Estudio prospectivo del sueño en niños y adolescentes con síndrome de Down

Cabrera García-Armenter, Sara; Dominguez Ortega, Luis; Bravo Fernández de Araoz, Gonzalo; Serrano Comino, Manuel

Complejo hospitalario Ruber Juan Bravo. 28006. Madrid. España.

Resumen

Se han descrito diferentes trastornos en niños con síndrome de Down (SD): la fragmentación del sueño, los movimientos de piernas, los despertares, el cuadro obstructivo de vías respiratorias con apnea e hipopnea han sido los hallazgos más significativos. Los trastornos del sueño y la hipoxemia influyen negativamente sobre el estado físico, capacidad mental y la conducta en niños con SD.

Objetivos

Evaluar la incidencia e importancia del síndrome de apnea obstructiva de sueño (SAOS) en una población infantil y adolescente de síndrome de Down (SD), correlacionando los datos clínicos con los registros polisomnograficos nocturno (PSG).

Diseño

Estudio prospectivo de 80 casos de SD con PSG nocturna, realizándose de noviembre 2010 a Julio 2014. Se realizaron reuniones informativas en la FSDM e información escrita a las familias obteniéndose con posterioridad los consentimientos de padres/tutores.

Emplazamiento

El estudio se realizó en el Instituto para Estudio de los Trastornos del Sueño. Los casos provenían de la Fundación Síndrome de Down de Madrid.

Material y métodos

Se contactó con 325 familias pertenecientes a la FSDM, 116 (35,7%) aceptaron participar en el proyecto. Finalmente se incluyeron los primeros 80 casos con cuestionario de sueño, PSG nocturna y valoración clínica, logrando así nuestro tamaño de muestra objetivo. La edad media fue de 9,81 años (6 m-22 a), 56 % varones, 44% femenino. Habían tenido cirugía orofaringea, amígdalas o adenoides, 18 casos. El 97% tenían un índice de apnea-hipopnea (IAH) superior a 1, el 50% superior a 5. Había correlación directa entre edad igual e inferior a 6 años y menor grado de IAH. El grado de IAH superior a 5 se correlacionaba con mayor edad ($p>0,001$) mayor índice de arousal respiratoria ($p<0,001$), menor saturación de O2 mínimo ($p< 0,001$) y menor porcentaje de REM ($p<0,05$). El sexo masculino presentó mayores índices de arousal respiratorios ($p<0,04$), menor saturación de O2 basal ($p<0,04$) y mayor porcentaje de estadio 3 ($p<0,04$). En los menores de 6 años se encontró una latencia a REM acortada y mayor porcentaje de fase REM ($p<0,001$). Los movimientos bruscos de piernas, reportados por los padres, se asociaban con mayor IAH ($p<0,04$). No se encontró correlación significativa valorando los IAH y la desaturación de O2 con diferentes variables clínicas: pacientes con o sin cirugía orofaringea, tamaño amigdalar y longitud de paladar, antecedentes de cardiopatía congénita y antecedentes de infección respiratoria alta o baja. Se utilizó SPSS 15,0 para la tabulación y análisis de los casos. Se utilizó comparación de medias para variable cuantitativas y test de ANOVA para variables cualitativas. Se determinó la significación en 0,05.

Aplicabilidad

Se debe establecer un estudio sistemático de la patología del sueño en todos los pacientes con este síndrome y continuado a lo largo de su vida.

Introducción

El síndrome de Down (SD) es la anomalía cromosómica más frecuente de entre los nacidos vivos con discapacidad intelectual. La prevalencia de SD mundial varía entre 1/650 y 1/1000 (1). Los niños con SD nacen con características dismórficas, malformaciones congénitas y otros problemas médicos dentro de un espectro variable. Su esperanza de vida se ha elevado notablemente desde los 12 años de edad en los años 40 hasta los 65 años en la actualidad (2). Los trastornos que afectan a casi todos en algún grado, persistiendo durante toda su vida, son las dismorfias, el retraso mental y del desarrollo y los trastornos del sueño (3).

Hay una serie de factores en la infancia que predisponen a trastornos respiratorios durante la fase de sueño: Resistencia aumentada de la vía aérea superior por disminución del tamaño faríngeo y relajación de los músculos que dilatan la faringe, vía aérea anatómicamente pequeña, aumento de amígdalas y adenoides, obesidad, anomalías craneofaciales, obstrucción nasoseptal, macroglosia, anomalía de tejidos blandos y alteraciones mandibulares. Esta situación lleva a una disminución del tamaño nasofaríngeo, orofaríngeo e hipofaríngeo durante el sueño que predispone al colapso faríngeo (4).

Estos factores son más frecuentes y más intensos en niños con SD, donde además se aprecia importante hipotonía muscular, hipoplasia medio facial, paladar ojival, hipoplasia mandibular, macroglosia, anomalías de la base del cráneo y aumento de amígdalas y adenoides (3); lo que se asocia con alteraciones durante el sueño, ya referidas en diferentes estudios (5, 6, 7, 8, 9 y 10).

Durante el sueño se han descrito diferentes trastornos respiratorios en niños con SD. La fragmentación del sueño, los movimientos de piernas, los despertares, el cuadro obstructivo de vías respiratorias con apnea e hipopnea han sido los hallazgos más significativos (4-8).

Desde que nace y durante toda su vida los trastornos del sueño y la hipoxemia influirán negativamente sobre su estado físico, capacidad mental y la conducta en niños con SD. En niños con SD está establecido un calendario de pruebas diagnósticas, de control de diversos problemas y patologías, así como vacunaciones; sin embargo, el estudio de los trastornos del sueño no se ha incluido en estos controles de forma sistemática, pese a ser tan frecuentes.

La intención de este estudio prospectivo es investigar los trastornos de sueño en niños y adolescentes con SD, en el seno de una población amplia de esta patología, seguida medicamente de forma uniforme. Los pacientes se han incluido en el estudio sin seleccionar por síntomas de trastorno del sueño. Se ha realizado un manejo uniforme, basado en un protocolo clínico y polisomnografía nocturna (PSG) en diferentes grupos de edades.

Pacientes y Métodos

2.1. Participantes y periodo de estudio

Se estudiaron los trastornos del sueño en niños y adolescentes con SD de la Fundación Síndrome de Down de Madrid (FSDM) desde noviembre del 2010 a Julio del 2013. Se realizaron reuniones informativas en la FSDM e información escrita a las familias donde se explicaban los objetivos del estudio y se invitaba a los padres a tomar parte en el mismo, obteniéndose su consentimiento en todos los casos.

La FSDM tiene una guía general desde el nacimiento con un conjunto de recomendaciones en relación con la edad. Se presta especial atención a problemas específicos de SD y se hacen valoraciones periódicas generales y específicas de diferentes órganos y sistemas, vacunaciones, etc.

2.2. Estudio clínico

Se realizo historia y exploración clínica general y se recogieron: Cariotipo. Anomalías faciales y orofaríngeas. Se prestó especial atención a la función de la vía aérea superior y se clasificó la posición del paladar según Friedman (11) en cuatro grados donde, I: se visualiza úvula entera y amígdalas, II: se visualiza la úvula y no las amígdalas, III: se visualiza el paladar blando y no la úvula, IV: solo se ve el paladar duro. El tamaño amigdalino se clasifica tradicionalmente de 0 a 4: 0 amígdalas operadas, 1 amígdalas dentro de los pilares, 2 la hipertrofia amigdalar se extiende a los pilares, 3 la hipertrofia amigdalina sobrepasa los pilares sin llegar a la línea media, 4 cuando contactan en la línea media (11). Para el trabajo se consideró patológico que al menos una de las amígdalas tuviera grado 3. Se recogieron los antecedentes de cardiopatías congénitas, patología tiroidea, patología del aparato respiratorio alta, patología respiratoria baja, patología oftalmológica, patología gastrointestinal, patología ortopédica, neurológica y psiquiátrica.

2.3. Cuestionario de sueño de las familias

Los padres completaron un cuestionario de sueño en casa, el cuestionario pediátrico de sueño de Chervin (12). De este cuestionario incluíamos información de los siguientes síntomas durante el sueño: ronquido, pausas respiratorias, sueño intranquilo, movimientos bruscos de piernas durante el sueño. Se valoro como afirmativo, negativo y desconocido.

2.4. Estudio polisomnográfico nocturno (PSG)

El registro polisomnográfico nocturno utilizó un equipo computarizado (Medcare; Monet de 17 canales). Los padres los acompañaron durante la noche. Los niños no estaban deprimidos de sueño ni se utilizó medicación sedante. Se recogieron con videograbación sincronizada: Electroencefalograma (3 derivaciones: C4-A2/A1; O1/O2-A2/A1; F3/F4-A2/A1). Electrooculograma derecho e izquierdo (ROC-A1; LOC-A2). Electromiograma tibial y submentoniano. Flujo Naso-Oral. Esfuerzos torácico y abdominal registrado por pletismografía, Saturación de oxígeno medido con pulsioximetría. Posición y ronquido.

Se realizó lectura automática y manual del registro, siempre por la misma técnica, conforme a los criterios estándar de la AASM (13-14). Las variables que se recogieron en la PSG fueron: latencia media al sueño, eficacia de sueño, porcentaje de tiempo de sueño en los distintos estadios de sueño, estadio 1, 2, 3, 4 y REM, latencia a REM, Índice de apnea-hipopnea por hora. Índice de arousal que describe el número de arousal por hora de sueño. Índice de movimientos periódicos de piernas. Saturación de oxígeno basal y durante el sueño; la saturación más baja, número de saturaciones menores de 90%.

Parámetros y definiciones de la arquitectura del sueño

- **Latencia al sueño:** tiempo en minutos que transcurre desde que se apaga la luz hasta la aparición de cualquier estadio de sueño. **Eficacia de sueño**: El total de tiempo en cama multiplicado por 100, dividido por el tiempo total. **Latencia a REM**: tiempo en minutos desde el inicio del sueño hasta la primera fase REM.
- **Apnea obstructiva** se define cuando se asocia a caída de la amplitud de la señal del thermistor≥ 90% durante más del 90% del total del evento, y la duración del evento equivale a dos ciclos respiratorios con persistencia o aumento del esfuerzo respiratorio durante el período de descenso del flujo oronasal. La duración de la apnea se mide desde el final de la última respiración normal hasta el inicio de la primera respiración que recupera el nivel basal, se mide en número de episodios hora, lo que determina el índice de apnea (15, 16).

- **Hipopnea** se define como el descenso en la amplitud de la señal de la cánula nasal ≥ 50% comparada con la amplitud basal. La caída de la amplitud de la cánula nasal debe durar ≥ 90% de todo el evento respiratorio comparado con la amplitud precedente al evento y la duración al menos el tiempo equivalente a dos ciclos respiratorios. El evento está asociado con un arousal, despertar o desaturación≥ 3%. Se mide en número de episodios hora, lo que determina el índice de hipopnea (15,16).
- **Indice de apnea (IA*)*** es el número de eventos de apneas obstructivas y/o centrales por hora de sueño. **Indice de hipopnea (IH)** el número de hipopneas por hora de sueño.
- **Indice de apnea-hipopnea (IAH)** es la suma del índice de apnea y el índice de hipopnea. El diagnóstico de **Síndrome de apnea obstructiva de sueño** (SAOS) se basa en la sospecha clínica, la historia, y los hallazgos de la exploración, y se confirma mediante polisomnografía. La International Classification of Sleep Disorders considera por consenso el diagnóstico de SAHS en niños cuando hay uno o más eventos respiratorios por hora de sueño (17).
- **Arousal:** Cambio brusco de la frecuencia del EEG, incluyendo alfa, teta, y/o frecuencias mayores de 16Hz, que dura por lo menos 3 segundos; en los estadios de sueño N1, N2, N3 y en la fase de movimientos oculares rápidos (REM) cuando además se acompaña de un aumento del electromiograma (EMG) durante al menos 1 segundo (15,16). Arousal pueden ser espontaneas o puede estar relacionado a eventos como intervenciones del técnico, eventos respiratorios, y movimientos de piernas.
- **Hipoxemia***,* o desaturación de oxígeno, se considera anormal si la oxigenación es menor del 91%. La saturación de oxígeno basal varía en un rango entre 95 a 100%, la desaturación más baja puede ser tan baja como 84 a 86%. Se toman como referencia los valores polisomnográficos en niños entre 2-9 años ya que no hay literatura para valores de los pacientes con SD. Una dificultad en la evaluación de los trastornos del sueño en niños ha sido utilizar las definiciones descritas en adultos, se han desarrollado criterios apropiados para la valoración polisomnográfica en niños (16).

Se definió SAOS como un IAH superior a un evento por hora. La severidad de la obstrucción respiratoria se valoró usando el índice de apnea-hipopnea. Se hizo una división en tres estadios: leve IAH > 1-5, moderado IAH >5-10, grave IAH >10. (36)

Estudio estadístico

Se utilizó SPSS 15,0 para la tabulación y análisis de los casos. Se utilizó comparación de medias para variable cuantitativas y test de ANOVA para variables cualitativas. Se determinó la significación en 0,05.

Resultados

4.1. Características demográficas

Nos pusimos en contacto con 325 familias pertenecientes a la FSDM con niños con SD de los cuales acudieron a consulta 116. A estos 116 se les realizo estudio clínico y cuestionario de sueño y en 84 de ellos se pudo realizar estudio PSG, siendo válido en 80 casos. Estos 80 casos tienen un estudio clínico, un cuestionario de trastornos del sueño y una PSG, valorando las tres exploraciones conjuntamente e intentando correlacionar diferentes datos.

La edad media era de 9,81 años con un rango de 6 meses a 22 años. 45 casos sexo masculino 56,25% y 35 sexo femenino 43,75%. El cariotipo en 76 casos eran trisomía 21, y 4 casos eran mosaicos.

4.2. Estudio clínico

Se valoraron las anomalías faciales, más frecuentes como paladar ojival en 82,5%, nariz pequeña 82,5%, puente nasal bajo 67,5% e hipoplasia maxilar 66%. En la valoración orofaríngea (Tabla I) en 14 casos se encontraron amígdalas grado 1 (17,9%), grado 2 en 12 casos (16,6%) y consideramos hipertrofia amigdalar al grado 3 y 4 (65%). En 2 casos no se tuvo información. La posición del paladar fue en 45 casos (56,25%) grado I y II, en 24 casos (30%) grado III hasta IV. En 11 casos no se tuvo información.

En 18 casos se había realizado cirugía sobre amígdalas y/o adenoides años antes de empezar este estudio. Este grupo con cirugía tenía valores similares de edad media, de IAH y de Sat O2 mínimas con respecto a los que no tenían cirugía.

Antecedentes de cardiopatía congénita se apreció en 52 casos de los que en 28 casos, un 53,8% correspondían a Comunicación Interauricular, 14 casos un 26,9% Comunicación Interventricular, persistencia del ductus en 18 casos, un 34,6%, todos ellos corregidas. Hipertensión pulmonar apareció en algún momento en 13 casos. La patología tiroidea más frecuente que se presentó era hipotiroidismo en 32 casos, 19 tratados y controlados y 13 subclínicos. Antecedentes de patología del aparato respiratorio alta como otitis 41,25%, CRUP 11,25%, sinusitis 11,25%. Antecedentes de patología respiratoria baja más frecuente bronquiolitis 61,25% y Neumonía 51,25%. La patología oftalmológica más frecuente fueron los trastornos de refracción en el 76,25% y conjuntivitis en el 43,75%. Patología gastrointestinal buscando especialmente el reflujo que se objetivó en el 55%. La patología ortopédica con pie plano en el 53,75%. La patología neurológica y psiquiátrica se diagnosticó en 23,75%.

Se hizo un estudio de correlación de la hipertrofia amigdalar y de la posición del paladar, no encontrándose significación estadística con los IAH y la desaturación de oxígeno. Tampoco se encontró significación de los antecedentes de cardiopatía congénita y de infección respiratoria en relación a los IAH y a la desaturación de oxígeno.

4.3. Cuestionarios de sueño

Dificultad para valoración de diferentes parámetros. Se aceptaron por tener mejor valoración el ronquido, las pausas respiratorias, sueño intranquilo y movimientos bruscos de piernas en la cama. Se valoro como sí, no o no sabe. Presentaron ronquido 59 de 79 casos (74,6%). Pausas respiratorias en 22 casos de 41 validos (53,7%), 32 no sabían. Apreciaron sueño intranquilo en 49 de 77 casos (63%). Apreciaron movimientos bruscos de piernas en 33 de 73 (45,2%).

Se estudio la influencia de la edad, el sexo, el IAH y la Saturación O2 mínima en las cuatro variables clínicas, observadas por los padres en su casa. No se encontró significación estadística excepto en la intranquilidad de piernas donde el IAH era 10,31/h vs 6,0/h en los que no la presentaban ($p<0,04$).

4.4. Registros polisomnográficos nocturnos

En la tabla II se representa peso, talla, sexo de todo el grupo y de pacientes divididos por edades igual o inferior a 6 años y superior a 6 años. En dicha tabla se representa los valores de arquitectura del sueño, índice de apnea-hipopnea, saturación oxigeno media, mínima y número de veces inferior a 90%.

La media de IAH es de 7,57 por hora, la saturación media 95,56% y la Saturación mínima era de 84,34%, (rango 67-92). El IAH en los menores de 6 años es significativamente menor que en los mayores 3,79 vs 9,20. ($p<0,01$). Había una saturación media inferior en los menores de 6 años ($p<0,04$). En el grupo inferior a 6 años tiene una menor duración de la Fase E3 ($p<0,03$), una mayor duración de la fase REM ($p<0,001$) y una menor duración de la latencia a REM ($p<0,001$).

Los IAH se estudian por grados, tabla III, donde se aprecia que el 50% de los casos tienen unos IAH < 5, lo que significa un grado leve. Los restantes se encuentran el 30% entre 5-10 y el 19% por encima de 10. Si los valoramos por edad igual o inferior a 6 hay un acumulo importante de casos leve en inferiores a 6 años. ($p<0,05$).

Se hizo un grupo con saturaciones mínimas inferiores a 85%, 42 casos, y otro con saturaciones mínimas superiores a 85%, 38 casos. Se compararon las diferencias en edad, sexo, IAH, arquitectura de sueño y se encontró significativo un índice de arousal de 1,02 en los de Sat O2 mayor de 85% y de 2,47 en los de Sat O2 menor de 85% ($p<0,01$). Los inferiores a 85% de SatO2 tenían IAH de 9,14 versus 5,86 de los superiores a 85 % ($p<0,09$), no significativo.

En la tabla IV se comparan los pacientes que tenían IAH igual o inferior a 5 con los que lo tuvieron superior a 5, respecto a las variables ya estudiadas en otras correlaciones. La edad media de los inferiores a 5 era de 8,32 versus 10,52 en los superiores 5 ($p<0,01$). Los índices de arousal respiratorio eran de 0,75 en los IAH inferiores a 5/h vs 3,40 en los superiores a 5/h ($p<0,001$). La saturación de oxígeno mínima en los de menos de 5/h era 86,05 vs 84,47 en los de más de 5/h ($p< 0,001$). Las saturaciones inferiores a 90% eran 11,81 en los menores de 5/h y 24,52 en los superiores a 5/h ($p<0,001$). El tiempo de fase REM en los inferiores a 5/h era 18,18 vs 14,91 en los superiores a 5/h. ($p<0,05$)

En la tabla V se considera el sexo en relación con arquitectura de sueño, IAH y saturaciones. Se encuentra una fase E3 más corta en varones ($p<0,04$), un índice de arousal respiratorio más alto en varones ($p<0,04$) y una Saturación media más baja en varones ($p<0,04$), resto no se encuentra significación, aunque el IAH de varones es de 9,03 vs 5,70 ($p<0,09$) sin significación. Existe una gran igualdad en la edad, peso, talla y en otros valores considerados en los dos géneros.

Discusión

Los estudios de sueño en niños con SD se han realizado generalmente en pequeños grupos, diferentes edades, diferentes metodologías y técnicas de estudio. Los estudios con PSG han sido poco numerosos y utilizando diferentes criterios diagnósticos de SAOS según los valores de IAH que se utilizaban para definirlos. Los cuestionarios de sueño recogidos por los padres no se correlacionan bien en general con el grado y frecuencia de los trastornos de apnea estudiados con PSG (7,8,18,19) y en general el trastorno ha sido infravalorado. Los estudios publicados con PSG han crecido en número de pacientes, casos retrospectivos y derivados para estudio de PSG por tener síntomas claros de trastornos del sueño (19, 20). Para conocer la evolución de los estudios sobre patología de sueño en SD es revelador el trabajo de Churchill (21). El estudio con PSG es la prueba definitiva para conocer la realidad del SAOS en el SD generalmente poco expresivo o infravalorado en el contexto de estos pacientes.

Estos niños con SD viven sobrecargados de pruebas, ingresos hospitalarios, cirugías, analíticas, interconsulta etc. Hacer una PSG requiere importante motivación, dedicación y colaboración de paciente y familia. La PSG ha sido reservada hasta ahora a pacientes con síntomas claros de trastornos del sueño o apnea.

Nuestro estudio se planteó en una población de SD con una situación uniforme de manejo médico y de atención social donde no hubo ningún criterio médico de selección para el estudio y únicamente fue la aceptación de la familia del paciente para participar en el mismo.

5.1. Cirugía de amígdalas y adenoides

La cirugía de amígdalas y adenoides mejora parcialmente los cuadros de apnea obstructiva pero no los resuelve (22, 23, 24,25). En nuestro grupo había 18 con cirugía previa sin diferencias con el resto del grupo en los valores estudiados. La cirugía mejora de forma inmediata el cuadro obstructivo hasta en un 40-50% de casos, pero no resuelve el problema a largo plazo.

Se aprecia en este grupo como en otros que el tamaño amigdalar o la posición del paladar no influyen en la severidad del SAOS cuando se correlacionan con el IAH y las saturaciones de O2, al igual que al grupo de Maris (18). Se ha estudiado la morfología facial en SD con 3D buscando medidas antropométricas predictivas de SAOS y no encuentran diferencias entre participantes con SD con o sin SAOS (26). Estos hallazgos y la falta de respuesta a largo plazo de la cirugía orofaríngea, obligan a buscar otras soluciones.

El estudio clínico demuestra unas comorbilidades importantes que se corresponden con las frecuencias generalmente descritas en el SD (27,28), por lo que el grupo es un grupo representativo de esta patología. No se pudo encontrar correlación significativa entre los pacientes con antecedentes de cardiopatía congénita, al igual que Shott (8) y tampoco con las infecciones respiratorias altas y bajas. En un amplio estudio en Japón sobre presencia de cardiopatía congénita y su repercusión posterior en trastornos de sueño de SD, sólo se encontró relación con cardiopatía compleja como la Tetralogía de Fallot (29).

El ronquido fue el síntoma clínico más frecuente recogido por los padres 74,6%, seguido del sueño intranquilo 63,6%, de las pausas respiratorias durante el sueño el 63,6% y por último movimientos bruscos de las piernas en la cama 45,2%. En estos últimos se encontró asociación con un IAH mayor ($p<0,04$). No se encontró correlación en ninguno de los otros síntomas. Esta muy descrita la falta de correlación entre los síntomas observado por los padres en el domicilio y los valores obtenidos en diferentes estudios de sueños con PSG (7,8,18). Se estima que hay una infravaloración de los trastornos del sueño por los datos de síntomas cuando se compara con los estudios de PSG. Sin embargo, en nuestro grupo se aprecia una relación clara entre movimientos bruscos de piernas con un mayor número de IAH. Otros grupos encuentran relación con el ronquido y la desaturación (30), con sensación de apnea, un aumento de IAH (21) y con mayor severidad de SAOS cuando existe ronquido o apneas objetivadas (20), estos dos últimos estudios con gran número de casos con PSG. Debemos plantearnos que un diseño homogéneo y consensuado de recogida de signos y síntomas orientados a valorar la prevalencia o la severidad de SAOS, correlacionadas con estudios de PSG, pueden aportar más conocimiento sobre la relación entre síntomas y estudios con PSG.

5.2. Polisomnografía

En este estudio prospectivo y sin seleccionar, el 97% tiene IAH superior a 1/h, una media de IAH 7,57/h. Estas moderadas y casi generales índices de afectación se corresponden con las encontradas en otro estudio de población limitado a 8 años de edad, donde 28 de 29 tienen IAH superior a 1,5/h (31). Los grados de IAH de nuestro grupo demuestran que el 50% es inferior a 5 IAH y claramente relacionado con menor edad. Para estudiar todo el grupo con criterios clínicos de SAOS se divide en IAH superiores e inferiores a 5, encontrándose un 50% con criterios claros de SAOS, en los superiores a 5 IAH/h proporción encontrada en diversos grupos (8,10,20,27).

Los grados de IAH superiores a 5/h tienen un claro valor discriminativo en la severidad de la apnea obstructivo del SD, es un SAOS clínico claro que se demuestra en diferentes parámetros muy significativos como son la hipoxemia y los arousal de acuerdo con los hallazgos de Fitzgerald (32). La fase REM más acortada, también se ha descrita en casos claros de SAOS (6,8).

Los criterios diagnósticos de SAOS son variables en diferentes estudios basados en el número de IAH/h y aquí se definen dos grupos similares en número, y de diferente severidad según la frecuencia de IAH superior o inferior a 5/h. Es un estudio de población donde se aprecia una proporción de SAOS

clínicamente evidente similar a otros grupos. Es muy demostrativa la alteración de la PSG encontrada en la casi totalidad de la población estudiada mediante la medida del IAH superior a 1, en el 97%. Esto indica que, sin seleccionar por síntomas, hay un espectro de alteraciones polisomnograficas en relación con el IAH que abarcan a casi toda la población con SD.

En niños pequeño puede haber un IAH de más de 1/h y ser indicativo de SAOS según criterios de la International Classification of Sleep Disorders (17). La diferencia por edad se apreciaba también en la saturación de oxígeno media, menor en los inferiores a 6 años ($p>0,04$), hecho aparentemente contradictorio al encontrarse menos factores de severidad de SAOS. En niños pequeños se afecta más la saturación de oxígeno con apneas menos intensas, quizás por tener menor capacidad residual respiratoria y más taquipnea (33). En este sentido la oximetría nocturna en niños pequeños podría servir para valorar la intensidad de la obstrucción antes de realizar una PSG, mucho más laboriosa en estos niños y de acuerdo con Dyken, Sandi C Lin y Stores (6, 7, 30).

Se encuentra en nuestro grupo una relación directa entre edades menor a 6 años y menor severidad de SAOS. Estos resultados son diferentes al estudio de Maris (20) 122 casos retrospectivos enviados para estudio de PSG por síntomas claros de trastornos de sueño donde encuentra una relación inversa entre edad y gravedad de SAOS. Se trata de una población diferente donde los niños se estudian por ronquido y apnea y son en gran mayoría de corta edad e intensidad severa. En otro estudio amplio de niños con SD estudiados con PSG, Nehme (21), también retrospectivo, 119 casos, encuentra que a mayor edad hay mayor índice de OIAH. ($p<0,04$) pero no encuentra significación con el IAH.

La población de sexo masculino respecto al femenino tiene unos niveles de saturación media más baja ($p<0,04$), un índice de arousal más alto ($p<0,04$) y una fase E3 más corta ($p<0,04$), con IAH claramente mayores en los varones, sin significación estadística. Parece indicar un mayor riesgo en los varones con SD para presentar cuadros de apnea obstructivos. No suelen encontrarse estudios que apoyen el sexo masculino como factor predictivo de SAOS, excepto en el trabajo de Hill donde encuentra que el sexo masculino con ronquido habitual, de forma conjunta, puede predecir SAOS, pero no como valor independiente (34). De Miguel Díez encuentra también el sexo masculino como predictivo de SAOS (10), y Maris que encuentra que los varones tenían más somnolencia diurna (18).

Los índices de arousal se han asociado a desaturaciones de O2 y a mayor apnea obstructiva, y representarían un mecanismo de defensa. En este grupo se correlacionan con IAH superior a 5 ($p<0,001$) y desaturaciones inferiores a 85 ($p<0,01$), indicando mayor severidad de SAOS. Se relacionan clásicamente con la fragmentación del sueño destacándose las consecuencias de la hipoxemia en el desarrollo de estos niños de acuerdo con los trabajos de Dyken, Fitzgerald y Levanon (6, 32, 35).

La arquitectura de sueño muestra valores globales que no difiere con una población de similar edad sin SD, al igual que en otros trabajos (7,34). Encontramos alteraciones propias de las edades bajas, inferiores a 6 años, aunque no sean SD, como una mayor duración de la fase REM ($p<0,01$). Con valores de IAH superior a 5 hay una disminución de REM ($p<0,05$) habiéndose descrito disminución de REM asociado a SAOS en otros estudios (8). También se aprecia que el grupo IAH superior a 5 tiene una edad significativamente mayor 12,78 vs 8,32 ($p<0,01$). Se plantea si las diferencias en la densidad del REM están ligada a la edad, al SAOS según la edad o a otras consideraciones dentro del SD.

Tabla I. Valoración orofaríngea

Valoración amigdalar		Posición del paladar	
Hipertrofia Amigdalar	52(65%)	Paladar largo	24(30%)
No hipertrofia Amigdalar	26(32,5%)	No paladar largo	45(56,25%)
No registrado	2(2,5%)	No registrado	11(13,75%)

Hipertrofia amigdalar superior a III y IV.

Tabla II. Arquitectura de sueño, IAH, SatO2 media y mínimas, total y por edades en <= 6 años y > 6 años

	<= 6 años		>6 años		Total		
	Media n=28	Desv tip	Media n=52	Desv tip	Media n=80	Desv tip	
Peso	15,48	4,04	46,71	16,81	35,78	20,31	p<0,001
Talla	95,04	12,92	143,12	16,89	126,29	27,82	p<0,001
Sexo femenino	9		26		35		ns
Sexo masculino	19		26		45		ns
Indice de eficacia de sueño	87,36	8,26	82,38	14,68	84,12	12,97	ns
Latencia al sueño	29,16	31,47	25,33	29,38	26,67	29,98	ns
Porcentaje estadio 1 de sueño	30,13	9,49	31,47	17,17	31,00	14,88	ns
Porcentaje estadio 2 de sueño	24,10	10,83	25,50	15,27	25,01	13,83	ns
Porcentaje estadio 3 de sueño	9,64	5,21	12,53	7,42	11,52	6,84	ns
Porcentaje estadio 4 de sueño	5,48	6,18	7,10	9,53	6,53	8,50	ns
Porcentaje estadio 3 y 4 de sueño	15,11	4,82	19,64	10,48	18,06	9,14	p<0,03
Porcentaje de REM	19,77	6,42	14,94	6,91	16,63	7,09	p<0,001
Latencia a REM	78,48	52,43	140,14	73,13	118,28	72,53	p<0,001
Índice aurosal respiratorio	1,09	0,99	2,18	3,09	1,81	2,62	Ns
IAH	3,79	1,80	9,20	9,48	7,57	8,34	p<0,01
SatO2 basal	95,04	2,01	95,85	1,38	95,56	1,66	p<0,04
Sat O2 mínima	84,93	3,44	84,02	5,68	84,34	5,01	Ns
Sat O2 < 90 número de veces	28,21	34,45	24,46	36,16	27,08	35,06	Ns

Tabla III. Grados IAH en SD

Edad	No registrado	1-5	5-10	>10
<=6 años	6	17	5	0
>6 años	1	20	17	14
	7	37(50%)	22(30%)	14(19%)

IAH <=6 años vs >6 años (p<0,05)

Tabla IV. Arquitectura de sueño, peso, talla, sexo, edad de SD con IAH<=5 vs >5

	IAH < 5		IAH > 5		
	Media n=37	Desv tip	Media n=36	Desv tip	
Edad	8,32	7,35	12,78	6,63	p<0,01
Sexo femenino	19		13		ns
Sexo masculino	18		23		ns
Peso	33,26	20,33	42,03	19,51	ns
Talla	123,16	27,29	135,42	24,95	ns
IMC	19,51	4,54	21,32	4,56	ns
Indice de eficacia de sueño	84,08	13,80	84,71	12,55	ns
Latencia al sueño	25,42	31,70	24,17	21,76	ns
Porcentaje estadio 1 de sueño	31,5	19,36	30,83	10,21	ns
Porcentaje estadio 2 de sueño	25,81	16,39	24,93	12,10	ns
Porcentaje estadio 3 de sueño	11,78	7,62	11,95	6,12	ns
Porcentaje estadio 4 de sueño	7,65	10,26	5,58	6,88	ns
Porcentaje estadio 3 y 4 de sueño	19,43	11,46	17,53	6,51	ns
Porcentaje de REM	18,19	7,62	14,91	6,23	p<0,05
Latencia a REM	115,17	65,10	129,28	79,95	ns
Índice aurosal respiratorio	0,75	0,85	2,95	3,40	p<0,001
SatO2 basal	95,7	1,85	95,61	1,52	ns
Sat O2 mínima	86,05	4,21	82,83	5,21	p<0,001
Sat O2 < 90 número de veces	11,81	13,93	37,58	40,22	p<0,001

Tabla V. Arquitectura sueño, peso, edad, IAH, Sat O2 media y mínima por sexos en pacientes SD

	Masculino		Femenino		
	Media n=45	Desv tip	Media n=35	Desv tip	
Edad	9,13	7,85	10,69	6,84	ns
Peso	35,80	22,02	35,74	18,20	ns
Talla	126,62	29,50	125,86	25,91	ns
Indice de eficacia de sueño	82,73	14,96	85,90	9,76	ns
Latencia al sueño	24,88	21,84	28,98	38,24	ns
Porcentaje estadio 1 de sueño	30,59	10,66	31,51	19,16	ns
Porcentaje estadio 2 de sueño	23,48	12,14	26,98	15,70	ns
Porcentaje estadio 3 de sueño	10,13	5,29	13,31	8,16	p<0,04
Porcentaje estadio 4 de sueño	6,27	8,63	6,87	8,45	ns
Porcentaje estadio 3 y 4 de sueño	16,40	7,26	20,18	10,85	ns
Porcentaje de REM	16,36	8,11	16,98	5,61	ns
Latencia a REM	125,06	78,54	109,77	64,28	ns
Índice aurosal respiratorio	2,34	3,20	1,11	1,30	p<0,04
IAH	9,03	10	5,70	5,09	ns
SatO2 basal	95,22	1,73	96	1,48	p<0,04
Sat O2 mínima	83,96	4,45	84,83	5,67	ns
Sat O2 < 90 número de veces	31,49	39,94	21,40	27,97	ns

Bibliografía

1. Glasson EJ, Sullivan SG, Hussain R, et al. The changing survival profile of people with Down´s syndrome: implications for genetic comselling. Clin Genet 2002; 63:390.
2. Borrel Martínez JM, Ortega Bernardo MC, Tomás Aguirre F, et al. Actualizando la práctica asistencial El síndrome de Down. FMC 2025;32:225-234.
3. Rosen G.M. Mechanisms and predisposing factors for sleep relate breathing disorders in children. Upto Date 2011.
4. Stebbens UA, Dennis J, Samuels MP. Sleep related upper airway obstruction in a cohort in Down´s syndrome. Arch Dis Child 1991; 66:1333-8.
5. Marcus CL, Carol JL. Obstructive sleep apnea syndrome. In: Loughlin GM, Eigen H, editors. Respiratory disease in children. Diagnosis and management. Boltimore: Williams and Wilkins; 1994.p475-99.
6. Dyken ME, Lin-Dyken Dc, Poutton S, Zimmerman MB, Sec Prospective Polysomnographic analysis of obstructive sleep apnea in Down Syndrome. Arch Pediac.Adolec. Med. Vol 157 july 2003. 655-660.
7. Sandi C. Lin, MBBS, Margot J. Davey, MBBS, FRACP, Rosemary S. Horne, PhD, and Gillian M. Nixon, MBChB, MD, FRACP. Screeing for Obstructive Sleep Apnea in Children with Down Syndrome. The Journal of Pediatrics 2014; 165:117-22.
8. Shott SR. Amin R. Clini B et al. Obstructive sleep apnea. Should all children with Down Syndrome be tested? Arch. Otolarygol Head Neck Surgery. 2006; 132:432-436.
9. Rosen D, Lombardo A, Skotko B, Davidson EJ. Parenteral perceptions of sleep disturbance and sleep-disordered breathing in children with Down syndrome. Clin pediatr (Phila) 2011; 50:121-5.
10. De Miguel-Diaz J, Villa-Asensi JR, Alvares-Sala JL. Prevalence of sleep-disordered breathing in children with Down syndrome: Polygraphic findings in 108 children. Sleep.2003;26:1006.
11. Friedman M, Ibvahim H, Joseph NJ. Staging of obstructive sleep apnea/hipopnea syndrome a guide to appropriate treatment. Laringoscope. Mar 2004; 114 (3); 454-9
12. Chervin R, Hedger K, Dillon J. Pediatric sleep questionnaire (PSQ): validity and reliability of scales for sleep-disordered breathing, snoring, sleepiness, and behavioral problems. Sleep Medicine 2000;1:21-32
13. Rechtschaffen A, Kales A. *A Manual of Standardized Terminology, Techniques and Scoring System for Sleep Stages of Human Subjects*. Los Angeles: Brain Information Service, Brain Research institute, UCLA; 1968.
14. Iber C, Ancoli-Israel S, Chesson A, et al. The AASM Manual for the Scoring of Sleep and Associated Events: Rules, Terminology and technical specifications, 1est ed. Westchester, IL: American Academy of Sleep Medicine; 2007.
15. American Thoracic Society. Cardiorespiratory Sleep Studies in children. Establishment of normative data and polysonographic predictors of morbidity. Am J Respir Crit Care Med. 1999;160:1381-7.
16. The AASM manual for the scoring of sleep and associated events. Rules terminology and technical specification. AASM manual for scoring sleep, 2007.
17. Mindell JA, Owens J. A Clinical Guide to Pediatric Sleep: diagnosis and management of sleep problems. Philadelphia: Lippincott Williams & Wilkins 2003;106-22.
18. Maris M, Verhulst S, Wojciechowski M. Sleep problems and obstructive sleep apnea in children with Down syndrome, an overview. Int J of Otolarygol. 82(2016)12-15.
19. Maris M, Verhulst S, Wojciechowski M. Prevalence of Obstructive Sleep Apnea in children with Down Syndrome. Sleep 2016;39(3:699-704).
20. Nehme J, LaBerge R, Pothos M. Predicting the presence of sleep-disordered breathing in children with Down syndrome. Sleep Medicine 36 (2017) 104-108.
21. Churchill SS, Kieckhefer GM, Landis CA, and Ward TM. Sleep measurement and monitoring in children with Down syndrome: A review of the literature, 1960-2010. Sleep med Rev 2012;16(5):477-488.
22. Manju S. Hurvitz, Daniel J.Lesser, Gretchen Denver et al. Findings of routine nocturnal polysomnography in children with Down syndrome: a retrospective cohort study. Sleep Medicine 2020;76:58-64.
23. Da Rocha M, Ferraz RCM, Guo Chen V. Clinical variables determining the sucess of adenotonsilectomy in children with Down syndrome. International Journal of Pediatric Otorhinolaryngology 2017;102:148-153.
24. Farhood Z, Isley JW, Ong AA. Adenotonsillectomy outcomes in patients with Down Syndrome and obstructive sleep apnea. Laryngoscope 2017;127:1465-1470.
25. Maris M, Verhulst S, Wojciechowski M. Outcome of adenotonsillectomy in children with Down syndrome and obstructive sleep apnea. Arch Dis Child. (published online August 2, 2016)
26. Jayaratne YSN, Elsharkawi I, Macklin EA. The facial morphology in Down syndrome: A 3D comparison of patients with and without obstructive sleep apnea. American Journal of Medical Genetics Part A 2017;173, Issue 11.
27. Kathryn K Ostermaier, MD, FAAP. Clinical features and diagnosis of Down syndrome. 2011 UpToDate.

28. Hoffmire A, Magyar CI, Connolly HV, et al. “High prevalence of sleep disorders and associated comorbilities in a community sample of children with Down Syndrome” J. Clin Sleep Med. 2014,10 (4): 411:419.
29. Sawatari H, Chishaki A, Nishizaka M. A nationwide cross-sectional study on congenital heart diseases and symptoms of sleep-disordered breathing among Japanese Down´s syndrome people. Intern Med. 2015;54(9).
30. Stores RJ, Stores G. The significance of aspects of screening for obstructive sleep apnea in children with Down syndrome. Journal of Intellectual Disability Research. 2013.
31. Austeng ME, Overland B, Kv earner KJ. Obstructive Sleep apnea in younger school children with Down Syndrome. Int J Pediatr Otorhinolaryngol. 2014;78(7):1026-9.
32. Fitzgerald DA, Paul A, Richmon C. Severity of obstructive apnea in children with Down syndrome who snore. Arch Dis Child 2007;92:423-425.
33. Gislason T, Benediktsdottir B. Snoring, apneic episodes, and nocturnal hypoxemia among children 6 months to 6 years old. Chest. 1995; 107:963-966.
34. Hill CM, Evans HJ, Elphick H. Prevalence and predictors of obstructive sleep apnea in young children with Down syndrome. Sleep Med. 2016;27-28:99-106.
35. Levanon A, Tarasiuk A, Tal A. Sleep characteristic in children with Down syndrome. The Journal of Pediatrics 1999;134:755-760
36. Marcus CL, Omlin KJ, Basinki DJ. Normal polysomnographic values for children and adolescents. Am Rev Respir Dis 1992;146:1235-9.

Nota de los autores

El presente trabajo no ha sido publicado con anterioridad y se presentó en formato oral en el 47 congreso Nacional de SEMERGEN (Sociedad Española de Médicos de Atención Primaria) celebrado en octubre de 2025