



**Universidad de Valladolid**

**Facultad de Medicina**

**TRABAJO FIN DE GRADO**

Grado en Medicina

**Estudio del sueño en pacientes pediátricos  
afectos de parálisis cerebral**

Autor:

**María de la Fuente Grijalvo**

Tutor:

**Ramón Cancho Candela**

**Profesor asociado departamento de pediatría**

## **Contenido**

RESUMEN .....	1
ABSTRACT.....	1
1. INTRODUCCIÓN .....	2
2. OBJETIVOS.....	7
3. MATERIAL Y MÉTODOS .....	7
4. RESULTADOS.....	9
Sueño.....	10
SDSC y nivel intelectual .....	12
SDSC y administración de fármacos .....	13
SDSC y epilepsia .....	13
SDCSC y GMFCS .....	13
5. DISCUSIÓN .....	13
6. BIBLIOGRAFIA.....	14
7. ANEXO .....	17
A. Consentimiento informado .....	17
B. Cuestionario de hábitos de sueño.....	18
C. Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC) o test de Bruni.....	19

## **RESUMEN**

*Introducción:* los pacientes afectados de Parálisis Cerebral (PC) muestran problemática diversa de carácter motor, cognitivo, digestivo, sensorial, etc, que producen importante morbilidad y merma en la calidad de vida. Entre las alteraciones que se han descrito como más prevalentes e interfirientes en estos pacientes se encuentran las alteraciones del sueño.

*Objetivos:* analizar la presencia de alteraciones del sueño en un grupo de pacientes afectados de PC moderada y severa, así como el análisis de algunos factores clínicos que pudieran influir o favorecer la presencia de alteraciones del sueño.

*Material y Métodos:* se analizaron datos clínicos pertenecientes a veinte pacientes con PC con nivel funcional III-V, realizándose además una encuesta sobre hábitos de sueño y cumplimentándose la escala Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC)

*Resultados:* se encontró una puntuación anormal en la SDSC en el 65% de la muestra de niños con PC, teniendo todos ellos algún área del sueño alterada, siendo el trastorno del sueño más frecuentemente alterado el de inicio y mantenimiento del sueño. No se observó una relación significativa entre la puntuación anormal total en la SDSC y diversos parámetros clínicos, aunque se apreció una mayor relación de alteraciones en el sueño y una baja capacidad intelectual, aunque sin significación estadística.

*Conclusiones:* los pacientes estudiados con PC sufren alteraciones de sueño, que se suman a otros problemas de estos pacientes contribuyendo a la pérdida de calidad de vida del paciente y de sus cuidadores.

## **ABSTRACT**

*Introduction:* patients suffering from cerebral palsy (CP) show different problems of motor, cognitive, digestive and sensorial character that produce important morbidity and a decrease in quality of life. Among all the alterations that have been described as the most prevalent and interfering in these patients, sleep disorders can be found.

*Objectives:* to examine the presence of sleep alterations in a group of patients suffering from moderate to severe CP. Also, to perform the analysis of clinical factors that may influence or promote the presence of sleep disturbances.

*Methods:* clinical data from twenty patients with CP with functional motor level from III to V were collected. Providing also a survey on sleep habits and answering the questionnaire of the Sleep Disturbance Scale for Children (SDCS).

*Results:* an abnormal total sleep score was found in 65% of the sample of children with CP. It was found an altered sleep factor in all of them, being the initiating and maintaining sleep factor the most frequently affected. No significant relation between an abnormal total SDSC score and different clinical parameters was noticed. Although it was detected a sleep and low intellectual capacity higher ratio without statistical signification.

*Conclusions:* patients with CP from this sample suffer from sleep disorders plus other problems. It contributes to the loss of quality of life of these patients and their caregivers.

## **1. INTRODUCCIÓN**

La parálisis cerebral (PC) se entiende como un grupo de trastornos persistentes del desarrollo del movimiento y de la postura, causando limitación de la actividad, que se atribuye a un proceso patológico no progresivo del cerebro inmaduro; que puede ocurrir dentro del útero, durante el parto o durante los primeros años de vida. Los trastornos motores de la PC están frecuentemente acompañados de alteraciones de la sensibilidad, percepción, cognición, comunicación y comportamiento; también de epilepsia y otros problemas musculoesqueléticos secundarios. Los signos más característicos son: la espasticidad, las alteraciones en los movimientos, la debilidad muscular, la ataxia y la rigidez. Este trastorno varía según el tiempo de instauración de la lesión cerebral, la presentación clínica, el sitio y la gravedad de la discapacidad.(1-2)

Éste síndrome se acompaña de una gran complejidad que puede entenderse debido a sus distintas clasificaciones (2-5) ya que la PC puede ser definida según:

- sitio anatómico cerebral donde se encuentra la lesión (corteza, tracto piramidal, sistema extrapiramidal o cerebelo)
- síntomas clínicos y signos (espasticidad (70-80%), disquinesia (10-20%) y ataxia (5-10%))
- topografía de las extremidades afectadas (diplejía, tetraplejía o hemiplejía)
- momento de la presunta instauración (periodo prenatal (25%), perinatal (48%), postnatal (21%) o primeros años de vida (6%))
- clasificación del grado del tono muscular (isotónico, hipotónico o hipertónico)

En cualquier caso, existe consenso actual en la utilidad de la clasificación funcional según el grado de discapacidad motora gruesa mediante la escala Gross Motor Functional Classification System (GMFCS), publicada por Palisano en 1997 (6). La clasificación GMFCS se basa en 5 niveles funcionales de I a V, de menos a más severo. Esta clasificación ha mostrado una elevada correlación con la severidad y número de problemas comórbiles en los pacientes con PC.

La etiología de la PC es multifactorial. Diversos estudios epidemiológicos han demostrado que los orígenes de la mayoría de las PC son debidos a daños prenatales (75-80%). El aumento del riesgo está asociado con factores de riesgo prenatales (infecciones intrauterinas, anormalidades placentarias, embarazos múltiples, malformaciones congénitas, restricción del crecimiento fetal); perinatales (parto pretérmino, bajo peso al nacimiento, infecciones neonatales, traumatismos); leucomalacia quística periventricular, etc. Existe un grupo de pacientes en los que no se identifica una causa específica; las situaciones de hipoxia-isquemia neonatal probablemente expliquen una minoría de los casos por sí solas. Se ha demostrado susceptibilidad individual con variantes genéticas subyacentes que confieren riesgo para el desarrollo de lesiones cerebrales productoras de PC (7-8).

La PC es la causa más común de discapacidad física en la infancia (5). Estudios poblacionales estiman en diversas áreas geográficas prevalencias entre un 1,5 a 4 casos por cada 1.000 nacidos vivos (8) (3-4 por cada 1.000 nacidos vivos en Estados Unidos(10); 1,8 por cada 1.000 nacidos vivos en Europa(11)).

El diagnóstico de PC es en ocasiones obvio dada la presencia temprana de alteraciones posturales y motrices en niños de riesgo por eventos perinatales conocidos como favorecedores o productores de PC, como prematuridad, infección, o hipoxia. En otros casos el diagnóstico puede ser más laborioso, debiéndose realizar:

- a) una anamnesis centrada en el embarazo, parto, periodo neonatal y desarrollo psicomotor para confirmar que no se trata de un trastorno progresivo del SNC.
- b) una exhaustiva exploración física y neurológica que se centre en la marcha, tono axial, alineación de la columna, la movilidad de las articulaciones, sensibilidad, fuerza, tono muscular, tipo y extensión de los trastornos del movimiento y posibles deformidades para asegurarnos de que no existen datos que apunten a una enfermedad degenerativa o progresiva, y para poder clasificar la PC.

c) realización de exámenes complementarios para asegurar un correcto diagnóstico (resonancia magnética y pruebas metabólicas y/o genéticas) intentando buscar una etiología. (4)

Ahora bien, los pacientes afectos de PC muestran un complejo de problemas y síntomas que van más allá de la patología motriz y postural comentada anteriormente. Dentro de esta problemática y comorbilidad existen alteraciones cognitivas, conductuales, sensoriales, digestivas, ictales, etc. Todo este complejo sintomático genera una pérdida de funcionalidad y de calidad de vida que no solo afecta al paciente sino a la familia y a sus cuidadores principales.

Dentro de la comorbilidad destaca la problemática del sueño. Los trastornos del sueño son frecuentemente una preocupación indicada por padres de pacientes afectos de alteración en el neurodesarrollo, entendida esta de forma global (discapacidad intelectual, autismo, trastornos genéticos, daño cerebral sobrevenido, etc). De manera específica, se estima que los niños con PC tienen un riesgo aumentado de padecer desórdenes del sueño (de siete a doce veces más frecuente comparándolos con niños sanos) (12-13).

Dentro de los estudios más reseñables en relación con esta problemática, en el 2012, Wayte, comparó en primer lugar, trastornos del sueño entre niños con PC y niños en desarrollo normal y en segundo lugar, la relación entre los trastornos del sueño en niños con PC y la calidad de sueño de la madre. Llegó a la conclusión de que niños afectos de PC tienen más problemas del sueño que sus semejantes sanos, y que en aquellas madres con alteraciones del sueño existía una correlación con el desarrollo de depresión (14). Atmawidjaja, en 2014, en un estudio de casos y controles tomó como muestra a 109 niños malasio con PC y a sus respectivos hermanos. Se objetivó que los niños con PC diferían significativamente de sus hermanos en cuanto a dificultades del sueño; el grupo de hermanos sanos mostró una prevalencia más elevada en los trastornos de iniciación y mantenimiento del sueño, claramente aumentada respecto población general, siendo aún mayores en el grupo de los propios pacientes con PC (15). En otro estudio prospectivo realizado por Romeo en 2014 se estudiaron a 1.000 niños con PC y a 100 niños sanos de la misma edad y sexo. Se hallaron más trastornos del sueño en niños con PC que en el grupo control sano, estando además asociados con mayor frecuencia los pacientes con epilepsia y problemas en el comportamiento. Encontró problemática de sueño en más del 40% de niños con PC, incluyendo grupo de preescolares afectos de PC (16-17). En cuanto a la calidad de vida y sueño, Sandella en 2011 examinó esta relación mediante un estudio prospectivo correlacional tomando un

grupo de 41 niños con PC y 91 controles demostrando que muchos de los trastornos del sueño (como el insomnio) están asociados a una peor calidad de vida en niños con PC. (12)

Este aumento de prevalencia en los trastornos del sueño en población infantil afecta de PC, parece influenciarse por diversos factores de riesgo presentes en la PC. Entre aquellos que pueden perjudicar la capacidad del sueño encontramos:

- Alteraciones intelectuales que van asociadas a alteraciones del sueño durante la infancia, ya que encuentran mayor dificultad en relajarse a la hora de dormir. (14)
- Alteraciones visuales que pueden perjudicar el inicio del sueño debido a una percepción alterada de la luz y la secreción disminuida de la melatonina de forma natural. (14)
- En cuanto a la epilepsia, aparte de ser la complicación y comorbilidad más común de la PC, se ha visto que tiene una fuerte correlación con la existencia de trastornos del sueño, específicamente con la excesiva somnolencia diurna. (12-15)
- En pacientes con tetraplejía espástica o distónica/disquinética, se aprecia una fuerte asociación con alteraciones de la iniciación y mantenimiento del sueño. (12)
- Además, los factores socioambientales como la configuración de la familia y el estado socioeconómico también influyen como riesgo; en familias monoparentales se aprecia un aumento de la prevalencia de los trastornos respiratorios del sueño. (12)

Otro factor importante que puede hacer que los niños con PC empeoren su calidad de sueño es el dolor. Este es un trastorno presente de manera frecuente y que puede ser debido a múltiples causas: dolor osteoarticular, reflujo gastroesofágico, espasmos musculares, presión local en la piel, etc. Además, existe una gran vulnerabilidad a sufrir obstrucción de vía aérea superior que puede causar repetidos despertares o casi-despertares (“arousals”). (14)

Para poder evaluar la presencia de trastornos del sueño y la calidad del mismo, existen múltiples métodos y medidas subjetivas como por ejemplo, las encuestas y escalas (17-19). Muchas de estas herramientas no han pasado por una evaluación psicométrica completa, lo que las lleva a tener una fiabilidad limitada. Una de las más utilizadas en muchos de los estudios comentados anteriormente, que ha sido ampliamente usada en el estudio del sueño en PC y otras patologías del desarrollo, y que ha sido validada, es la Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC) o test de Bruni, por su autor principal, y que fue publicada en 1996 (20). Esta escala consiste en 29 ítems

basados en una escala de Likert de 5 puntos (o método de evaluaciones sumarias) que fue diseñada para evaluar la presencia de trastornos específicos del sueño en niños durante los últimos seis meses, y para dar una medida general adecuada sobre alteraciones del sueño para su uso en screening e investigación clínica. Usando un análisis factorial, con la intención de simplificar el número de variables proporcionando la misma información, los autores dividieron todos esos ítems a estudio en seis categorías representando algunas de las dificultades del sueño más comunes que afectan a niños y adolescentes: alteraciones en el inicio y mantenimiento del sueño, trastornos respiratorios del sueño, trastornos del arousal/pesadillas, trastornos en la transición sueño-vigilia, excesiva somnolencia e hiperhidrosis nocturna. Esta escala fue validada en población italiana joven sana y con problemas del sueño entre los 6-16 años de edad. Para poder validarlo, Oliviero Bruni realizó una evaluación psicométrica encontrando una buena consistencia interna. (20)

En 2013 se publicó un nuevo estudio realizado por Romeo, en colaboración con Bruni cuyo objetivo fue evaluar las propiedades psicométricas del SDSC en una nueva población preescolar (de 3-6 años de edad) italiana. Demostró nuevamente que esta escala en niños preescolares ofrecía un buen nivel de consistencia interna, con lo que concluyeron que, tanto el análisis estadístico, como la consistencia interna y el análisis factorial apoyaban el uso del SDSC como una buena herramienta evaluativa tanto en niños en edad preescolar como en niños en edad escolar. Pero existía un cambio de prevalencia en los distintos trastornos del sueño en preescolares debido a las diferencias en la estructura de las distintas categorías que se estudiaron (21). Un año más tarde, Romeo publicó otro estudio en el que analizó la prevalencia de trastornos del sueño en niños preescolares con PC. Para estudiarlo utilizó la SDSC para evaluar los trastornos del sueño; así como la escala GMFCS; la función cognitiva fue medida mediante un test psicológico realizado por un psicólogo entrenado y por último, el comportamiento fue evaluado mediante un check list (Child Behaviour Check List). En sus resultados confirmó que en la edad preescolar, los niños con PC presentaban una alta incidencia de trastornos del sueño y que además la presencia de epilepsia parecía que incrementaba el riesgo de obtener una puntuación anormal total en el SDSC; hecho que también sucede en niños en edad escolar. Pero gracias al SDSC también encontraron diferencias importantes entre escolares y preescolares: los niños preescolares con PC tenían una menor incidencia de puntuación anormal total y por factores, que aquellos de mayor edad. Aun así, igual que en su anterior estudio, no son datos del todo comparables ya que

existen diferencias en la estructura factorial del SDSC aplicado en las diferentes edades. A pesar de ello, todos estos resultados sugieren que el SDSC proporciona un buen screening para la evaluación de trastornos del sueño como comorbilidad en la PC. (16)

Como se aprecia, las alteraciones del sueño tienen un fuerte impacto tanto en la calidad de vida de los niños como en la de sus familias (23). Un ejemplo de ello, es el fenómeno ya indicado previamente de cómo el sueño alterado de las madres secundario a los patrones anormales de sueño de sus hijos con PC se correlaciona con la depresión materna (14, 24). Hay estudios que evidencian la correlación que existe entre los trastornos del sueño en niños con PC y los trastornos del sueño en el cuidador primario. Adiga afirma que: “la mitad de las madres del estudio, presentaron alteraciones en el sueño con una asociación significativa con la presencia de algún trastorno del sueño de sus hijos”. (25)

Es por todo esto, que la temprana identificación de estos trastornos del sueño en niños con PC podría permitir al clínico proponer tratamientos más precoces y efectivos, acordes con la edad que tenga el paciente en el momento del descubrimiento de algún trastorno del sueño y poder así, disminuir comorbilidades en estos pacientes. También hallamos aquí la necesidad de estudios adicionales para poder controlar mejor el dolor, dificultades en la deglución, ya que parece que son factores de riesgo que favorecen la aparición de estos problemas.

## **2. OBJETIVOS**

El objetivo principal de este estudio ha sido analizar la presencia de alteraciones de sueño en un grupo de pacientes afectos de PC moderada y severa, así como el análisis de algunos factores clínicos que pudieran influir o favorecer la presencia de alteraciones del sueño.

## **3. MATERIAL Y MÉTODOS**

Se diseñó un estudio prospectivo de pacientes afectos con PC de 3 a 16 años y clasificados con niveles de discapacidad funcional GMFCS III, IV o V. Todos los pacientes fueron reclutados de forma consecutiva en la consulta de neurología pediátrica del Hospital Universitario Río Hortega (HURH) de Valladolid, entre los meses de enero a abril de 2017. Se ofreció la participación en el estudio a todos los pacientes que acudieron a consulta que cumplían las características indicadas, no rechazando la participación ninguno de ellos. Se excluyeron por tanto niños afectos de PC de menos de 3 años,

pacientes de más de 16 años, todos los pacientes con PC de nivel GMFCS I o II, y todos los pacientes afectados de discapacidad motora diferente de PC, incluyendo daño cerebral sobrevenido por encima de los tres años de edad.

Participaron 20 pacientes. Se clasificó el tipo de PC según criterios GMFCS, y según topografía y tipo del trastorno de movimiento. Asimismo se recogió el número de fármacos administrados al paciente para tratamiento de epilepsia, del trastorno de movimiento, o para alteraciones de conducta o sueño, así como la presencia de un diagnóstico de comorbilidad con epilepsia activa en último semestre. Se recogió además el nivel de discapacidad cognitiva clasificado según criterios DSMV para la discapacidad intelectual, bien en función de su última evaluación intelectual mediante psicometría reglada o según impresión clínica de problemática adaptativa (26). Se clasificó el nivel cognitivo como normal, o con discapacidad leve, moderada o severa.

Al ofrecer la participación en el estudio se ofreció a los cuidadores que acudían con el paciente la cumplimentación de una encuesta sobre características del sueño del paciente, pasando posteriormente a realizar el Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC) (20). Esta escala investiga la ocurrencia de trastornos del sueño durante los 6 meses previos evaluando 29 ítems del 1 al 5, donde puntuaciones más altas reflejan una mayor severidad clínica de los síntomas. Existe un ítem número 27 que se cumplimenta en caso de puntuación afirmativa de ítem previo. La suma de las puntuaciones nos da una puntuación total con un rango que va de 26 a 130. Una puntuación mayor o igual a 39 sumando los puntos de los 29 ítems, se considera anormal. El análisis factorial divide esos 29 ítems en 6 factores representando las áreas más comunes que alteran el sueño durante la infancia y la adolescencia: alteraciones en el inicio y mantenimiento del sueño, trastornos respiratorios del sueño, trastornos del arousal/pesadillas, trastornos en la transición sueño-vigilia, excesiva somnolencia y sudores nocturnos; los cuales también se tienen en cuenta en este estudio.

Toda la información se ha recopilado en una base de datos diseñada para este propósito, analizando posteriormente los datos mediante programa estadístico SPSS v.22.

El protocolo del estudio fue aprobado por el Comité Ético de Investigación Clínica (CEIC) del HURH.

## **4. RESULTADOS**

Durante el periodo de estudio, 20 niños con PC (8 varones; 12 mujeres) cumplieron los criterios de inclusión. La edad promedio fue de  $9,6 \pm 3,6$  años. Se ofrecen en la *Tabla 1* los principales datos clínicos referidos al grupo de pacientes.

La entrevista de sueño así como el cuestionario SDSC fue completado por las madres en 13 casos (65%), en 3 casos (15%) por ambos padres y en 4 casos por el padre (20%).

En 15 de los pacientes, los cuidadores principales eran los padres, en 3 se señalaba a padres y abuelos como cuidadores; dos pacientes estaban parcialmente institucionalizados, siendo además cuidados por los padres en un caso y en otro por padres y abuelos.

**Tabla1** Aspectos clínicos destacables de pacientes (se señala porcentaje del total sobre el número de pacientes estudiados, y número varones/mujeres)

<b>Número pacientes</b>		<b>20</b>		
<b>Tipo PC</b>			<i>Continuación</i>	
Diplejía espástica	1 (5%)	(1/0)	<b>Medicación</b>	
Triplejía espástica	6 (30%)	(3/3)	Ninguna	8 (40%) (4/4)
Tetraplejía espástica	8 (40%)	(5/8)	De 1 a 3 fármacos	7 (35%) (2/5)
Tetraplejía disquinética	5 (25%)	(2/3)	4 o más fármacos	5 (25%) (1/4)
<b>Nivel GMFCS</b>			<b>Nivel cognitivo</b>	
Nivel III	3 (15%)	(2/1)	Normal	4 (20%) (2/2)
Nivel IV	3 (15%)	(2/1)	Discapacidad leve	6 (30%) (4/2)
Nivel V	14 (70%)	(5/9)	Discapacidad moderada	5 (25%) (2/3)
<b>Epilepsia</b>			Discapacidad severa	5 (25%) (1/4)

## Sueño

14 de los pacientes dormían solos en una habitación y 6 acompañados, siempre con uno de los padres o ambos. En 5 de los casos, la madre es la que siempre acostaba al niño, en 15 casos era uno de los dos padres y en ningún caso fue solo el padre. 11 de los pacientes precisaban de rutinas específicas donde, la más habitual fue el uso de una lámpara.

El promedio de horas de sueño nocturnas fue de 8,85 horas  $\pm$ 1,18h. El horario en día lectivo promedio de inicio de sueño y despertar diurno fue de 22:12 horas a 07:46 horas, siendo en día no lectivo de 23:25 horas a 09:20 horas.

La puntuación total promedio fue de 43,2  $\pm$ 10,6 (rango 30-69). Existiendo también distintos valores promedio en referencia a los distintos factores o áreas que pretende estudiar la SDSC siendo los siguientes:

**Tabla 2** Valores promedio según factores de la SCDC

TRASTORNO DEL SUEÑO	PROMEDIO $\pm$ DS
Alteraciones en el inicio y mantenimiento del sueño	9.9 $\pm$ 3.11
Trastornos respiratorios del sueño	3.77 $\pm$ 1.45
Trastornos del arousal/pesadillas	3.29 $\pm$ 0.84
Trastornos en la transición sueño-vigilia	8.11 $\pm$ 2.41
Excesiva somnolencia	7.11 $\pm$ 2.57
Sudores nocturnos	2.87 $\pm$ 4.69

En la *Tabla 3* se muestran los casos de puntuaciones SDSC anormales asociadas a factores clínicos (función cognitiva, función motora y presencia o no de epilepsia). De los 13 niños con puntuación total anormal, 5 presentaban epilepsia. En relación a la función motora y cognitiva, 5 presentaban una discapacidad intelectual severa y 10 presentaban un nivel V en la GMFCS.

**Tabla 3** *Sleep Disturbance Scale for Children y factores clínicos asociados*

	<b>SDSC total (<math>\geq 39</math>)</b>	<b>AIMS</b>	<b>TRS</b>	<b>TA</b>	<b>TTSV</b>	<b>ES</b>	<b>SN</b>
<b>GMFCS</b>							
Nivel III ( $n=3$ )	2	3	2	0	3	0	0
Nivel IV ( $n=3$ )	1	2	2	0	1	0	0
Nivel V ( $n=14$ )	9	11	11	1	10	7	9
<b>CI</b>							
Normal ( $n=4$ )	2	4	2	0	3	0	0
Leve ( $n=6$ )	3	3	4	0	4	2	4
Moderado ( $n=5$ )	3	4	4	0	3	2	3
Severo ( $n=5$ )	5	5	4	1	4	3	2
<b>Epilepsia</b>							
Sí ( $n=8$ )	5	7	7	1	6	5	6
No ( $n=12$ )	8	9	7	0	8	2	3

*Abreviaturas:* AIMS, alteraciones en el inicio y mantenimiento del sueño; TRS, trastornos respiratorios del sueño; TA, trastornos del arousal/pesadillas; TTSV, trastornos en la transición sueño-vigilia; ES, excesiva somnolencia; SN, sudores nocturnos.

Se puede ver cómo dentro de los 14 pacientes con un nivel V en la GMFCS está presente alguna de las áreas o factores que afectan el sueño de la SDSC, siendo las más frecuentes las alteraciones en el inicio y mantenimiento del sueño, los trastornos respiratorios del sueño y los trastornos en la transición sueño-vigilia. En cambio, en aquellos pacientes con un nivel III-IV de la GMFCS se observa que tanto los trastornos del arousal/pesadilla y la excesiva somnolencia, no están presentes en ninguno de los dos casos.

En relación a la muestra total estudiada, el factor más frecuente fue la alteración en el inicio y mantenimiento del sueño, siendo el menos frecuente los trastornos del arousal/pesadillas.

En la *Tabla 4* se observa la fuerza de relación entre una puntuación anormal en la SDCS y factores clínicos asociados (discapacidad intelectual severa, presencia de epilepsia, un nivel V en la GMFCS y la presencia de epilepsia junto con un nivel V en la GMFCS) viendo que no existe una relación estadísticamente significativa en ninguno de los cuatro supuestos.

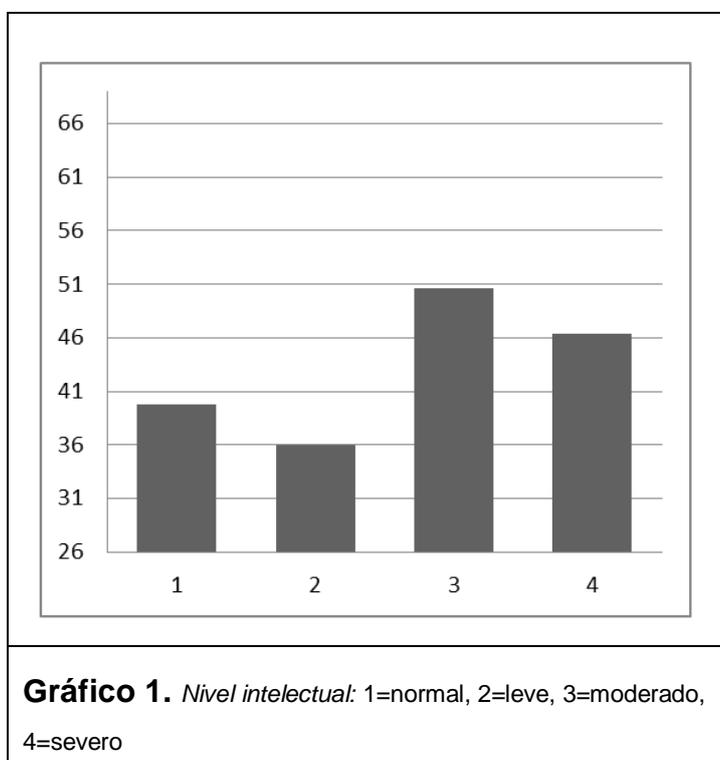
**Tabla 4** *Análisis de las variables asociadas con una puntuación total anormal en la Sleep Disturbance Scale for Children*

	OR (IC 95%)
CI: discapacidad intelectual severa	2.200 (0.237-20.39)
Presencia de epilepsia	0.833 (0.128-5.396)
GMFCS nivel V	1.800 (0.259-12.50)
Presencia de epilepsia + GMFCS nivel V	0.600 (0.041-8.732)

*Abreviaciones:* OR, odds ratio; IC, intervalo de confianza; CI: coeficiente intelectual; GMFCS, Gross Motor Function Classification System.

\*Resultados estadísticamente significativos deben ser  $p \leq 0.05$  ya que el intervalo de confianza es del 95%.

### *SDSC y nivel intelectual*



En el *Gráfico 1* se expresa la puntuación en la SDSC promedio según el nivel intelectual de los pacientes.

En caso de agrupar los pacientes en grupo, unos con cognición normal o afectación leve (cuyo promedio en la SDSC es de 42,4 vs 44,00), y otros con afectación moderada o severa, la comparación entre ambos grupos, no ofrece significación estadística.

### *SDSC y administración de fármacos*

No se ha encontrado tampoco significación estadística al agrupar a los pacientes a los que se les administra fármacos versus a los que no se les administran fármacos, ni respecto a pacientes con 4 fármacos o más y menos de 4 fármacos.

### *SDSC y epilepsia*

No se ha observado significación estadística con respecto a la puntuación SDSC entre pacientes epilépticos versus no epilépticos.

### *SDCSC y GMFCS*

Tampoco se ha visto un resultado estadísticamente significativo comparando los niveles V con los niveles III-IV de la GMFCS. Además también se realizó una relación entre la presencia de epilepsia y nivel V y tampoco se halló un resultado significativo.

## **5. DISCUSIÓN**

En el estudio realizado se han demostrado problemas de sueño en el grupo de pacientes afectos de PC moderada o severa. En cualquier caso, no se han podido establecer relaciones significativas en cuanto al grado de afectación del sueño con diversos parámetros y características clínicas de los pacientes, como sí se han indicado en otros estudios. Creemos que lo limitado del tamaño muestral ha limitado la posibilidad de extraer resultados con significación estadística. Por otra parte no se ha realizado una recogida de un grupo control comparativo de niños con desarrollo normal. Únicamente se han realizado comparaciones entre el mismo grupo de estudio teniendo en cuenta diferentes parámetros observados y obtenidos de los veinte pacientes con PC.

Los pacientes que se han tenido en cuenta para este estudio, son niños con un grado de PC severo, considerando mayor gravedad aquellos que tuvieran un nivel de disfunción motora gruesa de III a V (incluidos ambos niveles) basándonos en la Clasificación de la Función Motora Gruesa (GMFCS). Esta elección se debe a que se ha considerado que pacientes con un nivel I-II en la GMFCS presentan a priori menor posibilidad de problemas de sueño y por ende, de tener una puntuación anormal significativa en el SDSC. Además, en varios estudios (15-16) confirman que pacientes que tienen un nivel V en la GMFCS obtienen mayor número de puntuaciones anormales tanto en la puntuación total del SDSC como en la puntuación por factores con un resultado estadísticamente significativo. En este estudio observamos que el 70% tenían el máximo nivel de afectación motora (V), con presencia de tetraplejía, teniendo todos ellos, algún

grado de discapacidad intelectual. Aunque no se han conseguido resultados significativos sí se apunta hacia una peor calidad de sueño en los pacientes con discapacidad intelectual mayor.

Con respecto al cuidado de estos pacientes se observa que en la mayoría de los casos los cuidadores primarios son la familia, principalmente los padres. Pero quien responde a la encuesta, por lo general, es la madre (13/20), lo que probablemente indica que es la persona que ocupa la figura de cuidadora principal y es la que mayor tiempo pasa con el niño. Además en ningún caso los pacientes eran acostados solo por el padre; en 5 era siempre la madre, y en los otros 15 se indica que por ambos padres. En diversas publicaciones se demuestra que ser padres de un niño con PC está asociado a un incremento del riesgo de estrés psicológico y una pobre salud física, sobre todo en el cuidador primario que normalmente es la madre (23,24). Incluso, la calidad con la que duerma el cuidador primario, puede ser un potencial mediador en estos efectos físicos y psicológicos. Los datos de cumplimentación de la encuesta podrían llevar hacia una orientación de la figura de la madre como cuidadora principal. La mayor incidencia de depresión en madres con niños con PC ya ha sido estudiada y corroborada en otras publicaciones. Además podría ser razonablemente asumible que cuanto mayor sea la discapacidad del niño, mayor es la carga de cuidados y mayor es el riesgo de que los padres desarrollen alteraciones en su salud mental (23,24).

Se ha comprobado además en cuanto a los horarios que establecen los padres para acostar a los pacientes, diferencias entre días lectivos y festivos. Estas diferencias eran esperables; en cualquier caso, la hora promedio de acostarse en día lectivo es tardana, superando las 22,00h, horario que es posiblemente inadecuadamente tarde para una población infantil, aunque el número de horas que están acostados los pacientes pueden considerarse adecuadas, en torno a 10 horas en día lectivo.

En conclusión, se ha comprobado en una muestra de pacientes afectos de PC moderada y severa que presentan problemas en la calidad del sueño.

## **6. BIBLIOGRAFIA**

1. Surveillance of Cerebral Palsy in Europe (SPCE). Prevalence and characteristics of children with cerebral palsy in Europe. Dev Med Child Neurol 2002; 44: 633-40
2. Rosenbloom L. Definition and classification of cerebral palsy. Definition, classification, and the clinician. Dev Med Child Neurol 2007;109:43

3. Colver A, Fairhurst C, Pharoah POD. Cerebral palsy. *The Lancet*. e 2014;383:1240-1249.
4. Poo Arguelles P. Parálisis cerebral infantil. Actualización del concepto, diagnóstico y tratamiento. En: Asociación Española de Pediatría. Sociedad Española de Neurología pediátrica. *Protocolos de Neurología pediátrica*. 2ª ed. Madrid. AEP. 2008
5. Koman LA, Smith BP, Shilt JS. Cerebral palsy. *The Lancet*. 2004;363:1619-31.
6. Palisano R, Rosenbaum P, Walter S, Russell D, Wood E, Galuppi B. Development and reliability of a system to classify gross motor function in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol*. 1997 39:214-23.
7. MacLennan AH, Thompson SC, Gecz J. Cerebral palsy: causes, pathways, and the role of genetic variants. *Am J Obstet Gynecol*. 2015;213:779-88.
8. Sankar C, Mundkur N. Cerebral palsy-definition, classification, etiology and early diagnosis. *Indian J Pediatr*. 2005;72:865-8.
9. Cerebral Palsy || CDC [Internet]. Cerebral Palsy Home | NCBDDD | CDC. Disponible en: <https://www.cdc.gov/ncbddd/cp/index.html>
10. Van Naarden Braun K, Doernberg N, Schieve L, Christensen D, Goodman A, Yeargin-Allsopp M. Birth Prevalence of Cerebral Palsy: A Population-Based Study. *Pediatrics*. 2016;137:1-9.
11. Sellier E, Platt MJ, Andersen GL, Krägeloh-Mann I, De La Cruz J, Cans C, et al. Decreasing prevalence in cerebral palsy: a multi-site European population-based study, 1980 to 2003. *Dev Med Child Neurol*. 2016;58:85-92.
12. Sandella DE, O'Brien LM, Shank LK, Warschausky SA. Sleep and quality of life in children with cerebral palsy. *Sleep Med*. 2011;12: 252-6.
13. Newman CJ. Sleep: the other life of children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol*. 2014; 56:610-1.
14. Wayte S, McCaughey E, Holley S, Annaz D, Hill CM. Sleep problems in children with cerebral palsy and their relationship with maternal sleep and depression. *Acta Paediatr*. 2012;101:618-23.
15. Atmawidjaja RW, Wong SW, Yang WW, Ong LC. Sleep disturbances in Malaysian children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol*. 2014;56:681-5.
16. Romeo DM, Brogna C, Musto E, Baranello G, Pagliano E, Casalino T, et al. Sleep

disturbances in preschool age children with cerebral palsy: a questionnaire study. *Sleep Med.* 2014;15:1089-93.

17. Romeo DM, Brogna C, Quintiliani M, Baranello G, Pagliano E, Casalino T, et al. Sleep disorders in children with cerebral palsy: neurodevelopmental and behavioral correlates. *Sleep Med.* 2014;15: 213-8.
18. Erwin AM, Bashore L. Subjective Sleep Measures in Children: Self-Report. *Front Pediatr* Disponible en: <http://journal.frontiersin.org/article/10.3389/fped.2017.00022/full>
19. Shahid A, Wilkinson K, Marcu S, Shapiro CM. Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC). En: Shahid A, Wilkinson K, Marcu S, Shapiro CM, editores. *STOP, THAT and One Hundred Other Sleep Scales* [Internet]. Springer New York; 2011. 331-3. Disponible en: [http://link.springer.com.ponton.uva.es/chapter/10.1007/978-1-4419-9893-4\\_82](http://link.springer.com.ponton.uva.es/chapter/10.1007/978-1-4419-9893-4_82)
20. Bruni O, Ottaviano S, Guidetti V, Romoli M, Innocenzi M, Cortesi F, et al. The Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC) Construction and validation of an instrument to evaluate sleep disturbances in childhood and adolescence. *J Sleep Res.* 1996;5:251-61.
21. Romeo DM, Bruni O, Brogna C, Ferri R, Galluccio C, De Clemente V, et al. Application of the Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC) in preschool age. *Eur J Paediatr Neurol.* 2013;17:374-82.
23. Raina P, O'Donnell M, Rosenbaum P, Brehaut J, Walter SD, Russell D, et al. The health and well-being of caregivers of children with cerebral palsy. *Pediatrics.* 2005;115: e626-636.
24. Unsal-Delialioglu S, Kaya K, Ozel S, Gorgulu G. Depression in mothers of children with cerebral palsy and related factors in Turkey: a controlled study. *Int J Rehabil Res Int Z Rehabil Rev Int Rech Readaptation.* 2009;32:199-204.
25. Adiga D, Gupta A, Khanna M, Taly AB, Thennarasu K. Sleep disorders in children with cerebral palsy and its correlation with sleep disturbance in primary caregivers and other associated factors. *Ann Indian Acad Neurol.* 2014;17:473-6.
26. American Psychiatric Association 2013. *Diagnostic and statistical manual of mental disorders (5th ed)* Washington DC.

## **7. ANEXO**

### **A. Consentimiento informado**



## **HOJA DE INFORMACIÓN AL PARTICIPANTE INCLUIDO EN UN ESTUDIO DE INVESTIGACIÓN**

---

**TÍTULO:** ESTUDIO DEL SUEÑO EN PACIENTES PEDIÁTRICOS AFECTOS DE PARALISIS CEREBRAL Y OTRAS ENCEFALOPATIAS

**INVESTIGADOR RESPONSABLE:** **Ramón Cancho Candela**, Médico especialista en Pediatría, Jefe de Unidad, Servicio de Pediatría hospital Universitario Río Hortega de Valladolid.

Este documento tiene por objeto ofrecerle información sobre un estudio de investigación en el que se le invita a participar. Este estudio se está realizando en el Servicio de Pediatría del Hospital Río Hortega y ha sido aprobado por el Comité Ético de Investigación del Área Oeste de Valladolid.

Si decide participar en el mismo, debe recibir información personalizada del investigador, leer antes este documento y hacer todas las preguntas que necesite para comprender los detalles sobre el mismo. Si así lo desea, puede llevar el documento, consultarlo con otras personas, y tomarse el tiempo necesario para decidir si participar o no.

La participación en este estudio **es completamente voluntaria**. Vd. puede decidir no participar o, si acepta hacerlo, cambiar de opinión retirando el consentimiento en cualquier momento sin obligación de dar explicaciones. Le aseguramos que esta decisión no afectará a la relación con su médico ni a la asistencia sanitaria a la que Vd. tiene derecho.

El estudio consiste en la **cumplimentación de un cuestionario en relación con el sueño** de su hijo. Se conoce que el sueño de los pacientes afectos de Parálisis Cerebral Infantil (PCI) está a menudo alterado. Queremos investigar respecto la relación de los problemas de sueño de estos pacientes con su grado de discapacidad motora y con otras patologías comórbiles que pueda presentar, para ahondar en la relación causa-efecto entre el sueño y estos problemas



### **C. Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC) o test de Bruni**

**Cuestionario “Bruni”** (*Journal Sleep Research*. 1996) 5, 251-261. The **Sleep Disturbance Scale for Children (SDSC)** Construction and validation of an instrument to evaluate sleep disturbances in childhood and adolescence. Bruni et al.

---

Por favor responda a las preguntas siguientes relacionadas con el comportamiento del niño o niña tanto durante el sueño como cuando está despierto.

Las preguntas hacen referencia al comportamiento habitual (en los últimos seis meses), no necesariamente el observado en los últimos días porque puede que no sea representativo si no se ha encontrado bien:

**Fecha en la que ha rellenado la encuesta:**

**Encuesta rellenada por: madre: padre ambos:**

Tache la casilla que responda a las siguientes preguntas

	1	2	3	4	5
1. ¿Cuántas Horas duerme la mayoría de las noches?	9-11	8-9	7-8	5-7	<5
2. ¿Cuánto tarda en dormirse (minutos)?:	<15	15-30	30-45	45-60	>60

En la puntuación de las siguientes respuestas valore de esta forma:

1: Nunca

2: Ocasionalmente (una o dos veces al mes o menos)

3: algunas veces (una o dos veces por semana)

4: a menudo (de tres a cinco veces por semana)

5: siempre (diariamente)

3. Se va a la cama de mal humor	1	2	3	4	5
4. Tiene dificultad para coger el sueño por la noche	1	2	3	4	5
5. Parece ansioso o “miedoso” cuando cae dormido	1	2	3	4	5
6. Sacude o agita partes del cuerpo al dormirse	1	2	3	4	5
7. Realiza acciones repetitivas tales como rotación de la cabeza para dormirse	1	2	3	4	5

8. Tiene escenas de “sueños” al dormirse (como alucinaciones)	1	2	3	4	5
9. Suda excesivamente al dormirse	1	2	3	4	5
10. Se despierta más de dos veces por noche	1	2	3	4	5
11. Después de despertarse por la noche, tiene dificultades para volver a dormirse	1	2	3	4	5
12. Tiene tirones o sacudidas en las piernas mientras duerme, cambia de posición o da “patadas” a la ropa de cama	1	2	3	4	5
13. Tiene dificultades para respirar durante la noche	1	2	3	4	5
14. Da “boqueadas” para respirar durante el sueño (pausas de respiración durante el sueño, apneas)	1	2	3	4	5
15. Ronca	1	2	3	4	5
16. Suda excesivamente durante la noche	1	2	3	4	5
17. Ha observado que camina dormido (sonambulismo)	1	2	3	4	5
18. Ha observado que habla dormido	1	2	3	4	5
19. Rechina los dientes dormido	1	2	3	4	5
20. Se despierta con un chillido o confundido de forma que aparentemente no les reconoce, y no recuerda nada al día siguiente	1	2	3	4	5
21. Tiene pesadillas que no recuerda al día siguiente	1	2	3	4	5
22. Es difícil despertarle por la mañana	1	2	3	4	5
23. Al despertar por la mañana parece cansado	1	2	3	4	5
24. Parece que no pueda moverse al despertarse por la mañana	1	2	3	4	5
25. Tiene somnolencia diurna	1	2	3	4	5
26. Se duerme de repente en situaciones inapropiadas	1	2	3	4	5

