

Boletín Médico del Hospital Infantil de México



L-ISSN 0539-6115
ISSN 1665-1146



Volumen 82, Número 5 Septiembre - Octubre 2025

ARTÍCULO DE REVISIÓN

Diagnóstico y tratamiento de bronquiectasias en pacientes pediátricos sin fibrosis quística

ARTÍCULOS DE INVESTIGACIÓN

Relación entre genotipo y carga viral de virus del papiloma humano y la gravedad de presentación de la papilomatosis respiratoria recurrente en niños

Las complicaciones y las transfusiones de sangre en los recién nacidos se asocian a una mayor proporción de mililitros por kilogramo de sangre extraída para estudios de laboratorio

Síndrome de médula anclada en pediatría. Presentación clínica, diagnóstico, etiología y resultados del tratamiento médico-quirúrgico

Salud mental parental en cardiopatías congénitas: eficacia de un programa psicoeducativo perioperatorio en línea

CASOS CLÍNICOS

Dengue congénito como diagnóstico diferencial en neonatos con sospecha de sepsis neonatal: reporte de caso en una región endémica

Hallazgos clínicos y dermatoscópicos del nevus lipomatoso cutáneo superficial de tipo clásico en un adolescente. Reporte de caso

Hemoptisis como síntoma inicial de carcinoma mucoepidermoide pulmonar en un niño

Corrigendum



PERMANYER MÉXICO
www.permanyer.com



Boletín Médico del Hospital Infantil de México

L-ISSN: 0539-6115

ISSN: 1665-1146



Volumen 82, Número 5 - Septiembre - Octubre 2025 - www.bmhim.com

Incluida en/Indexed in: PubMed/Medline, Emerging Sources Citation Index (ESCI)™, Scielo, Scopus, Latindex, Embase, EBSCO Directory/Essentials™ y DOAJ

Federico Gómez Santos[†]
Fundador

Julia Jeanett Segura Uribe
Editora Ejecutiva

Adrián Chávez López
Director General

María G. Campos Lara
Editora Jefa

Mara Medeiros Domingo
Directora de Investigación

Solange Koretzky
Editora Asociada

COMITÉ EDITORIAL NACIONAL

Eduardo Bracho-Blanchet
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Blanca Estela del Río Navarro
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Elisa Dorantes Acosta
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Ezequiel Fuentes Pananá
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Fengyang Huang
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Miguel Klünder Klünder
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Horacio Márquez González
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Sarbelio Moreno Espinosa
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Onofre Muñoz Hernández
Comisión Nacional de Arbitraje Médico
Aarón Pacheco Ríos
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Ricardo Pérez Cuevas
Banco Interamericano de Desarrollo

Mario Enrique Rendón Macías
Universidad Panamericana
Alfonso Reyes López
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Hortensia Reyes Morales
Instituto Nacional de Salud Pública
Rodolfo Rivas Ruiz
Instituto Mexicano del Seguro Social
Antonio Rizzoli Córdoba
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Juan José Luis Sienra Monge
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Fortino Solórzano Santos
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Pedro Valencia Mayoral
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Rodrigo Vázquez Frías
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Jenny Vilchis Gil
Hospital Infantil de México Federico Gómez
Miguel Ángel Villasís Keever
Instituto Mexicano del Seguro Social
Leonardo Viniegra Velázquez
Hospital Infantil de México Federico Gómez



Hospital Infantil de México
Federico Gómez
Instituto Nacional de Salud



PERMAYER MÉXICO
www.permayer.com

CONSEJO EDITORIAL

José Luis Arredondo García
*Instituto Nacional de Pediatría,
Ciudad de México, México*

Ariadna Ayerza Casas
*Hospital Universitario Miguel Servet,
Zaragoza, España*

Alessandra Carnevale Cantoni
*Instituto Nacional de Medicina Genómica,
Ciudad de México, México*

Angélica Castro Ríos
*Instituto Mexicano del Seguro Social,
Ciudad de México, México*

Roberto Cedillo Rivera
*Unidad de Investigación Biomédica,
Mérida, Yucatán, México*

José Luis Cuesta Gómez
*Universidad de Burgos,
Burgos, España*

Arlette Patrica Doussoulain Sanhueza
*Universidad de La Frontera,
Temuco, Araucanía, Chile*

Raffo Lucio Joaquín Escalante
Kanashiro
*Instituto Nacional de Salud del Niño,
Lima, Perú*

Álvaro Adolfo Faccini Martínez
*Asociación Colombiana de Infectología,
Bogotá, Colombia*

Heriberto Fernández Jaramillo
*Universidad Austral de Chile,
Valdivia, Chile*

Carlos Franco Paredes
*University of Colorado Anschutz
Medical Campus, Colorado, EUA*

María Teresa García Romero
*Instituto Nacional de Pediatría,
Ciudad de México, México*

Sara Huerta Yopez
*Hospital Infantil de México Federico Gómez,
Ciudad de México, México*

Cándido José Inglés Saura
*Universidad Miguel Hernández de Elche,
Alicante, España*

Gabriel Manjarrez
*Instituto Mexicano del Seguro Social,
Ciudad de México, México*

Mara Medeiros Domingo
*Hospital Infantil de México Federico Gómez,
Ciudad de México, México*

Juan Pablo Méndez Blanco
*Universidad Nacional Autónoma de México,
Ciudad de México, México*

Guadalupe Miranda Novales
*Instituto Mexicano del Seguro Social,
Ciudad de México, México*

Verónica Morán Barroso
*Hospital General de México Eduardo
Liceaga, Ciudad de México, México*

José Manuel Moreno Villares
*Clínica Universidad de Navarra,
Pamplona, Navarra, España*

Luis Ortiz Hernández
*Universidad Autónoma Metropolitana,
Ciudad de México, México*

Alberto Peña
*Children's Hospital, Cincinnati,
Ohio, EUA*

Rodolfo Pinto Almazán
*Hospital Regional de Alta Especialidad
de Ixtapaluca, Ixtapaluca,
Edo. de México, México*

Raúl Piña Aguilar
*Brigham and Women's Hospital,
Harvard Medical School, Boston,
Massachusetts, EUA*

Guillermo Ramón
*Hospital Infantil de México Federico Gómez,
Ciudad de México, México*

Jesús Reyna Figueroa
*Hospital Central Sur de Alta Especialidad,
Petróleos Mexicanos,
Ciudad de México, México*

Vesta Richardson López Collada
*Instituto Mexicano del Seguro Social,
Ciudad de México, México*

Guillermo Ruiz Argüelles
*Centro de Hematología y Medicina Interna,
Clínica Ruiz, Puebla, México*

Silvina Ruvinsky
*Hospital de Pediatría Prof. Dr. Juan P.
Garrahan, Buenos Aires, Argentina*

Eduardo Salazar Lindo
*Universidad Peruana Cayetano Heredia,
Lima, Perú*

José Ignacio Santos Preciado
*Universidad Nacional Autónoma de
México, Ciudad de México, México*

Javier Torres López
*Instituto Mexicano del Seguro Social,
Ciudad de México, México*

Margarita Torres Tamayo
*Instituto Nacional de Cardiología
Ignacio Chávez, Ciudad de México,
México*

Gustavo Varela Fascinetto
*Hospital Infantil de México Federico Gómez,
Ciudad de México, México*

Arturo Vargas Origel
*Facultad de Medicina, Universidad de
Guanajuato, Guanajuato, México*

Edgar Vásquez Garibay
*Instituto de Nutrición Humana,
Guadalajara, Jalisco, México*

Dan Erick Vivas Ruiz
*Universidad Nacional Mayor de San
Marcos, Lima, Perú*

Esta obra se presenta como un servicio a la profesión médica. El contenido de la misma refleja las opiniones, criterios y/o hallazgos propios y conclusiones de los autores, quienes son responsables de las afirmaciones. En esta publicación podrían citarse pautas posológicas distintas a las aprobadas en la Información Para Prescribir (IPP) correspondiente. Algunas de las referencias que, en su caso, se realicen sobre el uso y/o dispensación de los productos farmacéuticos pueden no ser acordes en su totalidad con las aprobadas por las Autoridades Sanitarias competentes, por lo que aconsejamos su consulta. El editor, el patrocinador y el distribuidor de la obra, recomiendan siempre la utilización de los productos de acuerdo con la IPP aprobada por las Autoridades Sanitarias.



Permanyer
Mallorca, 310 – Barcelona (Cataluña), España – permanyer@permanyer.com

Permanyer México
Temístocles, 315
Col. Polanco, Del. Miguel Hidalgo – 06702 Ciudad de México
mexico@permanyer.com



ISSN: 0539-6115
Ref.: 10968AMEX255

Las opiniones, hallazgos y conclusiones son las de los autores.
Los editores y la editorial no son responsables por los contenidos publicados en la revista.
© 2025 Hospital Infantil de México Federico Gómez. Publicado por Permanyer.
Esta es una publicación *open access* bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Boletín Médico del Hospital Infantil de México

Vol. 82 • Núm. 5 • Septiembre-Octubre 2025

www.bmhim.com

Indexada en Scopus y MEDLINE

Contenido

ARTÍCULO DE REVISIÓN

- Diagnóstico y tratamiento de bronquiectasias en pacientes pediátricos sin fibrosis quística** 273
Alejandra Munevar-Velandia, Juan Nofal-Ladino, Sonia Restrepo-Gualteros, Milena Villamil-Osorio, Oscar Ramírez, Juan F. López, Natalia Vélez-Tirado y Lina Castaño-Jaramillo

ARTÍCULOS DE INVESTIGACIÓN

- Relación entre genotipo y carga viral de virus del papiloma humano y la gravedad de presentación de la papilomatosis respiratoria recurrente en niños** 282
Enrique G. Ortiz-Hernández, Ariadna Vallejo, Diego Guzmán, Melissa León y Natalia Calderón

- Las complicaciones y las transfusiones de sangre en los recién nacidos se asocian a una mayor proporción de mililitros por kilogramo de sangre extraída para estudios de laboratorio** 289
Lorena Salazar-Cavazos, Jesus J. Solis-Flores, Carmen L. de Hoyos-Ramón, Marco A. Flores-Heredia, Luis G. Martínez-Valades y Lucas A. Garza-Garza

- Síndrome de médula anclada en pediatría. Presentación clínica, diagnóstico, etiología y resultados del tratamiento médico-quirúrgico** 295
Antonio Heredia-Gutiérrez, María E. Carbarín-Carbarín y Víctor R. Ortiz-Juárez

- Salud mental parental en cardiopatías congénitas: eficacia de un programa psicoeducativo perioperatorio en línea** 304
Azalea C. Flores-Bobadilla, Bertha Ramos-del Río, Óscar R. Galicia-Castillo, Everardo J. F. Camacho-Gutiérrez, Ana K. Talavera-Peña y Mario H. Buenrostro-Jáuregui

CASOS CLÍNICOS

- Dengue congénito como diagnóstico diferencial en neonatos con sospecha de sepsis neonatal: reporte de caso en una región endémica** 314
Luis A. Espinoza-Venegas, Billey K. Samame-Talledo, Lidia G. Mauricio-Neyra, Luis Pampa-Espinoza, Fernando Munayco-Guillén y Rafael Pichardo-Rodríguez

- Hallazgos clínicos y dermatoscópicos del nevus lipomatoso cutáneo superficial de tipo clásico en un adolescente. Reporte de caso** 319
Juan A. Godínez-Chaparro, Marissa de J. Quintal-Ramírez y Baldomero García-Gálvez

- Hemoptisis como síntoma inicial de carcinoma mucoepidermoide pulmonar en un niño** 323
Héctor Nuñez-Paucar, Noé Atamari-Anahuí, Carla Cruzado-Villanueva y Víctor Gómez-Ponce

- Corrigendum** 328

Boletín Médico del Hospital Infantil de México

Vol. 82 • No. 5 • September-October 2025

www.bmhim.com

Indexed in Scopus and MEDLINE

Contents

REVIEW ARTICLE

- Diagnosis and treatment of bronchiectasis in pediatric patients without cystic fibrosis** 273
Alejandra Munevar-Velandia, Juan Nofal-Ladino, Sonia Restrepo-Gualteros, Milena Villamil-Osorio, Oscar Ramírez, Juan F. López, Natalia Vélez-Tirado, and Lina Castaño-Jaramillo

RESEARCH ARTICLES

- Relationship between genotype and viral load of human papillomavirus, and presentation severity of recurrent respiratory papillomatosis in pediatrics** 282
Enrique G. Ortiz-Hernández, Ariadna Vallejo, Diego Guzmán, Melissa León, and Natalia Calderón

- Complications and blood transfusions in newborns are associated with a higher milliliters per kilogram ratio of blood extracted for laboratory studies** 289
Lorena Salazar-Cavazos, Jesus J. Solis-Flores, Carmen L. de Hoyos-Ramón, Marco A. Flores-Heredia, Luis G. Martínez-Valades, and Lucas A. Garza-Garza

- Tethered cord syndrome in pediatrics. Clinical presentation, diagnosis, etiology, and results of medical-surgical treatment** 295
Antonio Heredia-Gutiérrez, María E. Carbarín-Carbarín, and Víctor R. Ortiz-Juárez

- Parental mental health in congenital heart disease: effectiveness of an online perioperative psychoeducational program** 304
Azalea C. Flores-Bobadilla, Bertha Ramos-del Río, Óscar R. Galicia-Castillo, Everardo J. F. Camacho-Gutiérrez, Ana K. Talavera-Peña, and Mario H. Buenrostro-Jáuregui

CLINICAL CASES

- Dengue congenital as a differential diagnosis in neonates with suspected neonatal sepsis: a case report in an endemic region** 314
Luis A. Espinoza-Venegas, Billey K. Samame-Talledo, Lidia G. Mauricio-Neyra, Luis Pampa-Espinoza, Fernando Munayco-Guillén, and Rafael Pichardo-Rodríguez

- Clinical and dermoscopic findings of classic-type nevus lipomatosus cutaneus superficialis in an adolescent. Case report** 319
Juan A. Godínez-Chaparro, Marissa de J. Quintal-Ramírez, and Baldomero García-Gálvez

- Hemoptysis as an initial symptom of pulmonary mucoepidermoid carcinoma in a child** 323
Héctor Nuñez-Paucar, Noé Atamari-Anahui, Carla Cruzado-Villanueva, and Víctor Gómez-Ponce

- Corrigendum** 328

Diagnóstico y tratamiento de bronquiectasias en pacientes pediátricos sin fibrosis quística

Alejandra Munevar-Velandia¹ , Juan Nofal-Ladino² , Sonia Restrepo-Gualteros^{3,4} ,
Milena Villamil-Osorio³ , Oscar Ramírez³ , Juan F. López⁵ , Natalia Vélez-Tirado^{6,7}  y
Lina Castaño-Jaramillo^{6,7*} 

¹Programa de Neumología Pediátrica, Facultad de Medicina, Universidad El Bosque; ²Programa de Pediatría, Facultad de Medicina, Unisanitas; ³Servicio de Neumología pediátrica, HOMI Fundación Hospital Pediátrico la Misericordia; ⁴Facultad de Medicina, Universidad Nacional de Colombia; ⁵Servicio de Infectología Pediátrica, HOMI Fundación Hospital Pediátrico la Misericordia; ⁶Servicio de Inmunología Clínica y Alergia Pediátrica, HOMI Fundación Hospital Pediátrico la Misericordia; ⁷Grupo de Inmunología Celular y Molecular, Universidad El Bosque. Bogotá, Colombia

Resumen

Las bronquiectasias son anomalías caracterizadas por dilatación permanente de los bronquios; clínicamente se manifiestan con tos crónica, producción de esputo, disnea y exacerbaciones recurrentes. Las bronquiectasias ocurren como resultado de enfermedades genéticas, malformaciones congénitas, obstrucción endobronquial de causa infecciosa e inflamatoria y aspiración crónica, entre otras causas. La dilatación bronquial conlleva alteración de la depuración mucociliar, facilitando el atrapamiento de partículas y microorganismos que ingresan a las vías respiratorias. Los macrófagos y células epiteliales liberan citocinas proinflamatorias que promueven la quimiotaxis de neutrófilos, los cuales liberan enzimas que causan lesión en las células epiteliales, reducen la motilidad ciliar, promueven la hiperplasia glandular y el aumento en la secreción de moco, de esta forma la infección persistente perpetúa la inflamación local en los pacientes con bronquiectasias. El diagnóstico requiere un alto índice de sospecha clínica y la detección precoz permite mejorar los desenlaces clínicos. La tomografía axial computarizada de alta resolución pulmonar es el método de referencia para la confirmación diagnóstica; la realización de historia clínica completa y estudios de extensión iniciales como hemograma, inmunoglobulinas séricas totales, iontoforesis y espirometría permiten evaluar la causa subyacente y determinar la gravedad de la enfermedad. El principal objetivo del manejo es preservar la función pulmonar y detener la progresión de la enfermedad, para lo que se recomienda adoptar hábitos de vida saludables, esquemas de vacunación ampliados, realización de terapia respiratoria y uso temprano de antibióticos en exacerbaciones y colonizaciones por ciertos microorganismos.

Palabras clave: Enfermedad pulmonar. Bronquiectasias. Pediatría. Enfermedad bronquial. Inmunodeficiencias primarias.

Diagnosis and treatment of bronchiectasis in pediatric patients without cystic fibrosis

Abstract

Bronchiectasis is characterized by the permanent dilation of bronchi, clinically presenting with chronic cough, sputum production, dyspnea, and recurrent exacerbations. Bronchiectasis can occur due to genetic disorders, congenital malformations, endobronchial obstruction of infectious and inflammatory origin, and chronic aspiration, among other causes. Bronchial dilation leads to impaired mucociliary clearance, trapping particles and microorganisms in the airways. Macrophages and epithelial

*Correspondencia:

Lina M. Castaño-Jaramillo
E-mail: lcastanoj@unbosque.edu.co
1665-1146/© 2025 Hospital Infantil de México Federico Gómez. Publicado por Permayer. Este es un artículo open access bajo la licencia CC BY-NC-ND (http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/).

Fecha de recepción: 18-03-2025
Fecha de aceptación: 31-07-2025
DOI: 10.24875/BMHIM.25000036

Disponible en internet: 04-09-2025
Bol Med Hosp Infant Mex. 2025;82(5):273-281
www.bmhim.com

cells release proinflammatory cytokines that promote neutrophil chemotaxis. Neutrophils release enzymes causing epithelial cell damage, reducing ciliary motility, promoting glandular hyperplasia, and increasing mucus secretion. Persistent infection perpetuates local inflammation in bronchiectasis patients. Diagnosis requires high clinical suspicion and early detection improves clinical outcomes. High-resolution computed tomography is the gold standard for confirmation. A comprehensive medical history, initial assessments with complete blood count, total serum immunoglobulins, iontophoresis, and spirometry help assess the underlying etiology and disease severity. The primary goal is preserving lung function and halting disease progression. This involves adopting healthy lifestyles, expanded vaccination schedules, respiratory therapy, and early antibiotic use for exacerbations and colonization by specific microorganisms.

Keywords: Lung diseases. Bronchiectasis. Pediatrics. Bronchial diseases. Primary immunodeficiency diseases.

Introducción

Las bronquiectasias (BQ) son anomalías permanentes, caracterizadas por dilatación de los bronquios. Los pacientes con BQ experimentan tos crónica, producción de esputo, disnea, fatiga y exacerbaciones recurrentes, junto con otros síntomas, como malestar general, dolor torácico, hemoptisis y pérdida de peso. Fisiopatológicamente, la dilatación bronquial conduce a alteración de la depuración mucociliar y una alteración en la eliminación de bacterias y moco, facilitando el atrapamiento de partículas y microorganismos que entran en las vías respiratorias. Lo anterior genera focos infecciosos persistentes, inflamación y lesión en otras zonas de la vía respiratoria¹.

Las BQ pueden desarrollarse como resultado de enfermedades infecciosas, inflamatorias, alérgicas, genéticas y degenerativas, y, por tanto, es la vía común donde convergen múltiples procesos fisiopatológicos^{1,2}. Las BQ tienen un impacto sanitario significativo, se estima que hasta el 78% de los pacientes que acuden a urgencias experimentan agudización de los síntomas, lo que resulta en una estancia hospitalaria de más de 10 días, más prolongada que con otras enfermedades respiratorias como el asma³.

Epidemiología

Las BQ pueden afectar a personas de todas las edades, pero la incidencia aumenta con la edad. En los niños, las BQ tienen mayor prevalencia en regiones con infecciones respiratorias frecuentes, y suelen tener un retraso hasta de 14.8 años en el diagnóstico desde la aparición de los síntomas iniciales, haciendo que los pacientes accedan de forma tardía a un tratamiento adecuado⁴.

En pediatría no hay un claro predominio de sexo y se asocia principalmente a infecciones^{1,5}. El tabaquismo no se ha demostrado como un factor asociado al desarrollo de BQ⁶. La susceptibilidad al desarrollo de BQ puede

variar según la localización geográfica y la etnia; sin embargo, hay una mayor carga de enfermedad en países con alta incidencia de infecciones graves recurrentes y tuberculosis⁷. La fibrosis quística (FQ) es la causa más frecuente de BQ en países occidentales, mientras que en Asia pueden tener mayor protagonismo las causas infecciosas y la discinesia ciliar primaria^{7,8}. Se han descrito múltiples causas, Brower et al. reportan la evaluación de 989 pacientes y además de las ya mencionadas incluyen errores innatos de la inmunidad como deficiencia de inmunoglobulina (Ig) G, subclases de IgG, IgA, síndrome hiper-IgE, deficiencia de células T, candidiasis mucocutánea, enfermedad granulomatosa crónica y inmunodeficiencia grave combinada. Además, se ha asociado a malformaciones congénitas como fístula traqueoesofágica y enfermedad pulmonar quística entre otras⁹.

Fisiopatología

La fisiopatología de las BQ involucra diversos mecanismos heterogéneos y complejos, los cuales varían según la causa subyacente y los factores genéticos y epigenéticos relacionados. En esencia, el epitelio respiratorio cumple una función clave como barrera física para resistir la lesión, por medio de uniones celulares estrechas y la participación de factores funcionales como la producción de mucina, la motilidad ciliar, la síntesis de péptidos antimicrobianos y el transporte de iones. Estos mecanismos trabajan en conjunto para proteger las vías respiratorias¹.

En la fase inicial ocurre una lesión que causa dilatación bronquial y posteriormente el deterioro de la función mucociliar. El aumento de la densidad mucosa, la presencia persistente de microorganismos y una inefectividad del sistema inmunitario para su depuración con disregulación local favorecen la progresión de la enfermedad^{1,2}. Con el avance de la microbiología molecular se ha logrado optimizar el aislamiento de microorganismos en exacerbaciones, las principales bacterias son *Haemophilus influenzae*, *Pseudomonas aeruginosa*,

Moraxella catarrhalis, *Streptococcus pneumoniae* y *Staphylococcus aureus*. Las asociadas a mayor gravedad son *P. aeruginosa* y *H. influenzae*. La carga bacteriana se relaciona con el riesgo de exacerbaciones¹⁰. Los hongos, virus y micobacterias no tuberculosas (NTM) también pueden tener un papel importante en las exacerbaciones agudas¹⁰.

Estos patógenos pueden evadir la respuesta inmunitaria mediante múltiples mecanismos, como la formación de biopelícula y cambios genéticos que confieren resistencia antimicrobiana⁶. Algunos microorganismos tienen mecanismos adicionales: *H. influenzae* puede invadir el epitelio de las vías respiratorias y sobrevivir intracelularmente con desregulación inmunitaria secundaria; *P. aeruginosa* utiliza la IgG del hospedero para bloquear la activación del complemento^{1,11}.

En los pacientes con BQ hay una mayor densidad de macrófagos en esputo. Los macrófagos producen factor de necrosis tumoral alfa (TNF- α), que atrae a los neutrófilos, que son las células predominantes en el esputo, lavado broncoalveolar y en biopsias de pacientes con BQ. Las células epiteliales también participan en la quimiotaxis de neutrófilos mediante la liberación de sustancias proinflamatorias que aumentan la adhesión leucocitaria y la migración transepitelial. Los neutrófilos liberan enzimas que causan lesión en las células epiteliales, reducen la motilidad ciliar, promueven la hiperplasia glandular y el aumento en la secreción de moco. A pesar de encontrarse aumento de los neutrófilos, estos pueden tener una menor actividad fagocítica y microbicida¹². La infección persistente perpetúa la inflamación local en los pacientes con BQ (Fig. 1)¹³.

La fisiopatología de las BQ varía según la causa. En errores innatos de la inmunidad (EII) humoral podemos encontrar deficiencias selectivas de isotipos de Ig, deficiencia de subclases de IgG y síndromes de inmunodeficiencias combinadas, entre otras^{9,14}. La alteración en la producción de Ig predispone a infecciones recurrentes por gérmenes encapsulados y a daño bronquial secundario^{15,16}. Las alteraciones anatómicas o funcionales de la vía respiratoria pueden provocar BQ por depuración deficiente de las vías respiratorias, exceso de secreciones e infección recurrente¹⁷. El atrapamiento de moco causa obstrucción y dilatación de las vías respiratorias, un ambiente propicio para la infección^{12,17}.

Manifestaciones clínicas

Los pacientes con BQ se caracterizan por la producción abundante de moco, tos crónica productiva con secreción mucopurulenta de esputo. Tienen infecciones

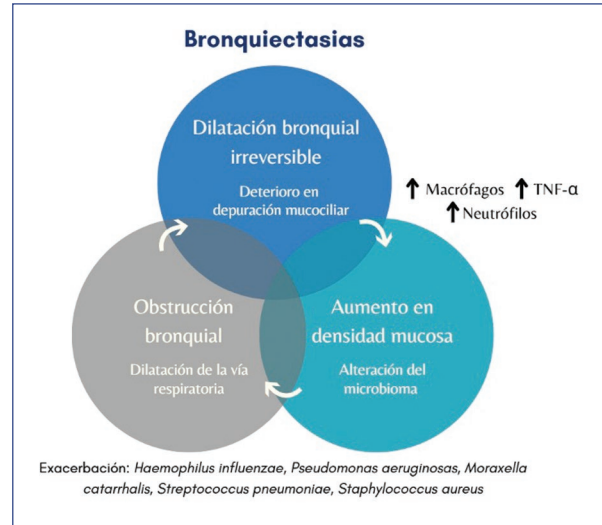


Figura 1. Fisiopatología de las bronquiectasias. TNF- α : factor de necrosis tumoral alfa.

respiratorias recurrentes, esputo fétido, hemoptisis, hipocratismo digital, retraso del crecimiento y deformidad de la pared torácica¹⁸. La presencia de bronquitis bacteriana recurrente (más de tres episodios por año) y la necesidad de antibióticos endovenosos pueden ser indicadores de BQ¹⁹.

Diagnóstico

El diagnóstico de BQ requiere un alto índice de sospecha y el diagnóstico precoz permite mejorar los desenlaces clínicos, iniciar la terapia temprana y evitar la progresión de la enfermedad^{20,21}.

La aproximación imagenológica inicial se realiza mediante una radiografía de tórax, algunos signos característicos incluyen la visualización de las paredes bronquiales «en carrilera», opacidades tubulares periféricas ramificadas y el signo del «dedo de guante» en casos de dilatación bronquial proximal grave. El diagnóstico objetivo de las BQ se realiza mediante tomografía axial computarizada de alta resolución (TACAR) pulmonar, considerada el método de referencia. Este tipo de tomografía permite un examen más detallado de todo el pulmón, mejorando así la sensibilidad en la detección de BQ. En la TACAR se evalúa el diámetro luminal interno del bronquio en relación con el diámetro externo del vaso sanguíneo adyacente. Una relación bronco: arterial ≥ 1 en adultos y ≥ 0.8 en niños se considera patológica y sugiere la presencia de BQ^{22,23}. El bronquio dilatado adyacente a su rama arterial de menor calibre confiere la apariencia del característico

Tabla 1. Principales causas de bronquiectasias en niños

Enfermedades congénitas o genéticas	Obstrucción endobronquial	Otras causas
– Fibrosis quística – Discinesia ciliar primaria – Errores innatos de la inmunidad – Deficiencia de alfa-1 antitripsina – Síndrome de Williams-Campbell – Síndrome de Marfan – Malformaciones congénitas del tracto respiratorio (atresia, estenosis, secuestro, quistes, hendiduras, fístulas) – Malacia de las vías respiratorias	– Infecciones graves (tuberculosis, <i>Staphylococcus</i> spp., gramnegativos) – Bronquiolitis obliterante postinfecciosa (virus) – Aspergilosis broncopulmonar alérgica – Cuerpo extraño	– Aspiración crónica – Alteración en el mecanismo de la tos (enfermedades neuromusculares) – Compresión extrínseca de vías respiratorias (vascular, linfática, tumoral)

«signo del anillo de sello»²⁴. Algunos signos radiológicos adicionales incluyen la ausencia de estrechamiento de los bronquios y la presencia de bronquios visibles a menos de 1 cm de distancia de la pleura. Puede haber condiciones como el asma y vivir en alturas que aumentan el diámetro intraluminal del bronquiolo y generar falsos positivos, por lo que es fundamental la correlación clínica^{1,25}.

Las BQ se clasifican en tres grupos principales según su morfología macroscópica: cilíndricas, varicosas y quísticas. Sin embargo, esta clasificación tiene poca utilidad diagnóstica debido a que los diferentes tipos suelen coexistir y pueden estar asociados a más de una enfermedad²⁴. El conocimiento de los diferentes tipos de BQ y sus asociaciones con diversas enfermedades es fundamental para establecer un diagnóstico oportuno y un tratamiento adecuado para mejorar la calidad de vida de los pacientes^{25,26} (Tabla 1 y Fig. 2).

Es importante tener en cuenta que el estudio de las BQ focales requiere una evaluación específica para determinar la causa subyacente. Algunos signos radiológicos característicos incluyen el «dedo de guante» en la radiografía de tórax, que describe la apariencia de BQ focales, y la presencia de broncoceles en casos de retención de secreciones y dilatación importante del bronquio afectado^{26,27}.

El estudio se completa con la tomografía de tórax, los hallazgos en esta pueden ayudar a estadificar la gravedad del compromiso, para ello se han usado las varias escalas. La escala de Reiff modificada evalúa el número de lóbulos afectados (incluida la lingula como un lóbulo independiente) y el grado de dilatación (tubular = 1, varicosa = 2 y quística = 3). La puntuación máxima es 18 y la mínima 1²⁸. El score FACED consta de cinco variables, incluyendo valores espirométricos, colonización por *P. aeruginosa*, extensión radiológica y disnea; es efectivo para predecir mortalidad, exacerbaciones y hospitalizaciones^{29,30}. El *Bronchiectasis Severity Index* (BSI)

Tabla 2. Estudios de evaluación inicial en pacientes con bronquiectasias

Evaluación mínima
Hemograma completo
Inmunoglobulinas G, A, M y E
Iontoforesis - electrolitos en sudor
Cultivo de secreciones de las vías respiratorias
Espirometría (generalmente en mayores de 6 años)

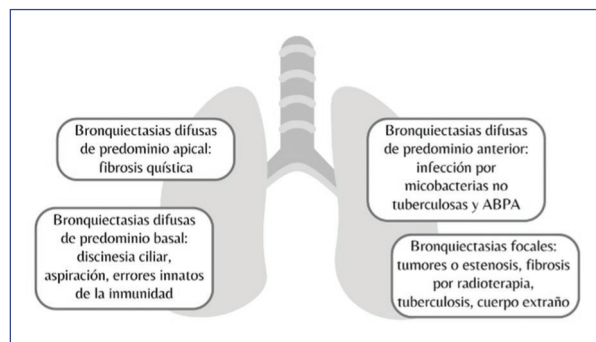


Figura 2. Distribución de las bronquiectasias según su causa.

ABPA: aspergilosis broncopulmonar alérgica.

también se ha validado para predecir mortalidad y exacerbaciones^{30,31}, y para la población pediátrica se modificó al *Paediatric Bronchiectasis Severity Index* (PBSI)³².

Evaluación inicial

En el caso de un paciente con BQ se deben realizar historia clínica completa y estudios de extensión para evaluar la causa subyacente y determinar la gravedad de la enfermedad (Tabla 2).

Dada la amplia variedad diagnóstica se debe ser muy cuidadoso en la historia clínica, se debe buscar siempre la causa porque aunque muchos casos se asocian a infección pulmonar previa o son idiopáticos, se pueden encontrar causas tratables como EII, aspiración recurrente o aspergilosis broncopulmonar alérgica³³, y resaltamos también que según la región geográfica se debe sospechar tuberculosis o infección por virus de inmunodeficiencia humana (VIH). Para descartar infección/enfermedad por tuberculosis se sugiere realización de prueba de tuberculina, baciloscopias en esputo inducido o jugo gástrico y cultivo. En el caso de sospecha de VIH, será necesaria la toma de serología²³.

En todos los pacientes con BQ se debe descartar FQ mediante iontoforesis y de acuerdo con los signos y síntomas considerar estudio genético. Para el abordaje inmunológico se recomienda evaluar la inmunidad humoral, ya que son los defectos predominantes de anticuerpos los EII más frecuentes y los que más se asocian con BQ. Tienen mayor riesgo de BQ cuando hay síntomas pulmonares crónicos y diagnóstico tardío³⁴. Se debe sospechar EII principalmente en pacientes con infecciones sinopulmonares recurrentes; en algunos casos puede haber autoinmunidad, linfoproliferación, alergia o malignidad asociada. Se debe realizar hemograma y medición cuantitativa de Ig G, A, M y E como estudios iniciales. De ser normales las Ig iniciales, se debe considerar realizar estudios más avanzados de defectos específicos de anticuerpos como lo son la respuesta vacunal a antígenos proteicos, polisacáridos y subclases de IgG.

En pacientes con diagnóstico establecido de deficiencia de anticuerpos y BQ la terapia sustitutiva con Ig es fundamental para prevenir nuevas infecciones pulmonares y progresión de las BQ. Se deben mantener niveles de IgG en el umbral fisiológico para la edad del paciente, idealmente > 800 mg/dl siempre y cuando no estén presentando infecciones recurrentes³⁴. Sugerimos además que en todos los pacientes con diagnóstico reciente de defecto de anticuerpos o con antecedente de infecciones respiratorias bajas recurrentes se realice una TACAR al diagnóstico para abordaje de BQ. El seguimiento en estos pacientes se debe realizar sistemáticamente con síntomas y pruebas de función pulmonar, limitando la realización de imágenes a cada 3-5 años o antes en caso de deterioro clínico o deterioro de la función pulmonar por el mayor riesgo de malignidad en esta población.

En casos con sospecha de discinesia ciliar primaria (p. ej., en pacientes con dificultad respiratoria neonatal, rinosinusitis crónica o *situs inversus*) se puede evaluar

la motilidad y ultraestructura ciliar mediante microscopía electrónica, sin embargo se sugiere la realización de panel genético para diagnóstico molecular³⁵.

En algunos niños con predisposición anatómica o factores funcionales que puedan predisponer a broncoaspiración se debe evaluar la deglución, en el caso de que se sospeche reflujo gastroesofágico se recomienda realizar pH-metría³⁶.

La espirometría es útil para evaluar la gravedad de la enfermedad pulmonar³⁰, determinar el grado de obstrucción pulmonar y evaluar la respuesta broncodilatadora, lo cual puede ayudar a diferenciar del asma. Cuando el compromiso es grave puede haber un patrón obstructivo con disminución del volumen espiratorio forzado en el primer segundo con una capacidad vital forzada normal^{37,38} sin respuesta al broncodilatador. Sin embargo, es importante tener en cuenta que la espirometría puede no detectar daños estructurales tempranos en las BQ³⁷. Algunos pacientes asmáticos pueden desarrollar BQ, particularmente en asma grave de difícil control, lo cual puede empeorar la función pulmonar. Se deben considerar en pacientes asmáticos con enfermedad grave, tos húmeda persistente, esputo purulento, exacerbaciones frecuentes y falta de respuesta al tratamiento³⁹.

Se recomienda realizar cultivo de secreciones respiratorias cada 6 meses, pero pueden ser más frecuentes en pacientes de mayor gravedad o microorganismos resistentes. En caso de exacerbación y deterioro clínico, se debe tomar nueva muestra para dirigir la terapia antibiótica. En pacientes que no pueden expectorar se podría considerar la realización de lavado broncoalveolar. Aunque es infrecuente, la aspergilosis broncopulmonar alérgica puede ser una causa de exacerbación de los síntomas en pacientes con BQ; por lo tanto, ante un deterioro pulmonar sostenido o falta de respuesta al tratamiento médico se sugiere tomar IgE específica para *Aspergillus* o la realización de pruebas cutáneas para descartarla.

Tratamiento

Los principales objetivos del tratamiento de niños/adolescentes y adultos con BQ son:

- Preservar la función pulmonar y detener la progresión de la enfermedad.
- Optimizar el bienestar y la calidad de vida del paciente y su familia.
- Minimizar la frecuencia y gravedad de las exacerbaciones respiratorias.
- Prevenir complicaciones.

- Optimizar el crecimiento pulmonar.
- Si es posible, revertir la lesión pulmonar estructural²¹.

Los pilares del tratamiento son los cambios en el estilo de vida (dejar de fumar, realizar ejercicio regularmente y mantener un buen estado nutricional), la vacunación, la realización de terapia respiratoria y el uso temprano de antibióticos en las exacerbaciones^{25,40,41}. En niños, el tabaquismo pasivo o humo de segunda mano se ha relacionado con disfunción de la vía aérea pequeña, lo que podría influir en la fisiopatología de las BQ⁴². En los pacientes con BQ se sugiere la aplicación anual de vacuna contra la influenza y tener un esquema vacunal completo para neumococo que incluya la aplicación 23 serotipos de *S. pneumoniae*.

El tratamiento de las BQ tiene como eje fundamental mejorar los mecanismos fisiopatológicos que perpetúan su aparición (Tabla 3). El fortalecimiento de la barrera mucociliar permite disminuir la inflamación y la proliferación bacteriana, y esto se logra mediante las técnicas de limpieza de las vías respiratorias^{25,41}.

- Técnicas de limpieza de vías respiratorias. La terapia respiratoria debe enseñar técnicas de higiene bronquial. La técnica dependerá de la edad, comprensión y colaboración del niño³⁵.

No existe una técnica de higiene bronquial perfecta, su elección dependerá de la preferencia del paciente y de la etapa de desarrollo y las capacidades cognitivas del paciente o su cuidador. Se recomienda la terapia individualizada impartida y revisada al menos dos veces al año por fisioterapeutas torácicos capacitados en pediatría^{20,21}. Se recomienda realizar sesiones de limpieza mucociliar que duren entre 10 y 30 minutos, dos veces al día, así como evaluar el drenaje postural según la tolerancia del niño y la ubicación de las BQ. Durante los periodos de exacerbación se debe aumentar la frecuencia de la terapia respiratoria hasta que supere la agudización. No existen estudios que comparen la efectividad de las técnicas de higiene respiratoria entre sí, a continuación se nombrarán algunas de las más conocidas:

- El ciclo activo de técnicas de respiración.
- Drenaje autógeno.
- Espiración lenta y total con glotis abierta en decúbito lateral.
- Dispositivos de presión espiratoria positiva.
- Máscara de presión espiratoria positiva.
- Dispositivos de presión espiratoria positiva oscilante.
- Presión espiratoria positiva oscilante con Flutter, Acapella, Aerobika, REVITIVE, RC-Cornet o *lung flute*.

Tabla 3. Recomendaciones para el manejo y seguimiento de pacientes con bronquiectasias

Intervención	Estrategia
Inmunización	Calendario regular de vacunación que incluye: difteria, tos ferina, tétanos; sarampión; neumococo conjugado Vacunación contra <i>Haemophilus influenzae</i> tipo b Vacuna anual contra la influenza Vacuna anual contra COVID-19 Vacuna cada 5 años contra neumococo
Control ambiental	Evitar el tabaquismo materno y doméstico Minimizar la exposición a la contaminación interior y exterior Prevenir el tabaquismo en adolescentes
Actividad física	Los niños y jóvenes de 5 a 17 años mínimo 60 minutos diarios en actividades físicas de intensidad moderada a vigorosa Participación en un programa de rehabilitación pulmonar de 8 semanas
Concentraciones de vitamina D	Valores inferiores a 25 ng/ml, recomendamos inicio de suplencia con 200 UI/kg día por 3 meses
Técnicas de limpieza de vías respiratorias	Terapia individualizada (revisada 2 veces al año por terapeutas respiratorios expertos en pediatría) Sesiones de limpieza mucociliar duración entre 10 y 30 minutos, dos veces al día (considerar aumento del número de sesiones durante exacerbaciones)
Agentes mucolíticos	Prevía administración de salbutamol inhalador 400 µg/dosis única N-acetilcisteína Solución salina hipertónica al 3 y 7%
Antibioticoterapia empírica en exacerbaciones	– Pacientes sin colonización demostrada por <i>Pseudomonas</i> → amoxicilina clavulánico/ampicilina sulbactam – Paciente colonizados crónicamente por <i>Pseudomonas</i> → piperacilina tazobactam, cefepima
Terapia de erradicación contra <i>Pseudomonas aeruginosa</i>	– Cultivo de rutina positivo: • Ciprofloxacino oral por 14 días • Tobramicina inhalada por 4 a 12 semanas • Colistina inhalada por 4 a 12 semanas – Cultivo positivo durante exacerbación: • Piperacilina tazobactam • Ceftazidima/cefepima
Azitromicina	Pacientes con más de 1 exacerbación hospitalaria o 3 exacerbaciones ambulatorias en el último año Azitromicina 5 mg/kg/dosis (máximo 250 mg) con administración 3 días a la semana durante un periodo de 3 a 6 meses

- Dispositivos de percusión: percutor acústico Vi-bralung, Frequencer, Dymedso.
 - Terapia con oscilación de alta frecuencia sobre la pared torácica.
- Actividad física. El ejercicio físico, al igual que la participación en un programa de rehabilitación pulmonar de 8 semanas, podría disminuir la frecuencia de exacerbaciones y mejorar la calidad de vida de los pacientes⁴³.
- Agentes mucolíticos. Las guías internacionales para las BQ no recomiendan uso de ADNasa recombinante en adultos o niños que no tienen FQ^{20,21,23}. La solución salina hipertónica al 3% y concentraciones mayores (hasta 7%) se podría recomendar para humidificar las secreciones previo a realizar la terapia respiratoria con higiene bronquial, sobre todo en pacientes con secreciones viscosas y en quienes se evidencian placas de moco⁴³. También se ha descrito el uso de N-acetilcisteína y manitol en pacientes adultos^{44,45}.
- Terapia antibiótica. En pacientes con BQ y exacerbaciones agudas se recomienda tratamiento sistémico durante 14 días, dirigido según cultivos previos del paciente. En aquellos capaces de expectorar sugerimos que se recolecten muestras de esputo espontáneo o inducido al menos cada 6 meses como medio para identificar nuevos patógenos, específicamente *P. aeruginosa*, y para ayudar a guiar la terapia antibiótica empírica inicial para exacerbaciones futuras²⁶. La infección bronquial crónica por *Pseudomonas* se asocia a mayor gravedad clínica, mayor número de exacerbaciones, menor calidad de vida y peor pronóstico⁴⁶.

Para tratamiento empírico de exacerbación en pacientes NO colonizados por *Pseudomonas* se sugiere el inicio de amoxicilina/clavulanato a dosis de 90 mg/kg/día por 14 días²³; en caso de manejo endovenoso se recomienda ampicilina/sulbactam a dosis de 200 mg/kg/día en 4 dosis.

En caso de primer aislamiento de *P. aeruginosa* se recomienda realizar terapia de erradicación²⁶. En pacientes asintomáticos se sugiere ciprofloxacino a dosis de 40 mg/kg/día en 2 dosis (máximo 750 mg dosis) por dos semanas con antibiótico inhalado (tobramicina 300 mg cada 12 horas) durante 4-12 semanas. Si al finalizar el tratamiento oral el paciente continúa con cultivo positivo para *Pseudomonas*, o si el paciente está sintomático se debe considerar, además de la tobramicina inhalada, la administración de antibiótico intravenoso, dentro de lo cual se sugiere como primera línea la administración de

piperacilina-tazobactam a dosis de 300-400 mg/kg/día en 4 dosis (máximo 16 g/día) o cefepima 150 mg/kg/día en 3 dosis (máximo 6 g/día) por 10-14 días. Se podría adicionar amikacina según gravedad o criterio clínico, también se describe el uso de tobramicina IV en donde tengan disponibilidad; en caso de adicionar el tratamiento es por 10-14 días.

Uso de terapia crónica con macrólidos: la terapia prolongada con macrólidos puede suprimir el crecimiento bacteriano, reducir la inflamación de la vía aérea con menor frecuencia de exacerbaciones, menos síntomas y mejoría de función pulmonar y calidad de vida⁴⁷. En pacientes con BQ y exacerbaciones recurrentes (más de una exacerbación hospitalaria o tres exacerbaciones ambulatorias en el último año) se sugiere el uso de azitromicina 5 mg/kg/dosis (máximo 250 mg) con administración 3 días a la semana durante un periodo de 3 a 6 meses, con reevaluación periódica para determinar si continúa ofreciendo un beneficio clínico. Se recomienda estudio de esputo previo para descartar infección por NTM^{23,25,40}.

- Esteroides inhalados: no se recomienda la administración sistemática de esteroides inhalados en pacientes con BQ sin asma, ya que no existe evidencia de mejoría de la función pulmonar o menor número de exacerbaciones, y puede asociarse a aumento de la densidad bacteriana^{23,25}.
- Vitamina D: la deficiencia de vitamina D es frecuente en pacientes con BQ y se puede asociar con marcadores de gravedad de la enfermedad pulmonar⁴⁸. Se sugiere evaluar los niveles de vitamina D en pacientes con BQ y suplementar en caso de estar deficientes.
- Manejo quirúrgico: se debe evaluar manejo con cirugía de tórax en pacientes con las siguientes condiciones⁴³:
 - Síntomas persistentes a pesar de recibir tratamiento médico integral durante todo un año.
 - Exacerbaciones graves o frecuentes e interfieren con su calidad de vida.
 - Hemoptisis de difícil manejo, masiva o recurrente.
 - Presencia de un lóbulo/segmento localizado gravemente dañado que puede ser una fuente de sepsis y que puede llevar a la extensión de daño pulmonar.

Conclusiones

El manejo de las BQ no relacionadas con la FQ requiere un enfoque multidisciplinario y personalizado. Las BQ pueden tener múltiples causas, es fundamental aclarar el diagnóstico específico dada la oportunidad de tratar la enfermedad de base en varias condiciones

como aspergilosis broncopulmonar alérgica, infección por micobacterias y EII.

La tos crónica húmeda y las infecciones recurrentes son manifestaciones frecuentes, la sospecha diagnóstica es fundamental para el diagnóstico temprano. Los estudios iniciales para el paciente con BQ incluyen hemograma, Ig séricas, iontoforesis, TACAR y pruebas de función pulmonar. Durante el seguimiento de estos pacientes es fundamental la vigilancia microbiológica con cultivos de esputo al menos dos veces al año y se debe hacer seguimiento de la función pulmonar e individualizar nuevas imágenes según la evolución.

Los pilares de tratamiento son la educación del paciente, las técnicas de limpieza de las vías respiratorias y antibioticoterapia ante exacerbaciones o colonización por *Pseudomonas*; se necesita más investigación para establecer pautas de tratamiento adicionales y más efectivas. Cada paciente debe ser evaluado individualmente y por un equipo multidisciplinario para determinar el enfoque terapéutico más adecuado para su caso particular.

Financiamiento

Los autores declaran no haber recibido financiamiento para este estudio.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener conflicto de intereses.

Consideraciones éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad, consentimiento informado y aprobación ética. El estudio no involucra datos personales de pacientes ni requiere aprobación ética. No se aplican las guías SAGER.

Declaración sobre el uso de inteligencia artificial. Los autores declaran que no utilizaron ningún tipo de inteligencia artificial generativa para la redacción de este manuscrito.

Referencias

- Chalmers JD, Chang AB, Chotirmall SH, Dhar R, McShane PJ. Bronchiectasis. *Nat Rev Dis Primers*. 2018;4(1):1-18.
- O'Donnell AE. Bronchiectasis update. *Curr Opin Infect Dis*. 2018;31(2):194-8.

- Hospital Episode Statistics, Admitted Patient Care - England, 2002-03 NHS [Internet]. Digital [citado 22 de agosto de 2023]. Disponible en: <https://digital.nhs.uk/data-and-information/publications/statistical/hospital-admitted-patient-care-activity/hospital-episode-statistics-admitted-patient-care-england-2002-03>
- Karakoc GB, Yilmaz M, Altintas DU, Kendirli SG. Bronchiectasis: still a problem. *Pediatr Pulmonol*. 2001;32(2):175-8.
- Aksamit TR, O'Donnell AE, Barker A, Olivier KN, Winthrop KL, Daniels MLA, et al. Adult patients with bronchiectasis: a first look at the US Bronchiectasis Research Registry. *Chest*. 2017;151(5):982-92.
- McShane PJ, Tino G. Bronchiectasis. *Chest*. 2019;155(4):825-33.
- Chandrasekaran R, Mac Aogáin M, Chalmers JD, Elborn SJ, Chotirmall SH. Geographic variation in the aetiology, epidemiology and microbiology of bronchiectasis. *BMC Pulm Med*. 2018;18(1):83.
- Shoemark A, Moya E, Hirst RA, Patel MP, Robson EA, Hayward J, et al. High prevalence of CCDC103 p.His154Pro mutation causing primary ciliary dyskinesia disrupts protein oligomerisation and is associated with normal diagnostic investigations. *Thorax*. 2018;73(2):157-66.
- Brower KS, Del Vecchio MT, Aronoff SC. The etiologies of non-CF bronchiectasis in childhood: a systematic review of 989 subjects. *BMC Pediatr*. 2014;14(1):299.
- Chalmers JD, Smith MP, McHugh BJ, Doherty C, Govan JR, Hill AT. Short- and long-term antibiotic treatment reduces airway and systemic inflammation in non-cystic fibrosis bronchiectasis. *Am J Respir Crit Care Med*. 2012;186(7):657-65.
- Vidallac C, Chotirmall SH. *Pseudomonas aeruginosa* in bronchiectasis: infection, inflammation, and therapies. *Expert Rev Respir Med*. 2021;15(5):649-62.
- Moulton BC, Barker AF. Pathogenesis of bronchiectasis. *Clin Chest Med*. 2012;33(2):211-7.
- Saleh AD, Chalmers JD, De Soyza A, Fardon TC, Kostas SO, Scott J, et al. The heterogeneity of systemic inflammation in bronchiectasis. *Respir Med*. 2017;127:33-9.
- Poli MC, Aksentijevich I, Bousfiha AA, Cunningham-Rundles C, Hambleton S, Klein C, et al. Human inborn errors of immunity: 2024 update on the classification from the International Union of Immunological Societies Expert Committee. *J Hum Immun*. 2025;1(1):e20250003.
- Gutierrez MJ, Nino G, Sun D, Restrepo-Gualteros S, Sadreameli SC, Fiorino EK, et al. The lung in inborn errors of immunity: From clinical disease patterns to molecular pathogenesis. *J Allergy Clin Immunol*. 2022;150(6):1314-24.
- Mohammadi F, Yadegar A, Mardani M, Ayati A, Abolhassani H, Rezaei N. Organ-based clues for diagnosis of inborn errors of immunity: a practical guide for clinicians. *Immun, Inflamm Dis*. 2023;11(4):e833.
- Shoemark A, Burgoyne T, Kwan R, Dixon M, Patel MP, Rogers AV, et al. Primary ciliary dyskinesia with normal ultrastructure: three-dimensional tomography detects absence of DNAH11. *Eur Respir J*. 2018;51(2):1701809.
- Goyal V, Grimwood K, Marchant J, Masters IB, Chang AB. Does failed chronic wet cough response to antibiotics predict bronchiectasis? *Arch Dis Child*. 2014;99(6):522-5.
- Wurzel DF, Marchant JM, Yerkovich ST, Upham JW, Patsky HL, Smith-Vaughan H, et al. Protracted bacterial bronchitis in children: natural history and risk factors for bronchiectasis. *Chest*. 2016;150(5):1101-8.
- Chang AB, Bell SC, Torzillo PJ, King PT, Maguire GP, Byrnes CA, et al. Chronic suppurative lung disease and bronchiectasis in children and adults in Australia and New Zealand Thoracic Society of Australia and New Zealand guidelines. *Med J Aust*. 2015;202(3):130.
- Chang AB, Bell SC, Byrnes CA, Dawkins P, Holland AE, Kennedy E, et al. Thoracic Society of Australia and New Zealand (TSANZ) position statement on chronic suppurative lung disease and bronchiectasis in children, adolescents and adults in Australia and New Zealand. *Respirology*. 2023;28(4):339-49.
- Brody A, Chang A. The imaging definition of bronchiectasis in children: is it time for a change? *Pediatr Pulmonol*. 2018;53(1):6-7.
- Chang AB, Fortescue R, Grimwood K, Alexopoulou E, Bell L, Boyd J, et al. European Respiratory Society guidelines for the management of children and adolescents with bronchiectasis. *Eur Respir J*. 2021;58(2):2002990.
- Bueno J, Flors L. Papel de los estudios de imagen en el diagnóstico etiológico de las bronquiectasias: la distribución es la clave. *Radiología*. 2018;60(1):39-48.
- Imam JS, Duarte AG. Non-CF bronchiectasis: orphan disease no longer. *Respir Med*. 2020;166:105940.
- Murphy KP, Maher MM, O'Connor OJ. Imaging of cystic fibrosis and pediatric bronchiectasis. *AJR Am J Roentgenol*. 2016;206(3):448-54.
- Jones AM. Cystic fibrosis and non-cystic fibrosis bronchiectasis. *Semin Respir Crit Care Med*. 2015;36(2):167-8.
- Reiff DB, Wells AU, Carr DH, Cole PJ, Hansell DM. CT findings in bronchiectasis: limited value in distinguishing between idiopathic and specific types. *AJR Am J Roentgenol*. 1995;165(2):261-7.

29. Martínez-García MÁ, de Gracia J, Vendrell Relat M, Girón RM, Máiz Carro L, de la Rosa Carrillo D, et al. Multidimensional approach to non-cystic fibrosis bronchiectasis: the FACED score. *Eur Respir J*. 2014;43(5):1357-67.
30. He M, Zhu M, Wang C, Wu Z, Xiong X, Wu H, et al. Prognostic performance of the FACED score and bronchiectasis severity index in bronchiectasis: a systematic review and meta-analysis. *Biosci Rep*. 2020;40(10):BSR20194514.
31. Chalmers JD, Goeminne P, Aliberti S, McDonnell MJ, Lonni S, Davidson J, et al. The bronchiectasis severity index. An international derivation and validation study. *Am J Respir Crit Care Med*. 2014;189(5):576-85.
32. Parsons N, Kenia P, Smith H, Nagakumar P. Implementation of a Paediatric Bronchiectasis Severity Index (PBSI). *Eur Respir J*. 25 de noviembre de 2021 [citado 5 de julio de 2025];58(suppl 65). Disponible en: <https://publications.ersnet.org/content/erj/58/suppl65/oa2841>
33. Welsh EJ, Evans DJ, Fowler SJ, Spencer S. Interventions for bronchiectasis: an overview of Cochrane systematic reviews. *Cochrane Database Syst Rev*. 2015;2015(7):CD010337.
34. Wall LA, Wisner EL, Gipson KS, Sorensen RU. Bronchiectasis in primary antibody deficiencies: a multidisciplinary approach. *Front Immunol*. 2020;11:522.
35. Knowles MR, Daniels LA, Davis SD, Zariwala MA, Leigh MW. Primary ciliary dyskinesia. Recent advances in diagnostics, genetics, and characterization of clinical disease. *Am J Respir Crit Care Med*. 2013;188(8):913-22.
36. Li AM, Sonnappa S, Lex C, Wong E, Zacharasiewicz A, Bush A, et al. Non-CF bronchiectasis: does knowing the aetiology lead to changes in management? *Eur Respir J*. 2005;26(1):8-14.
37. Colom AJ, Maffey A, Garcia Bournissen F, Teper A. Pulmonary function of a paediatric cohort of patients with postinfectious bronchiolitis obliterans. A long term follow-up. *Thorax*. 2015;70(2):169-74.
38. Patria MF, Longhi B, Lelii M, Tagliabue C, Lavelli M, Galeone C, et al. Children with recurrent pneumonia and non-cystic fibrosis bronchiectasis. *Ital J Pediatr*. 2016;42:13.
39. Suarez-Cuartin G, Chalmers JD, Sibila O. Diagnostic challenges of bronchiectasis. *Respir Med*. 2016;116:70-7.
40. Abo-Leyah H, Chalmers JD. Managing and preventing exacerbation of bronchiectasis. *Curr Opin Infect Dis*. 2020;33(2):189-96.
41. McDonnell MJ, Ward C, Lordan JL, Rutherford RM. Non-cystic fibrosis bronchiectasis. *QJM*. 2013;106(8):709-15.
42. Gupta D, Aggarwal AN, Jindal SK. Pulmonary effects of passive smoking: the Indian experience. *Tob Induc Dis*. 2002;1(2):129-36.
43. Hill AT, Sullivan AL, Chalmers JD, De Soyza A, Elborn SJ, Floto AR, et al. British Thoracic Society Guideline for bronchiectasis in adults. *Thorax*. 2019;74(Suppl 1):1-69.
44. O'Neill K, O'Donnell AE, Bradley JM. Airway clearance, mucociliary therapies and pulmonary rehabilitation in bronchiectasis. *Respirology*. 2019;24(3):227-37.
45. Annoni S, Bellofiore A, Repossini E, Lazzeri M, Nicolini A, Tarsia P. Effectiveness of chest physiotherapy and pulmonary rehabilitation in patients with non-cystic fibrosis bronchiectasis: a narrative review. *Monaldi Arch Chest Dis*. 2020;90(1).
46. Martínez-García MA, Oliveira C, Máiz L, Girón RM^a, Prados C, de la Rosa D, et al. Las bronquiectasias: una enfermedad compleja y heterogénea. *Arch Bronconeumol*. 2019;55(8):427-33.
47. Kelly C, Chalmers JD, Crossingham I, Relf N, Felix LM, Evans DJ, et al. Macrolide antibiotics for bronchiectasis. *Cochrane Database Syst Rev*. 2018;2018(3):CD012406.
48. Ferri S, Crimi C, Heffler E, Campisi R, Noto A, Crimi N. Vitamin D and disease severity in bronchiectasis. *Respir Med*. 2019;148:1-5.

ARTÍCULO DE INVESTIGACIÓN

Relación entre genotipo y carga viral de virus del papiloma humano y la gravedad de presentación de la papilomatosis respiratoria recurrente en niños

Enrique G. Ortiz-Hernández*, Ariadna Vallejo, Diego Guzmán, Melissa León y Natalia Calderón

Servicio de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello, Hospital Civil Fray Antonio Alcalde, Guadalajara, Jal., México

Resumen

Introducción: La papilomatosis respiratoria recurrente es un padecimiento que se presenta mayormente en la población pediátrica con una tasa de 3.62 a 4.3 por cada 100,000 menores. La manifestación clínica más frecuente es la disfonía; sin embargo, la enfermedad puede progresar a formas más graves, generando obstrucción grave de las vías respiratorias. **Métodos:** Se realizó un estudio transversal en el cual se incluyeron pacientes diagnosticados con papilomatosis laríngea confirmado por medio de análisis histopatológico y reacción en cadena de la polimerasa; se determinó el genotipo del virus y su carga viral mediante su búsqueda en los expedientes clínicos, por medio de un formulario estructurado se capturaron las variables clínicas y genéticas de cada caso. **Resultados:** Se incorporaron 32 pacientes, con prevalencia del genotipo 6 del 41% y la misma prevalencia en el genotipo 11, con un porcentaje de coinfección con ambos subtipos del 18%. El genotipo 11 se encontró asociado a un mayor número de resecciones ($p = 0.004$), un puntaje mayor en la escala de Derkay ($p = 0.02$) y una gravedad mayor al presentar ≥ 4 cirugías por año o ≥ 10 cirugías totales ($p = 0.04$). **Conclusiones:** El genotipo 11 del virus del papiloma humano se asoció a mayor gravedad de papilomatosis respiratoria recurrente en los pacientes pediátricos, por lo tanto, dicha población resulta más susceptible a una peor evolución (lo que incrementa la demanda de atención a los servicios médicos), así como a afectación en la calidad de vida de los menores.

Palabras clave: Papilomatosis respiratoria recurrente. Virus del papiloma humano. Reacción en cadena de la polimerasa. Ácido desoxirribonucleico.

Relationship between genotype and viral load of human papillomavirus, and presentation severity of recurrent respiratory papillomatosis in pediatrics

Abstract

Background: Recurrent respiratory papillomatosis is a condition that occurs mainly in the pediatric population with a rate of 3.62 to 4.3 per 100,000 children. The most common clinical manifestation is dysphonia; however, the disease can progress to more severe forms, generating serious obstruction of the airway. **Methods:** A cross-sectional study was conducted in which patients diagnosed with laryngeal papillomatosis confirmed by histopathological analysis and polymerase chain reaction were included. The genotype of the virus and its viral load were determined through a search in the clinical records, and the clinical and genetic variables of each case were captured through a structured form. **Results:** A total of 32 patients were enrolled, of which the prevalence of genotype 6 was found in 41% and the same prevalence in the case of genotype 11,

*Correspondencia:

Enrique G. Ortiz-Hernández
E-mail: drenriquegoh@gmail.com

Fecha de recepción: 13-11-2024

Fecha de aceptación: 26-06-2025

DOI: 10.24875/BMHIM.24000145

Disponible en internet: 04-09-2025

Bol Med Hosp Infant Mex. 2025;82(5):282-288

www.bmhim.com

1665-1146/© 2025 Hospital Infantil de México Federico Gómez. Publicado por Permanyer. Este es un artículo open access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

with a percentage of coinfection with both subtypes of 18%. Genotype 11 was found to be associated with a greater number of resections ($p = 0.004$), a higher score on the Derkey scale ($p = 0.02$) and greater severity when presenting ≥ 4 surgeries per year and/or ≥ 10 total surgeries ($p = 0.04$). **Conclusions:** Human papillomavirus genotype 11 showed a greater association with the presentation of greater severity of recurrent respiratory papillomatosis in pediatric patients; therefore, this population is more susceptible to a poor outcome (which increases the demand for medical services), as well as impact on the quality of life of minors.

Keywords: Recurrent respiratory papillomatosis. Human papillomavirus. Polymerase chain reaction. Deoxyribonucleic acid.

Introducción

La papilomatosis respiratoria recurrente (PRR) es la afección tumoral laríngea más frecuente en la población pediátrica¹; aunque se trata de un padecimiento benigno que rara vez maligniza, es una enfermedad que frecuentemente tiene diseminación a lo largo de la vía aérea, y es agresiva en términos de recurrencia y extensión². El virus del papiloma humano (VPH) es un agente infeccioso epiteliotrópico ubicado dentro de su propia familia *Papillomaviridae*, taxonómicamente hablando, y en la cual se han identificado hasta 170 variantes genómicas diferentes, las cuales son llamadas genotipos y que se han agrupado en tipos cutáneos y mucosos con base en las células basales que infectan^{3,4}. La PRR es causada por infección del VPH, incorporando diferentes genotipos entre sus causantes, siendo principalmente identificados los genotipos 6 y 11 en el 90% de los casos estudiados en series^{1,5}; sin embargo, es posible la presencia de uno o más genotipos del virus en la misma lesión. Se estima que la prevalencia de la PRR es de 1.45 a 2.93 casos por cada 100,000 niños y el grupo etario con mayor susceptibilidad es aquel entre 2 a 4 años⁶.

En la evidencia médica publicada se ha encontrado una asociación positiva de una situación socioeconómica precaria, así como una presentación y diagnóstico en edades tempranas (≤ 4 años) con una mayor gravedad de la enfermedad en los pacientes pediátricos^{7,8}. La infección por el genotipo VPH-11 se ha visto asociada a mayor gravedad de la enfermedad, afectación de múltiples sitios anatómicos, frecuencia en la necesidad de procedimientos quirúrgicos, extensión hacia el tracto respiratorio inferior, así como duración^{9,10}. Sin embargo, otros estudios discrepan, mencionando no haber encontrado relación significativa entre gravedad y genotipo viral, habiéndose estudiado los genotipos 6, 11, 16, 31, 33, 35 y 39^{11,12}. Así mismo, se ha descartado relación entre carga viral y duración, extensión de la enfermedad, edad de presentación, tiempo requerido entre la necesidad de nuevo tratamiento quirúrgico o seropositividad al virus¹⁰.

La manifestación clínica más frecuente de la PRR es la disfonía crónica; sin embargo este padecimiento es importante debido a que su progresión puede llevar a una obstrucción de la vía aérea (Fig. 1); de acuerdo con la literatura, muchos estudios han identificado que entre los factores de riesgo que se asocian a la gravedad están una edad menor de presentación inicial y la presencia de determinados genotipos, principalmente el VPH-11; aunque otros autores lo asocian a la presencia del VPH-6, por lo tanto, se tiene una variabilidad de los resultados en este aspecto¹³.

El diagnóstico de la papilomatosis respiratoria se realiza mediante la exploración laríngea con ayuda de un fibroscopio, localizando lesiones exofíticas que pueden ser pediculadas, en racimo o sésiles, de color grisáceas, rosadas o aperladas, aunque a medida que la enfermedad avanza el aspecto macroscópico puede cambiar debido a la presencia de fibrosis y cicatrices laríngeas¹⁴. Sin embargo, el estudio histopatológico procedente de una biopsia o cepillado celular confirma la sospecha diagnóstica clínica por la aparición de proyecciones de epitelio escamoso estratificado queratinizado, así como los coilocitos, que son células con aspecto vacuolado y citoplasma claro. Finalmente, la identificación del genoma viral y su tipificación por medio de la prueba de reacción en cadena de la polimerasa (PCR) son el método de referencia diagnóstico¹⁵.

El tratamiento estándar para la PRR involucra la excisión quirúrgica por medio de laringoscopia y anestesia general, con el fin de asegurar adecuadamente la vía aérea y mantener una calidad vocal⁴. Los criterios más aceptados para indicar terapias adyuvantes debido a la gravedad son necesidad de ≥ 4 procedimientos quirúrgicos por año o ≥ 10 resecciones en total, así como diseminación de las lesiones fuera de vía respiratoria¹⁶.

Hasta el momento no se cuenta con información sobre la existencia de una relación entre el genotipo viral con la carga viral del VPH, y entre esta relación y la gravedad de presentación en la población pediátrica de nuestro país. De igual manera hay discrepancia en la evidencia que relaciona el genotipo con la gravedad, por lo que son necesarios más estudios para confirmar



Figura 1. Laringoscopia diagnóstica en paciente de sexo masculino de 7 años que muestra lesiones exofíticas papilomatosas aperladas dependientes de ambas cuerdas vocales y comisura anterior.

o refutar con la información presente. De manera que este estudio es una vertiente para el conocimiento epidemiológico de la papilomatosis laríngea en pacientes pediátricos a nivel nacional. El objetivo de este trabajo fue evaluar la asociación del genotipo y carga viral del VPH con la gravedad de presentación de PRR en pacientes pediátricos.

Métodos

Selección de pacientes

Se realizó un estudio transversal analítico donde se incluyeron todos aquellos pacientes pediátricos que acudieron al Servicio de Otorrinolaringología y Cirugía de Cabeza y Cuello del Benemérito Hospital Civil de Guadalajara Fray Antonio Alcalde, desde el mes de agosto de 2017 a diciembre de 2021, que contaron con el diagnóstico confirmatorio en el expediente clínico de papilomatosis laríngea, y que cumplieron con el criterio de recurrencia (aparición de lesiones en más de dos ocasiones) y la gravedad de las lesiones, evaluada por medio de la escala de Derkay-Wiatrak¹⁷, con un puntaje ≥ 10 puntos; así como la presencia de criterios utilizados para terapia coadyuvante. Se realizó un muestreo no probabilístico por conveniencia, incluyendo un total de 32 pacientes; estableciendo como criterios de inclusión: todo paciente menor de 18 años, sexo indistinto y con diagnóstico de papilomatosis laríngea confirmado

mediante análisis histopatológico y PCR en el expediente clínico. Se excluyó a los pacientes que no contaran con el expediente clínico completo, que no presentaran un grado de gravedad ≥ 10 puntos o cuya enfermedad había remitido, y que hubieran rechazado el procedimiento quirúrgico.

Muestras clínicas

Se tomaron muestras histopatológicas papilomatosas de tamaño menor a 2 mm de diámetro provenientes de la laringe de cada paciente por medio de una pinza en copa Chevalier-Jackson en técnica fría y se congelaron a -80°C para su conservación hasta el momento de su procesamiento.

Aislamiento de ADN y genotipificación de VPH

Las muestras se procesaron en el Laboratorio de microbiología y patología del Centro Universitario de Ciencias de la Salud de la Universidad de Guadalajara utilizando el kit de extracción de ADN genómico High Pure PCR Template Preparation Kit (Roche) versión 2.0 (EE.UU., Ref.11796828001). Para la extracción de ADN proveniente del tejido papilomatoso, se colocó una porción de este con 200 μl de *buffer* de lisis y se incubó a 55°C durante una hora hasta la digestión completa del tejido. Se continuó añadiendo 200 μl de *buffer* de unión y 40 μl de proteasa K, mezclando e incubando a 70°C durante 10 minutos. Posterior a ello se añadieron 100 μl de isopropanol, se mezcló y depositó en un tubo Eppendorf para ser centrifugado 1 minuto a 8,000 rpm (revoluciones por minuto), desechando el tubo colector. Continuo a ello se agregaron 500 μl de removedor de *buffer* de inhibición y se centrifugó por el mismo tiempo y revoluciones. Después se desechó nuevamente el tubo colector y se agregó 500 μl de *buffer* de lavado con posterior centrifugación por el mismo tiempo y velocidad, repitiendo esto en dos ocasiones más. Finalmente se desechó el fluido y se centrifugó 10 segundos a 13,000 rpm, colocando un nuevo tubo colector junto con 200 μl de *buffer* de lavado a 70°C , resultando con el ADN purificado.

Posterior a la extracción de ADN de las muestras histopatológicas se realizó la detección de presencia o ausencia del genoma de VPH a manera de tamizaje mediante la PCR utilizando los primers GP5+ (TTT GTT ACT GTG GTA GAT ACT AC), GP6+ (GAA AAA TAA ACT GTA AAT CAT ATTC), MY09 (CGT CCM ARR GGA WAC TGA TC), MY11 (GCM CAG GGW CTA TAA YAA

TGG), L1C1 (CGT AAA CGT TTT CCCT ATT TTTT) y L1C2 (TAC CCT AAA TAC TCT GTA TTG), descritos y utilizados por Qu et al.¹⁸. Para realizar la tipificación del genotipo de VPH se realizó una PCR en tiempo real con el kit comercial Anyplex™ II HPV28 Detection de Seegene de acuerdo con las especificaciones del proveedor; y se utilizó el equipo CFX96™ Real-time PCR System de la marca Bio Rad, que detecta cinco diferentes colorantes fluorescentes simultáneamente, siendo de nuestro especial interés los genotipos 6 y 11 del VPH, además proporcionando una carga viral semi-cuantitativa expresada en cruces (+, positivo después de 40 ciclos de PCR; ++, positivo dentro de los ciclos 31-39; y +++, positivo antes de 31 ciclos).

Análisis estadístico

Se seleccionaron pruebas no paramétricas por el tamaño muestral. Se utilizó para comparación de proporciones la prueba de χ^2 y para comparación de medianas para tres grupos la prueba de Kruskal-Wallis, y se consideró como significativo un valor de $p < 0.05$. El análisis se realizó en el programa de estadístico *Statistical Package of Social Sciences* (SPSS) versión 26.0.

Resultados

Para evaluar la asociación del genotipo, así como la carga viral del VPH, con la gravedad de la papilomatosis laríngea en la población de pacientes pediátricos se estudiaron 32 pacientes. El 69% de los participantes fueron de sexo masculino y el 31% del femenino. La edad promedio fue de 7 años, con un rango de edad mínima de 1 año y máximo de 16 años, siendo el grupo etario más frecuente el de 1 a 3 años en el 28% (Fig. 2).

La prevalencia de genotipo en el estudio se distribuyó de la siguiente manera: un 41% (13 pacientes) fueron positivos a genotipo VPH-6, al igual que el genotipo 11; mientras que la presencia de ambos genotipos en coinfección se reportó en un 18% (6 pacientes) de la población (Fig. 3). En relación con la carga viral, se encontró que la mayoría de los pacientes (69%) positivos a cada genotipo presentó una carga elevada (+++) tanto en el grupo de VPH-6 como en el de VPH-11, mientras que los pacientes que presentaron coinfección por ambos genotipos presentaron una carga viral variable, pero siendo más predominante la carga del genotipo 6 sobre el 11 (Fig. 4).

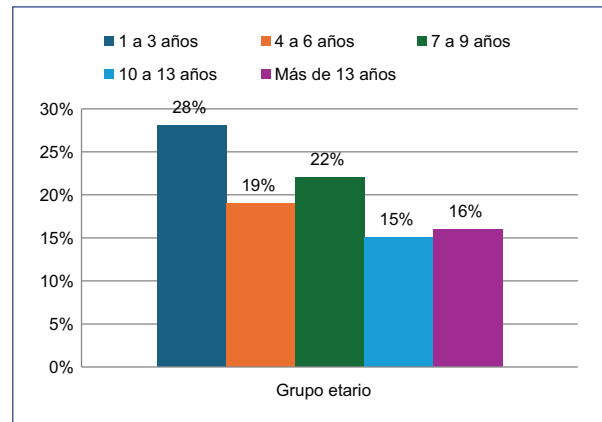


Figura 2. Distribución por grupo etario.

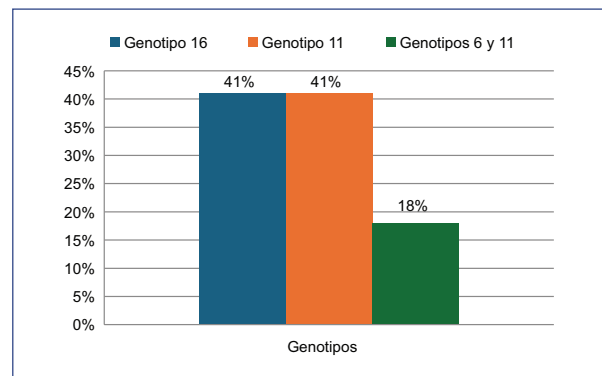


Figura 3. Distribución de genotipos detectados.

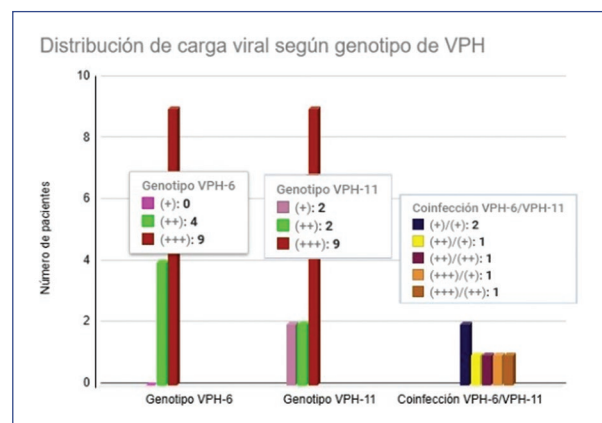


Figura 4. Representación del número de pacientes positivos a cada genotipo de VPH y la carga viral encontrada en ellos.

VPH: virus del papiloma humano.

Tabla 1. Comparación de los genotipos para la gravedad de los pacientes en el estudio*

Variables	Genotipo 6 (n = 13)	Genotipo 11 (n = 13)	Genotipo 6 y 11 (n = 6)	p
Edad, años	7 (1-14)	4 (2-16)	13 (2-16)	0.07
Masculino	8 (61)	11 (85)	3 (50)	0.24
Número de resecciones	1 (1-8)	6 (1-36)	3 (1-10)	0.004
Escala Derkay ≥ 10 pts.	2 (15)	8 (62)	1 (17)	0.02
Gravedad [†]	0	5 (39)	1 (17)	0.04

*Las variables cualitativas se expresaron mediante frecuencias (%) y las cuantitativas con medianas y rangos. Para la comparación de frecuencias se utilizó la prueba de chi cuadrada y para la comparación de medianas se usó la de Kruskal-Wallis.

[†]Definida como ≥ 4 cirugías/año o ≥ 10 cirugías totales.

El genotipo 11 fue estadísticamente más significativo (valor de p) que los otros genotipos en cuanto a las últimas tres variables (número de resecciones, escala de Derkay y gravedad), mientras que no se encontró diferencia de distribución por sexo ni edad según el genotipo.

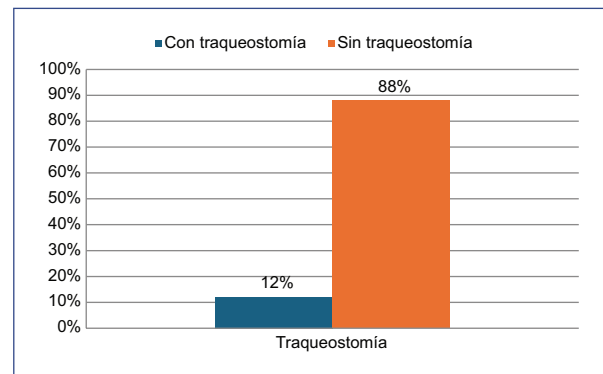
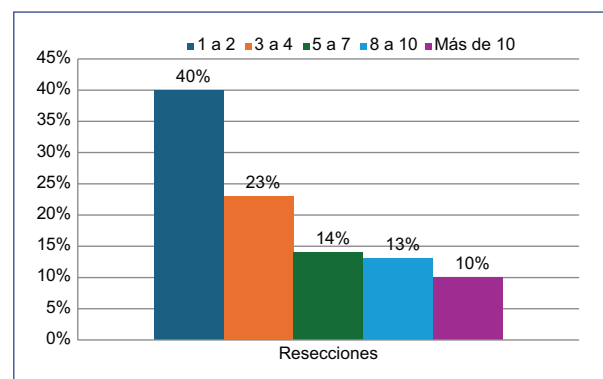
Solo el 12% de los pacientes requirieron la realización de traqueostomía (Fig. 5). El promedio de resecciones realizadas en los pacientes incorporados al estudio fue cinco; el 40% de los pacientes tuvieron de una a dos resecciones, el 23% de tres a cuatro procedimientos y solo el 10% necesitaron más de 10 resecciones (Fig. 6).

En la tabla 1 se muestra la asociación de los genotipos de VPH con la presencia de gravedad en los pacientes pediátricos con PRR. El genotipo 11 se encontró asociado a un mayor número de resecciones ($p = 0.004$), un puntaje mayor en la escala de Derkay ($p = 0.02$) y una gravedad mayor al presentar ≥ 4 cirugías por año o ≥ 10 cirugías totales ($p = 0.04$) comparado con el genotipo 6 y los casos de coinfección con ambos genotipos. No se obtuvieron diferencias estadísticas entre genotipos por edad ni sexo.

Discusión

Tras buscar la asociación entre los genotipos del VPH con presentaciones más graves de papilomatosis laríngea en pacientes pediátricos, se evidenció que el genotipo 11 está asociado a un mayor grado de gravedad con mayor puntuación en la escala de Derkay ($p = 0.02$) y con el antecedente de ≥ 4 cirugías por año o ≥ 10 cirugías totales ($p = 0.04$), comparado con el resto de los genotipos evaluados.

En contraste con lo reportado por Wiatrak et al.¹⁹, quienes plantearon un estudio longitudinal de 10 años de seguimiento con una población pediátrica con una distribución por sexo similar a la nuestra, en donde se señaló que la infección con el genotipo 11 predice una clínica más agresiva y grave para niños con PRR. La

**Figura 5.** Distribución de la realización de traqueostomía.**Figura 6.** Frecuencia de resecciones realizadas en los pacientes.

diferencia con nuestro estudio es que su población era más joven y evaluaron la asociación con factores de riesgo prenatal. Dicho resultado concuerda con lo

mostrado por Pavinee y Sonswan²⁰, en donde la puntuación media de gravedad de la enfermedad de la infección por VPH-11 fue significativamente mayor que la de la infección por VPH-6 ($p = 0.013$).

Un resultado diferente fue el publicado por Padayachee et al.²¹, quienes evaluaron 20 casos de papilomatosis laríngea y encontraron que la enfermedad causada por el VPH-6 tendía a ser más agresiva que la causada por el VPH-11, pese a que esta última fue más frecuente. La población incluida también tenía un rango de edad inferior al nuestro y su población era principalmente del sexo femenino.

En nuestro trabajo la frecuencia de genotipos fue del 41%, tanto para genotipo 6 como para genotipo 11; Pavinee y Sonswan²⁰ obtuvieron el 40% de genotipo de VPH-6 y el 60% de VPH-11. No se encontró coinfección entre VPH 6 y 11, mientras que en nuestro caso la tasa fue del 18%.

Por otra parte, es importante señalar que en nuestro estudio se encontró que aquellos pacientes con coinfección por ambos genotipos virales presentaron menor gravedad que aquellos con un solo genotipo, pese a tener presencia del genotipo 11. Esto podría deberse a que la carga viral predominante durante la coinfección pertenecía al genotipo 6, lo cual concuerda con los resultados del estudio de Cardoso Figueiredo et al.²², quienes mostraron una frecuencia del genotipo de VPH-6 del 34.1% y del 17.1% de VPH-11, así como coinfección por VPH-6 y VPH-11 en el 48.8% de sus pacientes. Bajo la premisa de que el genotipo VPH-11 provoca mayor gravedad en las lesiones papilomatosas, al ser este abatido por el genotipo 6 provocaría por consiguiente una progresión más moderada en extensión y gravedad al verse controlado por un sistema inmunitario más preparado debido al «entrenamiento» favorecido por la predominancia de un genotipo menos virulento; aunque también debe tomarse en cuenta la edad de los pacientes como elemento importante en una relación tripartita con el cuadro clínico y el genotipo, tal y como Buchinsky et al. han descrito⁸.

Parte de las limitaciones de este estudio fueron la falta de incorporación de variables asociadas con el control prenatal y la presencia de vacunación contra VPH previa o posterior al diagnóstico de la enfermedad. De igual manera se requiere realizar un estudio cuantitativo de la carga viral y que involucre mayor cantidad de genotipos junto con un mayor tamaño de muestra para corroborar la asociación, así como estudios longitudinales para determinar si la gravedad de presentación en esta entidad se relaciona con otros factores al realizar un análisis multivariante.

Conclusiones

Al evaluar la asociación del genotipo del VPH con la gravedad de presentación de PRR en pacientes pediátricos, el presente trabajo observó que el genotipo 11 se asoció a una mayor gravedad de presentación en esta población, lo cual concuerda con reportes de estudios anteriores a nivel mundial. La prevalencia de este es similar a la que presenta el genotipo 6 y no se muestra diferencia significativa con el sexo ni la edad.

Financiamiento

Centro Universitario de Ciencias de la Salud de la Universidad de Guadalajara.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener conflicto de intereses.

Consideraciones éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que los procedimientos seguidos se conformaron a las normas éticas del comité de experimentación humana responsable y de acuerdo con la Asociación Médica Mundial y la Declaración de Helsinki. Los procedimientos fueron autorizados por el Comité de Ética de la institución.

Confidencialidad, consentimiento informado y aprobación ética. El estudio no involucra datos personales de pacientes ni requiere aprobación ética. No se aplican las guías SAGER.

Declaración sobre el uso de inteligencia artificial. Los autores declaran que no utilizaron ningún tipo de inteligencia artificial generativa para la redacción de este manuscrito.

Referencias

1. Riihkanen H, Aaltonen LM, Syrjänen SM. Human papillomavirus in laryngeal papillomas and in adjacent normal epithelium. *Clin Otolaryngol Allied Sci.* 1993;18(6):470-4.
2. Glynn M, Kinsey W, Sanford PHDT, Dobbs L, Hoover L, Bruegger D. Characterization of human papillomavirus in airway papillomas by histologic and biochemical analysis. *Ann Otol Rhinol Laryngol.* 1999;108(11 Pt 1):1073-7.
3. Raj P. Classification of medically important viruses II: RNA viruses. *Clin Microbiol Newsl.* 1994;16(17):129-34.
4. Bernard HU. Genome diversity and evolution of papillomaviruses. En: Domingo E, Parrish CR, Holland JJ (editores). *Origin and Evolution of Viruses.* Elsevier; 2008. pp. 417-429.
5. Labedz G, Scatolini ML, Ruvinsky S, Rodriguez HA. Factors related to extralaryngeal spread in juvenile recurrent respiratory papillomatosis. *Laryngoscope.* 2021;131(7):1652-6.
6. Marsico M, Mehta V, Chastek B, Liaw KL, Derkey C. Estimating the incidence and prevalence of juvenile-onset recurrent respiratory papillomatosis in publicly and privately insured claims databases in the United States. *Sex Transm Dis.* 2014;41(5):300-5.

7. Yang Q, Li Y, Ma L, Xiao Y, Wang H, Ding Y, et al. Long-term outcomes of juvenile onset recurrent respiratory papillomatosis with pulmonary involvement. *Laryngoscope*. 2021;131(7):EE2277-E2283. doi: 10.1002/lary.29376
8. Buchinsky FJ, Donfack J, Derkay CS, Choi SS, Conley SF, Myer CM 3rd, et al. Age of child, more than HPV type, is associated with clinical course in recurrent respiratory papillomatosis. *PLoS One*. 2008;3(5):e2263. doi: 10.1371/journal.pone.0002263
9. Wiatrak BJ, Wiatrak DW, Broker TR, Lewis L. Recurrent respiratory papillomatosis: a longitudinal study comparing severity associated with human papilloma viral types 6 and 11 and other risk factors in a large pediatric population. *Laryngoscope*. 2004;114(S104):1-23.
10. Maloney EM, Unger ER, Tucker RA, Swan D, Karem K, Todd NW, et al. Longitudinal measures of human papillomavirus 6 and 11 viral loads and antibody response in children with recurrent respiratory papillomatosis. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2006;132(7):711-5.
11. Penaloza-Plascencia M, Montoya-Fuentes H, Flores-Martínez SE, Fierro-Velasco FJ, Peñaloza-González JM, Sánchez-Corona J. Molecular identification of 7 human papillomavirus types in recurrent respiratory papillomatosis. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2000;126(9):1119-23.
12. Sanchez GI, Jaramillo R, Cuella G, Quintero K, Baena A, O'Byrne A, et al. Human papillomavirus genotype detection in recurrent respiratory papillomatosis (RRP) in Colombia. *Head Neck*. 2013;35(2):229-34.
13. Moreddu E, Lambert E, Kacmarynski D, Nicollas R, Triglia JM, Smith RJ. Risk factors for severity of juvenile-onset recurrent respiratory papillomatosis at first endoscopy. *Eur Ann Otorhinolaryngol Head Neck Dis*. 2019;136(1):25-8.
14. Fortes HR, von Ranke FM, Escuissato DL, Neto CAA, Zanetti G, Hochhegger B, et al. Recurrent respiratory papillomatosis: a state-of-the-art review. *Respir Med*. 2017;126:116-21.
15. Wilcox LJ, Hull BP, Baldassari CM, Derkay CS. Diagnosis and management of recurrent respiratory papillomatosis. *Pediatr Infect Dis J*. 2014;33(12):1283-4.
16. Derkay CS, Blumer AE. Update on Recurrent Respiratory Papillomatosis. *Otolaryngol Clin North Am*. 2019;52(4):669-79.
17. Derkay CS, Malis DJ, Zalzal G, Wiatrak BJ, Kashima HK, Coltrera MD. A staging system for assessing severity of disease and response to therapy in recurrent respiratory papillomatosis. *Laryngoscop*. 1998;108(6):935-7.
18. Qu W, Jiang G, Cruz Y, Chang CJ, Ho GY, Klein RS, et al. PCR detection of human papillomavirus: comparison between MY09/MY11 and GP5+/GP6+ primer systems. *J Clin Microbiol*. 1997;35(6):1304-10.
19. Wiatrak BJ, Wiatrak DW, Broker TR, Lewis L. Recurrent respiratory papillomatosis: A longitudinal study comparing severity associated with human papilloma viral types 6 and 11 and other risk factors in a large pediatric population. *Laryngoscope*. 2004;114(11 II):1-23.
20. Pavinee I, Sonuwan N. Human papillomatosis genotyping and severity in patients with recurrent respiratory papillomatosis. *J Med Assoc Thai*. 2014;97(Suppl 6):S136-S141.
21. Padayachee A, Prescott CA. Relationship between the clinical course and HPV typing of recurrent laryngeal papillomatosis: The Red Cross War Memorial Children's Hospital experience 1982-1988. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 1993;26:141-7.
22. Figueiredo MC, Justino MC, Delmonico L, Silvestre RT, de Castro TL, dos Santos Moreira A, et al. Prevalence and clinical implications of low-risk human papillomavirus among patients with recurrent respiratory papillomatosis in Rio de Janeiro, Brazil. *Auris Nasus Larynx*. 2019;46(4):570-5.

Complications and blood transfusions in newborns are associated with a higher milliliters per kilogram ratio of blood extracted for laboratory studies

Lorena Salazar-Cavazos¹, Jesus J. Solís-Flores¹, Carmen L. de Hoyos-Ramón¹, Marco A. Flores-Heredia¹, Luis G. Martínez-Valades¹, and Lucas A. Garza-Garza²

¹Departamento de Neonatología, Hospital Conchita; ²Departamento de Oftalmología, Tec de Monterrey. Monterrey, Nuevo León, México

Abstract

Background: Phlebotomy-associated blood loss is a clinical concern in term and pre-term newborns. Previous reports have associated a higher volume of phlebotomy associated blood loss to a more pre-term status and to the need for blood transfusions. The present study was undertaken to evaluate the amount of phlebotomy-associated blood loss and its associations. **Methods:** Retrospective, observational, and analytical study conducted through a retrospective chart review. The primary objective was to determine the association between the presence of the endpoint “any complications” and the mean phlebotomy-associated blood loss in milliliters/kilograms (mL/kg). Blood loss was quantified using the corresponding documentation sheet in the clinical record, as reported by the nursery service. **Results:** 176 patients were included in the present study. Male: female ratio was 1.67:1.00. Mean gestational weeks was 34.2 with a standard deviation of 3.7. Patients meeting the composite endpoint “any complications” had a higher mean mL/kg of phlebotomy-associated blood loss than those who did not (10.93 vs. 2.91, $p < 0.001$). In addition, patients requiring blood transfusions had higher mL/kg of phlebotomy-associated blood loss than those who did not (21.16 vs. 4.21, $p < 0.001$). Finally, more pre-term status was significantly associated with a higher phlebotomy-associated blood loss ($p < 0.001$). **Conclusions:** The presence of any complications, more pre-term status and need for blood transfusions was significantly associated with a higher mL/kg phlebotomy-associated blood loss. Bigger, prospective studies controlling other variables and temporality are needed to fully grasp the clinical consequences of a high mL/kg phlebotomy-associated blood loss.

Keywords: Pre-term. Laboratory studies. Blood extraction. Milliliters/kilograms. Blood transfusions.

Las complicaciones y las transfusiones de sangre en los recién nacidos se asocian a una mayor proporción de mililitros por kilogramo de sangre extraída para estudios de laboratorio

Resumen

Introducción: La pérdida de sangre asociada a la flebotomía es una preocupación clínica en los recién nacidos a término y prematuros. Informes previos han asociado un mayor volumen de pérdida de sangre asociada a la flebotomía con un estado más prematuro y con la necesidad de transfusiones de sangre. El presente estudio se realizó para evaluar la cantidad de pérdida de sangre asociada a la flebotomía y sus asociaciones. **Métodos:** Estudio retrospectivo, observacional y analítico realizado por

*Correspondence:

Lorena Salazar-Cavazos

E-mail: lorena.salazar.cavazos@gmail.com

1665-1146/© 2025 Hospital Infantil de México Federico Gómez. Published by Permayer. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Date of reception: 20-11-2024

Date of acceptance: 27-01-2025

DOI: 10.24875/BMHIM.24000148

Available online: 04-09-2025

Bol Med Hosp Infant Mex. 2025;82(5):289-294

www.bmhim.com

medio de una revisión retrospectiva de historias clínicas. El objetivo principal fue determinar la asociación entre la presencia del objetivo compuesto «cualquier complicación» y la pérdida de sangre media asociada a la flebotomía en mL/kg. La pérdida de sangre se cuantificó usando la hoja correspondiente en el expediente clínico documentada por el servicio de enfermería. **Resultados:** Se incluyeron 176 pacientes en el presente estudio. La relación hombre: mujer fue de 1.67:1.00. La media de semanas de gestación fue de 34.2, con una desviación estándar de 3.7. Los pacientes que cumplieron con el criterio de valoración compuesto «cualquier complicación» tuvieron una media mayor de mL/kg de pérdida de sangre asociada a la flebotomía que aquellos que sí lo cumplieron (10.93 vs. 2.91; $p < 0.001$). Además, los pacientes que requirieron transfusiones de sangre tuvieron una mayor pérdida de sangre asociada a la flebotomía en mL/kg que aquellos que no las requirieron (21.16 vs. 4.21; $p < 0.001$). Finalmente, un mayor estado de prematuridad se asoció significativamente con una mayor pérdida de sangre asociada a la flebotomía ($p < 0.001$). **Conclusiones:** La presencia de cualquier complicación, un mayor estado de prematuridad y la necesidad de transfusiones de sangre se asociaron significativamente con una mayor pérdida de sangre asociada a la flebotomía en mL/kg. Se necesitan estudios prospectivos más amplios que controlen otras variables y la temporalidad para comprender plenamente las consecuencias clínicas de una alta pérdida de sangre asociada a la flebotomía en mL/kg.

Palabras clave: Prematuro. Estudios de laboratorio. Extracción de sangre. Mililitros/kilogramos. Transfusiones de sangre.

Introduction

In the pre-term newborn (PN) and term newborn (TN) phlebotomy-associated blood loss (PABL) is a common concern in the neonatal intensive care unit (NICU)¹⁻⁴, as it may participate in the development of anemia¹⁻⁴. Anemia is more common, severe, and prolonged in the PN than in its term counterpart (TN) and commonly requires at least one blood transfusion as treatment⁵. The severity and duration of anemia in the PN is associated with faster-dwindling iron deposits, a lower half-life of red blood cells and a temporary inability to raise the circulating erythropoietin levels⁵. As this can lead to a need for blood transfusion, which is not free of risks⁶⁻⁸, a strict vigilance of the PABL in milliliters/kilograms (mL/kg) extracted is of the utmost importance. Some of the risks associated to blood transfusions in PNs include hemolytic transfusional reactions, alloimmunization, volume overload, allergic reactions; iron excess, transfusion-associated infections, intraventricular hemorrhage (IVH), necrotizing enterocolitis (NEC), bronchopulmonary dysplasia (BPD) and increased risk of retinopathy of prematurity⁶⁻⁸. Previous guidelines have marked safe thresholds for PABL^{9,10}. Still, previous reports have found that PABL can vary between 16 and 65 mL/kg in the first 2 weeks of life in PNs¹¹⁻¹³. To the authors' best knowledge, no previous study has reported the PABL in PNs and TNs in Mexico. Therefore, it is the objective of the present study to describe the mL/kg PABL and its associations in a group of patients from northern Mexico.

Methods

The present study has an observational, retrospective and analytical design. It was undertaken in the

NICU of a tertiary academic center in northern Mexico. The present study was waived from being presented to the local ethics committee (Hospital de Ginecología y Obstetricia de Monterrey (Hospital Ginequito [HG]) internal ethics committee) due to its retrospective and observational nature. In addition, the present study adhered to the tenets present in the Declaration of Helsinki and no identifiable information from any patient was included. PN and TN born in HG who entered the NICU of any gender and age in 2022 and 2023 were included. The only two exclusion criteria were an incomplete clinical record and the transfer to another NICU outside the study's center. Physical and electronic clinical records of included patients were reviewed for sociodemographic data, clinical characteristics and PABL, which was reported as milliliters and as mL/kg. PABL was measured daily and documented in the fluid specifications sheet by the nursery staff, which is present in every clinical record of the study's center. The total PABL for each patient in their full hospitalization was used as the final measure. Due to the retrospective nature of the present study, no study's investigator was present at the time of the PABL quantification. As the fluid specifications sheet did not report the PABL divided between peripheral and central catheters, the amount provided by each is not available. As is inherent to retrospective studies, this data recollection method is imperfect and is prone to retrospective biases. Term status was classified as: Term ≥ 37 weeks of gestation (WG), Late pre-term 34-36 WG, Moderate pre-term 32-33.6 WG, Very pre-term 28-31.6 WG, and Extreme pre-term < 28 WG, in accordance to previous reports¹⁴. Data were emptied into an Excel spreadsheet (Microsoft Office Excel, Microsoft, USA) without any identifying data. The primary objective was to determine if the

Table 1. Descriptive statistics of the full sample

Variable	Result (n = 176)
Maternal age [†]	31.39 (5.157)
Newborn gender*	31.40
Male	110 (62.5)
Female	66 (37.5)
Male: Female ratio	1.67:1.00
Prenatal steroid scheme*	
Complete	22 (12.5)
Incomplete	30 (17.0)
None	123 (69.9)
Birth*	
Labor	2 (1.1)
Accidental birth	1 (0.6)
Cesarean section	173 (98.3)
Primary diagnosis*	
Preterm	91 (51.7)
Neonatal sepsis	65 (36.9)
Other	20 (11.3)
Gestational weeks [†]	34.244 (3.7564)
OMS term classification*	
Term ≥ 37 WG	58 (33.0)
Late preterm 34-36 WG	56 (31.8)
Moderate preterm 32-33.6 WG	19 (10.8)
Very preterm 28-31.6 WG	32 (18.2)
Extreme preterm < 28 WG	11 (6.3)
Birth weight [†]	2282.34 (928.452)
Apgar 1 [†]	8.20 (1.293)
Apgar 5 [†]	9.29 (.973)
Silverman 1 [†]	0.28 (0.777)
Silverman 2 [†]	1.64 (1.473)
Size (centimeters) [†]	45.037 (6.3558)
Cephalic perimeter [†]	31.509 (4.0888)
Need for antibiotics*	149 (84.7)
Need for antifungals*	25 (14.2)
Need for amine therapy*	19 (10.8)
Retinopathy of preterm*	8 (4.5)
Necrotizing enterocolitis*	19 (10.8)
Bronchopulmonary dysplasia*	8 (4.5)
Intraventricular hemorrhage*	8 (4.5)
Need for surgery*	21 (11.9)
Laboratory values [†]	
Basal hemoglobin	16.2480 (2.61141)
Basal hematocrit	47.5378 (8.62823)
Last hemoglobin	14.2035 (2.99189)
Last hematocrit	41.3594 (9.76327)

(Continues)

Table 1. Descriptive statistics of the full sample (continued)

Variable	Result (n = 176)
Blood transfusions*	32 (18.2)
Number of transfusions in all patients [†]	26 (0.623)
Number of transfusions only in patients needing transfusions [†]	1.44 (0.669)
Hematocrit during transfusion [†]	27.3875%
Phlebotomy-associated blood-loss in milliliters [†]	11.2153 (10.12978)
Phlebotomy-associated blood-loss in milliliters/kilogram [†]	7.3177 (10.11590)
Any complication* [§]	96 (54.5)
Phlebotomy-associated blood-loss in milliliters/kilogram according to preterm classification [†]	
Term ≥ 37 WG	2.9777 (3.28885)
Late preterm 34-36 WG	3.2653 (2.22132)
Moderate preterm 32-33.6 WG	8.6901 (11.89036)
Very preterm 28-31.6 WG	17.0702 (13.78024)
Extreme preterm < 28 WG	19.7224 (13.12802)
Blood transfusions per preterm classification*	
Term ≥ 37 WG	7 (12.1)
Late preterm 34-36 WG	2 (3.6)
Moderate preterm 32-33.6 WG	2 (10.5)
Very preterm 28-31.6 WG	14 (43.8)
Extreme preterm < 28 WG	7 (63.6)

*Absolute number and percentage.

[†]Average and standard deviation.[§]Any complication includes: death, sepsis, need for surgery, need for vasoactive drugs administration, intraventricular hemorrhage in any degree, bronchopulmonary dysplasia or necrotizing enterocolitis.

WG: Weeks of gestation.

mL/kg PABL was different in the composite endpoint “presence of any complication” (death, sepsis, need for surgery, need for vasoactive drugs administration, IVH in any degree, BPD or NEC) than in its absence. Additional secondary objectives included the association between pre-term staging and PABL, transfusions and PABL, pre-term staging and complications and transfusions and pre-term staging.

Statistical analysis

Data from the Excel spreadsheet were transposed into the Statistical Package for the Social Sciences (SPSS) sheet (SPSS statistics, IBM, Addison). Numerical variables were described with central tendency and dispersion measures and categorical variables with absolute numbers and percentages. The association between non-related categorical variables

Table 2. Difference in phlebotomy associated blood-loss in milliliters, milliliters/kilogram, initial hemoglobin, final hemoglobin, initial hematocrit and final hematocrit according first to the presence or absence of any complications and then to need for blood transfusions

Variable	Any complication	No complication	p
Phlebotomy associated blood-loss in milliliters*	15.2474	6.3769	< 0.001
Phlebotomy associated blood-loss in milliliters/kilogram*	10.9398	2.9162	< 0.001
Basal hemoglobin*	16.0359	16.5024	0.239
Basal hematocrit*	46.8162	48.4038	0.225
Last hemoglobin*	13.1723	15.4410	< 0.001
Last hematocrit*	38.5788	44.6963	< 0.001
Variable	Patients requiring blood transfusions	Patients not requiring blood transfusions	p
Phlebotomy associated blood-loss in milliliters*	24.7172	8.2149	< 0.001
Phlebotomy associated blood-loss in milliliters/kilogram*	21.1669	4.2186	< 0.001

*Expressed as average.

was examined with the Chi square test. The difference in numerical variables divided by 2 and more than 2 groups was analyzed with the Student-t and one-way ANOVA tests, respectively. A p value lower than 0.05 was considered statistically significant.

Results

We included 176 patients in the present study. The descriptive statistics for the full sample are depicted in [table 1](#). The mean of maternal age was 31.39 with a standard deviation (SD) of 5.1 years. A slight preponderance of male newborns was detected (male: female ratio of 1.67:1.00). Most newborns included in the present study were born through Cesarean section (98.3%) and their primary diagnosis for entering the NICU were pre-term in 51.7%, neonatal sepsis in 36.9% and others

in 11.4%. The mean of gestational weeks in the full sample was 34.2 with a SD of 3.7. The most common term classifications were term in 33.0% and late pre-term in 31.8%. The mean PABL (mL/kg) in the full sample was 7.31 with an SD 10.11 and the presence of any complication was detected in 96 patients (54.5%). Additional descriptive data (Apgar, birth weight, silverman, size, and other clinical characteristics) can be found extensively reported in [table 1](#). The difference in PABL and other numerical variables according to the presence or absence of complications is reported in [table 2](#). Both milliliters and mL/kg of PABL were higher in the any complication than in the no complication group (mean 15.24 vs. 6.37 and 10.93 vs. 2.91, both $p < 0.001$). Basal hemoglobin and hematocrit did not significantly differ between both groups. However, the last hemoglobin and hematocrit were lower in the any complication compared to the no complications group ($p < 0.001$). When examining patients according to their term classification ([Table 3](#)) moderate pre-term, very pre-term and extreme PNs had higher mean PABL in both milliliters and mL/kg compared to term and late pre-term patients. Both of these differences were statistically significant ($p < 0.001$). The PABL examined through patients requiring and not requiring blood transfusions was also examined ([Table 2](#)) and those that did require them had higher milliliters and mL/kg PABL than those who did not (24.71 vs. 8.21 and 21.16 vs. 4.21, respectively, $p < 0.001$ in both cases). On the other hand, the association between the presence of any complication and term classification is reported in [table 4](#). Here, a higher proportion of the presence of any complication was seen in the groups moderate pre-term, very pre-term and extremely pre-term (14 [73.7%], 24 [75.0%] and 11 [100.0%], respectively) compared with term and late pre-term (26 [44.8%] and 21 [37.5%], respectively). This difference was statistically significant (< 0.001). The association between the need for blood transfusions and term classification was also reviewed and is presented in [table 4](#). The groups very pre-term and extremely pre-term had the highest proportion of need for blood transfusions (14 [43.8%] and 7 [63.6%], respectively), while term, late pre-term and moderate pre-term had lower proportions (7 [12.1, 2 [3.6%] and 2 [10.5%], respectively) with a $p < 0.001$. Finally in this section, additional results (descriptive statistics, associations between PABL and blood transfusions and other variables) are available in the supplementary material (Supplementary Tables S1-11).

Table 3. Difference in phlebotomy associated blood-loss in milliliters and milliliters/kilogram according to term classification

Variable	Term	Late preterm	Moderate preterm	Very preterm	Extreme preterm	p
Phlebotomy associated blood-loss in milliliters*	8.9509	7.2741	12.3132	20.3047	14.8818	< 0.001
Phlebotomy associated blood-loss in milliliters/kilogram*	2.9777	3.2653	8.6901	17.0702	19.7224	< 0.001

*Expressed as average.

Table 4. Proportion of any complication and need for blood transfusion according to term classification

Variable	Presence of any complication (%)	Absence of any complication (%)	p
Term/	26 (44.8)	32 (55.2)	< 0.001
Late preterm/	21 (37.5)	35 (62.5)	
Moderate preterm/	14 (73.7)	5 (26.3)	
Very preterm/	24 (75.0)	8 (25.0)	
Extremely preterm/	11 (100.0)	0 (0.0)	
Variable	Need for blood transfusion (%)	No need for blood transfusion (%)	p
Term/	7 (12.1)	51 (87.9)	< 0.001
Late preterm/	2 (3.6)	54 (96.4)	
Moderate preterm/	2 (10.5)	17 (89.5)	
Very preterm/	14 (43.8)	18 (56.3)	
Extremely preterm/	7 (63.6)	4 (36.4)	

/Reported as frequencies and percentages.

Discussion

The present study reports on the PABL and its associations in PN and TN from a cohort in northern Mexico. To the authors' best knowledge, no previous study regarding this matter has been published in this region. As previously stated, anemia is a highly relevant problem with an even higher morbidity and difficulty to resolve in PN⁵. Furthermore, those requiring blood transfusions as treatment face another set of possible risks⁶⁻⁸. Therefore, optimal control of all factors increasing the risk of anemia for PN and TN is of the utmost importance. Although not extensively studied, PABL

has been reported by previous authors to contribute to the risk of anemia^{1-4,15}. In PN and TN a single mL/kg of PABL can represent 1% or higher of their total blood volume¹⁰. Previous guidelines and recommendations regarding PABL vary greatly (0.8-4.0 mL/kg) and have been reported in general or by age specific groups¹⁰. Key points to minimize PABL include following the safe limits established by previous guidelines, lowering such limits in sick or hemoglobin-deficient patients, coordinating the clinical and research PABL needs to not cross the established limits and minimize the number and discomfort associated to PABL procedures¹⁰. In addition, specific subgroups of patients with certain ethnic backgrounds, diseases or other conditions may be underrepresented by actual guidelines and more research on their PABL limits is needed¹⁰. In the present study, mean PABL in mL/kg in the overall sample (7.3) and in the term groups moderate pre-term (8.69), very pre-term (17.07) and extreme pre-term (19.72) surpass these previously stated safe limits. However, previous reports on PABL in PN in other populations have also documented similar or higher averages^{12,13}. Therefore, previously stated safe limits¹⁰ could not be reflective of actual "real-world" clinical practices. In addition, in the aforementioned study by Madsen et al.¹² and in another study by Hack and Khodabux¹⁶, a higher PABL was associated with the need for blood transfusions, which agrees with the findings in the present paper. Another relevant finding in the present paper was a higher PABL in patients experiencing any complications and in more pre-term patients. Previous reports have also documented that PABL is higher on more pre-term patients¹⁵, but scarce information is available on the association between PABL and complications other than anemia in PN. It must be stated that the degree of pre-maturity, the need for blood transfusions and the presence of complications are also inter-associated variables as seen in the present paper. Therefore, it is hard to ascertain if PABL has any

causative effect on the other variables, or if it is only a marker of the severe diseases, high risks and laboratory-investigative needs seen in PN. On a final note, the authors would like to comment on the present study's weakness. First of all, it inherently possesses bias associated with retrospective studies, such as information bias, as clinical records were not originally written by the present authors. This retrospective bias extends to PABL, as it was quantified with a specific sheet in the clinical record and the study's investigators were not present for its quantifications. In addition, the temporal relationship between the PABL and other variables is uncertain. Larger, prospective studies controlling other variables would be of great importance to critically determine the real impact of PABL in the possible complications of PN.

Conclusions

PABL is associated with the presence of complications, more pre-term patients and the need for blood transfusions. Larger, prospective studies with an emphasis on other variables' control and temporality are needed to fully grasp the clinical implications of a high mL/kg PABL.

Funding

The authors declare that they have not received funding.

Conflicts of interest

The authors declare no conflicts of interest.

Ethical considerations

Protection of humans and animals. The authors declare that the procedures followed complied with the ethical standards of the responsible human experimentation committee and adhered to the World Medical Association and the Declaration of Helsinki. The procedures were approved by the institutional Ethics Committee.

Confidentiality, informed consent, and ethical approval. The authors have obtained approval from the Ethics Committee for the analysis of routinely obtained

and anonymized clinical data, so informed consent was not necessary. Relevant guidelines were followed.

Declaration on the use of artificial intelligence. The authors declare that no generative artificial intelligence was used in the writing of this manuscript.

Supplementary data

Supplementary data are available at DOI: 10.24875/BMHIM.24000148. These data are provided by the corresponding author and published online for the benefit of the reader. The contents of supplementary data are the sole responsibility of the authors.

References

1. Villeneuve A, Arsenault V, Lacroix J, Tucci M. Neonatal red blood cell transfusion. *Vox Sang.* 2021;116:366-78.
2. Von Lindern JS, Lopriore E. Management and prevention of neonatal anemia: current evidence and guidelines. *Expert Rev Hematol.* 2014;7:195-202.
3. Kilpatrick ES, Ginn EL, Lee BH. Reducing neonatal phlebotomy blood losses through the accurate calculation of minimum test volume requirements. *Ann Clin Biochem.* 2021;58:593-8.
4. Whitehead NS, Williams LO, Meleth S, Kennedy SM, Ubaka-Blackmoore N, Geaghan SM, et al. Interventions to prevent iatrogenic anemia: a laboratory medicine best practices systematic review. *Crit Care.* 2019;23:278.
5. Kirpalani H, Whyte RK, Andersen C, Asztalos EV, Heddle N, Blajchman MA, et al. The premature infants in need of transfusion (PINT) study: a randomized, controlled trial of a restrictive (low) versus liberal (high) transfusion threshold for extremely low birth weight infants. *J Pediatr.* 2006;149:301-7.
6. Christensen RD. Associations between "early" red blood cell transfusion and severe intraventricular hemorrhage, and between "late" red blood cell transfusion and necrotizing enterocolitis. *Semin Perinatol.* 2012;36:283-9.
7. Crawford TM, Andersen CC, Hodyl NA, Robertson SA, Stark MJ. The contribution of red blood cell transfusion to neonatal morbidity and mortality. *J Paediatr Child Health.* 2019;55:387-92.
8. D'Amato G, Faienza MF, Palladino V, Bianchi FP, Natale MP, Christensen RD, et al. Red blood cell transfusions and potentially related morbidities in neonates under 32 weeks' gestation. *Blood Transfus.* 2020;19:113-9.
9. Gibson BE, Todd A, Roberts I, Pamphilon D, Rodeck C, Bolton-Maggs P, et al. Transfusion guidelines for neonates and older children. *Br J Haematol.* 2004;124:433-53.
10. Howie SR. Blood sample volumes in child health research: review of safe limits. *Bull World Health Organ.* 2011;89:46-53.
11. Becquet O, Guyot D, Kuo P, Pawlotsky F, Besnard M, Papouin M, et al. Respective effects of phlebotomy losses and erythropoietin treatment on the need for blood transfusion in very premature infants. *BMC Pediatr.* 2013;13:176.
12. Madsen LP, Rasmussen MK, Bjerregaard LL, Nøhr SB, Ebbesen F. Impact of blood sampling in very preterm infants. *Scand J Clin Lab Invest.* 2000;60:125-32.
13. Ringer SA, Richardson DK, Sacher RA, Keszler M, Churchill WH. Variations in transfusion practice in neonatal intensive care. *Pediatrics.* 1998;101:194-200.
14. Karnati S, Kollikonda S, Abu-Shaweesh J. Late preterm infants - changing trends and continuing challenges. *Int J Pediatr Adolesc Med.* 2020;7:38-46.
15. Puia-Dumitrescu M, Tanaka DT, Spears TG, Daniel CJ, Kumar KR, Athavale K, et al. Patterns of phlebotomy blood loss and transfusions in extremely low birth weight infants. *J Perinatol.* 2019;39:1670-5.
16. Hack KE, Khodabux CM, Von Lindern JS, Brouwers HA, Scherjon SA, Van Rijn HJ, et al. Bloedtransfusiebehoefte bij prematuren in 2 nederlandse perinatologische centra sterk bepaald door bloedafname voor diagnostiek. *Ned Tijdschr Geneesk.* 2008;152:1419-25.

ARTÍCULO DE INVESTIGACIÓN

Síndrome de médula anclada en pediatría. Presentación clínica, diagnóstico, etiología y resultados del tratamiento médico-quirúrgico

Antonio Heredia-Gutiérrez^{1*}, María E. Carbarín-Carbarín² y Víctor R. Ortiz-Juárez³

¹Servicio de Neurocirugía Pediátrica; ²Servicio de Pediatría; ³Servicio de Epidemiología. Unidad Médica de Alta Especialidad, Instituto Mexicano del Seguro Social, Puebla, Pue., México

Resumen

Introducción: El síndrome de médula anclada (SMA) es la manifestación clínica de una tracción anormal de la médula espinal, ocasionando afección sensitivo-motora de extremidades inferiores, escoliosis, lumbalgia y disfunción vesical e intestinal; pueden coexistir anomalías cutáneas. El diagnóstico se sospecha mediante la historia clínica y exploración física detallada, complementándose con el ultrasonido y la resonancia magnética lumbosacra. **Métodos:** Se realizó un estudio retrospectivo de abril de 2019 a octubre de 2024. Criterios de inclusión: a) menor de 17 años; b) sintomatología y exploración física compatible con SMA; c) diagnóstico por imagen de SMA, y d) haber sido intervenidos quirúrgicamente. Se reportan los resultados a los 12 meses del posquirúrgico. **Resultados:** Se evaluaron 18 pacientes, con una edad promedio de 83.27 meses (2-180). La causa fue filum hipertrófico (n = 6), seno dérmico (n = 4), lipomielomeningocele (n = 4), filum lipomatoso (n = 2) y operado de mielomeningocele (n = 2). Los síntomas preoperatorios fueron disfunción vesical 33.33%, estreñimiento 33.33%, paraplejía 22.22%, parestesias 22.22%, lumbalgia 22.22%, dedos de pies en garra 16.66%, fiebre 16.66%, salida de líquido cefalorraquídeo 5.55%, pie equino 5.55%, escoliosis 5.55% y dolor abdominal agudo 5.55%. Hubo estigmas cutáneos en el 61.11%. Se utilizó resonancia magnética en 17 pacientes y ultrasonido en dos. Con la cirugía hubo mejoría de la sintomatología prequirúrgica, la prueba de Wilcoxon nos dio un valor de $p < 0.001$. **Conclusiones:** La cirugía ayuda a disminuir la sintomatología y evitar una mayor afección neurológica; en pacientes asintomáticos previene el riesgo de daño neurológico.

Palabras clave: Síndrome médula anclada. Pediatría. Disrafismo espinal. Espina bífida.

Tethered cord syndrome in pediatrics. Clinical presentation, diagnosis, etiology, and results of medical-surgical treatment

Abstract

Background: Tethered cord syndrome (TCS) is the clinical manifestation of abnormal traction of the spinal cord, causing sensory-motor impairment of the lower limbs, scoliosis, low back pain, bladder and intestinal dysfunction; cutaneous abnormalities may be present. The diagnosis is suspected through clinical history and detailed physical examination. It is complemented by ultrasound and lumbosacral magnetic resonance imaging. **Methods:** A retrospective study was carried out from April 2019 to October 2024. The inclusion criteria: a) Under 17 years old; b) symptoms and physical examination compatible with TCS; c) imaging diagnosis of TCS, and d) having undergone surgery. The results are reported at 12 months after surgery. **Results:** Eighteen patients were evaluated, with an average age of 83.27 months (2-180). The etiology was hypertrophic

*Correspondencia:

Antonio Heredia-Gutiérrez
E-mail: antonhered@yahoo.com

Fecha de recepción: 19-01-2025

Fecha de aceptación: 26-06-2025

DOI: 10.24875/BMHIM.25000011

Disponible en internet: 04-09-2025

Bol Med Hosp Infant Mex. 2025;82(5):295-303

www.bmhim.com

1665-1146/© 2025 Hospital Infantil de México Federico Gómez. Publicado por Permanyer. Este es un artículo open access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

filum (n = 6), *dermal sinus* (n = 4), *lipomyelomeningocele* (n = 4), *lipomatosus filum* (n = 2), and *postoperative myelomeningocele* (n = 2). The preoperative symptoms were bladder dysfunction 33.33%, constipation 33.33%, paraplegia 22.22%, paresthesia 22.22%, low back pain 22.22%, claw toes 16.66%, fever 16.66%, cerebrospinal fluid leakage 5.55%, club foot 5.55%, scoliosis 5.55%, and acute abdominal pain 5.55%. There were cutaneous stigmata in 61.11%. Magnetic resonance imaging was used in 17 patients and ultrasound in two. With surgery there was improvement in preoperative symptoms, the Wilcoxon test gave us a $p < 0.001$. **Conclusions:** Surgery helps to reduce symptoms and prevent further neurological damage; in asymptomatic patients it prevents the risk of neurological injury.

Keywords: Tethered cord syndrome. Pediatrics. Spinal dysraphism. Spina bifida.

Introducción

El síndrome de médula anclada (SMA) es una entidad clínica infrecuente en pediatría, tiene una incidencia de 0.25-0.8/1,000 nacimientos¹ y se define como la manifestación clínica de una tracción excesiva de la médula espinal distal, generando un daño secundario en la irrigación sanguínea y el metabolismo medular, ocasionando una afección sensitiva y motora de las extremidades inferiores con deformación de los dedos de los pies, escoliosis, dolor de espalda y disfunción vesical e intestinal. El desarrollo neural inicia en la tercera semana de gestación. La neurulación primaria ocurre cuando el ectodermo que está encima de la notocorda prolifera y forma la placa neural. Los bordes de la placa se elevan y fusionan para formar el tubo neural. Luego ocurre la neurulación secundaria para generar los segmentos espinales por debajo de L2^{2,3}. Se ha demostrado que la ingesta preconcepción de 400-800 µg de ácido fólico previene el desarrollo de defectos del tubo neural^{4,5}.

En el SMA pueden existir diversas anomalías cutáneas de la línea media, como mechones de pelo, nevos, lipomas, hemangiomas y hoyuelos dérmicos, predominando en la región lumbosacra y pudiendo existir en la región cervicodorsal^{6,7}. El diagnóstico de SMA se basa en un alto índice de sospecha, con una historia clínica y la exploración física detallada, y se complementa con estudios de imágenes como el ultrasonido (US) y la resonancia magnética (RM) de columna. El cono medular alcanza el nivel de los adultos L1-L2 a los 2 meses de edad, en niños menores de 3 meses es útil el US, sin embargo, el US puede utilizarse en el abordaje inicial diagnóstico en niños mayores de 3 meses con estigmas cutáneos, pudiendo encontrar un cono medular bajo, un seno dérmico, lipoma intramedular y un *filum terminale* graso o hipertrófico (> 2 mm) y complementarse el diagnóstico con la RM que es el método de referencia⁸⁻¹⁰. El objetivo del presente trabajo es presentar las manifestaciones clínicas de pacientes pediátricos con SMA, su causa y los resultados obtenidos con el tratamiento médico-quirúrgico.

Métodos

Se realizó un estudio retrospectivo, de serie de casos, durante el periodo de abril de 2019 a octubre de 2024 en el Hospital de Especialidades del Instituto Mexicano del Seguro Social de Puebla. Criterios de inclusión: a) edad menor de 17 años; b) sintomatología y exploración física compatible con SMA; c) diagnóstico por imagen de anclaje medular, y d) haber sido intervenidos quirúrgicamente. Se realizó evaluación preoperatoria y postoperatoria, se dio seguimiento al 1, 3, 6 y 12 meses del posquirúrgico, reportándose los resultados a los 12 meses después de la cirugía.

Análisis estadístico

Se realizó estadística descriptiva para analizar las características de los pacientes. Los datos clínicos se representaron como promedio, mínimos y máximos, debido a la distribución no paramétrica de la muestra. La representación con media y desviación estándar (DE) se realizó por ser la forma más frecuentemente utilizada en los reportes de la literatura. Se utilizó la prueba de Wilcoxon para establecer relación entre los síntomas en el preoperatorio y en el postoperatorio. Se utilizó el programa SPSS 29.0 para Windows para realizar el análisis estadístico, y un valor de $p < 0.05$ se consideró significativo.

Resultados

Un total de 18 pacientes reunieron los criterios de inclusión y fueron evaluados, obteniendo los siguientes resultados. Una edad promedio de 83.27 meses (rango: 2-180; DE: 68.48) al momento de la cirugía. Respecto al sexo, hubo 10 pacientes de sexo femenino (55.55%) y 8 de sexo masculino (44.44%), con una relación mujer: hombre 1.25:1. La principal causa de SMA fue *filum* hipertrófico (n = 6, 33.33%), seguida de seno dérmico (n = 4, 22.22%), lipomielomeningocele (n = 4, 22.22%), *filum* lipomatoso (n = 2, 11.11%) y estar

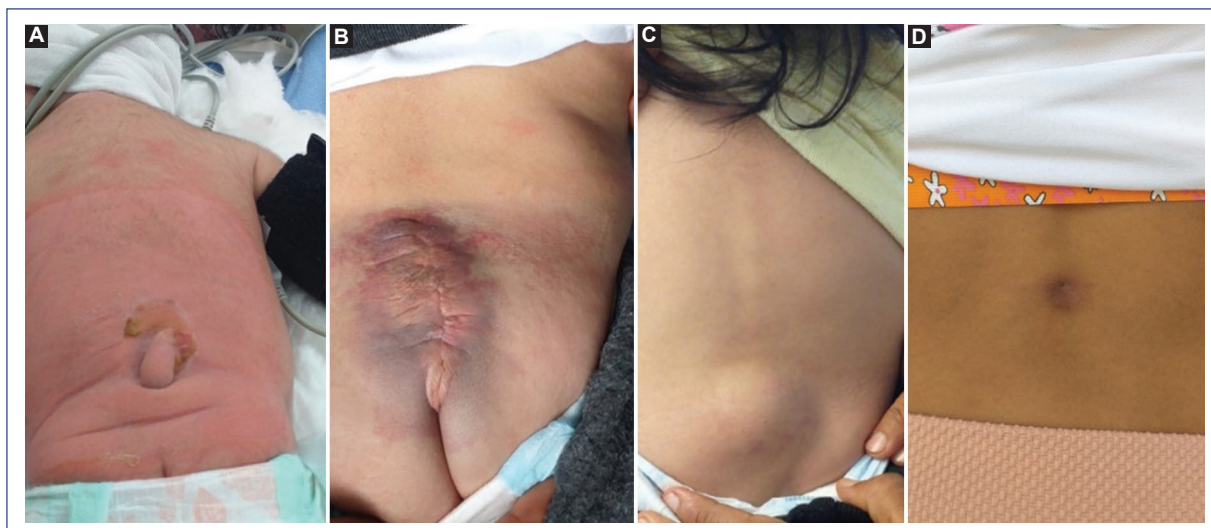


Figura 1. Se muestran los estigmas cutáneos identificados en algunos pacientes. **A:** cola humana. **B:** hemangioma cutáneo en paciente operado de mielomeningocele. **C:** lipoma subcutáneo en paciente con lipomielomeningocele. **D:** hoyuelo cutáneo en paciente con seno dérmico.

operado de mielomeningocele ($n = 2$; 11.11%). La sintomatología más común en su presentación clínica preoperatoria fue disfunción vesical ($n = 6$, 33.33%), seguida de estreñimiento ($n = 6$, 33.33%), paraplejia ($n = 4$, 22.22%), parestesias en piernas ($n = 4$, 22.22%), lumbalgia ($n = 4$, 22.22%), dedos de los pies en garra ($n = 3$, 16.66%), fiebre ($n = 3$, 16.66%), salida de líquido cefalorraquídeo (LCR) ($n = 1$, 5.55%), pie equino ($n = 1$, 5.55%), escoliosis ($n = 1$, 5.55%) y dolor abdominal agudo ($n = 1$, 5.55%). Los síntomas subjetivos y sensitivos como lumbalgia, dolor abdominal, estreñimiento, disfunción vesical y parestesias se evaluaron mediante interrogatorio directo con el paciente o indirectamente a través de los padres-tutores del paciente, preguntando si hubo mejoría, persistencia o desaparición de los síntomas posterior a la cirugía. Los signos físicos y síntomas motores como salida de LCR, paraplejia, dedos de pies en garra y pie equino se evaluaron mediante la exploración física prequirúrgica y la exploración física dirigida posquirúrgica, reportando su persistencia o ausencia. La escoliosis se evaluó mediante radiografías pre- y postoperatoria de columna total en proyección anteroposterior y se consideró un ángulo de Cobb mayor a 10° como escoliosis¹¹.

Por grupo etario pediátrico encontramos predominio de afección motora, disfunción vesical y estreñimiento en lactantes, preescolares y escolares; en cambio en los adolescentes y preadolescentes hubo predominio de lumbalgia. Se identificaron estigmas cutáneos en el 61.11% de los pacientes ($n = 11$), siendo una cola humana, dos

hemangiomas en pacientes operados de mielomeningocele, cuatro lipomas subcutáneos y cuatro hoyuelos dérmicos en pacientes con seno dérmico. La figura 1 muestra imágenes representativas de los estigmas cutáneos identificados en nuestra serie. Para el diagnóstico por imagen se utilizó la RM lumbosacra en 17 casos y el US lumbosacro en dos casos, US transquirúrgico en un paciente con cola humana y US como tamizaje diagnóstico en un paciente con hoyuelo dérmico, fiebre y paraplejia, que sugirió un trayecto fistuloso y posteriormente se complementó con RM lumbosacra (Fig. 2). La RM confirmó el diagnóstico de anclaje medular en el 94.4% de los casos. En la figura 3 se ejemplifica la correlación de los hallazgos de anclaje medular por RM y los hallazgos transquirúrgicos en paciente con *filum* hipertrófico y megavejiga por disfunción vesical (paciente 14), paciente operado de mielomeningocele y adherencia medular a la duramadre (paciente 13), paciente con lipomielomeningocele y lipoma que penetra a la médula espinal (paciente 8) y paciente con seno dérmico, donde se aprecia un trayecto fibroso que atraviesa la vértebra (paciente 7).

El cono medular se encontró en su posición normal en el 33.3% de los pacientes ($n = 6$), en el resto de los pacientes se encontró por debajo de L2. Los hallazgos transoperatorios fueron un *filum* fibroso mayor de 2 mm en los pacientes con *filum* hipertrófico; en los pacientes con seno dérmico hubo trayecto fistuloso, cierre parcial de la apófisis espinosa, infiltración medular, empiema medular y quiste epidermoide intrarraquídeo; en los pacientes

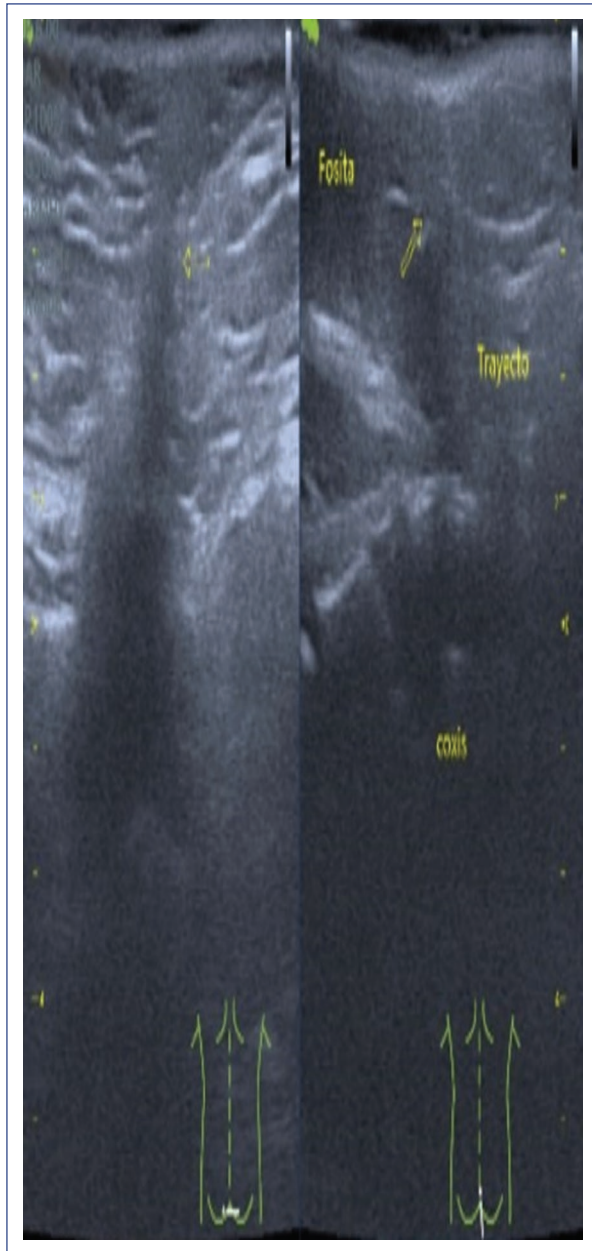


Figura 2. Ultrasonido en paciente de 18 meses con hoyuelo dérmico, sugiriendo un trayecto fistuloso. Se complementó el diagnóstico con resonancia magnética, identificando un seno dérmico lumbosacro. Las flechas amarillas muestran el trayecto del seno dérmico y las imágenes insertadas inferiormente, demuestran la posición del transductor del ultrasonido sobre el paciente.

con lipomielomeningocele encontramos lipoma dorsal, duramadre no íntegra y fusión incompleta de las láminas vertebrales; en los operados de *filum* lipomatoso se encontró un lipoma intradural además del *filum* lipomatoso mayor de 2 mm y en los pacientes operados previamente de plastia de mielomeningocele se identificó

fusión incompleta de las láminas vertebrales, médula adherida a la duramadre y fibrosis. Se dio un seguimiento posquirúrgico promedio de 15 meses (rango: 14-48). Posterior a la cirugía, la sintomatología fue persistencia de la paraplejía y disfunción vesical en dos pacientes con antecedente de cirugía de plastia de mielomeningocele que el servicio de urología pediátrica manejó con cateterismo vesical intermitente. Dos pacientes con seno dérmico que tuvieron paraplejía en su presentación clínica, presentaron parestesias en piernas y revirtió a los 6 meses de la cirugía. Dos pacientes con seno dérmico y empiema medular requirieron 21 días de antibiótico intravenoso a base de ceftriaxona y vancomicina, y se corroboró ausencia de neuroinfección con citoquímico y cultivo de LCR. Una paciente operada de lipomielomeningocele presentó nuevamente dedos de los pies en garra a los 6 meses del postoperatorio, desarrollando reanclaje medular y revirtió los síntomas con una segunda cirugía de desanclaje medular y colocación de injerto sintético de duramadre. Todos los pacientes en el postoperatorio fueron enviados a fisioterapia. Hubo una complicación en el postoperatorio, una fístula de LCR en un paciente operado de lipomielomeningocele que se manejó con reposo en cama y acetazolamida durante 5 días. En la [tabla 1](#) se presentan las características clínicas preoperatorias y los resultados postoperatorios de los pacientes a los 12 meses de la cirugía. En el análisis estadístico de la sintomatología preoperatoria y postoperatoria mediante la prueba de Wilcoxon nos dio un valor de $p < 0.001$. La [tabla 2](#) muestra un diagrama con las características clínicas preoperatorias y postoperatorias, así como análisis estadístico por grupo de causa. Las comorbilidades asociadas fueron una malformación anorrectal (MAR) tipo ano imperforado sin fistula en un paciente con *filum* hipertrófico y dolor abdominal agudo por vejiga neurogénica que ameritó una laparotomía exploradora, en una paciente a la que posteriormente se le diagnosticó un *filum* hipertrófico.

Discusión

El plexo lumbosacro (PLS) se origina de los ramos espinales ventrales de L1 a S4, y sus principales ramos terminales son el nervio iliohipogástrico, ilioinguinal, genitofemoral, obturador, femoral, femurocutáneo lateral, glúteo superior e inferior y ciático; tiene funciones motoras y sensitivas en la musculatura pélvica y en las extremidades inferiores. El PLS puede visualizarse mediante la neurografía por RM y la afección de un segmento medular que participa en su origen, puede ocasionar dolor lumbar, dolor en extremidades inferiores, deformidad de pies

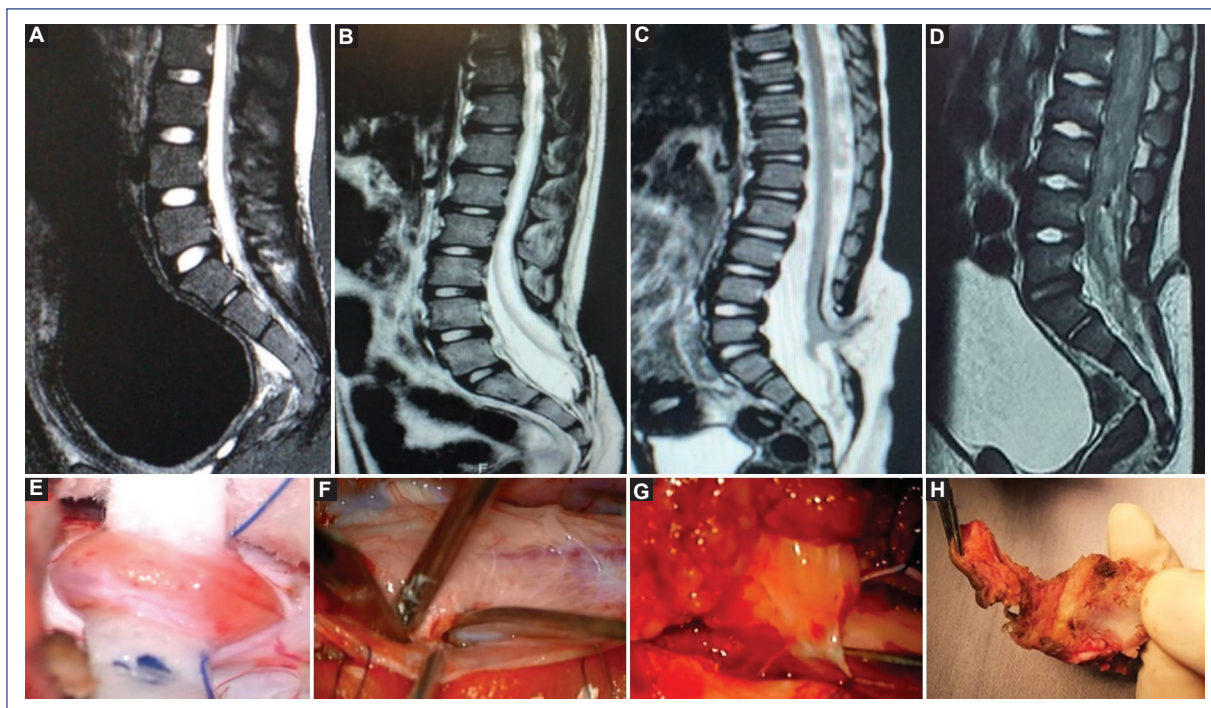


Figura 3. Imágenes de resonancia magnética en secuencia T1 en corte sagital en la parte superior y en la parte inferior imágenes intraoperatorias (**A** y **E**). *Filum* lipomatoso y megavejiga en resonancia magnética (**B** y **F**). Paciente operado de mielomeningocele con la médula anclada a la duramadre (**C** y **G**). Lipomielomeningocele con médula que se ancla al lipoma (**D** y **H**). Seno dérmico y trayecto del seno dérmico que atraviesa la vértebra, se evidencia la vejiga incrementada de tamaño en la resonancia magnética.

o dedos de los pies, dificultad para la deambulaci3n e imposibilidad para caminar^{12,13}. El almacenamiento de la orina y la micci3n en la vejiga tiene control simpático de las raíces nerviosas de T10-L2 y tono parasimpático de S2-S4 respectivamente; controlando el sistema nervioso autónomo la vejiga y el sistema nervioso somático el esfínter urinario externo, permitiendo la continencia vesical¹⁴. La inervaci3n rectal proviene del tono simpático de L1-L3 y parasimpático de S2-S4, controlando el tono del esfínter anal externo e interno, permitiendo la continencia anal¹⁵. La fisiopatología del SMA se debe al estiramiento de la médula espinal distal y el crecimiento continuo de la columna vertebral durante la infancia, resultando en hipoxemia e isquemia medular con afecci3n del metabolismo oxidativo y disfunci3n de las raíces nerviosas de los diversos segmentos medulares afectados^{16,17}. A nivel lumbosacro anomalías como asimetría glútea, duplicaci3n del pliegue glúteo y hoyuelos sacros se asocian en un 24-59% a SMA^{18,19}, coincidiendo con nuestra serie, encontrando estigmas cutáneos en el 61.1%. La presencia de una cola humana se asocia a SMA, recomendándose su resecci3n y desanclaje medular en pacientes asintomáticos para evitar una afecci3n neurológica²⁰.

La MAR se asocia con anomalías de columna en un 22% y con SMA en un 8%, llegando a requerir desanclaje medular²¹; en nuestra serie la MAR se encontró asociada a SMA en un 5.55%. La escoliosis se asocia al SMA en un 31% de los casos, cuando existe deformidad de columna con un ángulo de Cobb mayor de 35° se recomienda el desanclaje medular para la correcci3n de la escoliosis¹¹; en nuestra serie encontramos escoliosis en el 5.55%.

El SMA se relaciona con síndromes congénitos como el de VACTERL (*Vertebral malformatios, Anal atresia, Cardiac anomalies, Transesophageal fistula, Renal anomalies, Limb anomalies*), Rubinstein-Taybi (anomalías de la marcha, talla baja, extremidades cortas, retraso en el desarrollo, facies características) y neurofibromatosis tipo 1 y 2^{19,22}.

Findlay et al.¹⁶ identifican en su revisi3n sistemática las cinco principales causas de SMA, en orden de frecuencia: lipoma medular, *filum terminale* fibroso o graso, operados de mielomeningocele, lipomielomeningocele y seno dérmico con quiste dermoide y epidermoide. En nuestra serie las principales causas fueron *filum* hipertrófico, seno dérmico con quiste epidermoide, lipomielomeningocele, *filum* lipomatoso y operados de mielomeningocele.

Tabla 1. Características clínicas preoperatorias y resultados postoperatorios a los 12 meses de la cirugía

Paciente	Edad (meses)	Sexo	Causa	Cono medular	Estigma cutáneo	Síntomas preoperatorios	Cirugía	Síntomas postoperatorios
1	2	F	FL	< L2	Cola	Asintomático	RFL	Asintomático
2	10	M	FL	< L2		Escoliosis	RFL	Asintomático
3	11	M	LMMC	< L2	Lipoma	DPG	RLIM	Asintomático
4	12	F	LMMC	< L2	Lipoma	DPG	RLIM	Asintomático
5	18	M	SD L5-S1	< L2	Hoyuelo	FB + paraplejía	RSD	Asintomático
6	20	M	SD L3-L4	< L2	Hoyuelo	FB+ paraplejía + DV + ET	RSD	Asintomático
7	26	M	SD L5-S1	< L2	Hoyuelo	Salida LCR + FB + DV	RSD	Asintomático
8	26	F	LMMC	< L2	Lipoma	ET + PE bilateral	RLIM	Asintomático
9	58	M	LMMC	< L2	Lipoma	DV + ET + DPG	RLIM	Asintomático
10	90	M	FH	> L2		ET	RFH	Asintomático
11	120	F	SD L1-L2	< L2	Hoyuelo	FB	RSD	Asintomático
12	135	F	O mmC	< L2	Hemangioma	Paraplejía + DV + ET	LM	Paraplejía + DV
13	145	F	O mmC	< L2	Hemangioma	Paraplejía + DV+ ET	LM	Paraplejía + DV
14	149	F	FH	> L2		DAA + DV	RFH	Asintomático
15	159	F	FH	> L2		LB + PP	RFH	Asintomático
16	168	M	FH	> L2		LB +PP	RFH	Asintomático
17	170	F	FH	> L2		LB + PP	RFH	Asintomático
18	180	F	FH	> L2		LB +PP	RFH	Asintomático

DAA: dolor abdominal agudo; DPG: dedos de pies en garra; DV: disfunción vesical; ET: estreñimiento; FB: fiebre; F: femenino; FH: *filum* hipertrófico; FL: *filum* lipomatoso; L: segmento lumbar; LB: lumbalgia; LCR: líquido cefalorraquídeo; LM: liberación medular; LMMC: lipomielomeningocele; M: masculino; mmC: mielomeningocele; O: operado; PE: pie equino; PP: parestesias piernas; RFH: resección de *filum* hipertrófico; RFL: resección de *filum* lipomatoso; RLIM: resección de lipoma intramedular; RSD: resección de seno dérmico; S: segmento sacro; SD: seno dérmico.

En México, Gutiérrez- Cabrera et al.²³ operan 16 pacientes con SMA asociado a lipomielomeningocele, lipomas intrarraquídeos, quiste intrarraquídeo, diastematomelia y pacientes operados de mielomeningocele y lipomielomeningocele 7/16 (43.75%), encontrando mejoría en el posquirúrgico en el 100% de los casos con dolor, el 62.5% de los trastornos esfinterianos y el 7% de las alteraciones motoras. Recomiendan la cirugía de desanclaje medular, sus resultados coinciden con nuestros hallazgos posquirúrgicos de ausencia de dolor en el 100%, mejoría de trastornos esfinterianos en el 83.3% y 75% en las alteraciones motoras.

Filum hipertrófico y filum lipomatoso

Edström et al.⁶ analizan 95 pacientes con SMA realizando resección del *filum* terminal por *filum* graso o hipertrófico. Hubo 62 sintomáticos, presentando dolor,

disfunción vesical, estreñimiento, escoliosis, síntomas motores y sensitivos; se encontró prevalencia de los síntomas motores sobre los sensitivos y se identificó la disfunción vesical como una manifestación tardía del SMA, considerándola como un signo de daño medular permanente. Reportan mejoría de los síntomas en pacientes sintomáticos con la sección del *filum* y no reportan afecciones o aparición de síntomas de SMA en pacientes asintomáticos durante el seguimiento de 1.8 años, coincidiendo dichos resultados con nuestros hallazgos en los pacientes operados de *filum* hipertrófico y lipomatoso, durante el seguimiento a 1 año de la cirugía.

Bhimani et al.¹ analizan la base de datos del ACS-NSQIP-P (*American College of Surgeons-National Surgical Quality Improvement Program Pediatric Database*), obteniendo 3,682 pacientes con SMA operados de resección de *filum terminale*, enfocándose en

Tabla 2. Diagrama con las características clínicas de los pacientes en el preoperatorio y sus características clínicas a los 12 meses de la cirugía

Diagnóstico	Síntomas		Prueba estadística*
	Preoperatorios (n)	Postoperatorios (n)	
<i>Filum</i> hipertrófico (6)	Estreñimiento (1), dolor abdominal agudo (1), disfunción vesical (1), lumbalgia (4), parestesias piernas (4)	Asintomáticos (6)	p = 0.014
Seno dérmico (4)	Fiebre (4), paraplejia (2), disfunción vesical (2), estreñimiento (1), salida LCR (1)	Asintomáticos (4)	p = 0.046
Lipomielomeningocele (4)	Dedos de pies en garra (3), estreñimiento (2), pie equino bilateral (1), disfunción vesical (1)	Asintomáticos (4)	p = 0.046
<i>Filum</i> lipomatoso (2)	Escoliosis (1)	Asintomáticos (2)	p = 0.317
Operado de mielomeningocele (2)	Paraplejia (2), disfunción vesical (2), estreñimiento (2)	Paraplejia (2), disfunción vesical (2)	p = 0.157
Total (18)	Sintomáticos (17), asintomáticos (1)	Sintomáticos (2), asintomáticos (16)	p < 0.01

*Prueba de los rangos con signo de Wilcoxon.
 LCR: líquido cefalorraquídeo.

las complicaciones de la cirugía a los 30 días, identificando la dehiscencia de herida quirúrgica, infección de herida quirúrgica e infección de vías urinarias en un 3.1, 2.1 y 1.6% respectivamente, concluyendo que es una cirugía efectiva y segura en niños con SMA. Liang et al.²⁴ reportan lesión medular en tres pacientes pediátricos asociada a trauma menor por actividades del niño sano, en los que posterior al daño medular se identificó en la RM que tenían médula anclada por un *filum* terminale hipertrófico y hubo mejoría de los síntomas posterior a la sección del *filum* terminale y sugieren la cirugía profiláctica en pacientes asintomáticos con *filum terminale* hipertrófico para evitar lesión medular por un trauma menor.

Seno dérmico

Song et al.²⁵ operan 56 pacientes pediátricos con seno dérmico, encontrando que el 83.9% tenían un hoyuelo cutáneo dorsal en línea media, un 92.9% presentaron un quiste dermoide o epidermoide intrarraquídeo. En 10 (17.8%) pacientes había neuroinfección con afección sensitiva y motora, presentando resultados menos favorables que los pacientes que no presentaron neuroinfección. Recomiendan un diagnóstico temprano en pacientes con hoyuelo cutáneo y realizar cirugía temprana para evitar afección neurológica en pacientes con seno dérmico. En nuestra serie encontramos hoyuelo cutáneo y quiste epidermoide intrarraquídeo en el 100% de los pacientes operados de seno dérmico.

Lipomielomeningocele y operados de mielomeningocele

Xiong et al.²⁶ en un metaanálisis de 403 pacientes con lipoma lumbosacro, analizan 279 pacientes que fueron intervenidos quirúrgicamente y 124 manejados conservadoramente, identificando disfunción neurológica en el 25.81% (n = 32) de los pacientes manejados conservadoramente vs. 10.75% (n = 30) en los pacientes que se intervinieron quirúrgicamente, recomendando la cirugía profiláctica en pacientes asintomáticos. Se ha demostrado que el mielomeningocele y lipomeningocele causan déficit neurológico progresivo que afecta la innervación de la vejiga ocasionando hiperactividad del detrusor y el esfínter vesical, ocasionando retención anormal de la orina con reflujo vesicoureteral e incremento de la presión renal, que lleva a afección renal². Se ha identificado que la disfunción vesical conlleva insuficiencia renal en el 50% de los pacientes con vejiga neurogénica no tratada alrededor de los 5 años, siendo la principal causa de mortalidad en los pacientes con vejiga neurogénica¹⁴.

Torre et al.²⁷ analizan 502 pacientes con disrafismo espinal, 283 con mielomeningocele, 129 con lipomielomeningocele y 90 con síndrome de regresión caudal, encontrando una afección renal en el 6.37% del total, habiendo un predominio en los pacientes operados de mielomeningocele. Veenboer et al.²⁸ en una revisión sistemática de 1,564 pacientes adultos con antecedente de cirugía por disrafismo espinal, principalmente

mielomeningocele y lipomielomeningocele, encontraron afección renal en 290 (25.7%) pacientes e insuficiencia renal crónica en 12 (1.3%) pacientes, destacando la necesidad de vigilancia neurológica, principalmente durante la pubertad y adolescencia, que es la edad donde se presenta mayor afección renal. Phuong et al.²⁹ en 45 pacientes revisan la historia natural de pacientes operados de plastia de mielomeningocele en etapa neonatal, identificando la progresión a SMA en el 27.5, 40 y 60% a 1, 2 y 5 años respectivamente, así como la necesidad de cirugías ortopédicas o urológicas en el 88.9% de los pacientes, recomendando la cirugía oportuna de desanclaje medular en pacientes que presenten síntomas de SMA. Cabe mencionar que ninguno de nuestros pacientes operados con antecedente de plastia de mielomeningocele mejoró la función del esfínter vesical ni la paraplejia, lo cual se explicaría por tener más de 10 años la plastia del mielomeningocele al momento de la cirugía.

El reanclaje medular posterior a cirugía de SMA se define como la reaparición de los síntomas preoperatorios. Las causas del SMA se han clasificado desde el punto de vista quirúrgico en simples (*filum* fibroso y lipomatoso) y complejas (operado de mielomeningocele, lipomielomeningocele, seno dérmico) y se ha asociado el reanclaje medular principalmente en pacientes operados de causas complejas (12-33.6%), siendo menor en causas simples (1.4-6%), y suele ser necesario una segunda cirugía de desanclaje medular mediante duroplastia con fascia autóloga o injerto sintético de duramadre, mostrando una resolución exitosa de los síntomas^{7,30,31}, en nuestra serie el reanclaje medular fue del 5.55% en un paciente operado de lipomielomeningocele.

Naseri-Alavi et al.³² comparan pacientes operados de plastia de mielomeningocele prenatal y posnatal, encontrando un reanclaje medular en los pacientes operados en la etapa prenatal del 33% y en la etapa posnatal del 55%, sugiriendo que la cirugía temprana reduce la incidencia de reanclaje medular. En pacientes asintomáticos con SMA detectada por estudios de imagen puede haber una conversión a SMA sintomática en un rango de 3-4% por año^{11,33,34}. El diagnóstico diferencial del SMA incluye tumores del sistema nervioso (ependimoma, astrocitoma, meduloblastoma, tumor neuroectodérmico primitivo, tumor de células germinales, meningioma, schwannoma), infecciones de la columna vertebral, traumatismo raquímedular, enfermedad vascular-medular (malformación arteriovenosa, cavernoma), enfermedades hereditarias neurodegenerativas (degeneración espino-cerebelosa, neuropatía sensorial, ataxia de Friedreich,

paraparesia espástica familiar) y enfermedades desmielinizantes^{19,35}. El SMA tiene diversas causas y debe ser tomado en cuenta como una entidad diagnóstica por el pediatra y médicos de atención primaria. Una vez realizado el diagnóstico, se debe llevar a cabo el desanclaje y liberación medular de acuerdo con la causa para tratar los síntomas y evitar una mayor afectación neurológica. En pacientes asintomáticos el desanclaje medular ha mostrado reducir el riesgo de daño neurológico.

Financiamiento

Los autores declaran no haber recibido financiamiento para este estudio.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener conflicto de intereses.

Consideraciones éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad, consentimiento informado y aprobación ética. Los autores han obtenido la aprobación del Comité de Ética para el análisis de datos clínicos obtenidos de forma rutinaria y anonimizados, por lo que no fue necesario el consentimiento informado. Se han seguido las recomendaciones pertinentes. Para la publicación de imágenes, fotografías y estudios de los pacientes, se cuenta con la autorización por escrito por parte de los padres o tutores, quienes autorizaron la publicación de imágenes.

Declaración sobre el uso de inteligencia artificial. Los autores declaran que no utilizaron ningún tipo de inteligencia artificial generativa para la redacción de este manuscrito.

Referencias

1. Bhimani AD, Selner AN, Patel JB, Hobbs JB, Esfahani DR, Behbahani M, et al. Pediatric tethered cord release: an epidemiological and postoperative complication analysis. *J Spine Surg.* 2019;5(3):337-50.
2. Chan YY, Sandlin SK, Kurzrock EA. Urological outcomes of myelomeningocele and lipomeningocele. *Curr Urol Rep.* 2017;18(5):35.
3. Dias MS, Partington M. Embryology of myelomeningocele and anencephaly. *Neurosurg Focus.* 2004;16(2):E1.
4. Kancherla V. Neural tube defects: a review of global prevalence, causes, and primary prevention. *Childs Nerv Syst.* 2023;39(7):1703-10.
5. Aydin S, Jenkins A, Detchou D, Barrie U. Folate fortification for spina bifida: preventing neural tube defects. *Neurosurg Rev.* 2024;47(1):724.
6. Edström E, Wesslén C, Fletcher-Sandersjö A, Elmi-Terander A, Sandvik U. Filum terminale transection in pediatric tethered cord syndrome: a single center, population-based, cohort study of 95 cases. *Acta Neurochir (Wien).* 2022;164(6):1473-80.

7. Lew SM, Kothbauer KF. Tethered cord syndrome: an updated review. *Pediatr Neurosurg*. 2007;43(3):236-48.
8. Orman G, Tijssen MPM, Seyfert D, Gassner I, Huisman TAGM. Ultrasound to evaluate neonatal spinal dysraphism: a first-line alternative to CT and MRI. *J Neuroimaging*. 2019;29(5):553-64.
9. Ausili E, Maresca G, Massimi L, Morgante L, Romagnoli C, Rendeli C. Occult spinal dysraphisms in newborns with skin markers: role of ultrasonography and magnetic resonance imaging. *Childs Nerv Syst*. 2018;34(2):285-91.
10. Rees MA, Squires JH, Coley BD, Hoehne B, Ho ML. Ultrasound of congenital spine anomalies. *Pediatr Radiol*. 2021;51(13):2442-57.
11. Yaltırık K, El Tecle NE, Pierson MJ, Puryear A, Atalay B, Elbabaa SK. Management of concomitant scoliosis and tethered cord syndrome in non-spina bifida pediatric population. *Childs Nerv Syst*. 2017;33(11):1899-903.
12. Ebraheim NA, Lu J, Yang H, Huntoon M, Yeasting RA. Lumbosacral plexus: a histological study. *Acta Anat (Basel)*. 1997;158(4):274-8.
13. Chhabra A, Rozen S, Scott K. Three-dimensional MR neurography of the lumbosacral plexus. *Semin Musculoskelet Radiol*. 2015;19(2):149-59.
14. Maison POM, Lazarus J. The management of paediatric neurogenic bladder: an approach in a resource-poor setting. *Paediatr Int Child Health*. 2017;37(4):280-5.
15. Barleben A, Mills S. Anorectal anatomy and physiology. *Surg Clin North Am*. 2010;90(1):1-15.
16. Findlay MC, Tenhoeve S, Terry SA, Iyer RR, Brockmeyer DL, Kelly MP, et al. Disparities in indications and outcomes reporting for pediatric tethered cord surgery: The need for a standardized outcome assessment tool. *Childs Nerv Syst*. 2024;40(4):1111-20.
17. Yamada S, Won DJ, Yamada SM. Pathophysiology of tethered cord syndrome: correlation with symptomatology. *Neurosurg Focus*. 2004;16(2):E6.
18. Shields LB, Mutchnick IS, Daniels MW, Peppas DS, Rosenberg E. Risk of occult spinal dysraphism based on lumbosacral cutaneous manifestations. *SAGE Open Med*. 2021;9:20503121211037172.
19. Sanchez T, John RM. Early identification of tethered cord syndrome: a clinical challenge. *J Pediatr Health Care*. 2014;28(3):e23-e33.
20. Turk CC, Kara NN, Bacanlı A. The human tail: a simple skin appendage or cutaneous stigma of an anomaly? *Turk Neurosurg*. 2016;26(1):140-5.
21. Beaufort CMC, Groenvelde JC, Mackay TM, Slot KM, de Beer SA, de Jong JR, et al. Spinal cord anomalies in children with anorectal malformations: a retrospective cohort study. *Pediatr Surg Int*. 2023;39(1):153.
22. Bhanja D, Freedman Z, Sciscent BY, Moeckel C, Daggubati L, Rizk E. Incidence of tethered cord syndrome in neurofibromatosis types 1 and 2 pediatric patients: a population-level analysis. *Childs Nerv Syst*. 2024;40(6):1821-5.
23. Gutiérrez- Cabrera JJ, Pedroza-Ríos KG, Cuéllar-Martínez S. Médula anclada en pacientes pediátricos y adolescentes. Revisión de 16 casos. *Rev Med Hosp Gen Mex*. 2007;70(2):62-6.
24. Liang QC, Yang B, Song YH, Gao PP, Xia ZY, Bao N. Real spinal cord injury without radiologic abnormality in pediatric patient with tight filum terminale following minor trauma: a case report. *BMC Pediatr*. 2019;19(1):513.
25. Song Y, Xia Z, Qiu S, Gao P, Yang B, Bao N. Surgical treatment of congenital dermal sinus: an experience of 56 cases. *Pediatr Neurosurg*. 2021;56(5):416-23.
26. Xiong Y, Yang L, Zhen W, Fangyong D, Feng W, Ting L. Conservative and surgical treatment of pediatric asymptomatic lumbosacral lipoma: a meta-analysis. *Neurosurg Rev*. 2018;41(3):737-43.
27. Torre M, Guida E, Bisio G, Scarsi P, Piatelli G, Cama A, et al. Risk factors for renal function impairment in a series of 502 patients born with spinal dysraphisms. *J Pediatr Urol*. 2011;7(1):39-43.
28. Veenboer PW, Bosch JL, van Asbeck FW, de Kort LM. Upper and lower urinary tract outcomes in adult myelomeningocele patients: a systematic review. *PLoS One*. 2012;7(10):e48399.
29. Phuong LK, Schoeberl KA, Raffel C. Natural history of tethered cord in patients with meningocele. *Neurosurgery*. 2002;50(5):989-95.
30. Samuels R, McGirt MJ, Attenello FJ, Garcés Ambrossi GL, Singh N, Solakoglu C, et al. Incidence of symptomatic retethering after surgical management of pediatric tethered cord syndrome with or without duroplasty. *Childs Nerv Syst*. 2009;25(9):1085-9.
31. Pan J, Boop SH, Barber JK, Susarla SM, Durfy S, Ojemann JG, et al. Perioperative complications and secondary retethering after pediatric tethered cord release surgery. *J Neurosurg Pediatr*. 2023;32(5):607-16.
32. Naseri Alavi SA, Fluss R, Lehner K, Judy B, Groves M, Cohen A, et al. Tethered cord prevalence among patients with prenatal or postnatal myelomeningocele repair. *Childs Nerv Syst*. 2024;40(11):3621-8.
33. Kulkarni AV, Pierre-Kahn A, Zerah M. Conservative management of asymptomatic spinal lipomas of the conus. *Neurosurgery*. 2004;54(4):868-75.
34. Tuite GF, Thompson DNP, Austin PF, Bauer SB. Evaluation and management of tethered cord syndrome in occult spinal dysraphism: Recommendations from the international children's continence society. *Neurol Urodyn*. 2018;37(3):890-903.
35. Michelson DJ, Ashwal S. Tethered cord syndrome in childhood: diagnostic features and relationship to congenital anomalies. *Neurol Res*. 2004;26(7):745-53.

ARTÍCULO DE INVESTIGACIÓN

Salud mental parental en cardiopatías congénitas: eficacia de un programa psicoeducativo perioperatorio en línea

Azalea C. Flores-Bobadilla^{1,2*}, Bertha Ramos-del Río¹, Óscar R. Galicia-Castillo³,
Everardo J. F. Camacho-Gutiérrez⁴, Ana K. Talavera-Peña⁵ y Mario H. Buenrostro-Jáuregui³

¹Facultad de Estudios Superiores Zaragoza, Universidad Nacional Autónoma de México, Ciudad de México; ²Fundación Live Longer México, Ciudad de México; ³Laboratorio de Neurociencias, Departamento de Psicología, Universidad Iberoamericana, Ciudad de México; ⁴Instituto Tecnológico y de Estudios Superiores de Occidente, Guadalajara; ⁵Departamento de Ciencias Biológicas y de la Salud, Universidad Autónoma Metropolitana, Unidad Lerma, Toluca, Edo. de México. México

Resumen

Introducción: Los procedimientos médicos invasivos en niños con cardiopatía congénita (CC) incrementan la ansiedad y el estrés parentales, repercutiendo negativamente en la enfermedad y el afrontamiento infantil. Los programas psicoeducativos promueven la salud mental parental y el impacto positivo en la salud pediátrica. El objetivo fue evaluar la eficacia de un programa psicoeducativo en línea para favorecer la salud mental de padres de niños/as con CC próximos a un procedimiento médico invasivo. **Métodos:** Participaron 43 mamás y papás de niños con CC próximos a cateterismo o cirugía cardíaca pertenecientes a la Fundación Live Longer México, divididos de forma alternada en dos grupos: 1) programa psicoeducativo en línea (n = 22), y 2) control (n = 21). La salud mental se evaluó a partir de tres indicadores: estrés parental, ansiedad-estado/rasgo y preocupación ante el procedimiento. Se utilizaron el Índice de estrés parental (PSI-SF), el Cuestionario sobre la preocupación paterna sobre la cirugía y el Inventario de Ansiedad-rasgo-Estado. **Resultados:** El grupo con programa psicoeducativo mostró una disminución estadísticamente significativa en la ansiedad-estado y la preocupación por el procedimiento médico. Adicionalmente, la ansiedad-estado y la preocupación por el procedimiento médico son menores significativamente en el grupo que recibió el programa psicoeducativo en comparación con el control. El estrés parental no tuvo cambios significativos intra- e intergrupo. **Conclusiones:** El programa psicoeducativo en línea es eficaz para favorecer la salud mental parental, específicamente en la ansiedad-estado/rasgo y la preocupación por la cirugía en los padres de niños con CC próximos a un cateterismo o cirugía cardíaca.

Palabras clave: Telesalud mental. Cardiopatías congénitas. Cateterismo cardíaco. Cirugía cardíaca.

Parental mental health in congenital heart disease: effectiveness of an online perioperative psychoeducational program

Abstract

Background: Invasive medical procedures in children with congenital heart disease (CHD) increase parental anxiety and stress with a negative impact on the disease and children's coping. Parental psychoeducational programs promote their mental health and positive impact on pediatric health. The objective was to evaluate the efficacy of an online psychoeducational program to promote the mental health of parents of children with CHD who are about to undergo an invasive medical procedure. **Methods:** Forty-three mothers and fathers of children with CHD about to undergo catheterization or cardiac

*Correspondencia:

Azalea C. Flores-Bobadilla

E-mail: citlali.flores@zaragoza.unam.mx

1665-1146/© 2025 Hospital Infantil de México Federico Gómez. Publicado por Permayer. Este es un artículo open access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Fecha de recepción: 31-07-2024

Fecha de aceptación: 23-07-2025

DOI: 10.24875/BMHIM.24000099

Disponible en internet: 04-09-2025

Bol Med Hosp Infant Mex. 2025;82(5):304-313

www.bmhim.com

surgery belonging to the Live Longer Mexico Foundation participated, divided alternately into two groups: 1) online psychoeducational program ($n = 22$), and 2) control ($n = 21$). Mental health was evaluated based on three indicators: parental stress, state/trait anxiety and worry before the procedure. The PSI-SF Parental Stress Index, the Parental Worry about Surgery Questionnaire and the Trait-State Anxiety Inventory were used. **Results:** The group with the psychoeducational program showed a statistically significant decrease in state anxiety and worry about the medical procedure. Additionally, state anxiety and worry about the medical procedure are significantly lower in the group that received the psychoeducational program compared to the control. Parental stress had no significant intra- and inter-group changes. **Conclusions:** The online psychoeducational program is effective in favoring parental mental health, specifically on state/trait anxiety and worry about surgery in parents of children with CC nearing catheterization or cardiac surgery.

Keywords: Heart defects congenital. Mental health. Mental health teletherapy. Cardiac catheterization. Thoracic surgery.

Introducción

Las cardiopatías congénitas (CC) constituyen el grupo de malformaciones más frecuentes en niños y niñas. En el mundo uno de cada 33 lactantes presenta alguna CC y se estima que cada año mueren 303,000 durante las primeras semanas de vida¹. En México se desconoce su prevalencia exacta, pero se estima que entre 3 y 4 de cada 100 recién nacidos vivos presenta una malformación al nacer, de las cuales las CC ocupan el segundo lugar². Entre los diferentes métodos de tratamiento para las CC se encuentran los procedimientos médicos no invasivos e invasivos. Los primeros se entienden como aquellos que no involucran instrumentos que rompan la piel o que penetren físicamente al cuerpo, como los farmacológicos. Por otro lado, los procedimientos médicos invasivos son aquellos en los cuales el cuerpo es invadido o penetrado con una aguja, sonda o dispositivo¹, por ejemplo, el cateterismo y la cirugía cardíaca.

Estos tratamientos invasivos y la hospitalización adyacente son necesarios y fundamentales en la vida de los pequeños, al menos un 35% de ellos durante el primer año de vida serán sometidos a una cirugía o un cateterismo³. Ambos procedimientos representan esperanza de vida para los niños y las niñas, empero son generadores de altos niveles de estrés y ansiedad para los padres, generando afectaciones a su salud mental. Estas afecciones pueden surgir de la interacción de las condiciones del entorno, las características propias del hijo o de los padres, así como del contexto hospitalario⁴. Por ejemplo, ellos observan la realización de múltiples procesos en sus hijos/as y manifiestan preocupación por el dolor e incomodidad que puedan sentir, por los eventuales riesgos posquirúrgicos, por la gran cantidad de estímulos auditivos y visuales que existen en las unidades de cuidado intensivo; además de la separación de los padres y la recuperación⁵⁻¹⁰.

Estos elementos al combinarse generan una respuesta de estrés elevado que puede ser tanto psicológica como

fisiológica⁴. En las primeras se han observado síntomas de ansiedad, depresión, trastorno de estrés agudo y estrés postraumático^{4,11,12}. Respecto a las segundas, es conocido que el eje hipotálamo-hipofisario-adrenocortical se activa en respuesta al estrés, resultando en la producción de cortisol, principalmente. La generación excesiva y prolongada de cortisol puede provocar daño tisular, afectar el funcionamiento psicológico, físico y fisiológico¹³, afectando directamente la salud integral de los padres.

Precisando, Alonso et al.¹⁴ identificaron que el momento de la intervención quirúrgica es el más crítico para los padres y en el que experimentan mayores niveles de estrés y ansiedad, afectando negativamente la salud parental y la del niño.

Entre los efectos negativos, además de los mencionados en párrafos previos, se observa una menor autoeficacia de afrontamiento por parte de los padres¹⁵, la asociación con problemas de conducta y una mala adaptación psicosocial del niño¹⁶. Asimismo, en niños y adolescentes con una cardiopatía cianótica (es decir, con baja saturación de oxígeno), el riesgo de internalización de problemas como ansiedad, depresión, comportamiento de retraimiento y molestias somáticas está mediado por el estrés parental¹⁷.

Las respuestas del estrés y la sintomatología asociada pueden impactar negativamente tanto en los padres, de forma directa, como en los niños indirectamente, puesto que la forma en cómo los padres afrontan la enfermedad y el tratamiento será un modelo para el infante, convirtiéndose en una figura de calma o generadora de estrés infantil, además del impacto que podría tener en los tratamientos o recuperación de los niños.

Si bien los padres llegan a adaptarse con éxito a la vida con niños con CC y los procedimientos invasivos que conllevan, aproximadamente el 40% demandan atención del acompañamiento psicológico y psicoeducativo. Por tanto, se resalta la importancia de implementar intervenciones psicológicas y multidisciplinarias dirigidas a los

padres de los niños con enfermedades crónicas¹⁸⁻²¹, a lo largo de su cuidado y especialmente en aquellos que serán sometidos a algún procedimiento médico invasivo.

Gramszlo et al. concluyeron que las intervenciones centradas en los padres de niños con CC dirigidas a mejorar su salud mental mediante un enfoque basado en desarrollar habilidades y brindar información sobre la enfermedad reducen la ansiedad, la depresión y los síntomas de estrés agudo. De igual forma, tienen un impacto positivo en los resultados de los niños con CC, destacando una mejoría en el desarrollo neurológico, la alimentación y la asistencia escolar²².

Por otro lado, los padres de niños con CC resaltan la necesidad de un acompañamiento psicológico e indican que estas intervenciones deberían dirigirse a favorecer su colaboración en el cuidado de sus hijos, promover el autocuidado, facilitar la comunicación con los profesionales sanitarios, preparar a los padres para los retos posteriores a la hospitalización, brindar educación sobre el neurodesarrollo infantil y ayudarlos a conseguir apoyo social²².

Para ello, se propone el desarrollo intervenciones psicológicas individualizadas, formalizadas y multidisciplinarias que favorezcan el manejo de los factores estresantes en el contexto de las CC y a su vez mitigar el impacto de los problemas de salud mental de los padres en los resultados del niño²⁰⁻²².

No obstante, en México los padres de niños con CC no siempre cuentan con el acompañamiento psicológico, principalmente por la falta de protocolos estandarizados dentro de las instituciones de salud, debido a recursos insuficientes para satisfacer las crecientes demandas. Es así como las intervenciones de ciber salud (virtual o en línea) pueden resultar útiles para superar algunas limitantes como el acceso a un mayor número de personas, las barreras físicas y geográficas, el alcance en zonas marginadas, el valor del tiempo y los costos de traslado; además de su eficacia comprobada, principalmente durante la pandemia de enfermedad por coronavirus 2019 (COVID-19)²³⁻²⁵.

Con la presente investigación se pretendió, en primer lugar, caracterizar la salud mental parental (estrés y ansiedad) en los padres de niños con CC. En segundo lugar, promover la salud mental en los padres de niños con CC, fomentando estrategias de control del estrés/ansiedad a partir de una intervención psicoeducativa en línea.

Métodos

Diseño cuasiexperimental con pretest-posttest y un grupo control.

Participantes

Muestra no probabilística intencional de 43 madres o padres de niños con CC próximos a un procedimiento médico invasivo, atendidos por medio de la Fundación Live Longer México (Lilo). Una organización civil sin fines de lucro con cobertura nacional que brinda apoyo a niños con CC y sus familias. La muestra se dividió en dos grupos, uno experimental y otro control. La asignación fue no probabilística, alternada: 1) el grupo experimental (tratamiento) recibió el programa psicoeducativo en línea, y 2) en el grupo control se les brindó seguimiento mediante WhatsApp. Esta selección considera un sesgo para la validez externa de la investigación.

Los criterios de inclusión fueron saber leer y escribir, ser mayores de 18 años, firmar carta de consentimiento informado, tener acceso a internet y a un dispositivo electrónico con cámara como computadora, *tablet* o celular y ser padres de un hijo con CC próximo a un procedimiento médico invasivo (cirugía o cateterismo). Se excluyeron aquellos papás que tuvieran que cuidar de otra persona que requiera de cuidados de larga duración.

Instrumentos

Ficha de identificación/estudio sociodemográfico: recaba información sociodemográfica del niño y los padres.

Cuestionario de estrés parental PSI-SF (*Parenting Stress Index-Short Form*)²⁶. El PSI-SF consta de 36 ítems, con una escala Likert de cinco puntos. Esta prueba brinda el puntaje global de estrés parental que perciben los padres. La puntuación global oscila entre 36 y 180. A mayor puntuación, mayor estrés; sin embargo, se considera un punto de corte: menor a 85 puntos es estrés normal, igual o mayor a 85 puntos es estrés con significancia clínica. El instrumento en su versión abreviada se ha utilizado en numerosas investigaciones, que corroboran su validez y confiabilidad. Consistencia interna para la escala global de 0.92.

Cuestionario de preocupación paterna sobre la cirugía²⁷. Evalúa los principales factores que provocan estrés a los padres antes de la cirugía de un hijo. Los ítems evalúan aspectos relacionados con la enfermedad que origina la cirugía, los relacionados con la propia cirugía y su evolución, elementos en relación con el ámbito hospitalario y, por último, aspectos personales que nacen de la propia figura como padres. La autoevaluación del grado de preocupación se realizó

mediante una escala de Likert de 5 puntos que va desde 1 (nada preocupado) hasta 5 (muy preocupado). El rango de puntuaciones de los 36 ítems en el cuestionario original es de los 37 a los 185 puntos. No existe versión validada para población mexicana; sin embargo, en su versión española muestra un alfa de Cronbach de 0.97, y el análisis factorial evidencia una adecuada validez del cuestionario.

Inventario de Ansiedad-rasgo-Estado (versión estandarizada en México)²⁸. Se utilizó la versión en español del *State-Trait Anxiety Inventory* (STAI) validada para población mexicana. Se compone por dos escalas que miden las dos dimensiones de la ansiedad: ansiedad-rasgo y ansiedad-estado. Se compone de 40 afirmaciones, de las cuales 20 corresponden a la ansiedad-rasgo y 20 a la ansiedad-estado. Sus opciones de respuesta son cuatro: casi nunca, algunas veces, frecuentemente y casi siempre para la escala de ansiedad-rasgo; y no, poco, regular y mucho para la escala de ansiedad-estado. Contiene reactivos inversos. Cuenta con validez de constructo por medio de un análisis factorial con rotación varimax por el método de componentes principales y confiabilidad evaluada por el coeficiente alfa de Cronbach. La clasificación de la ansiedad es baja (≤ 30), media (31-44) y alta (≥ 45).

Consideraciones éticas

La metodología del estudio se basó en los principios éticos para investigación médica en seres humanos de la Declaración de Helsinki. La información que se obtuvo fue manejada con estricta confidencialidad de acuerdo con lo establecido en la Norma Oficial Mexicana NOM-012-SSA3-2012 y al capítulo I, artículo 17 de la Ley General de Salud referente a la investigación documental en salud en seres humanos.

Se obtuvo el consentimiento informado de las mamás y papás que participaron. El proyecto fue evaluado y aprobado por La Fundación Lilo México, el Comité de Ética de la Universidad Iberoamericana (2022-02-001) y el Consejo Nacional de Ciencia y Tecnología (Conacyt).

Procedimiento

El procedimiento se realizó siguiendo los pasos que se describen a continuación: se estableció el primer contacto con los padres de niños con CC próximos a un procedimiento médico invasivo por medio de la Fundación Lilo México. Se les invitó por WhatsApp a una sesión en Zoom en la cual se explicó el programa y se realizó la lectura del consentimiento informado. Al

Tabla 1. Programa psicoeducativo «Acompañando corazones»

Nombre de la sesión	Temas
Sesión 1. Conociendo la cardiopatía de mi hijo/a y su procedimiento	Anatomía y fisiología del corazón Conceptualización de la cardiopatía congénita Proceso de cirugía o cateterismo
Sesión 2. El arte de controlar mis emociones	Qué son las emociones Estrés, ansiedad Identificando mis emociones y sus efectos
Sesión 3. El arte de relajarme	<i>Mindfulness</i>
Sesión 4. El arte de comunicarme	Qué es la comunicación asertiva Cómo decirle a mi hijo lo que está por suceder Cómo comunicarme con los demás
Sesión 5. El arte de cuidarme	Qué es el autocuidado Acciones ¿Qué hago para cuidarme? Planeando mi autocuidado

Adaptada de Flores-Bobadilla et al.²⁹

aceptar, se asignaron de forma alternada al grupo experimental y control. Se llevó a cabo la preevaluación psicológica a los participantes de ambos grupos, por medio de la plataforma Google Forms, la cual contenía el consentimiento que se había leído previamente. En el caso del grupo control se dio seguimiento vía WhatsApp, preguntando cómo se sentían y compartiendo infografías referentes a la cardiopatía, el procedimiento y el estrés. De esta forma no se atentó a ningún principio bioético y se llevó a prueba la eficacia de un programa psicoeducativo vs. uno informativo.

Para el caso del grupo experimental, se aplicó el programa psicoeducativo en línea para padres de niños con CC próximos a un procedimiento médico invasivo, titulado «Acompañando corazones». Al finalizar, se realizó la postevaluación psicológica a los participantes de ambos grupos.

Intervención en línea

La intervención en línea fue nombrada «Acompañando corazones» (Tabla 1). Se compone de cinco sesiones sincrónicas realizadas por medio de la plataforma Zoom; además de una pre- y una postevaluación. Cada una de las sesiones tiene un nombre y temas específicos:

- Conociendo la cardiopatía de mi hijo y su procedimiento.
- El arte de controlar mis emociones.
- El arte de relajarme: atención plena.
- El arte de comunicarme.
- El arte de cuidarme.

Cada sesión tuvo una duración de una hora y media en modalidad sincrónica. Al finalizar cada una, las mamás y los papás realizaban actividades de reforzamiento por medio de una guía en formato pdf que se les proporcionó al inicio del programa. Las sesiones se realizaban durante las dos semanas previas al procedimiento del niño/a.

Análisis de los datos

Para el análisis de los datos, se utilizaron descriptivos de frecuencias para las variables categóricas y de medias y desviaciones estándar para las variables continuas. Para la estadística inferencial, se emplearon pruebas no paramétricas: Wilcoxon, U de Mann-Whitney, McNemar, Fisher y χ^2 . Se consideró un riesgo alfa del 5%. Los análisis estadísticos se realizaron utilizando los paquetes estadísticos SPSS v.21 y Jamovi.

Resultados

Comparación por grupos en el pretest

Se comparó la información arrojada en la preevaluación entre el grupo con programa psicoeducativo y el grupo control. Los estadísticos realizados muestran que no existen diferencias estadísticamente significativas entre los dos grupos en los datos sociodemográficos, excepto en el procedimiento del hijo/a (Tabla 2), tampoco en el conocimiento de la cardiopatía, el procedimiento médico invasivo (Tabla 3) y la salud mental parental (Tabla 4).

Comparación intra- e intergrupos a lo largo del tiempo

El grupo con programa psicoeducativo y el control no mostraron cambios significativos al comparar la preevaluación y postevaluación intragrupo (Tabla 5). En la misma tabla se observa que al realizar la comparación intergrupos en la postevaluación existe una diferencia estadísticamente significativa en el nombre de la CC ($p = 0.006$), la descripción de la CC ($p = 0.001$) y la descripción del procedimiento médico invasivo ($p = 0.017$).

Tabla 2. Datos sociodemográficos de mamás y papás. Comparación entre grupos

	Control (n = 21)		Tratamiento (n = 22)		p
	n	%	n	%	
Sexo					0.488*
Hombre	4	19	7	31.8	
Mujer	17	81	15	68.2	
Escolaridad					0.121*
Primaria	3	14.3	0	0	
Secundaria	8	38.1	7	31.8	
Preparatoria	5	23.8	6	27.3	
Licenciatura	4	19	9	40.9	
Posgrado	1	4.8	0	0	
Estado civil					0.496*
Soltero	3	14.3	3	13.6	
Casado/unión libre	16	76.2	19	86.4	
Separado	2	9.5	0	0	
Ocupación					0.069*
Hogar	14	66.7	7	31.8	
Empleado	6	28.6	9	40.9	
Estudiante	0	0	1	4.5	
Trabajo informal	1	4.8	5	22.7	
Religión					0.126*
Católica	13	61.9	18	81.8	
Cristiana	7	33.3	2	9.1	
Otra	1	4.8	1	4.5	
Ninguna	0	0	1	4.5	
Estado de residencia					0.087*
Campeche	9	42.9	4	18.2	
Chihuahua	1	4.8	3	13.6	
Durango	0	0	2	9.1	
Estado de México	5	23.8	4	18.2	
Guerrero	0	0	1	4.5	
Nuevo León	2	9.5	3	13.6	
Oaxaca	1	4.8	0	0	
Puebla	0	0	1	4.5	
Sinaloa	0	0	3	13.6	
Sonora	0	0	1	4.5	
Yucatán	3	14.3	0	0	
Otros hijos					0.887 [†]
Sí	11	52.4	12	54.5	
No	10	47.6	10	45.5	
Procedimiento hijo/a					0.006 [§]
Cirugía	5	23.8	15	68.2	
Cateterismo	16	76.2	7	31.8	
Sexo hijo/a					0.310 ^a
Hombre	4	19	8	36.4	
Mujer	17	81	14	63.6	
Edad	$\bar{x} \pm DE$ 36.2 $\pm$ 10		$\bar{x} \pm DE$ 34.3 $\pm$ 7.4		0.576 [†]

*Fisher.

[†]U de Mann-Whitney.

[‡] χ^2 .

[§]Valor significativo

DE: desviación estándar; $\bar{x}$: media.

Tabla 3. Conocimiento sobre diagnóstico y procedimiento médico antes del programa psicoeducativo

Indicador/variable	Control (n = 21)		Tratamiento (n = 22)		p
	n	%	n	%	
Nombre CC					0.104
No sabe	9	42.9	4	18.2	
Conoce nombre/siglas	12	57.1	18	81.8	
Descripción CC					0.015*
No sabe explicarlo	14	66.7	6	27.3	
Explica correcto	7	33.2	16	72.7	
Nombre Qx					0.488
No lo sabe	1	4.8	0	0	
Lo conoce	20	95.2	22	100	
Descripción Qx					0.124
No lo sabe	11	52.4	6	27.3	
Lo conoce	10	47.6	16	72.7	

*Estatístico de Fisher. Valor estadísticamente significativo al 0.05.
CC: cardiopatía congénita; Qx: procedimiento médico invasivo.

Tabla 4. Comparación intergrupos de la salud mental parental en el pretest

Indicador/variable	Control (n = 21)		Tratamiento (n = 22)		p
	n	%	n	%	
Ansiedad-estado					0.209*
Baja	1	4.8	1	4.5	
Media	11	52.4	7	31.8	
Alta	9	42.9	14	63.6	
Ansiedad-rasgo					0.469*
Baja	0	0	0	0	
Media	10	47.6	8	36.4	
Alta	11	52.4	14	63.6	
Estrés parental					0.347†
Normal	12	57.1	16	72.7	
Significancia clínica	9	42.9	6	27.3	
Preocupación por Qx	67.7 ± 21		71.9 ± 20.9		
	Intervalo: 24-102		Intervalo 27 a 98		

*U de Mann-Whitney.

†Fisher.

p: grado de significación; Qx: procedimiento médico invasivo.

Tabla 5. Comparación intra- e intergrupos del conocimiento de la CC y el Qx

Indicador/variable	Control (n = 21)		Tratamiento (n = 22)		Significancia intergrupos*
	Pre	Post	Pre	Post	
Nombre CC					0.006 ^{†§}
No sabe	9	10	4	2	
Conoce nombre/siglas	12	11	18	20	
Significancia intragrupo	0.317 [‡]		p = 0.157 [‡]		
Descripción CC					< 0.001 ^{†§}
No sabe explicarlo	14	15	6	2	
Explica correcto	7	6	16	20	
Significancia intragrupo	^a 0.317		p = 0.212 [‡]		
Nombre Qx					0.488 [†]
No lo sabe	1	1	0	0	
Lo conoce	20	20	22	22	
	-		-		
Descripción Qx					0.017 ^{†§}
No lo sabe	11	10	6	3	
Lo conoce	10	11	16	19	
Significancia intragrupo	0.564 [‡]		p = 0.257 [‡]		

*Comparación entre grupo control y grupo experimental en la postevaluación.
†Fisher.

‡McNemar.

§Valor estadísticamente significativo.

CC: cardiopatía congénita; p: grado de la significancia; Qx: procedimiento médico invasivo.

(Tabla 6), cuando lo comparamos contra sí mismo en el pre- y postratamiento.

Finalmente, se realizó una comparación de la postevaluación intergrupos. Se observó que la ansiedad-estado ($p = 0.007$) (Fig. 1) y la preocupación por el procedimiento médico ($p = 0.016$) (Fig. 2) son menores significativamente en el grupo que recibió el programa psicoeducativo. El tamaño del efecto²⁹ de esta diferencia es pequeño (0.39 y 0.38, respectivamente). Por otro lado, no se observan diferencias significativas en el estrés parental ($p = 0.549$) y la ansiedad-rasgo ($p = 0.164$) entre los grupos al finalizar el programa ($p = 0.159$), empero se observa una disminución.

Discusión

El objetivo del presente estudio fue evaluar la eficacia de un programa psicoeducativo en línea para favorecer

Al realizar las comparaciones de la salud mental parental, el grupo control no mostró cambios significativos a lo largo del tiempo (intragrupo). Por el contrario, el grupo experimental presentó una disminución estadísticamente significativa en la ansiedad-estado ($p = 0.028$) y la preocupación por el procedimiento médico ($p \leq 0.001$)

Tabla 6. Comparación intra- e intergrupo de la salud mental parental antes y después del programa psicoeducativo

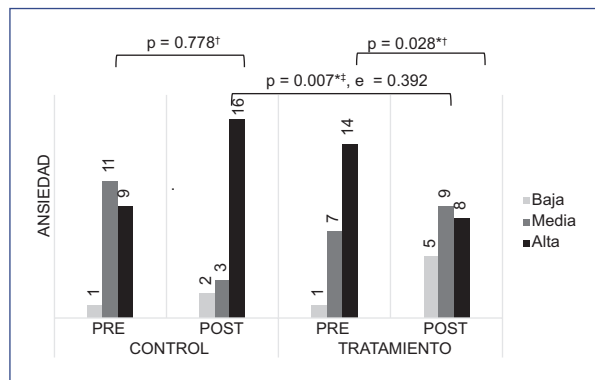
Indicador/variable	Control (n = 21)		Tratamiento (n = 22)		¶	
	Pre	Post	Pre	Post	p	e
Ansiedad-estado					0.007 ^{†***}	0.392
Baja	1	2	1	5		
Media	11	3	7	9		
Alta	9	16	14	8		
Significancia intragrupo	p = 0.778*		p = 0.028* **			
Ansiedad-rasgo					0.164 [†]	
Baja	0	0	0	2		
Media	10	7	8	8		
Alta	11	14	14	12		
Significancia intragrupo	p = 0.649*		p = 0.406*			
Estrés parental					0.549 [§]	
Normal	12	13	16	13		
Significancia clínica	9	8	6	9		
Significancia intragrupo	p = 0.763 [‡]		p = 0.257 [‡]			
Preocupación por el Qx	67.7 ± 21.4	58.3 ± 21	71.9 ± 20.9	44.7 ± 20.1	0.016 ^{†***}	0.385
Significancia intragrupo	p = 0.072*		p = 0.001* **			

*Wilcoxon.

[†]U de Mann-Whitney.[‡]McNemar.[§]Fisher.[¶]Comparación entre grupo control y grupo experimental en la postevaluación. Significancia intergrupos en la postevaluación.

**Valor significativo al 0.05.

e: tamaño del efecto; p: grado de la significancia; Qx: procedimiento médico invasivo.

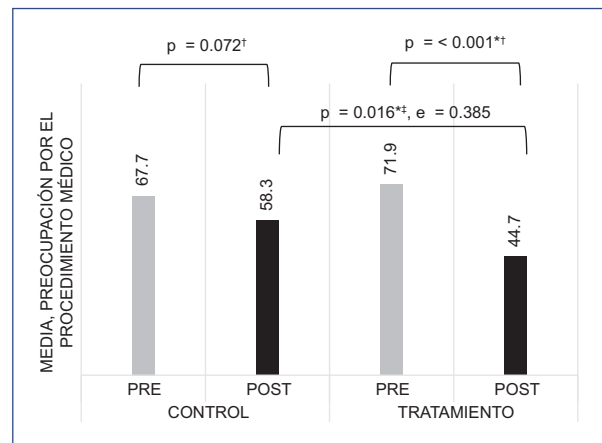
**Figura 1.** Comparación intra- e intergrupo, ansiedad-estado.

*Significativo al 0.05.

[†]Comparación intragrupo (pre-post).[‡]Comparación intergrupo (post-post).

e: tamaño del efecto.

la salud mental de los padres de niños/as con CC próximos a un procedimiento médico invasivo y compararlo con un grupo control. Al comparar la preevaluación y postevaluación, se observó que las mamás y los papás que participaron en el programa

**Figura 2.** Comparación intra- e intergrupo, preocupación por el procedimiento médico.

*Significativo al 0.05.

[†]Comparación intragrupo (pre-post).[‡]Comparación intergrupo (tratamiento-post/control-post).

e: tamaño del efecto.

disminuyeron significativamente la ansiedad-estado y la preocupación por el procedimiento médico invasivo de sus hijos/as. En contraste, aunque no se observó

una significancia estadística, el grupo control incrementó sus puntuaciones en todas las variables referentes a la salud mental. Adicionalmente, se mostró una diferencia significativa entre el grupo experimental y el control en la ansiedad-estado y la preocupación por el procedimiento en la postevaluación, lo cual permite inferir que el programa «Acompañando corazones» favorece la salud mental de los padres de niños con CC próximos a una cirugía o cateterismo, específicamente en estas variables.

Cabe destacar que, si bien se observa una disminución en la ansiedad-rasgo y el estrés parental en el grupo que recibió el tratamiento, no hay una diferencia significativa con el grupo control en la postevaluación. La ansiedad-rasgo es una característica estable y continua del individuo a lo largo del tiempo, es decir, una cualidad de la personalidad que se caracteriza por una tendencia a percibir las situaciones como amenazadoras en diferentes situaciones y contextos y refleja un riesgo de desarrollar un trastorno de ansiedad³⁰, ante la cual algunas intervenciones que han mostrado favorecer su disminución son de mayor duración a la propuesta en la presente investigación. Por ejemplo, Stinson et al.³¹ lograron disminuir la ansiedad-rasgo en estudiantes de enfermería mediante un programa de ocho semanas con sesiones de una hora de duración.

Respecto al estrés parental sucede algo similar. Por ejemplo, Jastreboff et al.³² favorecieron la disminución del estrés parental en padres de niños con obesidad por medio de un programa de intervención de ocho semanas. Complementario a la duración de las intervenciones, el instrumento que se utilizó para medir estrés se enfoca principalmente al rol de los padres en la vida cotidiana, y el presente estudio se realizó en un entorno de enfermedad cardíaca, específicamente ante el estrés generado por una intervención quirúrgica, que no precisa específicamente elementos de crianza como los estudiados en el cuestionario de estrés parental PSI-SF de Abidin. En este sentido, se sugiere evaluar la eficacia de la intervención utilizando un cuestionario de estrés ante un entorno hospitalario o de enfermedad, y preferentemente desarrollar y validar instrumentos específicos para esta población. Por otro lado, es indispensable contemplar que el estrés parental disminuye durante la infancia y en el caso de poblaciones clínicas también puede modificarse según la trayectoria de la enfermedad. Por ejemplo, en padres de niños con CC se ha observado que los momentos de mayor estrés son el perioperatorio, las estancias en las unidades de cuidado intensivo y el periodo posterior al alta debido a la incertidumbre de los resultados. También,

las disminuciones del estrés han sido relacionadas por el ajuste de los padres a la situación o por la reducción de los tratamientos con el tiempo y por las intervenciones tempranas que promueven los afrontamientos adaptativos³³⁻³⁵. En este sentido, para futuras investigaciones sería pertinente identificar si los padres recibieron algún acompañamiento psicológico previo o terapia psicológica en la que hayan desarrollado competencias de afrontamiento.

Por otro lado, resaltar que con base en el modelo teórico de Abidin (1995), se establece que la ausencia de estrés es tan negativa como la presencia en altos niveles, y dentro de los factores que están involucrados en el desarrollo de este están los factores propios de los padres, como su nivel educativo, la edad y características de la personalidad como la resiliencia, elementos que sería viable considerar en futuras investigaciones; por ejemplo, identificar las diferencias de estrés con base en las características sociodemográficas.

Continuando en esta línea, las características del niño y las propias de la cardiopatía podrían ser elementos involucrados en los cambios de la salud mental parental. Por ejemplo, las cardiopatías cianóticas (con baja oxigenación) limitan en mayor medida las actividades infantiles en comparación con las no cianóticas, lo que podría generar mayor estrés y ansiedad en los padres, y por tanto la forma de interactuar. Sería pertinente incluir variables referentes a la condición clínica y de gravedad de las cardiopatías para valorar el efecto que tienen sobre la salud mental de los padres.

Otro punto para considerar es el conocimiento que los padres tienen sobre la enfermedad y el procedimiento que recibirán sus hijos/as. Si bien en la comparación intragrupo no se observa una diferencia estadísticamente significativa a lo largo del tiempo, se visualiza que en el grupo experimental incrementó el número de padres que conocían el nombre y descripción de la CC, así como la descripción del procedimiento médico; diferencias que resultan significativas en la postevaluación intergrupo. El conocimiento de la enfermedad y los procedimientos son elementos esenciales en las intervenciones para la disminución del estrés, el mejoramiento del bienestar emocional y la calidad de vida. Por lo cual, la primera sesión del programa se enfoca a psicoeducar respecto a la CC, mostrando el funcionamiento de un corazón sano y el funcionamiento del corazón con la cardiopatía de su hijo; sumado se explica qué pasa antes, durante y después del procedimiento. En términos prácticos y clínicos, esta información permitió que los padres identificaran las conductas esperadas de ellos durante

la hospitalización, así como los recursos materiales y psicológicos que utilizarían en el proceso. Por ejemplo, dos momentos críticos para el uso de las estrategias de gestión emocional que se les explicaron fueron dejar a su hijo en quirófano o la sala de hemodinamia y al verlo en terapia intensiva. Además, comprender con claridad el nombre de la cardiopatía, en qué consistía, así como el procedimiento, permitía mayor facilidad de comunicación con el equipo médico.

Con los resultados obtenidos se remarca que las intervenciones en línea también son eficaces para promover la salud mental parental; además de los alcances que se pueden observar como acceso a un mayor número de personas, superar las barreras físicas y geográficas, expansión de la cobertura de salud (mental), alcance a zonas marginadas y eficacia. No obstante, también se observaron algunas limitaciones que podrían ser consideradas en futuras investigaciones y en el desarrollo de programas de salud; por ejemplo, la conectividad inestable, las competencias digitales de los participantes, los espacios libres de distracciones que favorezcan la confidencialidad y los retos para el seguimiento.

El programa psicoeducativo en línea, con sus alcances y limitaciones, resultó ser bien aceptado por las familias, quienes (en preguntas abiertas de satisfacción y de forma directa) refirieron que les ayudó a sentir más tranquilidad, menos ansiedad, a entender la cardiopatía y el proceso, que la información y explicación fueron claras, además de sentirse comprendidos y acompañados en un proceso difícil. Estos elementos enfatizan la relevancia clínica que representa la intervención, empero sería enriquecedor profundizar sobre elementos cualitativos tanto de la enfermedad, como del procedimiento y el programa.

La investigación también permitió tener un acercamiento al perfil tanto sociodemográfico como de salud mental de los padres de niños con CC próximos a un procedimiento médico invasivo. Respecto al primero, se observó que la mayoría son mujeres casadas o que viven en unión libre, dedicadas al hogar, con una escolaridad de secundaria, católicas, con al menos otro hijo. Este perfil coincide, con características reportadas en otras investigaciones tanto a nivel nacional como internacional³⁻⁷. Cabe aclarar que algunas variables como la ocupación o el nivel educativo pueden cambiar según el país. En cuanto al perfil de salud mental parental, la mayoría de las mamás y de los papás tienen ansiedad-estado y rasgo de medias a altas y una preocupación por el procedimiento médico con puntuaciones elevadas. Respecto al estrés parental, un alto

porcentaje de padres se ubicaron en el nivel normal y solo 15 de los 40 con significancia clínica.

Como conclusión, es importante resaltar que la presente investigación se posiciona como un trabajo pionero en las intervenciones psicoeducativas en línea en población con CC en el país. En este tenor, se presentaron diferentes limitaciones y alcances. Entre las limitantes del estudio están el tamaño pequeño de muestra, la reducción de un solo escenario (la fundación), los criterios de inclusión que considera la fundación para sus beneficiarios, el tipo de instrumento utilizado para evaluar el estrés parental y la dificultad para el seguimiento. Así como la falta de acceso a información clínica de la cardiopatía. Por lo que se sugiere en futuras investigaciones incrementar el tamaño muestral y considerar los elementos sociodemográficos. Además, sería importante incluir variables propias de la condición clínica del niño/a, tales como el tipo de cardiopatía, la gravedad, los procedimientos previos, las limitaciones físicas, el tiempo con la enfermedad; asimismo, realizar un seguimiento a los seis meses para considerar los efectos del programa a mediano y largo plazo.

Finalmente, sería relevante identificar la eficacia de este programa en otras condiciones clínicas, adaptando los contenidos de las enfermedades, con el fin de valorar la metodología empleada.

Futuros estudios podrían atender las limitantes y sugerencias para poder evaluar en mayor medida la eficacia de la intervención con el fin de continuar beneficiando a más familias a lo largo del país y así generar impactos sustanciales en los sistemas de salud pública.

Financiamiento

Beca doctoral del Consejo Nacional de Humanidades, Ciencias y Tecnologías. Agradecimientos: a la Fundación Lilo México y al Consejo Nacional de Humanidades, Ciencias y Tecnologías.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener conflicto de intereses.

Consideraciones éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que los procedimientos seguidos se conformaron a las normas éticas del comité de experimentación humana responsable y de acuerdo con la Asociación Médica Mundial y la Declaración de Helsinki. Los

procedimientos fueron autorizados por el Comité de Ética de la institución.

Confidencialidad, consentimiento informado y aprobación ética. Los autores han seguido los protocolos de confidencialidad de su institución, han obtenido el consentimiento informado de los pacientes, y cuentan con la aprobación del Comité de Ética. Se han seguido las recomendaciones de las guías SAGER, según la naturaleza del estudio.

Declaración sobre el uso de inteligencia artificial. Los autores declaran que no utilizaron ningún tipo de inteligencia artificial generativa para la redacción de este manuscrito.

Referencias

- Organización Panamericana de la Salud [sede web]. Organización Panamericana de la Salud; 2023 [citado 5 abr 2024]. Disponible en: <https://www.paho.org>
- Secretaría de Salud del Gobierno de México [sede web]. Gobierno de México, Secretaría de Salud; 2022 [citado 14 abr 2024]. Disponible en: <https://www.gob.mx/salud>
- Ramírez LM, Pino AP, Springmuller PD, Clavería RC. Estrés en padres de niños operados de cardiopatías congénitas. *Arch Argent Pediatr*. 2014;112(3):263-7. doi: 10.5546/aap.2014.263.
- Lisanti AJ, Golfenshtein N, Medoff-Cooper B. The Pediatric Cardiac Intensive Care Unit Parental Stress Model: refinement using directed content analysis. *ANS Adv Nurs Sci*. 2017;40(4):319-36. doi: 10.1097/ANS.0000000000000184
- Golfenshtein N, Hanlon AL, Deatrack JA, Medoff-Cooper B. Parenting stress trajectories during infancy in infants with congenital heart disease: Comparison of single-ventricle and biventricular heart physiology. *Congenit Heart Dis*. 2019;14(6):1113-22. doi: 10.1111/chd.12858
- Golfenshtein N, Hanlon AL, Deatrack JA, Medoff-Cooper B. Parenting stress in parents of infants with congenital heart disease and parents of healthy infants: the first year of life. *Compr Child Adolesc Nurs*. 2017;40(4):294-314. doi: 10.1080/24694193.2017.1372532
- Kruszecka-Krówka A, Cepuch G, Micek A. Stress coping strategies in parents of newborns and infants with congenital cyanotic heart disease with regard to stress levels and negative emotions. *Children (Basel)*. 2024;11(5):508. doi: 10.3390/children11050508
- Ronai C, Katlaps I, Kim A, Valent AM, Thornburg KL, Madriago E. Perinatal stressors and consequences for neonates with critical congenital heart disease. *J Cardiovasc Dev Dis*. 2023;10(12):497. doi: 10.3390/jcdd10120497
- Majnemer A, Limperopoulos C, Shevell M, Rohlicek C, Rosenblatt B, Tchervenkova C. Health and well-being of children with congenital cardiac malformations, and their families, following open-heart surgery. *Cardiol Young*. 2006;16(2):157-64. doi: 10.1017/S1047951106000096
- Helfricht S, Latal B, Fischer JE, Tomaske M, Landolt MA. Surgery-related posttraumatic stress disorder in parents of children undergoing cardiopulmonary bypass surgery: a prospective cohort study. *Pediatr Crit Care Med*. 2008;9(2):217-23. doi: 10.1097/PCC.0b013e318166e6ec3
- Franich-Ray C, Bright MA, Anderson V, Northam E, Cochrane A, Menahem S, et al. Trauma reactions in mothers and fathers after their infant's cardiac surgery. *J Pediatr Psychol*. 2013;38(5):494-505. doi: 10.1093/jpepsy/jst015
- Lisanti AJ, Demianczyk AC, Vogiatzi MG, Quinn R, Chittams J, Hoffman R, et al. The associations of psychologic and physiologic manifestations of parental stress in critical congenital heart disease. *Biol Res Nurs*. 2022;24(3):316-26. doi: 10.1177/10998004221077136
- O'Connor DB, Thayer JF, Vedhara K. Stress and health: a review of psychobiological processes. *Annu Rev Psychol*. 2021;72:663-88. doi: 10.1146/annurev-psych-062520-122331
- Alonso Lloret F, Gil Domínguez S, Fontecha Merino VM, Rodríguez Ferreiro C, Mendoza Soto A. Perioperative stress and anxiety in parents of children operated on for congenital heart disease. *Enferm Intensiva (Engl Ed)*. 2023;34(4):205-17. doi: 10.1016/j.enfie.2023.07.001
- Choi Y, Lee S. Coping self-efficacy and parenting stress in mothers of children with congenital heart disease. *Heart Lung*. 2021;50(2):352-6. doi: 10.1016/j.hrtlung.2021.01.014
- Lepage C, Gaudet I, Doussau A, Vinay MC, Gagner C, von Siebenthal Z, et al. The role of parenting stress in anxiety and sleep outcomes in toddlers with congenital heart disease. *Front Pediatr*. 2023;10:1055526. doi: 10.3389/fped.2022.1055526
- Chang LY, Chiu SN, Wang CC, Weng WC, Chang HY. Parenting stress mediates the association between cyanotic congenital heart disease and internalising problems in children and adolescents. *Eur J Cardiovasc Nurs*. 2020;19(4):301-9. doi: 10.1177/1474515119881871
- Kibby MY, Tyc VL, Mulhern RK. Effectiveness of psychological intervention for children and adolescents with chronic medical illness: a meta-analysis. *Clin Psychol Rev*. 1998;18(1):103-17. doi: 10.1016/s0272-7358(97)00049-4
- Mah JK, Thannhauser JE, Kolski H, Dewey D. Parental stress and quality of life in children with neuromuscular disease. *Pediatr Neurol*. 2008;39(2):102-7. doi: 10.1016/j.pediatrneurol.2008.04.011
- Hoffman MF, Karpyn A, Christofferson J, Neely T, McWhorter LG, Demianczyk AC, et al. Fathers of children with congenital heart disease: sources of stress and opportunities for intervention. *Pediatr Crit Care Med*. 2020;21(11):e1002-e1009. doi: 10.1097/PCC.0000000000002388
- Bishop M, Cohen LL, Robbertz AS. Illness-related parenting stress and maladjustment in congenital heart disease: mindfulness as a moderator. *J Pediatr Psychol*. 2020;45(10):1208-15. doi: 10.1093/jpepsy/jjaa081
- Gramszio C, Karpyn A, Demianczyk AC, Shillingford A, Riegel E, Kazak AE, et al. Parent perspectives on family-based psychosocial interventions for congenital heart disease. *J Pediatr*. 2020;216:51-57.e2. doi: 10.1016/j.jpeds.2019.09.059
- Feng Y, Zhao Y, Mao L, Gu M, Yuan H, Lu J, et al. The effectiveness of an eHealth family-based intervention program in patients with uncontrolled type 2 diabetes mellitus (T2DM) in the Community via WeChat: randomized controlled trial. *JMIR Mhealth Uhealth*. 2023;11:e40420. doi: 10.2196/40420
- Moudatsou M, Stavropoulou A, Rovithis M, Koukoulis S. Evaluation of online counseling through the working experiences of mental health therapists amidst the COVID-19 pandemic. *Healthcare (Basel)*. 2024;12(4):495. doi: 10.3390/healthcare12040495
- McKechnie AC, Elgersma KM, Iwaszko Wagner T, Trebilcock A, Damico J, Sosa A, et al. An mHealth, patient engagement approach to understand and address parents' mental health and caregiving needs after prenatal diagnosis of critical congenital heart disease. *PEC Innov*. 2023;3:100213. doi: 10.1016/j.pecinn.2023.100213
- Abidin R. Parenting Stress Index: Professional Manual 3rd ed. Odessa, FL: Psychological Assessment Resources; 1995.
- Gironés MA, Campos SA, Ríos GP. Estudio de validación y fiabilidad del cuestionario de preocupación paterna sobre la cirugía. ¿Qué preocupa a los padres? *An Pediatr*. 2018;88(1):24-31. doi: 10.1016/j.anpedi.2017.01.007
- Buela-Casal G, Guillén-Riquelme A. Short form of the Spanish adaptation of the State-Trait Anxiety Inventory. *Int J Clin Health Psychol*. 2017;17(3):261-8. doi: 10.1016/j.ijchp.2017.07.003
- Flores-Bobadilla (2025). Acompañando corazones: programa psicoeducativo perioperatorio en línea para niños, niñas y adolescentes con cardiopatía congénita y sus padres. [Registro en INDAUTOR]. México.
- Rendón-Macias ME, Zarco-Villavicencio IS, Villasis-Keever MA. Métodos estadísticos para el análisis del tamaño del efecto. *Rev Alerg Mex*. 2021;68(2):128-36. doi: 10.29262/ram.v65i2.949
- Forrest SJ, Siegert RJ, Krägeloh CU, Landon J, Medvedev ON. Generalizability theory distinguishes between state and trait anxiety. *Psychol Assess*. 2021;33(11):1080-8. doi: 10.1037/pas0001060
- Stinson C, Curl ED, Hale G, Knight S, Pipkins C, Hall I, et al. Mindfulness meditation and anxiety in nursing students. *Nurs Educ Perspect*. 2020;41(4):244-5. doi: 10.1097/01
- Jastreboff AM, Chaplin TM, Finnie S, Savoye M, Stults-Kolehmainen M, Silverman WK, et al. Preventing childhood obesity through a mindfulness-based parent stress intervention: a randomized pilot study. *J Pediatr*. 2018;202:136-42.e1. doi: 10.1016/j.jpeds.2018.07.011
- Kibby MY, Tyc VL, Mulhern RK. Effectiveness of psychological intervention for children and adolescents with chronic medical illness: a meta-analysis. *Clin Psychol Rev*. 1998;18(1):103-17. doi: 10.1016/s0272-7358(97)00049-4
- Kolaitis GA, Meentken MG, Utens EMWJ. Mental health problems in parents of children with congenital heart disease. *Front Pediatr*. 2017;5:102. doi: 10.3389/fped.2017.00102
- Woolf-King SE, Anger A, Arnold EA, Weiss SJ, Teitel D. Mental health among parents of children with congenital heart defects: a systematic review. *J Am Heart Assoc*. 2017;6(2):e004862. doi: 10.1161/JAHA.116.004862

Dengue congénito como diagnóstico diferencial en neonatos con sospecha de sepsis neonatal: reporte de caso en una región endémica

Luis A. Espinoza-Venegas^{1*}, Billey K. Samame-Talledo², Lidia G. Mauricio-Neyra¹,
Luis Pampa-Espinoza³, Fernando Munayco-Guillén⁴ y Rafael Pichardo-Rodríguez^{5,6}

¹Departamento de Medicina Interna, Hospital de Apoyo II de Sullana, Piura; ²Departamento de Pediatría, Hospital de Apoyo II de Sullana, Piura; ³Unidad de Intervenciones Estratégicas, Centro Nacional de Salud Pública del Perú, Instituto Nacional de Salud del Perú, Lima; ⁴Departamento del Oftalmología y Refracción, Instituto Nacional de Oftalmología, Lima; ⁵Facultad de Medicina Humana, Universidad Cesar Vallejo, Piura; ⁶Departamento de Patología Clínica y Anatomía Patológica, Hospital de Apoyo II de Sullana, Piura. Perú

Resumen

Introducción: La epidemia de dengue ha afectado de forma muy importante al Perú en el 2023, con más de 273,000 casos y más de 444 fallecidos. Las gestantes de zonas endémicas también han sido afectadas y se reportan más de 8,312 gestantes infectadas. **Caso clínico:** Se reporta el caso de un neonato de 11 días de vida con síntomas de fiebre, ictericia, alteración del sensorio y antecedente de parto cesárea por sufrimiento fetal agudo. Se identifica RT-PCR para dengue serotipo 2 en madre y neonato, suspendiéndose antibióticos e iniciando terapia de hidratación controlada con evolución favorable. **Conclusiones:** Se debe sospechar un caso de dengue congénito ante todo neonato cuya madre presenta dengue hasta 10 días antes del parto y que presente cuadro clínico de sepsis con vigilancia al neonato hasta el 12 día de vida.

Palabras clave: Epidemia. Virus del dengue. Transmisión perinatal. Reporte de caso.

Dengue congenital as a differential diagnosis in neonates with suspected neonatal sepsis: a case report in an endemic region

Abstract

Background: A major dengue epidemic affected Peru in 2023, with more than 246,614 cases with 419 deaths and an approximate of 8,312 pregnant women affected, with risk of transmitting the virus to the fetus. **Clinical case:** The case of an 11-day-old newborn is reported, whose mother started dengue fever one day before delivery, who was admitted to the emergency room with a diagnosis of sepsis (fever, jaundice, alteration of sensorium) and a history of cesarean delivery due to acute fetal distress. RT-PCR for dengue serotype 2 was identified in both the mother and neonate, suspending antibiotics and starting controlled hydration therapy, with favorable evolution that allowed the 7 to be discharged from hospitalization. **Conclusions:** Congenital dengue should be suspected in any neonate whose mother presents dengue up to 10 days before delivery and who presents a clinical picture of sepsis, and we must monitor the neonate until the 12th day of life.

Keywords: Epidemic. Dengue virus. Perinatal transmission. Case report.

*Correspondencia:

Luis A. Espinoza-Venegas
E-mail: laev16@hotmail.com

Fecha de recepción: 20-08-2024
Fecha de aceptación: 11-11-2024
DOI: 10.24875/BMHIM.24000107

Disponible en internet: 04-09-2025
Bol Med Hosp Infant Mex. 2025;82(5):314-318
www.bmhim.com

1665-1146/© 2024 Hospital Infantil de México Federico Gómez. Publicado por Permanyer. Este es un artículo open access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Introducción

El dengue es una enfermedad viral transmitida por mosquitos del género *Aedes* y se constituye como una preocupación global por su impacto en la salud pública, especialmente en regiones tropicales y subtropicales, siendo una causa de alta mortalidad¹. En el año 2023, la región de las Américas enfrentó un importante brote de dengue, con más de tres millones de casos notificados, superando los registros del año anterior. Brasil, Perú y Bolivia fueron los países más afectados, destacando Perú con una epidemia histórica que se ha cobró la vida de 419 personas y afectó a 8,312 gestantes, sin datos sobre la incidencia de dengue por transmisión vertical²⁻⁴.

Si bien se ha estudiado extensamente en adultos y niños, el dengue en mujeres embarazadas y neonatos ha surgido como un área de interés clínico creciente^{2,4,6}. El dengue en la gestación afecta al feto, está descrita la transmisión vertical y se informa una tasa de mortalidad neonatal del 5%, por lo que el reconocimiento temprano de la enfermedad en el neonato (dengue neonatal) es de suma importancia, pues puede pasar desapercibida y confundirse con sepsis neonatal^{1,5,6}. En zonas endémicas como la nuestra (Sullana, ubicada en Piura, Perú), es importante considerar a esta entidad como diagnóstico diferencial frente a la sepsis neonatal.

Presentamos un caso de dengue congénito en un neonato de 11 días de edad, cuya madre fue diagnosticada con dengue poco antes del parto. Este caso ilustra la complejidad del diagnóstico y manejo del dengue congénito, así como la importancia de la vigilancia y la colaboración interdisciplinaria en el tratamiento de esta enfermedad en áreas endémicas como Sullana-Piura, Perú.

Caso clínico

Neonato de sexo femenino de 11 días, ingresa por emergencia, con tiempo de enfermedad de un día, con fiebre (39 °C), irritabilidad, disminución de la succión e ictericia. Al examen físico presenta 52 respiraciones por minuto y 126 de frecuencia cardíaca. Se le hospitaliza bajo el diagnóstico presuntivo de sepsis neonatal, iniciándose un manejo con antibióticos (ampicilina 212 mg cada 8 horas más amikacina 51 mg cada 24 horas) y solución salina a 6 cc/kg/hora. Como antecedentes, la paciente nació por cesárea debido a sufrimiento fetal agudo, y fue dada de alta 2 días después del nacimiento. La madre, un día antes del parto presentó fiebre, malestar general, dolor osteoarticular y cefalea, y fue tratada de acuerdo con la guía nacional⁷ como un

caso probable de dengue sin signos de alarma, confirmando el diagnóstico dos días después del parto con una prueba de antígeno de glucoproteína no estructural 1 (NS1) positivo. El neonato pasó a cuidados intermedio y presentó una prueba de NS1 positiva y reacción en la cadena de la polimerasa en tiempo real (RT-PCR) positiva para serotipo 2 de dengue; además se solicitó RT-PCR a la madre, la cual también fue positiva para dengue con el mismo serotipo del neonato. El hemocultivo resultó negativo y la ecografía no evidenció líquido libre en cavidad abdominal. De esta manera se confirmó el diagnóstico de dengue congénito, suspendiéndose los antibióticos e iniciando terapia de hidratación controlada con dextrosa 5% más electrolitos a 3 cc/kg/hora, manteniendo un flujo urinario por encima 1 cc/kg/hora.

Al día 4 de enfermedad el neonato presentó petequias que se autolimitaron y en el día 6 tuvo un *rash* leve. Con respecto a la analítica de laboratorio, el paciente ingreso con hiperbilirrubinemia (7.72 mg/dl) a predominio indirecto (7.12 mg/dl) y con una proteína C reactiva en 1.6 mg/dl. En el hemograma, tanto los leucocitos como los linfocitos se mantuvieron en rangos normales para su edad, no obstante, el hematocrito se empezó a hemoconcentrar del 47 al 53%, pero luego con la hidratación controlada llegó al 45% (Tabla 1). La transaminasa glutámico-oxalacética llegó a 74 U/l.

Luego de iniciar la hidratación controlada presentó evolución clínica y laboratorial favorable, siendo dado de alta 7 días después de su hospitalización (Fig. 1).

Discusión

La incidencia de dengue en gestantes es similar a la de la población general; sin embargo, el riesgo de complicaciones es mayor y puede afectar al feto, pero en nuestro caso a pesar de estos riesgos el desenlace fue favorable⁸⁻¹¹. En un estudio prospectivo de 44 gestantes con dengue confirmado, se encontró que el 12.5% de los recién nacidos requirieron ingreso en unidades de cuidados críticos neonatales y el 5% presentó mortalidad neonatal¹². Igualmente, el embarazo con dengue se asocia con un mayor riesgo de prematuridad (*odds ratio* [OR]: 1.71; intervalo de confianza del 95% [IC 95%]: 1.06-2.76), bajo peso al nacer (OR: 1.41; IC 95%: 0.90-2.21), aborto espontáneo (OR: 3.5; IC 95%: 1.15-10.77), muerte fetal (OR: 2.71; IC 95%: 1.44-5.10) y muerte neonatal (OR: 3.03; IC 95%: 1.17-7.83)¹³, por lo que se recomienda la hospitalización de todas las gestantes con dengue y una vigilancia estrecha del binomio madre-hijo para mitigar los riesgos asociados y asegurar un desenlace favorable¹. En nuestro caso, la madre

Tabla 1. Evolución del hemograma durante su estancia hospitalaria

Componente	Día de enfermedad			
	2 día	3 día	4 día	6 día
Leucocitos	6,870 leucocitos/mm ³	9,080 leucocitos/mm ³	9,580 leucocitos/mm ³	8,750 leucocitos/mm ³
Linfocitos	3,230 linfocitos/mm ³	4,450 linfocitos/mm ³	5,970 linfocitos/mm ³	6,030 linfocitos/mm ³
Plaquetas	155,000 plaquetas/mm ³	189,000 plaquetas/mm ³	154,000 plaquetas/mm ³	162,000 plaquetas/mm ³
Hematocrito	47%	49%	53%	45%

**Figura 1.** Neonato con dengue congénito un día previo al alta.

fue diagnosticada con dengue sin signos de alarma días previos al parto, sin embargo el feto desarrolló sufrimiento fetal agudo, lo que requirió un parto distócico mediante cesárea, revelando la independencia de las complicaciones obstétricas de la gravedad de la infección.

La literatura reporta que el alto riesgo de resultados fetales adversos se correlaciona con la producción de citocinas proinflamatorias, como interleucina (IL) 6, IL-8 y factor de necrosis tumoral alfa^{9,13}. Este último afecta al útero al incrementar la producción de proteínas de activación uterina, provocando partos prematuros^{9,13}. Además, se observan efectos como edema estromal, aumento de los ganglios sincitiales y corangiosis, los cuales comprometen la circulación placentaria y causan hipoxia fetal. Esta hipoxia puede resultar en un retraso del crecimiento fetal si la infección ocurre en las primeras etapas del embarazo^{9,13}; sufrimiento fetal agudo y la muerte fetal, con una incidencia entre el 4.7 y 13%, son significativamente más elevados en casos de dengue

sintomático en la madre, siendo seis veces mayor en comparación con madres asintomáticas¹⁴. Se postulan tres mecanismos implicados en estas repercusiones fetales: a) la diseminación hematógena secundaria a la infección materna que permite la transmisión a través de la placenta; b) la viremia que aumenta el riesgo de transmisión del virus debido al intercambio de sangre durante el parto, y c) la presencia de dengue grave en la madre, que altera directamente la función placentaria sin que el feto tenga una infección viral real. En nuestro caso, es probable que los mecanismos responsables sean el primero o el segundo o ambos, dado que la gestante presentaba un día de enfermedad y ya estaba en estado de viremia días antes del parto¹⁴. El dengue congénito muestra una tasa de transmisión vertical del 1.6 al 69.2%, aumentando cuando el dengue materno ocurre cerca del parto. Hasta el 77% de los neonatos pueden presentar síntomas, el 5.8% pueden mostrar signos de alarma y el 1.9% pueden desarrollar dengue grave¹⁵⁻¹⁸. Este incremento en la tasa de transmisión se debe a la falta de tiempo suficiente para la inducción y el paso transplacentario de anticuerpos protectores después de la infección materna¹⁹⁻²¹. Se ha reportado que la gestante puede transmitir el virus del dengue al feto si presenta fiebre desde 10 días antes hasta 10 horas después del parto, independientemente de la vía del parto¹⁸. La concentración de anticuerpos específicos para el serotipo se correlaciona con la protección, teniendo una vida media de 40 días en el neonato. Posteriormente, los anticuerpos no neutralizantes pueden facilitar la entrada del virus en los monocitos, aumentando el riesgo de formas graves de dengue si el niño se infecta²². El diagnóstico de dengue neonatal en nuestro caso se ve respaldado por la coincidencia del periodo crítico y el de transmisión vertical, ya que la madre se encontraba dentro del intervalo de tiempo de riesgo. Además, la similitud en los serotipos virales entre madre e hijo refuerza esta conclusión.

Los casos sintomáticos de dengue congénito que ingresan a emergencias suelen diagnosticarse erróneamente como sepsis en el 25% de los casos y como trombocitopenia inmune neonatal en el 12.5%^{23,24}. Sin embargo, al egreso, el 82.1% de estos casos son categorizados como dengue con signos de alarma. La edad media de inicio de síntomas en neonatos es de 7 días^{23,24}. Las manifestaciones clínicas en las madres generalmente comienzan entre 9 días antes del parto y un día después de este. Se ha observado que cuanto mayor es el intervalo entre la aparición de la fiebre materna y el parto, más pronto aparecerá la fiebre en el neonato^{23,24}. El dengue congénito debe sospecharse en neonatos provenientes de zonas endémicas que presenten fiebre, alteraciones hemodinámicas (reticulado en piel, mala perfusión periférica, cianosis distal), erupción maculopapular, hepatomegalia, derrame pleural, ascitis, distensión abdominal, vómitos, trombocitopenia, hipoactividad e hipoglucemia. En casos graves pueden observarse síntomas de sepsis, hemorragia digestiva o intracerebral, *shock* séptico, insuficiencia respiratoria o encefalitis^{17,19,24,25}. Es crucial la comunicación entre los servicios de gineco-obstetricia, pediatría y el primer nivel de atención para neonatos nacidos de madres con dengue, especialmente si los síntomas maternos comenzaron al menos 9 días antes del parto. La fiebre en el neonato puede presentarse hasta el día 11 de vida, por lo que se recomienda vigilancia hasta los 12 días posteriores al nacimiento. La fuga capilar de plasma puede durar entre 12 y 24 horas. La prueba de NS1 puede ser positiva hasta siete días después del nacimiento, y los anticuerpos IgM e IgG pueden tardar entre 2 y 3 semanas en ser detectables^{1,20}. Por ello, en regiones endémicas, como la nuestra, es fundamental incluir el dengue congénito dentro de los diagnósticos diferenciales de sepsis neonatal.

En el contexto del dengue neonatal, las pruebas de laboratorio pueden detectar NS1 y RT-PCR en la sangre del cordón umbilical^{19,23}. Se observa plaquetopenia, aunque la interpretación del hemoconcentración debe ser cautelosa debido a los valores de hematocrito elevados en neonatos^{19,23}. Durante la etapa febril, los leucocitos tienden a disminuir levemente ($7,800 \pm 800/\text{mm}^3$), para luego aumentar en la fase crítica ($13,400 \pm 2,800/\text{mm}^3$)^{19,23}. Las transaminasas, especialmente la transaminasa glutámico-oxalacética, muestran un incremento mayor que la transaminasa glutámico-pirúvica. En casos graves pueden alterarse los tiempos de coagulación y sangría^{19,23}.

En cuanto al manejo, se recomienda la administración de soluciones polielectrolíticas balanceadas para

mantener la presión arterial media dentro de los límites normales para la edad y el sexo¹; en neonatos, el manejo del sodio presenta desafíos debido a la inmadurez renal, y la hipoglucemia es más frecuente, por lo que varias guías sugieren el uso de dextrosa al medio normal. La velocidad de infusión debe ajustarse según la fuga capilar, evaluada mediante pulso, presión arterial, presión del pulso, tiempo de llenado capilar, hematocrito y producción de orina, siendo esta última el indicador más confiable ($0.5\text{--}1 \text{ ml/kg/hora}$) durante el periodo crítico²⁰.

Concluimos que en las regiones endémicas de dengue como la nuestra es esencial monitorizar el dengue congénito en neonatos cuyas madres presentan síntomas de dengue desde 10 días antes del parto hasta un día después. Para estos casos, se recomienda tomar muestras del cordón umbilical para la prueba de NS1 y mantener una vigilancia estrecha del neonato hasta los 12 días de edad. Esto requiere una coordinación eficaz entre los servicios de gineco-obstetricia, pediatría y el primer nivel de atención. Además, se debe considerar el dengue congénito en cualquier neonato con signos clínicos de sepsis que cumpla con estos criterios.

Financiamiento

Los autores declaran no haber recibido financiamiento para este estudio.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener conflicto de intereses.

Consideraciones éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad, consentimiento informado y aprobación ética. Los autores han seguido los protocolos de confidencialidad de su institución, han obtenido el consentimiento informado de los pacientes, y cuentan con la aprobación del Comité de Ética. Se han seguido las recomendaciones de las guías SAGER, según la naturaleza del estudio.

Declaración sobre el uso de inteligencia artificial. Los autores declaran que no utilizaron ningún tipo de inteligencia artificial generativa para la redacción de este manuscrito.

Referencias

1. Organización Panamericana de la Salud. Dengue: guía para la atención de enfermos en la región de las Américas [Internet]. Organización Panamericana de la Salud; 2016. Disponible en: https://iris.paho.org/bitstream/handle/10665.2/28232/9789275318904_esp.pdf?sequence=1&isAllowed=y
2. Mitchell C. Dengue [Internet]. Pan American Health Organization/World Health Organization; 2014 [citado 17 de septiembre de 2023]. Disponible en: https://www3.paho.org/hq/index.php?option=com_content&view=article&id=9469:dengue&Itemid=0&lang=es#gsc.tab=0
3. World Health Organization. Dengue - the Region of the Americas [Internet]. World Health Organization; 19 jul 2023 [citado 25 de octubre de 2023]. Disponible en: <https://www.who.int/emergencies/disease-outbreak-news/item/2023-DON475>
4. Sala situacional diaria de dengue [Internet]. Gobierno de Perú [citado 17 de septiembre de 2023]. Disponible en: <https://www.dge.gob.pe/sala-situacional-dengue/diaria>
5. Brar R, Sikka P, Suri V, Singh MP, Suri V, Mohindra R, et al. Maternal and fetal outcomes of dengue fever in pregnancy: a large prospective and descriptive observational study. *Arch Gynecol Obstet*. 2021;304(1):91-100. doi:10.1007/s00404-020-05930-7
6. Sharath Keerthy N. Are we missing neonatal dengue? *Indian Pediatr*. 2019;56:697.
7. Minsa. Norma técnica de salud para la atención integral de pacientes con dengue en el Perú. RM 175-2024 [Internet]. Perú: Minsa; 2024. Disponible en: <https://cdn.www.gob.pe/uploads/document/file/6007546/5323501-r-m-175-2024-minsa-y-nts-211-dgiesp.pdf>
8. Feitoza HAC, Koifman S, Koifman RJ, Saraceni V. Os efeitos maternos, fetais e infantis decorrentes da infecção por dengue durante a gestação em Rio Branco, Acre, Brasil, 2007-2012. *Cad Saúde Pública* [Internet]. 2017 [citado 26 de octubre de 2023];33(5). doi:10.1590/0102-311x00178915
9. Tougma SA, Zoungana/Yaméogo WN, Dahourou DL, Salou/Kagoné IA, Compaoré TR, Kaboré A, et al. Dengue virus infection and pregnancy outcomes during the 2017 outbreak in Ouagadougou, Burkina Faso: a retrospective cohort study. *PLoS One*. 2020;15(9):e0238431.
10. Madureira da Mota AK. Os efeitos da infecção pelo vírus da dengue na gestação [Internet]. Escola Nacional de Saúde Pública; 2012 [citado 25 de octubre de 2023]. Disponible en: <https://www.arca.fiocruz.br/bitstream/handle/icict/24283/838.pdf?sequence=1&isAllowed=y>
11. Nascimento LBD, Siqueira CM, Coelho GE, Siqueira JB, Nascimento LBD, Siqueira CM, et al. Dengue em gestantes: caracterização dos casos no Brasil, 2007-2015*. *Epidemiol E Serviços Saúde*. 2017;26(3):433-42. doi:10.5123/S1679-49742017000300002
12. Brar R, Sikka P, Suri V, Singh MP, Suri V, Mohindra R, et al. Maternal and fetal outcomes of dengue fever in pregnancy: a large prospective and descriptive observational study. *Arch Gynecol Obstet*. 2021;304(1):91-100. doi:10.1007/s00404-020-05930-7
13. Howard-Jones AR, Pham D, Sparks R, Maddocks S, Dwyer DE, Kok J, et al. Arthropod-borne flaviviruses in pregnancy. *Microorganisms*. 2023;11(2):433. doi:10.3390/microorganisms11020433
14. Manzano Núñez R, Zapata JA, García-Perdomo HA, Gómez DA, Solís Velasco MA. Dengue perinatal: Reporte de caso. *Rev Chil Pediatr*. 2017;88(6):765-70. doi:10.4067/S0370-41062017000600765
15. Basurko C, Matheus S, Hildéral H, Everhard S, Restrepo M, Cuadro-Alvarez E, et al. Estimating the risk of vertical transmission of dengue: a prospective study. *Am J Trop Med Hyg*. 2018;98(6):1826-32. doi:10.4269/ajtmh.16-0794
16. Tan PC, Rajasingam G, Devi S, Omar SZ. Dengue infection in pregnancy: prevalence, vertical transmission, and pregnancy outcome. *Obstet Gynecol*. 2008;111(5):1111-7. doi:10.1097/aog.0b013e31816a49fc
17. Centurión R, Rienzi R, Godoy G, Buena J. Infección por dengue perinatal en un centro hospitalario del departamento central de Paraguay. *Rev Nac Itauguá*. 2014;6(2):38-54.
18. Gupta S, Choudhury V, Gupta NP, Gupta V, Pandita A. Congenital dengue in neonate. *Clin Case Rep*. 2020;9(2):704-6. doi:10.1002/ccr3.3627
19. Singh S, Alallah J, Amrit A, Maheshwari A, Boppana S. Neurological manifestations of perinatal dengue. *Newborn Clarksville Md*. 2023;2(2):158-72. doi:10.5005/jp-journals-11002-0066
20. Iqtadar S. Dengue GCP Guidelines for pregnancy 2021 [Internet]. Services Institute of Medical Sciences; 2021 [citado 26 de octubre de 2023]. Disponible en: <https://deag.punjab.gov.pk/system/files/DENGUE%20GCP%20GUIDELINES%20FOR%20PREGNANCY%202021.pdf>
21. Restrepo BN, Isaza DM, Salazar CL, Ramírez JL, Upegui GE, Ospina M, et al. Dengue en el embarazo: efectos en el feto y el recién nacido. *Biomédica*. 2003;23(4):416. doi:10.7705/biomedica.v23i4.1236
22. Salgado DM, Rodríguez JA, Lozano L del P, Zabaleta TE. Perinatal dengue. *Biomédica*. 2013;33:14-21. doi:10.7705/biomedica.v33i0.1449
23. Nguyen TM. Clinical features and outcomes of neonatal dengue at the Children's Hospital 1, Ho Chi Minh, Vietnam. *J Clin Virol*. 2021;138:104758.
24. Bopeththa BVKM, Hemapriya S, Gayan Niranga KK, Kotigala DSK. A case report of dengue haemorrhagic fever during the peripartum period: challenges in management and a case of vertical dengue transmission. *BMC Infect Dis*. 2018;18(1):427. doi:10.1186/s12879-018-3352-x
25. Sinhabahu VP, Sathananthan R, Malavige GN. Perinatal transmission of dengue: a case report. *BMC Res Notes*. 2014;7:795. doi:10.1186/1756-0500-7-795

Clinical and dermoscopic findings of classic-type nevus lipomatosus cutaneous superficialis in an adolescent. Case report

Juan A. Godínez-Chaparro^{1*}, Marissa de J. Quintal-Ramírez², and Baldomero García-Gálvez³

¹Pediatric Dermatology Service, High Specialty Medical Unit of the Dr. Gaudencio González Garza General Hospital, Centro Médico Nacional la Raza, Instituto Mexicano del Seguro Social (IMSS); ²Department of Pathology, Centro Médico Nacional la Raza, IMSS; ³National School of Medicine and Homeopathy, Instituto Politécnico Nacional. Mexico City, Mexico

Abstract

Background: Nevus Lipomatosus Cutaneous Superficialis (NLCS) is a rare benign tumor characterized by the presence of ectopic adipocytes distributed among the collagen bundles in the dermis. Dermoscopy of this lesion has been poorly documented, but it aids in diagnosis. **Clinical case:** A female patient, 11 years and 5 months old, presented with lesions in the lumbar region that had gradually increased in size and number since birth. In September 2023, she was evaluated at CMN La Raza, where a lesion in the lumbar region was observed, consisting of a linear plaque measuring 30 × 15 mm in diameter, composed of multiple skin-colored papules and nodules that coalesced. Dermoscopy revealed a cerebriform surface, a web-like pigment network, and the presence of yellowish structureless areas. Histopathology showed a proliferation of mature adipocytes in the reticular and papillary dermis. The adipocytes were located perianexally, perivascularly, and dispersed among the collagen bundles. An increase in the density of collagen bundles was observed. The diagnosis was NLCS. The lesion was completely excised without recurrence. **Conclusions:** The condition may be underdiagnosed due to a lack of medical familiarity. Dermoscopy facilitates a more accurate diagnosis. An increased number of reports will contribute to the creation of a database for future studies and potential associations.

Keywords: Nevus lipomatosus cutaneous superficialis. Nevus lipomatosus superficialis. Hamartoma.

Hallazgos clínicos y dermatoscópicos del nevus lipomatoso cutáneo superficial de tipo clásico en un adolescente. Reporte de caso

Resumen

Introducción: El nevo lipomatoso cutáneo superficial es una lesión tumoral benigna rara caracterizada por la presencia de adipocitos ectópicos distribuidos entre los haces de colágeno dérmico. La dermatoscopia de esta lesión ha sido poco documentada y apoya en su diagnóstico. **Caso clínico:** Paciente de sexo femenino de 11 años y 5 meses de edad. Desde su nacimiento presenta lesiones en la región lumbar que han aumentado de tamaño y número de forma gradual. En septiembre de 2023 se revisó en el Centro Médico Nacional La Raza y se observó una lesión en región lumbar constituida por una placa de distribución lineal de 30 × 15 mm de diámetro, compuesta por múltiples pápulas y nódulos del color de la piel que se fusionaban entre sí. En la dermatoscopia se observó la superficie cerebriforme, red de pigmento en forma de telaraña y la presencia de áreas amarillentas sin estructura. La histopatología reveló en la dermis reticular y papilar una

*Correspondence:

Juan A. Godínez-Chaparro

E-mail: alberto.godinezch@gmail.com

Date of reception: 01-09-2024

Date of acceptance: 21-11-2024

DOI: 10.24875/BMHIM.24000112

Available online: 04-09-2025

Bol Med Hosp Infant Mex. 2025;82(5):319-322

www.bmhim.com

1665-1146/© 2024 Hospital Infantil de México Federico Gómez. Published by Permanyer. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

proliferación de adipocitos maduros. Los adipocitos se localizaron a nivel perianexial, perivascular y dispersos entre los haces de colágeno. Se observó un incremento en la densidad de los haces de colágeno. Se diagnosticó un nevo lipomatoso cutáneo superficial. Se resecó totalmente la lesión sin mostrar recidiva. Conclusiones: La entidad podría estar subdiagnosticada por falta de familiaridad médica. La dermatoscopia facilita un diagnóstico más preciso. Un mayor número de reportes contribuirá a crear una base de datos para futuros estudios y posibles asociaciones.

Palabras clave: Nevo lipomatoso cutáneo superficial. Nevos lipomatosos superficiales. Hamartoma.

Introduction

A hamartoma is a developmental anomaly involving an excess of one or more mature or nearly mature tissue structures, usually located at the site in question and often with a predominant component. Cutaneous hamartomas are abnormalities resulting from irregularities during embryogenesis or abnormal development of skin components. Although present from birth, they become more evident over time. Depending on the affected element, cutaneous hamartomas can be classified as epidermal, connective, lipomatous, adnexal, or angiomatous¹.

Nevus Lipomatosus Cutaneous Superficialis (NLCS) is a hamartoma of connective tissue characterized by clusters of mature ectopic adipocytes situated among the collagen bundles in the dermis^{2,3}. It is a rare benign tumor; as of December 2023, fewer than 200 cases had been documented in the PubMed database. In addition, case reports in the Mexican population are scarce². Although the initial clinical evaluation may suggest the diagnosis, dermoscopy – a diagnostic tool that has been minimally described in this type of hamartoma – provides valuable additional support in its identification. Here, we present a classic case of NLCS in a Mexican adolescent, where dermoscopy was employed as part of the diagnostic process.

Clinical case

This is a case of an 11-year-and-5-month-old female patient with a 2-year history of anxiety disorder treated with sertraline. She has no relevant medical history concerning her present condition. Since birth, she has developed lesions in the lumbar region, initially in small quantities. Over the years, these lesions have gradually increased in size and number, with very slow growth. The lesion remained asymptomatic throughout. She did not receive any medical intervention. In September 2023, she was referred to the dermatology department at CMN La Raza for evaluation.

During somatometry, the following data were recorded: Weight of 53 kg, height of 1.51 m, heart rate of 82 bpm,

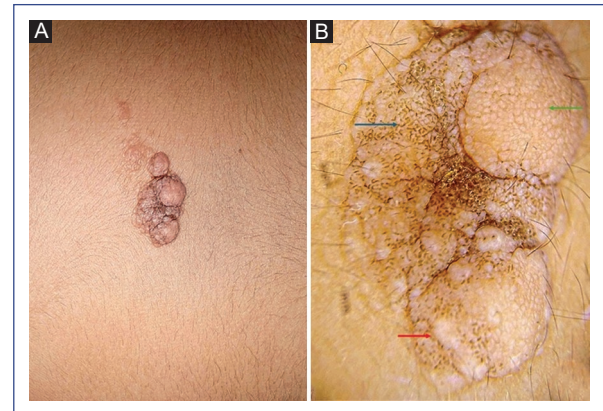


Figure 1. A: clinical image showing a linear skin-colored plaque with slight central hyperpigmentation, composed of multiple papules that group and fuse together. **B:** dermoscopy (DermLite DL3, $\times 10$, contact/non-polarized mode). The cerebriform surface (green arrow), some areas with a spiderweb-like pigment network (blue arrow), and the presence of structureless yellowish areas (red arrow) are observed.

and respiratory rate of 21 rpm. During the physical examination, a localized dermatosis was observed on the trunk, affecting the lumbar region. The lesion consisted of a slightly oval linear plaque measuring 30 $\times$ 15 mm in diameter, composed of multiple skin-colored papules and nodules that coalesced. Dermoscopy revealed a cerebriform surface formed by gyri and sulci, with some areas showing a web-like pigment network and the presence of yellowish structureless areas, some of which displayed perifollicular distribution (Fig. 1). A skin biopsy was performed, revealing epidermal acanthosis and, in some areas, elongation of the dermal papillae. In the reticular and papillary dermis, a proliferation of mature adipocytes was observed. The adipocytes were located perianexally, perivascularly, and dispersed among the collagen bundles. An increase in the density of the collagen bundles was also noted (Fig. 2). Based on all histological findings, a diagnosis of NLCS was made. Subsequently, the lesion was completely excised by the plastic and reconstructive surgery department. To date, no recurrence of the lesion has been reported.

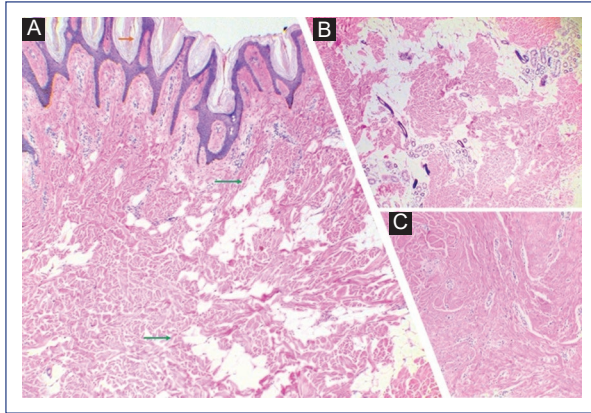


Figure 2. Histopathologic examination. **A:** panoramic image showing epidermal acanthosis and elongation of dermal papillae (orange arrow). In the papillary and reticular dermis, there is a proliferation of mature adipocytes scattered among the collagen bundles (green arrow). **B:** adipocytes are located periannexally, perivascularly, and scattered among the collagen bundles. **C:** increase in the density of the collagen bundles.

Discussion

NLCS, first described by Hoffmann and Zurhelle in 1921, has an uncertain etiology with several proposed theories. Hoffmann and Zurhelle suggested that fat deposition in the dermis is secondary to degenerative changes (metaplasia) in connective tissue⁴. Another hypothesis proposes that abnormal fat formation in the dermis might originate from perivascular precursor cells, similar to the development of fetal fat. This theory is supported by microscopic studies that have identified young adipocytes around blood vessels, which subsequently mature into fat⁵. In addition, some believe that the adipocytes represent a true nevus arising from focal heterotopic development of adipose tissue⁶.

NLCS presents two distinct clinical forms: The multiple or classic type, and the solitary form. In the classic type, lesions are present from birth, although they may not be apparent during the 1st few years of life, and they progressively develop over the following three decades. These lesions consist of multiple papules that cluster to form skin-colored or yellowish plaques. They may have a linear zosteriform distribution (as in the present case) or a segmental distribution, with a smooth or cerebriform surface. Their growth is slow, but they can reach considerable sizes if left untreated and are often noticed by the patient after years. The most common locations for the classic type include the pelvic girdle (40%), the lower

trunk (31%), and the lower extremities (15.5%). In contrast, the solitary form is characterized by a single sessile dome-shaped papule or nodule, typically appearing between the third and sixth decades of life, measuring 0.3-2.5 cm, and primarily located on the legs (29.4%), trunk (23.5%), and buttocks (20.5%), though it may also occur in other areas, including the scalp, eyelids, nose, and clitoris. Cases of coexistence of both clinical types in the same patient have been reported^{2,3,7}.

Dermoscopy is a diagnostic tool that, using an instrument combining a light source and a magnifying lens, allows the clinician to visualize subcutaneous structures that are not visible to the naked eye. Its use in non-melanocytic lesions is relatively recent, and reports on the dermoscopic features of NLCS are limited. Vinay et al. identified five dermoscopic findings in NLCS: (1) Cerebriform surface formed by gyri (ridges) and sulci (fissures) filled with keratin, (2) web-like pigment network, composed of brown lines and yellowish holes creating a honeycomb-like pattern, (3) border of the cerebriform surface with a homogeneous white film resembling “frosted glass” or a “veil,” (4) yellowish structureless areas, some with perifollicular distribution, corresponding to dermal adipocytes, and (5) comedo-like openings⁸.

Baraldi et al. documented additional dermoscopic findings in NLCS, including a pink background and white linear structures. In lesions with a smooth surface, white linear structures with linear spiral vessels were observed, while in NLCS with a cerebriform surface, brown pigmented areas with irregularly distributed linear spiral and looped vessels were identified⁷. The diversity in findings highlights the need to continue describing the dermoscopic characteristics of NLCS to establish clear diagnostic patterns.

Histopathologically, the characteristic finding of NLCS is the proliferation of mature adipocytes in the reticular dermis, which may extend into the papillary dermis. Generally, there is no connection with the subcutaneous tissue; for some authors, this finding is necessary to establish the diagnosis of NLCS. The proportion of adipose tissue embedded among the dermal collagen bundles ranges from 40% to 70%, with larger lesions showing a higher quantity of adipocytes compared to smaller ones. Adipocytes are typically located periannexally (around the eccrine glands), perivascularly, or scattered among the collagen bundles. A small amount of fat may be found around subpapillary blood vessels, with a central large blood vessel surrounded by several smaller vessels giving a glomeruloid appearance. In

some cases, there is an increase in the density of collagen bundles, fibroblasts, and blood vessels within the dermis^{3,4,9}.

In rare instances, the coexistence of NLCS with other lesions, such as trichofolliculoma, folliculosebaceous hamartoma, or perifollicular fibroma has been observed. These hamartomas can clinically resemble other types of cutaneous tumors or hamartomas. Differential diagnosis for the classic type of NLCS includes connective tissue nevus, mucinous sebaceous nevus, pilocytic hemangioma, lymphangioma, and focal dermal hyperplasia (Goltz syndrome). The solitary type may be confused with soft fibromas, solitary neurofibromas, and solitary lipofibromas^{2,3}. For an accurate differential diagnosis, the previously described dermoscopy is used, and a histopathological study is essential.

Conclusions

This condition may be underdiagnosed due to a lack of familiarity among physicians. Dermoscopy serves as a non-invasive tool in the diagnosis of NLCS and helps differentiate it from other skin conditions. In addition, documenting a greater number of cases will contribute to creating a database for future studies and potential associations.

Funding

The authors declare that they have not received funding.

Conflicts of interest

The authors declare no conflicts of interest.

Ethical considerations

Protection of humans and animals. The authors declare that no experiments involving humans or animals were conducted for this research.

Confidentiality, informed consent, and ethical approval. The authors obtained parental informed consent and approval from the Ethics and Research Committee for the analysis of routinely collected and anonymized clinical data.

Declaration on the use of artificial intelligence. The authors declare that no generative artificial intelligence was used in the writing of this manuscript.

References

1. Sánchez-Saldaña L. Hamartomas. *Dermatol Peru*. 2012;22:8-9.
2. Yang JW, Park MO. The nevus lipomatosus superficialis of face: a case report and literature review. *Arch Plast Surg*. 2024;51:196-201.
3. Jain A, Sharma A, Sharda R, Aggarwal C. Nevus lipomatosus cutaneous superficialis: a rare hamartoma. *Indian J Surg Oncol*. 2020;11:147-9.
4. Goucha S, Khaled A, Zéglauoui F, Rammeh S, Zermani R, Fazaa B. Nevus lipomatosus cutaneous superficialis: report of eight cases. *Dermatol Ther (Heidelb)*. 2011;1:25-30.
5. Pursley TV. Nevus lipomatosus cutaneous superficialis. *Int J Dermatol*. 1983;22:430-1.
6. Dotz W, Prioleau PG. Nevus lipomatosus cutaneous superficialis. *Arch Dermatol*. 1984;120:376-9.
7. Baraldi C, Barisani A, Fanti PA, Patrizi A. Clinical, dermoscopic and histopathological features of solitary nevus lipomatosus cutaneous superficialis. *Indian J Dermatol Venereol Leprol*. 2021;87:399-401.
8. Vinay K, Sawatkar GU, Saikia UN, Kumaran MS. Dermatoscopic evaluation of three cases of nevus lipomatosus cutaneous superficialis. *Indian J Dermatol Venereol Leprol*. 2017;83:383-6.
9. Patil SB, Narchal S, Paricharak M, More S. Nevus lipomatosus cutaneous superficialis: a rare case report. *Iran J Med Sci*. 2014;39:304-7.

Hemoptisis como síntoma inicial de carcinoma mucoepidermoide pulmonar en un niño

Héctor Nuñez-Paucar^{1,2*}, Noé Atamari-Anahui^{1,2}, Carla Cruzado-Villanueva³ y Víctor Gómez-Ponce⁴

¹Servicio de Neumología Pediátrica, Instituto Nacional de Salud del Niño Breña, Lima; ²Unidad de Investigación para la Generación y Síntesis de Evidencias en Salud, Vicerrectorado de Investigación, Universidad San Ignacio de Loyola, Lima; ³Servicio de Anatomía Patológica, Instituto Nacional de Salud del Niño, San Borja; ⁴Servicio de Cirugía de Tórax y Cardiovascular, Instituto Nacional de Salud del Niño, San Borja, Lima. Perú

Resumen

Introducción: El carcinoma mucoepidermoide pulmonar es una neoplasia rara en los niños. Los síntomas inespecíficos como la hemoptisis pueden retrasar el diagnóstico porque confunden con otras enfermedades respiratorias. **Caso clínico:** Paciente de sexo masculino de 9 años presentó episodios recurrentes de tos y hemoptisis. El paciente presentó meses previos dos episodios similares asociados a sibilancias y fue manejado como crisis asmática. Los estudios radiológicos y la broncoscopia reportaron una masa pulmonar que obstruía el bronquio principal izquierdo, produciendo atelectasia y compromiso del pulmón izquierdo. La biopsia transtorácica resultó positiva para tumor de tipo glándula salival. El tratamiento fue quirúrgico (neumonectomía izquierda). El estudio histopatológico e inmunohistoquímico reportó carcinoma mucoepidermoide de bajo grado. No recibió quimioterapia. A los dos años de seguimiento el paciente estaba asintomático y no evidenciamos recurrencia. **Conclusiones:** El carcinoma mucoepidermoide pulmonar es raro en niños. La hemoptisis y los signos de obstrucción bronquial pueden simular otras enfermedades respiratorias, ocasionando retraso en el diagnóstico. El tratamiento es quirúrgico, con buen pronóstico en el seguimiento.

Palabras clave: Carcinoma mucoepidermoide. Neoplasias del pulmón. Neumonectomía. Niño.

Hemoptysis as an initial symptom of pulmonary mucoepidermoid carcinoma in a child

Abstract

Background: Pulmonary mucoepidermoid carcinoma is a rare neoplasm in children. Nonspecific symptoms such as hemoptysis may delay diagnosis because they are confused with other respiratory diseases. **Clinical case:** A 9-year-old male patient presented recurrent episodes of cough and hemoptysis. The patient had two similar episodes associated with wheezing in previous months and was treated as an asthma attack. Radiological studies and bronchoscopy reported a lung mass obstructing the left main bronchus, causing atelectasis and involvement of the left lung. Transthoracic biopsy was positive for a salivary gland tumor. Treatment was surgical (left pneumonectomy). Histopathological and immunohistochemical studies reported low-grade mucoepidermoid carcinoma. He did not receive chemotherapy. After two years of follow-up, the patient was asymptomatic, and we did not see any recurrence. **Conclusions:** Pulmonary mucoepidermoid carcinoma is rare in children. Hemoptysis and signs of bronchial obstruction may mimic other respiratory diseases, causing a delay in diagnosis. Treatment is surgical, with a good prognosis during follow-up.

Keywords: Carcinoma. Mucoepidermoid. Lung neoplasms. Pneumonectomy. Child.

*Correspondencia:

Héctor Nuñez-Paucar

E-mail: hectornunezpaucar@gmail.com

1665-1146/© 2024 Hospital Infantil de México Federico Gómez. Publicado por Permanyer. Este es un artículo open access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Fecha de recepción: 31-10-2024

Fecha de aceptación: 25-11-2024

DOI: 10.24875/BMHIM.24000136

Disponible en internet: 04-09-2025

Bol Med Hosp Infant Mex. 2025;82(5):323-327

www.bmhim.com

Introducción

El carcinoma mucoepidermoide pulmonar (CMEP) es una neoplasia maligna poco frecuente que se origina en las glándulas submucosas de tipo salival de las vías respiratorias y puede ocasionar obstrucción total o parcial de la luz bronquial¹. En adultos, de todas las neoplasias malignas de pulmón representa menos del 1%, con mayor frecuencia en varones y con una media de edad 60 años², y en niños representa alrededor del 12% de todas las neoplasias pulmonares, sin diferencias en el sexo y con mayor frecuencia entre 5 y 9 años³.

El diagnóstico a menudo resulta desafiante debido a la sintomatología inespecífica como tos y hemoptisis, con posibilidad de confusión con otras enfermedades respiratorias como neumonía, tuberculosis o asma⁴⁻⁶. Al ser una afección poco frecuente en niños y que requiere una sospecha precoz para evitar un diagnóstico tardío, el objetivo del trabajo fue reportar un niño que acudió a consulta por hemoptisis y se le diagnóstico de CMEP con manejo quirúrgico y evolución favorable al seguimiento de 2 años.

Caso clínico

Paciente de sexo masculino de 9 años que acudió a la emergencia por tos y hemoptisis moderada (10 ml). Ocho meses previos presentó el primer episodio de tos con rasgos hemoptoicos que se autolimitó en tres días, y después de dos meses presentó un segundo episodio de hemoptisis moderada (20 ml) que se resolvió en dos días. En ambos episodios recibió terapia para crisis asmática porque se asociaba a sibilancias.

El paciente tenía síntomas respiratorios crónicos como tos, sibilancias intermitentes e intolerancia al ejercicio desde los seis años. Estos síntomas se controlaron parcialmente a pesar de una terapia extensa para el asma. El paciente no había estado en contacto con personas con tuberculosis ni presentaba pérdida de peso. No tenía antecedentes familiares de cáncer.

Al examen físico las funciones vitales eran normales para la edad, no tenía dificultad respiratoria y tampoco desaturación. La amplexación era simétrica en tórax con sibilantes espiratorios y disminución del murmullo vesicular en base izquierda de tórax. El resto del examen era normal.

En la radiografía de tórax se observó una opacidad retrocardíaca que impresionaba seccionar el bronquio principal izquierdo, infiltrados heterogéneos y leve disminución del volumen del pulmón izquierdo (Fig. 1A).

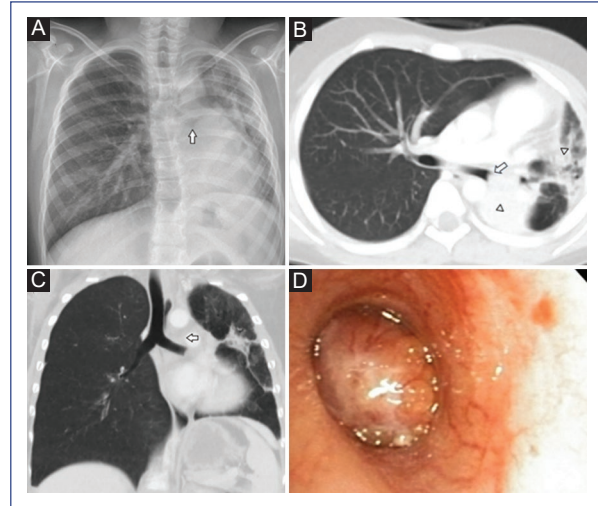


Figura 1. Carcinoma mucoepidermoide pulmonar izquierdo en un niño de 9 años con hemoptisis recurrente. **A:** la radiografía de tórax posteroanterior muestra opacidad retrocardíaca izquierda con un corte abrupto del bronquio principal izquierdo (flecha), infiltrados heterogéneos y disminución del volumen pulmonar izquierdo. **B:** imagen axial de la tomografía de tórax con contraste que muestra una masa endobronquial (flecha) que ocluye totalmente el bronquio principal izquierdo, áreas irregulares de alta densidad en segmentos de la língula y lóbulo inferior izquierdo en relación con atelectasia (puntas de flecha). **C:** la reconstrucción multiplanar coronal muestra una masa dentro del bronquio principal izquierdo (flecha), con disminución del volumen pulmonar izquierdo. **D:** la broncoscopia muestra tumor polipoide endobronquial con vascularidad, ocluyendo completamente el bronquio principal izquierdo.

La tomografía computarizada con contraste reveló una masa redondeada de densidad heterogénea de 39 x 33 x 40 mm, cuyo epicentro se localizaba entre la aorta descendente y rama interlobar izquierda del tronco de la pulmonar. Dicha masa se extendía hacia el interior del bronquio principal izquierdo obstruyendo completamente su luz, condicionando atelectasia total del lóbulo inferior izquierdo y atelectasia parcial del lóbulo superior izquierdo (Fig. 1 B y C). En la broncoscopia flexible se observó una masa endobronquial con oclusión total del bronquio principal izquierdo (Fig. 1D). Se realizó biopsia transtorácica con aguja tru-cut guiada por ecografía, con un resultado sugestivo de tumor de tipo glándula salival.

Se realizó neumonectomía izquierda curativa debido a la infiltración tumoral del lóbulo inferior izquierdo en más del 80%, compromiso del lumen de ramas segmentarias del lóbulo superior izquierdo y 100% del lumen del bronquio del lóbulo inferior izquierdo;

además de linfadenectomía hiliares y cisurales izquierda. El estudio histopatológico y el análisis inmunohistoquímico de la tumoración pulmonar reportó un carcinoma mucoepidermoide primario moderadamente diferenciado, sin infiltración linfovascular, estadio TNM II de bajo grado (Fig. 2 A-F). El paciente no recibió quimioterapia. En el seguimiento de dos años y seis meses no se observó recurrencia y el paciente estaba asintomático.

Discusión

El carcinoma mucoepidermoide es una neoplasia frecuente de las glándulas salivales, pero también se presenta en las glándulas mucosas menores de la cavidad oral/nasal o del pulmón⁷. Esta neoplasia es poco frecuente en niños, siendo la edad media de presentación de 10 años⁸.

En el CMEP, la sintomatología es inespecífica⁸, e incluye tos, hemoptisis, sibilancias y crépitos; simula diferentes enfermedades, como asma, tuberculosis, neumonías recurrentes e inclusive obstrucción por cuerpo extraño^{4,5,9}. En nuestro paciente, el motivo de consulta fue la hemoptisis similar a otros reportes^{5,10}; sin embargo, previamente había sido tratado como asma, el cual también puede simular debido a la obstrucción bronquial producida por el tumor^{6,11}. Es por ello que según el tamaño del tumor puede confundirse inicialmente con otras enfermedades respiratorias, lo que retrasa el estudio y diagnóstico⁴.

El estudio de imágenes inicial como la radiografía y la tomografía es importante para diferenciar de otras enfermedades⁸. En esta se puede observar la masa que obstruye la luz bronquial¹¹, atelectasias⁹, y la localización y extensión de la tumoración¹². En nuestro paciente la tomografía permitió identificar la masa en el bronquio principal izquierdo y su extensión hacia los lóbulos superior e inferior izquierdo (Fig. 1C). Una serie de 45 adultos con esa neoplasia reportó una mayor ubicación en los lóbulos superior e inferior izquierdo¹², y otra revisión de 145 casos en niños reportó mayor frecuencia de localización en pulmón izquierdo⁸. La localización del tumor en nuestro paciente es concordante con esas series grandes.

La broncoscopia flexible es útil para la evaluación, mejor localización de la lesión y para obtener una biopsia⁶. En esta se puede evidenciar una masa endobronquial exofítica que puede tener una mucosa bronquial intacta o ulcerada⁸. En nuestro paciente la lesión exofítica vascularizada comprometía la totalidad de la luz

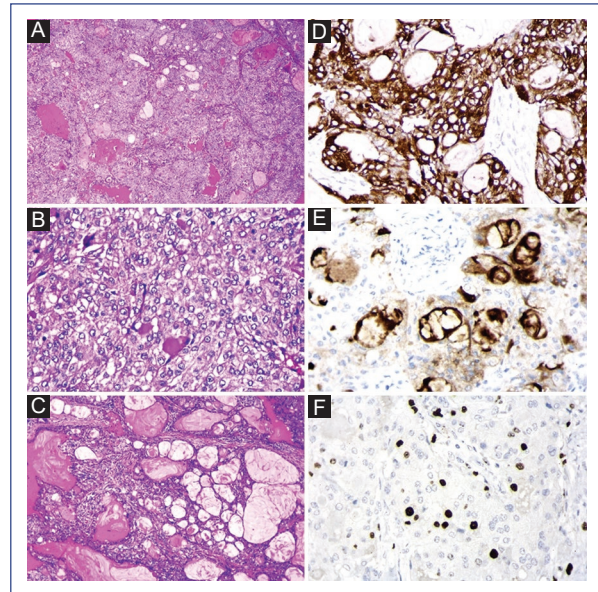


Figura 2. Fotomicrografía que muestra el diagnóstico confirmado de carcinoma mucoepidermoide pulmonar. **A:** los cortes histológicos muestran una neoplasia epitelial constituida por dos componentes: sólido (epidermoide) y quístico (glandular) (H&E, 4x). **B:** el componente epidermoide está conformado de células intermedias o escamosas inmaduras, con áreas de células claras y ausencia de atipia nuclear (H&E, 10x). **C:** el componente glandular consta de estructuras acinares bien diferenciadas revestidas por células secretoras de mucina (moco) (H&E, 10x). Análisis inmunohistoquímico. **D:** la CK-PAN muestra una intensa positividad del componente epitelial (40x). **E:** CEA tinción citoplásmica en algunas células tumorales (40x). **F:** Ki-67 positivo en el 3-5% de las células tumorales (40x).

CEA: antígeno carcinoembrionario; CK-PAN: panqueratina; H&E: hematoxilina y eosina; Ki-67: antígeno Ki-67.

del bronquio principal izquierdo y no dejaba progresar el broncoscopio más allá de la lesión.

Para el diagnóstico es importante el reporte anatómopatológico e inmunohistoquímico. Los tumores de bajo grado presentan células secretoras de mucina, células escamosas e intermedias con patrones quísticos, a diferencia de los de alto grado, que tienen células escamosas e intermedias atípicas, con mitosis y necrosis¹³. Las series reportan una mayor frecuencia de tumores de bajo grado histológico y un estadio TNM I-II¹². También las tinciones inmunohistoquímicas pueden apoyar el diagnóstico como CK5/6, p63 o Ki67, al igual que el reordenamiento del gen *MAML2*^{12,14}. Dentro del diagnóstico diferencial se encuentra principalmente el carcinoma adenoescamoso; sin embargo, la

presencia de queratinización de las células epiteliales nos orientaría más para CMEP¹⁴; también podemos considerar al adenocarcinoma, pero este último generalmente carece de células escamosas e intermedias¹⁴. Estas últimas características adicionado a la positividad del antígeno Ki67 se encontraron en nuestro paciente, cumpliendo características patológicas de CMEP, similar a otras series¹⁰.

El objetivo del tratamiento es extirpar la tumoración con el menor daño posible al parénquima pulmonar⁸. La resección de la tumoración con muestreo de ganglios linfáticos es importante para una correcta estadificación¹⁰. En una revisión de 145 niños con esta neoplasia, se reportó a la lobectomía como la intervención quirúrgica más frecuente y un 11% requirieron neumonectomía⁸. El tipo de cirugía dependerá de la extensión y localización del tumor^{8,12}. La cirugía asociada a quimioterapia se ha reportado en aquellos con tumores de alto grado, estadio TNM III-IV y metástasis ganglionar¹². En nuestro paciente se realizó neumonectomía izquierda por el extenso compromiso del bronquio principal izquierdo, lóbulo superior e inferior izquierdo y no recibió quimioterapia coadyuvante por ser de bajo grado y no tener metástasis.

En el seguimiento, la supervivencia de los pacientes con CMEP a los 5 años es menor en comparación con otras localizaciones del cuerpo⁷, y más aún cuando afecta un bronquio principal o lóbulo superior en comparación con la afectación del lóbulo pulmonar medio o inferior⁷. La mortalidad está relacionada más con infecciones pulmonares no debidas a la neoplasia¹², y es mayor la sobrevida en aquellos con tumores de bajo grado y translocación del gen *MAML2*¹². La metástasis y recurrencia es poco frecuente en el seguimiento a largo plazo¹⁰. Nuestro paciente era de bajo grado y al seguimiento de 2 años y 6 meses no presentó hospitalizaciones y se mantuvo asintomático.

Dentro de las limitaciones, no se pudo realizar estudio genético al paciente. Zhu et al.¹⁵ reportaron al gen *CRTC1-MAML2* en los pacientes con CMEP, y si estos presentaban reordenamiento y no expresaban la molécula *FLT1*, tenían mayor supervivencia. De la misma forma, Shen et al.¹², reportaron en un 85% la translocación de este gen y una mayor sobrevida. Tampoco pudimos realizar otros tipos de tinciones inmunohistoquímicas sugestivos de otras neoplasias como p40, TTF-1 y napsina A¹⁴. A pesar de ello, el tratamiento planteado mejoró la calidad de vida del paciente hasta el actual seguimiento y consideramos que este caso puede proporcionar mayor conocimiento a los médicos

en el proceso de diagnóstico y tratamiento de esta neoplasia.

En conclusión, el CMEP es una neoplasia poco frecuente en niños. Los estudios de imágenes y broncoscopia pueden orientar al diagnóstico en un paciente con signos de obstrucción bronquial y hemoptisis como nuestro caso. El diagnóstico se realiza con la biopsia de la tumoración y la cirugía es el tratamiento principal.

Financiamiento

Los autores declaran no haber recibido financiamiento para este estudio.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no conflicto de intereses.

Consideraciones éticas

Protección de personas y animales. Los autores declaran que para esta investigación no se han realizado experimentos en seres humanos ni en animales.

Confidencialidad, consentimiento informado y aprobación ética. Los autores han seguido los protocolos de confidencialidad de su institución, han obtenido el consentimiento informado de los pacientes, y cuentan con la aprobación del Comité de Ética. Se han seguido las recomendaciones de las guías SAGER, según la naturaleza del estudio. Fue aprobado por el comité de ética del Instituto Nacional de Salud del Niño-Breña (Lima, Perú) (N° 253-2024-CIEI-INSN).

Declaración sobre el uso de inteligencia artificial. Los autores declaran que no utilizaron ningún tipo de inteligencia artificial generativa para la redacción de este manuscrito.

Referencias

- Huang Y, Fu Y, Sun J, Xu B, Wu L, Tang LF. Pulmonary mucoepidermoid carcinoma in children: two case reports and a review of the literature. *Front Pediatr*. 2023;11:1232185.
- Hsieh CC, Sun YH, Lin SW, Yeh YC, Chan ML. Surgical outcomes of pulmonary mucoepidermoid carcinoma: A review of 41 cases. *PLoS One*. 2017;12(5):e0176918.
- Shao W, Liu J, Li B, Guo X, Sun J, Li H, et al. Primary lung cancer in children and adolescents: Analysis of a surveillance, epidemiology, and end results database. *Front Oncol*. 2023;13:1053248.
- Wordui SM, Lakhan A, Eze J, Nowalaza Z, Makate S, Brooks A, et al. Mucoepidermoid carcinoma of the bronchus in two children: case reports. *Respir Med Case Rep*. 2023;43:101858.
- Xie WX, Liu R, Li Z, Zhou PL, Duan LN, Fu DD. Mucoepidermoid carcinoma of the lung with hemoptysis as initial symptom: A case report. *World J Clin Cases*. 2023;11(29):7136-43.
- Denamur S, Hervieux E, Cosson L, Sileo C, Coulomb A, Nathan N, et al. Pulmonary mucoepidermoid carcinoma in a 7-year-old child. *Pediatr Pulmonol*. 2024;59(4):1095-8.

7. Komiya T, Perez RP, Yamamoto S, Neupane P. Primary lung mucoepidermoid carcinoma: analysis of prognostic factors using surveillance, epidemiology and end results program. *Clin Respir J*. 2017;11(6): 847-53.
8. Jaramillo S, Rojas Y, Slater BJ, Baker ML, Hicks MJ, Muscal JA, et al. Childhood and adolescent tracheobronchial mucoepidermoid carcinoma (MEC): a case-series and review of the literature. *Pediatr Surg Int*. 2016;32(4):417-24.
9. Dardouri T, Ezzine A, Ben Fredj M, Boudriga H, Mensi S, Ayadi A, et al. Pulmonary mucoepidermoid carcinoma in children: a rare diagnosis not to be overlooked - case report. *Ann Med Surg*. 2023;85(4):1092-5.
10. Yang Y, Wang Q, Pan Z, Li H, An Y, Wu C. Clinical presentation and treatment of four children with pulmonary mucoepidermoid carcinoma. *Ther Adv Respir Dis*. 2024;18:17534666241258679.
11. Vu LT, Duc NM, Tra My TT, Bang LV, My LT, Phuong Thuy LT, et al. Pulmonary mucoepidermoid lung carcinoma in pediatric confused with asthma. *Respir Med Case Rep*. 2021;33:101471.
12. Shen W, Yang T, Fan Y, Li X, Ai C, Wang X, et al. Pulmonary mucoepidermoid carcinoma: a clinicopathological study of 45 patients. *Thorac Cancer*. 2022;13(16):2385.
13. Limaïem F, Lekkala MR, Sharma S. Mucoepidermoid lung tumor [Internet]. Treasure Island (FL): StatPearls Publishing; 2024 [citado 24 de junio de 2024]. Disponible en: <http://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK537277>
14. Naso JR, Roden AC. Recent developments in the pathology of primary pulmonary salivary gland-type tumours. *Histopathology*. 2024;84(1):102-23.
15. Zhu F, Wang W, Hou Y, Shi J, Liu Z, He D, et al. MAML2 rearrangement in primary pulmonary mucoepidermoid carcinoma and the correlation with FLT1 expression. *PloS One*. 2014;9(4):e94399.

CORRIGENDUM

Se informa que el orden de autoría del manuscrito titulado ***Usefulness and description of the intestinal bypass technique in children with short bowel syndrome: report of a Mexican cohort (Bol Med Hosp Infant Mex. 2024;81(1):23-30), DOI: 10.24875/BMHIM.23000110*** ha sido modificado a solicitud del Comité de Ética del Hospital Infantil de México Federico Gómez.

La decisión se basó en la evaluación de las contribuciones individuales conforme a los criterios del ICMJE. Dicha evaluación concluyó que la Dra. Yunuén Rivera-Suazo desempeñó un papel preponderante en el diseño del estudio, análisis de los datos y redacción del manuscrito. En consecuencia, la Dra. Rivera-Suazo ha sido designada como primera autora, cumpliendo así con los requisitos de autoría establecidos internacionalmente.

Fecha de recepción: 25-07-2025

Fecha de aceptación: 28-07-2025

DOI: 10.24875/BMHIM.M25000044

Disponible en internet: 04-09-2025

Bol Med Hosp Infant Mex. 2025;82(5):328

www.bmhim.com

1665-1146/© 2025 Hospital Infantil de México Federico Gómez. Publicado por Permanyer. Este es un artículo *open access* bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).