

## ¿Por qué distracción mandibular en neonatos con apnea de sueño? Informe de 47 casos

DIEGO JOSÉ CAYCEDO, MD\*

### RESUMEN

La presentación, etiología y tratamiento de la apnea obstructiva del sueño/hipo ventilación obstructiva en neonatos es diferente que en los adultos. Se considera apnea de sueño un episodio/hora de más de 10 segundos, con saturación menor de 87% e incremento del CO<sub>2</sub>. Los factores anatómicos y neurofuncionales son causa de las alteraciones respiratorias superiores que producen falta de coordinación en las fuerzas que contraen y dilatan la vía aérea; la retro-micrognatia como causa anatómica puede ser aislada o sindrómica. La hipoxemia y la hipercapnia aumentan la presión negativa intratorácica con la consecuencia del daño celular sin poder cuantificar la lesión cerebral en esta etapa neonatal. Este estudio, observacional descriptivo, serie de casos, realizado entre los años 2000 y 2011 en 47 pacientes neonatos de la unidad de cuidados intensivos del recién nacido del Hospital Universitario del Valle y del Centro Médico Imbanaco de la ciudad de Cali, que presentaron retro-micrognatia y apnea obstructiva o hipoventilación obstructiva, fueron intervenidos quirúrgicamente con corticotomía, colocación de distractores y elongación mandibular para evidenciar que la apnea obstructiva desaparece en un tiempo no mayor a una semana y que comparado con tratamientos realizados con anterioridad en los recién nacidos con este diagnóstico, la mejoría clínica es evidente, se evita la traqueotomía, las posibles complicaciones y secuelas por hipoxia disminuyendo la estancia hospitalaria.

*Palabras clave:* Apnea; Neonatos; Osteogénesis por distracción; Mandíbula; Pierre Robin.

**Colomb Med. 2011; 42: 362-8**

*Why mandible distraction on neonates with sleep apnea? 47 cases*

### SUMMARY

The presentation, etiology, and treatment of obstructive sleep apnea/obstructive hypoventilation on neonates are different than on adults; it is considered sleep apnea as one episode per hour for more than 10 seconds, with saturation lower than 87% and increased CO<sub>2</sub>. Anatomical and neurofunctional factors are the cause of upper respiratory alterations that produce lack of coordination in the forces that contract and dilate the airways; retro-micrognathia as an anatomical cause can be isolated or syndrome. Hypoxemia and hypercapnia increase intra-thoracic negative pressure with cellular damage as a consequence without being able to quantify the brain injury in the neonatal stage. This descriptive observational study of a series of cases carried out between 2000 and 2011, in 47 neonatal patients from the intensive care unit for neonates in Hospital Universitario del Valle and Imbanaco Medical Center in Cali, Colombia, presenting retro-micrognathia and obstructive apnea or obstructive hypoventilation. These were surgically intervened with the partial fracture of mandibular distraction and elongation shows that the obstructive apnea disappears within a week, compared to previous treatments in newborns with this diagnosis. Clinical improvement is evident and avoids tracheotomy and possible complications by hypoxia, lowering hospitalization time.

*Keywords:* Apnea; Neonatal; Osteogenesis; Distraction; Mandibular; Pierre Robin.

**Colomb Med. 2011; 42: 362-8**

\* Jefe Sección Cirugía Plástica, Facultad de Salud, Universidad del Valle, Cali, Colombia.

e-mail: diego.caycedo@imbanaco.com.co

Recibido para publicación marzo 29, 2011      Aceptado para publicación mayo 17, 2011

Una de las complicaciones más severas en neonatos con retrognatia y micrognatia es la apnea obstructiva del sueño/hipoventilación obstructiva (AOS/HVO). Esta obstrucción respiratoria y su consecuencia, la apnea, presentan alto riesgo de muerte neonatal, estancia hospitalaria prolongada y costo elevado para la familia y el sector salud. Actualmente el manejo es controversial y no existe un protocolo de tratamiento establecido, demanda la intervención interdisciplinaria de especialidades para la mejoría de estos pacientes y el manejo médico utilizado para la alteración respiratoria producida por la obstrucción, va desde la posición decúbulo ventral hasta la fijación con sutura de la lengua al mentón, siendo métodos no permanentes ni definitivos o la necesidad de intubaciones traqueales prolongadas con necesidad de la traqueotomía; estos métodos llevan al rápido deterioro inclusive la muerte del neonato. El no conocimiento de la distracción mandibular para resolver de forma definitiva la apnea obstructiva es un factor de riesgo que favorece la alta morbilidad y mortalidad en estos pacientes en las unidades neonatales.

Codivilla<sup>1</sup> en 1905 fue uno de los primeros en informar alargamiento de huesos largos; en 1951, Ilizarov<sup>2</sup> en sus investigaciones demostró que la tracción gradual de los tejidos vivos crea fuerzas que mantienen y estimulan la regeneración y el crecimiento óseo, conocida como Ley Tensión-Estrés; en 1973 Snyder<sup>3</sup> a nivel craneofacial reportó experimentalmente alargamientos mandibulares con distracción ósea; Aronson<sup>4</sup> en 1989 describe la histología de la distracción osteogénica y en 1990, Karp<sup>5</sup> utilizando diferentes fijadores externos describe la mínima morbilidad del procedimiento. McCarthy<sup>6</sup> en 1992 informó su experiencia en pacientes con hipoplasia mandibular tratados con distractores externos y técnica extra oral. En 1995 Molina y Ortiz-Monasterio<sup>7</sup> presentaron una serie extensa de casos de pacientes con hipoplasia mandibular, utilizando técnica intraoral y distractores externos y a partir de esta fecha varios autores<sup>8-10</sup> han confirmado las bondades de la distracción mandibular como tratamiento de la apnea obstructiva producida por la alteración anatómica, con distracción osteogénica gradual. Estas investigaciones han permitido establecer que si se utiliza en recién nacidos con apnea o hipoventilación obstructiva puede ser la técnica quirúrgica de elección para la resolución definitiva de la apnea, disminuyendo la morbilidad y mortalidad y demostrando el beneficio de la relación

costo beneficio, sobre todo si se tiene en cuenta las dificultades económicas que presentan los hospitales; además, el objetivo primordial es contribuir al conocimiento e implementación de esta técnica en todas las unidades de cuidados intensivos neonatales que, aunque es una entidad poco frecuente, 1/8,500 nv cuando se presenta es una urgencia que se debe resolver de forma inmediata por las consecuencias causadas por la hipoxia de estos pacientes a tan temprana edad y no esperar a que el estado clínico, por la no intervención a tiempo, se deteriore a tal punto que el procedimiento quirúrgico esté contraindicado por otros factores diferentes a la alteración mandibular.

## MATERIALES Y MÉTODOS

En este trabajo observacional descriptivo entre los años 2000 y el 2011 de serie de casos, se presenta 47 neonatos de la Unidad de Cuidados Intensivos Neonatales (CIRENA) del Hospital Universitario del Valle y del Centro Médico Imbanaco con edades entre 2 y 38 días (1 prematuro de 33 semanas), 30 masculinos y 17 femeninos. Se seleccionaron a los neonatos entre los que solicitaron interconsulta por cirugía plástica y que cumplieran con los siguientes criterios de inclusión: paciente neonato (1-30 días de edad), con retrognatia, micrognatia o que cumplió todos los criterios diagnósticos de secuencia de Pierre Robin (retrognatia, glosoptosis y fisura de paladar secundario) con apnea obstructiva/hipoventilación obstructiva (AOS/HVO) de origen periférico y paciente que cumplió con los anteriores requisitos y que su representante legal (padre y/o madre) autorizó su inclusión en el estudio. Se excluyeron los neonatos con criterio diagnóstico de apnea obstructiva de origen neurológico central o que al momento de la solicitud de la interconsulta presentaron temperatura mayor a 38.2°C, por la posibilidad de cuadro infeccioso, el cual contraindica el procedimiento. Para todos los incluidos en el estudio se realizaron hemograma, radiografía de tórax, gases arteriales, monitoreo de saturometría de 8 horas, peso y talla cada 24 horas; y en cinco pacientes se realizó el estudio del sueño, polisomnografía y esofagometría. Antes de programar la cirugía se solicitó autorización mediante consentimiento informado por escrito al representante legal del neonato y con el neonatólogo se decidió el momento de llevar a cirugía. Una vez fueron



**Figura 1. Intubación con fibroscopio**



**Figura 2. Corticotomía del ángulo mandibular**

incluidos en el estudio y realizado la cirugía, se inició la distracción mandibular a razón de 1 mm al día (0.5 mm cada 12 horas), en promedio por 12 días hasta alcanzar una elongación mandibular que indicara una oclusión maxilomandibular tipo III de Angle.

El Servicio de Anestesiología (Figura 1) valoró el grado de dificultad para la intubación de los neonatos y determinó la posibilidad de la utilización o no del fibroscopio. Se realizaron fotografías de frente y los dos perfiles previa autorización de los padres. El tutor externo (distractor), que se utilizó fue «El distractor Baby de Molina», unidireccional, con dos clavos cortos no transfixiantes proximales y un clavo largo distal transfixiante con punta autorroscante.

## TÉCNICA QUIRÚRGICA

Bajo anestesia general e intubación orotraqueal con apoyo del fibroscopio, se fijó el tubo en línea media desplazado hacia arriba, se realizó la marcación del ángulo mandibular en la piel y el lugar de la incisión a

un cm por debajo del reborde submandibular de 3 cm, (incisión de Risdom). Se infiltró lidocaína al 1% con epinefrina y se incide piel hasta tejido celular subcutáneo; con disección roma se disecciona hasta el ángulo mandibular en el plano supraperióstico, se incide y disecciona dos cm a distal y proximal subperióticamente a nivel del ángulo y se marca el lugar de la corticotomía desde el borde superior hasta el borde inferior.

Percutáneamente se pasa el clavo corto autorroscante proximal a un cm del sitio de la corticotomía en ambos lados. El clavo largo transfixiante se coloca a un cm distal de la marcación de la corticotomía de forma percutánea y se atraviesa de lado a lado la mandíbula. Con sierra oscilante se realizó corticotomía de la tabla externa a nivel del ángulo mandibular siguiendo una dirección oblicua de arriba hacia abajo y de adelante hacia atrás (Figura 2). Se coloca el distractor externo (Figura 3) y se fijan los tornillos respectivos, realizando una distracción de dos vueltas completas correspondientes a 1 mm para comprobar la movilización de los fragmentos mandibulares. Se comprueba la hemostasia y se realiza el cierre de la herida por planos. El paciente puede regresar a cuidados intensivos neonatales extubado. Este procedimiento quirúrgico tuvo una duración promedio de 30 minutos.

En el seguimiento de la distracción se llevó un registro único donde se anotó el día, la hora, el número de milímetros elongados y la distancia interoclusal. El manejo postoperatorio de las fases de distracción se realizó de la siguiente manera: fase de latencia 24 horas pop, fase de activación un mm, por día durante 12 días promedio y fase de consolidación el doble de tiempo de la fase de activación y luego el retiro del distractor.



**Figura 3. Postoperatorio inmediato con distractor colocado**

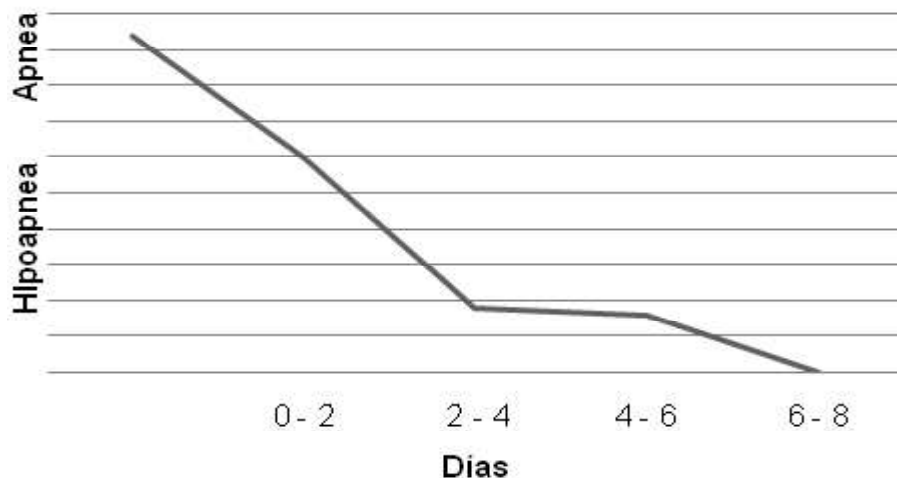


**Figura 4. Fase final de consolidación**

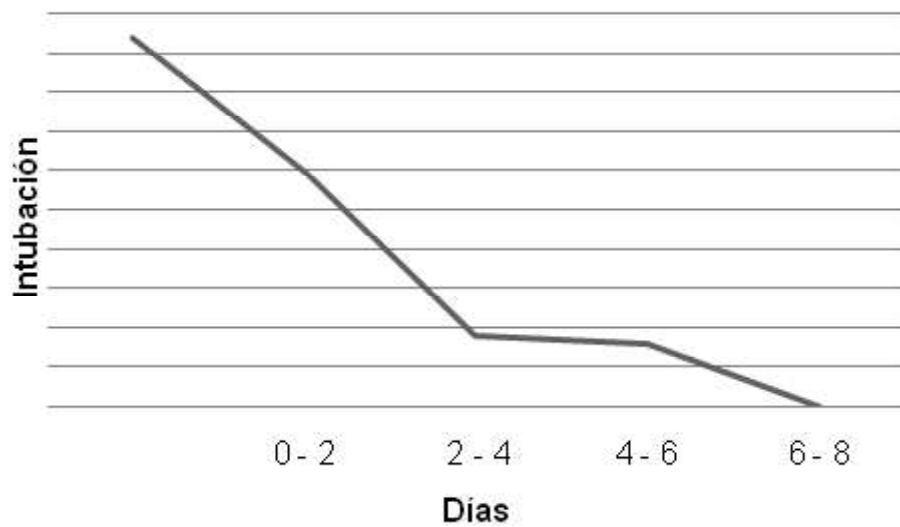
**RESULTADOS**

La presentación clínica en todos los casos fue evaluada por neonatología y se encontró que 3 pacientes

tenían secuencia de Pierre Robin como parte del síndrome de Moebius y en los otros 44 pacientes la secuencia de Pierre Robin se presentó de manera aislada. La intervención quirúrgica se llevó a cabo en los 3 días siguientes a la interconsulta previa verificación del estado clínico y evaluación anestésica y en promedio tuvo una duración de 30 minutos. Las fases de la distracción se cumplieron en todos los pacientes con promedio de activación de 12 días y luego la fase de consolidación se completó duplicando el tiempo de la fase de activación, siempre sobrecorrigiendo la mordida hasta llevarlos a una oclusión tipo III. La sintomatología respiratoria (Figura 5) mejoró rápidamente al cuarto día en promedio y desapareció a los 8 días postoperatorio excepto en 4 pacientes que fallecieron en los días siguientes por causas diferentes al problema a la apnea de sueño; 30 pacientes fueron extubados en el momento de finalizar la cirugía o en los



**Figura 5. Evolución de los síntomas respiratorios en 43 pacientes. Cuatro pacientes fallecieron por causas diferentes a la apnea del sueño**



**Figura 6. Duración de la intubación en el postoperatorio de la distracción. Cuatro pacientes continuaban intubados después del cuarto día y cuatro que fallecieron no fueron extubados**



**Figura 7. Caso 1. Preoperatorio, durante la distracción y finalizada la distracción en neonato que fue remitido con traqueotomía**

dos días del postoperatorio inmediato, 9 pacientes al cuarto día y 4 pacientes requirieron intubación prolongada por cinco días más y que se solucionó sin complicaciones (Figura 6).

Los cambios en la antropometría facial se evidenciaron al terminar la fase de activación y se mantuvieron en el tiempo de los pacientes que se ha podido tener seguimiento a largo plazo no encontrando ningún problema respiratorio ni trastornos en la deglución (Figuras 7, 8, 9).

## DISCUSIÓN

Las consecuencias de la hipoxia cerebral por apnea obstructiva no se han medido como tampoco se ha podido determinar el alcance de los efectos en el desarrollo físico de los pacientes que presentan retrognatia y micrognatia, siendo la complicación más severa la apnea de sueño. El riesgo de mortalidad se incrementa cuando no se tiene en cuenta realizar la distracción en neonatos o se intentan otras medidas que



**Figura 8. Caso 2. Pre y postoperatorio de 4 años en paciente con síndrome de Moebius y secuencia de Pierre Robin**



**Figura 9. Caso 3. Pre y postoperatorio de paciente con secuencia de Pierre Robin aislada**

hasta el momento no han demostrado una resolución efectiva del imbalance de las estructuras anatómicas constrictoras y dilatadoras que causan las alteraciones respiratorias y deglutorias.

En la actualidad el manejo de la apnea de sueño es controversial y no existe un protocolo establecido que resuelva el problema de manera definitiva. En algunas ocasiones se hace necesaria la traqueotomía para mantener la vía aérea superior de los neonatos con las consecuentes complicaciones y riesgos de morbilidad y mortalidad. Las investigaciones previas<sup>3,5,6</sup> de la distracción ósea gradual en mandíbula han permitido establecer que si se utiliza en neonatos con apnea de sueño de origen obstructivo es la técnica quirúrgica de elección para la resolución definitiva de esta alteración. La relación costo beneficio, la estancia hospitalaria prolongada, teniendo en cuenta las dificultades econó-

micas que presentan los hospitales, convierten esta alteración en un problema de alto costo para la familia y el sector salud.

Actualmente hay pocos informes con suficientes casos de los efectos de la utilización de la distracción mandibular en neonatos. Se pretende con este trabajo establecer el beneficio y la necesidad de implementar la distracción ósea gradual mandibular como técnica quirúrgica de elección en neonatos con apnea obstructiva del sueño que presentan retrognatia y micrognatia y así poder determinar que la elongación ósea es prioritaria en la desaparición de la AOS/HVO. Varios estudios<sup>9</sup> reportan los efectos de la distracción mandibular, pero sigue existiendo polémica sobre su utilización en neonatos<sup>10</sup> inclusive se cuestiona por ser un procedimiento invasivo que se debe tener como un recurso y no como una indicación de primera línea; sin embargo, no

es posible determinar con exactitud las consecuencias de las alteraciones de la hipoxia cerebral, por eso la recomendación es tener como indicación la distracción en la edad neonatal para poder tener la seguridad de evitar las consecuencias de la hipoxia cerebral. Además es un procedimiento corto (promedio 30 minutos) y los resultados se ven rápidamente (12 días en promedio).

## CONCLUSIONES

La distracción en neonatos es un método rápido y definitivo para la corrección de AOS/HVO y es posible impedir en un futuro la aparición de las consecuencias del daño cerebral por la hipoxia producida por la apnea obstructiva y mejora los trastornos deglutorios, además, se evita la morbilidad de la traqueotomía y los parámetros antropométricos de la retro/micrognatia se corrigen de forma permanente.

**Conflicto de intereses.** El autor declara no tener conflicto de intereses en las instituciones donde se realizó la investigación.

## REFERENCIAS

1. Codivilla A. On the jeans of lengthening in the coger limbs, muscles and tissues which are shortened through deformity. *Am J Orthop Surg.* 1905; 2: 353.
2. Ilizarov GA, Devyatov AA, Kamerin VK. Plastic reconstruction of longitudinal bone defects by jeans of compression and subsequent distraction. *Acta Chir Plast.* 1980; 22: 32.
3. Snyder CC, Levine GA, Swanson HM, Browne EZ. Mandibular lengthening by gradual distraction: a preliminary report. *Plast Reconstr Surg.* 1973; 51: 506.
4. Aronson J, Harp JH. Mechanical forces as predictors of healing during tibial lengthening by distraction osteogenesis. *Clin Orthop.* 1994; 301: 73-9.
5. Karp NS, Thorne CHM, McCarthy JC, Sissons HA. Bone lengthening in the craneofacial skeleton. *Ann Plast Surg.* 1990; 24: 231.
6. McCarthy JC, Schreiber J, Karp N, Thorne CHM, Grayson BH. Lengthening the human mandible by gradual distraction. *Plast Reconstr Surg.* 1992; 89: 1-10.
7. Monasterio FO, Drucker M, Molina F, hasta 6 autores y luego *et al.* Distraction osteogenesis in Pierre Robin sequence and related respiratory problems in children. *J Craniofac Surg.* 2002; 13: 79-83.
8. Rogers GF, Mulliken JB. Primary management of severe respiratory compromise in Robin sequence. *Plast Surg Forum.* 2002; 23: 73.
9. Danielle D, Jeffrey LM. Mandibular distraction osteogenesis for Pierre Robin sequence: what percentage of neonates needs it? *J Craniofac Surg.* 2008; 19: 1237-43.
10. Denny A, Kalantarian B. Mandibular distraction in neonates: A strategy to avoid tracheostomy. *Plast Reconstr Surg.* 2002; 109: 896.