

Enfermedad pulmonar en 238 casos de muerte inesperada del lactante

DRAS. CARMEN GUTIÉRREZ, MÓNICA SIMINOVICH

Resumen

Se revisaron todas las láminas correspondientes a los pulmones de las autopsias incluidas en el programa de estudio de las muertes inesperadas de los lactantes realizadas en Montevideo entre el 1 de octubre de 1998 y el 1 de octubre de 2001, en el Centro Hospitalario Pereira Rossell.

Esta revisión se hizo sin conocimiento del diagnóstico primario realizado, de los datos de la historia ni de las circunstancias que rodearon a la muerte.

Hubo concordancia con el diagnóstico inicial de categoría muerte explicable, autopsia negativa y zona gris en 229 de 238 casos (96,2%). Con el diagnóstico revisado la ME pasó de 145 a 143 casos (60,9% a 60%). La ZG pasó de 43 a 46 casos (de 18% a 19,3%). La AN de 50 a 49 casos (de 21% a 20,5%).

Palabras clave: NEUMOPATIAS
MUERTE SÚBITA INFANTIL

Summary

We reviewed the slides of the lungs of de autopsy cases of Sudden Unexpected Death in Infancy studied at the Pereira Rossell Hospital in Montevideo from october 1st, 1998 to october 1st, 2001.

This review was done without the knowledge of the primary diagnosis, the clinical data or the scene investigation. After the review, there was agreement with the diagnosis of the final cause of death in 229 out of 238 cases (96,2%).

Key words: PNEUMOPATIAS
SUDDEN INFANT DEATH

Introducción

La incidencia variable del síndrome de muerte súbita del lactante (SMSL) en diferentes series publicadas⁽¹⁻⁷⁾ indica marcadas diferencias terminológicas en relación al tema. La uniformidad en los criterios diagnósticos es el paso previo fundamental para poder analizar cifras y realizar estudios comparativos entre diferentes países. En los países nórdicos a partir de 1992 en que se empiezan a aplicar parámetros uniformes en la evaluación de lesiones pulmonares, cerebrales y del sistema nervioso⁽¹⁰⁾ los estudios de revisión no muestran diferencias significativas con el diagnóstico original^(11,12).

En Montevideo, durante un período de tres años comprendidos entre el 1 de octubre de 1998 y el 1 de octubre de 2001 dentro del programa Muerte Inesperada del Lactante (MIL), se utilizó un protocolo uniforme⁽¹³⁻¹⁵⁾ que se ajusta al protocolo internacional^(16,17). Este estudio se hizo en conjunto entre médico forense y patólogo pediatra. Los tres pilares diagnósticos fueron la autopsia, la revisión de la historia clínica y de las circunstancias que rodearon a la muerte. Los hallazgos fueron catalogados de acuerdo a la experiencia del grupo nórdico y estadounidense^(10,17). En este período se estudiaron 238 casos.

En razón de la marcada prevalencia de muerte explicable en esta serie, así como del predominio de la enfermedad respiratoria, creímos importante revisar los diagnósticos. Esta revisión se hizo con otro anatomopatólogo pediátrico, sin conocimiento del diagnóstico previo ni de los datos de la historia ni las circunstancias que rodearon a la muerte. Fue una revisión "a ciegas". El objetivo de esta revisión es poder determinar, como lo han hecho otros grupos^(11,12,18), si los criterios diagnósticos utilizados son reproducibles.

Tabla 1

	Diagnóstico original		Diagnóstico de revisión	
	Casos	Porcentaje	Casos	Porcentaje
Muerte explicable	145	60,9%	143	60%
Zona gris	43	18%	46	19,3%
Autopsia negativa	50	21%	49	20,5%

Material y método

Se realizó una revisión de los pulmones correspondientes a 238 casos de muertes inesperadas en lactantes. Los diagnósticos originales estaban divididos en tres categorías⁽¹³⁻¹⁵⁾:

- **Muerte explicable (ME)** cuando se identificó una causa que justificaba la muerte.
- **Autopsia negativa (AN)** cuando no se encontraron alteraciones en la autopsia que justificaran la muerte.
- **Zona gris (ZG)** cuando se encontraron en la autopsia alteraciones patológicas o elementos sospechosos en la historia, pero los hallazgos fueron insuficientes para explicar la muerte.

En todos los casos se analizaron láminas histológicas, coloreadas con hematoxilina y eosina, de cortes pulmonares correspondientes a material fijado en formol al 10% e incluido en parafina. Correspondían a fragmentos representativos de cada lóbulo pulmonar.

En los primeros 167 casos se estudiaron además láminas coloreadas con Grocott.

Se desconocían, en el momento de la revisión, los otros datos aportados por la autopsia, así como la historia clínica y las circunstancias que rodearon a la muerte.

Resultados

Hubo concordancia con el diagnóstico inicial de categoría (ME, ZG, AN) en 229 de 238 casos (96,2%).

En la revisión realizada se cambió la categoría de ME, que pasó de 145 casos a 143 (de 60,9% a 60%). La ZG pasó de 43 a 46 casos (de 18% a 19,3%). La AN de 50 casos a 49 casos (de 21% a 20,5%) (tabla 1 y figura 1).

Individualmente analizados, cinco casos pasaron de ME a ZG. Es decir, en la revisión se consideró que el proceso de infección pulmonar era insuficiente para producir la muerte.

En tres casos estudiados se pasó de ZG a ME. Es decir, en la revisión se consideró que la importancia del proceso neumónico permitía explicar la muerte. En un

Tabla 2. Enfermedad pulmonar en muertes explicables de causa respiratoria. n=69 casos

Enfermedad	Nº de casos
IRA baja	52
IRA alta y baja	4
Hemorragia pulmonar	2
Aspiración masiva	4
Sofocación accidental	7

IRA: infección respiratoria aguda

caso originalmente catalogado como AN, el hallazgo de neumonía focal motivó su pasaje de AN a ZG.

De los 238 casos revisados, hubo afectación pulmonar causante de la muerte en 69 pacientes, 29,1% de la casuística. La causa respiratoria constituyó 48,2% de las muertes explicables (tabla 2).

En 12 casos la bronconeumonía produjo la muerte, y asentaba en niños desnutridos extremos (marasmo).

Se encontró además afectación concomitante del aparato respiratorio en 26 de los 74 casos de ME de causa no-respiratoria (35,1%).

Se hizo estudio virológico para adenovirus, virus respiratorio sincicial (VRS), influenza A y B y parainfluenza en 31 de los 238 casos⁽¹⁷⁾. Se realizaron cuatro identificaciones virales: tres adenovirus y un VRS. En dos de los tres casos de adenovirus identificados, las imágenes histológicas sugerían etiología viral (neumonía con componente intersticial). En el otro caso de adenovirus identificado, la imagen histológica no permitió sospechar infección pulmonar de ningún tipo. En el caso de VRS la histología mostró una imagen de bronconeumonía bacteriana.

Dentro de los 46 pacientes en categoría ZG, 30 (65,2%) tenía una infección respiratoria en curso: siete tenían infección respiratoria aguda (IRA) alta (laringitis y/o traqueítis); cuatro tenían IRA alta y baja y 19 presentaron IRA baja en la forma de neumonía focal.

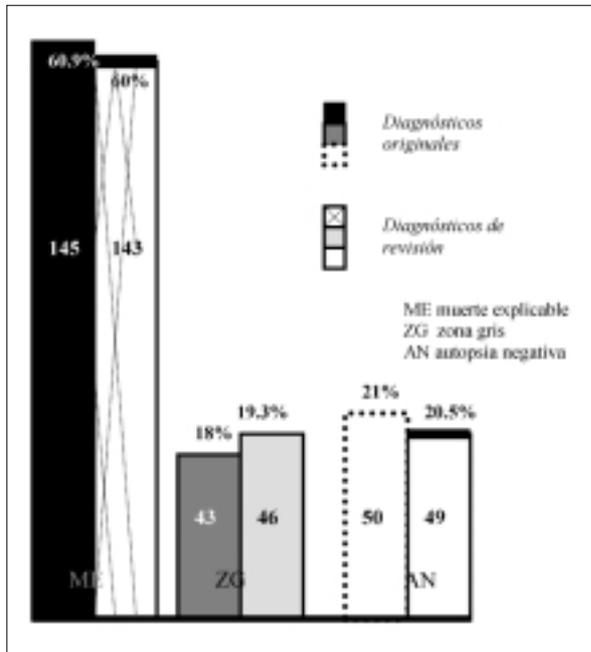


Figura 1. Revisión de enfermedad pulmonar en 238 casos de muerte inesperada del lactante

En los primeros 167 casos se realizó coloración de Grocott. Es una técnica de plata usada para visualizar hongos y *Pneumocystis carinii*. En ninguno de los casos se identificó *Pneumocystis carinii* en los cortes. En un caso se colorearon positivamente las hifas de *Candida albicans*; de todos modos la coloración de rutina demostraba la presencia de estos elementos por lo que la técnica fue confirmatoria: el diagnóstico surge de la técnica de rutina.

En nueve casos la revisión realizada agregó al diagnóstico otros hallazgos que no modificaron la categoría del diagnóstico final (ME, AN, ZG). En dos casos que tenían observación de neumonía focal, esta revisión agregó información sugestiva de probable etiología viral. En dos casos se observó material aspirado. En cuatro casos se constató neumonía focal (dos de ellos tenían miocarditis difusa como causa de muerte). El último de los nueve, correspondió a un cambio de diagnóstico de neumonía focal a bronconeumonía en un paciente que tenía una causa de muerte neurológica.

Se constató aspiración del contenido gástrico en 17 de los 238 casos examinados. De ellos, la aspiración masiva como causa de muerte fue aceptada en cuatro de los 17 casos.

Discusión

La prevalencia del síndrome de muerte súbita del lactante (SMSL) ha variado en diferentes series publicadas. Para algunos autores, ha constituido 70% de las

muertes súbitas en la infancia ⁽¹⁾, para otros 45% ⁽²⁾, 26% ⁽³⁾, 17% ^(4,5), 4,5% ⁽⁶⁾ o hasta 2,5% ⁽⁷⁾. Es evidente que más allá de una diferencia por razones epidemiológicas, culturales, ambientales u otras, debe existir una diferencia metodológica y en la forma de denominar el hecho a la hora de estudiar este tema.

Se ha destacado la importancia de un protocolo uniforme de trabajo y del uso de criterios uniformes para clasificar las lesiones y darle significado a los hallazgos. El diagnóstico estandarizado del SMSL es una condición ineludible para poder evaluar y comparar los resultados en diferentes partes del mundo. Es imposible comparar cifras y sacar conclusiones válidas sobre el SMSL si las metodologías, definiciones y criterios diagnósticos no son similares ^(8,9).

En los países nórdicos se usan en la rutina diagnóstica, a partir de 1992, criterios uniformes previamente acordados para tipificar las lesiones pulmonares, cerebrales y cardíacas en casos de muerte súbita en la infancia ⁽¹⁰⁾. Cuando en estos países utilizaron estos criterios para reevaluar las autopsias de muertes inesperadas en lactantes en los últimos 30 años en forma ciega (desconociendo el diagnóstico inicial), observaron diferencias entre el diagnóstico inicial y el de revisión en los casos previos a 1992. A partir de esa fecha no se observaron diferencias significativas entre el diagnóstico original y el de revisión ^(11,12). Esto marca la importancia de utilizar criterios uniformes para el diagnóstico.

Algunos autores incluyen a las ZG con infección respiratoria (neumonías focales, laringitis, traqueítis) entre los SMSL ^(8,9). De los 46 casos de ZG de esta serie, 30 estarían en esta situación. En el caso de seguir ese criterio, tendríamos 79 SMSL (33,2% de las muertes inesperadas en lactantes). Preferimos conservarlas en la categoría ZG, pero bien individualizadas.

Algunos autores destacan la elevada frecuencia de *Pneumocystis carinii* en casos de muerte súbita en la infancia. Esto no fue comprobado en este estudio. Tal vez la diferencia obedezca a una razón epidemiológica ⁽²⁰⁾. Dados los resultados negativos de los primeros 167 casos se consideró innecesario hacer esta técnica de rutina para este medio.

Conclusiones

La revisión realizada, confirmó la elevada prevalencia de la patología respiratoria como causa de muerte en la muerte inesperada del lactante. El objetivo propuesto inicialmente fue demostrado y el método aplicado es reproducible, con un nivel de discordancia aceptable. La revisión enriquece la consideración individual de los casos y apoya la importancia del estudio sistematizado de todos los casos de muerte inesperada en lactantes así

como la importancia de la participación del patólogo pediatra ⁽²¹⁾.

Bibliografía

1. **Helweg-Larsen K, Knudsen LB, Gregersen M, Simensen J.** Sudden infant death syndrome (SIDS) in Denmark: Evaluation of the increasing incidence of registered SIDS in the period 1972 to 1983 and results of a prospective study in 1987 through 1988. *Pediatrics* 1992; 89: 855-9.
2. **Arneil GC, Brooke H, Gibson AAM, et al.** National post perinatal infant mortality and cot death study, Scotland 1981-82. *Lancet* 1985; 740-3.
3. **Rajs J.** Differential diagnosis of SIDS from the medico-legal point of view. *Acta Paediatr Scan* 1993; 389 (Suppl): 80-1.
4. **Imbert MC, Briand E, Broyer M, et al.** Intérêt de la comparaison anatomo-clinique dans la mort subite du nourrisson. *Arch Fr Pediatr* 1992; 49: 311.
5. **Taylor EM, Emery JL.** Categories of preventable unexpected infant deaths. *Arch Dis Child* 1990; 65: 535-9.
6. **Cheron G, Rambaud C, Rey C, et al.** Morts subites au berceau. *Arch Fr Pediatr* 1993; 50: 293-9.
7. **Hatton F, Bouvier-Colle MH, Barois A, et al.** Autopsies of sudden infant death syndrome- classification and epidemiology. *Acta Pediatr* 1995; 84: 1366-71.
8. **Rognum TO, Willinger M.** The story of the "Stavanger definition". En: Rognum TO (ed). *Sudden Infant Death Syndrome. New Trends in the Nineties.* Oslo: Scandinavian University Press, 1995: 21-5.
9. **Rognum TO.** Definition and pathologic features. En: Biard RW and Krous HF (eds) *Sudden Infant Death Syndrome.* London: Arnold, 2001: 5-30
10. **Gregersen M, Rajs, Laursen H, et al.** Pathologic criteria for the Nordic Study of Sudden Infant Death Syndrome. En: Rognum TO (ed). *Sudden Infant Death Syndrome. New Trends in the Nineties.* Oslo: Scandinavian University Press, 1995: 50-8.
11. **Vege A, Rognum TO.** Use of new Nordic criteria for classification of SIDS to reevaluate diagnosis of sudden unexpected infant death in the Nordic countries. *Acta Paediatr* 1997; 86: 391-6.
12. **Vege A, Rognum TO, Loberg EM, Isaksen CV, et al.** Diagnosis of sudden infant death in the Nordic countries since 1970, revised. En: Rognum TO (ed). *Sudden Infant Death Syndrome. New Trends in the Nineties.* Scandinavian University Press, Oslo, 1995, pp. 67-73.
13. **Gutiérrez C, Palenzuela S, Rodríguez A, Balbela B, Rubio I, Lemes A, et al.** Muerte inesperada del lactante. Diagnóstico de situación en la ciudad de Montevideo. *Arch Pediatr Urug* 2001; 72(3): 185-97.
14. **Landi K, Harruff R, Gutiérrez C, Rodríguez A, Palenzuela S, Greco A.** Causes of sudden unexpected death in infancy: a three year comparison of New York, NY, King Country, WA and Montevideo, Uruguay. *Annual Meeting-Society for Pediatric Pathology- USCAP- Washington DC-USA- Marzo 2003.*
15. **Gutiérrez C.** Diagnóstico anatómo-clínico en pediatría. *Boletín de la Academia Nacional de Medicina del Uruguay.* Año 2002. (En prensa).
16. **Krous HF.** The international standardized autopsy protocol for sudden unexpected infant death. En: Rognum TO (ed). *Sudden Infant Death Syndrome. New Trends in the Nineties.* Oslo: Scandinavian University Press, 1995: 81-95.
17. **Valdes-Dapena M, McFeeley P, Hoffman HJ, Damus KH, et al.** Histopathology atlas for the sudden infant death syndrome. Washington: Armed Forces Institute of Pathology, 1993.
18. **D'Espaignet ET, McFeeley P.** Diagnosis of SIDS: Reproducibility in Australia and comparability with diagnosis in the United States. En: Rognum TO (ed). *Sudden Infant Death Syndrome. New Trends in the Nineties.* Oslo: Scandinavian University Press, 1995: 57-66.
19. **Mateos S, Rodríguez A, Palenzuela S, Balbela B, Chiparelli H, Gutiérrez C, et al.** Diagnóstico de virus respiratorios asociados a la muerte inesperada del lactante. Comunicación preliminar. XII Congreso Latinoamericano de Pediatría- XIX Congreso Panamericano de Pediatría y XXIII Congreso Uruguayo de Pediatría- Montevideo- Diciembre 2000.
20. **Morgan D, Vargas S, Reyes Mujica M, Walterspiel JN, Carver W, Gigliotti F.** Identification of *Pneumocystis carinii* in the lungs of infants dying of sudden infant death syndrome. *Pediatr Infect Dis J* 2001; 20(3): 306-9.
21. **Coté A, Russo P, Michaud J.** Sudden unexpected deaths in infancy: What are the causes? *J Pediatr* 1999; 135: 437-43.

Correspondencia: Dra. Carmen Gutiérrez.
Laboratorio de Patología Pediátrica. Centro
Hospitalario Pereira Rossell. Montevideo, Uruguay.