMPACT OF PREGNANT WOMEN'S MENTAL HEALTH ON THE FETUS

Maternal depression during pregnancy is associated with a higher prevalence of inadequate antenatal care, nutritional problems, increased risk of preterm delivery, low birth weight, preeclampsia, miscarriage, and problematic substance use. Early experiences and environmental influences leave a lasting imprint that affects the architecture of the developing brain and long-term health. Stress, anxiety, and depression are factors that cause epigenetic and developmental modifications and brain programming that can even cross generations.[19–21] Several articles show changes in the central nervous system (CNS) of the fetus/NBI: thinning of the amygdala, prefrontal and orbitofrontal cortical thinning, etc.[22,23] The fetus is also exposed to nutritional, immune, and endocrine effects (cortisol, corticotrophin-releasing hormone [CRH]) that cause changes in the fetal CNS.[24,25] Many of these changes were associated with increased risk of neurodevelopmental or mental disorders (autism spectrum disorder, attention deficit/hyperactivity disorder, schizophrenia)[26] (*Figure 1*) as well as a higher impulsivity and a lower intelligence quotient (IQ) in adolescents.[27,28]

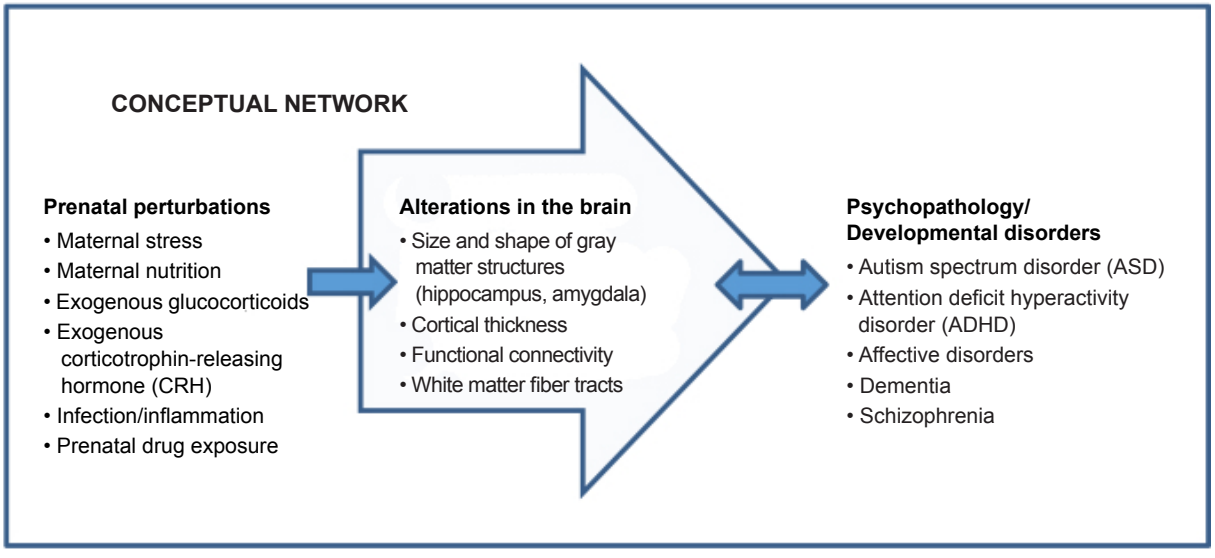
RISKS ON THE DEVELOPMENT OF CHILDREN BORN TO MOTHERS DIAGNOSED WITH POSTPARTUM DEPRESSION

In general, parental psychiatric conditions have a negative effect on neurodevelopment. Extreme dependence on daily care and interpersonal contact in early postnatal life are key in cognitive and emotional development and have an impact on the quality of bonding and interpersonal functioning.[29,30]

Reported physical effects include an increased risk of postnatal growth retardation, more frequent and intense infant colic, and sleep disturbances. Incomplete immunizations, more frequent visits to the emergency department, and more frequent unscheduled visits to the pediatrician have also been reported.[31]

The effects on neurodevelopment depend on the severity, chronicity, timing, and therapeutic approach of PPD, as well as on the heterogeneity of the risk and protective factors present that potentiate or mitigate it. The levels of poverty and economic adversity play a key role in the future negative effects of PPD, worsening its prognosis in settings of low social support and severe parental difficulties.[6] The chronicity and severity of exposure to prenatal and postnatal depression, beyond the

Figure 1. The role of stress in brain development. The gestational environment's long-term effects on the brain



Modified and translated from: Buss C, et al.[26] Original article available at: https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pmc/articles/PMC3574809/

first year of life of the NBI, is a very important risk factor for neurodevelopment and its consequences may extend to school age and adolescence.

During pregnancy, childbirth, the neonatal stage, and the first months of life, a fundamental bond is established in the mother-child dyad. This is influenced by multiple factors: contact and attachment, breastfeeding, nutrition, stimulation, general care, cultural and affective intergenerational transmission, etc.[32] The sustained alteration of such bonding channels has a negative effect on this bond, modifying the biopsychosocial scaffolding on which neurodevelopment is established.

PPD may cause negative maternal perceptions of the infant's temperament, which may generate unfavorable behaviors, including impatience, hostility, poor responsiveness to cues, infrequent and negative interactions, ineffective communication, inappropriate feeding practices, and discontinuation of breastfeeding.

Studies conducted from more than 2 decades ago showed a worse performance in mental and motor areas on the Bayley scale in children from mothers who had PPD after 12 months.[5] Recent studies show that, in some mild forms of PPD, mothers may be able to maintain a nurturing and enriching care environment that supports language, cognitive, socioemotional, and adaptive function development, although no statistically significant differences have been observed in the investigations. At the same time, there is emphasis on the relevance of the role of other caregivers as buffers against potential negative neurodevelopmental effects.[33]

A study conducted in 2017 found significant differences in global, social, and language development (without affecting motor and coordination areas) in children whose mothers had PPD with respect to the control group, and language was the most affected area.[34]

A meta-analysis conducted by Slomian (2019) on the consequences of PPD found evidence of a negative influence on cognitive development and language, both by direct action and the effect of the resulting adverse environment. Alterations in emotional and behavioral development (at 2 years of age) and bonding and breastfeeding failure at 1 month of life have also been described.[1,31]

Maternal stress, depression, and anxiety have been associated with increased activity of the hypothalamic-pituitary-adrenal (HPA) axis of children at different ages: at 6 months, 5 years, and 10 years. The dyad interactions and the mother's psychological status also affect the HPA axis activity. With onset in the first year of life, when the HPA axis is very labile, sensitive/nurturing parental care is associated with less increase in or less prolonged activations in response to daily life disturbances.[35]

RISK FOR UNTREATED MOTHERS

Negative consequences on the physical and mental health of mothers without a therapeutic approach have been described: a poorer quality of life, problems in maintaining breastfeeding, persistent depression, risk behaviors (including problematic substance use), difficulties in social interaction, and suicidal ideation.

Suicide during the postpartum period is less frequent than in non-puerperal periods, except in adolescents. Suicide attempts are 3 times more frequent during the first year postpartum after fetal or infant death.[10]

Postpartum psychosis (PPP) is a psychiatric emergency and occurs in 1 out of 500 mothers in the first 2–4 weeks. It requires immediate intervention because of the risk of infanticide and suicide. It is more common in primiparous women older than 34 years. The clinical manifestations include mood changes, hallucinations, disorganized behavior, paranoia, impaired functioning and judgment, and confused thinking. The risk factors described include previous episodes or hospitalizations due to psychosis or manic episodes, withdrawal of treatment with mood stabilizers, obstetric complications, family history of bipolar disorder or PPP.[1]

Infanticide is the most risky situation in PPP, and is associated with the presence of command hallucinations and the effects of unmanageable stress caused by infant care. The prevalence is unknown. Reports also indicate that PPP is associated with severe PPD in situations of abuse and rejection of the unwanted NBI or as revenge against the abuser. According to the bibliography, between 16% and 29% of mothers who murder their children later take their own lives. Neonaticide is defined as the killing of the NBI within the first 24 hours of life and is associated with denial of pregnancy, dissociation/depersonalization, lack of antenatal care, and intermittent birth amnesia.[10]

MANAGEMENT OF POSTPARTUM DEPRESSION

The impact of different actions by the health system on the mother was assessed, and both

negative and positive actions in relation to PPD were observed. The negative actions, especially on mothers at risk, included insecurity, lack of empathy, overmedicalization of pregnancy and childbirth, abuse of complementary tests, and inadequate support. On the contrary, a customized model of care —including a supportive, empathetic, and humanized attitude, tailored to the patient's needs— is a relevant protective factor that will contribute to a better course of MMH.[2,31]

Different lines of treatment are implemented. Firstly, psychotherapy, which includes different approaches (interpersonal, psychodynamic). Secondly, pharmacotherapy, especially serotonin reuptake inhibitors (mainly sertraline due to its lower toxicity in pregnancy and lactation).[36,37] Finally, other resources, such as family therapy, mother-baby units, and psychoeducational and social support interventions.[3,4,10,38]

PREVENTIVE AND PROMOTIONAL PROPOSALS ON MATERNAL MENTAL HEALTH AND NEURODEVELOPMENT LOOKING AT THE PRESENT AND THE FUTURE

There are experiences that demonstrate the benefits of transdisciplinary and multifactorial interventions on parents and NBIs at risk in the prevention of stress and depression.[39]

We propose some actions and general guidelines that may contribute to their care:

1. To establish active public policies for the prevention and treatment of mental health problems during pregnancy, childbirth, the postpartum period, and the first years of life of the child.
2. To study and note in the clinical history the elements that allow to suspect and detect MMH problems.
3. To strengthen the protective factors of children and adolescents in risk situations.
4. To establish parental leave policies that guarantee support for the needs of the mother-child dyad at this stage.
5. To inform and train both the healthcare team and the families during birthing classes, so that the symptoms of PPD can be detected in a timely manner and to provide guidance on the actions to be taken.
6. To establish primary prevention actions on the population with risk factors.
7. To establish specific policies or programs in hospitals with a large number of deliveries or that care for high-risk pregnancies (regionalization model).[40]
8. To establish clear strategies within the interdisciplinary/transdisciplinary framework, in collaboration with obstetricians, nurses, gynecologists/obstetricians, neonatologists, pediatricians, mental health specialists, social workers, etc.[41]

CONCLUSIONS

PPD is a prevalent problem in public health, with potential negative consequences on the mother and her NBI/baby. It requires a timely and preventive management oriented to the negative effects on the mother and the physical, cognitive, and emotional development of the NBI, and also considering its impact on the neurodevelopment (structural, functional, epigenetic) of children and adolescents.

Fears, taboos, or prejudices may inhibit patients from consulting and seeking help, which reduces the chances of detection and intervention. Information and training of the attending health care team, from the beginning of pregnancy until the first year of life of the child, are essential to reduce the harm that may arise from these situations.

Pediatricians and neonatologists play a fundamental role in this process; however, to do so, we must look beyond the patient, with a holistic and integrative approach. We must incorporate MMH as a relevant item in the process of children's development and pay attention to this issue whenever we encounter unexpected circumstances. ■

Acknowledgments

We would like to thank Silvana Napoli, M.D., Gabriela Krochik, M.D., and Flavia Torielli, M.D., for their generous and highly constructive collaboration and for their noteworthy improvement of this manuscript with their patient commitment and broad perspective.

Supplementary material available at: https://www.sap.org.ar/docs/publicaciones/archivosarg/2024/10217_Act_Cafiero_Anexo.pdf

REFERENCES

1. Ceriani Cernadas J. Depresión postparto, los riesgos y su temprana detección. *Arch Argent Pediatr.* 2020;118(3):154-5.
2. Bernard-Bonnin. Maternal depression and child development. *Paediatr Child Health.* 2004;9(8):575-83.
3. Patel M, Bailey R, Jabeen S, Ali S, et al. Postpartum depression: a review. *J Health Care Poor Underserved*.2012;23(2):534-42.

4. Sharma V, Sharma P. Postpartum depression: diagnostic and treatment issues. *J Obstet Gynaecol Can.*2012;34(5):436-42.
5. Murray L, Cooper P. Effects of postnatal depression on infant development. *Arch Dis Child.* 1997;77(2):99-101.
6. Cooper P, Murray L. Postnatal depression. *BMJ.* 1998;316(7148):1884-6.
7. Organización Mundial de la Salud. 6E20.Trastornos mentales del comportamiento asociados con el embarazo, el parto o el puerperio, sin síntomas psicóticos. In Clasificación Internacional de Enfermedades. 11ma rev (CIE-11). OMS; 2019/2021. [Accessed on: August 5th, 2023]. Available at: https://icd.who.int/browse11/l-m/es#/http://id.who.int/icd/entity/1124422593
8. Asociación Americana de Psiquiatría. Guía de Consulta de los criterios diagnóstico del DSM-5. 5ª ed. Washington, DC: APA. 2014. [Accessed on: August 5th, 2023]. Available at: https://www.eafit.edu.co/ninos/reddelaspreguntas/Documents/dsm-v-guia-consulta-manual-diagnostico- estadistico-trastornos-mentales.pdf
9. Trifu S, Vladutiu A, Popescu A. The neuroendocrinological aspects of pregnancy and postpartum depression. *Acta endocrinol (Buchar)*. 2019;15(3):410-5.
10. Pearlstein T, Howard M, Salisbury A, Zlotnick C. Postpartum depression. *Am J Obstet Gynecol*. 2009;200(4):357-64.
11. Huang C, Costeines J, Kaufman J, Ayala C. Parenting Stress, Social Support, and Depression for Ethnic Minority Adolescent Mothers: Impact on Child Development. *J Child Fam Stud.* 2014;23(2):255-62.
12. Xu H, Ding Y, Ma Y, Xin X, Zhang D. Cesarean section and risk of postpartum depression: A meta-analysis. *J Psychosom Res.* 2017;97:118-26.
13. Moameri H, Ostadghaderi M, Khatooni E, Doosti-Irani A. Association of postpartum depression and cesarean section: A systematic review and metaanalysis. *Clin Epidemiol Glob Health*. 2019;7(3):471-80.
14. Hutchens B, Kearney J. Risks factors for Postpartum Depression: An Umbrella Review. *J Midwifery Womens Health.* 2020;65(1):96-108.
15. Scheeder J, Kabir K, Stafford B. Screening for postpartum depression at well-child visits: Is once enough during the first 6 months of life? *Pediatrics.* 2009;123(6):e982-8.
16. Cox JL, Holden JM, Sagovsky R. Detection of postnatal depression. Development of the 10-item Edinburgh Postnatal Depression Scale. *Br J Psychiatry*. 1987;150:782-6.
17. Parsons C, Young K, Rochat T, Kringelbach M, Stein A. Postnatal depression and its effects on child development: a review of evidence from low- and middle-income countries. *Br Med Bull.* 2012;101:57-79.
18. Beck CT, Gable RK. Postpartum Depression Screening Scale: development and psychometric testing. *Nurs Res*. 2000;49(5):272-82.
19. Lautarescu A, Craig M, Glover V. Prenatal stress: Effects on fetal and child brain development. *Int Rev Neurobiol.* 2020;150:17-40.
20. Subcomisión DOHAD – SAP Origen de la Salud y Enfermedad en el Curso de la Vida. – Sociedad Argentina de Pediatría. Concepto de Developmental Origins of Health and Disease: El ambiente en los primeros mil días de vida y su asociación con las enfermedades no transmisibles. *Arch Argent Pediatr*. 2020;118(4):s118-29.
21. Napoli S. Estrés y neurodesarrollo. In: Cafiero PJ. Pediatría del desarrollo y la conducta: De la teoría a la práctica clínica. Ciudad autónoma de Buenos Aires: Journal; 2023:119-29.
22. Chechko N, Stickel S, Hahn L, Schnakenberg P, et al. Results of RIPOD (risk of postpartum depression) study: postpartum follow-ups, risk factors and prediction for clinical cases, and multimodal neuroimaging data. *J Affect Disord*. 2023;12(Suppl):100528.
23. Sandman CA, Buss C, Head K, Poggi Davis E. Fetal exposure to maternal depressive symptoms is associated with cortical thickness in late childhood. *Biol Psychiatry*. 2015;77(4):324-34.
24. Takács L, Kandrnal V, Kaňková Š, Bartos F, Mudrák J. The effects of pre- and post-partum depression on child behavior and psychological development from birth to preschool age: a protocol for a systematic review and meta-analysis. *Syst Rev*. 2020(9):146.
25. Bergman K, Sarkar P, Glover V, O'Connor T. Maternal Prenatal Cortisol and Infant Cognitive Development: Moderation by Infant–Mother Attachment. *Biol Psychiatry*. 2010;67(11):1026-32.
26. Buss C, Entringer S, Swanson JM, Wadhwa PD. The Role of Stress in Brain Development: The Gestational Environment's Long-Term Effects on the Brain. *Cerebrum*. 2012;2012:4.
27. Van Den Bergh BR, Mennes M, Oosterlaan J, Stevens V, et al. High antenatal maternal anxiety is related to impulsivity during performance on cognitive tasks in 14-and 15-year-olds. *Neurosci Biobehav Rev*. 2005;29(2):259-69.
28. Olza Fernández I, Gainza Tejedor I. La teoría de la programación fetal y el efecto de la ansiedad materna durante el embarazo en el neurodesarrollo infantil. *Rev Psiquiatr Infanto-Juv*. 2007;24(2,3,4):176-80.
29. Tuovinen S, Lahti-Pulkkinen M, Girchenko P, Lipsanen J, et al. Maternal depressive symptoms during and after pregnancy and child developmental milestones. *Depress Anxiety*. 2018;35(8):732-41.
30. Faisal-Cury, Tabb K, Ziebold C, Matijasevich A. The impact of postpartum depression and bonding impairment on child development at 12 to 15 months after delivery. *J Affect Disord*. 2021(4):100-25.
31. Slomian J, Honvo G, Emonts P, Reginster JY, Bruyere O. Consequences of maternal postpartum depression: A systematic review of maternal and infant outcomes. *Women Health (Lond)*. 2019;15:1745506519844044.
32. Oliva-Delgado A. Estado actual de la teoría del apego. *Rev Psiquiatr Psicol Niño Adolesc*. 2004;4(1):65-81.
33. Nix L, Nixon E, Quigley J, O´Keane V. Perinatal depression and children's developmental outcomes at 2 years postpartum. *Early Hum Dev*. 2021;156:105346.
34. González G, Moraes M, Sosa C, Umpierrez E, et al. Depresión materna postnatal y su repercusión en el neurodesarrollo infantil: estudio de cohorte. *Rev Chil Pediatr.* 2017;88(3):360-6.
35. Lupien S, McEwen B, Gunnar M, Heim C. Effects of stress throughout the lifespan on the brain, behaviour and cognition. *Nat Rev Neurosci.* 2009;10(6):434-45.
36. Malo P, Prieto M, Oraá R, Zardoya MJ, et al. Uso de antidepresivos durante el embarazo y la lactancia. *Psiquiatr Biol.* 2018;25(1):20-5.
37. Izbizky G, Otaño L. Uso de nuevos antidepresivos en el embarazo y el riesgo de malformaciones congénitas. *Arch Argent Pediatr.* 2010;108(2):101-3.
38. Letorneau N, Denis CL, Cosic N, Linder J. The effect of perinatal depression treatment for mothers on parenting and child development: a systematic review. *Depress Anxiety*. 2017;34(10):928-66.
39. Ruiz AL, Ceriani Cernadas JM, Cravedi V, Rodriguez D. Estrés y depresión en madres de prematuros: un programa de intervención. *Arch Argent Pediatr*. 2005;103(1):36-45.
40. Speranza AM. Donde nacen y donde mueren los niños en Argentina. In Sociedad Argentina de Pediatría. PRONAP.2017;1(1):15-52.
41. Lester B, Bigsby R, High P, Wu S. Principles of intervention for preterm infant in the NICU. In 10º Canadian Ross Conference in Pediatrics. Optimizing the Neonatal Intensive Care Environment.Montreal,1996;80:59-72.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310084

Disfunciones del metabolismo del surfactante pulmonar: caso clínico pediátrico

Carlos Cambaceres[a], Victoria Viggiano[a], Camila Parellada[a], Florencia Esteguy[a], Sebastián García[a], Claudio Castaños[a]

RESUMEN

Las enfermedades pulmonares intersticiales son patologías poco frecuentes en pediatría. Dentro de ellas, se incluyen las disfunciones del metabolismo del surfactante pulmonar, molécula anfipática cuya función es disminuir la tensión superficial y evitar el colapso alveolar.

Se presenta el caso de un lactante de 6 meses, en seguimiento por bajo peso, que presentó dificultad respiratoria aguda y cianosis; la radiografía de tórax evidenció infiltrado intersticial, neumomediastino y neumotórax bilateral. Al interrogatorio, surgió antecedente materno de internación al año de vida, con requerimiento de oxigenoterapia prolongada y diagnóstico desconocido; presenta signos de hipoxia crónica. El paciente cursó internación con requerimiento de oxigenoterapia. Se realizaron estudios complementarios en búsqueda de etiología, sin resultados positivos. La tomografía de tórax evidenció opacidades en vidrio esmerilado, engrosamiento del intersticio septal y áreas de atrapamiento aéreo; con resultado de biopsia pulmonar y estudio genético se llegó al diagnóstico de disfunción del metabolismo del surfactante pulmonar.

Palabras clave: *surfactantes pulmonares; metabolismo; enfermedades pulmonares intersticiales.*

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10084
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10084.eng

Cómo citar: Cambaceres C, Viggiano V, Parellada C, Esteguy F, et al. Disfunciones del metabolismo del surfactante pulmonar: caso clínico pediátrico. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310084.

[a] *Hospital de Pediatría S.A.M.I.C. Prof. Dr. Juan P. Garrahan, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.*

Correspondencia para *Victoria Viggiano: victoria.viggiano@gmail.com*

Financiamiento*: Ninguno.*

Conflicto de intereses*: Ninguno que declarar.*

Recibido*: 4-5-2023*
Aceptado*: 11-9-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

INTRODUCCIÓN

Las enfermedades pulmonares intersticiales (ILD) son un grupo de patologías poco frecuentes en pediatría, que engloban aquellos trastornos en la remodelación del intersticio pulmonar y de los espacios aéreos distales, con el consiguiente intercambio anormal de gases.[1,2] Existen ILD en las cuales la patología primaria puede ocurrir fuera del intersticio y, por esta razón, algunos grupos de referencia utilizan el término "enfermedades difusas pulmonares" (DLD).

El primer sistema de clasificación de la enfermedad pulmonar intersticial se desarrolló para enfermedades pulmonares difusas del adulto, principalmente basadas en su histología. Posteriormente, un enfoque multidisciplinario resultó en una mejor terminología estandarizada y criterios de diagnóstico. Un grupo de EE. UU. propone el término chILD para hacer referencia a las enfermedades intersticiales pulmonares de la infancia y adolescencia. Estas son un grupo heterogéneo caracterizadas por hallazgos radiológicos anormales y alteración del intercambio gaseoso, una vez que se hayan descartado enfermedades comunes primarias del pulmón o extrapulmonares. Estas incluyen fibrosis quística, inmunodeficiencia, cardiopatía, displasia broncopulmonar, infecciones, discinesia ciliar primaria y aspiración recurrente.

No existen estimaciones fiables de enfermedades pulmonares intersticiales en niños (chILD), pero la prevalencia es probablemente menor a 1 en 100 000, en comparación con 60-80 en 100 000 en adultos.

Dentro de las chILD, se incluyen las disfunciones del metabolismo del surfactante pulmonar conocidas también como déficit congénito de proteínas del surfactante.[1] Esta es una molécula que disminuye la tensión superficial y evita el colapso alveolar. Está compuesta mayormente por fosfolípidos y un 2-3 % por proteínas específicas sintetizadas por los neumocitos tipo II, denominadas A, B, C y D.[2] Alteraciones en su composición dan lugar a distintas manifestaciones, desde cuadros graves rápidamente evolutivos hasta escenarios de inicio insidioso, lentamente progresivos.[3] Esta variedad en la presentación clínica está determinada por la proteína afectada.[4,5]

El objetivo de este estudio es la presentación de un caso clínico de un paciente pediátrico con disfunción del metabolismo del surfactante pulmonar.

CASO CLÍNICO

Paciente de sexo masculino de 6 meses de edad, nacido de término a las 38 semanas con bajo peso al nacer (2200 g), embarazo mal controlado expuesto a sífilis perinatal. En seguimiento ambulatorio por bajo peso sin otros antecedentes personales de relevancia, consultó en hospital local por dificultad respiratoria aguda, cianosis generalizada y registro febril único. Se evidenció en mal estado general, taquicárdico, taquipneico y con mala mecánica respiratoria. Se constató en radiografía de tórax neumomediastino y neumotórax e infiltrado intersticial bilateral, motivo por el cual se solicitó la derivación a centro de mayor complejidad.

Ingresó a nuestra institución en mal estado general, con tiraje universal, taquicárdico, taquipneico y con regular mecánica ventilatoria por lo que se indicó oxigenoterapia de alto flujo (CAFO). Se decidió la internación en Unidad de Cuidados Intensivos Pediátricos (UCIP). Durante las primeras 24 horas presentó empeoramiento clínico con mayor dificultad respiratoria y cianosis sin respuesta a la ventilación no invasiva (VNI), motivo por el cual se decidió su ingreso en asistencia respiratoria mecánica (ARM). Se solicitó virológico en aspirado nasofaríngeo (negativo), dos hemocultivos y nueva radiografía de tórax con infiltrado intersticial bilateral sin signos de escape de aire. Se indicó antibioticoterapia con ceftriaxona (10 días). El paciente cursó internación con requerimiento de ARM durante 18 días, VNI durante 24 días y oxigenoterapia permanente con múltiples intentos frustrados en el destete; permaneció sin enfermedad intercurrente y clínicamente estable con marcada taquipnea (50-60 respiraciones/min).

Se realizaron diversos estudios de búsqueda etiológica: ecocardiograma Doppler color (normal), búsqueda de bacilos ácido alcohol resistentes (BAAR) en aspirado traqueal, determinación de inmunoglobulinas (normal), mutación Delta F508 y alfa 1 antitripsina, los cuales resultaron negativos.

Se constató que la madre del paciente presenta signos de hipoxia crónica (acropaquia) (*Figura 1*) y antecedente de internación al año de vida, con requerimiento de oxigenoterapia prolongada y diagnóstico desconocido sin otros datos para destacar de la anamnesis.

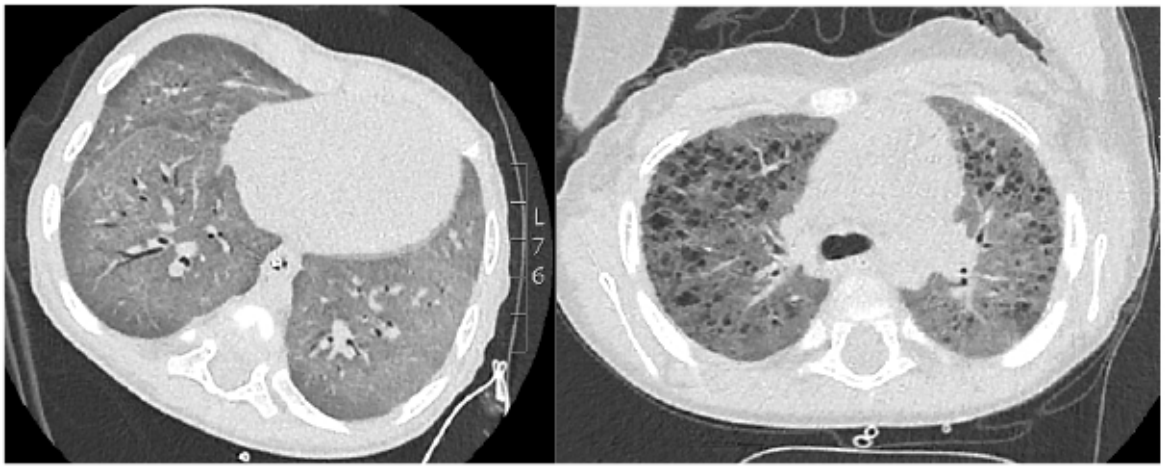
Ante la sospecha diagnóstica de enfermedad pulmonar intersticial, se realizó tomografía de tórax de alta resolución (*Figura 2*), que evidenció

Figura 1. Fotografía de mano izquierda de la madre



Se observan dedos en palillo de tambor (acropaquia), con agrandamiento redondeado de falanges distales.

Figura 2. Tomografía axial computada de tórax



Opacidades bilaterales en vidrio esmerilado de distribución homogénea, engrosamiento del intersticio septal y áreas de atrapamiento aéreo.

opacidades bilaterales en vidrio esmerilado, engrosamiento del intersticio septal y áreas de atrapamiento aéreo. Se decidió de forma interdisciplinaria realizar biopsia pulmonar que informó histoarquitectura del parénquima distorsionada con remodelación lobular, defectos artefactuales por colapso, hiperplasia de neumonocitos tipo II y ensanchamiento intersticial difuso, cambios histológicos compatibles con disfunciones del metabolismo del surfactante pulmonar.

Posterior a la realización de la biopsia y con el informe de la anatomía patológica, se realizó estudio molecular genético que informó variable probablemente patogénica en el gen *SFTPC* (exón 3): c.218T>C p.(Ile73Thr) (PS3/PM2/PP3/pp4) heterocigota de transmisión autosómica dominante que codifica la proteína C del surfactante.

Durante su internación, recibió 3 pulsos de metilprednisolona, con escasa respuesta clínica, y permaneció con taquipnea basal. Posterior a 3

meses de internación, fue contrarreferenciado al hospital local para continuar internación en sala de Pediatría, con requerimiento de oxigenoterapia por cánula nasal, a la espera de provisión de insumos de oxigenoterapia domiciliaria.

DISCUSIÓN

Se describe el caso de un paciente con déficit de proteína C del surfactante, una enfermedad poco frecuente que requiere alto índice de sospecha para su diagnóstico oportuno. Los síntomas cardinales incluyen tos, taquipnea y retraso en el crecimiento, asociados en menor medida a cianosis y crepitantes. Esta patología debe considerarse dentro de los diagnósticos diferenciales en el estudio de pacientes con hipoxemia crónica, luego de haberse descartado otras etiologías más frecuentes. Particularmente, el déficit de la proteína C del surfactante se manifiesta preferentemente en los primeros meses de vida, aunque se han reportado casos en niños mayores o incluso en adultos.[3,4] Las manifestaciones clínicas de las disfunciones del metabolismo del surfactante así como su pronóstico están determinados por la proteína afectada.[6,7]

Actualmente, frente a un paciente con enfermedad respiratoria crónica y habiendo descartado las patologías más frecuentes, es necesaria la sospecha diagnóstica de un grupo de enfermedades denominadas enfermedades difusas pulmonares (DLD), dentro de las cuales se encuentran las disfunciones del metabolismo del surfactante.[8,9]

Dentro de los estudios complementarios, es característico en las tomografías de alta resolución el hallazgo de imágenes con patrón de vidrio esmerilado a predominio de las bases pulmonares y engrosamiento del intersticio pulmonar periférico.[10,11] Continuando con la realización de estudios menos invasivos, el paso siguiente sería el estudio genético. En la actualidad, hay mayor accesibilidad a este estudio y nos puede ayudar a lograr mayor certeza diagnóstica. Se realiza con muestras de sangre periférica, se purifica el ADN, sobre el cual se realizan amplificaciones de distintos fragmentos del gen mediante técnicas de reacción en cadena de la polimerasa (PCR).[12] Con el resultado del estudio genético, se puede dar un adecuado consejo genético familiar, ya que existen formas autosómicas dominantes y formas recesivas. Algunas veces no se logra el diagnóstico con un estudio genético o la enfermedad progresa rápidamente, y los estudios suelen tener una demora de 4 semanas, por lo que en estos casos podría realizarse una biopsia pulmonar para su análisis histológico;[13,14] los hallazgos más frecuentes son hiperplasia celular alveolar de neumocitos tipo II asociada a engrosamiento del intersticio y fibrosis.

En el caso descrito, se arribó al diagnóstico de déficit de proteína C, entidad que suele presentar un patrón radiológico de afectación intersticial con inicio en el primer año de vida y curso insidioso, que podría beneficiarse con corticoides e hidroxicloroquina.[15]

Las enfermedades respiratorias crónicas en la infancia presentan un amplio espectro de patologías que varían en gravedad y afectación, pueden tener un impacto significativo en la calidad de vida de los niños y su desarrollo pulmonar a largo plazo. Es esencial que los pediatras mantengan un alto nivel de sospecha clínica y consideren la posibilidad de estas enfermedades en su diagnóstico diferencial. Dada la mayor accesibilidad a los estudios genéticos, se alienta a los profesionales a considerar esta opción previa a procedimientos invasivos como la biopsia pulmonar.

En síntesis, las enfermedades pulmonares intersticiales pediátricas engloban trastornos raros, con infiltrados difusos y alteraciones en el intercambio gaseoso. Los pacientes suelen manifestar taquipnea, crepitantes e hipoxemia. Es esencial un examen exhaustivo para lograr un diagnóstico certero. Cabe destacar que, en contraste con métodos invasivos como la biopsia pulmonar, los estudios genéticos ofrecen una alternativa menos intrusiva y más segura para obtener un diagnóstico preciso. Se requiere un consenso en la clasificación de chILD para respaldar el diagnóstico y permitir comparaciones basadas en evidencia. Dada la baja incidencia, resulta necesario establecer registros locales (en Latinoamérica) de pacientes para avanzar en la comprensión y manejo de estas afecciones. ■

Agradecimiento

Al Centro de Investigaciones Endocrinológicas Dr. Cesar Bergadá (CEDIE), Hospital General de Niños Ricardo Gutiérrez.

REFERENCIAS

1. Milet M, Mena N, Pérez H, Espinoza, T. Déficit congénito de proteína de surfactante: caso clínico. *Rev Chil Pediatr*. 2016;87(6):500-3.
2. Blanco Quiroz A. Deficiencia genética de proteínas surfactantes y patología pulmonar. *Bol Pediatr*.

2007;47(Supl 2):38-47.
3. Hong D, Dai D, Liu J, Zhang C, et al. Clinical and genetic spectrum of interstitial lung disease in Chinese children associated with surfactant protein C mutations. *Ital J Pediatr*. 2019;45(1):117.
4. Bush A, Griese M, Seidl E, Kerem E, et al. Early onset children's Interstitial Lung Diseases: discrete entities or manifestations of pulmonary dysmaturity?. *Paediatr Respir Rev*. 2019;30:65-71.
5. Thompson M. Surfactant protein B deficiency: insights into surfactant function through clinical surfactant protein deficiency. *Am J Med Sci*. 2001;321(1):26-32.
6. Gupta A, Zheng SL. Genetic disorders of surfactant protein dysfunction: when to consider and how to investigate. *Arch Dis Child*. 2017;102(1):84-90.
7. Magnani JE, Donn SM. Persistent Respiratory Distress in the Term Neonate: Genetic Surfactant Deficiency Diseases. *Curr Pediatr Rev*. 2019;16(1):17-25.
8. Cazzato S, di Palmo E, Ragazzo V, Ghione V. Interstitial lung disease in children. *Early Hum Dev*. 2013;89 (Suppl 3):S39-43.
9. Thouvenin G, Taam RA, Flamein F, Guillot L, et al. Characteristics of disorders associated with genetic mutations of surfactant protein C. *Arch Dis Child.* 2010;95(6):449-54.
10. Nogee L. Interstitial lung disease in newborns. *Semin Fetal Neonatal Med*. 2017;22(4):227-33.
11. Mechri M, Epaud R, Emond S, Coulomb A, et al. Surfactant protein C gene (SFTPC) mutation-associated lung disease: high-resolution computed tomography (HRCT) findings and its relation to histological analysis. *Pediatr Pulmonol.* 2010;45(10):1021-9.
12. Hamvas A. Inherited surfactant protein-B deficiency and surfactant protein-C associated disease: clinical features and evaluation. *Semin Perinatol.* 2006;30(6):316-26.
13. Doan M, Guillerman R, Dishop K, Nogee L, et al. Clinical, radiological and pathological features of ABCA3 mutations in children. *Thorax*. 2008;63(4):366-73.
14. Comité Nacional de Neumonología. Enfermedades del intersticio pulmonar en niños menores de 2 años. Clasificación, diagnóstico y tratamiento. *Arch Argent Pediatr*. 2019;117(Supl 2):S120-34.
15. Rosen D, Waltz D. Hydroxychloroquine and Surfactant Protein C Deficiency. *N Engl J Med*. 2005;352(2):207-8.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310084

Pulmonary surfactant metabolism dysfunction: A pediatric clinical case report

Carlos Cambaceres[a], Victoria Viggiano[a], Camila Parellada[a], Florencia Esteguy[a], Sebastián García[a], Claudio Castaños[a]

ABSTRACT

Interstitial lung diseases are rare in pediatrics. They include dysfunctions in the metabolism of pulmonary surfactant, an amphipathic molecule that reduces surface tension and prevents alveolar collapse.

Here we describe the case of a 6-month-old infant controlled for low weight, who presented with acute respiratory distress and cyanosis; his chest X-ray showed interstitial infiltrate, pneumomediastinum, and bilateral pneumothorax. During history-taking, it was noted that his mother had a history of hospitalization at 1 year old with unknown diagnosis, requiring prolonged oxygen therapy; she now shows signs of chronic hypoxia. The patient was hospitalized and required oxygen therapy. Ancillary tests were done to look for the etiology of the condition, with no positive results. A chest computed tomography showed ground-glass opacities, thickening of the septal interstitium, and areas of air trapping; based on the results of a lung biopsy and a genetic study, pulmonary surfactant metabolism dysfunction was diagnosed.

Keywords: *pulmonary surfactants; metabolism; interstitial lung disease.*

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10084.eng

To cite: Cambaceres C, Viggiano V, Parellada C, Esteguy F, et al. Pulmonary surfactant metabolism dysfunction: A pediatric clinical case report. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310084.

[a] *Hospital de Pediatría S.A.M.I.C. Prof. Dr. Juan P. Garrahan, City of Buenos Aires, Argentina.*

Correspondence to *Victoria Viggiano: victoria.viggiano@gmail.com*

Funding*: None.*

Conflict of interest*: None.*

Received*: 5-4-2023*
Accepted*: 9-11-2023*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

INTRODUCTION

Interstitial lung diseases (ILDs) are a group of rare conditions in pediatrics, which include disorders in the remodeling of the pulmonary interstitium and distal air spaces, resulting in an abnormal gas exchange.[1,2] In some ILDs, the primary pathology may occur outside the interstitium and, for this reason, some reference groups use the term "diffuse lung diseases" (DLDs).

The first classification system for ILD was developed for adult diffuse lung diseases, mainly based on their histology. Subsequently, a multidisciplinary approach developed better standardized terminology and diagnostic criteria. A United States group proposed the term chILD to refer to interstitial lung diseases of childhood and adolescence. These make up a heterogeneous group characterized by abnormal radiological findings and abnormal gas exchange, once common primary lung or extrapulmonary diseases have been ruled out. These include cystic fibrosis, immunodeficiency, heart disease, bronchopulmonary dysplasia, infections, primary ciliary dyskinesia, and recurrent aspiration.

There are no reliable estimates of childhood interstitial lung disease (chILD), but its prevalence is probably less than 1 in 100 000, compared with 60–80 in 100 000 in adults.

ChILD includes dysfunctions of pulmonary surfactant metabolism, also known as congenital surfactant protein deficiency.[1] This is a molecule that decreases surface tension and prevents alveolar collapse. It is composed mostly of phospholipids and 2–3% of specific proteins synthesized by type II pneumocytes, called A, B, C, and D.[2] Alterations in its composition result in different manifestations, from rapidly evolving severe conditions to slowly progressive, insidious onset scenarios.[3] This variety in clinical presentation is determined by the affected protein.[4,5]

The objective of this study is to describe the clinical case of a pediatric patient with pulmonary surfactant metabolism dysfunction.

CASE REPORT

This was a male, 6-month-old infant born at term at 38 weeks of gestation with a low birth weight (2200 g) from a poorly controlled pregnancy exposed to perinatal syphilis. The infant was in outpatient follow-up due to his low weight with no other relevant personal history; he was taken to a local hospital for acute respiratory distress, generalized cyanosis, and a single fever event. He was in poor general condition and had tachycardia, tachypnea, and poor respiratory mechanics. A chest X-ray showed pneumomediastinum, pneumothorax, and bilateral interstitial infiltrate, so he was referred to a tertiary care facility.

He was admitted to our hospital in poor general condition, with generalized chest retraction, tachycardia, tachypnea, and regular respiratory mechanics; therefore, high-flow nasal cannula (HFNC) therapy was indicated. The patient was hospitalized in the pediatric intensive care unit (PICU). In the first 24 hours, his clinical condition worsened, with increased respiratory distress and cyanosis and no response to non-invasive ventilation (NIV); for this reason, he was placed on mechanical ventilation (MV). A virological test of nasopharyngeal aspirate was negative; 2 blood cultures and a new chest X-ray were done, which showed bilateral interstitial infiltrate without signs of air leaks. Antibiotic therapy with ceftriaxone (10 days) was indicated. The patient was hospitalized with MV for 18 days, NIV for 24 days, and continued oxygen therapy with multiple unsuccessful attempts at weaning; he remained without developing any intercurrent disease and was clinically stable with marked tachypnea (50–60 breaths/min).

Several studies were done to establish the etiology: color Doppler echocardiogram (normal), screening for acid fast bacilli (AFB) in tracheal aspirate, determination of immunoglobulins (normal), Delta F508 mutation and alpha-1 antitrypsin, which were negative.

The patient's mother was found to have signs of chronic hypoxia (clubbing) (*Figure 1*) and a history of hospitalization at 1 year old with unknown diagnosis, requiring prolonged oxygen therapy, and with no other data worth noting during history taking.

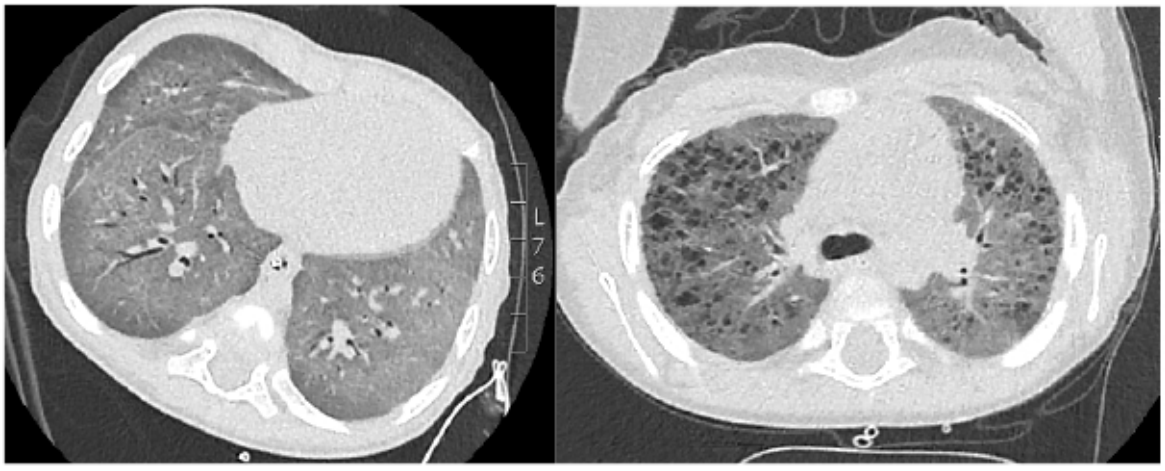
In view of the suspected diagnosis of interstitial lung disease, a high-resolution chest computed tomography was performed (*Figure 2*), which showed bilateral ground-glass opacities, thickening of the septal interstitium, and areas of air trapping. As part of an interdisciplinary approach, it was decided to perform a lung biopsy that reported distorted parenchymal tissue architectural structure with lobar remodeling, collapsing artifact defects, type II pneumonocyte hyperplasia, and diffuse interstitial widening; these histological changes are compatible with dysfunction of pulmonary surfactant metabolism.

Figure 1. Image of the mother's left hand



Drumstick fingers (clubbing) with rounded enlargement of distal phalanges.

Figure 2. Chest computed tomography



Bilateral ground-glass opacities distributed homogeneously, thickening of the septal interstitium, and areas of air trapping.

After conducting the biopsy and once the pathological examination report was available, a genetic molecular study was performed which showed a likely pathogenic, heterozygous, autosomal dominant variant in the *SFTPC* gene (exon 3): c.218T>C p.(Ile73Thr) (PS3/PM2/PP3/pp4) that encodes the surfactant protein C.

During hospitalization, the patient received 3 pulses of methylprednisolone, with little clinical response, and remained with baseline tachypnea. After 3 months of hospitalization, he was counter-referred to the local hospital to continue with hospitalization in the Pediatric Ward, requiring oxygen therapy via nasal cannula, while waiting for the provision of home oxygen therapy supplies.

DISCUSSION

Here we describe the case of a patient with surfactant protein C deficiency, a rare disease that requires a high index of suspicion for a timely diagnosis. Cardinal symptoms include cough, tachypnea, and growth retardation,

associated to a lesser extent with cyanosis and crepitant rales. This disease should be considered among the differential diagnoses in the study of patients with chronic hypoxemia, after other more frequent etiologies have been ruled out. Particularly, surfactant protein C deficiency manifests preferentially in the first months of life, although cases have been reported in older children or even in adults.[3,4] The clinical manifestations and the prognosis of surfactant metabolism dysfunction are determined by the affected protein.[6,7]

Currently, when faced with a patient with chronic respiratory disease, and having ruled out the most common conditions, it is necessary to suspect a group of diseases called diffuse lung diseases (DLDs), which include surfactant metabolism dysfunctions.[8,9]

In relation to ancillary tests, the observation of images with ground-glass pattern, predominantly in the lung bases, and thickening of the peripheral pulmonary interstitium is typical in high-resolution computed tomographies.[10,11] After doing less invasive studies, the next step would be a genetic study. Nowadays, genetic studies are more accessible and may help to establish a greater diagnostic certainty. It is done on peripheral blood samples; it involves purification of DNA, on which amplifications of different gene fragments are performed by polymerase chain reaction (PCR) techniques.[12] Once the genetic study results are available, an adequate family genetic counseling may be provided, since there are autosomal dominant and recessive forms. Sometimes diagnosis is not achieved with a genetic study or the disease progresses rapidly, and study results usually take 4 weeks, so, in these cases, a lung biopsy may be performed for histological analysis.[13,14] The most frequent findings are alveolar cell hyperplasia of type II pneumocytes associated with interstitial thickening and fibrosis.

In the case described here, protein C deficiency was diagnosed, a condition that usually presents a radiological pattern of interstitial involvement with onset in the first year of life and insidious course, which may benefit from corticosteroid and hydroxychloroquine use.[15]

Chronic respiratory diseases in childhood comprise a wide spectrum of conditions that vary in severity and involvement and may have a significant impact on children's quality of life and long-term pulmonary development. It is essential that pediatricians maintain a high level of clinical suspicion and consider the possibility of these diseases in their differential diagnosis. Given the increased accessibility to genetic studies, health care providers are encouraged to consider this option prior to conducting invasive procedures, such as a lung biopsy.

In summary, childhood interstitial lung diseases encompass rare disorders, with diffuse infiltrates and alterations in gas exchange. Patients usually develop tachypnea, crepitant rales, and hypoxemia. A thorough examination is critical for an accurate diagnosis. It should be noted that, in contrast to invasive methods such as a lung biopsy, genetic studies offer a less invasive and safer alternative to obtain an accurate diagnosis. Consensus on the classification of chILD is required to support diagnosis and allow for evidence-based comparisons. Given its low incidence, it is necessary to establish local registries (in Latin America) of patients to advance in the understanding and management of these conditions. ■

Acknowledgments

We would like to thank the Center for Endocrinological Research (Centro de Investigaciones Endocrinológicas, CEDIE) Dr. César Bergadá and Hospital General de Niños Ricardo Gutiérrez.

REFERENCES

1. Milet M, Mena N, Pérez H, Espinoza, T. Déficit congénito de proteína de surfactante: caso clínico. *Rev Chil Pediatr*. 2016;87(6):500-3.
2. Blanco Quiroz A. Deficiencia genética de proteínas surfactantes y patología pulmonar. *Bol Pediatr*. 2007;47(Supl 2):38-47.
3. Hong D, Dai D, Liu J, Zhang C, et al. Clinical and genetic spectrum of interstitial lung disease in Chinese children associated with surfactant protein C mutations. *Ital J Pediatr*. 2019;45(1):117.
4. Bush A, Griese M, Seidl E, Kerem E, et al. Early onset children's Interstitial Lung Diseases: discrete entities or manifestations of pulmonary dysmaturity? *Paediatr Respir Rev*. 2019;30:65-71.
5. Thompson M. Surfactant protein B deficiency: insights into surfactant function through clinical surfactant protein deficiency. *Am J Med Sci*. 2001;321(1):26-32.
6. Gupta A, Zheng SL. Genetic disorders of surfactant protein dysfunction: when to consider and how to investigate. *Arch Dis Child*. 2017;102(1):84-90.
7. Magnani JE, Donn SM. Persistent Respiratory Distress in the Term Neonate: Genetic Surfactant Deficiency Diseases. *Curr Pediatr Rev*. 2019;16(1):17-25.
8. Cazzato S, di Palmo E, Ragazzo V, Ghione V. Interstitial lung disease in children. *Early Hum Dev*. 2013;89 (Suppl 3):S39-43.
9. Thouvenin G, Taam RA, Flamein F, Guillot L, et al. Characteristics of disorders associated with genetic mutations of surfactant protein C. *Arch Dis Child*. 2010;95(6):449-54.

10. Nogee L. Interstitial lung disease in newborns. *Semin Fetal Neonatal Med*. 2017;22(4):227-33.
11. Mechri M, Epaud R, Emond S, Coulomb A, et al. Surfactant protein C gene (SFTPC) mutation-associated lung disease: high-resolution computed tomography (HRCT) findings and its relation to histological analysis. *Pediatr Pulmonol.* 2010;45(10):1021-9.
12. Hamvas A. Inherited surfactant protein-B deficiency and surfactant protein-C associated disease: clinical features and evaluation. *Semin Perinatol.* 2006;30(6):316-26.
13. Doan M, Guillerman R, Dishop K, Nogee L, et al. Clinical, radiological and pathological features of ABCA3 mutations in children. *Thorax*. 2008;63(4):366-73.
14. Comité Nacional de Neumonología. Enfermedades del intersticio pulmonar en niños menores de 2 años. Clasificación, diagnóstico y tratamiento. *Arch Argent Pediatr*. 2019;117(Supl 2):S120-34.
15. Rosen D, Waltz D. Hydroxychloroquine and Surfactant Protein C Deficiency. *N Engl J Med*. 2005;352(2):207-8.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310123

Shock séptico: complicación atípica de duplicación del tracto alimentario

Francisco Imaz[a], *Enrique Buela*[a], *Antonella Scarpin*[a], *Agustina Santangelo*[a], *Paula Marino*[a], *Lucrecia Barbosa*[a]

RESUMEN

Las duplicaciones del tracto alimentario son un conjunto heterogéneo de anomalías congénitas del tubo digestivo. Su forma de presentación es variada, y pueden desarrollar distintas complicaciones libradas a su evolución natural. La infección es una complicación poco frecuente, pero que no puede desconocerse por la gravedad que implica.

Se presenta el caso de una paciente de 2 años de edad, previamente sana, con una complicación atípica de una duplicación del tracto alimentario: un *shock* séptico. Consultó inicialmente por distensión y dolor abdominal asociado a una masa abdominal palpable. Los estudios imagenológicos evidenciaron una formación líquida parcialmente tabicada en el hemiabdomen derecho. Durante la internación, se presentó una infección intratumoral, que evolucionó al *shock* séptico. Respondió favorablemente al tratamiento médico del *shock*, y se realizó la exéresis quirúrgica posteriormente. La anatomía patológica confirmó la duplicación del tracto alimentario.

Palabras clave: *tracto gastrointestinal;* shock *séptico*; *pediatría.*

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-100123
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-100123.eng

Cómo citar: Imaz F, Buela E, Scarpin A, Santángelo A, et al. *Shock* séptico: complicación atípica de duplicación del tracto alimentario. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310123.

[a] *Hospital General de Niños Ricardo Gutiérrez, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.*

Correspondencia para *Francisco Imaz: francisco.imaz12@gmail.com*

Financiamiento*: Ninguno.*

Conflicto de intereses*: Ninguno que declarar.*

Recibido*: 13-6-2023*
Aceptado*: 6-9-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

INTRODUCCIÓN

Las duplicaciones del tracto alimentario (DTA) son un conjunto heterogéneo de anomalías congénitas que se pueden encontrar adyacentes al tubo digestivo.[1] Pueden pasar inadvertidas y ser halladas en forma incidental, o en algunas ocasiones se trata de masas abdominales palpables que remiten a la consulta.[1,2] En su evolución natural, pueden desarrollar algún tipo de complicación como hemorragia, oclusión, vólvulo, etc.[2-4]

Reportamos una forma de presentación atípica, en una paciente que presenta un cuadro grave de infección sistémica.

CASO CLÍNICO

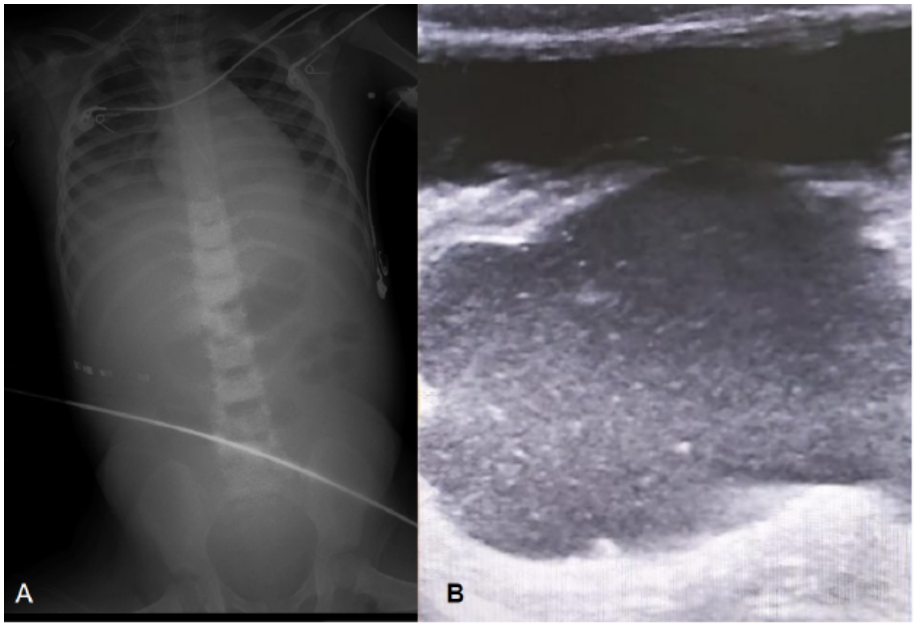
Paciente de sexo femenino de 2 años, sin antecedentes patológicos de relevancia, que consultó por distensión y dolor abdominal asociado a una tumoración hipogástrica. Al examen físico, se evaluó a una paciente en buen estado general, eutrófica y afebril. A la inspección, se observó marcada distensión abdominal; en la palpación, se constató una masa palpable a predominio de hemiabdomen derecho, móvil, dolorosa y de consistencia dura elástica. El resto del abdomen se presentó blando y depresible. El laboratorio evidenció una anemia con hemoglobina de 6,3 g/dL, la cual requirió transfusión de glóbulos rojos, sin otros hallazgos de laboratorio patológicos.

La radiografía de abdomen (*Figura 1A*) evidenció un importante silencio abdominal en coincidencia con la masa palpable, sin niveles hidroaéreos ni otros signos patológicos. La ecografía (*Figura 1B*) mostró una imagen quística de 98 mm × 59 mm, de paredes hiperecogénicas, con finos tabiques en su interior, de contenido líquido finamente particulado que se extendía del mesogastrio e hipogastrio hacia flanco derecho con desplazamiento de asas intestinales. La resonancia magnética evidenció hallazgos similares a la ecografía (*Figura 2*).

Se solicitaron también marcadores tumorales, los cuales fueron negativos.

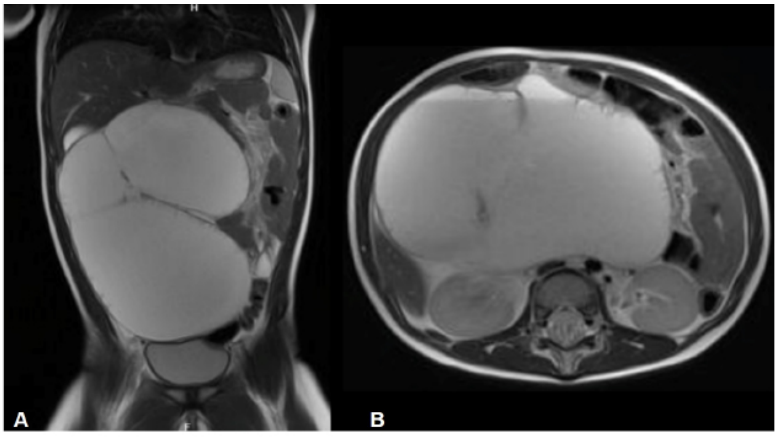
Por tratarse de una tumoración quística tabicada, se sospechó malformación linfática macroquística y se planificó su tratamiento quirúrgico (aspirado e inyección de agente esclerosante). Aguardando el procedimiento, presentó hipertermia (temperatura máxima de 40° C), asociada a tensión arterial de 75/53 mmHg, frecuencia cardíaca de 170 lpm, frecuencia respiratoria de 58 rpm, relleno capilar enlentecido (4 a 5 segundos) con pulsos saltones y alteración del sensorio. Se realizó expansión del

Figura 1. Radiografía y ecografía de abdomen



A. Radiografía de abdomen. Importante silencio abdominal derecho.
B. Ecografía. Tumoración con pared ecogénica y contenido finamente particulado.

Figura 2. Resonancia magnética nuclear secuenciada en T2



Formación líquida parcialmente tabicada, ubicada desde epigastrio a hipogastrio lateralizada hacia el hemiabdomen derecho con desplazamiento de estructuras adyacentes.
A: corte coronal. B: corte axial.

volumen intravascular con cristaloides a 20 ml/kg, sin respuesta favorable.

Por refractariedad al tratamiento instaurado, se decidió su pase a unidad de cuidados intensivos, donde se inició asistencia respiratoria mecánica, vasopresores (adrenalina y noradrenalina) y antibióticos de amplio espectro (vancomicina, amikacina y piperacilina-tazobactam). Además, se tomaron muestras para hemocultivos y urocultivos. El laboratorio mostró leucopenia (1400 leucocitos/mm^3), con aumento de reactantes de fase aguda (PCR de 147 mg/dL) y ácido láctico de 2,7 mg/dL. Se realizó también la punción percutánea de la tumoración guiada por ecografía y se obtuvo líquido turbio-hemorrágico, que se envió a análisis citoquímico y cultivo. No se colocó un drenaje intraquístico para disminuir el riesgo de sobreinfectar una tumoración que originalmente no estaba comunicada con el exterior, y cuya etiología aún no estaba confirmada. El citoquímico evidenció abundantes hematíes y leucocitos a predominio de polimorfonucleares, con niveles bajos de glucosa. El cultivo fue positivo para *Pseudomona aeruginosa*, al igual que el hemocultivo. El rescate microbiológico permitió reducir el esquema antibiótico a amikacina y piperacilina-tazobactam.

Luego del tratamiento instaurado, la paciente respondió favorablemente y logró al tercer día un estado óptimo para la resolución quirúrgica del cuadro, ya sin fiebre ni requerimiento de vasopresores. Se realizó una laparotomía exploratoria, mediante un abordaje mediano infraumbilical, y se constató una tumoración quística que involucraba mesenterio de íleon terminal y pared de ciego y colon ascendente, de difícil interpretación, irrigado por arterias paralelas a las arterias ileales. Se realizó una resección en bloque incluida la tumoración con íleon terminal, ciego y colon ascendente (*Figura 3*), y se realizó una ostomía en caño de escopeta entre el íleon terminal y el colon ascendente. El estudio anatomopatológico diferido fue compatible con una duplicación quística de íleon terminal, de tipo 1B según la clasificación vascular de Li *et al*.[5] (*Figura 4*). Posteriormente, la paciente presentó una buena evolución posoperatoria.

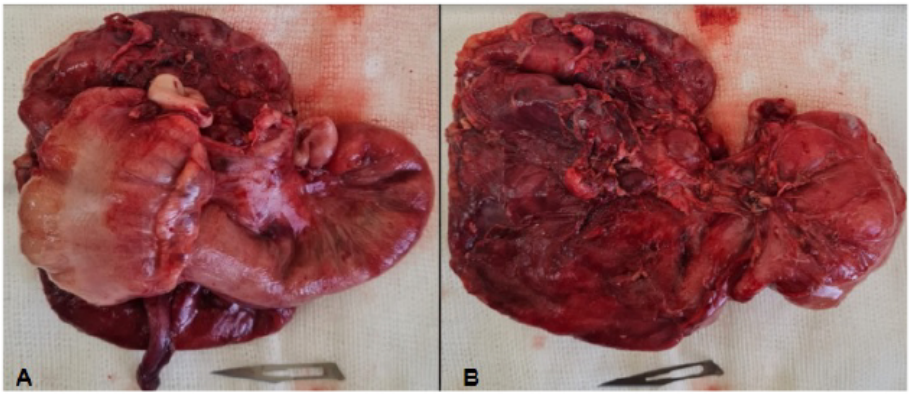
DISCUSIÓN

Tal como presentamos en este caso, las DTA pueden presentar complicaciones graves como la infección con compromiso sistémico. Si bien el sangrado intratumoral es una complicación bien descrita en las DTA[2] y sospechada en nuestra paciente como causa probable de hipotensión, la aparición de hipertermia, leucopenia, aumento de reactantes de fase aguda, refractariedad a la reposición volumétrica y la necesidad de terapia con vasopresores indicaban un cuadro grave de infección que desencadenó un *shock* séptico.[6]

Esta no es una complicación habitual; la serie de casos publicada por Guerin *et al*.[7] incluyó 114 pacientes, y ninguno de ellos fue diagnosticado en el contexto de una infección. Esto coincide con otras series, como las de Erginel *et al*.[8] y Sujka *et al*.[9], que incluyen 40 y 35 pacientes respectivamente. Creemos que el sangrado podría ser un factor predisponente para la infección, como sucedió en nuestro caso.

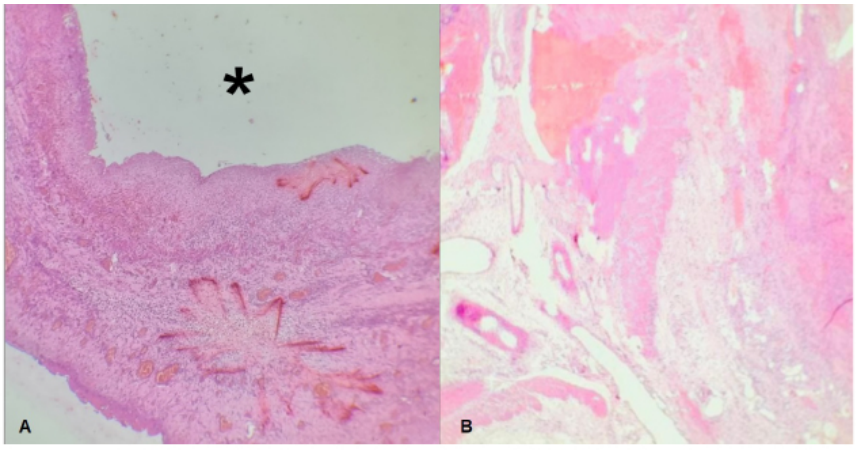
Se deben considerar como diagnósticos

Figura 3. Pieza quirúrgica



A: vista anterior. B: vista posterior.

Figura 4. Estudio anatomopatológico



Histología compatible con duplicación del tracto alimentario: internamente cubierto por epitelio intestinal diferenciado con vellosidades atróficas, músculo liso ordenado en capas longitudinales y lisas, y externamente cubierta por serosa. A: vista transmural (interior del quiste). B: amplificación correspondiente a la mucosa.*

diferenciales otras tumoraciones quísticas abdominales, como malformaciones linfáticas macroquísticas, quistes de ovario, teratomas quísticos y quistes hidatídicos o mesentéricos.[10] Los signos y síntomas de estas tumoraciones suelen ser similares, lo que dificulta la sospecha etiológica inicial, y si bien los estudios imagenológicos pueden orientar al equipo tratante, el diagnóstico definitivo siempre está dado por el estudio anatomopatológico.[2] La ecografía es el primer estudio para solicitar frente a una tumoración quística abdominal.[11] Se reservan los estudios de corte transversal, como la tomografía computarizada o resonancia magnética, para aquellas tumoraciones quísticas de gran tamaño o que presenten complicaciones[12]; nos darán información sobre la ubicación, tamaño, forma, paredes y relaciones de la tumoración con las estructuras adyacentes. La DTA se diferencia de sus diagnósticos diferenciales, ya que tiene un patrón ecográfico característico con tres capas en la pared del quiste correspondientes a la mucosa, submucosa y muscular;[11] sin embargo, cuando se encuentra dentro de un proceso inflamatorio, esto se pierde y dificulta el diagnóstico. En nuestro caso, la inflamación intraquística resultó en la pérdida de este patrón. Di Serafino *et al.*[12] en su serie describieron la misma experiencia.

El caso presentado se destaca también por el gran tamaño de la tumoración, con un diámetro máximo de 98 mm. Esta característica dificultó la sospecha etiológica inicial, ya que las DTA suelen ser menos voluminosas. En la serie publicada

por Guerin *et al.*,[7] la DTA más grande midió 42 mm, con una media de 35 mm de diámetro en el grupo con diagnóstico posnatal y de 30 mm de diámetro en el grupo de diagnóstico prenatal. Posiblemente, el proceso inflamatorio pudo haber sido un factor facilitador para el aumento del tamaño tumoral, como sucedió en nuestro caso.

La mayoría de los autores coinciden en que el tratamiento quirúrgico definitivo de elección es la enucleación o la resección con anastomosis primaria.[13,14] En nuestra paciente, estas opciones no fueron viables debido a la condición clínica que presentaba, por lo que se resolvió con resección intestinal del segmento comprometido y ostomía. Algunas publicaciones sugieren una conducta expectante en pacientes asintomáticos;[15] sin embargo, no nos parece una recomendación apropiada, ya que las DTA libradas a su evolución natural pueden causar síndromes graves y potencialmente mortales, como ocurrió en nuestra paciente.

En conclusión, se presenta el caso de una DTA con una forma de presentación atípica, que evolucionó con infección intraquística. Si bien la incidencia de esta complicación es baja, creemos necesario visibilizar este debut por su gravedad potencial. Una cirugía electiva al momento del diagnóstico sería la conducta más apropiada. ■

REFERENCIAS

1. Spătaru RI, Lupuşoru MOD, Şerban D, Ivanov M, Iozsa DA. Alimentary tract duplications in children - a 15 years' experience. *Rom J Morphol Embryol*. 2021;62(3):751-6.
2. Xiang L, Lan J, Chen B, Li P, Guo C. Clinical characteristics of gastrointestinal tract duplications in children: A single-institution series review. *Medicine (Baltimore)*. 2019;98(44):e17682.
3. Iyer CP, Mahour GH. Duplications of the alimentary tract in infants and children. *J Pediatr Surg*. 1995;30(9):1267-70.
4. Sangüesa Nebot C, Llorens Salvador R, Carazo Palacios E, Picó Aliaga S, Ibañez Pradas V. Enteric duplication cysts in children: varied presentations, varied imaging findings. *Insights Imaging*. 2018;9(6):1097-106.
5. Li L, Zhang JZ, Wang YX. Vascular classification for small intestinal duplications: experience with 80 cases. *J Pediatr Surg*. 1998;33(8):1243-5.
6. García PCR, Tonial CT, Piva JP. Septic shock in pediatrics: the state-of-the-art. *J Pediatr (Rio J)*. 2020;96 Suppl 1(Suppl 1):87-98.
7. Guérin F, Podevin G, Petit T, López M, et al. Outcome of alimentary tract duplications operated on by minimally invasive surgery: a retrospective multicenter study by the GECI (Groupe d'Etude en Coeliochirurgie Infantile). *Surg Endosc*. 2012;26(10):2848-55.
8. Erginel B, Soysal FG, Ozbey H, Keskin E, et al. Duplication Cysts in Children: A Single-Institution Series with Forty Patients in Twenty-Six Years. *World J Surg*. 2017;41(2):620-4.
9. Sujka JA, Sobrino J, Benedict LA, Alemayehu H, et al. Enteric duplication in children. *Pediatr Surg Int*. 2018;34(12):1329-32.
10. Fernández Ibieta M, Rojas Ticona J, Martínez Castaño IM, Reyes Ríos P, et al. Quistes mesentéricos en la edad pediátrica: ¿qué son en realidad? *An Pediatr (Barc)*. 2015;82(1):e48-51.
11. Barr LL, Hayden CK Jr, Stansberry SD, Swischuk LE. Enteric duplication cysts in children: are their ultrasonographic wall characteristics diagnostic? *Pediatr Radiol*. 1990;20(5):326-8.
12. Di Serafino M, Mercogliano C, Vallone G. Ultrasound evaluation of the enteric duplication cyst: the gut signature. *J Ultrasound*. 2015;19(2):131-3.
13. Rasool N, Safdar CA, Ahmad A, Kanwal S. Enteric duplication in children: clinical presentation and outcome. *Singapore Med J*. 2013;54(6):343-6.
14. Holcomb GW 3rd, Gheissari A, O'Neill JA Jr, Shorter NA, Bishop HC. Surgical management of alimentary tract duplications. *Ann Surg*. 1989;209(2):167-74.
15. van Zitteren LM, Ruppert M, Op de Beeck B, Wojciechowski M. Infected enteric duplication cyst. *BMJ Case Rep*. 2017;2017:bcr2017222391

Case report

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310123

Septic shock: an atypical complication of alimentary tract duplication

Francisco Imaz[a], Enrique Buela[a], Antonella Scarpin[a], Agustina Santangelo[a], Paula Marino[a], Lucrecia Barbosa[a]

ABSTRACT

Alimentary tract duplications are heterogenous congenital anomalies of the digestive tract. Their form of presentation is varied, and they may lead to different complications, depending on their natural course. Infection is a rare complication, but it cannot be ignored because of its severity.

Here we describe the case of an otherwise healthy 2-year-old girl with an atypical complication of alimentary tract duplication: septic shock. She initially consulted due to abdominal distension and pain associated with a palpable abdominal mass. The imaging studies showed a partial fluid septation in the right side of the abdomen. During hospitalization, an intratumoral infection developed, which progressed to septic shock. The patient responded favorably to medical treatment for shock, and surgical resection was subsequently performed. The pathology report confirmed the presence of alimentary tract duplication.

Keywords: *gastrointestinal tract; septic shock; pediatrics.*

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-100123.eng

To cite: Imaz F, Buela E, Scarpin A, Santángelo A, et al. Septic shock: an atypical complication of alimentary tract duplication. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310123.

[a] *Hospital General de Niños Ricardo Gutiérrez, City of Buenos Aires, Argentina.*

Correspondence to *Francisco Imaz: francisco.imaz12@gmail.com*

Funding*: None.*

Conflict of interest*: None.*

Received*: 6-13-2023*
Accepted*: 9-6-2023*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

INTRODUCTION

Alimentary tract duplications (ATD) are heterogenous congenital anomalies that may be found adjacent to the digestive tract.[1] They may go unnoticed and be found incidentally or, on some occasions, they are palpable abdominal masses that are referred for consultation.[1,2] During their natural course, they may develop some type of complication, such as hemorrhage, obstruction, volvulus, etc.[2–4]

Here we report an atypical form of presentation in a patient presenting with severe systemic infection.

CASE REPORT

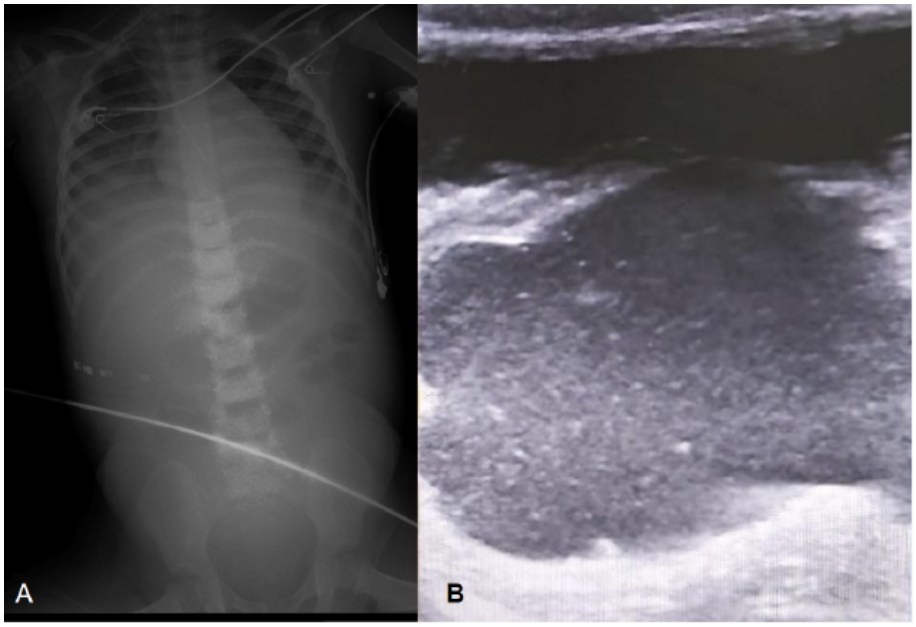
This was a 2-year-old female patient with no relevant medical history who consulted due to abdominal distension and pain associated with a hypogastric tumor. On physical examination, the patient was in good general condition, with normal body weight and no fever. On inspection, marked abdominal distension was observed; palpation revealed a palpable mass predominantly in the right side of the abdomen which was mobile, painful and had a hard-elastic consistency. The rest of the abdomen was soft and depressible. Lab tests showed anemia with hemoglobin levels of 6.3 g/dL, which required red blood cell transfusion, and no other pathological laboratory findings.

The abdomen X-ray (*Figure 1A*) showed an important abdominal "silence," consistent with the palpable mass, with no bowel sounds or other pathological signs. The ultrasound (*Figure 1B*) showed a cystic image with hyperechogenic walls that measured 98 mm × 59 mm and contained small septa with finely particulate fluid inside that extended from the mesogastrium and hypogastrium into the right side of the abdomen, displacing the intestinal loops. The magnetic resonance imaging findings were similar to those of the ultrasound (*Figure 2*).

Tumor markers were negative.

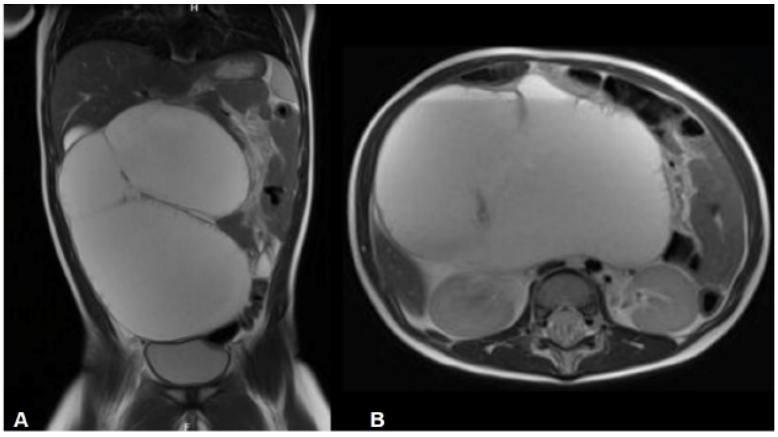
Since the findings showed a septated cystic tumor, a macrocystic lymphatic malformation was suspected and surgical treatment was planned (aspirate and injection of sclerosing agent). While awaiting the procedure, the patient developed hyperthermia (maximum temperature of 40 °C) associated with blood pressure of 75/53 mmHg, heart rate of 170 bpm, respiratory rate of 58 bpm, slow capillary refill (4 to 5 seconds) with bounding pulses and altered sensorium. Intravascular volume expansion was induced with crystalloids at 20 mL/kg, but with no favorable response.

Figure 1. X-ray and ultrasound of abdomen



A. X-ray of abdomen. Important "silence" in right side of abdomen.
B. Ultrasound. Tumor with echogenic wall and fine particulate content.

Figure 2. T2 sequence of magnetic resonance imaging



Partial fluid septation located from the epigastric to the hypogastric region, predominantly in the right side of the abdomen and displacing adjacent structures.
A: Coronal section. B: Axial section.

Since the condition was refractory to treatment, she was transferred to the Intensive Care Unit, where she was placed on mechanical ventilation and started receiving vasopressors (epinephrine and norepinephrine) and broad-spectrum antibiotics (vancomycin, amikacin, and piperacillin-tazobactam). Specimens for blood and urine cultures were also collected. Lab tests showed leukopenia (1400 leukocytes/mm^3) and increased acute phase reactants (PCR: 147 mg/dL) and lactic acid level of 2.7 mg/dL. An ultrasound-guided percutaneous puncture of the tumor was also performed; cloudy hemorrhagic fluid was collected and sent for cytochemical analysis and culture. An intracystic drain was not placed to reduce the risk of overinfecting a tumor that was originally not communicated with the exterior and whose etiology had not yet been confirmed. The cytochemistry showed abundant red blood cells and leukocytes with a predominance of polymorphonuclear cells, with low glucose levels. The culture was positive for *Pseudomona aeruginosa*, as was the blood culture. The isolation of the microorganism allowed to reduce the antibiotic therapy to amikacin and piperacillin-tazobactam.

After the treatment, the patient responded favorably and, on the third day, was in optimal condition for the surgery, with no fever or need for vasopressors. An exploratory laparotomy was performed through a median infraumbilical entry; a cystic tumor was found that involved the mesentery of the terminal ileum and the wall of the cecum and ascending colon, irrigated by arteries parallel to the ileal arteries, which was difficult to interpret. An en bloc resection was performed including the tumor, terminal ileum, cecum, and ascending colon (*Figure 3*), and a shotgun tube ostomy was performed between the terminal ileum and ascending colon. The deferred pathological study was compatible with a cystic duplication of the terminal ileum, type 1B as per the vascular classification by Li et al.[5] (*Figure 4*). The patient had an adequate postoperative course.

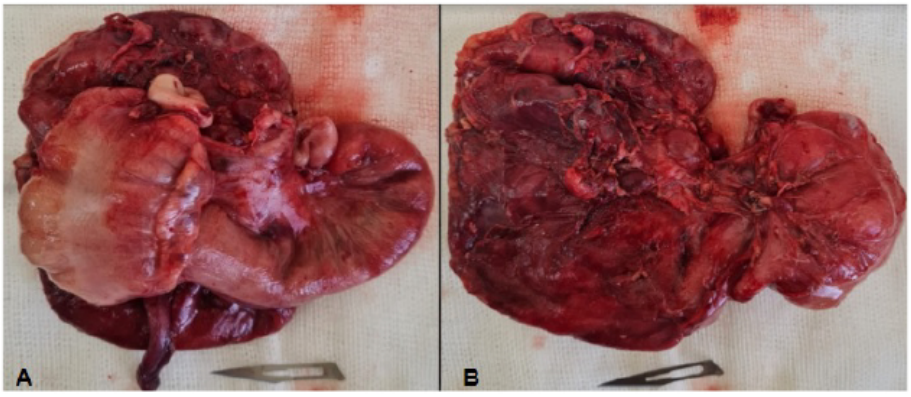
DISCUSSION

As described for this case, ATD may lead to severe complications, such as infection with systemic involvement. Although intratumoral hemorrhage has been well described as a complication in ATD[2] and was suspected in our patient as a probable cause of hypotension, the development of hyperthermia, leukopenia, increased levels of acute phase reactants, refractoriness to fluid replacement therapy, and the need for vasopressor therapy suggested a severe infection that triggered septic shock.[6]

This is not a common complication; the case series published by Guerin et al.[7] included 114 patients and none of them were diagnosed in the context of an infection. This is consistent with other series, such as those published by Erginel et al.[8] and Sujka et al.[9], who included 40 and 35 patients, respectively. We believe that bleeding could be a predisposing factor for infection, as observed in our patient.

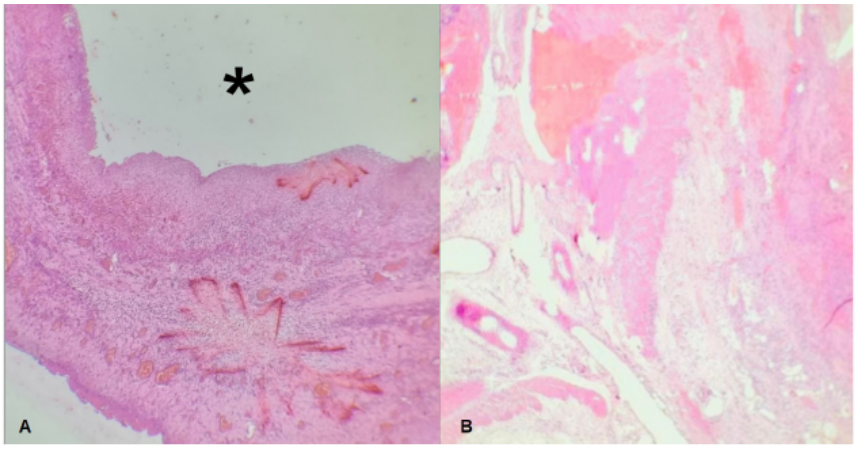
Other abdominal cystic tumors, such as macrocystic lymphatic malformations, ovarian cysts, cystic teratomas, and hydatid or mesenteric cysts, should be considered as part of the

Figure 3. Surgical specimen



A: Anterior view. B: Posterior view.

Figure 4. Pathological study



The histology was compatible with alimentary tract duplication: internally covered by differentiated intestinal epithelium with atrophic villi, smooth muscle arranged in longitudinal and smooth layers, and externally covered by serosa.
*A: Transparietal view (*inside the cyst). B: Amplification of the mucosa.*

differential diagnosis.[10] The signs and symptoms of these tumors are usually similar, which renders the initial suspected etiology difficult, and although imaging studies may guide the treating team, the definitive diagnosis is always based on the pathological study.[2] An ultrasound should be the first study requested in case of an abdominal cystic tumor.[11] Cross-sectional imaging studies, such as a computed tomography or a magnetic resonance imaging, are reserved for large or complicated cystic tumors;[12] they will provide information on tumor location, size, shape, walls, and relationship to adjacent structures. In the differential diagnosis, an ATD shows a characteristic ultrasound pattern with 3 layers in the cyst wall corresponding to the mucosa, submucosa, and muscle;[11] however, when found in relation to an inflammatory process, such pattern is lost and makes diagnosis difficult. In our patient, the intracystic inflammation resulted in the loss of this pattern. The same experience was described by Di Serafino et al.[12] in their series.

Our case was also notable due to the large size of the tumor, with a maximum diameter of 98 mm. This characteristic made the initial suspected etiology difficult to establish, as an ATD is usually less bulky. In the series published by Guerin et al.,[7] the largest ATD measured 42 mm, with a mean diameter of 35 mm in the postnatal diagnosis group and a diameter of 30 mm in the prenatal diagnosis group. Most likely, the inflammatory process could have been a facilitating factor for the increase in tumor size, as observed in our case.

Most authors agree that the definitive surgical treatment of choice is enucleation or resection with primary anastomosis.[13,14] In our patient, these options were not viable due to her clinical condition, so it was decided to perform an intestinal resection of the affected segment and an ostomy. Some publications suggest an expectant management in asymptomatic patients.[15] However, we do not believe this is an appropriate recommendation because an ATD left to its natural course may cause severe and potentially fatal syndromes, as in our patient.

To conclude, we present the case of an atypical presentation of ATD, which progressed to an intracystic infection. Although the incidence of this complication is low, we believe it is necessary to note such onset condition due to its potential severity. An elective surgery at the time of diagnosis would be the most appropriate course of action. ■

REFERENCES

1. Spătaru RI, Lupuşoru MOD, Şerban D, Ivanov M, Iozsa DA. Alimentary tract duplications in children - a 15 years' experience. *Rom J Morphol Embryol*. 2021;62(3):751-6.
2. Xiang L, Lan J, Chen B, Li P, Guo C. Clinical characteristics of gastrointestinal tract duplications in children: A single-institution series review. *Medicine (Baltimore)*. 2019;98(44):e17682.
3. Iyer CP, Mahour GH. Duplications of the alimentary tract in infants and children. *J Pediatr Surg*. 1995;30(9):1267-70.
4. Sangüesa Nebot C, Llorens Salvador R, Carazo Palacios E, Picó Aliaga S, Ibañez Pradas V. Enteric duplication cysts in children: varied presentations, varied imaging findings. *Insights Imaging*. 2018;9(6):1097-106.
5. Li L, Zhang JZ, Wang YX. Vascular classification for small intestinal duplications: experience with 80 cases. *J Pediatr Surg*. 1998;33(8):1243-5.
6. García PCR, Tonial CT, Piva JP. Septic shock in pediatrics: the state-of-the-art. *J Pediatr (Rio J)*. 2020;96 Suppl 1(Suppl 1):87-98.
7. Guérin F, Podevin G, Petit T, López M, et al. Outcome of alimentary tract duplications operated on by minimally invasive surgery: a retrospective multicenter study by the GECI (Groupe d'Etude en Coeliochirurgie Infantile). *Surg Endosc*. 2012;26(10):2848-55.
8. Erginel B, Soysal FG, Ozbey H, Keskin E, et al. Duplication Cysts in Children: A Single-Institution Series with Forty Patients in Twenty-Six Years. *World J Surg*. 2017;41(2):620-4.
9. Sujka JA, Sobrino J, Benedict LA, Alemayehu H, et al. Enteric duplication in children. *Pediatr Surg Int*. 2018;34(12):1329-32.
10. Fernández Ibieta M, Rojas Ticona J, Martínez Castaño IM, Reyes Ríos P, et al. Quistes mesentéricos en la edad pediátrica: ¿qué son en realidad? *An Pediatr (Barc)*. 2015;82(1):e48-51.
11. Barr LL, Hayden CK Jr, Stansberry SD, Swischuk LE. Enteric duplication cysts in children: are their ultrasonographic wall characteristics diagnostic? *Pediatr Radiol.* 1990;20(5):326-8.
12. Di Serafino M, Mercogliano C, Vallone G. Ultrasound evaluation of the enteric duplication cyst: the gut signature. *J Ultrasound*. 2015;19(2):131-3.
13. Rasool N, Safdar CA, Ahmad A, Kanwal S. Enteric duplication in children: clinical presentation and outcome. *Singapore Med J*. 2013;54(6):343-6.
14. Holcomb GW 3rd, Gheissari A, O'Neill JA Jr, Shorter NA, Bishop HC. Surgical management of alimentary tract duplications. *Ann Surg*. 1989;209(2):167-74.
15. van Zitteren LM, Ruppert M, Op de Beeck B, Wojciechowski M. Infected enteric duplication cyst. *BMJ Case Rep*. 2017;2017:bcr2017222391

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310178

Histiocitosis de células de Langerhans en un paciente con lesión perianal. Caso clínico

Nicolás A. Breppe[a], *Paula Gaviot*[a], *Darío O. Rodríguez*[a], *Paola Ripa*[a]

RESUMEN

La histiocitosis de células de Langerhans es una expresión de células dendríticas mieloides, asociada a un componente inflamatorio significativo y compromiso sistémico variado. La edad más frecuente de presentación es entre 1 y 4 años, y predomina en el sexo masculino. Se comunica el caso de un niño de 5 años de edad cuya forma de presentación fue una lesión granulomatosa con fístula perianal, afectación pulmonar y de oído externo. El abordaje interdisciplinario permitió llegar al diagnóstico, realizar las intervenciones necesarias e iniciar el tratamiento adecuado.

Palabras clave: *histiocitosis de células de Langerhans; fístula; perineo; esfínter anal.*

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10178
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10178.eng

Cómo citar: Breppe NA, Gaviot P, Rodríguez DO, Ripa P. Histiocitosis de células de Langerhans en un paciente con lesión perianal. Caso clínico. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310178.

[a] *Servicio de Pediatría del Establecimiento Asistencial Dr. Lucio Molas, Santa Rosa, Argentina.*

Correspondencia para *Nicolás A. Breppe: nicobreppe_07@hotmail.com*

Financiamiento: *Ninguno.*

Conflicto de intereses: *Ninguno que declarar.*

Recibido: *5-8-2023*
Aceptado: *14-9-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

INTRODUCCIÓN

La histiocitosis de células de Langerhans (HCL) es una enfermedad rara caracterizada por proliferación y acumulación descontrolada de células dendríticas.[1,2]

El grupo etario más afectado es la infancia. El pico de incidencia es entre 1 y 4 años, con ligera predominancia en el sexo masculino.[2,3]

Son posibles factores de riesgo antecedentes familiares de cáncer, infección recurrente durante la infancia y exposición ocupacional de los padres a metales, granitos o polvo de madera.[4]

La presentación clínica puede ser unisistémica –el hueso es la localización más frecuente–, o multisistémica, con afectación de pulmón, hígado y/o sistema hematopoyético. En las formas localizadas, los signos y síntomas dependen del lugar afectado; se manifiestan con dolor, sensibilidad y aumento de volumen.[5,6]

La histopatología varía según el órgano afectado y la etapa de la enfermedad. Se observa la proliferación de células de Langerhans que forman granulomas junto a linfocitos, macrófagos y eosinófilos, aun cuando la presencia de estos últimos no es necesaria para el diagnóstico.[7]

El pronóstico se relaciona con la edad; los pacientes menores de 2 años, a pesar de ser considerados de alto riesgo, presentan buena respuesta al tratamiento si no tienen compromiso multisistémico. Aquellos con compromiso de un solo órgano en general tienen un pronóstico favorable con altas posibilidades de remisión espontánea.[8] La hipoalbuminemia, anemia y otras citopenias son consideradas factores de riesgo para mal pronóstico.[1,9]

Se presenta el caso de un niño con diagnóstico de histiocitosis de células de Langerhans con fístulas perianales asociadas a una lesión del conducto auditivo externo y compromiso pulmonar.

CASO CLÍNICO

Paciente de 5 años de edad, de sexo masculino, con crecimiento y desarrollo dentro de parámetros normales. A los 18 meses de edad presentó una fístula perianal de resolución espontánea.

El motivo de consulta a Cirugía Infantil de nuestro nosocomio fue el dolor con la defecación e irritación perianal de 2 meses de evolución. El examen físico fue dificultoso por la irritabilidad del paciente, pero los padres aportaron una fotografía donde se observaban múltiples fístulas pequeñas y una de mayor tamaño en hora 3. Se inició tratamiento antibiótico con amoxicilina-ácido clavulánico, baños de asiento y crema con corticoide tópico. Por sospecha de enfermedad inflamatoria intestinal, se realizó interconsulta con Gastroenterología Infantil, quien solicitó estudios de anticuerpo perinuclear anticitoplasma de neutrófilos (ANCAp), anticuerpo anti-*Saccharomyses cerevisiae* (ASCA) en sangre, y calprotectina en materia fecal, que fueron negativos.

Una semana después, refería poca respuesta al tratamiento y continuaba con dolor al defecar. El examen físico era dificultoso, aun con ayuda de los padres. Se inició tratamiento con metronidazol.

Un mes después fue reevaluado sin presentar mejoría; continuaba con defecación dolorosa. Se realizó examen físico bajo anestesia, donde se observó lesión a nivel perianal granulomatosa anfractuosa que distorsionaba la anatomía y comprometía el esfínter anal externo. La mucosa rectal impresionaba sin lesiones (*Figuras 1 y 2*). Se tomó muestra de biopsia.

La consulta con el servicio de Salud Mental por sospecha de abuso no fue concluyente.

Se realizó una tomografía axial computada (TAC) de abdomen y pelvis con contraste oral y endovenoso, sin particularidades. Los resultados del laboratorio general, marcadores tumorales, inmunoglobulinas y serologías fueron normales.

El informe de Anatomía Patológica describió una lesión compatible con un proceso granulomatoso histiocitario (granuloma eosinofílico – histiocitosis de células de Langerhans). Se recomendó la derivación para realizar técnicas de inmunohistoquímica.

Ante la sospecha diagnóstica, se realizó una nueva anamnesis dirigida. Los padres relataron el antecedente de otitis supuradas recurrentes y actualmente con secreción sanguinolenta; la otoscopia fue dificultosa. La radiografía de cráneo en busca de lesiones en sacabocados fue normal.

Se realizó una colostomía en asa para desfuncionalizar la región afectada. Durante el mismo procedimiento quirúrgico, se examinaron ambos oídos. Se observó una lesión de tipo granulomatosa o angiomatosa que impedía la visualización de la membrana timpánica izquierda y comprometía el oído externo. Se resecó la lesión y se colocó taponamiento compresivo. La biopsia mostró una histología similar a la de las lesiones perianales.

Se derivó al paciente a un centro de mayor complejidad con servicio de Gastroenterología y

Figura 1. Lesión perianal en el primer examen



Figura 2. Lesión en la segunda examinación



Oncología Infantil para continuar los exámenes complementarios, realizar diagnóstico de certeza y eventual tratamiento. Allí se confirmó el diagnóstico por morfología e inmunohistoquímica, y se inició tratamiento con meprednisona y vinblastina 6 dosis semanales. El estudio de poblaciones linfocitarias mostró linfopenia T por lo cual se agregó tratamiento profiláctico con trimetropima-sulfametoxazol.

La TAC pulmonar mostró un parénquima pulmonar dispuesto anárquicamente, múltiples quistes, espacios parenquimatosos pulmonares anormales. Se solicitaron estudios funcionales con prueba de marcha, espirometría y difusión de monóxido de carbono, todos sin particularidades.

Desde el inicio del tratamiento con corticoides y quimioterapia, la evolución del paciente fue favorable. La lesión inicial continúa evolucionando hacia la curación (*Figura 3*); luego de 5 meses de tratamiento hay disminución del tamaño de la lesión, eritema en región perianal, sin presencia de fístulas o lesiones asociadas.

El servicio de Oncología evalúa al paciente en la Ciudad de Buenos Aires cada 21 días. El seguimiento longitudinal se realiza con el pediatra de cabecera en su localidad de origen. El abordaje interdisciplinario permitió llegar al diagnóstico, realizar las intervenciones necesarias e iniciar el tratamiento adecuado.

DISCUSIÓN

La HCL es un grupo raro de trastornos de

etiología desconocida, con un espectro de presentación clínica. La edad y el sexo del caso clínico que se expone coinciden con las descripciones más frecuentes en la bibliografía.[10]

Los órganos más frecuentemente comprometidos son el esqueleto (80 %), la piel (33 %) y la hipófisis (25 %). Otros órganos involucrados son el hígado, el bazo, la médula ósea, los pulmones (15 %), los ganglios linfáticos (5-10 %) y el sistema nervioso central sin incluir la hipófisis (2-4 %), órganos que en el caso presentado no fueron afectados, con excepción de los pulmones.[8]

Las manifestaciones clínicas principales en esta enfermedad se relacionan con el sitio afectado. En nuestro paciente, las lesiones y fístulas localizadas en región perianal explican el dolor que presentaba al defecar.

El compromiso perianal es una forma de presentación poco frecuente. Las otitis supuradas recurrentes desde temprana edad se interpretaron como asociadas al cuadro luego del diagnóstico anatomopatológico.[11,12]

La forma de presentación clínica y el pronóstico varían ampliamente desde una lesión ósea unifocal autolimitada hasta una enfermedad multisistémica letal con compromiso de los pulmones, el hígado, el bazo y el sistema hematopoyético. En los niños mayores, la enfermedad suele estar localizada, mientras que una forma más agresiva de enfermedad con disfunción orgánica es típica en niños menores de 2 años.[13,14]

La afección pulmonar en nuestro paciente da origen a un pronóstico oncológico reservado. Otros factores pronósticos para considerar en este niño son la edad de inicio de las lesiones perianales antes de los 2 años y el sexo.

Se han informado otros casos similares con afectación perianal de HCL. En un caso, junto con una lesión en el cráneo, en otro, asociada con lesiones gingivales y enfermedad sistémica, y un niño con una masa perianal presentaba múltiples lesiones líticas del cráneo, una lesión escapular derecha y un ganglio linfático paratraqueal derecho. Todos respondieron a la quimioterapia sistémica.[10]

Los hallazgos clínicos y radiológicos no son específicos. Es necesario realizar una biopsia para llegar al diagnóstico. Algunos consideran que la cirugía es necesaria solo cuando hay compromiso neurológico y/o de partes blandas, como en el caso de nuestro paciente, que permite obtener una muestra adecuada para el estudio anatomopatológico.

La anatomía patológica confirma el diagnóstico por medio de la microscopía y la marcación inmunohistoquímica, la cual muestra el marcador característico CD1a positivo,[9] como se realizó en nuestro paciente.

Las modalidades de tratamiento se determinan en forma individual y dependen de la gravedad de la enfermedad. Mientras que los pacientes con afectación localizada en un solo sitio suelen recibir terapia local, aquellos con enfermedad multisistémica requieren quimioterapia sistémica.[10] ■

Figura 3. Lesión perianal luego de 5 meses de tratamiento



Agradecimientos

Al Departamento de Docencia e Investigación del Establecimiento Asistencial Dr. Lucio Molas de Santa Rosa (La Pampa). A Marina Villarreal, médica pediatra, y al personal del Departamento de Docencia e Investigación, por la asistencia en dicho trabajo. A Natalia Vega, médica pediatra de cabecera del paciente. Al servicio de Pediatría del Hospital Militar Central de la Ciudad Autónoma de Buenos Aires, servicio al que fue derivado el paciente y donde se realizó el tratamiento específico.

REFERENCIAS

1. Monsereenusorn C, Minkov M, Rodriguez-Galindo C. Current treatment of Langerhans cell histiocytosis. *Expert Opin Orphan Drugs.* 2016;4(10):1057-68.
2. Jezierska M, Stefanowicz J, Romanowicz G, Kosiak W, Lange M. Langerhans cell Histiocytosis in children – a disease with many faces. Recent advances in pathogenesis, diagnostic examinations and treatment. *Adv Dermatol Alergol*. 2018;35(1):6-17.
3. Capodiferro S, Tempesta A, Limongelli L, Ingravallo G, et al. Primary oro-facial manifestations of Langerhams cell histiocytosis in pediatric age: A bi-institutional retrospective study on 45 cases. *Children (Basel)*. 2020;7(9):104.
4. Venkatramani R, Rosenberg S, Indramohan G, Jeng M, Jubran R. An exploratory epidemiological study of Langerhans cell histiocytosis. *Pediatr Blood Cancer.* 2012;59(7):1324-6.
5. Papadopoulou M, Panagopoulou P, Papdopoulou A, Hatzipantelis E, et al. The multiple faces of Langerhans cell histiocytosis in childhood: A gentle reminder. *Mol Clin Oncol*. 2018;8(3):489-92.
6. Larralde M, Abad ME, Gomar B. Histiocitosis de células de Langerhans en menores de un año. *Arch Argent Pediatr.* 2008;106(3):269-72.
7. Di Nunzio L, Gómez L, Rodríguez Gregori A, Tomezzoli S, Molise C. Histiocitosis de células de Langerhans con compromiso esternal aislado. Caso clínico. *Arch Argent Pediatr.* 2017;115(6):e416-9.
8. Luong T, Scrigni A, Paglia M, Garavaglia M, et al. Histiocitosis de células de Langerhans con compromios vertebral y de partes blandas. Caso clínico. *Arch Argent Pediatr.* 2016;114(4):e256-9.
9. Braier JL, Rosso D, Latella A, Chantada G, et al. Importance of multi-lineage hematologic involvement and hypoalbuminemia at diagnosis in patients with «risk-organ» multi-system Langerhans cell histiocytosis. *J Pediatr Hematol Oncol.* 2010;32(4):e122-5.
10. Akbayram S, Akgun C, Ozen S, Kaya A, et al. A case of langerhans cell histiocytosis with anal fistula. *Kurume Med J.* 2009;56(3-4):79-83.
11. Howarth DM, Gilchrist GS, Mullan BP, Wiseman GA, et al. Langerhans cell histiocytosis: diagnosis, natural history, management, and outcome. *Cancer.* 1999;85(10):2278-90.
12. Kilpatrick SE, Wenger DE, Gilchrist GS, Shives TC, et al. Langerhans cell histiocytosis (histiocytosis X) of bone: a clinicopathologic analysis of 263 pediatric and adult cases. *Cancer.* 1995;76(12):2471-84.
13. Broadbent V, Egeler RM, Nesbit ME Jr. Langerhans cell histiocytosis-Clinical and Epidemiological aspects. *Br J Cancer.* 1994;70(Suppl 23):S11-6.
14. Tang JJ, Xu XJ, Wang YC, Bai ST, et al. [Clinical manifestations of Langerhans cell histiocytosis with multisystem involvement in 53 children]. *Zhonghua Er Ke Za Zhi*. 2021;59(1):37-41.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310178

Langerhans cell histiocytosis in a patient with perianal lesion. A case report

Nicolás A. Breppe[a], *Paula Gaviot*[a], *Darío O. Rodríguez*[a], *Paola Ripa*[a]

ABSTRACT

Langerhans cell histiocytosis is an expression of myeloid dendritic cells, associated with a significant inflammatory component and varied systemic involvement. The most common age at presentation is between 1 and 4 years, and it prevails among male subjects. Here we describe the case of a 5-year-old boy who presented with a granulomatous lesion with perianal fistula and lung and external ear involvement. An interdisciplinary approach helped to make a diagnosis, provide the necessary interventions, and start an adequate treatment.

Keywords: *Langerhans cell histiocytosis; fistula; perineum; anal sphincter.*

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10178.eng

To cite: Breppe NA, Gaviot P, Rodríguez DO, Ripa P. Langerhans cell histiocytosis in a patient with perianal lesion. A case report. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310178.

[a] *Department of Pediatrics of Establecimiento Asistencial Dr. Lucio Molas, Santa Rosa, Argentina.*

Correspondence to *Nicolás A. Breppe: nicobreppe_07@hotmail.com*

Funding*: None.*

Conflict of interest*: None.*

Received*: 8-5-2023*
Accepted*: 9-14-2023*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

INTRODUCTION

Langerhans cell histiocytosis (LCH) is a rare disease characterized by uncontrolled proliferation and accumulation of dendritic cells.[1,2]

Children are the most commonly affected age group. The peak of incidence of LCH occurs between 1 and 4 years old, with a mild predominance among male subjects.[2,3]

Possible risk factors include a family history of cancer, recurrent infection during childhood, and parental occupational exposure to metals, granites, or wood dust.[4]

Its clinical presentation may affect a single system, with bone as the most frequent site, or multiple systems, with involvement of the lung, liver, or hematopoietic system. In the localized form, signs and symptoms depend on the affected site; they usually manifest with pain, tenderness, and increased volume.[5,6]

Histopathology varies according to the organ affected and the stage of LCH. The proliferation of Langerhans cells forming granulomas together with lymphocytes, macrophages, and eosinophils is observed, although the presence of the latter is not necessary to make a diagnosis.[7]

Prognosis is related to age; patients younger than 2 years, despite being considered high-risk, have a good response to treatment if they do not have multisystem involvement. Patients with single organ involvement generally have a favorable prognosis with a high chance of spontaneous remission.[8] Hypoalbuminemia, anemia, and other cytopenias are considered risk factors for a poor prognosis.[1,9]

Here we describe the case of a child diagnosed with Langerhans cell histiocytosis and perianal fistulas in association with an external auditory canal lesion and lung involvement.

CASE REPORT

This was a 5-year-old boy with normal growth and development parameters. At 18 months old, he developed a perianal fistula that resolved spontaneously.

The reason for consultation with the Department of Pediatric Surgery of our hospital was painful bowel movements and perianal irritation for the past 2 months. The patient's physical examination was difficult due to his irritability, but his parents provided a photograph showing multiple small fistulas and a larger fistula at 3 o'clock. Antibiotic treatment was started with amoxicillin-clavulanic acid, sitz baths, and topical corticosteroid cream. Due to suspected inflammatory bowel disease, the patient was referred for a consultation with the Department of Pediatric Gastroenterology, where perinuclear anti-neutrophil cytoplasmic antibody (ANCAp), blood anti-*Saccharomyses cerevisiae* antibody (ASCA), and fecal calprotectin tests were requested; results were negative.

A week later, the patient showed little response to treatment and continued with painful bowel movements. The physical examination was difficult, even with the parents' help. Treatment with metronidazole was started.

A month later, he was assessed again but no improvement was observed; he continued with painful bowel movements. A new physical examination was performed under anesthesia. A tortuous, granulomatous perianal lesion was observed at the perianal level, distorting the anatomy and involving the external anal sphincter. No lesions were observed in the rectal mucosa (*Figures 1 and 2*). A sample was collected for biopsy.

The consultation with the Department of Mental Health due to suspected abuse was not conclusive.

A computed tomography (CT) scan of the abdomen and pelvis with oral and intravenous contrast was unremarkable. The results of general lab tests, tumor markers, immunoglobulins, and serologies were normal.

The pathology report described a lesion compatible with a histiocytic granulomatous process (eosinophilic granuloma –Langerhans cell histiocytosis). A referral for immunohistochemistry was recommended.

Due to diagnostic suspicion, a new targeted case history was taken. The parents reported a history of recurrent suppurative otitis, currently with bloody discharge; the otoscopy was difficult. A skull x-ray for round osteolytic injuries was normal.

A loop colostomy was performed to defunctionalize the affected region. During the same surgical procedure, both ears were examined. A granulomatous or angiomatous lesion was observed that prevented visualization of the left tympanic membrane and involved the external ear. The lesion was resected and a compression tamponade was placed. The biopsy found its histology was similar to that of the perianal lesions.

The patient was referred to a tertiary care facility that offered Gastroenterology and Pediatric Oncology services to continue with his ancillary

Figure 1. Perianal lesion at first examination



Figure 2. Perianal lesion at second examination



tests and establish a diagnosis and eventual treatment. There, the diagnosis was confirmed by morphology and immunohistochemistry tests and treatment with meprednisone and vinblastine at 6 weekly doses was started. The study of lymphocyte populations showed T-cell lymphopenia, so prophylactic treatment with trimethoprim-sulfamethoxazole was added.

A lung CT showed an anarchically arranged lung parenchyma, multiple cysts, and abnormal lung parenchymal spaces. Function tests were requested, including a gait test, a spirometry, and diffusion of carbon monoxide; all were unremarkable.

Since the initiation of treatment with corticosteroids and chemotherapy, the patient's course was favorable. The initial lesion continues improving towards healing (*Figure 3*); after 5 months of treatment, the lesion reduced in size, there is erythema in the perianal region, and there are no fistulas or associated lesions.

The Department of Oncology assesses the patient in the City of Buenos Aires every 21 days. His primary pediatrician conducts a longitudinal follow-up at his place of residence. An interdisciplinary approach helped to make a diagnosis, provide the necessary interventions, and start an adequate treatment.

DISCUSSION

LCH is a rare group of disorders of unknown etiology, with various clinical presentations.

The age and sex of the clinical case described here are consistent with the most frequent descriptions in the bibliography.[10]

The most commonly affected organs are the skeleton (80%), the skin (33%), and the pituitary gland (25%). Other organs involved include the liver, spleen, bone marrow, lungs (15%), lymph nodes (5–10%), and the central nervous system excluding the pituitary gland (2–4%). In our patient, these organs were not affected, except for the lungs.[8]

The main clinical manifestations in LCH are related to the affected site. In our patient, the lesions and fistulas located in the perianal region account for his painful bowel movements.

Perianal involvement is a rare form of presentation. The patient's recurrent suppurative otitis episodes from an early age were interpreted as associated with this condition once a pathological diagnosis was made.[11,12]

The clinical presentation and prognosis of LCH vary widely from a self-limited unifocal bone lesion to a fatal multisystem disease with involvement of the lungs, liver, spleen, and hematopoietic system. In older children, LCH is usually localized, whereas a more aggressive form of disease with organ dysfunction is typical in children under 2 years of age.[13,14]

The lung involvement in our patient gives rise to a guarded prognosis in relation to cancer. Other prognostic factors to consider in this child were his age at onset of perianal lesions before 2 years of age and his sex.

Other similar cases of LCH with perianal involvement have been reported. In one case, along with a skull lesion; in another, associated with gingival lesions and systemic disease; and a case of a child with a perianal mass presented with multiple lytic lesions of the skull, a right scapular lesion, and a right paratracheal lymph node. All cases responded to systemic chemotherapy.[10]

Clinical and radiological findings are non-specific. A biopsy is necessary to establish a diagnosis. According to some authors, surgery is considered necessary only when there is neurological and/or soft tissue involvement, as in the case of our patient, which allows collecting an adequate specimen for a pathological study.

The pathology report helps to confirm diagnosis by microscopy and immunohistochemistry, which shows a positive characteristic marker, CD1a,[9] as in our patient.

Treatment is determined on an individual basis and depends on the severity of the disease. While patients with localized involvement at a single site usually receive local therapy, those with multisystem LCH require systemic chemotherapy.[10] ■

Acknowledgments

We would like to thank the Department of Teaching and Research of Establecimiento Asistencial Dr. Lucio Molas in Santa Rosa (La Pampa); Marina Villarreal, Pediatrician, and the staff of the Department of Teaching and Research

Figure 3. Perianal lesion after 5 months of treatment



for their help with this study; Natalia Vega, who is the patient's primary pediatrician; and the Department of Pediatrics of Hospital Militar Central of the City of Buenos Aires, where the patient was referred and treated.

REFERENCES

1. Monsereenusorn C, Minkov M, Rodriguez-Galindo C. Current treatment of Langerhans cell histiocytosis. *Expert Opin Orphan Drugs.* 2016;4(10):1057-68.
2. Jezierska M, Stefanowicz J, Romanowicz G, Kosiak W, Lange M. Langerhans cell histiocytosis in children – a disease with many faces. Recent advances in pathogenesis, diagnostic examinations and treatment. *Adv Dermatol Alergol*. 2018;35(1):6-17.
3. Capodiferro S, Tempesta A, Limongelli L, Ingravallo G, et al. Primary oro-facial manifestations of Langerhans cell histiocytosis in pediatric age: A bi-institutional retrospective study on 45 cases. *Children (Basel)*. 2020;7(9):104.
4. Venkatramani R, Rosenberg S, Indramohan G, Jeng M, Jubran R. An exploratory epidemiological study of Langerhans cell histiocytosis. *Pediatr Blood Cancer.* 2012;59(7):1324-6.
5. Papadopoulou M, Panagopoulou P, Papdopoulou A, Hatzipantelis E, et al. The multiple faces of Langerhans cell histiocytosis in childhood: A gentle reminder. *Mol Clin Oncol*. 2018;8(3):489-92.
6. Larralde M, Abad ME, Gomar B. Histiocitosis de células de Langerhans en menores de un año. *Arch Argent Pediatr.* 2008;106(3):269-72.
7. Di Nunzio L, Gómez L, Rodríguez Gregori A, Tomezzoli S, Molise C. Histiocitosis de células de Langerhans con compromiso esternal aislado. A case report. *Arch Argent Pediatr.* 2017;115(6):e416-9.
8. Luong T, Scrigni A, Paglia M, Garavaglia M, et al. Histiocitosis de células de Langerhans con compromios vertebral y de partes blandas. A case report. *Arch Argent Pediatr.* 2016;114(4):e256-9.
9. Braier JL, Rosso D, Latella A, Chantada G, et al. Importance of multi-lineage hematologic involvement and hypoalbuminemia at diagnosis in patients with "risk-organ" multi-system Langerhans cell histiocytosis. *J Pediatr Hematol Oncol.* 2010;32(4):e122-5.
10. Akbayram S, Akgun C, Ozen S, Kaya A, et al. A case of Langerhans cell histiocytosis with anal fistula. *Kurume Med J.* 2009;56(3-4):79-83.
11. Howarth DM, Gilchrist GS, Mullan BP, Wiseman GA, et al. Langerhans cell histiocytosis: diagnosis, natural history, management, and outcome. *Cancer.* 1999;85(10):2278-90.
12. Kilpatrick SE, Wenger DE, Gilchrist GS, Shives TC, et al. Langerhans cell histiocytosis (histiocytosis X) of bone: a clinicopathologic analysis of 263 pediatric and adult cases. *Cancer.* 1995;76(12):2471-84.
13. Broadbent V, Egeler RM, Nesbit ME Jr. Langerhans cell histiocytosis-Clinical and Epidemiological aspects. *Br J Cancer.* 1994;70(Suppl 23):S11-6.
14. Tang JJ, Xu XJ, Wang YC, Bai ST, et al. [Clinical manifestations of Langerhans cell histiocytosis with multisystem involvement in 53 children]. *Zhonghua Er Ke Za Zhi*. 2021;59(1):37-41.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310063

Compromiso inmunológico en pacientes con síndrome de Down. Serie de casos

Claudia M. Merhar[a], *Diana I. Liberatore*[a]

RESUMEN

El síndrome de Down, o trisomía 21, tiene una mortalidad mayor que la población general, debido principalmente a infecciones respiratorias. El objetivo de este trabajo es describir el compromiso inmunológico en una serie de casos de pacientes con síndrome de Down derivados a Inmunología por infecciones recurrentes o por hallazgo patológico de laboratorio, entre el 1 de junio de 2016 y el 31 de mayo de 2022.

Se describe el compromiso de la inmunidad en 24 pacientes. Doce pacientes presentaron falla de respuesta a polisacáridos y recibieron quimioprofilaxis antibiótica y/o gammaglobulina sustitutiva. En 3 pacientes, se observó agammaglobulinemia con linfocitos B presentes y se indicó gammaglobulina sustitutiva. En 9 pacientes, se observó linfopenia T y en 1 paciente, compromiso inmune combinado.

Palabras clave: *síndrome de Down; trisomía 21; enfermedades del sistema inmune; infección recurrente; hipogammaglobulinemia.*

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10063
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10063.eng

Cómo citar: Merhar CM, Liberatore DI. Compromiso inmunológico en pacientes con síndrome de Down. Serie de casos. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310063.

[a] *Sección Inmunología, Departamento de Pediatría, Hospital Italiano de Buenos Aires, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.*

Correspondencia para *Claudia Merhar: claudia.merhar@hospitalitaliano.org.ar*

Financiamiento*: Ninguno.*

Conflicto de intereses*: Ninguno que declarar.*

Recibido*: 12-4-2023*
Aceptado*: 22-9-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

INTRODUCCIÓN

El síndrome de Down (SD) está relacionado con la trisomía del cromosoma 21 y tiene una prevalencia aproximada de 1 en 1000 nacidos vivos.[1] Es la cromosomopatía viable más frecuente en los recién nacidos vivos.[1,2] Se caracteriza por presentar discapacidad intelectual y rasgos fenotípicos particulares. Se asocia a cardiopatías congénitas, obesidad, leucemia, enfermedades autoinmunes (enfermedad celíaca, hipotiroidismo y diabetes *mellitus* tipo I) y enfermedad de Alzheimer.[2] La esperanza de vida alcanza actualmente los 50-60 años de edad.[3]

La morbimortalidad se encuentra muy aumentada debido a las infecciones del tracto respiratorio. Dentro de las causas no inmunológicas, se pueden mencionar anormalidades anatómicas de la vía aérea, alteraciones congénitas del conducto auditivo, el reflujo gastroesofágico y/o la aspiración nasofaríngea.[4] Dentro de las causas de origen inmune que aumentan dicha susceptibilidad, se han descrito: hipogammaglobulinemia de los isotipos A y M, de subclases de inmunoglobulina G (IgG2, IgG4), disminución de la respuesta de anticuerpos a vacunas, disminución en la proliferación de linfocitos B, disminución del número de linfocitos B totales y de memoria, disminución de la quimiotaxis de los neutrófilos, disminución del número absoluto de células NK.[5-10] Factores que podrían contribuir a la disregulación inmune y la consecuente autoinmunidad son la alteración en la tolerancia central, anomalías tímicas y defectos en el desarrollo de los timocitos, particularmente en las células T reguladoras.[11]

Sin embargo, no siempre se evalúa la inmunidad en estos pacientes.[12] El objetivo de este trabajo fue evaluar el compromiso inmunológico en pacientes con SD derivados a la sección de Inmunología de nuestro hospital.

POBLACIÓN Y MÉTODOS

Se describe una serie de casos de todos los pacientes con SD con compromiso inmunológico atendidos en la sección de Inmunología Pediátrica del Hospital Italiano de Buenos Aires entre el 1 de junio de 2016 y el 31 de mayo de 2022.

Se evaluó presentación clínica, laboratorio con hemograma, determinación de inmunoglobulinas por nefelometría, respuesta de anticuerpos por ELISA y fenotipo linfocitario por citometría de flujo. Los pacientes fueron derivados por infecciones o por hallazgo de algún dato patológico de laboratorio (hipogammaglobulinemia y/o leucopenia leve). Las infecciones fueron recurrentes, graves, de evolución prolongada, y/o con escasa respuesta a los tratamientos habituales. Presentaron neumonías complicadas que requirieron internación y/o neumonías virales y/o bronquiolitis y/u otitis supuradas.

El compromiso de la inmunidad celular se estableció cuantitativamente con el valor de linfocitos T CD3, CD4 y CD8. Se compararon los datos obtenidos en relación con las tablas de valores normales para la edad.[13]

El compromiso de la inmunidad humoral se determinó con valores de inmunoglobulinas (IgG, IgA e IgM) y se definió hipogammaglobulinemia con valores menores a 2 desviaciones estándar para la edad. También se determinó cualitativamente, evaluando la respuesta específica a diferentes antígenos proteicos: anticuerpos antitoxoide tetánico y antihepatitis B (en menores de 12 meses con más de 2 dosis de vacuna) y antihepatitis A, sarampión, rubéola, varicela (en mayores de 12 meses).

La respuesta a antígenos polisacáridos fue valorada con título de anticuerpos antineumocócicos globales pre- y postestímulo a las 6 semanas de aplicada la vacuna antineumocócica no conjugada 23-valente. Criterio de respuesta adecuada: ≥ 113 mg/l.[14] Con respecto a la respuesta a antígenos polisacáridos, se analizaron 2 grupos: pacientes entre 2 y 4 años, y pacientes mayores de 4 años. En el primer grupo, se indicó una segunda dosis de la vacuna no conjugada luego de los 4 años y se reevaluó la respuesta. Se definió como falla de respuesta a polisacáridos definitiva solo a los pacientes mayores de 4 años. En ambos grupos, se define una falla de respuesta tanto cuando no responden inicialmente con el nivel adecuado de anticuerpos antineumocócicos como cuando no sostienen dicha respuesta a los 6 meses.

Consideraciones éticas

Este protocolo fue redactado y realizado en conformidad con las actuales normas nacionales e internacionales: Declaración de la Asociación Médica Mundial de Helsinki, las Normas de Buenas Prácticas ICH E6, Resolución del Ministerio de Salud 1480/11 y Ley 3301/09 de la Ciudad Autónoma de Buenos Aires. Se proporcionó la mayor protección para el paciente. El protocolo fue presentado y aprobado por el Comité Evaluador de Proyectos de Investigación del Hospital Italiano de Buenos Aires (CEPI) con el N.º 6218 PRIISA N.º 5881.

RESULTADOS

Fueron derivados 30 pacientes con SD y sospecha de compromiso inmunológico. Se excluyeron 6 pacientes con evaluación inmunológica normal. Se analizaron 24 pacientes. La mediana de edad en la primera consulta fue 2 años y 3 meses (2 meses a 17 años). Diecisiete pacientes fueron derivados por infecciones y 7 por hallazgo patológico de laboratorio, 1 de los cuales presentó una neumonía durante el seguimiento. De los 17 pacientes que presentaron infecciones, la mediana de edad de inicio fue 6 meses (1 mes a 9 años) y la mediana de edad de la primera consulta fue de 2 años y 9 meses. La mediana del tiempo de seguimiento fue de 2 años y 5 meses (tiempo mínimo 1 mes y máximo 6 años y 10 meses).

Se observó linfopenia T en 9 de 24 pacientes (37,5 %, IC95% 18,8-59,4) y linfopenia T CD4 en 3 de 24 pacientes (12,5 %, IC95% 2,7-32,4). En 3 de 24 pacientes (12,5 % IC95% 2,7-32,4), encontramos agammaglobulinemia con linfocitos B presentes. Un paciente (4,2 %, IC95% 0,1-21,1) presentó valores de IgM e IgA disminuidos para la edad. En 15 de 24 pacientes (62,5 %, IC95% 40,6-81,2), se observó linfopenia B. En 1 de 24 (4,2 %, IC95% 0,1-21,1), se detectó un compromiso inmune combinado: linfopenia T absoluta y agammaglobulinemia de los 3 isotipos (*Tabla 1*). Se observó una respuesta adecuada a antígenos proteicos en los 24 pacientes evaluados (IC95% 85,8-100). Con respecto a la respuesta a antígenos polisacáridos, se analizaron 2 grupos: pacientes entre 2 y

Tabla 1. Valores de laboratorio

	Edad (años)	LINFOCITOS TOTALES (/mm³)	CD3 N/mm³ (%)	CD4 N/mm³ (%)	CD8 N/mm³ (%)	CD19 N/mm³ (%)	IgG (mg/dl)	IgA (mg/dl)	IgM (mg/dl)	Respuesta a a antígenos polisacáridos
1	9	3648	3090 (84)	**659 (18)**	2311 (62)	**69 (1,9)**	1310	160	**40**	**FRP**
2	4	2548	2142 (84)	1224 (48)	841 (33)	239 (9)	851	**43**	**33**	**FRP**
3	0,5	3607	2240 (61)	1600 (44)	557 (15)	1039 (28)	792	22	34	**FRP**
4	1	**1248**	**831 (67)**	**522 (42)**	**217 (17)**	200 (16)	1130	58	66	**FRP**
6	17	4958	3294 (66)	1182 (24)	2091 (42)	**53 (1,4)**	2110	388	96	**FRP**
7	1	2508	**832 (33)**	**588 (23)**	**251 (10)**	925 (37)	1200	60	172	**FRP**
8	0,5	2880	2168 (73)	1448 (49)	700 (24)	709 (24)	**<200**	**9**	**14**	NR
9	1	2765	1554 (55)	**761 (27)**	724 (26)	454 (16)	814	195	121	**FRP**
10	8	**1440**	**1165 (75)**	**591 (38)**	**566 (36)**	140 (9)	1440	108	99	NR
11	0,16	NR	2903 (60)	1790 (37)	983 (20)	**290 (6)**	**<200**	**<6**	**<25**	NR
12	3,75	2984	2330 (78)	**538 (18)**	1734 (58)	**29 (1)**	752	143	99	**FRP**
13	4	2444	1397 (81)	NR	726 (42)	**205 (11)**	1100	86	47	**FRP**
16	2,5	2178	1906 (86)	856 (39)	843 (38)	**173 (7,8)**	635	53	28	**FRP**
17	1,5	**2327**	**1045 (45)**	**796 (34)**	**209 (9)**	825 (35)	628	52	58	**FRP**
18	0,16	**2250**	**1130 (49)**	**609 (26)**	**520 (22)**	683 (30)	**<200**	**9**	**26**	**FRP**
20	0,5	2644	**1849 (69)**	**1187 (44)**	602 (22)	**109 (4)**	347	32	118	NR
21	0,25	3510	2876 (75)	2244 (58)	652 (17)	**190 (5)**	**<200**	19	65	NR
24	1,5	**932**	**405 (44)**	**189 (20)**	**158 (17)**	**301 (32)**	619	44	64	NR
25	16	**658**	**546 (82)**	**308 (46)**	**227 (34)**	**38 (5)**	1190	243	71	NR
26	8	6908	6800 (91)	1933 (26)	4758 (64)	**22 (0,3)**	610	104	31	NR
27	2	2320	1533 (65)	523 (22)	961 (41)	**147 (6)**	556	35	55	Normal
28	2,75	2077	1808 (87)	1066 (51)	645 (31)	**65 (3)**	506	66	27	Normal
29	14	**1081**	**641 (60)**	**300 (28)**	**324 (30)**	**50 (5)**	1080	159	94	NR
30	3	1884	1383 (74)	**196 (11)**	1119 (60)	**189 (10)**	848	111	85	Normal

Se detallan los resultados de laboratorio de la primera evaluación inmunológica y la respuesta a antígenos polisacáridos (luego de la vacuna antineumocócica polisacárida 23-valente). Los valores en rojo corresponden a valores alterados para la edad. FRP: falla de respuesta a polisacáridos; IgA: inmunoglobulina A; IgG: inmunoglobulina G; IgM: inmunoglobulina M; NR: no realizado.

4 años, y pacientes mayores de 4 años. En el primer grupo, se observó una falla de respuesta en 6 de 9 pacientes (66,7 %, IC95% 30-92). En mayores de 4 años, esta falla de respuesta a polisacáridos se observó en 6 de 6 pacientes (IC95% 54-100).

Los 12 pacientes con falla de respuesta a polisacáridos recibieron tratamiento preventivo, antibiótico y/o gammaglobulina, y se observó una disminución marcada de la recurrencia de los episodios infecciosos. En 4 pacientes asintomáticos derivados por hallazgo de laboratorio, se evidenció compromiso celular que requirió indicación de quimioprofilaxis. Se destaca una paciente que había presentado quilotórax como complicación de su cardiopatía; la linfopenia y la hipogammaglobulinemia se corrigieron al superar este cuadro. Sin embargo, en su evolución, desarrolló falla de respuesta a polisacáridos 2 años después.

DISCUSIÓN

La susceptibilidad a contraer infecciones respiratorias está aumentada en pacientes con síndrome de Down. En pacientes con determinación normal de inmunoglobulinas, se debe evaluar la funcionalidad; esto se realiza con la titulación de anticuerpos específicos contra los antígenos contenidos en las vacunas, por ejemplo, IgG contra toxoide tetánico, hepatitis B, sarampión, varicela, etc. La mayoría de las vacunas presentan un antígeno proteico; la respuesta inmune humoral contra estos antígenos se desarrolla tempranamente en la vida y esta es la razón por la cual se pueden indicar estas vacunas desde el primer día de vida. En cambio, la respuesta de anticuerpos a los antígenos polisacáridos es linfocito T independiente y se desarrolla posteriormente. Se evalúa con la respuesta a la vacuna antineumocócica no conjugada. La vacuna antineumocócica no conjugada puede aplicarse a partir de los 2 años, pero se considera falla de respuesta a partir de los 4 años. Entre los 2 y 4 años de edad, puede haber una ausencia de respuesta adecuada por inmadurez. Por lo tanto, cuando la respuesta es baja, se indica una segunda dosis luego de los 4 años para definir esta deficiencia inmune humoral. La quimioprofilaxis indicada para falla de respuesta a polisacáridos es trimetoprima-sulfametoxazol 3-5 mg/kg/día dosis diaria; si fracasa, se debe indicar gammaglobulina sustitutiva.

Los pacientes con compromiso celular aislado recibieron quimioprofilaxis trisemanal para *Pneumocystis jirovecii* con trimetoprima-sulfametoxazol 3-5 mg/kg/dosis.

En conclusión, en nuestro trabajo se describe el compromiso inmune humoral, celular o combinado en 24 pacientes con SD. Se indicó tratamiento preventivo en 17 pacientes y se observó una significativa disminución en la morbilidad, sin requerimiento de internaciones posteriores a esta intervención, lo que mejoró notablemente la calidad de vida de estos niños y sus familias. Por lo tanto, reforzamos la indicación de que los pacientes con síndrome de Down e infecciones recurrentes y/o hallazgo patológico de laboratorio sean derivados al inmunólogo para evaluar el compromiso inmune y eventualmente indicar tratamiento con el objetivo de prevenir infecciones. ■

Agradecimientos

A la Dra. Lucía G Pérez. Departamento de Investigación del Hospital Italiano de Buenos Aires.

REFERENCIAS

1. Davidson MA. Primary care for children and adolescents with Down syndrome. *Pediatr Clin North Am*. 2008;55(5):1099-1114.
2. Hassold TJ, Jacobs PA. Trisomy in man. *Annu Rev Genet*. 1984;18:69-97.
3. Jensen KM, Bulova PD. Managing the care of adults with Down's syndrome. *BMJ*. 2014;349:g5596.
4. Ram G, Chinen J. Infections and immunodeficiency in Down syndrome. *Clin Exp Immunol*. 2011;164(1):9-16.
5. Burgio GR, Lanzavecchia A, Maccario R, Vitiello A, et al. Immunodeficiency in Down's syndrome: T-lymphocyte subset imbalance in trisomic children. *Clin Exp Immunol*. 1978;33(2):298-301.
6. Kusters MAA, Verstegen RHJ, Gemen EFA, de Vries E. Intrinsic defect of the immune system in children with Down syndrome: a review. *Clin Exp Immunol*. 2009;156(2):189-93.
7. Verstegen RHJ, Driessen GJ, Bartol SJW, van Noesel CJM, et al. Defective B-cell memory in patients with Down syndrome. *J Allergy Clin Immunol*. 2014;134(6):1346-53.e9.
8. Verstegen RHJ, Kusters MAA, Gemen EFA, de Vries E. Down syndrome B-lymphocyte subpopulations, intrinsic defect or decreased T-lymphocyte help. *Pediatr Res*. 2010;67(5):563-9.
9. de Hingh YC, van der Vossen PW, Gemen EFA, Mulder AB, et al. Intrinsic abnormalities of lymphocyte counts in children with down syndrome. *J Pediatr*. 2005;147(6):744-7.
10. Dieudonné Y, Uring-Lambert B, Jeljeli MM, Gies V, et al. immune defect in adults with Down syndrome: insights into a complex issue. *Front Immunol*. 2020;11:840.
11. Marcovecchio GE, Bortolomai I, Ferrua F, Fontana E, et al. Thymic Epithelium Abnormalities in DiGeorge and Down Syndrome Patients Contribute to Dysregulation in T Cell Development. *Front Immunol*. 2019;10:447.
12. González-Cerrajero M, Quero-Escalada M, Moldenhauer F, Suárez Fernández C. Recomendaciones para la atención a

los adultos con síndrome de Down. Revisión de la literatura. *Semergen.* 2018;44(5):342-50.
13. Sullivan K E, Stiehm R (ed). Stiehm's Immune Deficiencies: Inborn Errors of Immunity. San Diego, CA: Academic Press; 2014.
14. Cabanillas D, D'Alessandro V, Diez G, Regairaz L. Falla de respuesta anticorpórea frente a antígenos polisacáridos. Serie de casos. *Arch Argent Pediatr.* 2014;112(6):e24.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310063

Immune compromise in patients with Down syndrome. A case series

Claudia M. Merhar[a], *Diana I. Liberatore*[a]

ABSTRACT

Down syndrome, or trisomy 21, has a higher mortality than the general population, mainly due to respiratory tract infections. The objective of this study was to describe immune compromise in a series of cases of patients with Down syndrome referred to the Pediatric Immunology Section due to recurrent infections or pathological laboratory findings between 6/1/2016 and 5/31/2022.

Here we describe immune compromise in 24 patients. Twelve patients failed to develop a polysaccharide response and received antibiotic chemoprophylaxis, or gamma globulin replacement therapy. Three patients developed agammaglobulinemia with presence of B cells and gamma globulin replacement therapy was indicated. Nine patients had T-cell lymphopenia and 1 patient, combined immune compromise.

Keywords: *Down syndrome; trisomy 21; immune system diseases; recurrent infections; hypogammaglobulinemia.*

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10063.eng

To cite: Merhar CM, Liberatore DI. Immune compromise in patients with Down syndrome. A case series. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3): e202310063.

[a] *Pediatric Immunology, Department of Pediatrics, Hospital Italiano de Buenos Aires, City of Buenos Aires, Argentina.*

Correspondence to *Claudia Merhar: claudia.merhar@hospitalitaliano.org.ar*

Funding*: None.*

Conflict of interest*: None.*

Received*: 4-12-2023*
Accepted*: 9-22-2023*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

INTRODUCTION

Down syndrome (DS) is related to trisomy of chromosome 21 and has an estimated prevalence of 1 in 1000 live births.[1] It is the most frequent viable chromosomal disorder among live newborns.[1,2] It is characterized by intellectual disability and particular phenotypic features. DS is associated with congenital heart disease, obesity, leukemia, autoimmune diseases (celiac disease, hypothyroidism, and type I diabetes mellitus), and Alzheimer's disease.[2] Life expectancy currently reaches 50–60 years of age.[3]

Morbidity and mortality are greatly increased due to respiratory tract infections. Non-immune causes include anatomical abnormalities of the airways, congenital alterations of the ear canal, gastroesophageal reflux, and nasopharyngeal aspiration.[4] The immune causes that increase such susceptibility include the following: hypogammaglobulinemia of isotypes A and M, of immunoglobulin G subclasses (IgG2, IgG4), decreased antibody response to vaccines, decreased proliferation of B cells, decreased number of total and memory B cells, decreased neutrophil chemotaxis, decreased absolute number of NK cells.[5–10] The factors that may contribute to immune dysregulation and the subsequent autoimmunity are impaired central tolerance, thymic abnormalities, and defects in thymocyte development, particularly in regulatory T cells.[11]

However, immunity is not always assessed in these patients.[12] The objective of this study was to assess immune compromise in patients with DS referred to the Department of Immunology of our hospital.

POPULATION AND METHODS

Here we describe a case series of all patients with DS and immune compromise seen at the Pediatric Immunology Section of Hospital Italiano de Buenos Aires between 6/1/2016 and 5/31/2022.

Clinical presentation, lab tests and blood count, immunoglobulin determination by nephelometry, antibody response by ELISA, and lymphocyte phenotype by flow cytometry were assessed. The patients were referred due to infections or the finding of a pathological lab result (hypogammaglobulinemia or mild leukopenia). The infections were recurrent, severe, long-term, or with poor response to standard treatments. They presented with complicated pneumonia requiring hospitalization or viral pneumonia or bronchiolitis, or suppurative otitis.

Compromised cellular immunity was established quantitatively based on the value of CD3, CD4 and CD8 T lymphocytes. Collected data were compared to the tables of normal values for age.[13]

Compromised humoral immunity was determined based on immunoglobulin values (IgG, IgA and IgM), and hypogammaglobulinemia was defined as values below 2 standard deviations for age. It was also determined qualitatively, evaluating the specific response to different protein antigens: antibodies against tetanus toxoid, hepatitis B (in children under 12 months of age who received more than 2 doses of vaccine), hepatitis A, measles, rubella, varicella (in children older than 12 months of age).

The response to polysaccharide antigens was assessed with global pneumococcal antibody titers pre- and post-immunization 6 weeks after administration of the unconjugated 23-valent pneumococcal vaccine. A value ≥ 113 mg/L was considered an adequate response.[14] Regarding the response to polysaccharide antigens, 2 groups were analyzed: patients between 2 and 4 years old and patients older than 4 years old. In the first group, a second dose of unconjugated vaccine was indicated after 4 years old and the response was reassessed. Definitive failed response to polysaccharides was defined as failure to respond only in patients older than 4 years. In both groups, failed response was defined both when they did not show an initial response with an appropriate level of pneumococcal antibodies and when such response was not maintained at 6 months.

Ethical considerations

This protocol was drafted and carried out in accordance with current national and international standards: the World Medical Association's Declaration of Helsinki, the Guidelines for Good Clinical Practice ICH E6, Resolution 1480/11 by the Argentine Ministry of Health, and Law 3301/09 by the City of Buenos Aires. Maximum patient protection was warranted. The protocol was submitted to and approved by the Committee of Evaluation for Research Projects of Hospital Italiano de Buenos Aires under no. 6218 PRIISA no. 5881.

RESULTS

A total of 30 patients with DS and suspected immune compromise were referred. Six patients with a normal immunological assessment

were excluded. A total of 24 patients were analyzed. Their median age at the time of the first consultation was 2 years and 3 months (2 months to 17 years). Seventeen patients were referred due to infections and 7, due to pathological laboratory findings, 1 of whom developed pneumonia during follow-up. In relation to the 17 patients who presented with infections, their median age at onset was 6 months (1 month to 9 years) and at the time of the first consultation, 2 years and 9 months. The median length of follow-up was 2 years and 5 months (minimum: 1 month and maximum: 6 years and 10 months).

T-cell lymphopenia was observed in 9 of 24 patients (37.5%, 95% confidence interval [CI]: 18.8–59.4) and CD4 lymphopenia, in 3 of 24 patients (12.5%, 95% CI: 2.7–32.4). Agammaglobulinemia with presence of B cells was observed in 3 of 24 patients (12.5%, 95% CI: 2.7–32.4). One patient (4.2%, 95% CI: 0.1–21.1) had reduced IgM and IgA values for age. B-cell lymphopenia was observed in 15 of 24 patients (62.5%, 95% CI: 40.6–81.2). Also, in 1 of 24 patients (4.2%, 95% CI: 0.1–21.1), combined immune compromise was detected: absolute T-cell lymphopenia and agammaglobulinemia of the 3 isotypes (*Table 1*). An adequate response to protein antigens was noted in the 24 patients assessed (95% CI: 85.8–100). Regarding the response to polysaccharide antigens, 2 groups were analyzed: patients between 2 and 4 years old and patients older than 4 years old. In the first group, 6 of 9 patients (66.7%, 95% CI: 30–92) had a failed response.

Table 1. Lab results

	Age (years)	TOTAL LYMPHOCYTES (/mm³)	CD3 N/mm³ (%)	CD4 N/mm³ (%)	CD8 N/mm³ (%)	CD19 N/mm³ (%)	IgG (mg/dl)	IgA (mg/dl)	IgM (mg/dl)	Response to polysaccharide antigens
1	9	3648	3090 (84)	**659 (18)**	2311 (62)	**69 (1,9)**	1310	160	**40**	**FRP**
2	4	2548	2142 (84)	1224 (48)	841 (33)	239 (9)	851	**43**	**33**	**FRP**
3	0.5	3607	2240 (61)	1600 (44)	557 (15)	1039 (28)	792	22	34	**FRP**
4	1	**1248**	**831 (67)**	**522 (42)**	**217 (17)**	200 (16)	1130	58	66	**FRP**
6	17	4958	3294 (66)	1182 (24)	2091 (42)	**53 (1,4)**	2110	388	96	**FRP**
7	1	2508	**832 (33)**	**588 (23)**	**251 (10)**	925 (37)	1200	60	172	**FRP**
8	0.5	2880	2168 (73)	1448 (49)	700 (24)	709 (24)	**<200**	**9**	**14**	NP
9	1	2765	1554 (55)	**761 (27)**	724 (26)	454 (16)	814	195	121	**FRP**
10	8	**1440**	**1165 (75)**	**591 (38)**	**566 (36)**	140 (9)	1440	108	99	NP
11	0.16	NP	2903 (60)	1790 (37)	983 (20)	**290 (6)**	**<200**	**<6**	**<25**	NP
12	3.75	2984	2330 (78)	**538 (18)**	1734 (58)	**29 (1)**	752	143	99	**FRP**
13	4	2444	1397 (81)	NP	726 (42)	**205 (11)**	1100	86	47	**FRP**
16	2.5	2178	1906 (86)	856 (39)	843 (38)	**173 (7,8)**	635	53	28	**FRP**
17	1.5	**2327**	**1045 (45)**	**796 (34)**	**209 (9)**	825 (35)	628	52	58	**FRP**
18	0.16	**2250**	**1130 (49)**	**609 (26)**	**520 (22)**	683 (30)	**<200**	**9**	**26**	**FRP**
20	0.5	2644	**1849 (69)**	**1187 (44)**	602 (22)	**109 (4)**	347	32	118	NP
21	0.25	3510	2876 (75)	2244 (58)	652 (17)	**190 (5)**	**<200**	19	65	NP
24	1.5	**932**	**405 (44)**	**189 (20)**	**158 (17)**	**301 (32)**	619	44	64	NP
25	16	**658**	**546 (82)**	**308 (46)**	**227 (34)**	**38 (5)**	1190	243	71	NP
26	8	6908	6800 (91)	1933 (26)	4758 (64)	**22 (0,3)**	610	104	31	NP
27	2	2320	1533 (65)	523 (22)	961 (41)	**147 (6)**	556	35	55	Normal
28	2.75	2077	1808 (87)	1066 (51)	645 (31)	**65 (3)**	506	66	27	Normal
29	14	**1081**	**641 (60)**	**300 (28)**	**324 (30)**	**50 (5)**	1080	159	94	NP
30	3	1884	1383 (74)	**196 (11)**	1119 (60)	**189 (10)**	848	111	85	Normal

The table details lab test results of the first immunological assessment and the response to polysaccharide antigens (after the administration of the 23-valent pneumococcal polysaccharide vaccine). Values in red correspond to altered values for age. FRP: failed response to polysaccharides; IgA: immunoglobulin A; IgG: immunoglobulin G; IgM: immunoglobulin M; NP: not performed.

Among children older than 4 years, such failed response to polysaccharides was observed in 6 of 6 patients (95% CI: 54–100).

The 12 patients with failed response to polysaccharides received gamma globulin, preventive, or antibiotic therapy; the recurrence of infections reduced sharply. In the 4 asymptomatic patients referred due to laboratory findings, cellular compromise was noted, which was managed with chemoprophylaxis. It is worth mentioning a patient who had presented chylothorax as a complication of her heart disease; lymphopenia and hypogammaglobulinemia were corrected when she overcame this condition. However, she developed failed response to polysaccharides 2 years later.

DISCUSSION

Susceptibility to respiratory tract infections is increased in patients with DS. In patients with normal immunoglobulin levels, functionality should be assessed. This is done by measuring specific antibody titers against the antigens contained in the vaccines, e.g., IgG against tetanus toxoid, hepatitis B, measles, varicella, etc. Most vaccines have a protein antigen; the humoral immune response against these antigens develops early in life and this is the reason why these vaccines can be indicated from the first day of life. In contrast, the antibody response to polysaccharide antigens is independent from T cells and develops later. It is assessed by the response to the unconjugated pneumococcal vaccine. The unconjugated pneumococcal vaccine may be administered as of 2 years old, but a failed response is defined only as of 4 years old. Between 2 and 4 years of age, there may be an absence of adequate response due to immaturity. Therefore, when the response is low, a second dose is indicated after 4 years of age to define such humoral immune deficiency. The chemoprophylaxis indicated for failed response to polysaccharides is a daily dose of trimethoprim-sulfamethoxazole 3–5 mg/kg/day; if it does not work, gamma globulin replacement therapy should be indicated.

Patients with isolated cellular compromise received chemoprophylaxis for *Pneumocystis jirovecii* with trimethoprim-sulfamethoxazole 3–5 mg/kg/dose 3 times per week.

To conclude, our study describes humoral, cellular, or combined immune compromise in 24 patients with DS. Preventive treatment was indicated in 17 patients; a significant decrease in morbidity was observed, without hospitalization requirement after this intervention, which significantly improved the quality of life of these children and their families. Therefore, we reinforce the indication that patients with DS and recurrent infections or pathological laboratory findings should be referred to an immunologist, who will assess their immune compromise and eventually indicate a treatment in order to prevent infections. ■

Acknowledgments

I would like to thank Lucía G. Pérez, M.D., and the Department of Research of Hospital Italiano de Buenos Aires.

REFERENCES

1. Davidson MA. Primary care for children and adolescents with Down syndrome. *Pediatr Clin North Am*. 2008;55(5):1099-1114.
2. Hassold TJ, Jacobs PA. Trisomy in man. *Annu Rev Genet*. 1984;18:69-97.
3. Jensen KM, Bulova PD. Managing the care of adults with Down's syndrome. *BMJ*. 2014;349:g5596.
4. Ram G, Chinen J. Infections and immunodeficiency in Down syndrome. *Clin Exp Immunol*. 2011;164(1):9-16.
5. Burgio GR, Lanzavecchia A, Maccario R, Vitiello A, et al. Immunodeficiency in Down's syndrome: T-lymphocyte subset imbalance in trisomic children. *Clin Exp Immunol*. 1978;33(2):298-301.
6. Kusters MAA, Verstegen RHJ, Gemen EFA, de Vries E. Intrinsic defect of the immune system in children with Down syndrome: a review. *Clin Exp Immunol*. 2009;156(2):189-93.
7. Verstegen RHJ, Driessen GJ, Bartol SJW, van Noesel CJM, et al. Defective B-cell memory in patients with Down syndrome. *J Allergy Clin Immunol*. 2014;134(6):1346-53.e9.
8. Verstegen RHJ, Kusters MAA, Gemen EFA, de Vries E. Down syndrome B-lymphocyte subpopulations, intrinsic defect or decreased T-lymphocyte help. *Pediatr Res*. 2010;67(5):563-9.
9. de Hingh YC, van der Vossen PW, Gemen EFA, Mulder AB, et al. Intrinsic abnormalities of lymphocyte counts in children with down syndrome. *J Pediatr*. 2005;147(6):744-7.
10. Dieudonné Y, Uring-Lambert B, Jeljeli MM, Gies V, et al. Immune defect in adults with Down syndrome: insights into a complex issue. *Front Immunol*. 2020;11:840.
11. Marcovecchio GE, Bortolomai I, Ferrua F, Fontana E, et al. Thymic Epithelium Abnormalities in DiGeorge and Down Syndrome Patients Contribute to Dysregulation in T Cell Development. *Front Immunol*. 2019;10:447.
12. González-Cerrajero M, Quero-Escalada M, Moldenhauer F, Suárez Fernández C. Recomendaciones para la atención a los adultos con síndrome de Down. Revisión de la literatura. *Semergen*. 2018;44(5):342-50.
13. Sullivan K E, Stiehm R (ed). Stiehm's Immune Deficiencies: Inborn Errors of Immunity. San Diego, CA: Academic Press; 2014.
14. Cabanillas D, D'Alessandro V, Diez G, Regairaz L. Falla de respuesta anticorpórea frente a antígenos polisacáridos. A case series. *Arch Argent Pediatr*. 2014;112(6):e24.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310139

Fractura craneal deprimida congénita ("fractura ping-pong") en neonatos como diagnóstico diferencial de maltrato físico

Alicia Morikone[a], Juan P. Mouesca[a]

RESUMEN

Las fracturas con hundimiento de cráneo sin una explicación clara sobre su origen orientan al traumatismo con un objeto romo y a la sospecha de maltrato infantil. En el caso de los bebés recién nacidos, su corta edad es un factor de vulnerabilidad y obliga a una exhaustiva evaluación. Ante la sospecha de maltrato infantil, resulta importante evaluar los diagnósticos diferenciales para realizar la intervención más adecuada posible. Es necesario evitar tanto intervenciones excesivas como omitir la intervención que sea necesaria. Las fracturas craneales deprimidas congénitas, descritas como "fracturas ping-pong", son raras (0,3 a 2/10 000 partos). Pueden aparecer sin antecedentes traumáticos o en partos instrumentalizados. Se describe en este artículo el caso de un recién nacido con una fractura ping-pong como ejemplo de una fractura no intencional.

Palabras clave: *fractura craneal deprimida; congénito; reducción cerrada; maltrato a los niños; recién nacido.*

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10139
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10139.eng

Cómo citar: Morikone A, Mouesca JP. Fractura craneal deprimida congénita ("fractura ping-pong") en neonatos como diagnóstico diferencial de maltrato físico. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310139.

[a] *Unidad de Violencia Familiar, Hospital de General de Niños Pedro de Elizalde, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.*

Correspondencia para *Alicia Morikone: alimorikone@gmail.com*

Financiamiento: *Ninguno.*

Conflicto de intereses: *Ninguno que declarar.*

Recibido: *28-6-2023*
Aceptado: *13-10-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

INTRODUCCIÓN

Las fracturas con hundimiento de cráneo sin una explicación clara sobre su origen orientan al traumatismo con un objeto romo y a la sospecha de maltrato infantil.[1,2] Se debe intentar determinar el mecanismo de producción y si este ha sido accidental o intencional. En su evaluación, el relato cambiante de los cuidadores, la descripción de un mecanismo de producción que no coincide con la lesión o la ausencia de un relato explicativo, la demora en la consulta, la corta edad del paciente y el desarrollo neuromadurativo del niño que no coincide con el relato de la lesión son indicadores que orientan hacia el diagnóstico de maltrato físico.[1,3,4] El trauma cefálico abusivo, dentro del cual se incluye el síndrome del bebé sacudido, es la principal causa de mortalidad por maltrato infantil.[5-7] Sumado a esto, es relevante tener en cuenta los diagnósticos diferenciales de las lesiones.[1,3,4] Sería perjudicial tanto la ausencia de intervención en un caso de maltrato como una intervención excesiva en casos de lesiones no intencionales. En los recién nacidos, su corta edad es en sí misma un factor de vulnerabilidad considerando su grado de indefensión y la gran dependencia de los cuidados parentales. Presentamos el caso de un neonato con una fractura de producción no intencional (fractura ping-pong) como diagnóstico diferencial de fracturas intencionales.

CASO CLÍNICO

El Servicio de Neonatología solicitó la interconsulta a la Unidad de Violencia Familiar del Hospital de General de Niños Pedro de Elizalde por una recién nacida de 6 días de vida derivada de un hospital de Florencio Varela para la reducción de una fractura parietal derecha con hundimiento (*Figura 1*). Refirieron que la madre no se había percatado de dicha lesión en el

Figura 1. Radiografía de cráneo



Se visualiza fractura-hundimiento en región parietal derecha.

cráneo de su bebé, sino que un familiar alarmó a la madre. La paciente permaneció siempre en ámbito hospitalario.

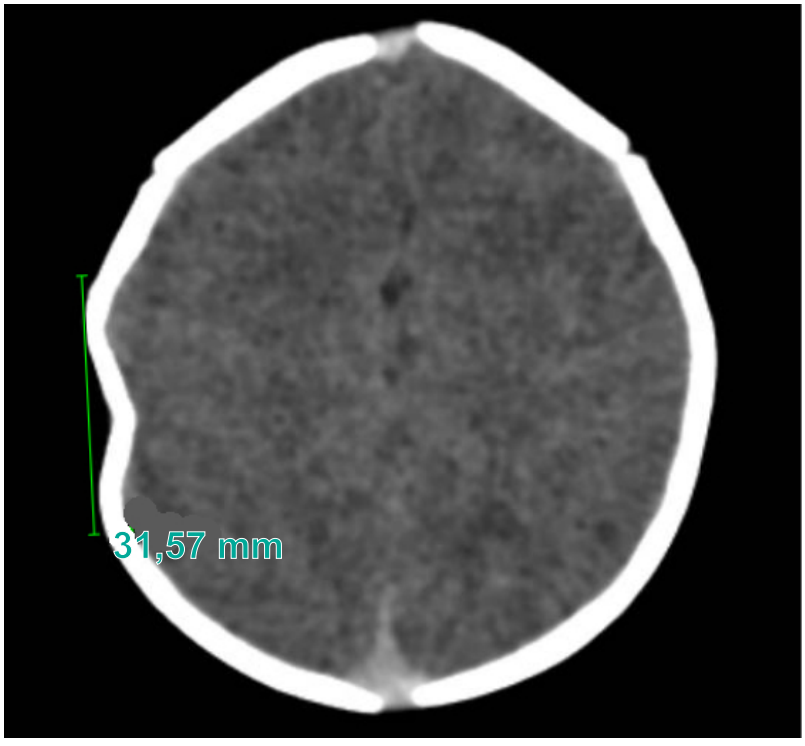
La paciente de sexo femenino era una recién nacida de término de 41 semanas de edad gestacional, con un peso de 3250 g, Apgar 9/10, embarazo controlado con serologías negativas, perímetro cefálico 32,5 cm, sin otros signos o síntomas agregados. En los informes e historia clínica, se constató nacimiento por cesárea por cesárea previa, sin antecedentes familiares, personales ni traumáticos previos. Los exámenes complementarios no evidenciaron lesiones parenquimatosas. La paciente contaba con una ecografía cerebral normal y la tomografía computada cerebral evidenciaba un hundimiento parietal derecho de 26 mm de longitud y 3,7 mm de profundidad sin solución de continuidad ósea (*Figuras 2 y 3*). Tanto la evaluación neurológica como la oftalmológica fueron normales. El Servicio de Neurocirugía realizó la reducción de la fractura mediante succión, método MARS.[8]

Con respecto al abordaje en la Unidad de Violencia Familiar, se realizó inicialmente una entrevista a la madre de 28 años de edad, quien vivía con el padre de 29 años y los hermanos de la paciente de 11 años, 3 años y 20 meses de edad. La familia vivía en el mismo terreno donde se encontraba la abuela materna y una tía abuela; ambas colaboraban con los cuidados. Durante la entrevista, la madre se mostró colaboradora y preocupada por la salud de su hija. Hizo mención a la sensación de culpa por la lesión al haber "aguantado las contracciones", relacionándolo con su deseo de tener el parto por cesárea y, de ese modo, realizar la ligadura de trompas en el mismo acto quirúrgico. Reconoció haberse dado cuenta de la lesión cuando una de las tías maternas de la niña se lo señaló. La madre mencionó contar con una red de apoyo familiar. Fueron entrevistados también otros familiares de la paciente. No se hallaron, en la evaluación, indicadores de riesgo de sospecha de maltrato infantil.

DISCUSIÓN

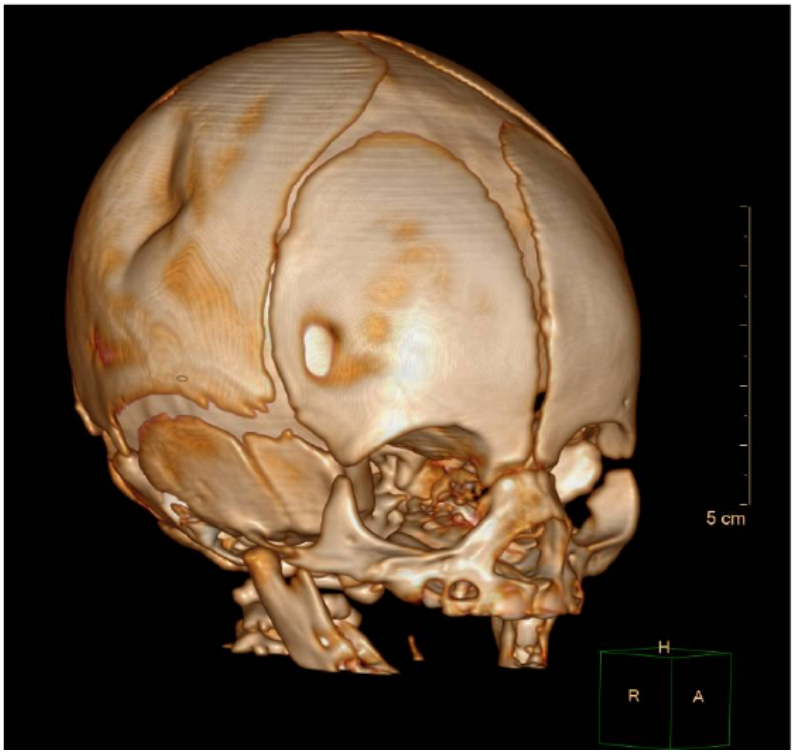
La fractura ping-pong es una fractura craneal deprimida en forma de copa que, en general, no presenta solución de continuidad y es de aparición congénita. De acuerdo a la

Figura 2. Tomografía axial computada de cerebro



Se visualiza fractura deprimida en región parietal, sin solución de continuidad, sin lesión intracraneal.

Figura 3. Reconstrucción 3D de tomografía axial computada



Se observa, en la reconstrucción 3D de la ventana ósea, el hundimiento semejante al de una pelota de ping-pong abollada.

bibliografía, su presentación es infrecuente, con una prevalencia de 0,3 a 2 cada 10 000 partos.[9,10] Esta fractura puede darse de forma iatrogénica en partos o cesáreas traumáticas por utilización de fórceps, por exposición del cráneo del bebé a grandes presiones durante el parto o cesárea. Sin embargo, también puede aparecer en forma espontánea sin antecedentes de eventos traumáticos; puede producirse por compresión continua y focal del cráneo maleable del bebé contra ciertas estructuras óseas o estructurales del entorno (isquion, promontorio, sínfisis pubiana, fibromas uterinos, 5.ta vértebra lumbar, las propias manos del bebé, una parte del cuerpo de un gemelo en un embarazo múltiple, pelvis asimétrica). En general, las fracturas ping-pong involucran la región frontal, parietal y occipital. Entre las complicaciones, se encuentran hematomas subdurales o epidurales, contusiones cerebrales, lesiones en el parénquima o secuelas neurológicas, especialmente en fracturas deprimidas compuestas.[11]

Con respecto a su tratamiento, la decisión sobre el procedimiento para aplicar corresponde al neurocirujano; puede considerarse un manejo conservador y expectante en el caso de fracturas simples y de poca profundidad, cuya resolución puede ser espontánea. En otros casos, como el de la paciente presentada, puede realizarse un método simple por succión que es accesible, efectivo, seguro, de bajo costo y no quirúrgico, denominado sistema de reducción y aspiración manual (MARS).[8] En el caso de fracturas más complejas, puede requerirse un tratamiento quirúrgico mediante craneotomía.[9-13]

Ilhan presentó el caso de un bebé de sexo masculino que nació de 39 semanas de edad gestacional con un peso de 3250 g con un embarazo controlado, sin antecedentes traumáticos. Al nacer presentó un Apgar 8/9, una circunferencia de cráneo de 35 cm (p 50-75) y una depresión en región parietal derecha de 3 × 3 cm con 4 mm de profundidad sin otros signos o síntomas agregados. Se decidió un tratamiento conservador con seguimiento longitudinal con resolución espontánea.[11]

Silva publicó un caso similar con mayor profundidad de la fractura (4 × 3 cm con 2 cm

de profundidad) con tratamiento conservador.[12] Preston presentó el caso de un bebé que nació con 38 semanas de edad gestacional con un parto por cesárea de urgencia tras una inducción medicamentosa fallida por preeclampsia materna. Como antecedentes, la madre había tenido un período de vómitos y un episodio diez días previos al nacimiento de caída sobre sus rodillas que no requirió consulta ni intervención. El bebé presentó al nacer un Apgar 6/7/9, un peso de 3240 g y un perímetro cefálico de 33,5 cm (p 3-10). Presentó una depresión en región temporoparietal derecha de 3 × 3 cm con profundidad de 2 cm, sin alteraciones neurológicas ni otros signos o síntomas agregados. Se tomó una conducta expectante con resolución espontánea.[10]

Las fracturas por hundimiento de cráneo producidas por golpes contra un objeto romo como un martillo producen solución de continuidad ósea, suelen asociarse a lesiones intracraneales y requerir una resolución quirúrgica,[2,14] a diferencia de las fracturas ping-pong simples, que no tienen estas características. Ante la sospecha de maltrato infantil en el caso de los bebés recién nacidos, su corta edad es un factor de vulnerabilidad y obliga a una exhaustiva evaluación para no caer en intervenciones excesivas u omitir una intervención necesaria. Hemos descripto el caso de una recién nacida de 6 días con una fractura con hundimiento de cráneo. Los cuidadores no pudieron dar una explicación a la lesión, lo cual era esperable, dado que la fractura sería congénita o secundaria a procedimientos del parto. Una fractura con hundimiento parietal del cráneo sin solución de continuidad y sin lesión intracraneal orienta a una lesión no intencional. Se evaluó a la familia sin observar factores de riesgo de maltrato infantil. La bebé no egresó del ámbito hospitalario antes del diagnóstico, lo que hacía poco probable una agresión que no fuera detectada por el equipo de salud tratante.

El objetivo de esta presentación fue comunicar que, si bien las fracturas deprimidas orientan al diagnóstico de maltrato físico, la fractura ping-pong de presentación congénita tiene un mecanismo de producción no intencional. Requieren ser evaluadas por el neurocirujano, pero su resolución en la mayoría de los casos no es quirúrgica. ■

Agradecimiento

A las Dras. Ximena Lavella y Marina Altese, del Servicio de Neurocirugía, por la información brindada respecto a las alternativas terapéuticas en estas fracturas. Al Dr. Sebastián Stoccoti, del Servicio de Neonatología del Hospital General de Niños Pedro de Elizalde, por su confianza y derivación de la paciente.

REFERENCIAS

1. Garrote N, Indart de Arza MJ. Maltrato físico. En Garrote N. *Maltrato infantil. Aportes para su detección, abordaje y prevención.* Buenos Aires: Journal; 2018:35-9.
2. Hobbs CJ. Skull fracture and the diagnosis of abuse. *Arch Dis Child*. 1984;59(3):246-52.
3. Christian CW, Committee on child abuse and neglect, American Academy of Pediatrics. The evaluation of suspected child physical abuse. *Pediatrics*. 2015;135(5):1337-54.
4. Adamsbaum C, Billete de Villemeur T, Husson B. Non accidental injuries of the brain and spinal cord. In Rey-Salomon C, Adamsbaum C (eds). *Child abuse. Diagnostic and forensic considerations.* Cham: Springer; 2018:105-40.
5. Blumenthal I. Shaken baby syndrome. *Postgrad Med J.* 2002;78(926):732-5.
6. Theodorou CM, Nuño M, Yamashiro KJ, Brown EG. Increased mortality in very young children with traumatic brain injury due to abuse: A nationwide analysis of 10,965 patients. *J Pediatr Surg.* 2021;56(6):1174-9.
7. Narang SK, Fingarson A, Lukefahr J, Council on child abuse and neglect. Abusive Head Trauma in Infants and Children. *Pediatrics*. 2020;145(4):e20200203.
8. Minghinelli F, Recalde R, Socolovsky M, Houssay A. A new, low-cost device to treat depressed "ping-pong" fractures non-surgically. *Childs Nerv Syst.* 2021;37(6):2045-9.
9. García Reymundo M, Real Terrón R, Sáez Díez I, Piñán López E. Fractura craneal deprimida congénita: ¿actitud a seguir? *An Pediatr (Barc).* 2015;83(3):219-20.
10. Preston D, Jackson S, Gandhi S. Non-traumatic depressed skull fracture in a neonate or 'ping pong' fracture. *BMJ Case Rep.* 2015;bcr2014207077.
11. Ilhan O, Bor M, Yukkaldiran P. Spontaneous resolution of a 'ping-pong' fracture at birth. *BJM Case Rep*. 2018;bcr2018226264.
12. Silva JB, João A, Miranda N. Ping-pong fracture in newborn: a rare diagnosis. *Acta Med Port.* 2019;32(7-8):549.
13. Ballestero MF, De Oliveira RS. Closed depressed skull fracture in childhood reduced with suction cup vacuum method: case report and a systematic literature review. *Cureus.* 2019;11(7):e5205.
14. Fernández-Jaén A, Calleja-Pérez B, García-Asensio JA. Traumatismo craneoencefálico en la infancia. *Medicina Integral*. 2001;37(8):337-45.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310139

Congenital depressed skull fracture ("ping-pong" fracture) in newborn infants as a differential diagnosis of physical abuse

Alicia Morikone[a], *Juan P. Mouesca*[a]

ABSTRACT

Depressed skull fractures without a clear explanation as to their origin point to trauma with a blunt object and suspected child abuse. In the case of newborn infants, their young age is a vulnerability factor and requires an exhaustive assessment. When child abuse is suspected, an assessment of the differential diagnoses is required to make the most appropriate intervention possible. Both an excessive intervention and an omission of a necessary intervention should be avoided. Congenital depressed skull fractures, described as "ping-pong fractures", are rare (0.3 to 2/10 000 births). They may appear without any trauma history or in instrumentalized childbirth. Here we describe the case of a newborn infant with a ping-pong fracture as an example of an accidental fracture.

Keywords: *depressed skull fracture; congenital; closed reduction; child abuse; newborn infant.*

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10139.eng

To cite: Morikone A, Mouesca JP. Congenital depressed skull fracture ("ping-pong" fracture) in newborn infants as a differential diagnosis of physical abuse. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310139.

[a] *Unit of Family Violence, Hospital General de Niños Pedro de Elizalde, City of Buenos Aires, Argentina.*

Correspondence to *Alicia Morikone: alimorikone@gmail.com*

Funding*: None.*

Conflict of interest*: None.*

Received*: 6-28-2023*
Accepted*: 10-13-2023*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

INTRODUCTION

Depressed skull fractures without a clear explanation as to their origin point to trauma with a blunt object and suspected child abuse.[1,2] Attempts should be made to determine the mechanism of the fracture and whether it was accidental or intentional. In relation to its assessment, a changing account by caregivers, a description of the mechanism of the fracture that is not consistent with the injury or the absence of an explanatory account, a delay in consultation, the young age of the child, and the neurological development of the child that does not coincide with the account of the injury are indicators that point towards the diagnosis of physical abuse.[1,3,4] Abusive head trauma, which includes shaken baby syndrome, is the leading cause of mortality due to child maltreatment.[5–7] In addition, it is worth taking into account the differential diagnoses of these injuries.[1,3,4] Both the absence of intervention in a case of maltreatment and an excessive intervention in the case of unintentional injuries would be detrimental. In newborn infants, their young age is in itself a factor of vulnerability considering their degree of defenselessness and great dependence on parental care. Here we describe the case of a newborn infant with an accidental fracture (ping-pong fracture) as a differential diagnosis of intentional fractures.

CASE REPORT

The Department of Neonatology requested a consultation with the Unit of Family Violence of Hospital General de Niños Pedro de Elizalde in relation to a 6-day-old baby girl referred from a hospital in Florencio Varela for the reduction of a depressed skull fracture in the right parietal bone (*Figure 1*). It was reported that the mother had not noticed the injury on her baby's skull, but that a family member had warned her. The patient

Figure 1. Skull x-ray, front view



Skull fracture-depression in the right parietal region.

stayed at the hospital at all times.

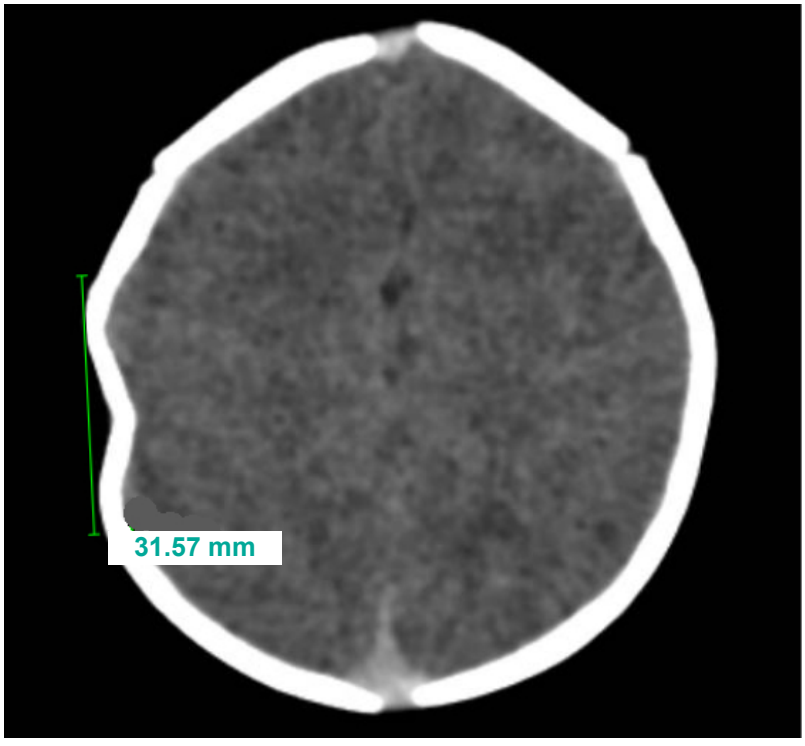
She was a term infant born at 41 weeks of gestation from a controlled pregnancy with negative serology; she had a birth weight of 3250 g, an Apgar score of 9/10, a head circumference of 32.5 cm, and no other signs or symptoms. According to the reports and medical history, she was born via a C-section due to previous maternal C-section, with no family, personal, or traumatic history. The ancillary tests did not show parenchymal lesions. The brain ultrasound was normal; the computed tomography scan of the brain showed a right parietal depression that measured 26 mm long and 3.7 mm deep, with no solution of continuity of the bone (*Figures 2 and 3*). Both the neurological and vision assessments were normal. The Department of Neurosurgery performed a fracture reduction by suction using the MARS method.[8]

In relation to the approach by the Unit of Family Violence, an initial interview was conducted with the patient's mother (28 years old), who lived with her baby's father (29 years old) and her siblings (11 years old and 3 years and 20 months old). The family lived on the same property as the maternal grandmother and a great-aunt; both assisted them with care. During the interview, the mother was cooperative and concerned about her daughter's health. She mentioned a feeling of guilt regarding the injury for having "endured the contractions," relating it to her desire to give birth by C-section and, thus, have a tubal ligation in the same surgical procedure. She acknowledged noticing the injury when one of the baby's maternal aunts pointed it out to her. The mother mentioned having a family support network. Other family members of the patient were also interviewed. No risk indicators of suspected child abuse were found in the examination.

DISCUSSION

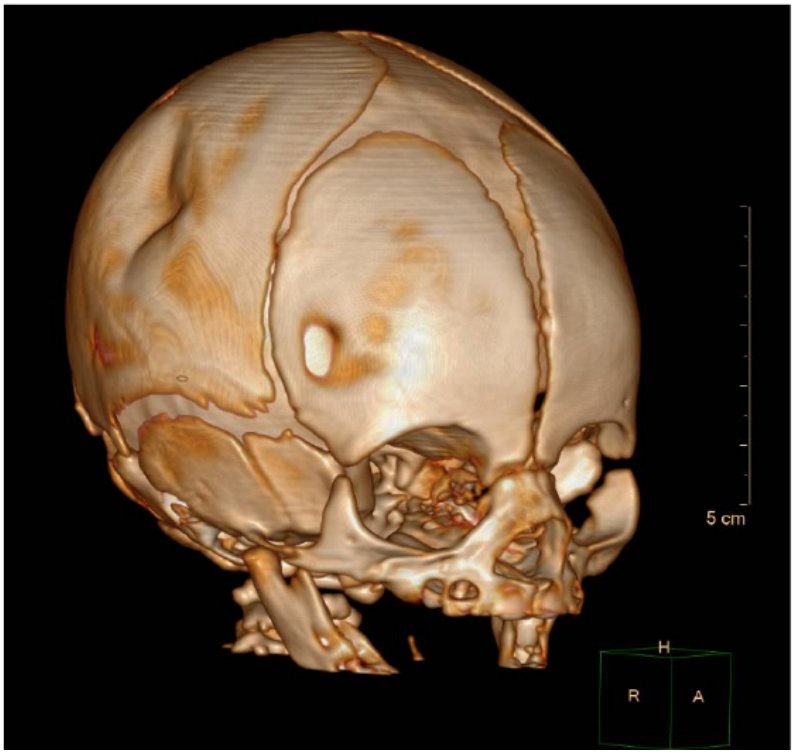
The ping-pong fracture is a depressed skull fracture in the shape of a cup which, in general, does not present a solution of continuity and is congenital in appearance. According to the bibliography, it is uncommon, with a prevalence of 0.3 to 2 per 10 000 births.[9,10] This may be an iatrogenic fracture that occurs during a traumatic vaginal delivery or C-section due to the use of forceps or exposure of the baby's skull to great

Figure 2. Computed tomography scan of the brain



Depressed skull fracture in the parietal region, with no solution of continuity of the bone and no intracranial injury.

Figure 3. 3D reconstruction of computed tomography scan



3D reconstruction of the bone window, depression was similar to a dented ping-pong ball.

pressure during delivery or C-section. However, it may also appear spontaneously without a history of traumatic events; it may occur by continuous and focal compression of the baby's malleable skull against certain bony structures or structural configuration of the environment (ischium, sacral promontory, pubic symphysis, uterine fibroids, fifth lumbar vertebra, the baby's own hands, a body part of a twin in a multiple pregnancy, asymmetrical pelvis). In general, ping-pong fractures involve the frontal, parietal, and occipital regions. Complications include subdural or epidural hematomas, cerebral contusions, parenchymal lesions, or neurological sequelae, especially in compound depressed fractures.[11]

Regarding their management, the decision on the procedure corresponds to the neurosurgeon; conservative and expectant management may be considered in the case of simple and shallow fractures, which may resolve spontaneously. In other cases, such as that of the patient described here, the manual aspiration reduction system (MARS) can be used, a simple suction method that is accessible, effective, safe, low-cost, and non-surgical.[8] In the case of more complex fractures, surgical treatment by craniotomy may be required.[9–13]

Ilhan described the case of a male infant born at 39 weeks of gestation with a birth weight of 3250 g from a controlled pregnancy and with no history of trauma. At birth, he had an Apgar score of 8/9, a skull circumference of 35 cm (p 50–75) and a depression in the right parietal region that measured 3 × 3 cm and had a depth of 4 mm without other signs or symptoms. A conservative management was decided with longitudinal follow-up and spontaneous resolution.[11]

Silva published a similar case with a greater fracture depth (4 × 3 cm with a depth of 2 cm) managed conservatively.[12] Preston described the case of an infant born at 38 weeks of gestation via an emergency C-section following a failed drug induction for maternal preeclampsia. The case history noted that the mother had a vomiting period and a fall to her knees that did not require consultation or intervention 10 days prior to the birth. At birth, the baby had an Apgar score of 6/7/9, a birth weight of 3240 g, and

a head circumference of 33.5 cm (p 3–10). He had a depression in the temporoparietal region that measured 3 × 3 cm with a depth of 2 cm, no neurological alterations or other signs or symptoms. An expectant management was decided, and the fracture resolved spontaneously.[10]

Depressed skull fractures caused by blows against a blunt object, such as a hammer, cause a solution of continuity of the bone, are usually associated with intracranial injuries, and require surgical resolution,[2,14] unlike simple ping-pong fractures, which do not have these characteristics. In the case of suspected abuse in newborn infants, their young age is a factor of vulnerability and requires an exhaustive examination to prevent any excessive intervention or the omission of a necessary intervention. Here we described the case of a 6-day-old newborn infant with a depressed skull fracture. Her caregivers could not explain the injury, which was to be expected, given that the fracture would be congenital or secondary to delivery procedures. A fracture with parietal collapse of the skull without solution of continuity and without intracranial injury suggests an accidental injury. The family was assessed, and no risk factors for child abuse were observed. The newborn infant had not been discharged from the hospital prior to diagnosis, making it unlikely that an assault was undetected by the treating healthcare team.

The objective of this report was to communicate that, while depressed skull fractures are indicative of a diagnosis of physical abuse, congenital ping-pong fractures occur as a result of an accidental mechanism. These fractures require examination by the neurosurgeon, although in most cases their resolution is not surgical. ■

Acknowledgments

We would like to thank Ximena Lavella, M.D., and Marina Altese, M.D., from the Department of Neurosurgery, for the information about the management options of these fractures. We would also like to thank Sebastián Stoccoti, M.D., from the Department of Neonatology of Hospital General de Niños Pedro de Elizalde, for trusting us with his patient's referral.

REFERENCES

1. Garrote N, Indart de Arza MJ. Maltrato físico. In Garrote N. *Maltrato infantil. Aportes para su detección, abordaje y prevención.* Buenos Aires: Journal; 2018:35-9.
2. Hobbs CJ. Skull fracture and the diagnosis of abuse. *Arch Dis Child*. 1984;59(3):246-52.
3. Christian CW, Committee on child abuse and neglect, American Academy of Pediatrics. The evaluation of suspected child physical abuse. *Pediatrics*. 2015;135(5):1337-54.
4. Adamsbaum C, Billete de Villemeur T, Husson B. Non accidental injuries of the brain and spinal cord. In Rey-Salomon C, Adamsbaum C (eds). *Child abuse. Diagnostic and forensic considerations.* Cham: Springer; 2018:105-40.
5. Blumenthal I. Shaken baby syndrome. *Postgrad Med J*. 2002;78(926):732-5.
6. Theodorou CM, Nuño M, Yamashiro KJ, Brown EG. Increased mortality in very young children with traumatic brain injury due to abuse: A nationwide analysis of 10,965 patients. *J Pediatr Surg*. 2021;56(6):1174-9.
7. Narang SK, Fingarson A, Lukefahr J, Council on child abuse and neglect. Abusive Head Trauma in Infants and Children. *Pediatrics*. 2020;145(4):e20200203.
8. Minghinelli F, Recalde R, Socolovsky M, Houssay A. A new, low-cost device to treat depressed "ping-pong" fractures non-surgically. *Childs Nerv Syst.* 2021;37(6):2045-9.
9. García Reymundo M, Real Terrón R, Sáez Díez I, Piñán López E. Fractura craneal deprimida congénita: ¿actitud a seguir? *An Pediatr (Barc)*. 2015;83(3):219-20.
10. Preston D, Jackson S, Gandhi S. Non-traumatic depressed skull fracture in a neonate or 'ping pong' fracture. *BMJCase Rep.* 2015;bcr2014207077.
11. Ilhan O, Bor M, Yukkaldiran P. Spontaneous resolution of a 'ping-pong' fracture at birth. *BJM Case Rep*. 2018;bcr2018226264.
12. Silva JB, João A, Miranda N. Ping-pong fracture in newborn: a rare diagnosis. *Acta Med Port.* 2019;32(7-8):549.
13. Ballestero MF, De Oliveira RS. Closed depressed skull fracture in childhood reduced with suction cup vacuum method: case report and a systematic literature review. *Cureus.* 2019;11(7):e5205.
14. Fernández-Jaén A, Calleja-Pérez B, García-Asensio JA. Traumatismo craneoencefálico en la infancia. *Medicina Integral*. 2001;37(8):337-45.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310167

Diagnóstico prenatal de clorhidrorrea congénita: reporte de caso

Qianqian Cheng[a], *Chongquan Huang*[a]

RESUMEN

La clorhidrorrea congénita es un trastorno genético infrecuente pero importante caracterizado por una alteración grave del balance hidroelectrolítico como resultado de un defecto en la absorción intestinal de cloruros. Los niños afectados presentan diarrea persistente, deshidratación y malnutrición; el control médico y del desarrollo son complejos. Mejorar la detección prenatal es esencial para facilitar la atención del paciente, las intervenciones tempranas y el asesoramiento genético informado. Sin embargo, a pesar de los avances de la medicina, la naturaleza compleja y la escasa frecuencia de esta entidad, constituyen un desafío para la detección prenatal. En este estudio, se reporta el caso de una embarazada donde los estudios por imágenes de resonancia magnética fetales identificaron en forma efectiva las características típicas de la clorhidrorrea congénita. Se proveen conocimientos sobre las complejidades del diagnóstico y se sugieren caminos para las estrategias de detección temprana de esta enfermedad.

Palabras clave: *diarrea infantil, congénita; imagen por resonancia magnética; polihidramnios; diagnóstico prenatal; gen* SLC26A3.

doi (español): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10167
doi (inglés): http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10167.eng

Cómo citar: Cheng Q, Huang C. Diagnóstico prenatal de clorhidrorrea congénita: reporte de caso. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310167.

[a] *Departamento de Radiología, Hospital Central Wen Zhou, Zhe Jiang, Wen Zhou, China.*

Correspondencia para *Qianqian Cheng: chengqq.zxhos@outlook.com*

Financiamiento*: Ninguno.*

Conflicto de intereses*: Ninguno que declarar.*

Recibido*: 26-7-2023*
Aceptado*: 24-10-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

INTRODUCCIÓN

La clohidrorrea congénita (CHC) es un trastorno infrecuente, originado en las mutaciones del gen *SLC26A3;* el patrón de herencia es autosómico recesivo.[1] La prevalencia es notablemente superior en los países nórdicos como Finlandia y Suecia, ocasionado por diversas mutaciones genéticas, con una frecuencia de 1 en 25 000 a 1 en 100 000 nacidos vivos respectivamente.[2] Por el contrario, la mayor ocurrencia en regiones como Polonia y el Oriente Medio se relacionan con los matrimonios consanguíneos, mientras que en China la CHC sigue siendo infrecuente y con pocos casos documentados.[3]

Los síntomas a menudo se manifiestan durante el periodo neonatal, con un espectro de gravedad y de manifestaciones clínicas. El manejo de complicaciones como la deshidratación, la hipocalemia y la alcalosis metabólica -condiciones intrínsecamente ligadas a la falla subyacente en la absorción de cloruros- requiere un inmediato diagnóstico y tratamiento para proteger la salud a largo plazo de los individuos afectados.[1]

Históricamente, el ultrasonido ha sido esencial en el diagnóstico prenatal de la CHC. Sin embargo, los conocimientos detallados que ofreció el advenimiento de las imágenes de resonancia magnética (RM) fetal, enriquecieron el enfoque diagnóstico, al revelar en forma precisa las anomalías anatómicas y funcionales asociadas a la CHC.[4]

En este reporte, se discuten las imágenes características de la RM fetal observadas en un caso de CHC. Se resalta el rol de los instrumentos técnicos para mejorar nuestra comprensión y manejo de esta entidad infrecuente. El énfasis está puesto en el aumento del diagnóstico prenatal, esencial para la detección temprana y la optimización de la atención médica a largo plazo de los pacientes con CHC.

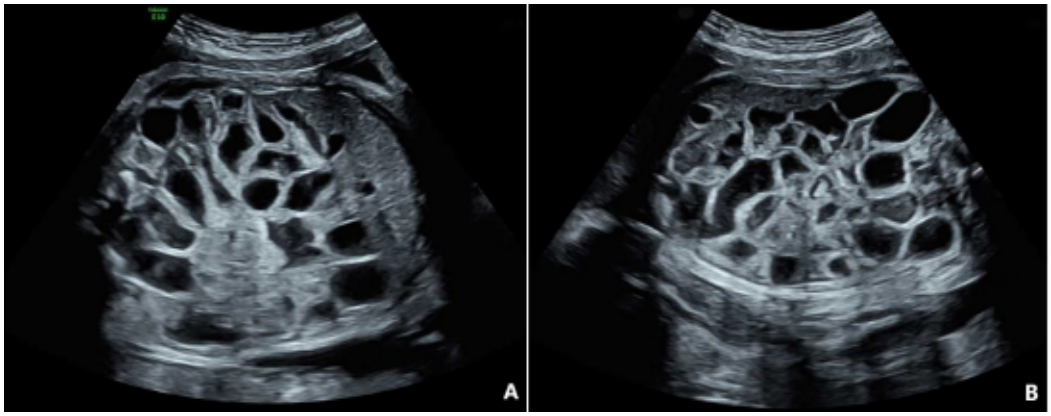
CASO CLÍNICO

La paciente era una mujer embarazada, primigesta, de 30 años de edad, sin antecedentes familiares de síntomas intestinales relacionados con la CHC. Durante el embarazo se efectuó la pesquisa genética para aneuploidías con resultado negativo. El ultrasonido fetal del primer trimestre no mostró alteraciones.

A las 33 semanas de gestación se observaron dilataciones a nivel del intestino fetal y polihidramnios refractario (*Figura 1*). El intestino fetal estaba dilatado en forma difusa, con un diámetro interior de 10-14 mm. El ultrasonido en tiempo real mostró una peristalsis intestinal activa, sin ascitis significativa ni anomalías morfológicas en el feto y la placenta.

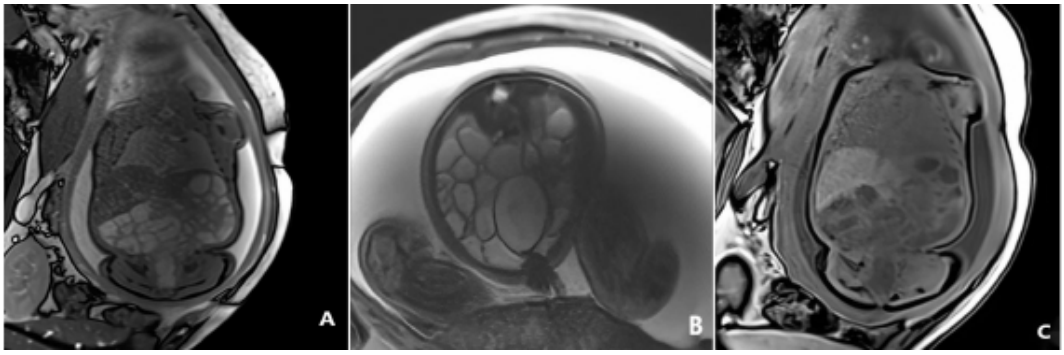
A las 34 semanas de gestación se realizó una RM que confirmó la presencia de asas intestinales dilatadas con hiperintensidad en la señal T2, indicativo de contenido líquido en los intestinos (*Figura 2 a,b*). Las imágenes ponderadas en T1 mostraron la acumulación de líquido hipotenso, localizado en particular en el intestino delgado, con extensión al colon (*Figura 2 c*).

Figura 1. Ultrasonido. Imágenes a las 33 semanas de gestación



Se observa dilatación generalizada de las asas intestinales con contenido hipoecoico homogéneo.

Figura 2. Resonancia magnética fetal. Imágenes a las 34 semanas de gestación



(A, B) Imágenes en T2W. Múltiple dilatación del intestino con señal hiperpintensa correspondiente a contenido líquido.
(C) Imagen en T1W. Desaparición completa de la señal hiperintensa fisiológica en el colon.

Tabla 1. Secuenciación genética

Gen	Coordenadas cromosómicas (GRC7/hg19)	Cambio nucleótido-aminoácido	Región	Cigocidad	Clasificación de la variante	Enfermedad/ fenotipo	Modo de herencia	Origen de la variante
SLC26A3 (NM_000111.2)	Chr7:107434256	c.202C>T/ p.Arg68Trp	Exon 3	Heterocigota	VSI	Clorhidrorrea congénita tipo 1	AR	Paterno
	Chr7:107418674	c.1460G>C/ p.Gly487Ala	Exon 13	Heterocigota	VSI			Materno

VSI: variante de significado incierto; AR: autosómica recesiva.

Para determinar la causa subyacente y luego del análisis del caso en el comité de ética médica, se solicitó consentimiento informado a los cuidadores del niño para obtener una muestra de sangre del cordón umbilical y realizar la secuenciación de alto rendimiento. El estudio genético reveló una variación heterocigota en el gen *SLC26A3* lo que confirmó el diagnóstico de CHC tipo I (*Tabla 1*).

DISCUSIÓN

La característica fundamental de la CHC es la alteración del intercambio Cl/HCO_3 a nivel de la mucosa del íleon terminal y del colon. Provoca una diarrea acuosa abundante, con hipocloremia, hiponatremia, hipocalemia, alcalosis metabólica y deshidratación.[4] Sin un tratamiento oportuno, la alteración persistente del balance electrolítico y la alcalosis metabólica, pueden producir una serie de complicaciones que incluyen el riesgo de muerte de los niños afectados. Cuando la enfermedad se diagnostica y trata en las primeras etapas después del nacimiento, la mayoría de los niños crecen y se desarrollan con normalidad.[5] Realizar un diagnóstico preciso durante el periodo fetal y tratar la enfermedad tan pronto como sea posible después del nacimiento implican un mejor pronóstico.

El tracto gastrointestinal fetal normal tiene ciertas características en la RM; se pueden observar diferentes signos fisiológicos en cada edad gestacional.[6] En un feto normal, a las 18 semanas de gestación, ya se observan diferencias en los signos fisiológicos entre el líquido amniótico y el meconio. A las 20 semanas se detectan señales hiperintensas en T1W e hipointensas en T2W debidas a la presencia temprana de meconio. Antes de las 25 semanas, las señales en el intestino delgado son intermedias o hipointensas en la secuencia T1W, en oposición a las señales hiperintensas del meconio en el colon. Después de las 33 semanas, el contenido del intestino delgado normal muestra señales hiperintenas fisiológicas en T2W e hipointensas en T1W, por el líquido intracelular de la membrana amniótica. El contenido de intestino delgado distal en general muestra señales hiperintensas en la secuencia T1W,

correspondiente a la presencia de meconio.[7-9]

En este caso, el examen por ultrasonido mostró polihidramnios y dilatación intestinal lo que dificultó el diagnóstico definitivo. Se realizó una RM con un equipo Siemens Magnetom Skyra 3.0T. Se obtuvieron imágenes ponderadas en T2 con la secuencia HASTE (*half-Fourier acquisition single-shot turbo-spin-echo*) y la secuencia TrueFISP (*true steady-state precession*), e imágenes ponderadas en T1 con la secuencia Dixon de separación agua-grasa por eco de gradiente múltiple. Los resultados mostraron la presencia de líquido en el intestino dilatado, y la desaparición de la señal normal de meconio en el colon en T1W. El reemplazo del meconio por líquido en el colon, indicó la presencia de una diarrea acuosa importante. La expansión de una señal hiperintensa en el intestino hasta el final del recto y la naturaleza de la acumulación de líquido, sugirieron fuertemente una CHC en lugar de una obstrucción intestinal baja o una enfermedad de Hirschsprung. La secuencia genética confirmó la hipótesis diagnóstica de CHC en este caso. La RM fue muy importante para el diagnóstico temprano de la enfermedad. Después de las 20 semanas de gestación, la ausencia de señal hiperintensa en T1W en el intestino fetal, es un indicador relevante.

En conclusión, la CHC es infrecuente en la práctica clínica y es habitual que no se diagnostique en el periodo prenatal. Sin embargo, el tracto gastrointestinal tiene características distintivas en la RM y las imágenes pueden colaborar para el diagnóstico prenatal. ■

REFERENCIAS

1. Bhardwaj S, Pandit D, Sinha A, Hari P, et al. Congenital Chloride Diarrhea - Novel Mutation in SLC26A3 Gene. *Indian J Pediatr*. 2016;83(8):859-61.
2. Terrin G, Tomaiuolo R, Passariello A, Else A, et al. Congenital diarrheal disorders: an updated diagnostic approach. *Int J Mol Sci*. 2012;13(4):4168-85.
3. Li Y, Jin Y, Liu Y, Kang L, et al. Case report of congenital chloride diarrhea and literature review. *Chin J Appl Clin Pediatr*. 2019;34(11):862-5.
4. Kawamura T, Nishiguchi T. Congenital Chloride Diarrhea (CCD): a case report of CCD suspected by prenatal ultrasonography and magnetic resonance imaging (MRI). *Am J Case Rep*. 2017;18:707-13.
5. Hirakawa M, Hidaka N, Kido S, Fukushima K, Kato K. Congenital Chloride Diarrhea: Accurate Prenatal Diagnosis Using Color Doppler Sonography to Show the Passage of Diarrhea. *J Ultrasound Med*. 2015;34(11):2113-5.
6. Wu S, Han J, Zhang Y, Ye Z, et al. Novel solute carrier family 26, member 3 mutation in a prenatal recurrent case with congenital chloride diarrhea. *J Obstet Gynaecol Res*. 2019;45(11):2280-3.
7. Tsukimori K, Nakanami N, Wake N, Masumoto K, Taguchi T. Prenatal sonographic findings and biochemical assessment of amniotic fluid in a fetus with congenital chloride diarrhea. *J Ultrasound Med*. 2007;26(12):1805-7.
8. Sajid A, Riaz S, Riaz A, Safdar B. Congenital chloride diarrhoea. *BMJ Case Rep*. 2019;12(12):e229012.
9. Colombani M, Ferry M, Toga C, Lacroze V, et al. Magnetic resonance imaging in the prenatal diagnosis of congenital diarrhea. *Ultrasound Obstet Gynecol*. 2010;35(5):560-5.

Case report

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310167

Prenatal diagnosis of congenital chloride diarrhea: A case report

Qianqian Cheng[a], *Chongquan Huang*[a]

ABSTRACT

Congenital chloride diarrhea (CCD) is a rare but significant genetic disorder characterized by severe electrolyte imbalances resulting from impaired intestinal chloride absorption. Affected children experience persistent diarrhea, dehydration, and malnutrition, complicating medical and developmental care. The enhancement of prenatal detection is crucial for improved patient management, early interventions, and informed genetic counseling. However, despite advancements in medicine, the complex nature and rarity of CCD make prenatal detection challenging. In this study, we report a fetal case where prenatal magnetic resonance imaging (MRI) effectively identified the distinctive characteristics of CCD, providing insights into the complexities of diagnosis and suggesting avenues for enhanced early detection strategies.

Keywords: *congenital chloride diarrhea; fetal magnetic resonance imaging; polyhydramnios; prenatal diagnosis;* SLC26A3 *gene*.

doi: http://dx.doi.org/10.5546/aap.2023-10167.eng

To cite: Cheng Q, Huang C. Prenatal diagnosis of congenital chloride diarrhea: A case report. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310167.

[a] *Department of Radiology, Wen Zhou Central Hospital, Zhe Jiang, Wen Zhou,China.*

Correspondence to *Qianqian Cheng: chengqq.zxhos@outlook.com*

Funding*: None.*

Conflict of interest*: None.*

Received*: 7-26-2023*
Accepted*: 10-24-2023*

This is an open access article under the Creative Commons Attribution–Noncommercial–Noderivatives license 4.0 International. Attribution - Allows reusers to copy and distribute the material in any medium or format so long as attribution is given to the creator. Noncommercial – Only noncommercial uses of the work are permitted. Noderivatives - No derivatives or adaptations of the work are permitted.

INTRODUCTION

Congenital chloride diarrhea (CCD) is a rare disorder originated from mutations in the *SLC26A3* gene with an autosomal recessive inheritance pattern.[1] Its prevalence is notably higher in Nordic nations like Finland and Sweden, attributed to distinct genetic mutations, with occurrences noted at 1 in 25,000 and 1 in 100,000 live births, respectively.[2] In contrast, higher occurrences in regions like Poland and the Middle East are linked to consanguineous marriages, while in China, CCD remains a rarity with limited documented cases.[3]

Symptoms of CCD often manifest during the neonatal phase, presenting a spectrum of severity and clinical features. Addressing complications such as dehydration, hypokalemia, and metabolic alkalosis –conditions intricately tied to the underlying chloride absorption impairment– require immediate diagnosis and treatment to safeguard the long-term health of affected individuals.[1]

Historically, ultrasound has been essentiall for prenatal diagnosis of CCD. However, the nuanced insights offered by the advent of fetal MRI have enriched our diagnostic approach, unveiling detailed anatomical and functional anomalies associated with CCD.[4]

In this report, we discuss the distinctive fetal MRI features observed in a specific CCD case, underscoring the technique's instrumental role in refining our comprehension and management of this rare condition. The emphasis is laid on the augmentation of prenatal diagnosis, pivotal for the early detection and optimized long-term health management of CCD patients.

CASE

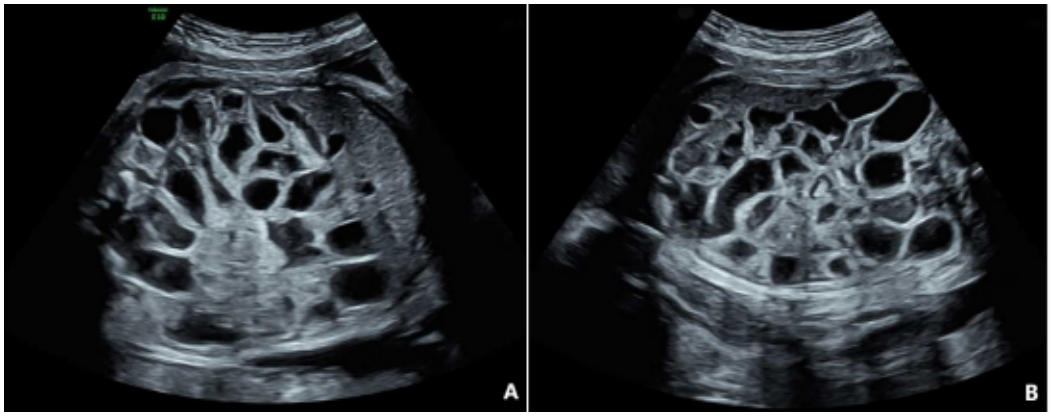
The patient was a 30-year-old woman (gravida 0, para 0), without family history of intestinal symptoms related to CCD. The pregnancy was screened for aneuploidy, yielding negative results. The first-trimester fetal ultrasound showed no abnormalities.

However, at 33 weeks of gestation, fetal bowel dilatations with refractory polyhydramnios were observed (*Figure 1*). The fetal intestine was diffusely dilated, displaying an inner diameter of approximately 10-14 mm. Real-time ultrasound revealed active intestinal peristalsis without significant ascites, and no morphological abnormalities were detected in the fetus and placenta.

Fetal MRI conducted at 34 weeks of gestation confirmed the presence of dilated bowel loops exhibiting heightened T2 signal intensity, indicative of fluid-filled intestines (*Figure 2a,b*). T1-weighted images showed hypointense fluid accumulation, primarily localized within the small intestine and extending into the colon (*Figure 2c*).

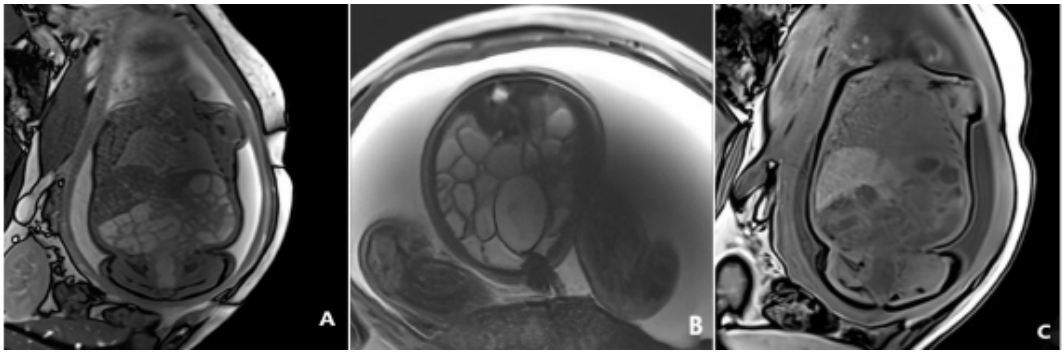
To elucidate the underlying cause, and following a review by the medical ethics committee and the acquisition of informed consent from the child's guardian, umbilical cord blood was collected for high-throughput sequencing. Genetic testing revealed a heterozygous variation in the *SLC26A3* gene, confirming the diagnosis of congenital chloride diarrhea type 1 (*Table 1*).

Figure 1. Ultrasound views at 33 weeks of gestation



Multiple extensive dilatations of the bowel loops with homogeneous hypoechoic content.

Figure 2. Fetal magnetic resonance imaging at 34 weeks of gestation



(A, B) T2-weighted image showing hypersignal of multiple bowel dilatation indicating fluid content. (C) T1-weighted image showing physiological hypersignal completely disappeared from the colon.

Table 1. Gene sequencing

Gene	Chromosomal coordinates (GRC7/hg19)	Nucleotide/amino acid change	Region	Zygosity	Variant classification	Disease/ phenotype	Inheritance mode	Variant origin
SLC26A3 (NM_000111.2)	Chr7:107434256	c.202C>T/ p.Arg68Trp	Exon 3	Heterozygous	VUS	Congenital chlorine diarrhea type 1	AR	Paternal
	Chr7:107418674	c.1460G>C/ p.Gly487Ala	Exon 13	Heterozygous	VUS			Maternal

VUS: variant of uncertain significance; AR: autosomal recessive.

DISCUSSION

The fundamental characteristic of congenital chloridorrhea is the Cl^-/HCO_3^- exchange impairment in the mucous membranes of the distal ileum and colon, leading to copious watery diarrhea, resulting in hypochloremia, hyponatremia, hypokalemia, metabolic alkalosis, and dehydration.[4] Without timely treatment, prolonged electrolyte imbalance and metabolic alkalosis can lead to a variety of complications, even endangering the life of the affected child. If this disease is diagnosed and treated promptly in the early stages after birth, most affected children will grow and develop normally.[5] Therefore, making an accurate diagnosis during the fetal period and treating it as soon as possible after birth helps to improve the prognosis.

Normal fetal gastrointestinal tract has certain characteristics on MRI, and different physiological signals can be observed at different gestational weeks.[6] In normal fetuses at 18 weeks of gestation, there is already a difference in physiological signal difference between amniotic fluid and intestinal meconium. At 20 weeks, high signals are detected on T1W and low signals on T2W, due to the early presence of meconium. Before 25 weeks of gestation, MRI signals in the small intestine are isosignal or low signal on the T1W sequence, as opposed to high signal in meconium in the colon; After 33 weeks, normal small intestine contents showed physiologically high signals on T2W and low signals on T1W, caused by intracellular fluid from the amniotic membrane. The contents of the distal small intestinal cavity generally show high signals on the T1W sequence, and the intensity is consistent with meconium.[7-9]

After ultrasound examination, this case showed polyhydramnios and intestinal dilation, making it difficult to make a definite diagnosis. A further MRI was performed using a Siemens Magnetom Skyra 3.0T MRI scanner using the sequence T2 weighted half-Fourier acquisition single-shot turbo-spin-echo (HASTE), T2 weighted true steady-state precession rapid imaging (TrueFISP), and T1 weighted multi-echo water and fat separation imaging (Dixon). The results showed that there was a fluid signal

in the dilated intestine, while the normal colonic meconium signal disappeared on T1W and the expected meconium was replaced by fluid in the colon, strongly indicating the presence of substantial watery diarrhea. The expansion of a high signal loop of the intestine to the end of the rectum, and the nature of the fluid accumulation in the intestine, made it reasonable to suspect CCD rather than lower intestinal obstruction or Hirschsprung's disease. Gene sequencing confirmed our hypothesis of CCD in this case. Therefore, MRI examination is very important for the early diagnosis of CCD. After 20 weeks of gestation, the disappearance of high signal on T1W in the fetal intestine is a relevant indicator.

In summary, congenital chloridorrhea is rare in clinical practice and easily misdiagnosed during the prenatal period. However, the fetal gastrointestinal tract has distinctive characteristics on MRI, and MRI examinations can aid in diagnosing fetal congenital chloridorrhea. ■

REFERENCES

1. Bhardwaj S, Pandit D, Sinha A, Hari P, et al. Congenital Chloride Diarrhea - Novel Mutation in SLC26A3 Gene. *Indian J Pediatr*. 2016;83(8):859-61.
2. Terrin G, Tomaiuolo R, Passariello A, Else A, et al. Congenital diarrheal disorders: an updated diagnostic approach. *Int J Mol Sci*. 2012;13(4):4168-85.
3. Li Y, Jin Y, Liu Y, Kang L, et al. Case report of congenital chloride diarrhea and literature review. *Chin J Appl Clin Pediatr*. 2019;34(11):862-5.
4. Kawamura T, Nishiguchi T. Congenital Chloride Diarrhea (CCD): a case report of CCD suspected by prenatal ultrasonography and magnetic resonance imaging (MRI). *Am J Case Rep*. 2017;18:707-13.
5. Hirakawa M, Hidaka N, Kido S, Fukushima K, Kato K. Congenital Chloride Diarrhea: Accurate Prenatal Diagnosis Using Color Doppler Sonography to Show the Passage of Diarrhea. *J Ultrasound Med*. 2015;34(11):2113-5.
6. Wu S, Han J, Zhang Y, Ye Z, et al. Novel solute carrier family 26, member 3 mutation in a prenatal recurrent case with congenital chloride diarrhea. *J Obstet Gynaecol Res*. 2019;45(11):2280-3.
7. Tsukimori K, Nakanami N, Wake N, Masumoto K, Taguchi T. Prenatal sonographic findings and biochemical assessment of amniotic fluid in a fetus with congenital chloride diarrhea. *J Ultrasound Med*. 2007;26(12):1805-7.
8. Sajid A, Riaz S, Riaz A, Safdar B. Congenital chloride diarrhoea. *BMJ Case Rep*. 2019;12(12):e229012.
9. Colombani M, Ferry M, Toga C, Lacroze V, et al. Magnetic resonance imaging in the prenatal diagnosis of congenital diarrhea. *Ultrasound Obstet Gynecol*. 2010;35(5):560-5.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310235B

Resolución del caso presentado en el número anterior

Teratoma mediastínico: la importancia de la sospecha y el diagnóstico precoz

Mediastinal teratoma: the importance of suspicion and early diagnosis

Federico Prado[a], Julieta Bogado[a], Eliana F. Laurino[a], María B. Leone[a], Marta Lavergne[a]

RESOLUCIÓN DEL CASO

Niño de 10 años de edad consultó por dolor torácico. Dicho dolor presentaba un año y medio de evolución, se localizaba en hemitórax inferior, de aparición esporádica, evolucionó con aumento de la intensidad y persistencia. Era punzante, no irradiaba y cedía espontáneamente. Presentaba examen físico normal.

En la radiografía de tórax anteroposterior, se constató un aumento de la silueta cardíaca (*Figura 1A*). La ecografía transtorácica evidenció una imagen redondeada en íntimo contacto con el corazón, de límites definidos, heterogénea a expensas de múltiples septos que delimitaban cavidades anecoicas e hipoecoicas (*Figura 1B*). La tomografía computada de tórax (TC) con contraste intravenoso mostró una formación de 81 mm × 81 mm × 75 mm a nivel del espacio prevascular derecho, que ocupaba la porción anterior del hemitórax homolateral, redondeada, de límites bien definidos, multiloculada, con calcificaciones predominantemente periféricas, con efecto de masa que comprimía parcialmente la vena cava superior y aurícula derecha, y colapsaba el parénquima pulmonar adyacente (*Figura 1C*). Los marcadores tumorales, subunidad beta de gonadotropina coriónica humana (b-HCG) y alfafetoproteína (AFP), resultaron negativos.

Por diagnóstico presuntivo de teratoma, se realizó exéresis completa por toracoscopia y se obtuvo una masa polilobulada (90 mm × 75 mm × 60 mm) (*Figura 1D*). La anatomía patológica confirmó teratoma maduro quístico (*Figura 1E*).

Siete meses después, el niño permanece asintomático y sin evidencia de recurrencia.

TERATOMA MEDIASTÍNICO

En la edad pediátrica, las masas mediastinales se originan en un 35 % a un 55 % de los casos en el mediastino anterior y solo un 3 % a un 8 % en el posterior.[1,2] Los diagnósticos diferenciales de masas mediastínicas anteriores incluyen linfomas, teratomas y timomas, en orden respectivo de frecuencia.[1]

Los teratomas son neoplasias derivadas de células germinales que contienen tejido de origen ectodérmico, endodérmico y mesodérmico.[1-3] Se localizan en la línea media, el 40-80 % de los casos en la región sacrococcígea, el 10 % en el mediastino, seguido por gónadas, retroperitoneo, región cérvico-facial e intracraneana.[2]

Cómo citar: Prado F, Bogado J, Laurino EF, Leone MB, Lavergne M. Teratoma mediastínico: la importancia de la sospecha y el diagnóstico precoz. *Arch Argent Pediatr* 2024;122(3):e202310235B.

[a] *Hospital General de Niños Pedro de Elizalde, Ciudad Autónoma de Buenos Aires, Argentina.*

***Correspondencia para** Federico Prado: drpradofederico@gmail.com*

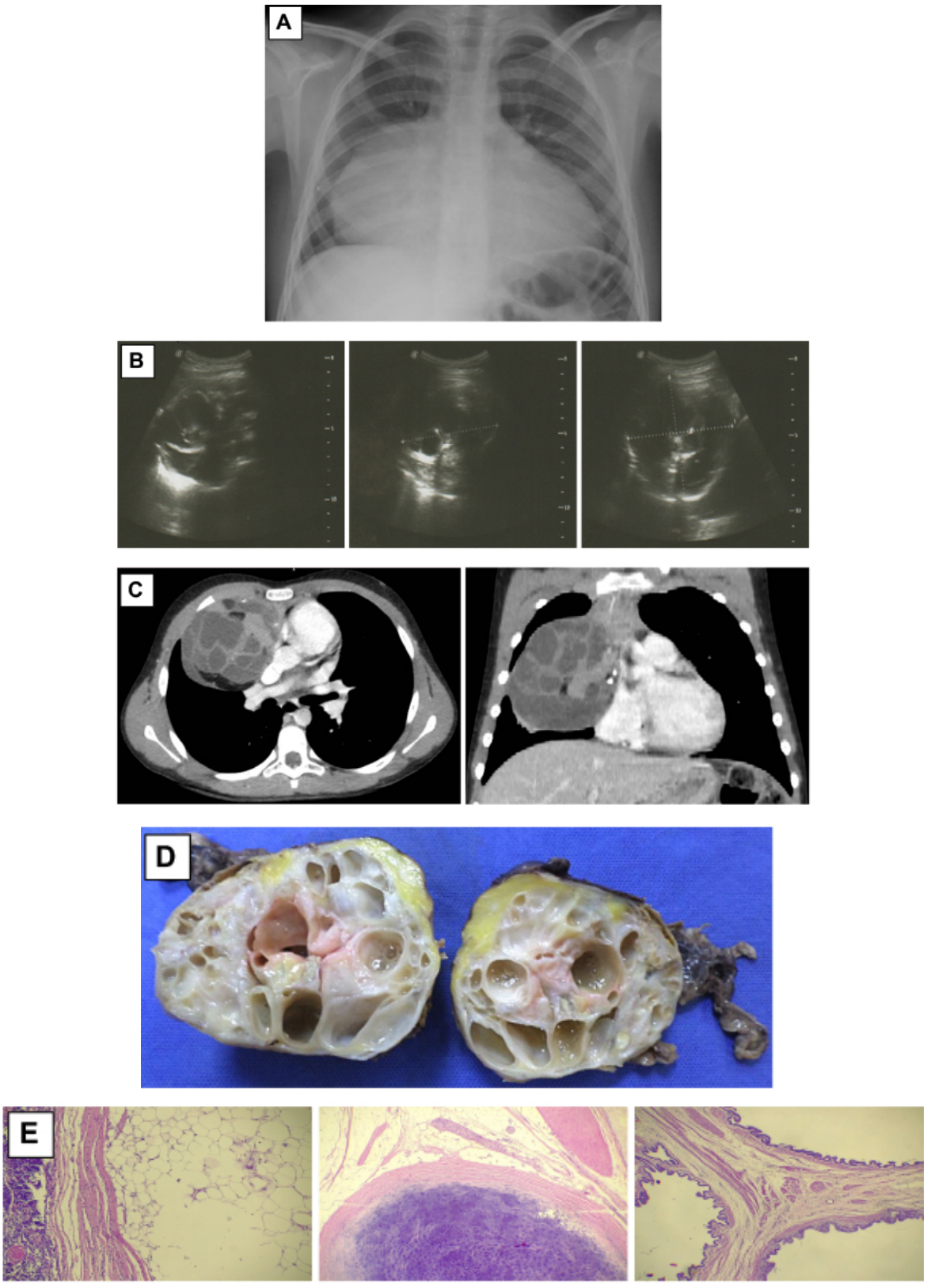
***Financiamiento**: Ninguno.*

***Conflicto de intereses:** Ninguno que declarar.*

***Recibido**: 28-9-2023*
***Aceptado**: 24-11-2023*

Esta obra está bajo una licencia de Creative Commons Atribución-No Comercial-Sin Obra Derivada 4.0 Internacional.
Atribución — Permite copiar, distribuir y comunicar públicamente la obra. A cambio se debe reconocer y citar al autor original.
No Comercial — Esta obra no puede ser utilizada con finalidades comerciales, a menos que se obtenga el permiso.
Sin Obra Derivada — Si remezcla, transforma o crea a partir del material, no puede difundir el material modificado.

Figura 1. Estudios complementarios y anatomía patológica



A. *Radiografía de tórax anteroposterior.* ***B.*** *Ecografía transtorácica.* ***C.*** *Tomografía computada con contraste corte axial (izquierda) y coronal (derecha).****D****. Macroscopia del teratoma mediastinal al corte.* ***E****. Histopatología.*

Su incidencia es del 8 % al 16 %; son más frecuentes en adultos jóvenes y raros en pediatría (proporción 5:1). Constituyen el 3 % de las neoplasias malignas en pediatría.[2,3] Afectan a ambos sexos por igual.[3]

Los teratomas se clasifican en maduros, inmaduros, mixtos o con fenómeno de malignización, según las características histológicas y el grado de diferenciación.[1,2] En pediatría, el 90 % son maduros, carecen de componentes premalignos o malignos, no producen marcadores tumorales y se diferencian hacia el ectodermo, pudiendo observarse zonas con piel, pelos, glándulas sebáceas, tejido dentario y/u óseo;[1,2] se consideran benignos. Solo el 1 % son inmaduros, constituidos por tejido quístico y de parte blanda, sin diferenciación específica a un tejido ectodérmico. Presentan mayor recurrencia local y son potencialmente malignos.[2,3]

El 50 % al 60 % de los casos se detectan incidentalmente por radiografía de tórax, encontrándose el paciente asintomático.[1,3] Las manifestaciones clínicas dependen del tamaño y del efecto de masa, que se da por compresión de estructuras cardiomediastinales (dolor torácico, tos y/o disnea).[1-3] En los más voluminosos, puede haber síndrome de vena cava superior, disfagia, hemoptisis, taponamiento cardíaco, neumotórax o infecciones respiratorias recurrentes.[1,3] El diagnóstico es tardío en los casos asintomáticos u oligosintomáticos, como nuestro paciente.

La TC de tórax con y sin contraste es el estudio de imagen de elección para el diagnóstico de masas mediastinales. Los teratomas presentan características típicas, como las halladas en nuestro paciente: una masa redondeada o lobulada, bien delimitada, heterogénea, con componente sólido, quístico o mixto, que incluye variedad de densidades que sugieren el diagnóstico (partes blandas, 100 %; densidad líquida, 88 %; grasa, 76 % y/o calcificaciones, 53 %).[1,3]

La b-HCG y la AFP son marcadores tumorales de malignidad y resultan negativos en los teratomas maduros.[2] En caso de ser positivos al inicio, son indicio de un componente inmaduro o potencialmente maligno. Permiten detectar actividad tumoral en el seguimiento posterior a la cirugía.[2]

El tratamiento del teratoma es la resección quirúrgica completa con abordaje mínimamente invasivo o convencional, sin necesidad de quimioterapia.[2,3] La toracoscopia mostró resultados favorables y se reserva la toracotomía para grandes masas en íntima relación anatómica con estructuras vitales del mediastino.[1]

El pronóstico, principalmente por recidiva, depende de la edad del paciente, la localización anatómica, el nivel de AFP, la integridad de la resección quirúrgica y la cantidad de elementos inmaduros.[1-3] La presentación en un menor de un año de edad, niveles elevados de AFP al diagnóstico, la resección quirúrgica incompleta y/o la presencia de histología inmadura se consideran factores de peor pronóstico.[2]

En el caso presentado, el pronóstico a largo plazo es excelente por ser un teratoma mediastínico maduro, con exéresis completa y marcadores tumorales negativos al diagnóstico.

Se destaca la importancia de la sospecha y el diagnóstico precoz en esta infrecuente patología para realizar un tratamiento efectivo. ■

REFERENCIAS

1. Barbosa-Sequeira J, Rui Correia M, Carvalho C, Paupério G, Carvalho F. Mediastinal teratoma in children: case report. *Port J Card Thorac Vasc Surg*. 2022;29(3):71-4.
2. Lozano C, Molina M. Teratoma tímico productor de b-HCG: una causa infrecuente de pubertad precoz periférica. *Rev Chil Pediatr.* 2018;89(3):373-9.
3. Hernández Dinza PA, Pérez Medina Y, Carranza Araujo MA. Adolescente con teratoma mediastinal y compromiso pericárdico. *Rev Inf Cient.* 2019;98(2):256-62.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310300

Especificación formativa de la escala de evaluación de problemas de conducta alimentaria

Formative specification of the Behavioral Pediatrics Feeding Assessment Scale

Sr. Editor

Hemos leído con gran interés el artículo de Le Roy Olivos et al.[1]: *"Impacto de la pandemia por COVID-19 en la conducta alimentaria de niñas, niños y adolescentes con trastorno del espectro autista".* En esa investigación los participantes respondieron a un cuestionario que evaluaba los problemas de conducta alimentaria (BPFAS por sus siglas en inglés), para comparar las puntuaciones antes y después del primer año de la pandemia de COVID-19. Para ello se tradujeron los 35 ítems del instrumento en inglés, medidos en una escala de frecuencia tipo Likert de 1 a 5 (desde nunca a siempre) y ponderados por un factor binario para indicar si es o no un problema.

Sin embargo, hay algunos aspectos del análisis de esta escala que merecen ser discutidos ya que condicionan los resultados que muestran.[1] Así, la escala BPFAS es una escala formativa en lugar de reflectiva, es decir, son los ítems los que afectan causalmente al constructo que se quiere medir y no a la inversa.[2] Si esa escala fuera reflectiva, con un solo ítem se podría haber estimado el valor del constructo de interés (problemas de conducta alimentaria), y los ítems serían intercambiables (daría igual escoger entre varios porque todos de forma individual reflejarían el constructo). Indudablemente, la intención de [1] al implementar la escala no es esa, ya que caracterizan a los participantes en función del puntaje de frecuencia total (sumatoria de los 35 ítems), y también en su división sobre conductas observadas por los cuidadores (25 ítems) y sentimientos o actitudes de estos. Es decir, un mayor valor en la escala significa un mayor valor de problemas de conducta alimentaria, lo que es una característica de instrumentos de medida con indicadores formativos. Un vistazo simple a la redacción de los ítems evidencia que se están midiendo diversas variables no intercambiables y que abarcan una diversidad de comportamientos y actitudes.

Las consecuencias de distinguir bien entre una escala formativa y reflectiva son importantes. En primer lugar, el alfa de Cronbach ya no es una medida de fiabilidad aplicable a escalas formativas.[3] En segundo, lugar tampoco es adecuado emplear un análisis factorial.[2] Con relación a este hecho, los autores indican que hay varios "dominios" dentro del instrumento BPFAS, lo que sería una asunción implícita de multidimensionalidad. Precisamente esa diversidad de facetas o dimensiones es una característica de las escalas formativas, en las que usualmente un diverso rango de variables diferente forma causalmente el constructo que se quiere medir.

De este modo, no se debe usar el alfa de Cronbach como criterio para eliminar ningún ítem de la escala (los autores eliminan el ítem 25), porque precisamente las escalas formativas son escalas en las que los ítems no tienen por qué correlacionar fuertemente unos con otros.[2] El criterio para seleccionar los ítems de una escala formativa tiene que estar basado en cubrir el rango de definición del constructo que se quiere medir, de tal manera que el significado del constructo dependa de los ítems seleccionados.

Ahora bien, si aun así se pretende estudiar la estructura correlacional como hacen los autores, el hecho de que se "evidencie" unidimensionalidad en este tipo de escalas formativas puede ser una llamada de atención sobre una mala selección de ítems (posibilidad de ítems redundantes), o sobre un sesgo de método común. Por ello, sugerimos a [1] a que revise críticamente el instrumento de medida empleado en base a la distinción formativo-reflectiva,[2] para ver cómo ello condicionaría los resultados y la interpretación final.

José A. Martínez,
Laura Martínez
Universidad Politécnica de Cartagena. España.

Correspondencia: José Antonio Martínez García.
josean.martinez@upct.es

REFERENCIAS

1. Le Roy Olivos C, Núñez Farías A, López Espejo M, Coelho Modeiros E, et al. Impacto de la pandemia por COVID-19 en la conducta alimentaria de niñas, niños y adolescentes con trastorno del espectro autista. *Arch Argent Pediatr*. 2023;121(6):e202202982.
2. Riebel J, Lichtenberg H. Formative Modelling in Psychology and Educational Science. Springer Wiesbaden; 2023. [Consulta: 8 de enero de 2023]. Disponible en: https://doi.org/10.1007/978-3-658-39404-2_1
3. Bollen KA, Lennox R. Conventional wisdom on measurement: A structural equation perspective. *Psychol Bull*. 1991;110(2):305-14.

EN RESPUESTA

Propiedades psicométricas del instrumento de evaluación de problemas de conducta alimentaria BPFAS

Behavioral Problems Feeding Assessment Scale

Sr. Editor de la Revista Archivos Argentinos de Pediatría:

Hemos leído la carta de Martínez y Martínez en relación a nuestro artículo titulado "Impacto de la pandemia por COVID-19 en la conducta alimentaria de niñas, niños y adolescentes con trastorno del espectro autista".[1] A continuación damos respuesta a sus comentarios.

Martínez y Martínez, mencionan aspectos vinculados a la pertinencia del uso del instrumento BPFAS (*Behavioral Problems Feeding Assessment Scale*)[2] para evaluar el impacto de la conducta alimentaria desde la perspectiva de los padres/cuidadores. BPFAS posee 35 ítems, 25 corresponden a conductas alimentarias de niños, niñas y adolescentes (NNA) observadas por sus cuidadores y 10 sobre sentimientos o actitudes de los cuidadores. Para cada ítem se pregunta sobre frecuencia (escala Likert: 1–5, desde nunca a siempre) y si es un problema en escala dicotómica (Sí = 1/No = 0). BPFAS se ha utilizado en diferentes patologías siendo una de ellas trastorno del espectro autista (TEA) y se han creado puntos de corte para definir si un NNA posee dificultades alimentarias (DA).[3,4] Utilizamos estos puntos para compararnos con otros estudios; para esto se requería no alterar el instrumento, el número de ítems ni la escala utilizada.

Se evaluaron propiedades psicométricas del instrumento en base a la escala Likert, donde obtuvimos a través del análisis factorial, la validez de constructo, encontrando que el instrumento BPFAS correspondía a un instrumento unidimensional, en contraste a lo comunicado por Allen y col., en que agruparon ítems en "dominios" que nosotros no identificamos en el patrón de respuesta de los padres/cuidadores encuestados.[5] Decidimos mantener el análisis de estos dominios, aunque no coincidan con factores basados en covarianzas de ítems, para comparar nuestros resultados.

En relación al comentario de que existe una mezcla entre las percepciones de los cuidadores respecto a conductas observadas versus otros ítems que evalúan sus sentimientos o actitudes, no consideramos que afecte la interpretación de los resultados ya que los puntajes obtenidos reflejan, a través del uso de la escala Likert, la frecuencia de dicha conducta, sentimiento o actitud. En el artículo se expone además cómo se comportó cada ítem de BPFAS, lo cual se expresó con el *ranking* de prioridad, lo cual es un aporte en la descripción de DA en TEA.[1]

Respecto al análisis por separado de los padres y los niños/adolescentes, nosotros respetamos los puntos de corte propuestos en estudios previos, para que fueran comparables, que es el mismo motivo por el cual, el equipo de investigación decidió mantener todos los ítems del instrumento original y no es que se eliminara el ítem 25 de manera arbitraria, sino que como no hubo pacientes con sonda nasoenteral, el programa STATA, utilizado para los análisis estadísticos, reportó que el ítem se mantuvo con una respuesta constante, por lo que lo excluyó del análisis de consistencia interna. Para responder a esta observación, volvimos a calcular la consistencia interna y se mantiene el resultado descrito en la publicación original.[1]

Nuestro esfuerzo de incluir un componente de análisis de fuentes de validez y confiabilidad del instrumento, obedece a la necesidad de poder analizar de manera objetiva los resultados de la BPFAS para permitir la comparación de nuestros resultados con las publicaciones ya mencionadas en la discusión, así como futuras publicaciones que utilicen BPFAS.

Comprendemos los argumentos expuestos por Martínez y Martínez, respecto a la pertinencia del análisis factorial y consistencia interna en instrumentos de carácter formativo versus reflectivo, sin embargo, de nuestro análisis se desprende que el instrumento es unidimensional y altamente confiable en sus resultados (consistencia interna), basados en los coeficientes alfa de Cronbach, por lo que consideramos que las fuentes de validez y confiabilidad del BPFAS son relevantes al considerar los resultados expuestos en nuestro estudio.[1]

Catalina Le Roy[a,b], *Arnoldo Riquelme*[c]

[a.] Departamento de Pediatría y Cirugía Infantil, Campus Centro, Escuela de Medicina, Universidad de Chile, Santiago, Chile.
[b.] Servicio de Pediatría Hospital Clínico San Borja Arriarán, Santiago, Chile.
[c.] Departmento de Gastroenterología, Escuela de Medicina. Pontificia Universidad Católica de Chile, Santiago, Chile.

REFERENCIAS

1. Le Roy Olivos C, Núñez Farías A, López Espejo M, Coelho Modeiros E, et al. Impacto de la pandemia por COVID-19 en la conducta alimentaria de niñas, niños y adolescentes con trastorno del espectro autista. *Arch Argent Pediatr.* 2023;121(6):e202202982.
2. Crist W, Napier-Phillips A. Mealtime behaviors of young children: A comparison of normative and clinical data. *J Dev Behav Pediatr.* 2001;22(5):279-86.
3. Evans M. Administration of the Behavioral Pediatrics Feeding Assessment Scale (BPFAS) to Parents of High-Risk Infants: How to Best Identify Those at Risk for Feeding Difficulties. *Thesis*. Georgia: State University, 2012. [Consulta: 8 de enero de 2023]. Disponible en: https://scholarworks.gsu.edu/cgi/viewcontent.cgi?article=1034&context=nutrition_theses
4. Dovey TM, Jordan C, Aldridge VK, Martin CI. Screening for feeding disorders. Creating critical values using the behavioural pediatrics feeding assessment scale. *Appetite*. 2013;69:108-13.
5. Allen SL, Smith IM, Duku E, Vaillancourt T, et al. Behavioral pediatrics feeding assessment scale in young children with autism spectrum disorder: Psychometrics and associations with child and parent variables. *J Pediatr Psychol.* 2014;40(6):581-90.

Pubertad precoz en pandemia por COVID-19. ¿Ha terminado otra pandemia?

Sr. Editor

El aumento del número de consulta a los Servicios de Endocrinología Pediátrica relacionados con adelanto del tiempo de desarrollo puberal, ya sea por telarca precoz, pubertad precoz o pubertad temprana rápidamente evolutiva, en los meses posteriores a la instalación de la pandemia por COVID-19 fue reportada por autores de diferentes países alrededor del mundo.[1,2]

En un número previo de Archivos Argentinos de Pediatría[3] (*Benedetto M et al. Arch Argent Pediatr. 2023 Jun 1;121(3):e202202849. doi: 10.5546/aap.2022-02849*) comunicamos que la incidencia de nuevos casos de pubertad precoz central idiopática (PPCI) en niñas que requirieron tratamiento farmacológico en 2021 fue de 15,3 casos por cada 1000 niñas entre 6 y 9 años, 3,8 veces más que en el año precedente a la pandemia. Otros autores reportaron aumentos similares aunque basaron su cálculo en el número absoluto de consultas y no en base a población de niñas susceptibles.[1]

Muchos de estos reportes compararon las características antropométricas, clínicas y hormonales de las niñas con PPCI con niñas con similar diagnóstico realizado en la misma institución en los años precedentes. Fueron pocas, y en algunos casos contradictorias, las diferencias entre las cohortes, pre e intra-pandemia, descritas en los diferentes estudios.

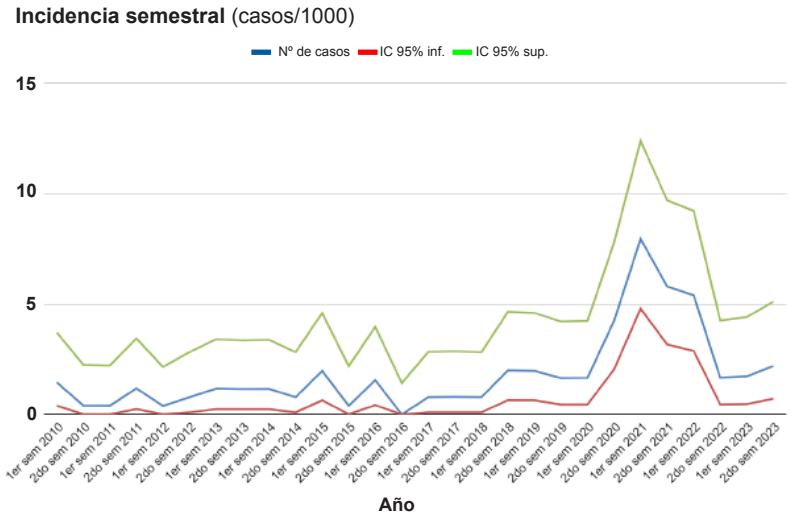
Las hipótesis fisiopatológicas de este fenómeno son variadas y en muchos casos no comprobadas o meramente especulativas. Se han considerado, entre otras explicaciones, acción directa del virus SARS-CoV-2 en neuronas hipotalámicas, cambios en la composición corporal y/o del índice de masa corporal, influencia del mayor uso de dispositivos electrónicos, cambios en los patrones de sueño y variaciones en los niveles de melatonina, aumento del estrés físico y emocional de los niños con cambios en neurotransmisores relacionados, disminución de actividad física y al aire libre o incluso aumento del alerta y consulta por parte de los padres.[2]

En los meses que siguieron a la liberación de las restricciones impuestas por el aislamiento social, preventivo y obligatorio, los Servicios de Endocrinología Pediátrica registraron, al igual que otras especialidades, un aumento del número de consultas relacionadas con demanda no satisfecha y pendiente. Sin embargo, la incidencia de casos de PPCI con requerimiento de tratamiento fue en disminución hasta alcanzar niveles similares a los que teníamos en el segundo semestre de 2019 (*Figura 1*).

Este comportamiento en la incidencia de PPCI sugiere fuertemente que los cambios en los hábitos y en el ambiente en que los niños y niñas se encontraban inmersos durante el período de aislamiento han jugado un papel preponderante en el gatillo de la activación temprana del eje gonadotrófico. El análisis futuro de datos epidemiológicos probablemente acompañará las investigaciones básicas que permitan profundizar en las bases biológicas del desarrollo puberal.

Guillermo Alonso,
María Benedetto,
Alfredo Eymann,
Sergio Terrasa
Hospital Italiano de Buenos Aires

Figura 1. Incidencia semestral de casos de pubertad precoz central idiopática con requerimiento de tratamiento con análogo de LHRH por cada 1000 niñas entre 6 y 9 años



REFERENCIAS

1. Stagi S, De Masi S, Bencini E, Losi S, et al. Increased incidence of precocious and accelerated puberty in females during and after the Italian lockdown for the coronavirus 2019 (COVID-19) pandemic. *Ital J Pediatr*. 2020;46(1):165.
2. Hoskyns RB, Howard, SR. Effects of the COVID-19 pandemic on the incidence of central precocious puberty; a narrative review. *J Pediatr Endocrinol Metab*. 2023. doi.org/10.1515/jpem-2023-0507
3. Benedetto M, Riveros V, Eymann A, Terrasa S, Alonso G. Análisis de la incidencia de pubertad precoz central tratada con análogos de hormona liberadora de gonadotrofina. Impacto de la pandemia por COVID-19. *Arch Argent Pediatr* 2023;121(3):e202202849.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202310278

AAM J HUM BIOL. 2023 OCT;35(10):E23938.

Mapeo de patrones espaciales de morbilidad por bronquiolitis relacionados con estimadores socioeconómicos: un enfoque de epidemiología espacial para identificar disparidades en salud en Puerto Madryn, Argentina

Mapping spatial morbidity patterns for bronchiolitis related to socioeconomic estimators: A spatial epidemiology approach to identify health disparities in Puerto Madryn, Argentina

Pazos BA, Morales AL, Ramallo V, González-José R, et al.

RESUMEN

Objetivos: Describir la frecuencia de hospitalizaciones por bronquiolitis de lactantes menores de 1 año, en Puerto Madryn, Argentina, y estudiar la distribución espacial de los casos en la ciudad en relación con indicadores socioeconómicos. Visualizar y comprender mejor los procesos subyacentes detrás de la manifestación local de la enfermedad mediante la creación de un mapa de vulnerabilidad de la ciudad.

Métodos: Se realizó un estudio transversal de todos los pacientes dados de alta por bronquiolitis del hospital público local en 2017, considerando la duración de la internación, la tasa de reingreso, la edad del paciente, el domicilio y los indicadores socioeconómicos (hacinamiento domiciliario). Para comprender la distribución espacial local de la enfermedad y su relación con el hacinamiento, se utilizó el sistema de información geográfica y los índices de autocorrelación espacial global y local de Moran.

Resultados: La distribución espacial de los casos de bronquiolitis no fue aleatoria, sino significativamente agrupada. De los 120 niños hospitalizados, 100 (83,33 %) viven en zonas identificadas con al menos una necesidad básica insatisfecha (NBI). Se encontró una relación positiva y estadísticamente significativa entre la frecuencia de casos y el porcentaje de viviendas hacinadas por radio censal.

Conclusiones: Se encontró una asociación clara entre la bronquiolitis y los vecindarios con NBI, y es probable que el hacinamiento sea un factor explicativo particularmente importante en esta asociación. Combinando instrumentos del sistema de información geográfica, estadísticas espaciales, datos epidemiológicos georreferenciados e información a nivel poblacional, se pueden crear mapas de vulnerabilidad para facilitar la visualización de áreas prioritarias para el desarrollo y la implementación de intervenciones de salud más efectivas. La incorporación de la perspectiva espacial y sindémica en los estudios de salud es una contribución importante a la comprensión de los procesos locales de salud-enfermedad.

COMENTARIO

Las infecciones respiratorias agudas bajas son una importante causa de enfermedad y hospitalización en niños, especialmente en poblaciones con limitados recursos socieconómicos.[1]

El artículo aborda un tema relevante como es el estudio de la distribución espacial de pacientes hospitalizados por bronquiolitis. Los autores utilizan un enfoque de epidemiología espacial para describir patrones de hospitalización por bronquiolitis, habiendo incluido a todos los niños menores de un año internados por este motivo en un hospital público de Puerto Madryn, Chubut, durante el año 2017. Analizan la distribución espacial en relación con indicadores socioeconómicos mediante el uso de sistemas de información geográfica y los índices de autocorrelación espacial.

La epidemiología espacial se enfoca en el estudio de la distribución geográfica de las enfermedades y posibles factores de riesgo asociados. Su comprensión tiene impacto directo en la mejora de sistemas de vigilancia y la gestión de estrategias de prevención y control de enfermedades.[2]

Los resultados presentados muestran que la distribución espacial de los casos tiene una agregación significativa en ciertas áreas de la ciudad, identificadas con al menos una necesidad básica insatisfecha; destacándose una asociación significativa entre la frecuencia de casos y el porcentaje de hacinamiento por radio censal. Los autores sugieren que estos resultados indican que probablemente la superpoblación en los hogares sería un factor explicativo de la prevalencia de la enfermedad en ciertas áreas.

El bajo nivel socioeconómico es un factor de riesgo conocido en enfermedades respiratorias. Sin embargo, debemos ser cautelosos al considerar modelos explicativos, especialmente

en enfermedades respiratorias asociadas a fenómenos multifactoriales. La pandemia por COVID-19 proporcionó evidencia de esto, observándose una circulación casi nula del virus sincicial respiratorio, incluso en áreas de bajos recursos y alto nivel de hacinamiento, durante el aislamiento social preventivo obligatorio.[3] Estos eventos subrayan la complejidad de los factores que influyen en la propagación de enfermedades respiratorias, y resaltan la importancia de investigaciones como la presente para ayudar a comprender las dinámicas específicas del ámbito local.

Fernando Torres
Comité de Docencia e Investigación
Hospital General de Niños Pedro de Elizalde

REFERENCIAS

1. Okomo U, Idoko OT, Kampmann B. The burden of viral respiratory infections in young children in low-resource settings. *Lancet Glob Health.* 2020;8(4):e454-5.
2. Lin CH, Wen TH. How Spatial Epidemiology Helps Understand Infectious Human Disease Transmission. *Trop Med Infect Dis*. 2022;7(8):164.
3. Vittucci AC, Piccioni L, Coltella L, Ciarlitto C, et al. The Disappearance of Respiratory Viruses in Children during the COVID-19 Pandemic. *Int J Environ Res Public Health.* 2021;18(18):9550.

PEDIATR PULMONOL 2023 DEC 13.
DOI: 10.1002/PPUL.26793.

La hospitalización por bronquiolitis en la infancia se asocia con una falta de homogeneidad de la ventilación en la edad preescolar

Bronchiolitis hospital admission in infancy is associated with later preschool ventilation inhomogeneity

Sena CRDS, Morten M, Collison AM, Shaar A, et al.

RESUMEN

Introducción: Los episodios de bronquiolitis en la infancia debidos a rinovirus (RV) confieren un mayor riesgo de desarrollar asma en la niñez, con deterioro asociado de la función pulmonar. Nuestro objetivo fue investigar la asociación entre el tipo de virus causante de hospitalización por bronquiolitis y las heterogeneidades de la ventilación pulmonar en la edad preescolar.

Métodos: Los bebés hospitalizados con un diagnóstico clínico de bronquiolitis moderada (ingreso en sala) o grave (ingreso en unidad de cuidados intensivos pediátricos) fueron seguidos prospectivamente en la edad preescolar para evaluar el lavado múltiple del aliento (MBW) con nitrógeno (N_2). El índice de depuración pulmonar (LCI), la capacidad residual funcional (FRC) y el análisis de concentración en la pendiente de fase III normalizada (SnIII) se informaron en ≥2 ensayos técnicamente aceptables. Las diferencias entre los grupos se calcularon mediante regresión logística y lineal y se ajustaron según los factores de confusión (sexo, edad al ingreso por bronquiolitis, altura en el momento de la visita, asma materna y asma diagnosticada por un médico, incluidos los términos de interacción entre los tres últimos). Se incluyó un término de interacción en un modelo de regresión para probar la interacción entre la gravedad de la bronquiolitis del VD y los parámetros del MBW en la edad preescolar.

Resultados: Ciento treinta y nueve sujetos asistieron al seguimiento preescolar, de los cuales 84 de 103 (82 %) que realizaron MBW tuvieron datos técnicamente aceptables. Los niños con antecedentes de bronquiolitis por RV (n = 39) tuvieron un aumento del LCI (coeficiente β ajustado [aβ] = 0,33, intervalo de confianza [IC] del 95 %: 0,02-0,65, p = 0,040) y falta de homogeneidad en la ventilación conductiva de las vías respiratorias [Scond] (aβ = 0,016, IC 0,004-0,028, p = 0,011) en comparación con aquellos con antecedentes de bronquiolitis RV negativa (n = 45). Además, encontramos una interacción estadística entre la bronquiolitis por RV y la gravedad de la bronquiolitis fortaleciendo la asociación con el LCI (aβ = 0,93, IC 0,20-1,58, p = 0,006).

Conclusión: Los niños con antecedentes de ingreso hospitalario por bronquiolitis debida a RV en la infancia podrían tener un mayor riesgo de sufrir faltas de homogeneidad en la ventilación pulmonar en la edad preescolar, originadas en las vías aéreas periféricas de conducción.

COMENTARIO

La bronquiolitis, según la definición de la Sociedad Argentina de Pediatría, se caracteriza como el primer episodio de infección respiratoria aguda baja en menores de 2 años, de origen viral, manifestado clínicamente por la obstrucción de las vías aéreas periféricas, evidenciada a través

de síntomas como tos, rales y/o sibilancias.[1] La etiología viral más comúnmente asociada incluye el virus respiratorio sincicial (VRS) y el rinovirus humano (RVH). El VRS tiende a presentarse estacionalmente, principalmente en los meses de invierno, y puede ser más grave en lactantes pequeños, mientras que la bronquiolitis por RVH se observa con mayor frecuencia en niños mayores de 6 meses y puede ocurrir durante todo el año.

Diversos estudios sugieren que niños hospitalizados por bronquiolitis y con antecedentes familiares de asma o atopía, presentan un riesgo aumentado de desarrollar asma durante la edad escolar. Este riesgo parece ser más destacado en casos de infección por el RVH en comparación con otros virus respiratorios.

La evaluación de la función pulmonar desempeña un papel crucial en la comprensión del compromiso de las vías respiratorias. Las técnicas clásicas como la espirometría y la medición de volúmenes pulmonares mediante pletismografía corporal son fundamentales en este proceso. La incorporación de nuevos métodos ha mejorado la sensibilidad en la medición de la función pulmonar y ha permitido su aplicación en edades más tempranas. Entre estos métodos se encuentra la oscilometría de impulso (IOS), que facilita la evaluación diferenciada de la función pulmonar en las vías aéreas central y periférica, siendo especialmente útil en preescolares para el diagnóstico de asma.[2] La técnica del lavado ventilatorio múltiple (MBW) emplea un gas trazador inerte para determinar el índice de aclaramiento pulmonar (LCI), ofreciendo la capacidad de detectar anomalías en la vía aérea periférica en niños pequeños sin requerir su colaboración, lo que resulta valioso en la identificación temprana de compromiso pulmonar en patologías como la fibrosis quística.[3] Además, el desarrollo de técnicas de cuantificación de la función pulmonar mediante tomografía computada, resonancia nuclear magnética y técnicas de medicina nuclear ha ampliado el horizonte de las imágenes en función pulmonar.

En su estudio, Sena y colaboradores[4] exploraron la asociación entre la bronquiolitis por RVH que resultó en hospitalización, el posterior desarrollo de asma en la edad preescolar y la inhomogeneidad de la ventilación pulmonar medida mediante la técnica de MBW. Aunque este estudio inicial proporciona indicios sobre sus posibles vínculos, aún queda por determinar si esta inhomogeneidad es un factor causal de la progresión de la enfermedad o una consecuencia de la misma. A pesar de ser un estudio preliminar, la técnica de MBW podría emerger como una herramienta prometedora para investigar los mecanismos implicados en la alteración del crecimiento pulmonar, la modificación de la función y la inhomogeneidad de la ventilación alveolar, aunque la relevancia clínica de estos hallazgos aún requiere más investigación.

Santiago Manuel Vidaurreta
Jefe de Departamento de Pediatría,
Hospital Universitario CEMIC
Decano, Unidad Académica de Ciencias de la Salud,
Instituto Universitario CEMIC.

REFERENCIAS

1. Comité de Neumonología, Comité de Infectología, Comité de Medicina Interna Pediátrica, Comité de Pediatría Ambulatoria, et al. Recomendaciones para el manejo de las infecciones respiratorias agudas bajas en menores de 2 años. Actualización 2021. *Arch Argent Pediatr*. 2021;119(4):S171-97.
2. Beydon N, Davis SD, Lombardi E, Allen JL, et al. An official American Thoracic Society/European Respiratory Society statement: pulmonary function testing in preschool children. *Am J Respir Crit Care Med*. 2007;175(12):1304-45.
3. Stanojevic S, Bowerman C, Robinson P. Multiple breath washout: measuring early manifestations of lung pathology. *Breathe (Sheff)*. 2021;17(3):210016.
4. Sena CRDS, Morten M, Collison AM, Shaar A, et al. Bronchiolitis hospital admission in infancy is associated with later preschool ventilation inhomogeneity. *Pediatr Pulmonol*. 2023;1-10. Online ahead of print.

Arch Argent Pediatr 2024;122(3):e202410373

UN CASO DE FORMA MENINGEA EN LA ACIDOSIS INFANTIL PRIMITIVA

POR EL

PROF. DR. C. TORRES UMAÑA

Bogotá (Colombia)

Hace más de treinta años, que vengo describiendo un síndrome que se presenta con frecuencia en Bogotá, y que no he podido saber si ocurre en otras latitudes, entre otras cosas para saber si la altura tiene alguna influencia sobre su patogenia.

Es un síndrome semejante al que se ha llamado *vómitos periódicos* o *vómitos cíclicos* y que Marfan llamó *vómitos con acetonemia;* pero el nuestro difiere por varios aspectos: los vómitos acetonémicos, atacan muy especialmente a los niños mayores de 3 años; esta acidosis se observa con la mayor frecuencia entre los seis meses y el año, rara vez hasta los 2 años; los vómitos acetonémicos, son de un pronóstico benigno, esta acidosis es de un pronóstico grave, tan grave, que su mortalidad alcanzó en una época a más del 70 %. Se dirá que es la misma enfermedad, pero con la particularidad de atacar a niños menores y, que por esta razón es más grave. Pero en primer lugar, porqué es más frecuente en Bogotá en los niños menores, cosa que no sucede en otras partes, en lo cual están de acuerdo todos los autores? Además, hay otros puntos en los cuales difieren las dos enfermedades: los vómitos acetonémicos repiten siempre, por esta razón se les ha llamado *vómitos cíclicos,* por Gruere; esta acidosis rarísima vez repite, en esta acidosis casi siempre hay fiebre, en los vómitos acetonémicos rara vez hay fiebre; en los vómitos acetonémicos hay leucopenia, según todos los que se han ocupado del asunto, en esta acidosis hay leucocitosis. Y por último, hay en esta acidosis una forma meníngea que yo describí en un trabajo publicado en Bogotá en 1919; y luego en una comunicación presentada a la Sociedad de Pediatría de París, en la sesión del 8 de julio de 1924 y de la cual voy ahora a presentar un caso. Los dos síndromes sin embargo, se asemejan en dos hechos solamente: primero, el síntoma vómito incoercible y segundo, la presencia de cetonas en la sangre y en la orina.

No es tampoco la forma descripta por Finkelstein con el nombre de *coma dispéptico,* porque en esta acidosis es el vómito el que abre la escena y los síntomas intestinales pueden ser a veces de una dispepsia, pero no se presenta la diarrea.

He discutido y estudiado varias veces la patogenia de este estado,

pero sus causas no se han podido precisar hasta ahora; se ha demostrado por los análisis de la reserva alcalina, por la tolerancia alcalina, etc., que existe aquí una acidosis, se ha discutido si los cuerpos cetónicos podían ser causa de intoxicación, pues Marfan, basándose en experimentos hechos por de Degres y Sagio, no cree que los cuerpos cetónicos puedan tener una acción tóxica; pero se ha visto también que muchas veces llega a producirse en el organismo una cantidad de ácido oxibutírico beta muy próxima por lo menos a la dosis letal.

Lo que hay es que los cuerpos mencionados tienen una acción tóxica que varía en razón inversa de su desintegración: mientras más desintegrados sean, son menos tóxicos y así he visto en muchos casos que la acetona desaparece en algunos de mis enfermos y sin embargo, la intoxicación aumenta, porque se ha formado mayor cantidad de ácido acetil-acético y muchas veces aumenta el ácido oxibutírico-beta con detrimento de la acetona y del ácido acetilacético. El ácido oxibutírico-beta, como el menos desintegrado de las cetonas investigadas es el más tóxico.

Es muy posible que en algunos casos haya producción de cuerpos anteriores al ácido oxibutírico, y que son por consiguiente tóxicos.

Pero, ¿por qué se producen estas cetonas? Ellas como se sabe, son productos intermediarios en la disgregación catabólica de las grasas y el metabolismo graso puede interrumpirse bien por una insuficiencia hepática o por una insuficiencia pulmonar o por una falta de metabolismo de los hidrocarbonados que impida que se verifique la lipodiéresis completa.

En los niños atacados de esta acidosis, se ha demostrado una insuficiencia hepática y en las autopsias se revela una degeneración grasosa del hígado, pero al inyectar la forma ya catabolizada y lista para ser utilizada por el organismo, de los hidrocarbonados, es decir, la glucosa sucede que no disminuyen las cetonas y que el azúcar aumenta en la orina cuando ya existía o aparece si no se encontraba presente. Hay, pues, un trastorno de los fermentos encargados de desintegrar los hidrocarbonados, un trastorno de la insulina y en efecto, las inyecciones de insulina seguidas de inyecciones de suero glucosado, suelen dar muy buenos resultados y las cetonas desaparecen.

Mas, hay que llegar más al fondo de esta cuestión y descubrir la causa de esta insuficiencia hepatopancreática. Los estudios que he intentado sugieren que pudiera tratarse de una infección de punto de partida intestinal y que se proyecta al mismo tiempo al hígado y al páncreas. Esta acidosis, está siempre acompañada de fiebre y de polinucleosis, lo que indica que se trata de un proceso infeccioso; está precedida casi siempre de un proceso dispéptico con deposiciones a veces blancas, grasosas, a veces carmelitas con abundante cantidad de almidón; y en algunos casos es la gripe el preludio de este cuadro nosológico. Por otra parte, en muchos casos se ha encontrado colibacilo en la orina y, en algunos, muy raros, hasta en la sangre.

¿Y porqué hay un ataque al mismo tiempo del hígado y del páncreas? porque estos órganos tienen entre sí diversas conexiones; conexiones anatómicas las de sus venas, pues las del páncreas se unen a la vena porta, ya directamente, ya por medio de la mesentérica superior y de la esplénica y están conectados los dos órganos por medio de los linfáticos esplénicos y por los mesentéricos superiores.

Existen conexiones fisiológicas, porque hay una función estrecha entre el páncreas y la función glicogénica del hígado, hasta el punto que si se extirpa el páncreas, el hígado queda incapacitado para guardar en reserva los hidratos de carbono bajo la forma de glicógeno. Por otra parte, el fermento que desdobla las grasas en el hígado, proviene quizás del páncreas, puesto que a los animales a quienes se ha extirpado la glándula, el jugo hepático obtenido sometiendo el hígado a la acción de una prensa permanece mucho menos activo que si esta operación se hace sin previa pancreotomía.

Son todas estas naturalmente reflexiones que pudieran servir como puntos de partida para futuras investigaciones, pero que no se pretende consagrar nada definitivo.

En cuanto a la forma meníngea, se presenta con mucho menos frecuencia que la forma ordinaria en la que los síntomas nerviosos, solamente se revelan por la gran depresión que la acompaña; esta forma meníngea es de pronóstico grave y de ella voy a relatar un caso ocurrido recientemente.

Se trata del niño Roberto, quien tenía un año de edad, cuando se presentó este síndrome; había nacido a término y había sido sano con excepción de algunas anginas y bronquitis sin importancia y, seis meses antes tuvo una dispepsia de hidrocarbonados. Alimentado al seno hasta el momento de su enfermedad, pero desde los seis meses tomaba además, arroz, huevo tibio y naranja. Comía desordenadamente.

En la familia había una niña mayor, sana y no se habían presentado partos prematuros, ni abortos, ni niños muertos.

El día 16 de febrero de 1949, principió el niño a vomitar y la temperatura subió a 38° grados, el vómito era incoercible, no toleraba ningún alimento y aún sin comer se presentaba náusea seca. En este estado fué visto el día 17 en que la náusea había mejorado y sólo se presentaba con los alimentos.

Al examen se mostraba un niño en buen estado general, buen humor, muy despejado, cosa rara en este síndrome en que la depresión suele presentarse muy pronto y en que la náusea es tenaz y no abandona al enfermo fácilmente. Ningún otro síntoma ni signo se observaba en el análisis clínico, pero en la orina se encontraba gran cantidad de acetona y ácido diacético, glucosa en la proporción de 1 por mil y ningún otro elemento anormal.

Se instituyó un tratamiento de inyecciones de suero de Hartmann, una poción con belladona y alcalinos, inyecciones de principio antitóxico del hígado, repetidas cada cuatro horas, y como único alimento, una solución de glucosa que hubo de suprimirse, porque el niño no la toleró.

Pasaron dos días en que el vómito desaparecía por poco tiempo y volvía a presentarse; la temperatura oscilaba entre 36°8 y 40° C y el enfer-

mito se deprimía cuando el 1 de febrero se presentó en las horas de la tarde una respiración profunda e irregular (sed de aire) y hacia las 11 de la noche aparecieron convulsiones con períodos de apnea que duraban algunos minutos y que hacían necesaria la respiración artificial. Visto por mí esa misma noche, se encontró un niño con un síndrome meníngico claro, rigidez de la nuca, un poco contracturados los miembros, signo de Kerning y de Brudzinski, pupilas dilatadas, sin la menor reacción a la luz. En estas condiciones se hizo una punción lumbar y salió un líquido transparente con la tensión algo aumentada. En una reacción de la orina, para determinar la acidez, no pareció que ésta estuviera aumentada, sino más bien disminuída; como a esa hora no era posible enviarla a un laboratorio, no fué posible determinar el pH.

Ante este cuadro, era de pensarse en una alcalosis, dada la circunstancia del vómito, de las convulsiones y de la disminución de la acidez de la orina. Pero ¿cuál era la causa de esta alcalosis? El niño había tomado muy pocos alcalinos y en el día anterior la orina había estado hiperácida. Otra hipótesis, quizás más probable, era la de una meningitis, porque el cuadro era el de una meningitis, porque la iniciación con vómito es de ocurrencia frecuente en esta enfermedad y, porque habiendo vómito no es raro encontrar cuerpos cetónicos en la orina; pero si fuera una meningitis habría sido una meningitis aguda que presenta generalmente un líquido purulento o al menos turbio; en la meningitis tutberculosa y la meningitis sifilítica el líquido es claro, pero el cuadro clínico es diferente; más difícil descartar sería la coriomeningitis linfocítica, aunque en ésta está generalmente el líquido céfalorraquídeo muy hipertenso.

El diagnóstico más probable, parecía ser de una forma meníngica de lo que yo he llamado *Acidosis infantil primitiva,* porque el cuadro inicial de vómito se había prolongado un poco para pensar en una meningitis y porque la acetonuria había sido muy precoz, pero, se hacían indispensables algunos análisis de laboratorio para aclarar completamente el diagnóstico.

Se hizo un análisis del líquido céfalorraquídeo en el que se encontró como datos interesantes: albúmina, de 0,20 por mil; no había globulina, el número de células por milímetro cúbico era de 3, el azúcar y los cloruros eran normales y, había bastante cantidad de acetona y ácido diacético.

La reserva alcalina era de 23,9 en la sangre, estaba pues, bastante disminuída y con estos análisis quedaba confirmado que no se trataba de una meningitis ni de una alcalosis, sino de un caso de forma meníngica de la *acidosis infantil primitiva.*

La orina continuaba mostrando acetona y ácido diacético en bastante cantidad y azúcar en proporción de 2,80 por mil. No se pudo recoger la orina de las 24 horas.

Se aplicaron inyecciones de insulina, seguidas de suero glucosado, calculando tres gramos de glucosa para cada unidad de insulina; se pusieron inyecciones que fueron desde cinco unidades hasta quince. Un tiempo después de aplicadas estas inyecciones la acetona disminuía y, aún no se presentaba; pero volvía a aparecer y el estado tóxico continuaba.

El cuadro clínico continuaba más o menos igual: convulsiones y contracturas, obnubilación y depresión en los intervalos de las convulsiones, respiración profunda e irregular, temperatura que oscilaba entre 36°6 y 40° C.

La acetona no se encontrô en la orina el día 20 por la tarde, pero en cambio, había más cantidad de ácido diacéetico; producto menos desintegrado y por consiguiente, más tóxico que la acetona.

El 21 de febrero, murió el niño a las 11 de la mañana.

No fué posible practicar autopsia, porque se trataba de un caso de clientela civil.

Es este un ejemplo más, de la forma meníngica de este síndrome que yo he descripto con el nombre de *Acidosis infantil primitiva*.

ESTUDIOS DEL AUTOR SOBRE ACIDOSIS

Una forma curiosa de acidosis en los niños de Bogotá. IV Cong. Méd. Colombiano. Tunja, 1919.
The Relation of the Reaction of the Urine to the Diet in Infants and Children. "Am. J. of Dis. of Child.", nov. 1917; vol. XIV, p. 365-378.
Gravité et frequence de certains etas d'acetonemie esencielés chez les enfonts de Bogotá. Comunicación a la Soc. de Pediatría de París, sesión del 8 de julio de 1924.
Investigations sur l'acidose infantile primitive. "Rev. Franç. de Ped.", oct. 1927, vol. II, Nº 6, p. 717.
Die alkalireserve des Blutes und ihre Beziehungen zum Blutzuker bei Parasympathiusgiften "Zeits. f. die Ges. Eper. Med.", 1923, vol. XXXVII, p. 1-2.
Problemas de nutrición infantil. Ed. Franco-Iberoamericana, París, 1924.
Sobre distrofias en el lactante. Ed. Siglo XX, Bogotá, 1944, cap. IX, p. 210 y sig.

Sociedad Argentina
de Pediatría



Por una niñez y
adolescencia sanas,
en un mundo mejor