



**UNIVERSIDAD NACIONAL AUTÓNOMA DE MÉXICO
FACULTAD DE MEDICINA
DIVISIÓN DE ESTUDIOS DE POSGRADO**

HOSPITAL INFANTIL DE MÉXICO FEDERICO GÓMEZ

TESIS

**EVALUACIÓN DEL DESARROLLO INFANTIL EN
PACIENTES CON CRANEOSINOSTOSIS NO
SINDROMÁTICA ANTES Y DESPUÉS DEL
TRATAMIENTO QUIRÚRGICO A 6 MESES.**

**PARA OBTENER EL TÍTULO DE ESPECIALISTA EN:
PEDIATRÍA**

**PRESENTA
DRA. MARIANA ALFARO HURTADO**

**DIRECTOR DE TESIS:
DR. ANTONIO RIZZOLI CÓRDOBA**



CIUDAD DE MÉXICO, FEBRERO DEL 2019



Universidad Nacional
Autónoma de México



UNAM – Dirección General de Bibliotecas
Tesis Digitales
Restricciones de uso

DERECHOS RESERVADOS ©
PROHIBIDA SU REPRODUCCIÓN TOTAL O PARCIAL

Todo el material contenido en esta tesis esta protegido por la Ley Federal del Derecho de Autor (LFDA) de los Estados Unidos Mexicanos (México).

El uso de imágenes, fragmentos de videos, y demás material que sea objeto de protección de los derechos de autor, será exclusivamente para fines educativos e informativos y deberá citar la fuente donde la obtuvo mencionando el autor o autores. Cualquier uso distinto como el lucro, reproducción, edición o modificación, será perseguido y sancionado por el respectivo titular de los Derechos de Autor.


HOJA DE FIRMAS

DRA. REBECA GÓMEZ CHICO VELASCO
DIRECTORA DE ENSEÑANZA Y DESARROLLO ACADÉMICO


TUTORES:



DR. ANTONIO RIZZOLI CÓRDOBA
JEFE DE LA UNIDAD DE INVESTIGACIÓN EN NEURODESARROLLO



DRA. MARIA GUADALUPE JEAN TRON
MEDICO ADSCRITO A LA UNIDAD DE INVESTIGACIÓN EN
NEURODESARROLLO



VoBo DR. FERNANDO CHICO PONCE DE LEÓN
JEFE DEL DEPARTAMENTO DE NEUROCIRUGÍA

DEDICATORIA

A mi familia, por ser el pilar fundamental en todo lo que soy y por su incondicional apoyo a lo largo de mi trayectoria académica.

Todo este trabajo ha sido gracias a ellos.

1.	INDICE	
2.	RESUMEN	5
3.	INTRODUCCIÓN	6
4.	ANTECEDENTES.....	6
5.	MARCO TEÓRICO	7
5.1	DESARROLLO INFANTIL	7
5.2	CRANEOSINOSTOSIS.	9
5.2.1	GENERALIDADES.....	9
5.2.2	DEFINICIÓN DE CRANEOSINOSTOSIS.....	11
5.2.3	TIPOS DE CRANEOSTENOSIS NO SINDROMÁTICA	11
5.2.4	EPIDEMIOLOGÍA	12
5.2.5	ETIOLOGÍA	12
5.2.6	NEURODESARROLLO EN NIÑOS CON CRANEOSINOSTOSIS.....	13
5.2.7	TRATAMIENTO QUIRÚRGICO	14
6.	PLANTEAMIENTO DEL PROBLEMA	15
7.	PREGUNTA DE INVESTIGACIÓN	16
8.	JUSTIFICACIÓN	16
9.	OBJETIVO GENERAL.....	16
10.	OBJETIVOS ESPECÍFICOS	16
11.	HIPÓTESIS GENERAL	17
12.	MATERIAL Y MÉTODOS.....	17
12.1	DISEÑO	17
12.2	TIPO DE MUESTRA	17
12.3	TAMAÑO DE LA MUESTRA	17
12.4	DESCRIPCIÓN GENERAL DEL ESTUDIO.....	18
12.5	CRITERIOS DE INCLUSIÓN.....	18
12.6	CRITERIOS DE EXCLUSIÓN	18
12.7	CRITERIOS DE ELIMINACIÓN	19
12.8	POBLACIÓN DE ESTUDIO	19
13.	DESCRIPCIÓN DE VARIABLES.....	19
14.	ANÁLISIS ESTADÍSTICO	22
15.	ASPECTOS ÉTICOS.....	22
16.	RESULTADOS	23
17.	DISCUSIÓN	27
19.	LIMITACIONES DEL ESTUDIO	29
20.	CRONOGRAMA DE ACTIVIDADES	30
21.	BIBLIOGRAFÍA:	32

22.	ANEXOS	37
23.	TABLAS	41

2. RESUMEN

La craneosinostosis no sindromática unisutural es una patología frecuente en la población infantil, la cual está relacionada con alteraciones en el neurodesarrollo, principalmente en los dominios cognitivo, motor y de comunicación. Al momento no se cuentan con estudios que aborden el neurodesarrollo en pacientes con craneosinostosis no sindromática en la población mexicana.

El objetivo principal del estudio es valorar el desarrollo infantil en pacientes menores de 7 años con craneosinostosis no sindromática que acuden al Hospital Infantil de México Federico Gómez dentro del periodo comprendido de marzo 2016 a diciembre del 2017, realizando inicialmente una evaluación prequirúrgica y reevaluando a los 6 meses de la cirugía de remodelación craneal. La valoración del desarrollo se llevará a cabo mediante el resultado del Cociente Total del Desarrollo (CTD) del Inventario de Desarrollo Batelle 2ª Edición. Posteriormente como objetivo secundario, se evaluarán por dominios para identificar las áreas más afectadas en esta población.

Resultados: El CTD inicial y final no tuvo un cambio estadísticamente significativo, con mediana inicial de 92 y final de 93 (p 0.214). En cuanto a los dominios, en la valoración inicial, el dominio más afectado fue la comunicación y se observó una tendencia a mejoría del cociente de desarrollo de éste dominio, siendo la mediana prequirúrgica 81 y la postquirúrgica 90, siendo ésta la única variable en donde se observó un cambio de al menos 9 puntos respecto a la determinación inicial (p 0.058). No se observaron cambios en los otros dominios.

Conclusiones: No se observó cambio significativo en el CTD ya que tanto la evaluación

inicial como la posterior se mostraban en rango promedio para la población. Solo se observó una tendencia a la mejoría en el dominio de comunicación, ya que era el más afectado en la valoración prequirúrgica, con recuperación posterior, pero sin alcanzar significancia estadística, lo que podría mejorar si se incrementa el número de muestra. El estudio está limitado por una muestra pequeña, así como un grupo etario amplio, lo que dificulta comparar el cociente de desarrollo por subdominio entre nuestra población.

3. INTRODUCCIÓN

Se trata de un estudio de cohorte prospectivo en niños menores de 7 años con diagnóstico de Craneosinostosis No Sindromática Unisutural que evalúa el desarrollo infantil. Se aplicará el Inventario de Desarrollo Batelle 2ª Edición y la Evaluación del Desarrollo Infantil. Se realizará una valoración inicial y posteriormente a los 6 meses de la intervención quirúrgica (Cirugía de Remodelación Craneal). El objetivo es realizar una comparación entre el desarrollo global prequirúrgico y postquirúrgico a los 6 meses mediante el Cociente Total del Desarrollo y observar que áreas del desarrollo se encuentran más frecuentemente con retraso. Ya que anecdóticamente se conoce que el área cognitiva, motora y del lenguaje son las principales afectadas en niños con craneosinostosis no sindromática, tanto en la primera infancia como en la edad escolar.

4. ANTECEDENTES

El concepto de que la fusión de las suturas craneales altera el desarrollo normal, incluida la inteligencia global, el lenguaje y la función motora se ha discutido durante muchos años¹⁻⁵.

Los resultados de estudios más antiguos y con metodología menos rigurosa sugieren que el nivel de desarrollo prequirúrgico de los lactantes con craneosinostosis no difiere de los promedios poblacionales o sus pares^{1,2}. Sin embargo, la mayoría de los estudios han

reportado un riesgo de retraso del desarrollo tanto en el dominio cognitivo, motor y de comunicación⁶⁻¹⁰.

Además de observarse un mayor compromiso de los problemas del lenguaje y la cognición en la edad escolar, comparada con evaluaciones iniciales¹⁻¹⁴.

La evidencia acerca de la correlación entre la edad de la cirugía y el nivel de desarrollo posquirúrgico durante la última infancia no es claro, ya que hay estudios con una mejora global del desarrollo con intervenciones a edades de 6 a 12 meses¹⁵ y otros sin una relación precisa.

5. MARCO TEÓRICO

5.1 DESARROLLO INFANTIL

Según la definición de Myers et al. El desarrollo infantil temprano se define como un proceso de cambio en que el que el niño aprende a dominar niveles siempre más complejos de movimiento, pensamiento, sentimientos y relaciones con los demás. El cual se produce de la interacción del niño con estímulos del ambiente físico y social¹⁶.

Los primeros años de vida de un niño son los más críticos de su desarrollo como ser humano. La detección oportuna en los problemas en el desarrollo es de importancia vital, ya que brinda a los profesionales y a los padres un conocimiento más completo acerca de las habilidades y limitaciones del niño, para así posteriormente realizar las intervenciones que resulten más beneficiosas para cada niño en particular.

Con el paso de los años y con el advenimiento de terapias dirigidas para múltiples enfermedades que afectan el Sistema Nervioso Central, se ha podido observar su relación con el desarrollo, ya sea directamente a causa de la enfermedad, o bien secundariamente al tratamiento. Éstas manifestaciones pueden ser debidas a daño estructural o a un daño indirecto.

Dentro de los principales instrumentos para la evaluación del desarrollo infantil en México se encuentran:

- a) La prueba Evaluación del Desarrollo Infantil (EDI), la cual es una herramienta de tamiz, diseñada y validada en México, que se encarga de valorar niños desde un mes de vida hasta 59 meses de edad, para detección oportuna de problemas en el desarrollo y que puede ser realizada en los tres niveles de atención médica por cualquier trabajador de la salud. La versión modificada consta de 26 a 35 ítems, dependiendo del grupo etario, respondidos por los cuidadores primarios o que se califican mediante observación directa de conductas en cinco ejes: 1) factores de riesgo biológico; 2) señales de alerta; 3) áreas del desarrollo (motor fino, motor grueso, lenguaje, social y conocimiento); 4) señales de alarma; y 5) exploración neurológica. Da un resultado basado en un semáforo: verde o desarrollo normal, amarillo o rezago en el desarrollo y rojo o riesgo de retraso ¹⁷.

- b) El Inventario de Desarrollo Battelle 2ª Edición (IDB-2) en español al contrario que la anterior, se trata de una prueba diagnóstica, la cual abarca un grupo etario entre los 0 meses hasta los 7 años 11 meses de edad, y se utiliza para evaluar y cuantificar el nivel de desarrollo Infantil en diferentes niveles. Según el IDB-2 un dominio es un área mayor del desarrollo. La prueba tiene 5 dominios: motor, comunicación, personal-social, adaptativo y cognitivo. Y a su vez, cada dominio está dividido en subdominios que se definirán como ramas del desarrollo. (Ver figura 1). El desarrollo global se obtiene mediante el cociente total de desarrollo (CTD); por dominio, mediante el cociente de desarrollo de cada dominio (CDD); o por subdominio, mediante el puntaje escalar de subdominio (PES) ¹⁸.
De acuerdo a los resultados por dominios (CDD) o Cociente Total de Desarrollo (CTD) se pueden clasificar los resultados en desarrollo acelerado (130-155), avanzado (120-129), promedio alto (110-119), promedio (90-109), promedio bajo (80-89), retraso leve del desarrollo (70-79) o retraso significativo del desarrollo (45-69).

5.2 CRANEOSINOSTOSIS.

5.2.1 GENERALIDADES

El cráneo del recién nacido está compuesto por placas óseas separadas por suturas. Esta distribución acomoda la distorsión transitoria del cráneo al momento del nacimiento y permite el crecimiento futuro al cerebro, sobre todo en los dos primeros años de vida.

Las suturas constituyen importantes sitios de crecimiento óseo y se consideran complejos, compuestos por los dos frentes óseos osteogénicos, el tejido mesenquimal-fibroso de la sutura, la duramadre subyacente y el pericráneo superpuesto.

Las suturas más importantes son: la metópica, coronal, sagital y la lamboidea.

- La sutura coronal separa los dos huesos frontales de los dos huesos parietales.
- La sutura metópica separa los dos huesos frontales entre sí.
- La sutura sagital separa los dos huesos parietales.
- La sutura lamboidea separa el hueso occipital de los dos parietales.

Las suturas sagital, coronal y metópica se unen en la parte anterior del cráneo y forman la fontanela anterior, mientras que la fontanela posterior se forma de la unión de la sutura sagital con las suturas lamboideas. (Ver figura 2).

El cierre de las fontanelas o de las suturas ocurre en un patrón establecido. Aproximadamente a los 2 meses de edad, la fontanela posterior se cierra, el cierre de la fontanela anterior ocurre entre los 6 a los 18 meses de vida.

El neurocráneo tiene su origen embrionario en poblaciones celulares mesodérmicas, siendo inicialmente una membrana alrededor del tubo neural. El neurocráneo se divide en bóveda craneal o calota (frontal, parietal, escama del temporal y escama del occipital) y la base del cráneo.

Los huesos de la bóveda craneal se forman a partir de una condensación de mesénquima llamada "centro primario de osificación", por proliferación y diferenciación de células mesenquimales multipotenciales. La proliferación celular y la subsecuente diferenciación en osteoblastos ocurren en los márgenes produciendo un crecimiento óseo radial hasta que los frentes osteogénicos de dos huesos se aproximan y se forman las suturas. El

mantenimiento del crecimiento en el frente óseo, en el borde de las suturas, requiere un balance fino entre proliferación y diferenciación ¹⁹.

Dos procesos de osificación tienen lugar durante el desarrollo craneal, la osificación intramembranosa y endocondral. La distinta diferencia entre estos dos procesos es que en la segunda surge un intermedio cartilaginosa, mientras que en la osificación intramembranosa, las células mesenquimales condensadas se diferencian directamente en osteoblastos y forman tejido óseo sin ningún precursor cartilaginosa ²⁰.

La osificación del cráneo se realiza principalmente a través de la osificación intramembranosa y es un procedimiento organizado por el mesénquima de sutura y la duramadre. Sin embargo, aunque los huesos del cráneo se osifican mediante la osificación intramembranosa, la fusión de sutura puede someterse a ambos tipos de mineralización. La osificación también puede realizarse bajo estímulos mecánicos, cuando las células que se encuentran sobre las fuentes osteogénicas se convierten en hueso a través de la osificación intramembranosa ¹⁹.

El encéfalo del niño se desarrolla a un gran ritmo en los primeros meses de vida. El volumen cerebral se duplica en los primeros seis meses de vida, duplicándose nuevamente cuando alcanza el año de vida. A la edad de dos años y medio se habrá producido el 80-85 % del total del crecimiento cerebral. El cráneo crece y se remodela supeditado a este rápido crecimiento. Se requiere una mínima presión (aproximadamente de 5 mmHg) del encéfalo en desarrollo para estimular la formación de nuevo hueso en los márgenes. El crecimiento más significativo del cráneo ocurre a expensas de la sutura sagital y las suturas coronales ^{20,21}.

Finalmente, las suturas se fusionan, normalmente de atrás hacia delante y desde el lateral hacia la zona medial, a excepción de la sutura metópica que lo hace en dirección opuesta, desde la glabella a la fontanela anterior. La sutura metópica es la primera en fusionarse, haciéndolo alrededor de los diez meses. Las suturas coronal, lambdoidea y sagital permanecen permeables hasta la cuarta década de la vida, siendo la sutura sagital la última en fusionarse.

5.2.2 DEFINICIÓN DE CRANEOSINOSTOSIS

Se define como craneosinostosis a la fusión prematura de una o más de las suturas del cráneo. Este cierre precoz inhibe el crecimiento del cráneo en el eje perpendicular a la sutura afectada, produciéndose un crecimiento aumentado en la dirección de la sutura cerrada por crecimiento compensatorio del resto de suturas que permanecen abiertas. Debido a que el cerebro tiene un rápido crecimiento durante los primeros años de vida, los signos de cierre prematuro de las suturas resultan evidentes a medida que el aspecto del cráneo se desvía de la normalidad ²².

En general, la craneosinostosis que afecta únicamente a una sutura se presenta esporádicamente, mientras que la craneosinostosis que afecta a múltiples suturas es frecuentemente parte de algún síndrome genético con malformaciones adicionales ²³.

La craneosinostosis puede ser primaria o secundaria a enfermedad metabólica, hematológica, displasia ósea, prematuridad, compresión externa del cráneo, fallo del crecimiento cerebral o disminución de la presión intracraneal. El diagnóstico temprano es esencial para el manejo, prevención de complicaciones y corrección quirúrgica temprana ²⁴.

5.2.3 TIPOS DE CRANEOSTENOSIS NO SINDROMÁTICA

- Escafocefalia: El cierre prematuro de la sutura sagital. Produce un cráneo largo y estrecho denominado dolicocefalo.
- Plagiocefalia coronal: Estenosis de la sutura coronal, sea izquierda o derecha.
- Trigonocefalia: Cierre y esclerosis de la sutura metópica. En el plano axial, se observa el característico aspecto de frente en prisma triangular, con el vértice hacia delante.
- Braquicefalia o craneostenosis coronal bilateral En esta malformación se encuentran estenosadas las dos suturas coronales.
- Plagiocefalia lambdaidea o posterior: Es el cierre y esclerosis de una o las dos suturas lambda. No es una craneostenosis común.
- Oxicefalia: Es un cierre armonioso de todas las suturas de la bóveda craneana, con un cráneo pequeño y redondo, sin especial deformación, que frecuentemente presenta hipertensión intracraneana

- Plagiocefalia funcional o cráneo-oblicuo-ovalar: En este tipo no hay cierre patológico de ninguna sutura. La deformación de todo el cráneo, incluso de la base, es armónica y equilibrada. Los ángulos de la base no se alteran como sucede en la plagiocefalia por cierre y esclerosis de la sutura coronal.

5.2.4 EPIDEMIOLOGÍA

La incidencia general es de aproximadamente 1 de cada 2000 a 2500 nacidos vivos, dependiendo de la serie implicada ^{1,2}. Los datos epidemiológicos han correlacionado la craneosinostosis con embarazos múltiples, prematuridad, alto peso al nacer y elevada edad paterna y materna.

Las frecuencias de los diferentes tipos de craneosinostosis varían, pero en general la escafocefalia es la sinostosis más común (40-55%), seguida de la plagiocefalia coronal (20-25%), trigonocefalia (5-15%), y plagiocefalia lambdoidea (5%) ¹.

La escafocefalia es la craneoestenosis más frecuente para la mayoría de las series (entre 40 y 60%). En el Hospital Infantil de México Federico Gómez la craneoestenosis no sindrómica más frecuente es la plagiocefalia coronal (47%), posteriormente la escafocefalia con 30% y la trigonocefalia con 12%, seguido posteriormente por las craneosinostosis sindrómicas ²⁴.

5.2.5 ETIOLOGÍA

A pesar de la etiología genética de varias formas de craneosinostosis, existen varios factores epidemiológicos, extrínsecos o intrínsecos, que conducen a la fusión prematura de la sutura. El efecto mecánico transmitido por el cerebro en crecimiento para mantener la permeabilidad de la sutura, las anomalías cromosómicas de los genes relacionados con la osteogénesis, así como las fuerzas extrínsecas aplicadas al cráneo, pueden contribuir a la manifestación de la craneosinostosis ¹⁹.

La situación de la sutura y su contacto con la duramadre específica de la zona participan en el mecanismo de cierre anormal y osificación de las suturas. Este hallazgo se ha relacionado con una sobreexpresión de TGF- β 1, β FGF-mRNA, IGF-I y RNAm a nivel de las suturas ²⁴.

5.2.6 NEURODESARROLLO EN NIÑOS CON CRANEOSINOSTOSIS

Los niños con craneosinostosis corren mayor riesgo de problemas relacionados con el desarrollo cognitivo, del lenguaje, dificultades de aprendizaje y retraso académico. De los factores que han sido citados con mayor frecuencia como los vínculos causales entre la Craneosinostosis No Sindromática y el deterioro de la función cognitiva se encuentran la presión intracraneal elevada con hipovascularidad y la distorsión cerebral secundaria al crecimiento cerebral en un cráneo anormalmente formado ^{20,31}.

Korpilahti et. al publicaron un estudio multicéntrico de niños con craneosinostosis no sindromática en los Estados Unidos en niños de 36 meses donde se observó que obtuvieron una puntuación media de 0,25 a 0,50 DE menos en las pruebas estandarizadas que un grupo de control demográficamente emparejado ¹⁰.

Speltz et al. Realizó un estudio multicéntrico con 182 pacientes en edad escolar con craneosinostosis unisutural no sindromática y un grupo control de 183 escolares a los cuales se les realizaron pruebas de inteligencia y lectura. Se observó que el grupo de pacientes obtuvo una calificación más baja en todas las medidas que el grupo control, exhibiendo las diferencias más significativas sobre el Cociente Intelectual y el rendimiento en matemáticas (\sim 0.33 DE)¹⁴.

Así mismo, Starr et al. Realizaron un estudio longitudinal multicéntrico con seguimiento a 36 meses, aplicando la Escala de Bayley de Desarrollo Infantil y la Escala de Lenguaje Preescolar. Observaron una diferencia de 3 a 6 puntos en las escalas usadas respecto a los controles, incrementándose los casos de retraso en el desarrollo de 1.5 a 2.0 ³¹.

En cuanto a trastornos del lenguaje, pocos estudios han examinado directamente la

adquisición temprana del lenguaje y el desarrollo del habla. Naran y colaboradores realizaron una evaluación a pacientes con craneosinostosis unisutural no sindromática ya corregida quirúrgicamente a los cuales se les hizo una revisión fonológica y aplicación de Escala de Lenguaje de Pittsburgh. Sus resultados incluyeron que el 56.4% tenía una o más anormalidades del lenguaje. Conjuntamente, al 29.7 % de los pacientes se les recomendó terapia del lenguaje ³².

Acerca de las diferencias en el desarrollo infantil en este grupo de pacientes por sexo, Cradock et al. Realizaron un estudio multicéntrico con controles emparejados demográficamente a una edad promedio de 7,4 años. Se identificaron mejores resultados en todas las escalas en el sexo femenino. Entre los casos, las diferencias de sexo fueron mayores en IQ y en tres áreas relacionadas con las habilidades verbales: comprensión de oraciones, eficacia de lectura a primera vista y deletreo. Por otra parte, entre los casos, los hombres tenían más probabilidades que las mujeres de tener problemas de aprendizaje, con el nivel más alto observado entre los hombres con plagiocefalia unicoronal (86%) ³³.

Un punto poco estudiado es la percepción del desarrollo de los cuidadores primarios. Alperovich et al. Realizaron una encuesta anónima a 22 padres de niños que se sometieron a la cirugía de remodelación de bóveda craneal a edad media de 9 meses por diagnóstico de craneosinostosis no sindromática del 2011 al 2015. Al responder si se observaba mejoría de las habilidades motoras, lenguaje o comportamiento, la respuesta predominante fue "No" (74%, 83% y 67%, respectivamente). En general todos los padres harían que su hijo se sometiera nuevamente a cirugía o recomendarían la cirugía a otra familia. Lo anterior muestra que los padres calificaron el desarrollo de su hijo como apropiado para la edad después de la remodelación de la bóveda craneal ³⁴.

5.2.7 TRATAMIENTO QUIRÚRGICO

El tratamiento quirúrgico en la craneosinostosis depende del tipo de la misma y de la edad del paciente. Sin embargo, la mayoría de las series recomiendan que los niños con craneosinostosis no sindromática deben ser intervenidos entre los 6 y 12 meses ¹⁵.

En diversos estudios, se propone que la cirugía correctiva de estos pacientes a edades tempranas disminuye el riesgo de presentar problemas en el neurodesarrollo en un futuro⁴.

Anup Patel et al. Realizaron una medición del funcionamiento cognitivo y aprendizaje en 70 pacientes en edad escolar y adolescentes con escafocefalia que había sido corregida anteriormente. Se dividieron en 3 grupos de pacientes: tratamiento antes de los 6 meses, entre los 6 y 12 meses y posterior a los 12 meses. Donde se observó que los pacientes intervenidos antes de los 6 meses de edad presentaban habilidades superiores de lectura, ortografía y operaciones numéricas las cuales resultaron estadísticamente significativas. Sin embargo, mencionan que hay una variedad de factores que deben considerarse individualmente al determinar el momento óptimo para la corrección de la craneosinostosis¹⁵.

6. PLANTEAMIENTO DEL PROBLEMA

La craneosinostosis es una patología frecuentemente diagnosticada, afectando a 1 de cada 2000 a 2500 de todos los nacimientos a nivel mundial^{1,2}, se caracteriza por cierre prematuro de cualquiera de las suturas del cráneo con la consiguiente dismorfia craneofacial de acuerdo a la sutura afectada y puede tener consecuencias para el cerebro en desarrollo y riesgo de incremento en la presión intracraneal²⁷.

Los niños con craneosinostosis no sindrómica de sutura única se consideran con un riesgo aproximado de tres a cinco veces para un neurodesarrollo inadecuado durante los primeros años de vida⁶. Aproximadamente el 35 al 40% de los pacientes presentan alguna discapacidad motora, un trastorno del lenguaje o una anomalía cognitiva^{6,28}.

Se ha propuesto que la cirugía correctiva de los niños con craneosinostosis no sindrómica atenúa el riesgo de problemas de neurodesarrollo debido a la expansión de la bóveda craneal y la reducción de la posibilidad de elevación de la presión intracraneal o volumen cerebral disminuido¹⁵. Sin embargo, la correlación entre el evento quirúrgico y el desarrollo posterior no ha sido lineal, puesto que hay otras variables susceptibles de afectar el neurodesarrollo, incluyendo la dinámica familiar, asistencia escolar y los

factores relacionados con la gravedad de la condición ^{6,27}.

7. PREGUNTA DE INVESTIGACIÓN

¿Existe cambio significativo del nivel de desarrollo en los niños con craneosinostosis no sindromática posterior a 6 meses del tratamiento quirúrgico?

8. JUSTIFICACIÓN

La craneosinostosis no sindromática es una patología frecuente en niños y se ha demostrado su asociación con alteraciones cognitivas, trastornos motores y del lenguaje. Hasta el momento no se cuentan con estudios en población mexicana.

La evaluación del desarrollo infantil es un parámetro que permitiría conocer el resultado del tratamiento en niños sometidos a una cirugía correctiva en nuestra institución. Con la información obtenida podemos intervenir para mejorar el desarrollo a corto y mediano plazo en los pacientes valorados, dando recomendaciones durante el periodo tanto prequirúrgico como postquirúrgico. Además, se podrá comparar si los datos obtenidos se correlacionan con estudios internacionales previos, pues pocos de ellos incluyen a población de habla hispana.

9. OBJETIVO GENERAL

Comparar el Cociente Total de Desarrollo (CTD) niños menores de 7 años que acuden al Hospital Infantil de México Federico Gómez con diagnóstico de craneosinostosis no sindromática antes y después de 6 meses posterior al tratamiento quirúrgico.

10. OBJETIVOS ESPECÍFICOS

- Evaluar el cociente total del desarrollo en la evaluación inicial y posterior.
- Describir los dominios del desarrollo más afectados en la evaluación inicial.
- Comparar los diferentes cocientes de desarrollo de cada dominio (CDD) antes y después del tratamiento quirúrgico.
- Describir que otros factores relacionados con retraso en el desarrollo se

encuentran presentes en estos pacientes.

11. HIPÓTESIS GENERAL

Los niños con craneosinostosis no sindromática, presentarán mejoría del neurodesarrollo postquirúrgica respecto a la evaluación basal medido mediante la Evaluación del Desarrollo Infantil e Inventario de Desarrollo de Battelle 2da edición. Esperando un cambio significativo de al menos 10 puntos en el Cociente Total de Desarrollo.

12. MATERIAL Y MÉTODOS

12.1 DISEÑO

Es un estudio de cohorte observacional, longitudinal, prospectivo y analítico.

12.2 TIPO DE MUESTRA

Se enrolarán los pacientes del Hospital Infantil de México Federico Gómez provenientes de la consulta externa de Neurocirugía con diagnóstico de Craneosinostosis Unisutural No Sindromática en espera de intervención electiva y programada de cirugía de remodelación craneal.

12.3 TAMAÑO DE LA MUESTRA

Se estimó el tamaño de muestra necesario para un grupo, al usar la prueba de diferencia de medias. En base a la siguiente fórmula:

$$n = 2s^2(z\beta + z\alpha)^2 / d^2$$

Tomando en cuenta 10 puntos de Δ score del CDT (inicial vs final) del inventario de Desarrollo de Battelle 2da Edición, con $\alpha=0.05$ (bilateral), $\beta=0.20$, poder estadístico del 80%, $DE \pm 15$.

El tamaño de la muestra será de 25 sujetos por grupo, tomando en cuenta una pérdida del 20%, el tamaño de la muestra se incrementará a 27 sujetos por grupo.

Sin embargo, solo se logró recaudar en total los datos de 10 pacientes que cumplieran los criterios posteriormente descritos.

12.4 DESCRIPCIÓN GENERAL DEL ESTUDIO

A todos los pacientes con craneosinostosis no sindromática del Hospital Infantil de México Federico Gómez que se ingresen por parte del servicio de Neurocirugía para intervención electiva y programada de cirugía de remodelación craneal se les enviará previamente a la Unidad de Investigación en Neurodesarrollo.

En la unidad se les realizará historia clínica (antecedentes heredofamiliares, antecedentes personales no patológicos, antecedentes perinatales, antecedentes personales, historia del desarrollo del niño e historia de la conducta del niño) y exploración física completa. Se les realizará la prueba de Inventario de Desarrollo de Batelle 2ª Edición y la Evaluación del Desarrollo Infantil a los pacientes que se encuentren en el grupo etario correspondiente.

Posteriormente, se les realizará la intervención de la manera habitual, que en este caso corresponde a una Cirugía de Remodelación Craneal que se realizará por parte del equipo de Neurocirugía del Hospital Infantil de México Federico Gómez. Por último, se dará nueva cita posterior a 6 meses del evento quirúrgico en la Unidad de Investigación en Neurodesarrollo para revaloración.

12.5 CRITERIOS DE INCLUSIÓN

- Pacientes menores de 7 años de edad.
- Diagnóstico de Craneosinostosis Unisutural No Sindromática por Tomografía de Cráneo.

12.6 CRITERIOS DE EXCLUSIÓN

- Involucro de múltiples suturas.
- Tratamiento de cirugía de remodelación craneal previa.
- Pacientes con enfermedades crónicas (enfermedades pulmonares, neurológicas,

cardiopatías, endocrinopatías).

- Malformaciones menores o mayores asociadas.
- Antecedente de ser producto pretérmino (<37 SDG)

12.7 CRITERIOS DE ELIMINACIÓN

- No acudir a las citas programadas para evaluaciones subsecuentes en la Unidad de Investigación de Neurodesarrollo.

12.8 POBLACIÓN DE ESTUDIO

Pacientes menores de 7 años de edad en seguimiento en el Hospital Infantil de México Federico Gómez que tengan el diagnóstico de craneosinostosis no sindromática unisutural confirmada por tomografía de cráneo con plan de corrección quirúrgica por primera vez.

13. DESCRIPCIÓN DE VARIABLES

Variables Independientes

- Cirugía de Remodelación Craneal

- Definición conceptual: Tratamiento quirúrgico indicado en la craneosinostosis no sindromática aislada.
- Definición operativa: Tratamiento quirúrgico indicado en la craneosinostosis no sindromática aislada.
- Categoría: Cualitativa.
- Escala de Medición: Nominal dicotómica.
- Unidad de medición: si/no.

Variables dependientes o de resultado

- **Puntaje de cambio en el CTD de la prueba de IDB-2 respecto a su valor basal.**
- Definición conceptual: Cambio en el puntaje en los resultados del Cociente Total de

Desarrollo del IDB-2 respecto a su valor basal.

- Definición operativa: Cambio en el puntaje en los resultados del Cociente Total de Desarrollo del IDB-2 respecto a su valor basal.

- Categoría: Cuantitativa.

- Escala de medición: Continua.

- Unidad de medición: Numérica.

- Puntaje de cambio en el CDD de los diferentes dominios de la prueba de IDB-2 respecto a su valor basal.

- Definición conceptual: Cambio en el puntaje en los resultados del Cociente de Desarrollo de Cada Dominio (Adaptabilidad, Personal Social, Motor, Comunicación y Cognitivo) del IDB-2 respecto a su valor basal.

- Definición operativa: Cambio en el puntaje en los resultados del Cociente de Desarrollo de cada Dominio del IDB-2 respecto a su valor basal.

- Categoría: Cuantitativa.

- Escala de medición: Continua.

- Unidad de medición: Numérica.

Variables de confusión

- Género

- Definición conceptuales: características fenotípicas que diferencian al hombre de la mujer.

-Definición operacional: características fenotípicas que diferencian al hombre de la mujer.

- Categoría: Cualitativa.

- Escala de medición: nominal dicotómica.

- Unidad de medición: Masculino/ Femenino.

- Edad

- Definición conceptual: Tiempo en años que ha vivido una persona.

- Definición operacional: Edad al momento del inicio del estudio en años.

- Categoría: Cuantitativa.

- Escala de Medición: Continua.
- Unidad de medición: meses.

-Padres adolescentes

- Definición conceptual: La OMS lo define como madre o padre con edad menor a los 19 años al momento del nacimiento.
- Definición operacional: madre o padre con edad menor a los 19 años al momento del nacimiento.
- Categoría: Cuantitativa.
- Escala de Medición: Continua.
- Unidad de medición: años.

- Familia nuclear

- Definición conceptual: familia compuesta por ambos padres y con/sin hermanos.
- Definición operacional: familia compuesta por ambos padres y con/sin hermanos.
- Categoría: Cualitativa.
- Escala de Medición: Nominal dicotómica.
- Unidad de medición: si/no.

-Escolaridad de los padres

- Definición conceptual: Grado máximo de estudio de ambos padres.
 - Definición operacional: Grado máximo de estudio de ambos padres.
 - Categoría: Cualitativa.
 - Escala de Medición: Nominal polidicotómica.
- Unidad de Medición: Analfabeta/ Primaria / Secundaria / Bachillerato / Licenciatura/ Posgrado.

-Nivel Socioeconómico

Definición conceptual: medición del nivel de satisfacción de las necesidades de un hogar respecto a desarrollo intelectual, finanzas, comunicación y entretenimiento, comodidad, salud e higiene.

- Definición operacional: medición del nivel de satisfacción de las necesidades de un

hogar respecto a desarrollo intelectual, finanzas, comunicación y entretenimiento, comodidad, salud e higiene.

- Categoría: Cualitativa.

- Escala de Medición: Nominal polidicotómica.

- Unidad de Medición: Nivel alto/ Medio Alto/ Medio/ Medio Bajo/ Pobreza/ Pobreza Extrema.

Asistencia escolar

-Definición conceptual: personas de un determinado grupo de edad o sexo que asisten a algún establecimiento de enseñanza.

- Definición operacional: asistencia a guardería, preescolar o primaria.

- Categoría: Cualitativa.

- Escala de Medición: Nominal dicotómica.

- Unidad de medición: si/no.

14. ANÁLISIS ESTADÍSTICO

Se realizó un análisis descriptivo de la población para obtener medidas de tendencia central y dispersión (mediana y rango). Las variables cuantitativas se reportarán mediante porcentaje.

Para evaluar la diferencia entre las pruebas antes y después de la cirugía correctiva se realizó la Prueba de Wilcoxon no paramétrica para muestras relacionadas. Se utilizó el programa de análisis estadístico SPSS.

15. ASPECTOS ÉTICOS

La cirugía de remodelación craneal se llevará a cabo de manera habitual, programada y electiva para lo cual se hace firma de consentimiento informado previo a la intervención

quirúrgica por parte del servicio de Neurocirugía. Por lo anterior no se considera una maniobra del presente estudio.

Además, por parte de la Unidad de Investigación en Neurodesarrollo se realiza firma de consentimiento informado previo a la evaluación del desarrollo infantil donde se explica que las pruebas realizadas no representan un riesgo para la salud del menor y se puntualizan los objetivos de la valoración, como son evaluación, diagnóstico y seguimiento del paciente, actividad académica y uso de datos personales para fines de investigación salvaguardando la confidencialidad del paciente y familiares. (Ver Anexo 3). El presente estudio, de acuerdo a la Ley General de Salud, se considera de riesgo mínimo.

16. RESULTADOS

Se realizaron evaluaciones del desarrollo infantil basales y posterior a 6 meses de la intervención quirúrgica mediante el inventario de desarrollo de Batelle 2ª edición a 10 pacientes con edades comprendidas entre los 3 a 73 meses. El 50% fueron pacientes del sexo femenino y 50% de sexo masculino. En cuanto al tipo de craneosinostosis el 50% de los pacientes presentaban escafocefalia, el 30% trigonocefalia y el 20% plagiocefalia anterior.

Dentro de los factores de riesgo asociado a retraso en el desarrollo infantil se observó lo siguiente: en cuanto a la escolaridad máxima de los padres, se observó que el 40% presentaban escolaridad secundaria, el 40% escolaridad preparatoria y el 20% tenían licenciatura. El nivel socioeconómico dentro de la población fue bajo en el 10%, el 20% pertenecía al medio bajo, el 50% al estrato medio y el 20% al medio alto. Solo el 10% de los pacientes tuvo padres adolescentes al momento del nacimiento. Además, el 90% de la población presentaba familia nuclear. Y se observó que solo el 40% tenía asistencia escolar. (Ver tabla 1). Sin embargo, no existieron diferencias entre estas características y los distintos tipos de craneosinostosis evaluados. (Ver tabla 2).

En cuanto a las evaluaciones basales, el CTD se encontró en rango promedio para la población en el 60%, el 30% presentaron un desarrollo promedio bajo y el 10% un desarrollo acelerado. Se observó que el dominio más afectado en la evaluación inicial fue el de comunicación, ya que presentaba un CDD por debajo del promedio poblacional (<90) correspondiente a su grupo etario en 6 pacientes. De los mismos, el subdominio de la comunicación expresiva fue el más afectado con el 66% y el receptivo con 33%. Se realizó la prueba de Evaluación del Desarrollo Infantil a 8 pacientes, de las cuales 1 paciente presentó riesgo de retraso en el desarrollo (rojo) y 3 pacientes rezago en el desarrollo (amarillo). (Ver Gráfica 1 y 2).

En las valoraciones posteriores a la cirugía de remodelación craneal se observó que el CTD tuvo una escala de retraso leve del desarrollo en el 10%, 30% presentaron un desarrollo promedio bajo, el 20% tuvo promedio alto y el 20% desarrollo acelerado. Por otra parte 2 pacientes tuvieron una puntuación menor a la evaluación inicial (caída >10 puntos en CTD) que los clasificaba en un estrato del desarrollo menor que el inicial, teniendo en común ambos pacientes el factor de nula asistencia escolar. En cuanto al dominio de comunicación, se observó retraso significativo del desarrollo en el 30%, desarrollo promedio bajo en el 10%, desarrollo promedio en el 30%, promedio alto en el 20% y acelerado en el 10%. (Ver tabla 3).

A continuación, se resumirán los resultados de cada paciente:

El caso 1 correspondía a un paciente femenino de 3 meses de edad con diagnóstico de escafocefalia. No tenía asistencia a guardería, familia nuclear, la escolaridad máxima de los padres era licenciatura, estrato socioeconómico medio. En la valoración basal presentó una EDI con resultado verde, Batelle 2ª edición con desarrollo promedio, con dominio adaptativo en promedio bajo, y tras la evaluación posterior sin observarse cambios en el CTD ni en el CDD del dominio afectado.

El caso 2 correspondía a un paciente masculino de 15 meses de edad con diagnóstico de escafocefalia. No tenía asistencia a guardería, familia nuclear, la escolaridad máxima de los padres era secundaria, estrato socioeconómico bajo. En la valoración basal presentó una EDI con resultado verde, CTD con un desarrollo promedio, pero observándose el dominio de comunicación con desarrollo promedio bajo, afectándose predominantemente la comunicación receptiva. Posteriormente se observó mejoría general del desarrollo con

ganancia de 23 puntos en el CTD y 9 puntos en el dominio de comunicación, que reclasifican al paciente en desarrollo promedio alto y comunicación en rango promedio.

El caso 3 correspondía a un paciente femenino de 14 meses de edad con diagnóstico de escafocefalia. No tenía asistencia a guardería, familia nuclear, la escolaridad máxima de los padres era preparatoria, estrato socioeconómico medio bajo. En la valoración basal presentó una EDI con resultado amarillo debido a afectación de 3 áreas del desarrollo (motor grueso, lenguaje y social). En la prueba Batelle 2ª Edición presentó un desarrollo promedio, pero observándose el dominio de comunicación con desarrollo promedio bajo (con afección principal de la comunicación receptiva) y motor con desarrollo con retraso (con afección principal motor fina). Posteriormente presentó mejoría de ambos dominios ya ubicándose en desarrollo promedio (incremento de 37 puntos en dominio motor y 11 puntos en comunicación).

El caso 4 se trata de un paciente masculino de 13 meses de edad con diagnóstico de escafocefalia. No tenía asistencia a guardería, familia nuclear, la escolaridad máxima de los padres era preparatoria, estrato socioeconómico medio. En la valoración basal presentó EDI verde, con CTD en promedio bajo y comunicación con retraso leve del desarrollo, las cuales no se vieron con cambios en la evaluación posterior.

El caso 5 se trata de un paciente femenino de 10 meses de edad con diagnóstico de trigonocefalia. Tenía asistencia a guardería, familia nuclear, la escolaridad máxima de los padres era licenciatura, estrato socioeconómico medio alto. En la valoración basal presentó EDI amarillo por afección de 2 áreas de desarrollo (motor grueso y lenguaje). En la prueba Batelle 2ª edición se observó un desarrollo promedio con CTD de 109 y no presentaba afección de ningún dominio. En la evaluación ulterior se observó un aumento de 25 puntos del CTD, clasificándose en desarrollo acelerado.

El caso 6 se trata de un paciente masculino de 14 meses de edad con diagnóstico de trigonocefalia. No tenía asistencia a guardería, familia nuclear, la escolaridad máxima de los padres era preparatoria, estrato socioeconómico medio. En la valoración basal presentó EDI verde. En la prueba Batelle 2ª edición se observó un desarrollo promedio con afección del dominio de comunicación (promedio bajo) a expensas principalmente de

la comunicación receptiva. En la evaluación final se observó un descenso de 16 puntos del CTD que lo categorizan en promedio bajo.

El caso 7 se trata de un paciente masculino de 42 meses de edad con diagnóstico de escafocefalia. Tenía asistencia a guardería, familia nuclear, con padres adolescentes, la escolaridad máxima de los padres era preparatoria, estrato socioeconómico medio bajo. En la valoración inicial presentó EDI roja a expensas de la exploración neurológica. En la prueba Batelle 2ª edición se observó un desarrollo promedio bajo con afección del dominio de comunicación (retraso significativo), siendo más afectada la comunicación expresiva y también afectándose el dominio cognitivo (promedio bajo). En la evaluación subsecuente se observó sin mejoría del CTD y continuó con afección del dominio de comunicación con retraso significativo.

El caso 8 se trata de un paciente femenino de 66 meses de edad con diagnóstico de plagiocefalia. No tenía asistencia a guardería, actualmente en preescolar, con una familia nuclear, la escolaridad máxima de los padres era licenciatura, estrato socioeconómico medio alto. En la prueba Batelle 2ª edición inicial se observó un desarrollo acelerado con CTD 132. En la evaluación subsecuente se observó sin mejoría del CTD con ganancia de 4 puntos.

El caso 9 se trata de un paciente femenino de 73 meses de edad con diagnóstico de trigonocefalia. No tuvo asistencia a guardería, pero actualmente acude a preescolar, con familia nuclear, la escolaridad máxima de los padres era secundaria, estrato socioeconómico medio bajo. En la prueba Batelle 2ª edición inicial se observó un desarrollo promedio bajo, con afección en 3 dominios, motor (promedio bajo), adaptabilidad (retraso leve del desarrollo) y cognitivo (retraso significativo del desarrollo). En la evaluación final presentó mejoría de 14 puntos en el CTD, aún con afección en el dominio cognitivo (retraso leve) y adaptabilidad (promedio bajo).

El caso 10 se trata de un paciente masculino de 24 mese masculino con diagnóstico de escafocefalia. Sin asistencia a guardería, con una familia nuclear, la escolaridad máxima de los padres era secundaria, estrato socioeconómico medio. Se realizó EDI con resultado global amarillo por afección del lenguaje. En la prueba Batelle inicial se observó un desarrollo promedio, pero con afección del dominio de comunicación (retraso leve del

desarrollo) siendo más afectada la comunicación expresiva. En la evaluación subsecuente se observó una caída de 19 puntos del CTD, por afección en los múltiples dominios, con retraso significativo en el dominio de comunicación y cognitivo.

17. DISCUSIÓN

Las alteraciones en el desarrollo infantil en los niños con Craneosinostosis Unisutural No Sindromática han ido cobrando interés en los últimos años. No se conoce exactamente cómo es que se ve afectado el neurodesarrollo en su totalidad hasta el momento. Sin embargo, varios autores han intentado determinar que alteraciones son presentadas por los pacientes y en su caso si la corrección quirúrgica puede tener un efecto benéfico en el desarrollo infantil posterior a la misma.

Speltz et al. realizaron un estudio longitudinal de 19 lactantes con escafocefalia y 19 sujetos de cotejo demográficamente apareados. Se realizaron evaluaciones de la Escala Bayley de Desarrollo Infantil en promedio a los 4, 12 y 24 meses. La edad de la cirugía se llevó a cabo antes de los 9 meses (promedio de 4.7 meses) para todos los pacientes. Si bien, no hubo diferencias estadísticas entre puntuaciones cuando se compararon los dos grupos¹.

Jacqueline R. Starr et al. reportaron en un estudio longitudinal multicéntrico el cual evaluó los resultados del seguimiento de 168 lactantes con craneosinostosis unisutural no sindromática pre y postquirúrgico comparado con un grupo control de 115 lactantes demográficamente emparejado. Los resultados encontrados fueron puntajes de desarrollo en los pacientes discretamente más bajo que en el grupo control tanto en la función cognitiva como en la motora (medido mediante la Escala de Bayley del Desarrollo Infantil), teniendo resultados similares a los niños sanos en el lenguaje. Y posteriormente con una mejoría discreta, la cual fue no significativa del desarrollo posterior a la cirugía. No obstante, la evaluación postquirúrgica se llevó a cabo de 1-2 meses posterior al evento quirúrgico¹⁰.

Otro estudio llevado a cabo en una población relativamente más semejante a la nuestra fue el realizado por Nejad y colaboradores en Irán, donde compararon una población de

24 lactantes con Craneosinostosis Unisutural No sindromática y Craneosinostosis Sindromática con mediciones del neurodesarrollo pre y postquirúrgicos (1 año posterior a la cirugía). En el cual encontraron una evidencia de cambio significativo del componente motor y cognitivo medido mediante la Escala de Bayley II⁸.

En nuestra población, se observó que el Cociente Total de Desarrollo inicial y final no tuvo un cambio significativo, con mediana inicial de 92 y final de 93 (p 0.214) debido a que la mayoría de las evaluaciones basales de los pacientes se encontraban con un desarrollo en rango promedio.

En cuanto a los dominios, el dominio más afectado en la evaluación basal fue comunicación y se observó una tendencia a la mejoría del cociente de desarrollo de éste dominio, siendo ésta la única variable en donde se observó un cambio de al menos 9 puntos respecto a la determinación inicial en la mediana (p 0.058). No se observaron cambios significativos en los otros dominios.

Esto concuerda con otros estudios internacionales como es citado por Sanjay Naran et al. incluyendo 101 pacientes, de los cuales el 56.4% tenía una o más anomalías del lenguaje, incluyendo trastorno motor anatómico (29.7%), retraso en la adquisición del lenguaje (21.8 %), y observando que aproximadamente 1 de cada 4 pacientes con craneosinostosis no sindromática presentó un diagnóstico de paladar hendido submucoso. Asimismo, evidenciando que la terapia del lenguaje se justifica en uno de cada 3.4 pacientes, lo cual corresponde a una prevalencia de dos a cinco veces mayor que en la población normal³².

Por otro lado, se presentó deterioro del CTD en 2 pacientes, que tenían como común denominador la nula asistencia escolar. Ya que el desarrollo infantil tiene estrecha relación con el ambiente físico y social en el que el menor se desenvuelve.

La asistencia a programas escolares en la primera infancia ha sido un tema estudiado recientemente. Varios estudios concluyen que la exposición a guarderías de alta calidad a edades menores de los 3 años, llamados programas de cuidado infantil basados en centros en los Estados Unidos, beneficia el desarrollo cognitivo de los niños y parece ser una de las intervenciones más efectivas para promover el aprendizaje de los niños

provenientes de familias con estatus socioeconómico bajo³⁵.

Bridges et al. Presentó un análisis para la submuestra de California de los datos del programa ECLS-K en el cual también encontró niveles de competencia cognitiva significativamente más altos para los niños hispanos con dominio del inglés de hogares de clase media cuando habían asistido a programas basados en el centro en el año anterior a su entrada a preescolar³⁶.

En general, Loeb y colaboradores reportan que la exposición al menos a medio día a guardería produce beneficios cognitivos para la mayoría de los niños. Obteniendo mayores beneficios de las intervenciones que comienzan antes de los 4 años, siendo la edad óptima de los 2-3 años. Siendo los programas de día completo mejores para los niños de familias de bajos ingresos, lo que les permite adquirir habilidades de lectura y matemáticas³⁷.

18. CONCLUSIÓN

No se observó cambio significativo en el CTD ya que la mayoría de los pacientes presentaban un desarrollo promedio antes del procedimiento quirúrgico, lo que dificulta la mejoría posterior. Es más, dos pacientes presentaron una disminución del CTD, lo que pudiera verse explicado por los múltiples factores que afectan el desarrollo infantil y que pueden ser determinantes del entorno social.

Sin embargo, se observó una tendencia a la mejoría en el dominio de comunicación posquirúrgica ya que era el dominio más afectado en la valoración inicial, pero sin alcanzar significancia estadística, lo que podría optimizarse si se incrementa el número de muestra.

19. LIMITACIONES DEL ESTUDIO

El estudio está limitado por una muestra pequeña, así como por un grupo etario que no es

uniforme, lo anterior debido a los múltiples criterios de No inclusión determinados para intentar eliminar la mayor parte de sesgos y también por no contar con evaluaciones postquirúrgicas suficientes.

Se espera que al incrementar el número de muestra y contar con un grupo etario con un rango más estrecho para evaluación sea posible determinar además los subdominios afectados con más frecuencia.

Además, en este caso solo fue posible realizar una medición posterior a los 6 meses del tratamiento quirúrgico, lo que se podría optimizar con un mayor tiempo de seguimiento de los pacientes y nuevas determinaciones de Batelle 2ª Edición para evaluar si existe mejoría posterior a la cirugía correctiva.

20. CRONOGRAMA DE ACTIVIDADES

Cronograma de evaluación	Visita 1: Enrolamiento	Visita 2: posterior a 6 meses del tratamiento quirúrgico
Hoja de información	*	
Historia clínica	*	*
Exploración pediátrica completa	*	*
Consentimiento informado para realización de pruebas	*	
Aplicación de Pruebas	*	*

Fase	Febrero a Mayo 2017	Marzo del 2016 a junio del 2017	Marzo del 2016 a Diciembre del 2017	Marzo 2018	Abril a Mayo 2018	Julio 2018
Elaboración de marco teórico	X					
Inclusión de pacientes		X				
Realización de pruebas psicométricas		X	X			
Elaboración de base de datos				X		
Elaboración de manuscritos					X	
Presentación de resultados						X

21. BIBLIOGRAFÍA:

1. Speltz ML, Endriga MC, Mouradian WE. Presurgical and postsurgical mental and psychomotor development of infants with sagittal synostosis. *Cleft Palate Craniofacial J.* 1997;34:374–379.
2. Kapp-Simon KA. Mental development and learning disorders in children with single suture craniosynostosis. *Cleft Palate Craniofac J.* 1998;35:197–203.
3. Kapp-Simon KA. Mental development in infants with nonsyndromic craniosynostosis with and without cranial release and reconstruction. *Plast Reconstr Surg.* 1994;94:408–410.
4. Arnaud E, Meneses P, Lajeunie E, Thorne JA, Marchac D, Renier D. Postoperative mental and morphological outcome for nonsyndromic brachycephaly. *Plast Reconstr Surg.* 2002;110:6–12.
5. Panchal J, Amirshaybani H, Gurwitsch R, Cook V, Francel P, Neas B, Levine N. Neurodevelopment in children with single-suture craniosynostosis and plagiocephaly without synostosis. *Plast Reconstr Surg.* 2001;108:1492–1498; discussion, 1499–1500.
6. Kapp-Simon, K. A., Leroux, B., Cunningham, M., & Speltz, M. L. (2005). Multisite study of infants with single-suture craniosynostosis: Preliminary report of presurgery development. *Cleft Palate-Craniofacial Journal*, 42(4), 377–384.
7. Speltz, M. L., Kapp-Simon, K., Collett, B., Keich, Y., Gaither, R., Craddock, M. M., Cunningham, M. L. (2007). Neurodevelopment of infants with single-suture craniosynostosis: presurgery comparisons with case-matched controls. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 119(6), 1874–1881.
8. Nejad, E. A, & Nikoobakhat, M. (2010). Post-operative neurodevelopmental findings in syndromic and non-syndromic craniosynostosis. *Iranian Journal of Child Neurology*, 3(4), 45–50.

9. Korpilahti, P., Saarinen, P., & Hukki, J. (2012). Deficient language acquisition in children with single suture craniosynostosis and deformational posterior plagiocephaly. *Child's Nervous System*, 28(3), 419–425.
10. Starr, J. R., Kapp-Simon, K. A., Cloonan, Y. K., Collett, B. R., Craddock, M. M., Buono, L., Speltz, M. L. (2007). Presurgical and postsurgical assessment of the neurodevelopment of infants with single-suture craniosynostosis: comparison with controls. *Journal of Neurosurgery*, 107(2 Suppl).
11. Shipster, C., Hearst, D., Somerville, A., Stackhouse, J., Hayward, R., & Wade, A. (2003). Speech, language, and cognitive development in children with isolated sagittal synostosis. *Developmental Medicine and Child Neurology*, 45(1), 34–43.
12. Mendonca, D. A., White, N., West, E., Dover, S., Solanki, G., & Nishikawa, H. (2009). Is there a relationship between the severity of metopic synostosis and speech and language impairments? *Journal of Craniofacial Surgery*, 20(1), 85–88.
13. Becker, D. B., Petersen, J. D., Kane, A. A., Craddock, M. M., Pilgram, T. K., & Marsh, J. L. (2005). Speech, cognitive, and behavioral outcomes in nonsyndromic craniosynostosis. *Plastic and Reconstructive Surgery*, 116(2), 400–407.
14. Speltz M.L., Collett B., Wallace E.R., Starr J.R., Craddock M.M., Buono L., Cunningham M. and Kapp-Simon K. Intellectual and Academic Functioning of School-Age Children With Single-Suture Craniosynostosis. *Pediatrics* 2015;135:e615.
15. Patel A, Yang JF, Hashim PW, Travieso R, Terner J, Mayes LC, Kanev P, Duncan C, Jane J Jr, Jane J Sr, Pollack I, Losee JE, Bridgett DJ, Persing JA The impact of age at surgery on long-term neuropsychological outcomes in sagittcraniosynostosis. *Plast Reconstr Surg*. 2014 Oct;134(4):608e-17e.
16. Myers R, Martínez A, Delgado MA. Desarrollo Infantil Temprano en México Diagnóstico y recomendaciones. Banco Interamericano de Desarrollo. Enero del 2013.

17. *Comisión Nacional de Protección en Salud. Manual para la Aplicación de la Prueba Evaluación del Desarrollo Infantil "EDI". Primera Edición. México D.F. Secretaría de Salud 2013.*

18. *Newborg, J. Batelle Developmental Inventory, 2nd Edition, Spanish, User's Guide. Itasca, IL: Riverside Publishing.*

19. *L.A. Opperman. Cranial sutures as intramembranous bone growth sites. Dev. Dyn., 219 (2000), pp. 472–485.*

20. *J Slater, K.A. Lenton, M.D. Kwan, D.M. Gupta, D.C. Wan, M.T. Longaker. Cranial sutures: a brief review. Plast. Reconstr. Surg., 121 (2008), pp. 170e–178e.*

21. *Carter R, Anslow P. Imaging of the calvarium. Semin Ultrasound CT MR. 2009 Dec;30(6):465-91.*

22. *Pattisapu JV, Gegg CA, Olavarria G, Johnson KK, Ruiz RL, Costello BJ. Craniosynostosis: diagnosis and surgical management. Atlas Oral Maxillofac Surg Clin North Am. 2010 Sep;18(2):77-91.*

23. *M.R. Passos-Bueno, A.E. Serti Eacute, F.S. Jehee, R. Fanganiello, E. Yeh Genetics of craniosynostosis: genes, syndromes, mutations and genotype–phenotype correlations. Front. Oral Biol., 12 (2008), pp. 107–143.*

24. *Chico Ponce de León Fernando. Craneoestenosis. I. Bases biológicas y análisis de las craneoestenosis no sindromáticas. Bol. Med. Hosp. Infant. Mex. 2011 Oct; 68(5): 333-348.*

25. *Shuper A, Merlob P, Grunebaum M, Reisner SH. The incidence of isolated craniosynostosis in the newborn infant. Am J Dis Child. 1985;139(1):85–86*

26. *Cohen MM Jr (2000) Epidemiology of craniosynostosis. In: Cohen MM Jr, MacLean RE (eds) Craniosynostosis: diagnosis, evaluation, and management. Oxford Press, New York, pp 112–118*

27. Sarah J. Knight, Vicki A. Anderson, Megan M. Spencer-Smith, Annette C. Da Costa (2014) *Neurodevelopmental Outcomes in Infants and Children With Single-Suture Craniosynostosis: A Systematic Review*, *Developmental Neuropsychology*, 39:3, 159-186.
28. Speltz ML, Kapp-Simon KA, Cunningham M, Marsh J, Dawson G (2004) *Single-suture craniosynostosis: a review of neuro- behavioral research and theory*. *J Pediatr Psychol* 29:651–668
29. Renier D, Sainte-Rose C, Marchac D, Hirsch JF (1982) *Intracranial pressure in craniostenosis*. *J Neurosurg* 57:370–377.
30. Renier D, Lajeunie E, Arnaud E, Marchac D (2000) *Management of craniosynostosis*. *Child's Nerv Syst* 16:645–658.
31. Starr JR, Collett BR, Gaither R, Kapp-Simon KA, Craddock MM, Cunningham ML, Speltz ML. *Multicenter study of neurodevelopment in 3-year-old children with and without single-suture craniosynostosis*. *Arch Pediatr Adolesc Med*. 2012 Jun 1;166(6):536-42.
32. Naran S, Miller M, Shakir S, Ware B, Camison L, Ford M, Goldstein J, Losee JE. *Nonsyndromic Craniosynostosis and Associated Abnormal Speech and Language Development*. *Plast Reconstr Surg*. 2017 Jul;140(1):62e-69e.
33. Craddock MM, Gray KE, Kapp-Simon KA, Collett BR, Buono LA, Speltz ML. *Sex differences in the neurodevelopment of school-age children with and without single-suture craniosynostosis*. *Childs Nerv Syst*. 2015 Jul;31(7):1103-11.
34. Alperovich M, Golinko MS, Lee ZH, Runyan CM, Staffenberg DA. *Parental Perceptions of Neurodevelopment in Toddlers Following Craniosynostosis Repair*. *J Craniofac Surg*. 2016 Jun;27(4):835-8.

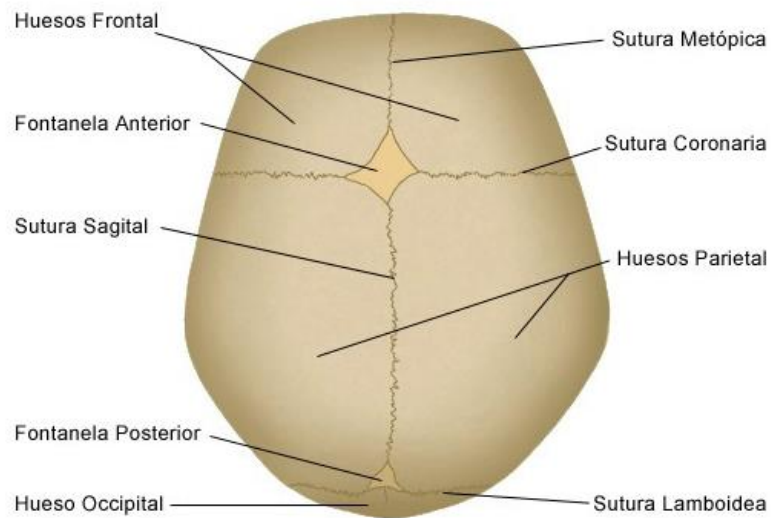
35. Shonkoff, J. P., & Phillips, D. A. (Eds.). (2000). *From neurons to neighborhoods: The science of early child development*. Washington, DC: National Academy Press.
36. Bridges, M., Fuller, B. C., Rumberger, R., & Tran, L. (2004). *Preschool for California's children: Promising benefits, unequal access*. PACE Policy Brief, 04-3, Berkeley, CA: Policy Analysis for California Education (PACE).
37. Loeb, Susanna; Bridges, Margaret; Bassok, Daphna; Fuller, Bruce; Rumberger, Russell. *How Much is Too Much? The Influence of Preschool Centers on Children's Social and Cognitive Development*. *Economics of Education Review*. 2007; 26(1):52–66.

22. ANEXOS

MOTOR	COMUNICACIÓN	PERSONAL SOCIAL	ADAPTATIVO	COGNITIVO
Motor grueso	Expresivo	Interacción con adultos	Autocuidado	Atención y memoria
Motor fino	Receptivo	Interacción con pares	Responsabilidad personal	Razonamiento y actividades académicas
Motor perceptual		Autoconcepto y rol social		Percepción y conceptos

Figura 1. Dominios y subdominios del Desarrollo evaluados por el IDB-2.

Figura 2. Fontanelas y suturas craneales.



México D.F. a _____ de _____ del 20_____

PADRE Y/O TUTOR DEL PACIENTE: _____
SEXO: (M) (F) CON FECHA DE NACIMIENTO: DIA _____ MES _____ AÑO _____
EDAD: _____

El presente consentimiento hace referencia a las intervenciones a realizar a su hijo dentro de la Unidad de Investigación en Neurodesarrollo (UIN) del Hospital Infantil de México Federico Gómez.

La evaluación del Neurodesarrollo es una herramienta que permite conocer el nivel de desarrollo con el que cuenta un niño o niña en el momento en que se realizan las pruebas y toma en cuenta diversos ámbitos del mismo: intelectual, motricidad, lenguaje y adaptación, así como sus características físicas y del ambiente en donde se desarrolla. Debido a ello, es importante una evaluación que permita a un equipo multidisciplinario conocer dichas características con la finalidad de ofrecer recomendaciones, conformar un diagnóstico y, en caso necesario iniciar el tratamiento que requiera el menor y así poder identificar áreas de oportunidad que permitan potenciar el desarrollo del niño o la niña.

Su participación en la UIN es voluntaria y sin costo y puede decidir no participar y retirarse en cualquier momento. Su participación y la de su hijo en estas actividades tiene varios propósitos, los cuales se enlistan a continuación:

- Asistencia: Evaluación, diagnóstico, tratamiento y seguimiento.
- Académica: Contribuir en el proceso académico de Médicos en formación de la especialidad de Pediatría
- Investigación: Uso de la información recabada para fines de extender conocimiento, presentación de trabajos y/o publicaciones médicas; salvaguardando siempre la confidencialidad de la identidad e información personal de usted y su hijo o hija.

En caso de autorizar las actividades que se realizarán con su hijo, el participante (paciente) y su padre (y/o tutor) acudirán a las instalaciones de la UIN las veces que se les solicite, previa cita y confirmación de la misma, con la finalidad de poder completar las pruebas y tener un perfil completo de su hijo que nos permita establecer un diagnóstico y tratamiento más adecuado para él o ella, en caso de requerirlo. Al inicio de cada una de las pruebas se explicará y se aclararán sus dudas previo al inicio de la prueba. Si decide participar se le solicitará que firme este consentimiento informado. Por medio de dicha firma usted acepta seguir las instrucciones que le proporcione el personal de la UIN, pero no significa la renuncia a sus derechos y firma voluntariamente este formulario como prueba de su decisión de participar en las actividades que aquí se realizarán.

Es importante aclarar que las pruebas que aquí se realizarán a su hijo o hija no representan un riesgo para su salud y en todo momento se realizarán de forma segura y estandarizada para obtener los resultados que se esperan evaluar con cada prueba. En caso de presentar alguna molestia o problema se deberá de informar de inmediato a los responsables del estudio a fin de que se proporcione la atención médica requerida, si esto ocurre no se reembolsará ningún gasto generado.

Este consentimiento informado le será entregado en su primera visita a la UIN por personal debidamente capacitado e informado sobre las actividades y pruebas que se realizan en esta unidad. Comprende que puede generar preguntas y que las mismas se responderán a su satisfacción.

Anexo 3. Consentimiento informado de la Unidad de Investigación en Neurodesarrollo.

Entiende que al aceptar participar en este estudio no recibirá ninguna compensación económica y de no autorizar la participación en el estudio o abandonar el mismo ello no demeritará de ninguna manera la calidad de la atención que recibe el menor en esta u otra Institución.
El presente documento se extiende por duplicado y recibe una copia para su persona.

Médico Responsable:

Dr. Antonio Rizzoli Córdoba, Jefe de la Unidad de Investigación en Neurodesarrollo, 5228.9917 ext. 2522

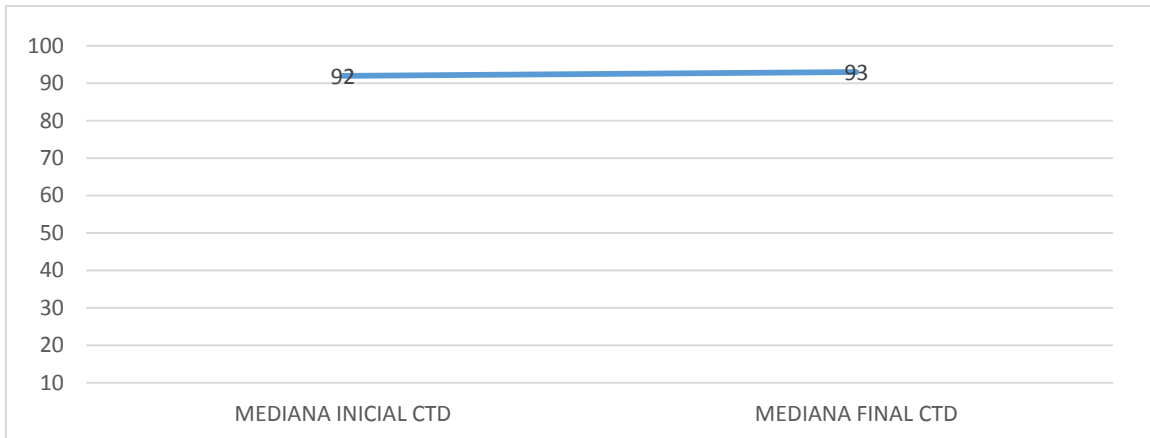
Firma del Médico Responsable _____

Nombre, firma, dirección y teléfono del padre o tutor

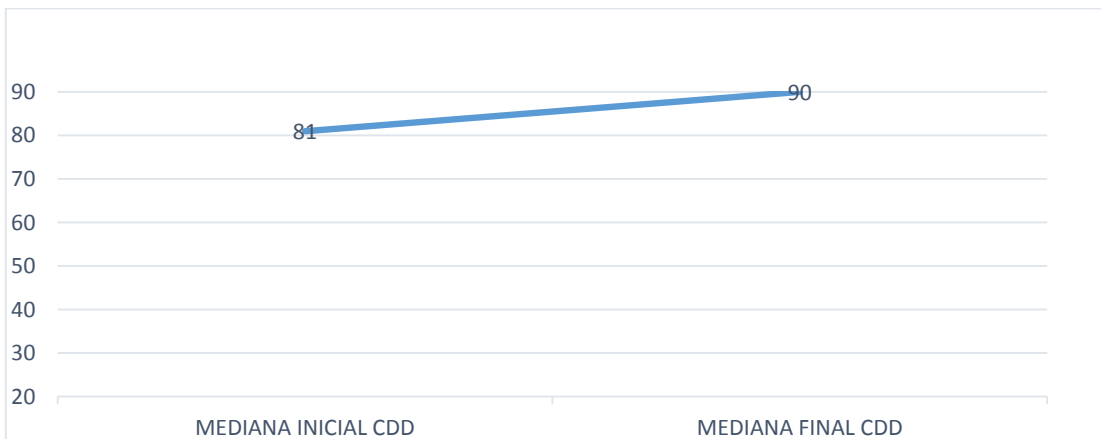
Nombre y firma del Testigo 1

Nombre y firma del Testigo 2

Nombre del menor indicando asentimiento informado (mayores de 7 años)



Gráfica 1. Correlación entre la evaluación inicial del CTD y la medición final.



Gráfica 2. Correlación entre la evaluación inicial del CDD y la medición final del dominio de comunicación.

23. TABLAS

	ESCAFOCEFALIA					TRIGONOCEFALIA					PLAGIOCEFALIA				
	MEDIANA	MINIMO	MÁXIMO	TOTAL	% DE PACIENTES	MEDIANA	MINIMO	MÁXIMO	TOTAL	% DE PACIENTES	MEDIANA	MINIMO	MÁXIMO	TOTAL	% DE PACIENTES
EDAD (MESES)	14	3	24			14	10	73			46	26	65		
SEXO															
FEMENINO				2	40%				2	66.70%				1	50%
MASCULINO				3	60%				1	33.30%				1	50%
ESCOLARIDAD DE LOS PADRES															
SECUNDARIA				2	40%				1	33.30%				1	50%
PREPARATORIA				2	40%				1	33.30%				1	50%
LICENCIATURA				1	20%				1	33.30%				0	0%
NIVEL SOCIECONÓMICO															
BAJO				1	20%				0	0%				0	0%
MEDIO BAJO				1	20%				1	33.30%				0	0%
MEDIO				3	60%				1	33.30%				1	50%
MEDIO ALTO				0	0%				1	33.30%				1	50%
ACUDE A LA ESCUELA															
NO				4	80%				1	33.30%				1	50%
SI				1	20%				2	66.70%				1	50%

Tabla 1. Características epidemiológicas de los pacientes con craneosinostosis unisutural no sindrómica.

VARIABLE	TIPO DE CRANEOSINOSTOSIS	VALOR DE P
SEXO	ESCAFOCEFALIA	0.533
	TRIGONOCEFALIA	2.00
ESCOLARIDAD DE LOS PADRES	PLAGIOCEFALIA	0.766
	ESCAFOCEFALIA	0.833
	TRIGONOCEFALIA	4.00
NIVEL SOCIOECONOMICO	PLAGIOCEFALIA	0.934
	ESCAFOCEFALIA	4.100
	TRIGONOCEFALIA	6.00
ESCOLARIDAD	PLAGIOCEFALIA	0.633
	ESCAFOCEFALIA	4.444
	TRIGONOCEFALIA	2.000
	PLAGIOCEFALIA	0.108

Tabla 2. Significancia estadística de factores epidemiológicos de los pacientes.

MEDIANAS

	INICIAL	FINAL	SIGNIFICANCIA ESTADISTICA
ADAPTATIVO	95	100	0.155
PERSONAL SOCIAL	106	99	0.314
COMUNICACIÓN	81	90	0.058
MOTOR	92	95	0.155
COGNITIVO	93	93	1.00
COCIENTE TOTAL DE DESARROLLO	92	93	0.214

Tabla 3. Comparación entre medianas del CDD y CTD en la evaluación inicial y posterior a 6 meses de cirugía correctiva.