

ORIGINAL

Caracterización clínico-patológica de niños con disfagia, impacto familiar y calidad de vida de sus cuidadores



Pilar Ortiz Pérez^{a,*}, Inés Valero Arredondo^a, Encarnación Torcuato Rubio^a,
Andrés Rosa López^b, Pascual García-Herrera Taillifer^b y Víctor Manuel Navas-López^a

^a Sección de Gastroenterología y Nutrición Infantil, Hospital Regional Universitario de Málaga, Málaga, España

^b Sección de Radiología Pediátrica, Hospital Regional Universitario de Málaga, Málaga, España

Recibido el 25 de febrero de 2021; aceptado el 14 de junio de 2021

Disponible en Internet el 10 de julio de 2021

PALABRAS CLAVE

Disfagia;
Trastornos
deglutorios;
Calidad de vida;
Sobrecarga cuidador;
Consulta monográfica

Resumen

Introducción: La disfagia orofaríngea (DOF) puede resultar infradiagnosticada en determinados grupos de población pediátrica. Atender las necesidades de estos pacientes puede derivar en una sobrecarga de sus cuidadores.

Objetivos: Describir las características epidemiológicas y clínicas de los pacientes evaluados tras la creación de una consulta monográfica de DOF (C-DOF), estudiar cambios a nivel nutricional, así como la repercusión en la calidad de vida relacionada con la salud (CVRS) de los cuidadores.

Material y métodos: Estudio observacional descriptivo de los pacientes evaluados en una C-DOF desde su puesta en marcha. Para evaluar la CVRS, se diseña una encuesta *ad hoc* adaptada del *Swallowing Quality of Life Questionnaire* de población adulta.

Resultados: Se evaluaron 103 pacientes (85,4% con patología neurológica de base). Se realizó estudio videofluoroscópico a 51 pacientes (49,5%), reportando alteraciones combinadas de fases oral y faríngea un 64,7%. Existió una correlación directamente proporcional entre la gravedad de la DOF y la presencia de aspiraciones, así como con la afectación motora del paciente. En cuanto a la evaluación antropométrica, se observó mejoría en z-score de peso (+0,14 DE), de talla (+0,17 DE) y de IMC (+0,16 DE). El 46,2% de los cuidadores refirieron que la DOF interfiere negativamente en las actividades básicas de la vida diaria. El incremento en calidad de vida, tras la evaluación en la C-DOF, de forma global resultó estadísticamente significativo.

Conclusiones: La C-DOF proporciona una atención especializada, repercute positivamente en el estado nutricional de los pacientes, así como en los cambios percibidos en la CVRS, con probable impacto en los cuidadores.

© 2021 Asociación Española de Pediatría. Publicado por Elsevier España, S.L.U. Este es un artículo Open Access bajo la licencia CC BY-NC-ND (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

* Autor para correspondencia.

Correo electrónico: portizp@gmail.com (P. Ortiz Pérez).

KEYWORDS

Dysphagia;
Swallowing disorders;
Quality of life;
Caregiver burden;
Specialized
consultant

Clinicopathological characterization of children with dysphagia, family impact and health-related quality of life of their caregivers

Abstract

Introduction: Oropharyngeal dysphagia (DOF) without proper evaluation can be underdiagnosed in certain groups of the pediatric population. Meeting the needs of these patients can lead to an overload of their caregivers.

Objectives: To describe the epidemiological and clinical characteristics of the patients evaluated after starting a monographic DOF clinic (C-DOF) and study whether there are changes at the nutritional level, as well as the burden and impact that caregivers find on quality of life related to health (HRQOL).

Material and methods: Descriptive observational study of patients evaluated in a C-DOF from its start-up. To evaluate HRQOL, an ad hoc survey adapted from the Swallowing Quality of Life Questionnaire of the adult population was designed.

Results: 103 patients were evaluated, 85.4% presenting some neurological disease. A videofluoroscopic study was performed in 51 patients (49.5%), reporting combined alterations in both the oral and pharyngeal phases in 64.7% of them. There was a directly proportional correlation between the severity of the DOF and the presence of aspirations, as well as with the patient's motor impairment. Regarding the anthropometric evaluation, there was a trend toward improvement in weight z-score (+0.14 SD), height (+0.17 SD) and BMI (+0.16 SD). Out of 46.2% of the caregivers reported that the DOF problem interfered negatively in the basic activities of daily life. The increase in HRQOL, after the evaluation in the monographic DOF clinic, was statistically significant overall.

Conclusions: The monographic DOF clinic provided specialized care, impacting positively at the nutritional status of patients, as well as perceived changes in HRQOL, with a probable impact on caregivers.

© 2021 Asociación Española de Pediatría. Published by Elsevier España, S.L.U. This is an open access article under the CC BY-NC-ND license (<http://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>).

Introducción

La disfagia orofaríngea (DOF) constituye un síntoma prevalente en determinados grupos de población pediátrica¹, sobre todo en pacientes neurológicos. Se estima que la incidencia de la DOF en pediatría es del 1%² y los trastornos de alimentación en un 25-45%, si bien la incidencia de DOF de forma global está aumentando³, siendo mucho mayor en poblaciones de riesgo como la parálisis cerebral, que constituye la afección neurológica más frecuente asociada a disfagia, o en los trastornos de neurodesarrollo⁴. Sin embargo, en muchas ocasiones resulta infradiagnosticada, pudiendo afectar de forma importante a la salud y el futuro desarrollo del niño.

En pediatría resulta difícil estandarizar métodos de cribado de disfagia objetivos no observador-dependientes. Las escalas de severidad de la disfagia son instrumentos que pretenden facilitar la valoración de los pacientes resultando útiles tanto para individualizar el abordaje como para evaluar la eficacia del tratamiento rehabilitador. Dentro de las más utilizadas se encuentran las escalas *Dysphagia Outcome and Severity Scale* (DOSS)⁵, *Food Intake Level Scale* (FIS)⁶ y *Functional Oral Intake Scale* (FOIS)⁷, todas diseñadas para población adulta. La escala FOIS facilita una visión funcional global de la severidad de la disfagia sirviendo, además, para identificar cambios en la alimentación oral en el tiempo (escalada en 7 niveles). Aunque ha sido utilizada en

pacientes pediátricos⁸, versiones adaptadas a población infantil han sido desarrolladas recientemente^{9,10}, que la simplifica a 5 niveles. En parálisis cerebral la escala *Eating and Drinking Ability Classification System* (EDACS)¹¹ se desarrolló para facilitar la descripción de las habilidades en alimentación, según las alteraciones que presenten en seguridad y eficacia.

Los objetivos del presente estudio fueron evaluar el estado nutricional y las características clínicas de los pacientes afectados de disfagia atendidos en una consulta monográfica de DOF infantil y su evolución posterior, así como estimar el impacto en la calidad de vida relacionada con la salud de sus cuidadores.

Material y método

Estudio descriptivo observacional de niños evaluados en la consulta monográfica de disfagia infantil en el periodo comprendido entre marzo de 2019 y marzo de 2020.

Se analizaron las siguientes variables: edad, enfermedad de base, procedencia de derivación a la consulta de disfagia y motivos de la misma, evaluación nutricional con antropometría, clasificación de la afectación motora mediante la escala *Gross Motor Function Classification System* (GMFCS)¹², funcionalidad de la ingesta oral según la escala FOIS (se utilizaron versiones adaptadas para niños

hasta los 7 años de edad)^{9,10}, realización de videofluoroscopia (VFS) para el diagnóstico y en caso de evaluarse presencia o no de signos de disfagia (alteraciones en fase oral y/o faríngea), presencia de aspiraciones y/o penetraciones, tipo de aspiración (silente o con tos), valoración de la gravedad de la disfagia según la escala EDACS¹¹, rehabilitación logopédica específica en centro externo, indicaciones de dispositivos externos de alimentación y evolución antropométrica durante el seguimiento.

Para el estudio antropométrico se utilizaron los estándares de la Organización Mundial de la Salud en menores de 5 años¹³ y los estudios españoles de crecimiento¹⁴ en el resto, siguiendo de esta manera las recomendaciones de la European Society for Paediatric Gastroenterology, Hepatology and Nutrition (ESPGHAN) de 2017 de emplear los estándares poblacionales de referencia¹⁵. En aquellos pacientes que no pudieron tallarse en bipedestación de forma adecuada se utilizó estimación de la misma mediante la fórmula de Stevenson¹⁶ a partir de la longitud de la tibia (LT): $talla = LT \times 3,26 + 30,8 \text{ cm}$.

Se realizó VFS con fluoroscopia digital de marca Siemens modelo *Luminus Fusion*. Se utilizó la técnica de fluoroscopia pulsada obteniendo imágenes en movimiento en tiempo real con frecuencia de 15 pulsos por segundo (pps).

El tiempo de escopia fue controlado por un radiólogo. Se utilizaron colimadores para minimizar la radiación dispersa y el control automático de dosis de exposición. Se colocó la mesa en posición vertical y se posicionó a los pacientes sentados en silla adaptada (a 90°) o con silla de retención infantil y sistema de anclaje de tres puntos en caso necesario, con el tubo de rayos X en proyección lateral y el foco centrado en la orofaringe del paciente. Todo el procedimiento se realizó con monitorización bajo pulsioximetría continua. Se administró contraste hidrosoluble Visipaque®, en distintos volúmenes y texturas (néctar, líquido y pudín) previamente preparadas por el equipo médico. En caso de objetivar aspiración de contraste a vía aérea, no se realizó progresión de exploración con texturas más líquidas ni mayores volúmenes.

Se diseñó una encuesta *ad hoc*, adaptada del *Swallowing Quality of Life Questionnaire* de población adulta (SWAL-QoL)^{17,18}, enviada por vía telemática a los cuidadores principales de aquellos pacientes que al menos hubieran completado 3 meses de seguimiento, tras obtener su consentimiento. La encuesta se dividió en dos partes, la primera referente a la situación previa a la evaluación en la consulta monográfica y la segunda tras ser valorado y recibir recomendaciones específicas. El SWAL-QoL evalúa la auto-percepción de calidad de vida (QoL) de los pacientes con disfagia, se ha desarrollado y validado en varios idiomas, entre ellos el español¹⁸, y se ha utilizado para valorar el impacto de DOF en pacientes geriátricos, afectos de cáncer de cabeza y cuello^{19,20}, enfermedad de Parkinson^{21,22}, accidente cerebrovascular²³ y población adulta con parálisis cerebral²⁴. Sin embargo, en pediatría no existe todavía una herramienta específica y validada para valorar la QoL de los pacientes con DOF.

La encuesta sobre actividades básicas de la vida diaria (ABVD) (*anexo*) se estructuró en 20 ítems, con 5 posibles respuestas cada uno, con sistema de puntuación tipo Likert, respecto a la frecuencia de lo cuestionado (de 1 a 5, desde situación más desfavorable a más favorable), midiendo de

esta forma la percepción que la persona entrevistada tenía sobre cada una de las dimensiones mencionadas. Para la evaluación, las preguntas se agruparon en 6 dominios, y se realizó una transformación posterior a una escala porcentual de 0 a 100 (a mayor puntuación, mayor calidad de vida).

Para el análisis estadístico, se utilizó el software SPSS 21 (SPSS Inc., Chicago, IL, EE.UU.). Se determinó el ajuste de las variables a la normalidad mediante el test de Shapiro-Wilk y Kolmogórov-Smirnov. Se realizó un estudio descriptivo de la muestra y de las variables con valores medios, desviación estándar, mediana y rango intercuartílico, según ajuste a un modelo normal o no. Para variables cualitativas se utilizó el test chi-cuadrado o de Fisher, y se usó la t de Student para muestras relacionadas para comparar medias, una vez comprobada la normalidad de la muestra, y la prueba de los rangos con signo de Wilcoxon en caso contrario. El análisis de correlación entre variables ordinales se realizó mediante prueba de Spearman. Se ha utilizado la prueba de Kruskal-Wallis para determinar si existen diferencias significativas entre los distintos grupos. Se han realizado comparaciones con la corrección de Bonferroni para comparaciones múltiples. Para evaluar la consistencia interna de la encuesta elaborada, se realizó estimación con el alfa de Cronbach, como medida de la intercorrelación entre los ítems que conformaban la encuesta. Un resultado alfa de Cronbach superior a 0,6 se consideró aceptable. Se consideró significativo un valor de $p < 0,05$.

Resultados

Se evaluaron 103 pacientes, 56 varones (54,4%), siendo el 73,8% de raza caucásica y el 25,2% magrebí. Las características clínicas y procedencia de derivación de los pacientes aparecen en la *tabla 1*, destacando que el 85,4% de los mismos tenían patología neurológica de base (parálisis cerebral, encefalopatía epiléptica o trastornos neurodegenerativos, entre otros), y según la clasificación de la actividad motora gruesa se agrupaban la mitad de los pacientes con un GMFCS \leq III, y la otra mitad con un GMFCS entre IV y V. Respecto a los dispositivos externos de alimentación, en la primera evaluación, 12 pacientes (11,6%) llevaban sonda nasogástrica (SNG), un paciente (1%) sonda nasoduodenal y 4 pacientes (4,2%) eran portadores de gastrostomía (PEG), 3 de estos con abordaje endoscópico percutáneo y un paciente se había colocado sonda mediante cirugía (junto a funduplicatura Nissen).

Para la evaluación de DOF, se realizó una valoración clínica por parte del facultativo especialista, ya que no se contaba con logopeda especializada en deglución en el primer año de implantación de la consulta monográfica de DOF. Todos los pacientes completaron una evaluación anatómico-funcional oromotora y posterior observación directa de la ingesta. En aquellos casos que presentaron clínica sugestiva de disfagia, se indicó la realización de prueba instrumental (VFS).

De los 103 pacientes evaluados, se realizó VFS a 51 de ellos (49,5%), resultando el 78,4% patológicas. Desglosando por fases, 7 pacientes (13,7%) presentaron afectación exclusiva de fase oral, 2 pacientes (3,9%) de fase faríngea y 34 (66,6%) tuvieron alteraciones en ambas (*fig. 1*). A mayor afectación motora se observó mayor proporción de

Tabla 1 Características clínicas de los pacientes evaluados en C-DOF (n = 103)

	N	%
Sexo (H/M)	56 / 47	54,4/45,6
Edad primera evaluación (años, mediana, RIQ)	4,5(1,8-9,4)	
Raza (caucásica/magrebí)	76/26	73,8/25,2
Enfermedad de base		
<i>Sano</i>	4	3,9
<i>Parálisis cerebral</i>	22	21,4
<i>Trastorno del neurodesarrollo</i>	8	7,8
<i>Trastorno neurodegenerativo</i>	16	15,5
<i>Encefalopatía epiléptica</i>	16	15,5
<i>DCA</i>	5	4,9
<i>Anomalía craneofacial</i>	6	5,8
<i>Patología cardiorrespiratoria</i>	3	2,9
<i>Prematuridad</i>	2	1,9
<i>Genopatía</i>	21	20,4
Origen derivación		
<i>Atención Primaria</i>	3	2,9
<i>Atención Especializada</i>	89	86,4
<i>Gastroenterología</i>	41	46,6
<i>Neuropediatría</i>	19	21,6
<i>Cuidados Paliativos/Unidad de Pacientes Crónicos Complejos</i>	9	10,2
<i>Neumología</i>	5	5,7
<i>Rehabilitación</i>	4	4,5
<i>Otras</i>	10	11,36
<i>Otro centro</i>	11	10,7
Motivo derivación		
<i>Tos con la ingesta</i>	38	36,9
<i>Dificultad expansión dieta oral</i>	21	20,4
<i>Posible síndrome aspirativo crónico</i>	14	13,6
<i>Desnutrición</i>	12	11,7
<i>Otros</i>	18	17,5
GMFCS		
<i>I</i>	34	33
<i>II</i>	12	11,6
<i>III</i>	7	6,7
<i>IV</i>	11	10,7
<i>V</i>	39	37,9
Infecciones respiratorias repetición (Sí/No)	32	33
Antropometría al diagnóstico (media ± DE)		
<i>Z-score peso</i>	-1,5 ± 1,46	
<i>Z-score talla</i>	-2,01 ± 2,06	
<i>Z-score IMC</i>	-0,73 ± 1,49	
Diferencias z-score tras seguimiento (media ± DE / p valor)		
<i>Diferencia Z-score peso</i>	0,11 ± 0,86	0,25
<i>Diferencia Z-score talla</i>	0,14 ± 0,94	0,23
<i>Diferencia Z-score IMC</i>	0,06 ± 1,06	0,63
Tiempo seguimiento en meses (mediana, RIQ)	6,54 (0,13-12,12)	
Presencia de dispositivo externo de alimentación		
<i>Primera evaluación (Sí/No)</i>	16	16,7
<i>Última evaluación (Sí/No)</i>	24	26,1

C-DOF: consulta de disfagia orofaríngea; DCA: daño cerebral adquirido; DE: desviación estándar; GMFCS: *Gross Motor Functional Classification System*; IMC: índice de masa corporal; RIQ: rango intercuartílico.

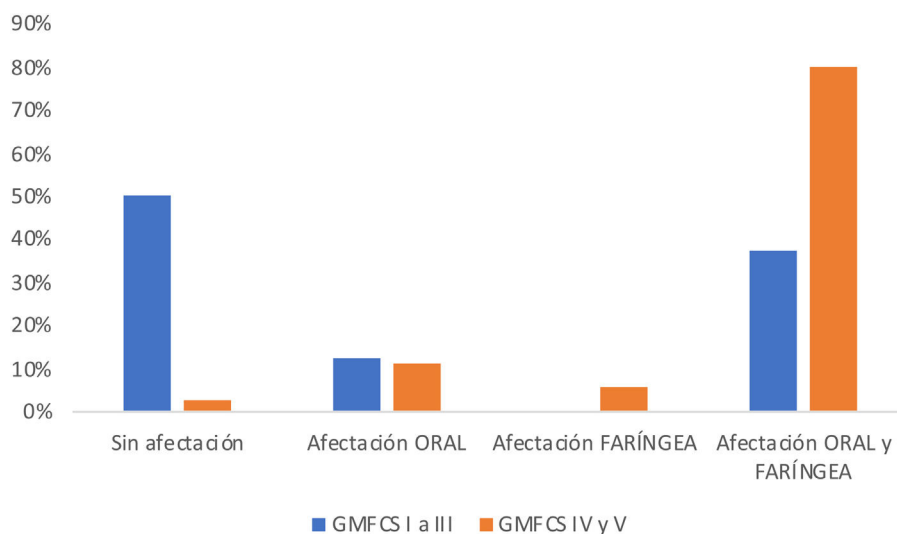


Figura 1 Porcentajes de afectación de las distintas fases de deglución tras evaluación videofluoroscópica según grado afectación GMFCS agrupado. GMFCS: *Gross Motor Funcional Classification System*.

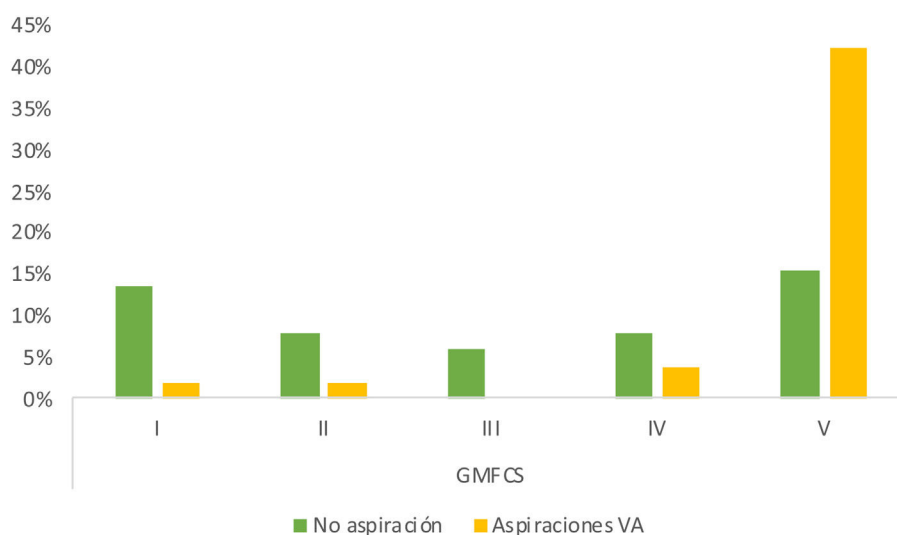


Figura 2 Presencia de aspiraciones a VA según GMFCS (porcentuado). GMFCS: *Gross Motor Funcional Classification System*; VA: vía aérea.

pacientes con afectación simultánea de fases oral y faríngea (grupo GMFCS IV y V) de forma significativa ($p=0,021$). También se observó una asociación significativa entre GMFCS y la presencia de aspiraciones ($p<0,05$). La diferencia de prevalencia de aspiración en los niños con mayor afectación motora (grupo GMFCS IV y V) es del 52,2% más que en los niños con GMFCS ≤ 3 , significativa con un intervalo de confianza del 95% de 0,32 a 0,76. Las aspiraciones se objetivaron en un 50% de los pacientes, y de ellos hasta en el 80,8% fueron silentes (fig. 2). En los pacientes con mayor afectación motora (GMFCS IV y V) existe una diferencia media entre la frecuencia de aspiraciones silentes respecto a las encontradas en el grupo de menor afectación motora (GMFCS ≤ 3) del 87,5%. No se detectaron desaturaciones de oxígeno $< 90\%$ durante la monitorización de los procedimientos en ningún paciente. Profundizando sobre los valores obtenidos sobre las alteraciones en la seguridad detectadas, utilizando la

escala *Penetration Aspiration Scale* (PAS), en el 21,56% de los pacientes no se objetiva entrada de material a vía aérea (PAS = 1) y de estos el 36,4% tenían un GMFCS I; penetraciones a vía aérea, entendidas como una puntuación PAS entre 2 y 5, se observaron en 13 pacientes (25,5%), y aspiraciones (PAS de 6 a 8) en 27 pacientes (52,9%), en este grupo existe asociación significativa con la clasificación motora gruesa GMFCS, dado que 22/51 pacientes tenían GMFCS IV o V ($p=0,66$, $p<0,05$). Se ha encontrado diferencia estadísticamente significativa entre los diferentes grupos GMFCS en cuanto a la puntuación PAS categorizada ($\chi^2(4)=21,45$, $p<0,01$). En el análisis *post-hoc* se han encontrado diferencias entre GMFCS I y GMFCS V ($p<0,01$).

Se observó correlación alta y estadísticamente significativa entre el grado de afectación motora (GMFCS) y la gravedad de la disfagia (evaluada mediante EDACS) ($\rho=0,75$, $p<0,05$), y en este mismo sentido también se

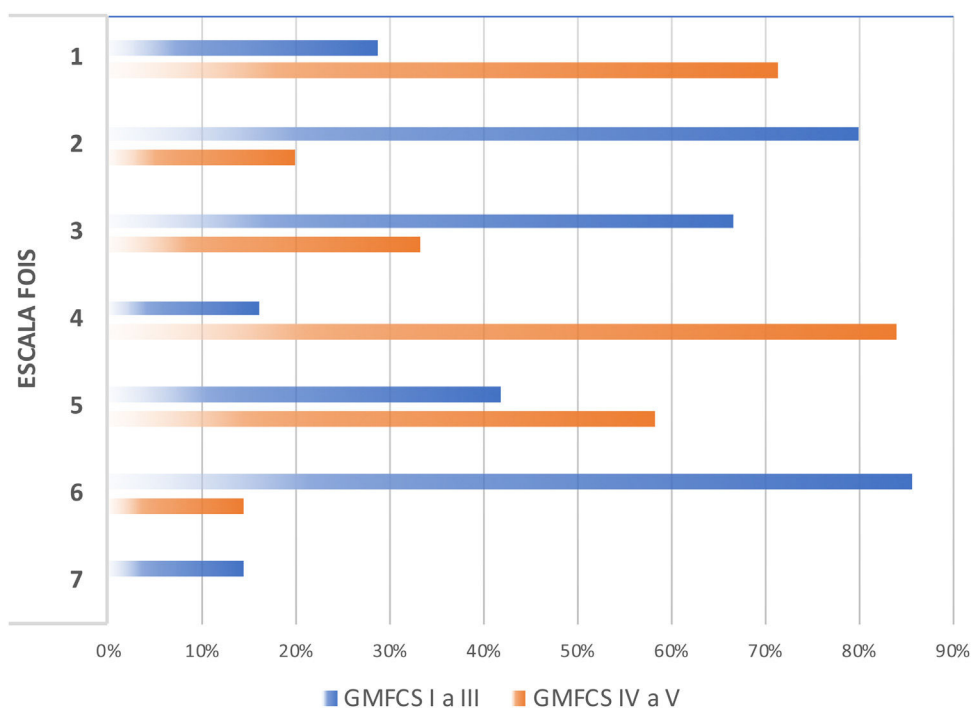


Figura 3 Valores porcentuados escala FOIS según GMFCS. FOIS: *Functional Oral Intake Scale*.- 1: nada por vía oral; 2: depende de dispositivo alimentación (DEA) con mínima ingesta oral; 3: DEA con ingesta oral alimento o líquido; 4: vía oral con una única consistencia; 5: vía oral con múltiples consistencias con necesidad de preparación especial o compensaciones; 6: vía oral con múltiples consistencias sin necesidad de preparación especial o compensaciones, con restricciones alimentarias; 7: vía oral sin restricciones; GMFCS: *Gross Motor Funcional Classification System*.

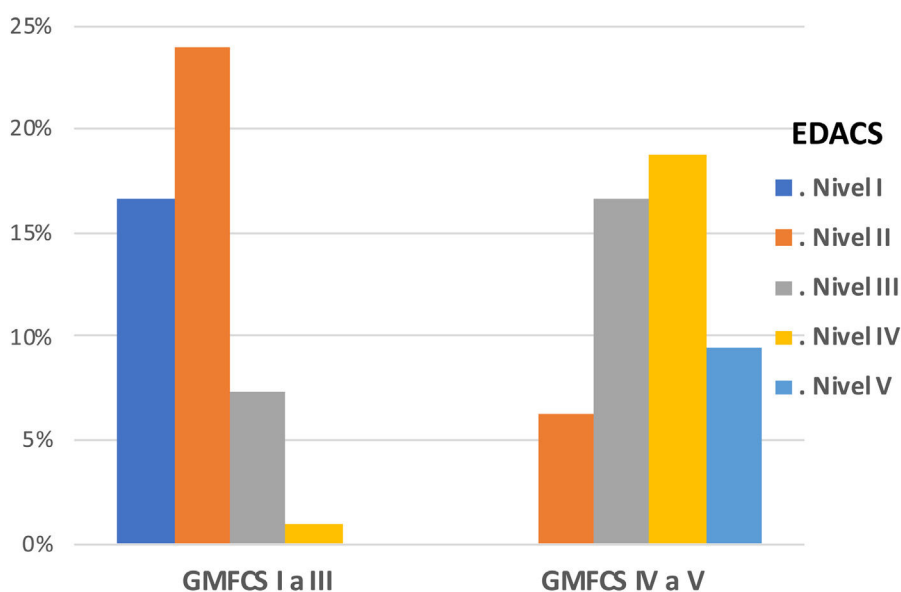


Figura 4 Valores porcentuados escala EDACS según GMFCS agrupado. EDACS: *Eating and Drinking Ability Classification System*.- Nivel I: come y bebe de forma segura y eficaz; Nivel II: come y bebe de forma segura con limitaciones de eficacia; Nivel III: come y bebe con limitaciones en eficacia y seguridad; Nivel IV: come y bebe con limitaciones significativas en seguridad; Nivel V: incapaz de comer o beber de forma segura.

obtuvo relación estadísticamente significativa entre GMFCS y la escala funcional de ingesta (FOIS) ($\rho = -0,44$, $p < 0,05$) (figs. 3 y 4). En cuanto a las escalas FOIS adaptadas a población pediátrica, no se demuestra asociación en los menores

de un año con la escala FOIS-infantil y, sin embargo, sí existe correlación moderada con la versión FOIS-pediátrica ($\rho = -0,34$, $p < 0,05$) y una mayor afectación motora. No se encontraron diferencias significativas entre las medianas de

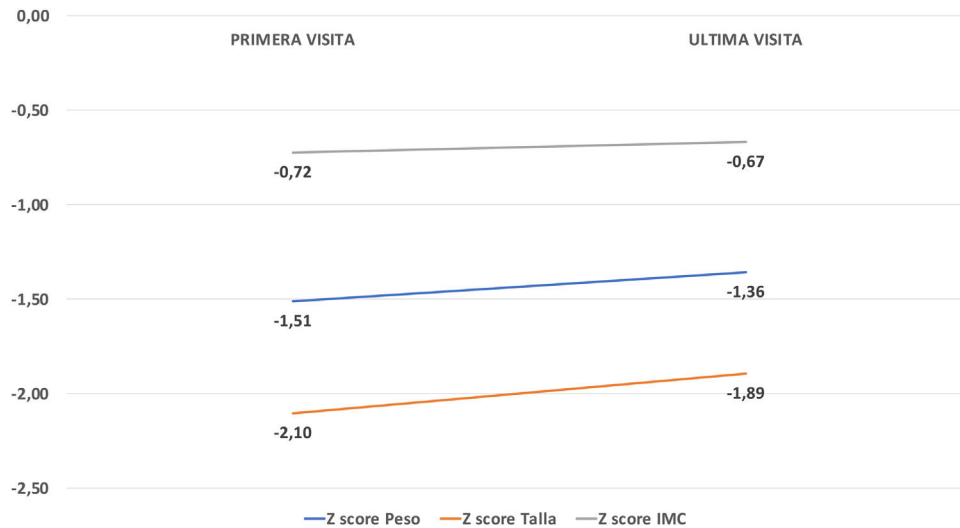


Figura 5 Evolución de valores antropométricos (promedios z-score).

las escalas de severidad FOIS entre las puntuaciones obtenidas en primera valoración ($Me = 3$) y final de seguimiento ($Me = 2,5$) en la última visita de los pacientes ($z = -1,19$; $p > 0,05$), ni en sus versiones adaptadas a población pediátrica ($z = -1,23$; $p > 0,05$) ni infantil. Tampoco hubo variación en la capacidad para comer y beber según la escala EDACS ($z = -0,58$; $p > 0,05$).

De todos los pacientes evaluados, el 55,4% trabajaban con logopeda en centro externo (Atención Temprana o consultas privadas), al no contar con especialista en logopedia de deglución durante el primer año de implantación de la consulta monográfica de DOF. Tras completar evaluación con una exhaustiva observación de ingesta y la realización de VFS, en los casos seleccionados, se optimizó la adaptación de texturas y volúmenes de la dieta al 51% de los pacientes de forma individualizada (según los resultados funcionales obtenidos de seguridad y eficacia).

La mediana de seguimiento fue de 6,54 meses (RIQ 0,13:12,12). Se observó una mejoría en todos los parámetros antropométricos: z-score peso [$(-1,5 \pm 1,46)$ a $(-1,36 \pm 1,7)$, $p = 0,21$]; z-score talla [$(-2,02 \pm 2,06)$ a $(-1,85 \pm 1,8)$, $p = 0,15$] y z-score de IMC [$(-0,73 \pm 1,49)$ a $(-0,57 \pm 1,62)$, $p = 0,73$] (fig. 5). En cuanto a los dispositivos externos de alimentación, se indicó colocación de gastrostomía por presentar disfagia grave no compensable a 12 pacientes (12,6%), llegando por tanto el total de pacientes portadores de PEG en la última evaluación al 16,8%; 5 dispositivos fueron retirados por buena evolución (todos ellos estuvieron con SNG previa). El 75% de las gastrostomías se colocaron vía endoscópica percutánea y el resto con abordaje quirúrgico (a un paciente se le realizó funduplicatura Nissen en el mismo acto y a otro paciente se le realizó gastroyeyunostomía).

Se enviaron encuestas relacionadas con aspectos de calidad de vida a los cuidadores de 70 pacientes de la muestra. El 74,3% respondió a ambas partes y un 19% únicamente a la primera (no teniendo en cuenta en el análisis por pares). Al 88% de los cuidadores les resultó fácil responderlo. El 61% de los encuestados objetivaron mejoría de forma global, el 4,5% no advirtió cambios, y el 34,1% percibió empeoramiento. En cuanto a la interferencia con ABVD,

el 46,2% de los encuestados respondieron que el problema de DOF de sus hijos les afecta mucho o bastante, el 26,9% de los cuidadores respondieron que poco, el 19,2% que muy poco y un 7,7% refirió no encontrar interferencias llamativas. El incremento en calidad de vida de forma global resultó estadísticamente significativo [Global: 59 (RIQ 51:71) vs. 70 (RIQ 51:83,5), $p = 0,036$]. Por subdominios, se observó mejoría en todos ellos, salvo en calidad de sueño que no se modificó: Sobrecarga familiar, 60 (RIQ 48-68) vs. 64 (RIQ 44-84), $p = 0,31$; Síntomas: 50 (RIQ 30-70) vs. 70 (RIQ 50-80), $p = 0,086$; Ánimo: 56,6 (RIQ 46,6-73,3) vs. 71,6 (RIQ 53,3-87,5), $p = 0,04$; Miedo: 55 (RIQ 30-80) vs. 70 (RIQ 57,5-90), $p = 0,03$; Esfera social: 70 (RIQ 46,2-80) vs. 80 (RIQ 48,7-100), $p = 0,39$; Calidad de sueño: 80 (RIQ 40-100) vs. 80 (RIQ 40-100), $p = 0,65$. En cuanto a la interferencia en las actividades de vida cotidiana, permanecieron sin cambios: 60 (RIQ 53,1-80) vs. 60 (RIQ 57,2-80), $p = 0,40$. En la figura 6 se presentan los promedios porcentuales de cada subdominio de la encuesta de forma comparativa.

La fiabilidad de la encuesta fue muy buena, obteniéndose un coeficiente de consistencia interna (alfa de Cronbach) de 0,87 para la encuesta en su conjunto; analizando por subdominios, los valores se encontraban en un rango entre $\alpha = 0,57$ para el subdominio de síntomas y $\alpha = 0,79$ para el subdominio de estado de ánimo, lo que significa que cumplen con niveles aceptables de consistencia. La pregunta sobre la calidad de sueño de forma aislada no presentó nivel de fiabilidad suficiente ($\alpha < 0,5$).

Discusión

Una correcta evaluación de los trastornos deglutorios en pediatría, mediante la utilización de técnicas instrumentales estandarizadas, y su seguimiento posterior en una consulta especializada, resultan imprescindibles para el correcto abordaje y rehabilitación de estos, disminuyendo de esta manera morbilidades que suelen acompañar a estos pacientes como la desnutrición y posibles complicaciones respiratorias.

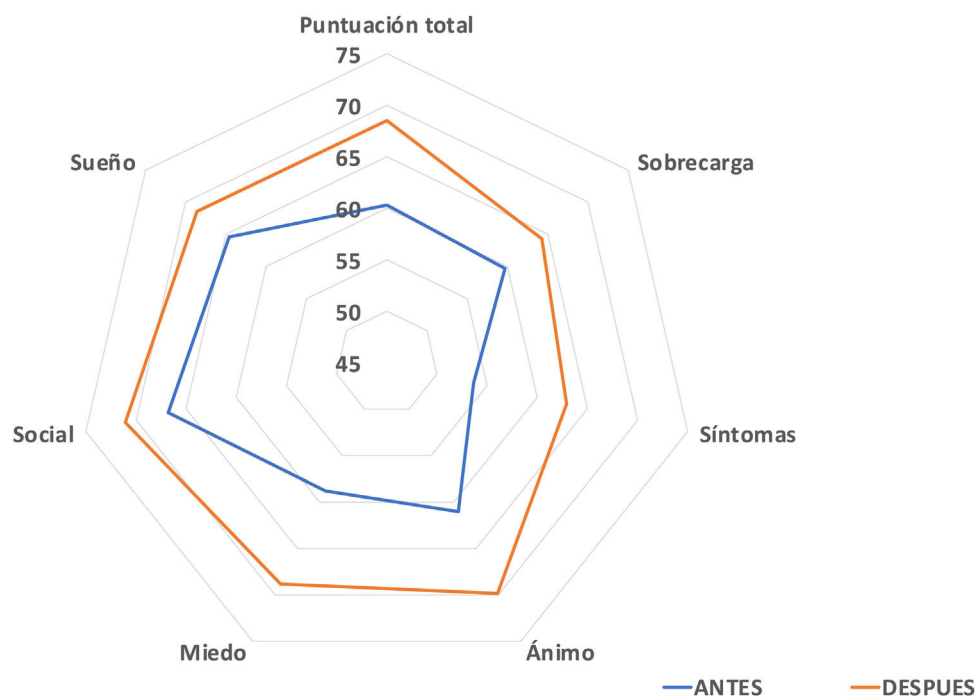


Figura 6 Evolución de la calidad de vida relacionada con la salud (CVRS) de cuidadores de pacientes con disfagia tras su evaluación y seguimiento en una consulta monográfica de disfagia.

Las características de los pacientes que se atienden en las consultas de disfagia infantil y los múltiples factores que interfieren en la adquisición de las habilidades para alimentarse hacen que el diagnóstico y el tratamiento de los problemas de alimentación sean particularmente desafiantes y complejos. La VFS es la evaluación instrumental *gold standard* para la valoración objetiva de la deglución²⁵⁻²⁷, tanto a nivel anatómico y funcional, ya que nos permite visualizar todas las fases de la deglución (oral, faríngea y esofágica), como para valorar la protección de la vía respiratoria^{2,28,29}, aunque presenta variabilidad interpráctica no despreciable debido a la ausencia de protocolos debidamente estandarizados. Generalmente la tasa de exposición por segundo estándar durante la realización de VFS en pediatría es de 25-30 *frames/segundo* (fps), logrando identificar eventos breves de penetración y/o aspiración con una alta sensibilidad^{28,30}. La reducción de radiación a 15 fps ya ha sido valorada en otros estudios³¹ y, aunque controvertida, resulta una adecuada posibilidad con similar rendimiento diagnóstico a los estudios con 30 fps y facilitaría además el principio de protección radiológica ALARA (*as low as reasonably achievable* o tan bajo como razonablemente alcanzable), disminuyendo la exposición a la radiación ionizante en niños. En cuanto al tipo de contraste, no existe uniformidad; los más utilizados son el sulfato de bario y los contrastes yodados. El bario es el principio activo más frecuentemente empleado en los estudios gastrointestinales y videofluoroscópicos. Alternativas de menor densidad como el contraste hidrosoluble isoosmolar iodixanol, como el descrito en nuestra serie, ha sido reportado previamente en la literatura^{25,32}, resultando bien tolerado y seguro.

En un estudio realizado en una población similar al del presente estudio³² con 61 niños con DOF, se objetivaron

alteraciones en la fase oral tras realización de VFS en el 50% de los pacientes, alteraciones en la fase faríngea en el 67%, y solo un 3% de los pacientes evaluados tuvieron alteraciones en la fase esofágica. Los resultados son muy similares a los obtenidos en nuestra muestra en cuanto a las alteraciones en fases oral y faríngea, que son las descritas en nuestro estudio. Hasta un 65,4% de los pacientes presentaron alteraciones en ambas fases de forma simultánea (oral y faríngea). La presencia de aspiraciones fue, al igual que en nuestro estudio, más frecuente en población con mayor afectación neurológica; similares hallazgos han sido descritos en otras series^{32,33}. Una de las alteraciones que con frecuencia se detecta en la VFS es la penetración del alimento en la zona preepiglótica que puede ser marcador de posterior aspiración, a la vía aérea. En un estudio³⁴ realizado a 125 niños con sospecha de DOF, se analizaron datos tras realización de VFS, objetivándose que hasta un 81% de ellos presentaron penetración laríngea, siendo el 31% penetraciones profundas con aspiración de contenido a vía aérea finalmente en el 85% de los mismos. Los resultados obtenidos en nuestro estudio nos permiten apoyar estos datos afirmando que estas aspiraciones son más frecuentes en pacientes que tienen mayor afectación a nivel motor (según escala GMFCS), y destacando que un alto porcentaje de estas son silentes, sin activación del reflejo tusígeno o desaturación de oxígeno, por lo que un adecuado diagnóstico resulta esencial para evitar complicaciones respiratorias.

En pacientes con deterioro neurológico, como niños con parálisis cerebral, es frecuente encontrar datos de malnutrición, de origen multifactorial pero donde la presencia de DOF es una constante en grupos de mayor afectación motora. En una serie reciente con 260 niños con PCI se demuestra que el 38% presenta desnutrición y que esta

prevalencia aumenta según lo hace la puntuación en la escala GMFCS³⁵; datos similares ya han sido recogidos en otros estudios previos³⁶. Al igual que en nuestra serie, se demuestra que tras recibir una adecuada evaluación de trastorno deglutorio y tratamiento se produce una mejoría significativa de los parámetros³⁷, aunque se necesitarán más estudios para conocer otros factores que puedan estar influyendo.

Un estudio reciente³⁸ analiza la percepción de las dificultades que presentan los cuidadores de pacientes con parálisis cerebral moderada-grave para desarrollar las ABVD concluyendo, en consonancia con estudios previos³⁹, que la prevalencia de comorbilidades como DOF y gravedad del deterioro neurológico de estos pacientes merma directamente la calidad de vida de los cuidadores. Además, DOF y deterioro nutricional suelen ir de la mano, siendo sin duda otro factor que condiciona la dificultad en los cuidados⁴⁰. La calidad de vida del cuidador se está convirtiendo en un componente esencial del análisis de coste/efectividad de las intervenciones en el niño con parálisis cerebral³⁹. En la misma línea, nuestros datos parecen sustentar que una optimización del diagnóstico adecuado de DOF e inicio temprano de las recomendaciones y adaptaciones específicas de alimentación más oportunas en los pacientes puede ayudar a mejorar tanto la situación nutricional como la percepción de mejora en calidad de vida para los cuidadores.

La implantación de una consulta monográfica de DOF en nuestro hospital ha permitido facilitar el trabajo colaborativo con radiólogos, rehabilitadores, logopeda y dietista-nutricionista, dando forma a la creación de unidad multidisciplinar para el abordaje del paciente pediátrico con DOF.

En cuanto a las limitaciones, la principal debilidad de nuestro estudio es su carácter retrospectivo. Los primeros datos obtenidos sobre la encuesta pilotada sobre calidad de vida de los cuidadores presentan un nivel de fiabilidad interno bueno, a pesar del bajo tamaño muestral y la baja cantidad de ítems de algunos subdominios. Se necesitarán más estudios para poder validar la encuesta como cuestionario más robusto que mida la autopercepción de los cuidadores de pacientes pediátricos con DOF de su calidad de vida.

En conclusión, la correcta evaluación y tratamiento de la DOF pediátrica de forma objetiva resulta imprescindible para poder proporcionar a las familias recomendaciones respecto a la alimentación de los pacientes y estructurar programas de rehabilitación individualizados. Asegurar la vía de alimentación más eficaz y segura para cada paciente, buscando las compensaciones a las alteraciones deglutorias objetivadas en la evaluación cuando sea posible es primordial. Así mismo, es fundamental continuar investigando nuevas técnicas de valoración fiables que nos permitan ser más específicos en las alteraciones descritas en las fases de la deglución, así como la incorporación de personal especializado en evaluación y rehabilitación oromotora para poder abordar el tratamiento de estos pacientes de forma interdisciplinar. Por otro lado, implementar protocolos de actuación en todos los centros pediátricos que atienden a población con trastornos deglutorios sería una labor fundamental que llevaría de la mano una mejora en la calidad de vida de los pacientes y sus familiares.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Anexo. Material adicional

Se puede consultar material adicional a este artículo en su versión electrónica disponible en <https://doi.org/10.1016/j.anpedi.2021.06.009>.

Bibliografía

1. Dodrill P, Gosa MM. Pediatric dysphagia: Physiology, assessment, and management. *Ann Nutr Metab.* 2015;66:24–31.
2. Lawlor CM, Choi S. Diagnosis and management of pediatric dysphagia: a review. *JAMA Otolaryngol Head Neck Surg.* 2020;146:183–91.
3. Kakodkar K, Schroeder JW. Pediatric dysphagia. *Pediatr Clin North Am.* 2013;60:969–77.
4. Barton C, Bickell M, Fucile S. Pediatric Oral Motor Feeding Assessments: A Systematic Review. Vol. 38 *Physical and Occupational Therapy in Pediatrics.* Taylor and Francis Ltd.; 2018:190–209.
5. O'Neil KH, Purdy M, Falk J, Gallo L. The dysphagia outcome and severity scale. *Dysphagia.* 1999;14:139–45.
6. Kunieda K, Ohno T, Fujishima I, Hojo K, Morita T. Reliability and validity of a tool to measure the severity of dysphagia: The food intake LEVEL scale. *J Pain Symptom Manage.* 2013;46:201–6.
7. Crary MA, Carnaby Mann GD, Groher ME. Initial psychometric assessment of a functional oral intake scale for dysphagia in stroke patients. *Arch Phys Med Rehabil.* 2005;86:1516–20.
8. Christiaanse ME, Mabe B, Russell G, Simeone TL, Fortunato J, Rubin B. Neuromuscular electrical stimulation is no more effective than usual care for the treatment of primary dysphagia in children. *Pediatr Pulmonol.* 2011;46:559–65.
9. Yi YG, Shin HI. Psychometrics of the functional oral intake scale for infants. *Front Pediatr.* 2019;7:156.
10. Yi YG, Shin HI. Psychometrics of the Functional Oral Intake Scale for Children With Dysphagia. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2020;71:686–91.
11. Sellers D, Mandy A, Pennington L, Hankins M, Morris C. Development and reliability of a system to classify the eating and drinking ability of people with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol.* 2014;56:245–51.
12. Palisano RJ, Rosenbaum P, Bartlett D, Livingston MH. Content validity of the expanded and revised Gross Motor Function Classification System. *Dev Med Child Neurol.* 2008;50:744–50.
13. Child growth standards. The WHO Multicentre Growth Reference Study (MGRS) Standards. [consultado 14 Ene 2021]. Disponible en: <https://www.who.int/tools/child-growth-standards/standards>
14. Sánchez González E, Carrascosa Lezcano A, Fernández García JM, Ferrández Longás A, López de Lara D, López-Siguero JP. Estudios españoles de crecimiento: situación actual, utilidad y recomendaciones de uso. *An Pediatr.* 2011;74:193.e1–16.
15. Romano C, van Wynckel M, Hulst J, Broekaert I, Bronsky J, Dall'Oglio L, et al. European Society for Paediatric Gastroenterology Hepatology and Nutrition Guidelines for the Evaluation and Treatment of Gastrointestinal and Nutritional Complications in Children With Neurological Impairment. *J Pediatr Gastroenterol Nutr.* 2017;65:242–64.
16. Stevenson RD. Use of segmental measures to estimate stature in children with cerebral palsy. *Arch Pediatr Adolesc Med.* 1995;149:658–62.

17. McHorney CA, Robbins JA, Lomax K, Rosenbek JC, Chignell K, Kramer AE, et al. The SWAL-QOL and SWAL-CARE outcomes tool for oropharyngeal dysphagia in adults: III. Documentation of reliability and validity. *Dysphagia*. 2002;17:97–114.
18. Zaldibar-Barinaga MB, Miranda-Artieda M, Zaldibar-Barinaga A, Pinedo-Otaola S, Erazo-Presser P, Tejada-Ezquerro P. Versión española del Swallowing Quality of Life Questionnaire: fase inicial de adaptación transcultural. *Rehabilitacion*. 2013;47:136–40.
19. Andrade MS, Gonçalves AN, Guedes RLV, Barcelos CB, Slobodtsov LDAS, Lopes SAC, et al. Correlation between swallowing-related quality of life and videofluoroscopy after head and neck cancer treatment. *Codas*. 2017;29:e20150175.
20. Lahtinen S, Koivunen P, Ala-Kokko T, Kaarela O, Laurila P, Liisanantti JH. Swallowing-related quality of life after free flap surgery due to cancer of the head and neck. *Eur Arch Otorhinolaryngol*. 2019;276:821–6.
21. Carneiro D, das Graças Wanderley de Sales Coriolano M, Belo LR, de Marcos Rabelo AR, Asano AG, Lins OG. Quality of life related to swallowing in Parkinson's disease. *Dysphagia*. 2014;29:578–82.
22. Chan HF, Ng ML, Kim HH, Kim DY. Swallowing-related quality of life among oral-feeding Chinese patients with Parkinson's disease—a preliminary study using Chinese SWAL-QOL. *Disabil Rehabil*. 2020, <http://dx.doi.org/10.1080/09638288.2020.1791979>.
23. Kim D-Y, Park H-S, Park S-W, Kim J-H. The impact of dysphagia on quality of life in stroke patients. *Medicine (Baltimore)*. 2020;99:e21795.
24. Yi YG, Oh BM, Seo HG, Shin HI, Bang MS. Dysphagia-related quality of life in adults with cerebral palsy on full oral diet without enteral nutrition. *Dysphagia*. 2019;34:201–9.
25. Batchelor G, McNaughten B, Bourke T, Dick J, Leonard C, Thompson A. How to use the videofluoroscopy swallow study in paediatric practice. *Arch Dis Child Educ Pract Ed*. 2019;104:313–20.
26. Dharmarathna I, Miles A, Allen J. Twenty years of quantitative instrumental measures of swallowing in children: a systematic review. *Eur J Pediatr*. 2020;179:203–23.
27. Prasse JE, Kikano GE. An overview of pediatric dysphagia. *Clin Pediatr (Phila)*. 2009;48:247–51.
28. Arvedson JC, Lefton-Greif MA. Instrumental Assessment of Pediatric Dysphagia. *Semin Speech Lang*. 2017;38:135–46.
29. Lo Re G, Vernuccio F, Di Vittorio ML, Scopelliti L, Di Piazza A, Terranova MC, et al. Swallowing evaluation with videofluoroscopy in the paediatric population. *Acta Otorhinolaryngol Ital*. 2019;39:279–88.
30. Peladeau-Pigeon M, Steele CM. Technical Aspects of a Videofluoroscopic Swallowing Study. *Can J Speech-Language Pathol Audiol*. 2013;37:216–26.
31. Layly J, Marmouset F, Chassagnon G, Bertrand P, Sirinelli D, Cottier JP, et al. Can we reduce frame rate to 15 images per second in pediatric videofluoroscopic swallow studies? *Dysphagia*. 2020;35:296–300.
32. García Romero R, Ros Arnal I, Romea Montañés MJ, López Calahorra JA, Gutiérrez Alonso C, Izquierdo Hernández B, et al. Evaluation of dysphagia Results after one year of incorporating videofluoroscopy into its study. *An Pediatr*. 2018;89:92–7.
33. Kim JS, Han ZA, Song DH, Oh HM, Chung ME. Characteristics of dysphagia in children with cerebral palsy, related to gross motor function. *Am J Phys Med Rehabil*. 2013;92:912–9.
34. Friedman B, Frazier JB. Deep laryngeal penetration as a predictor of aspiration. *Dysphagia*. 2000;15:153–8.
35. Leonard M, Dain E, Pelc K, Dan B, De Laet C. Nutritional status of neurologically impaired children: Impact on comorbidity. *Arch Pédiatrie*. 2020;27:95–103.
36. Penagini F, Mamei C, Fabiano V, Brunetti D, Dilillo D, Zucconi GV. Dietary intakes and nutritional issues in neurologically impaired children. *Nutrients*. 2015;7:9400–15.
37. Schwarz SM, Corredor J, Fisher-Medina J, Cohen J, Rabinowitz S. Diagnosis and treatment of feeding disorders in children with developmental disabilities. *Pediatrics*. 2001;108:671–6.
38. Martínez de Zabarte Arnal JM, Ros Segura I, Peña Martínez JL, García Romero R, Rodríguez Martínez G. Carga del cuidador del paciente con parálisis cerebral moderada-grave: ¿influye el estado nutricional? *An Pediatr*. 2021;94:311–7.
39. Tseng MH, Chen KL, Shieh JY, Lu L, Huang CY, Simeonson RJ. Child characteristics, caregiver characteristics, and environmental factors affecting the quality of life of caregivers of children with cerebral palsy. *Disabil Rehabil*. 2016;38:2374–82.
40. Pinto VV, Alves LAC, Mendes FM, Ciamponi AL. The nutritional state of children and adolescents with cerebral palsy is associated with oral motor dysfunction and social conditions: A cross sectional study. *BMC Neurol*. 2016;16:1–7.