

Aplicación de una escala de medición para definir el riesgo de apnea obstructiva del sueño en población pediátrica con labio y/o paladar hendido

(Trabajo presentado en el Concurso Colombiano de residentes "Arcadio Forero", durante los Congresos, 8º Bolivariano y 34 de la SCCP, en Santa Marta 2013)

ROBERTO JAVIER CARDONA SALAZAR, MD*

Palabras clave: apnea obstructiva del sueño, labio y paladar hendido, ronquido, fístula palatina, queiloplastia, palatoplastia, faringoplastia, hipertrofia amigdalina.

Key words: obstructive sleep apnea, cleft lip and palate, snoring, palatal fistula, chieloplasty, palatoplasty, pharyngoplasty, tonsillar hypertrophy

Resumen

Objetivo: Aplicar en Colombia una escala de medición que define el riesgo que tiene la población pediátrica con Labio y/o Paladar Hendido (LPH) de presentar Síndrome de Apnea Obstructiva del Sueño.

Tipo de estudio: Estudio descriptivo, transversal de aplicación de escala.

Método: Aplicación de la escala de J.E. MacLean en población entre 2 a 18 años con diagnóstico de LPH para identificación de Síndrome de Apnea Obstructiva del Sueño (SAOS), en la Fundación Operación Sonrisa Colombia entre julio de 2011 y junio de 2012.

Resultados: Se aplicó la escala a 266 pacientes (113 niñas y 153 niños); la edad media de la población fue de 8,5 años. Se identificó SAOS en el 33,8% de los niños. No se presentó asociación estadísticamente significativa entre el estado quirúrgico o sindrómico de la población y la presencia de un cuestionario positivo para SAOS. El 34% de la población presentó fístula palatina. Se estableció que la ronquera habitual es un factor de riesgo mayor para el desarrollo de SAOS en esta población ($p < 0,000000153$, OR: 4,41; IC 95%: 2.448, 7.952'). Episodios de apnea fueron reportados en el 12,7% de la muestra. Solo a 4 pacientes (1,5%) de la población estudiada, se les había realizado en alguna ocasión una polisomnografía.

Conclusión: El Síndrome de Apnea Obstructiva del sueño es más común en la población pediátrica con Labio y/o Paladar Hendido que en la población general. Su origen es multifactorial y obedece a factores específicos de la enfermedad, así como también a factores que afectan el riesgo en la población general.

Abstract

Objective: To apply a measurement scale that defines the risk of pediatric population with Cleft lip and/or palate to present Obstructive Sleep Apnea.

Study Design: Descriptive and cross-sectional study.

Method: Application of J.E. MacLean scale in population aged 2-18 years diagnosed with Cleft lip and/or palate for identification of Obstructive Sleep Apnea, in Operation Smile Colombia between July 2011 and June 2012.

Results: The scale was applied to 266 patients (113 girls and 153 boys), the average age of the population was 8.5 years. OSA was identified in 33.8% of children. There was not statistically significant association between surgical or syndromic status of the population and a positive questionnaire for OSA. The 34% of the population had palatal fistula. It was established that the usual snoring is a major risk factor for this population to develop OSA ($p < 0.000000153$, OR: 4.41; 95% CI: 2448, 7952¹). Witnessed apnea was reported in 12.7% of the sample. Only 4 patients (1.5%) of the study population had undergone polysomnography.

Conclusion: Obstructive Sleep Apnea is more common in the pediatric Cleft lip and/or Palate population than the general pediatric population; its origin is multifactorial and is related to specific factors of the disease, as well as factors affecting the risk the general population.

* Residente de cuarto año. Especialidad en Cirugía Plástica, Reconstructiva y Estética, Universidad El Bosque, Bogotá.

Las hendiduras labio palatinas son uno de los defectos congénitos más comunes en Colombia (1 de cada 1.000 nacidos vivos la presentan¹). Se producen por la interrupción en el proceso de desarrollo normal de las estructuras faciales y de la vía aérea, lo que resulta en anomalías en la conformación y función de dichas estructuras y cuya severidad depende de la cantidad, tiempo y localización de la interrupción embriológica². De los casos de labio y paladar hendido, el 70% tienen una hendidura aislada, el restante, 30%, ocurre en el contexto de un síndrome, anomalía cromosómica o en asociación con múltiples anomalías congénitas de origen desconocido³. Ambos tipos de hendiduras y las malformaciones asociadas influyen en la presentación de problemas relacionados con la vía aérea y la respiración durante la infancia.

El síndrome de apnea obstructiva del sueño (SAOS) es un trastorno caracterizado por incremento de la resistencia en la vía aérea superior durante el sueño, resultando en cierres intermitentes, parciales o completos de las vías respiratorias, lo que produce incremento en el esfuerzo ventilatorio, fragmentación del sueño y/o anomalías en el intercambio gaseoso. El SAOS se encuentra asociada entre otras cosas, con malformaciones congénitas de la vía aérea tales como: el labio y/o paladar hendido (LPH)⁴⁻⁵; llama la atención que pocos estudios reporten la prevalencia global de SAOS en niños con LPH (Maclean & cols., 2009⁵ y Harlan Muntz et. Al, 2008⁶) reportan prevalencias aproximadas de 30% y 22% respectivamente, cifras a resaltar si consideramos la prevalencia reportada para la población pediátrica en general 2% a 5%⁶⁻⁸ y la morbilidad resultante de un SAOS no tratado: déficit neurocognitivo, mal rendimiento escolar, retardo mental, problemas de comportamiento, déficit de atención e hiperactividad, falla para crecer, cor pulmonale o grados asintomáticos de hipertensión pulmonar, hipertensión sistémica y en casos severos, se ha reportado en la literatura, falla cardiorrespiratorio o coma, en algunos casos produciendo la muerte^{4,9-13}.

Dada la dificultad para la realización de polisomnografía (estándar de oro para el diagnóstico de SAOS) y considerando la diversidad de signos y síntomas con los que puede presentarse el SAOS en niños, se han desarrollado múltiples escalas para tratar de identificar pacientes en riesgo de mostrar esta patología.

El presente estudio aplicó como herramienta de tamizaje la escala desarrollada por J.E. MacLean et al.⁵ a partir de escalas

validadas para la detección de SAOS en población pediátrica general^{14,15}, a un grupo de pacientes con LPH de la Fundación Operación Sonrisa Colombia, que asistieron a consulta entre julio de 2011 y junio de 2012.

El aporte potencial de esta investigación es determinar cuál es la proporción de pacientes con labio y/o paladar hendido (LPH) que pueden tener riesgo de presentar SAOS, valorado mediante la aplicación de la escala, y considerar en ellos la necesidad de realización de una polisomnografía diagnóstica, en aras de evitar la morbilidad asociada al no diagnóstico de esta patología.

Materiales y métodos

Estudio descriptivo, transversal de aplicación de escala. El formulario original se encuentra publicado en inglés en la revista *Cleft Palate Craniofacial Journal*, de marzo de 2009; fue desarrollado por el Dr. MacLean y colaboradores del Departamento de Medicina Respiratoria, Facultad de Medicina de la Universidad de Sydney (Australia) y aplicado a 248 niños con diagnóstico de labio y paladar hendido en el Hospital de Niños de Westmead (Nueva Gales del Sur, Australia)⁵. El formulario fue construido usando 2 cuestionarios previamente desarrollados y validados para la detección de trastornos respiratorios del sueño en población pediátrica general (Brouillette, 1984¹⁴, Chervin, 2000¹⁵). Cada uno de los cuestionarios ha sido validado contra la polisomnografía para la identificación de SAOS en niños y usado para definir SAOS en múltiples grupos de pacientes 16-18. Dos preguntas adicionales determinan si el niño ha sido sometido previamente a una polisomnografía.

La primera parte del formulario consta de 2 preguntas que nos permitirán identificar:

1. ¿Cuáles pacientes han sido sometidos a un estudio polisomnográfico?
2. De haberse realizado el estudio, ¿en qué institución fue llevado a cabo? Lo anterior, en aras de poder acceder a los resultados del mismo, de ser necesario.

La segunda parte del formulario consta de una escala de 3 preguntas que han sido validadas en la población pediátrica general¹⁴. Para su desarrollo se definió SAOS por polisomnografía y por criterio clínico:

1. Más de 30 episodios de apnea en 7 horas de sueño ó
2. Obstrucción de la vía aérea resultante en oxigenación anormal ($tcPO_2 < 50$ mm Hg) ó eliminación de dióxido de carbono ($PACO_2 > 45$ mm Hg) y eventos respiratorios relacionados con el sueño clínicamente significativo.

Las puntuaciones de los 3 ítems fueron codificadas numéricamente y usadas para calcular una puntuación de SAOS con la siguiente ecuación:

$$\text{Puntuación SAOS} = 1,42 \cdot D + 1,41 \cdot A + 0,71 \cdot S - 3,83$$

Donde,

D: es la respuesta a la pregunta de dificultad respiratoria (0-3)

A: es la respuesta a la presencia de apnea (0-1)

S: es la respuesta a la pregunta sobre ronquera (0-3)

Los valores con puntuación:

< -1,0: Sugiere ausencia de SAOS

Entre 1,0 y 3,5: > 3,5: Sugieren posible SAOS

> 3,5: Confirma diagnóstico de SAOS

Para el propósito de este estudio, con posible SAOS y su diagnóstico, se define un cuestionario positivo para SAOS.

El rango de edad incluido en los estudios de validación para esta escala fue de 1 a 10 años (media 5,3 años \pm 3,6 años). En el análisis discriminativo se encontró que la escala tiene un valor predictivo diagnóstico de 91% y 97% en los 2 grupos examinados.

La tercera parte del formulario es una escala de 22 preguntas desarrollada por Chervin y colaboradores en la Universidad de Michigan y validada en una población pediátrica en clínica del sueño¹⁵. El porcentaje de respuestas afirmativas constituye la puntuación final, con puntuaciones = 0,33 siendo consistentes con SAOS. Los rangos de edad incluidos en los estudios de validación fueron de 2 a 18 años (media 9,3 años \pm 4,1 años). Los estudios de validación mostraron que las 22 preguntas tienen fuerte asociación con SAOS definida por un índice de apnea hipopnea en la polisomnografía = de 5 eventos por hora. Esta escala tiene una sensibilidad de 0,85 y una especificidad de 0,87 para diagnóstico de SAOS moderada a severa.

Con la autorización de la Fundación Operación Sonrisa Colombia y previa firma del consentimiento informado, el investi-

gador aplicó la escala -y revisó los registros consignados en las historias clínicas- a 266 pacientes entre julio de 2011 y junio de 2012. Para ello se utilizó un formulario (ver anexo 1). Posteriormente la información fue consignada en una base de datos de Excel y analizada en el programa EPI INFO versión 3.5.1 y EPI DAT 3.1.

Resultados

Se aplicaron 266 encuestas a población pediátrica entre 2 a 18 años -con una mediana de 8,5 años y una moda de 4,3 años-, con diagnóstico de LPH en la sede central, Bogotá, de la Fundación Operación Sonrisa Colombia. La distribución por género corresponde a 113 niñas (42,5%) y 153 niños (57,5%).

Los pacientes tuvieron un peso promedio de 23 kg (mínimo 9 kg; máximo 71 kg), se observó de igual modo que el 7,1% de esta población presenta déficit de peso (IMC por debajo del percentil 5), 18,4% presentan bajo peso (IMC entre el percentil 5 - 15), 67,4% tienen un peso normal (IMC entre el percentil 15 - 85) y el 7,1% tienen sobrepeso (IMC por encima del percentil 85)¹⁹. De la población estudiada el 73% tienen labio y paladar hendido, el 15% presentan paladar hendido aislado y el 12% labio hendido aislado (Tabla 1).

Tabla 1. Proporción global de LPH en población estudiada.

	Frecuencia	Porcentaje
Labio y paladar hendido	194	73%
Paladar hendido	40	15%
Labio hendido	32	12%
Total	266	100%

Fuente: producción científica del autor.

Labio hendido:

En la evaluación se detectó que el 50,4% (134 pacientes) de la población estudiada presentaba labio unilateral completo, seguido de labio bilateral completo con el 28,9% (77 pacientes), otros hallazgos de importancia para el estudio (Tabla 2).

Tabla 2. Proporción de labio hendido en población estudiada.

	Frecuencia	Porcentaje	Porcentaje
Bilateral completo	77	28,9%	28,9%
Bilateral completo/incompleto	9	3,4%	32,3%
No tiene	40	15,0%	47,4%
Unilateral completo	134	50,4%	97,7%
Unilateral incompleto	6	2,3%	100,0%
Total	266	100%	100%

Fuente: Producción científica del autor.

Paladar hendido

Se encontró que el 71,4% (190 pacientes) de la población estudiada tenía paladar hendido completo; la segunda alteración más frecuente obedece al paladar hendido incompleto 14,6% (39 pacientes); paladar submucoso lo presentaron 5 pacientes (1,5%) y no tenían compromiso del paladar el 12% (32 pacientes) de la población estudiada (Tabla 3).

Tabla 3. Proporción de paladar hendido en población estudiada.

Paladar hendido	Frecuencia	Porcentaje	Porcentaje Acumulado
No tiene	32	12%	12%
Paladar submucoso	5	1,5%	13,5%
Hendidura palatina completa	190	71,4%	85%
Hendidura palatina incompleta	39	14,6%	100%
Total	266	100%	100%

Fuente: Producción científica del autor.

Estado sindrómico

El 84% de la población estudiada corresponde a Labios y/o Paladares hendidos de presentación esporádica y 16% a Labios y/o Paladares hendidos dentro de una patología sindrómica. Del total de la muestra, 68,5% había recibido por lo menos una valoración por el grupo de genética de la Fundación.

Cirugías

Del total de los pacientes que ingresaron al estudio el 84,9% habían sido sometidos a queiloplastia; el 80,8% a palatoplastia; el 16,5% a injertos óseos alveolares y el 10,9% se habían sometido a una faringoplastia (Figura 1 y Tabla 4). El 3% de la población no había sido sometida a ningún procedimiento quirúrgico.

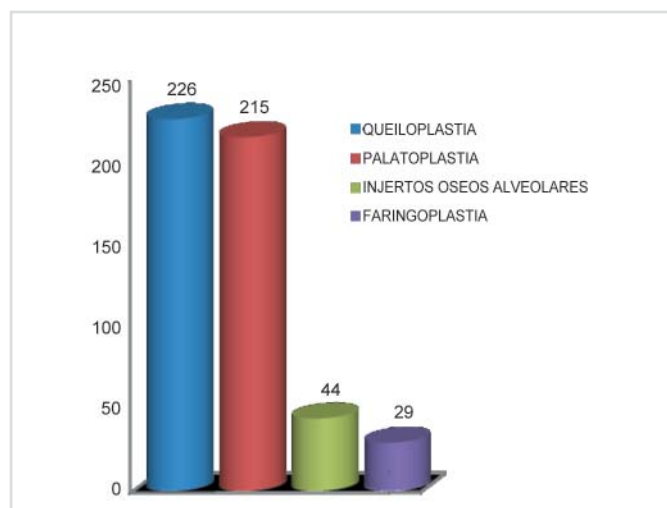


Figura 1. Procedimientos quirúrgicos más frecuentes en población estudiada.

Tabla 4. Proporción de procedimientos quirúrgicos más frecuentes en población estudiada.

Cirugías	Frecuencia	Porcentaje
Queiloplastia	226	84,96%
Palatoplastia	215	80,83%
Injertos óseos alveolares	44	16,54%
Faringoplastia	29	10,90%

Fuente: Producción científica del autor.

Fístula palatina

De la población estudiada el 34,2% presentan una fístula palatina (Tabla 5), con un tamaño promedio de 43,3 mm², y localizadas principalmente a nivel del paladar primario (75,8%) y de la unión entre el paladar duro y el blando (10,9%) (Tabla 6).

Tabla 5. Fístula palatina en población estudiada.

Fístula palatina	Frecuencia	Porcentaje	Porcentaje Acumulado
No	175	65,8%	65,8%
Si	91	34,2%	100,0%
Total	266	100,0%	100,0%

Fuente: Producción científica del autor.

Tabla 6. Localización de la fístula palatina en población estudiada.

Localización de la fístula palatina	Frecuencia	Porcentaje	Porcentaje Acumulado
Fístula de unión	10	10,9%	10,9%
Paladar primario	69	75,8%	86,8%
Paladar primario y secundario duro y blando	2	2,2%	89%
Paladar secundario blando	4	4,3%	93,4%
Paladar secundario duro	6	6,6%	100,0%
Total	91	100,0%	100,0%

Fuente: Producción científica del autor.

Otros

Con relación a la frecuencia de síntomas de SAOS para la población estudiada, se pudo determinar que presentan ronquido habitual el 24,4% -roncar más de la mitad del tiempo fue reportado por el 15% de los niños; roncar siempre por el 17,6%; roncar duro por el 31,5%-. Episodios de apnea fueron reportados por el 12,7% de los pacientes.

Del total de la población estudiada presentan hipertrofia amigdalina grado I el 58,3%, grado II el 27% y grado III el 1,5% (Tabla 7). Solo a 4 pacientes (1,5%) se les había realizado en alguna ocasión una polisomnografía.

Tabla 7. Grado de hipertrofia amigdalina en la población estudiada.

Amigdalas	Frecuencia	Porcentaje	Porcentaje acumulado
Grado I	155	58.3%	58.3%
Grado II	72	27%	85.3%
Grado III	4	1.5%	86.8%
No tienen	5	1.87%	88.7%
Sin dato	30	11.27%	100%
Total	266	100,0%	100,0%

Fuente: Producción científica del autor.

Resultados de la aplicación de la escala

De la población estudiada el 25,6% (68 pacientes) presentaron una escala de Brouillette positiva y 33,8% (90 pacientes), una escala de Chervin positiva (Tablas 8 y 9).

Tabla 8. Resultados para escala de Brouillette.

Escala de Brouillette	Frecuencia	Porcentaje	Porcentaje acumulado
Negativo	198	74,4%	74,4%
Positivo	68	25,6%	100,0%
Total	266	100,0%	100,0%

Fuente: Producción científica del autor.

Tabla 9. Resultados para tabla de Chervin.

Escala de Chervin	Frecuencia	Porcentaje	Porcentaje acumulado
Negativo	176	66,2%	66,2%
Positivo	90	33,8%	100,0%
Total	266	100,0%	100,0%

Fuente: Producción científica del autor.

Al analizar las características específicas de la población con escala de Chervin positiva se encontró:

La distribución por género corresponde a 35 niñas y 55 niños, la proporción de cuestionarios positivos no difirió significativamente entre niños (35,9%) y niñas (30,9%) ($X^2 = 0,71$, $P = 0,39$) (Tabla 10). La edad promedio fue de 9,3 años (2 a 18 años), el peso promedio registrado fue de 27,3 kg (9 a 72 Kg), el IMC promedio fue de 16,28 (desviación estándar de 3,1). Se detectó que el 13,3% de esta población presenta déficit de peso (IMC por debajo del percentil 5), 17,7% presentan bajo peso (IMC entre el percentil 5 a 15), 65,5% tienen un peso normal (IMC entre el percentil 15 a 85) y el 3,3% tienen sobrepeso (IMC por encima del percentil 85)¹⁹, (Figuras 2 y 3).

Tabla 10. Contingencia para género en población con escala de Chervin positiva

	Chervin		
	(+)	(-)	
Niños	55	98	153
Niñas	35	78	113
	90	176	266

Variable	Valor
Chi cuadrado (χ^2)	0,71
Valor de P	0,39
Riesgo en niños	35,9%
Riesgo en niñas	30,9%
Riesgo global	33,8%

El 76% de los pacientes tienen labio y paladar hendido, 14% presentan paladar hendido aislado y 10% labio hendido aislado (Tabla 11), las distribuciones específicas para cada patología se muestran en las Tablas 12 y 13.

Tabla 11. Proporción global de lph en población con escala de Chervin positiva.

Labio hendido	Frecuencia	Porcentaje
Labio y paladar hendido	68	76%
Paladar hendido	13	14%
Labio hendido	9	10%
Total	266	100%

Fuente: Producción científica del autor.

Tabla 12. Proporción de labio hendido en población con escala de Chervin positiva.

	Frecuencia	Porcentaje
Bilateral completo	29	32%
Bilateral completo/incompleto	2	2%
No tiene	13	14%
Unilateral completo	44	49%
Unilateral incompleto	2	2%
Total	90	100%

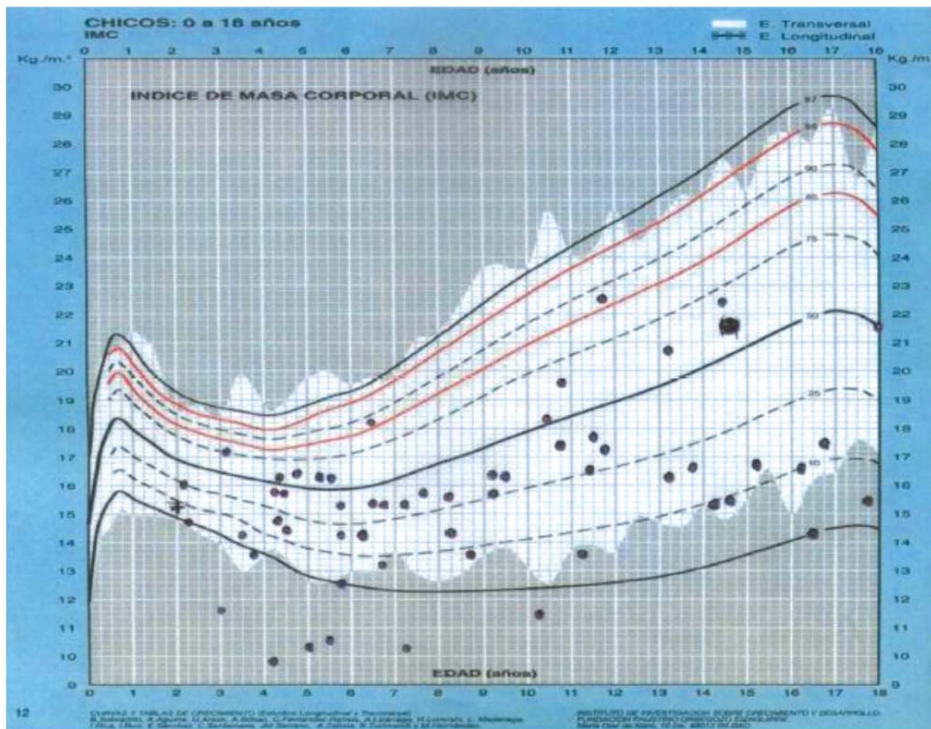
Fuente: Producción científica del autor.

Tabla 13. Proporción de paladar hendido en población con escala de Chervin positiva

	Frecuencia	Porcentaje
Paladar hendido		
No tiene	9	10%
Paladar submucoso	1	1%
Hendidura palatina completa	69	76.7%
Hendidura palatina Incompleta	11	12.3%
Total	90	100%

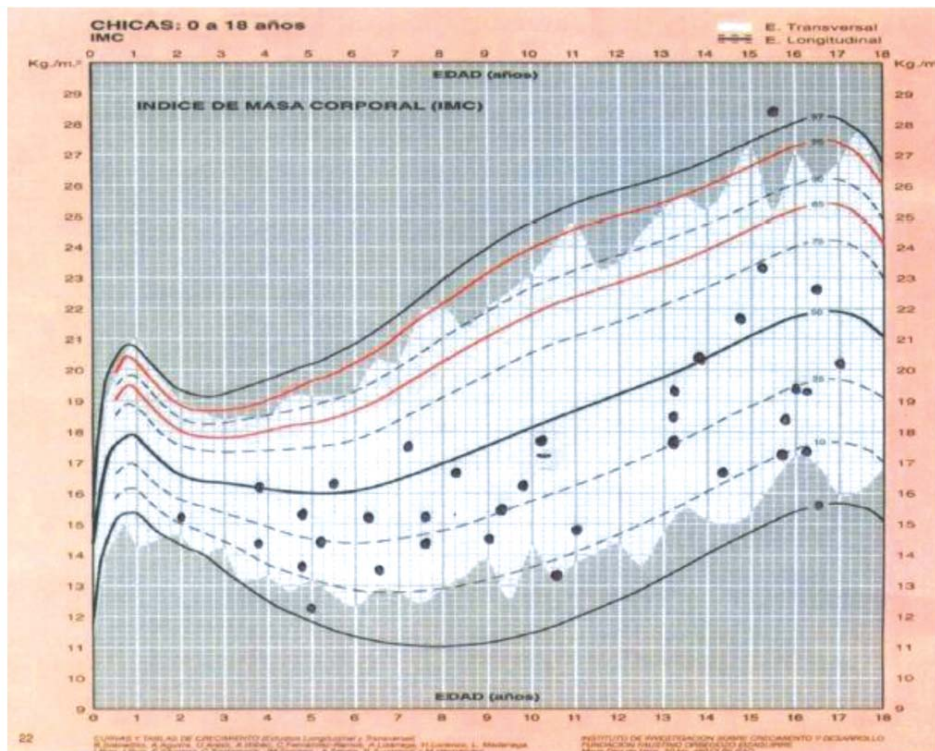
Fuente: Producción científica del autor.

Figura 2. Índice de masa corporal en niños de la población con escala de Chervin positiva.



Fuente: Producción científica del autor.

Figura 3. Índice de masa corporal en niñas de la población con escala de Chervin positiva.



Fuente: Producción científica del autor.

De esta población se identificó que corresponden a labios y/o paladares de presentación esporádica el 81% y a labios y/o paladares dentro de una patología sindrómica el 19%. No se presentó asociación estadísticamente significativa entre la presencia de un síndrome y la presencia de SAOS sugerida por un cuestionario positivo (Tabla 15). Del total de esta población habían recibido por lo menos una valoración por el grupo de genética, el 70%.

Se pudo identificar que el 98% de esta población había sido sometida a algún procedimiento quirúrgico dentro de los que se destacan: la palatoplastia, la queiloplastia, los injertos óseos alveolares y las faringoplastias en porcentajes de 86%, 84%, 16% y 11% respectivamente (Tabla 14); no se presentó asociación estadísticamente significativa entre ninguno de estos procedimientos quirúrgicos y la presencia de SAOS sugerida por un cuestionario positivo (Tabla 15). Presentan fístula palatina el 36%, con un tamaño promedio de 46,4 mm², siendo la de menor tamaño de 1 mm² y la de mayor tamaño de 216 mm²; su localización principal corresponde al paladar primario 84,3%, fístulas de unión el 6.2% y al paladar secundario el 3% (Tabla 16); no hay asociación estadística significativa entre la presencia de fístula palatina y la presencia de SAOS sugerida por un cuestionario positivo (Tabla 15).

Tabla 14. Proporción de procedimientos quirúrgicos más frecuentes en población con escala de Chervin positiva.

Cirugías	Frecuencia	Porcentaje
Queiloplastia	76	84%
Palatoplastia	77	86%
Injertos óseos alveolares	14	16%
Faringoplastia	11	12%
Total	266	

Fuente: Producción científica del autor.

Tabla 15. Cálculos estadísticas en población con escala de Chervin positiva

Variable	Odds ratio inferior, superior	Límites de confianza	Valor de P
Queiloplastia	0.941	0.4645, 1.906 ¹	0.4330
Palatoplastia	1.631	0.8192, 3.247 ¹	0.08109
Injerto óseo alveolar	0.8965	0.4486, 1.791 ¹	0.3787
Faringoplastia	1.222	0.5507, 2.712 ¹	0.3110
Estado sindrómico	1.18	0.6094, 2.287 ¹	0.3117
Fístula palatina	1.094	0.642, 1.865 ¹	0.3707

Fuente: Producción científica del autor.

Tabla 16. Presencia de fístula palatina en población con escala de Chervin positiva.

Presencia de fístula palatina	Frecuencia	Porcentaje	Porcentaje acumulado
No	58	64%	64%
Si	32	36%	100,0%
Total	90	100,0%	100,0%

Fuente: Producción científica del autor.

Con relación a la frecuencia de síntomas en niños con cuestionarios positivos para la escala de Chervin, se pudo determinar que presentan ronquido habitual el 43,3% –roncar más de la mitad del tiempo fue reportado por el 27.4% de los niños, roncar siempre por el 31.8%, roncar duro por el 50,5% –. 26,6% de los pacientes reportaron episodios de apnea.

De esta población presentan hipertrofia amígdalina grado I el 61,1%, grado II el 20%, ningún paciente presentó amígdalas grado III (Tabla 17). Solo a un paciente (1,1%) de la población con cuestionario positivo se le había realizado en alguna ocasión una polisomnografía.

Tabla 17. Grado de hipertrofia amígdalina en población con escala de Chervin positiva.

Amígdalas	Frecuencia	Porcentaje
Grado I	55	61,1%
Grado II	18	20%
Grado III	0	0%
Antecedente de amigdalectomía	4	4,4%
Sin dato	13	14,4%
Total	90	100%

Fuente: Producción científica del autor.

Los tres síntomas más comúnmente reportados fueron: “Su niño a menudo se distrae fácilmente con las cosas a su alrededor”, “Tiene su niño la boca seca al despertar por las mañanas”, “Tiene su niño tendencia a respirar por la boca durante el día” (Tabla 18).

Discusión

Es un estudio prospectivo, descriptivo, que muestra –a través de la aplicación de una escala validada por la literatura médica 5,14,15– una prevalencia de SAOS de 33,8% en la población pediátrica colombiana con diagnóstico de labio y/o paladar hendido, cifra equiparable a la demostrada en otras latitudes por estudios en esta misma población, que reportan prevalencias entre 22% a 31,4%^{5,6,20} y que supera de manera marcada la prevalencia reportada para esta enfermedad en la población pediátrica general que es del 1,2% a 5,7%²¹⁻²³.

Tabla 18. Frecuencia de síntomas de apnea obstructiva del sueño en población con escala de Chervin positiva.

Escala de Chervin	Frecuencia	Porcentaje
¿El niño a menudo... se distrae fácilmente con las cosas a su alrededor?	77	84,62
¿Tiene el niño(a)... la boca seca al despertar por las mañanas?	75	82,42
¿Tiene el niño(a)... tendencia a respirar por la boca durante el día?	65	71,43
¿El niño a menudo... no parece escuchar cuando se le habla directamente?	61	67,03
¿El niño a menudo... mueve en exceso manos o pies o se retuerce en su asiento?	61	67,03
¿El niño a menudo... interrumpe a otros? (ej. Se entromete en conversaciones o juegos)	61	67,03
¿Mientras el niño(a) duerme... tiene respiraciones pesadas o ruidosas?	59	64,84
¿El niño a menudo... esta "activo", es decir, se comporta "como si fuera impulsado por un motor"?	53	58,24
¿Tiene el niño(a)... tendencia a despertarse en la mañana sintiéndose cansado?	50	54,95
¿El niño a menudo... tiene dificultad para organizar tareas y actividades?	47	51,65
¿Mientras el niño(a) duerme... ronca duro?	46	50,55
¿Es difícil despertar al niño(a) por la mañana?	44	48,35
¿El niño(a) dejó de crecer a un ritmo normal en algún momento desde su nacimiento?	31	34,07
¿Mientras el niño(a) duerme... tiene dificultad para respirar o lucha para respirar?	30	32,97
¿Mientras el niño(a) duerme... siempre ronca?	29	31,87
¿Tiene el niño(a)... tendencia a orinarse ocasionalmente en la cama?	26	28,57
¿El niño(a) se despierta con dolores de cabeza en la mañana?	26	28,57
¿Mientras el niño(a) duerme... ronca más de la mitad del tiempo?	25	27,47
¿Tiene el niño(a)... problemas de somnolencia durante el día?	25	27,47
¿Mientras el niño(a) duerme... deja de respirar durante la noche?	21	23,08
¿Alguien ha comentado que el niño(a) parece adormecido durante el día?	13	14,29
¿El niño tiene sobrepeso?	7	7,77

Fuente: Producción científica del autor.

Destacamos las características de la población, pues se incluyeron todos los pacientes con diagnóstico de LPH entre 2 y 18 años que consultaron a la Fundación Operación Sonrisa Colombia –Centro de referencia para el manejo de esta patología en nuestro país– entre julio de 2011 y junio de 2012. Estos criterios de inclusión nos permitieron obtener una población heterogénea con relación a su patología y a sus características generales, lo que nos dio la posibilidad de hacer un análisis global para SAOS en población con LPH como pocos estudios han podido hacerlo^{5,6,20} y que diferencia este estudio de la mayoría de publicaciones al respecto, pues estas se enfocan en grupos selectos de pacientes en los que se busca demostrar el riesgo de SAOS en esta población posterior a procedimientos quirúrgicos como la palatoplastia o la faringoplastia^{24,25-27}, o dentro de un escenario sindrómico^{16,18,28-30}. Los resultados no muestran asociación estadísticamente significativa entre el estado quirúrgico de los pacientes o su condición sindrómica y la presencia de un cuestionario positivo para SAOS (Tabla 17); adicionalmente, se valoró la presencia de fístula palatina y su asociación con un cuestionario positivo para SAOS, sin encontrar significancia estadística que defina su presencia como un factor de riesgo o un factor protector para la enfermedad en la población estudiada.

La proporción de cuestionarios positivos no difiere significativamente entre niños y niñas ($X^2 = 0,71$, $P = 0,39$), resultado equiparable al reportado por la literatura⁵. Al analizar las características antropométricas de la población estudiada, llama la atención que el 25,5% de esta tenga un peso por debajo de lo normal –porcentaje más alarmante (31%) al valorar de manera aislada a la población con escala positiva para SAOS–, situación que creemos tiene un origen multifactorial dentro del que debemos considerar, entre otros, la enfermedad en sí y las condiciones socioeconómicas de nuestra población. La obesidad es considerada como un factor de riesgo independiente para SAOS^{6,7,21}; en la población con escala positiva fue identificada en un 3,3% de los pacientes.

El ronquido habitual es un síntoma importante y un factor de riesgo mayor para la presencia de trastornos respiratorios durante el sueño³¹. Su prevalencia varía de acuerdo al género, la edad, las comorbilidades y la localización geográfica de los pacientes; en términos generales se estima que es del 10,5 al 27,6% para la población pediátrica general³². El ronquido habitual se presentó en el 24,4% de la población estudiada y en el 43,3% de los pacientes con cuestionarios positivos para SAOS ($p < 0,000000153$, OR: 4,41, IC 95%: 2.448, 7.952¹), valores que

muestran una asociación marcada entre la presencia de este factor de riesgo y la presentación de la enfermedad. Se reportaron episodios de apnea en el 12,7% de toda la muestra y en el 26,6% de los pacientes con cuestionario positivo para SAOS, cifra que supera la prevalencia del 1,5% al 5,7% reportada por la literatura para la población pediátrica general^{33,34} y de 4,8% reportada para la población con LPH⁵.

La hipertrofia adenoamigdalina es uno de los principales factores de riesgos para SAOS en la población pediátrica general, de ahí que su manejo quirúrgico sea uno de los pilares del tratamiento en esta población^{7,21}. Se cree que esta juega un papel fundamental en la etiología del SAOS en población pediátrica con LPH pero, se desconoce con exactitud su contribución⁵. Como dato fundamental reportamos que del grupo de pacientes con cuestionario positivo para SAOS el 61,1% presentó hipertrofia amigdalina grado I, 20% grado II, ningún paciente presentó hipertrofia grado III, 4,4% de los pacientes tenían antecedente de amigdalectomía (Tabla 20); este dato no se ha reportado en los estudios realizados en poblaciones similares, por lo que no disponemos de datos comparativos.

De la población estudiada solo al 1,5% se les había realizado en alguna ocasión una polisomnografía, cifra muy inferior al 10% a 57% reportada por estudios en poblaciones similares^{5,6,20} y que refleja claramente el poco reconocimiento de la enfermedad por parte de los grupos de especialistas encargados del manejo de pacientes con LPH, quienes perciben los síntomas de SAOS como comunes y normales en esta población, sin darles la importancia y prestarles la atención que se merecen.

Los datos reportados soportan claramente un incremento del riesgo, de origen multifactorial e independiente del estado quirúrgico o sindrómico, para el desarrollo de SAOS en la población estudiada. Una historia clínica completa y un examen físico adecuado pueden identificar múltiples síntomas asociados a esta enfermedad y pueden sugerir la necesidad de la realización de una polisomnografía –gold standard para su diagnóstico—, que nos permita identificar los pacientes con este padecimiento y nos rete a plantear alternativas de manejo para esta población especial.

Conclusión

El Síndrome de Apnea Obstructiva del sueño es más común en la población pediátrica con labio y/o paladar hendido que en

la población general. Su origen es multifactorial y obedece a factores específicos de la enfermedad, así como también a factores que afectan el riesgo en la población general. No debemos considerar comunes y normales los signos y síntomas de Apnea Obstructiva del Sueño en la población con labio y/o paladar hendido. Es responsabilidad de los grupos médicos tratantes identificar los pacientes en riesgo y ordenar la realización de una polisomnografía.

Referencias

1. Duque AM, Estupiñan BA, Huertas PE. Labio y paladar fisurados en niños menores de 14 años. *Revista Colombia Médica*, 2002;33(3): 108-112.
2. Sykes JM, Tollefson TT. Management of the cleft lip deformity. *Facial Plast Surg Clin North Am*. Feb 2005;13(1):157-67.
3. Calzolari E, Pierini A, Astolfi G, Bianchi F, Neville AJ, Rivieri F. Associated anomalies in multi-malformed infants with cleft lip and palate: an epidemiologic study of nearly 6 million births in 23 EUROCAT registries. *Am J Med Genet A*. 2007;143:528-537.
4. Katz ES, D'Ambrosio CM. Pediatric obstructive sleep apnea syndrome. *Clin Chest Med*. Jun 2010;31(2):221-234.
5. Maclean JE, Waters K, Fitzsimons D, Hayward P, Fitzgerald DA. Screening for obstructive sleep apnea in preschool children with cleft palate. *Cleft Palate Craniofac J*. Mar 2009;46(2):117-123.
6. Muntz H, Wilson M, Park A, Smith M, Grimmer JF. Sleep disordered breathing and obstructive sleep apnea in the cleft population. *Laryngoscope*. 2008;118:348-353.
7. American Academy of Pediatrics, Section on Pediatric Pulmonology, Subcommittee on Obstructive Sleep Apnea Syndrome. Clinical practice guideline diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome. *Pediatrics* 2002;109:704-712.
8. D'Antonio LL, Eichenberg BJ, Zimmerman GJ, Patel S, Riski JE, Herber SC, Hardesty RA. Radiographic and aerodynamic measures of velopharyngeal anatomy and function following Furlow z-plasty. *Plast Reconstr Surg*. 2000;106:539-549.
9. Serratto M, Harris VJ, Carr I. Upper airways obstruction. *Arch Dis Child*. 1981;56:153-155.
10. Marcus CL, Greene MG, Carroll JL. Blood pressure in children with obstructive sleep apnea. *Am J Respir Crit Care Med*. 1998;157: 1098-1103.
11. Ali NJ, Pitson D, Stradling JR. Natural history of snoring and related behaviour problems between the ages of 4 and 7 years. *Arch Dis Child*. 1994;71:74-76.
12. Chervin RD, Dillon JE, Bassetti C, Ganoczy DA, Pituch KJ. Symptoms of sleep disorders, inattention, and hyperactivity in children. *Sleep*. 1997;20:1185-1192.
13. Goldstein NA, Post C, Rosenfeld RM, Campbell TF. Impact of tonsillectomy and adenoidectomy on child behavior. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2000;126:494-498.
14. Brouillette R, Hanson D, David R, Klemka L, Szatkowski A, Fernbach S, Hunt C. A diagnostic approach to suspected obstructive sleep apnea in children. *J Pediatr*. 1984;105:10-14.

15. Chervin RD, Hedger K, Dillon JE, Pituch KJ. Pediatric sleep questionnaire (PSQ): validity and reliability of scales for sleep-disordered breathing, snoring, sleepiness, and behavioral problems. *Sleep Med.* 2000;1:21-32.
16. Herold SE, Young TW, GE D, Snieder H, Lovrekovic GZ. Sleep disordered breathing in pediatric patients with tetralogy of Fallot. *Pediatr Cardiol.* 2006;27:243-249.
17. Davis CL, Tkacz J, Gregoski M, Boyle CA, Lovrekovic G. Aerobic exercise and snoring in overweight children: a randomized controlled trial. *Obesity.* 2006;14:1985-1991.
18. Pijpers M, Poels PJP, Vaandrager JM, de Hoog M, van den Berg S, Hoeve HJ, Joosten KFM. Undiagnosed obstructive sleep apnea syndrome in children with syndromal craniofacial synostosis. *J Craniofac Surg.* 2004;15:670-674.
19. Pajuelo J, Villanueva M, Chavez J. La desnutrición crónica, el sobrepeso y la obesidad en niños de áreas rurales del Perú. *Anales de la Facultad de Medicina, Universidad Nacional Mayor de San Marcos.* 2000;61(3):201-206.
20. Robison JG, Otteson TD. Increased Prevalence of Obstructive Sleep Apnea in Patients With Cleft Palate. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg.* Mar 2011;137(3):269-274.
21. Marcus CL, Brooks LJ, Draper KA, Gozal D, Halbower AC, Jones J, Schechter MS, Sheldon SH, Spruyt K, Ward SD, Lehmann C, Shiffman RN; American Academy of Pediatrics. Diagnosis and management of childhood obstructive sleep apnea syndrome. *Pediatrics.* Sep 2012;130(3):576-584.
22. Bixler EO, Vgontzas AN, Lin HM, Liao D, Calhoun S, Vela-Bueno A, Fedok F, Vlasic V, Graff G. Sleep disordered breathing in children in a general population sample: prevalence and risk factors. *Sleep.* Jun 2009;32(6):731-736.
23. Li AM, So HK, Au CT, Ho C, Lau J, Ng SK, Abdullah VJ, Fok TF, Wing YK. Epidemiology of obstructive sleep apnoea syndrome in Chinese children: a two-phase community study. *Thorax.* Nov 2010;65(11):991-997.
24. Rose E, Staats R, Thissen U, Otten JE, Schmelzeisen R, Jonas I. Sleep-related obstructive disordered breathing in cleft palate patients after palatoplasty. *Plast Reconstr Surg.* 2002;110:392-396.
25. Liao YF, Chuang ML, Chen PK, Chen NH, Yun C, Huang CS. Incidence and severity of obstructive sleep apnea following pharyngeal flap surgery in patients with cleft palate. *Cleft Palate Craniofac J.* 2002;39:312-316.
26. Liao YF, Yun C, Huang CS, Chen PK, Chen NH, Hung KF, Chuang ML. Longitudinal follow-up of obstructive sleep apnea following Furlow palatoplasty in children with cleft palate: a preliminary report. *Cleft Palate Craniofac J.* 2003;40:269-273.
27. Liao YF, Noordhoff MS, Huang CS, Chen PK, Chen NH, Yun C, Chuang ML. Comparison of obstructive sleep apnea syndrome in children with cleft palate following Furlow palatoplasty or pharyngeal flap for velopharyngeal insufficiency. *Cleft Palate Craniofac J.* 2004;41:152-156.
28. Wilson AC, Moore DJ, Moore MH, Martin AJ, Staugas REM, Kennedy JD. Late presentation of upper airway obstruction in Pierre Robin sequence. *Arch Dis Child.* 2000;83:435-438.
29. Rose E, Thissen U, Otten JE, Jonas I. Cephalometric assessment of the posterior airway space in patients with cleft palate after palatoplasty. *Cleft Palate Craniofac J.* Sep 2003;40(5):498-503.
30. Sher AE. Mechanisms of airway obstruction in Robin sequence: implications for treatment. *Cleft Palate Craniofac J.* May 1992;29(3):224-231.
31. Sahin U, Ozturk O, Ozturk M, Songur N, Bircan A, Akkaya A. Habitual snoring in primary school children: prevalence and association with sleep-related disorders and school performance. *Med Princ Pract.* 2009;18(6):458-465.
32. Li AM, Au CT, So HK, Lau J, Ng PC, Wing YK. Prevalence and risk factors of habitual snoring in primary school children. *Chest.* Sep 2010;138(3):519-527.
33. Goodwin JL, Kaemingk KL, Mulvaney SA, Morgan WJ, Quan SF. Clinical screening of school children for polysomnography to detect sleep-disordered breathing the Tucson Children's Assessment of Sleep Apnea study (TuCASA). *J Clin Sleep Med.* Jul 2005;15(3):247-254.
34. Ng DK, Kwok KL, Cheung JM, Leung SY, Chow PY, Wong WH, Chan CH, Ho JC. Prevalence of sleep problems in Hong Kong primary school children: a community-based telephone survey. *Chest.* Sep 2005;128(3):1315-1323.

Datos de contacto del autor

Roberto Javier Cardona Salazar, MD
Correo electrónico: rejcardonas@yahoo.es

Anexo 1. Formulario



ESTUDIO DEL SUEÑO Y LA RESPIRACION EN PACIENTES CON LPH FORMULARIO

DATOS DEL PACIENTE

Nombre Completo: _____

Documento de identidad: _____

Edad	{	() años	Peso	() kg	Sexo:	{	M	()
		() meses	Talla	() cm			F	()

DIAGNÓSTICO

Labio hendido sindrómico ()

Labio hendido no sindrómico ()	Unilateral	()	{	Completo	()
				Incompleto	()

Bilateral	()	{	Completo	()
			Incompleto	()

Paladar hendido sindrómico ()

Paladar hendido no sindrómico ()

Primario	()
----------	-----

Secundario	()	{	Duro	()
			Blando	()

Paladar submucoso ()

¿Cirugías previas?	SI	()	{	Queiloplastia	()
				Palatoplastia	()
				Faringoplastia	()
				Injertos Óseos Alveolares	()
				Otras: _____	

NO ()

¿Presencia de fistula palatina?	SI	()	{	Tamaño en mm (_____)
				¿Donde se realizo la palatoplastia? _____

No ()

Otras comorbilidades: _____

AMIGDALAS: I _____ II _____ III _____



QUESTIONARIO

Por favor seleccione la respuesta más apropiada para cada pregunta:

- * ¿Ha tenido su niño(a) un estudio del sueño alguna vez? SI () NO ()
- Si la respuesta anterior es sí, ¿En qué servicio hospitalario se le realizó el estudio?

- * ¿Con qué frecuencia diría usted que su niño(a) tiene dificultad para respirar cuando está durmiendo?
Nunca (0) Ocasionalmente (1)
Frecuentemente (2) Constantemente (3)
- * ¿Su niño(a) deja de respirar cuando está dormido(a)? SI (1) NO (0)
- * ¿Con qué frecuencia diría usted que su niño(a) ronca?
Nunca (0) Ocasionalmente (1)
Frecuentemente (2) Constantemente (3)
- * Mientras su niño(a) duerme ...
... ¿ronca más de la mitad del tiempo? SI () NO ()
... ¿siempre ronca? SI () NO ()
... ¿ronca duro? SI () NO ()
... ¿tiene respiraciones pesadas o ruidosas? SI () NO ()
... ¿tiene dificultad para respirar o lucha para respirar? SI () NO ()
... ¿deja de respirar durante la noche? SI () NO ()
- * ¿Tiene su niño(a) ...
... tendencia a respirar por la boca durante el día? SI () NO ()
... la boca seca al despertar por las mañanas? SI () NO ()
... tendencia a orinarse ocasionalmente en la cama? SI () NO ()
... tendencia a despertarse en la mañana sintiéndose cansado? SI () NO ()
... problemas de somnolencia durante el día? SI () NO ()
- * ¿Alguien ha comentado que su niño(a) parece adormecido durante el día? SI () NO ()
- * ¿Es difícil despertar al niño(a) por la mañana? SI () NO ()
- * ¿Su niño(a) se despierta con dolores de cabeza en la mañana? SI () NO ()
- * ¿Su niño(a) dejó de crecer a un ritmo normal en algún momento desde su nacimiento? SI () NO ()
- * ¿Su niño(a) tiene sobrepeso? SI () NO ()
- * Su niño(a) a menudo ...
... ¿no parece escuchar cuando se le habla directamente? SI () NO ()
... ¿tiene dificultad para organizar tareas y actividades? SI () NO ()
... ¿se distrae fácilmente con las cosas a su alrededor? SI () NO ()
... ¿mueve en exceso manos o pies o se retuerce en su asiento? SI () NO ()
... ¿interrumpe a otros (ej. Se entromete en conversaciones o juegos)? SI () NO ()
... ¿está "activo", es decir, se comporta "como si fuera impulsado
por un motor"? SI () NO ()