

Convulsions afebrils benignes associades a gastroenteritis aguda lleu

Una entitat poc coneguda a Occident

Zulema Lobato, Lluís Galceran, Laia Martí, Silvia Zambudio, Joan Sitjes, Santiago Nevot

Servei de Pediatria. Hospital Sant Joan de Déu. Althaia. Xarxa assistencial de Manresa. Manresa

RESUM

Introducció. Les convulsions afebrils benignes associades a gastroenteritis aguda lleu són crisis convulsives d'origen parainfecció, que configuren una entitat clínica descrita el 1982 per Morooka i ben coneguda als països asiàtics. Els casos referits fins ara a Occident són escassos, encara que els últims anys estan apareixent en el nostre medi noves aportacions. Afecten lactants sans d'entre 12 i 24 mesos. Hi ha predomini estacional (novembre-maig), coincidint amb la prevalença de rotavirus, que és l'agent causal més freqüent; com en el nostre segon cas. Les convulsions apareixen després de l'inici de la diarrea, són de tipus generalitzat, amb recurrència freqüent abans de 24 hores i cedeixen en els 3-4 dies posteriors, sempre en absència de febre, deshidratació o alteracions hidroelectrolítiques. Els episodis tenen un curs autolimitat i les exploracions complementàries i els estudis neurològics són normals o inespecífics. La normalitat posterior és la regla evolutiva, amb tractament o sense.

Observació clínica. Presentem tres lactants de 12, 14 i 24 mesos, sans prèviament i sense antecedents d'interès, amb convulsions afebrils en el context d'una gastroenteritis lleu, en el segon cas causada per rotavirus.

Comentaris. El fet de conèixer aquesta entitat i el seu perfil clínic ben característic pot evitar en molts casos sotmetre el pacient a estudis exhaustius i tractaments innecessaris, no sempre exempts d'efectes adversos. La comunicació de les experiències personals ajuda a definir millor el perfil clínic i les pautes de maneig adequades.

Paraules clau: Convulsions. Gastroenteritis. Rotavirus. Lactant.

CONVULSIONES AFEBRILES BENIGNAS ASOCIADAS A GASTROENTERITIS AGUDA LEVE

Introducción. Las convulsiones afebriles benignas asociadas a gastroenteritis aguda leve son crisis convulsivas de origen parainfeccioso, que configuran una entidad clínica descrita en 1982 por Morooka y bien conocida en países asiáticos. Los casos referidos hasta

ahora en Occidente son escasos, aunque en los últimos años están apareciendo en nuestro medio nuevas aportaciones. Afectan a lactantes sanos de entre 12 y 24 meses. Existe un predominio estacional (noviembre-mayo), coincidiendo con la prevalencia de rotavirus, que es el agente causal más frecuente, como en nuestro segundo caso. Las convulsiones aparecen después del inicio de la diarrea, son de tipo generalizado, frecuentemente con recurrencias antes de 24 horas y ceden en los 3-4 días posteriores, siempre en ausencia de fiebre, deshidratación o alteraciones hidroelectrolíticas. Los episodios tienen un curso autolimitado y las exploraciones complementarias y los estudios neurológicos son normales o inespecíficos. La normalidad posterior es la regla evolutiva, con o sin tratamiento.

Observación clínica. Presentamos tres lactantes de 12, 14 y 24 meses, sanos previamente y sin antecedentes de interés, con convulsiones afebriles en el contexto de una gastroenteritis leve, en el segundo caso causada por rotavirus.

Comentarios. Conocer esta entidad y su perfil clínico bien característico, en muchos casos, evitará someter al paciente a estudios exhaustivos y tratamientos innecesarios, no siempre exentos de efectos adversos. La comunicación de las experiencias personales ayudará a definir mejor el perfil clínico y las pautas de actuación adecuadas.

Palabras clave: Convulsiones. Gastroenteritis. Rotavirus. Lactante.

BENIGN AFEBRILE SEIZURES ASSOCIATED WITH MILD ACUTE GASTROENTERITIS

Background. Benign afebrile seizures associated with mild acute gastroenteritis are convulsive crises of para-infectious origin that are part of an entity described by Morooka in Japan in 1982, and well known in Asiatic countries. Few cases have been described in Western countries, although in recent years and increasing number of cases are being reported. Young children between 12 and 24 months of age are more commonly affected. There is a seasonal pattern, with a highest incidence during the months of November to May, coinciding with the peak prevalence for rotavirus infection, which is the most common causal factor, as it was for our second case. Seizures occur after the onset of the diarrhea, are generalized, frequently recur in the first 24 hours, and resolve in 3 to 4 days. Fever, dehydration and electrolytic alterations are typically absent. The disease is self-limited, neurological and diagnostic work-up is normal, and patients recover without sequelae.

Clinical Observation. We report three previously healthy children aged 12, 14, and 24 months who presented with afebrile seizures in the context of mild gastroenteritis (rotavirus positive in one of them).

Comments. It is important to recognize this entity and its clinical features in order to avoid exposing the affected children to exhaustive diagnostic studies and unnecessary (and potentially toxic) treatments. Reporting of personal experiences provides a tool to improve our knowledge on the disease as well as to define the best management.

Key words: Seizures. Gastroenteritis. Rotavirus. Infant.

Correspondència:

Zulema Lobato Salinas
C/ Anna Frank, 1, baixos B. 08225 Terrassa
zulosa@gmail.com

Treball rebut: 17.12.2008. Treball acceptat: 16.04.2009.

Lobato Z, Galceran L, Martí L, Zambudio S, Sitjes J, Nevot S.
Convulsions afebrils benignes associades a gastroenteritis aguda lleu.
Pediatr Catalana 2009; 69: 254-256.

Introducció

Les convulsions afebrils benignes associades a gastroenteritis aguda (GEA) lleu són crisis convulsives d'origen parainfeccios, que configuren una entitat clínica descrita el 1982 per Morooka, i ben coneguda als països asiàtics^{1,2}. Són convulsions afebrils, que solen ser de durada breu, autolimitades, amb proves de neuroimatge i electroencefalograma normals, associades a gastroenteritis lleu, sense signes de deshidratació (o lleus) ni alteració hidroelectrolítica. A causa del desconeixement d'aquesta patologia a Occident, aquests pacients sovint són sotmesos a multitud d'exploracions complementàries innecessàries i, a vegades, són diana de tractaments farmacològics equívocs i potencialment iatrogènics.

Presentem tres lactants de 12, 14 i 24 mesos, sans prèviament i sense antecedents d'interès, amb convulsions afebrils en el context d'una GEA lleu; en el segon cas causada per rotavirus.

Observacions clíniques

Cas 1

Nen de 24 mesos d'edat, caucàsic i prèviament sa, amb desenvolupament psicomotor i pondoestatural normal. No té antecedents personals ni familiars d'interès. Consulta a urgències per vòmits i alguna deposició dispèptica de 48 hores d'evolució. Mentre inicia tolerància oral a urgències, presenta una primera convulsió afebril tonicoclònica generalitzada, de dos minuts de durada. Exploració física a urgències: temperatura axil·lar 36,5°C, freqüència cardíaca 115 bpm, saturació d'O₂ 99%. Destaca estat postcrític, ullerós i amb la llengua saburrada (signes de deshidratació lleu). La resta de l'exploració és anodina.

Ingressa per a control clínic i estudi. Al cap de 8 i 12 hores de l'ingrés presenta noves crisis de característiques similars, i s'instaura tractament amb àcid valproic endovenós. Durant l'ingrés es fan les proves complementàries següents: hemograma, glucèmia i electròlits normals. Lleu acidosi metabòlica a l'ingrés (equilibri venós: pH 7,16; bicarbonat 17,1 mmol/L, pCO₂ 48), que es normalitza al cap de poques hores. Punció lumbar normal amb reacció en cadena de la polimerasa (PCR) a enterovirus i herpesvirus negatives. Tomografia computada (TC) cranial, electroencefalograma (EEG) i estudi metabòlic en sang i orina normal. Coprocultiu, antígen de rotavirus i adenovirus en femta negatius.

Es dona d'alta en tractament amb àcid valproic oral, que es retira als 15 dies en el control posterior. L'avaluació neurològica és normal als sis mesos de seguiment.

Cas 2

Lactant de sexe femení de 12 mesos d'edat, caucàsic i prèviament sana, amb desenvolupament psico-

motor i pondoestatural normal. No té antecedents familiars ni personals d'interès.

Presenta un primer episodi de convulsió afebril tonicoclònica generalitzada d'uns dos minuts de durada, en el context d'un quadre de vòmits i alguna deposició dispèptica de 48 hores d'evolució.

Exploració física: temperatura axil·lar 36,7°C, saturació d'O₂ 99%. Destaca pal·lidesa cutània i estat postcrític, sense signes de deshidratació, i la resta de l'exploració anodina.

Ingressa per a control clínic i estudi. Durant l'ingrés presenta tres crisis de característiques similars en les primeres 24 hores i diverses deposicions diarreiques.

Les proves complementàries que es fan resulten totes normals: hemograma, glucèmia, electròlits, TC cranial, punció lumbar i EEG. L'antigen a rotavirus en femta surt positiu. No es va determinar la PCR de rotavirus a LCR.

Es dona d'alta al cinquè dia, amb una evolució favorable, sense necessitar tractament. El seguiment va ser discontinuat per la família.

Cas 3

Lactant de sexe femení de 14 mesos d'edat, caucàsic i prèviament sana, amb desenvolupament psicomotor i pondoestatural normal. Sense antecedents personals ni familiars d'interès. Presenta una primera convulsió afebril tonicoclònica generalitzada de tres minuts de durada, en el context d'una GEA lleu.

Exploració física: temperatura axil·lar 36°C, saturació d'O₂ 97%. Destaca cianosi acre i estat postcrític, la resta és anodina.

Ingressa per a control clínic i estudi. Es repeteixen dues noves crisis al cap de 2 i 4 hores de l'ingrés, de característiques similars. Les proves complementàries fetes són normals: hemograma, glucèmia i electròlits, TC cranial, punció lumbar amb PCR enterovirus i herpesvirus negatives; EEG i coprocultiu. L'antigen a rotavirus i adenovirus en femta és negatiu.

L'evolució de la pacient és favorable, i no presenta nous episodis convulsius. Es dona d'alta al quart dia de l'ingrés.

Al cap de sis mesos de seguiment es manté asintomàtica i amb exploració neurològica normal.

Discussió

Les convulsions afebrils associades a GEA són una entitat freqüent als països asiàtics. Els casos referits fins ara a Occident són escassos, encara que els últims anys estan apareixent en el nostre medi noves aportacions i es creu que és una entitat infradiagnosticada. Les referències consultades a la bibliogra-

fia espanyola³⁻⁶ són només de casos clínics aïllats, de manera que desconexim quina pot ser la incidència real en el nostre medi. Afecten infants prèviament sans, la majoria amb edats compreses entre els 6 mesos i els 3 anys (hi ha algun cas descrit amb edat inferior), tot i que és més freqüent entre els 12 i els 24 mesos, sense malalties neurològiques, ni infeccions del sistema nerviós central (SNC) ni alteracions del desenvolupament psicomotor. Uemura i col.⁷, troba en la seva sèrie que el 6% tenien història familiar de convulsions afebrils i el 7% de convulsions febrils.

Narchi⁸ va descriure que aquests pacients presenten crisis generalitzades afebrils (tonicoclòniques en el 65% dels casos: tòniques, 25% i clòniques, 10%), breus (habitualment de durada inferior a 5 minuts; tot i que recentment s'han publicat dos casos de lactants de 4 i 7 mesos amb estatus epilèptic associat amb GEA lleu per rotavirus⁹), que es presenten en clúster (agrupades en salves amb més de dos episodis en el 75% dels casos), en ocasions es desencadenen pel plor i el dolor, i no solen durar més de 24 hores.

S'associen a un quadre de GEA lleu, sense signes de deshidratació o lleus (menor d'un 5%); habitualment d'origen viral; amb predomini estacional (novembre-maig), coincidint amb la prevalença de rotavirus, que és l'agent causal més freqüent¹⁰; com en el nostre segon cas. L'interval entre l'inici de la GEA i la crisi convulsiva sol ser de dos o tres dies, però les convulsions poden precedir en 24 hores l'aparició de les diarrees fins en el 40% dels casos o aparèixer fins a 7 dies després¹¹.

La fisiopatologia es desconex, però un dels mecanismes que es postula és la invasió directa del rotavirus al SNC, ja que diversos estudis han demostrat ARN de rotavirus per reacció en cadena de la polimerasa (PCR) en líquid cefaloraquídi (LCR) i sang¹².

També es postula un desequilibri hormonal al SNC (s'ha trobat un augment de carnitina i òxid nítric a LCR). Sembla que una certa predisposició genètica i factors ambientals explicarien la major freqüència en països asiàtics.

El diagnòstic es basa en troballes clíniques, i tot i que el rotavirus és l'agent etiològic més important, la seva presència no és necessària per al diagnòstic. La freqüència de convulsions afebrils benignes en GEA per rotavirus oscil·la des del 2,06%¹³ fins al 8%⁴.

La recurrència de les crisis en les primeres 24 hores sol ser la norma i, per tant, caldrà fer un diagnòstic diferencial amb altres alteracions neurològiques, tenint present que en les convulsions benignes, les proves de laboratori (incloent-hi electrolits, glucèmia), estudis de LCR, EEG interictal i neuroimatge són normals o amb troballes inespecífiques.

Així doncs, després d'aquesta revisió, creiem que davant la sospita clínica, cal mantenir una actitud expectant d'entrada sense renunciar, si la clínica ofe-

reix dubtes, a efectuar les proves necessàries per fer un adequat diagnòstic diferencial, però mesurant bé la conveniència de fer estudis exhaustius o tractaments que no s'han demostrat necessaris; ja que la normalitat posterior és la regla evolutiva, amb tractament o sense.

Malgrat que el pronòstic és excel·lent en tots els casos i les recidives molt infreqüents, la possibilitat que s'instauri un estat de mal epilèptic probablement fa necessari l'ingrés en observació fins que cedeixi el quadre. Fins a la data no s'ha descrit evolució posterior cap a epilèpsia ni alteració del desenvolupament psicomotor; per això alguns autors recomanen no fer tractament anticomicial, ni en la fase aguda ni en la de manteniment⁷.

Conèixer aquesta entitat i el seu perfil clínic ben característic pot evitar en molts casos sotmetre el pacient a estudis exhaustius i tractaments innecessaris, no sempre exempts d'efectes adversos. La comunicació de les experiències personals ajuda a definir millor el perfil clínic i les pautes d'actuació adequades.

Bibliografia

1. Uemura N, Okumura A. Benign convulsions with mild gastroenteritis. A worldwide clinical entity. *Brain Dev* 2005; 27: 78.
2. Kawano G, Oshige K, Syutou S, Kiteda Y, Yokoyama T, Kim BG, et al. Benign infantile convulsions associated with mild gastroenteritis: a retrospective study of 39 cases including virological tests and efficacy of anticonvulsants. *Brain Dev* 2007; 29: 617-622.
3. Gómez-Lado C, García-Reboredo M, Monasterio-Corral L, Bravo-Mata M, Eiris-Puñal J, Castro-Cago M. Convulsiones benignas durante gastroenteritis leve a propósito de dos casos. *An Pediatr (Barc)* 2005; 63: 558-560.
4. Plana Fernández M, Fernández López A, Vallmanya Cucurull T, López Gil A, Gomà Brufau A.R. Convulsiones afebriles y gastroenteritis aguda: una asociación más frecuente de lo esperado. *An Pediatr (Barc)* 2008; 69: 267-270.
5. Lara Herguedas J, García Penas JJ, Ruiz Falcó ML, Gutiérrez Solana A, Ruiz Llobet AI, Casellas Vidal D, et al. Rotavirus y su papel en la génesis de convulsiones. *Rev Neurol* 2007; 44: 318-319.
6. Luque Moreno A, Pérez Álvarez R, Bergadà Masó A, Peñas Aguilera A, Ruiz Llobet AI, Casellas Vidal D, et al. Rotavirus y su papel en la génesis de convulsiones. *Rev Neurol* 2007; 44: 318-319.
7. Uemura N, Okumura A, Negoro T, Watanabe K. Clinical features of benign convulsions with mild gastroenteritis. *Brain Dev* 2002; 24: 745-749.
8. Narchi H. Benign afebrile cluster convulsions with gastroenteritis: An observational study. *BMC Pediatr* 2004; 4: 2.
9. Fernández Fernández MA, Madruga Garrido AM, Blanco Martínez B, Rufo Campos M. Estado epiléptico asociado a una gastroenteritis leve por rotavirus. *An Pediatr (Barc)* 2008; 69: 263-266.
10. Di Fazio MP, Braun L, Freedman S, Hickey P. Rotavirus-induced seizures in childhood. *J Child Neurol* 2007; 22: 1.367-1.370.
11. Specchio N, Vigeveno F. The spectrum of benign infantile seizures. *Epilepsy Res* 2006; 70: S156-167.
12. Lynch M, Lee B, Azimi P, Gentsch J, Glases C, William S, et al. Rotavirus and central nervous system symptoms: Cause or contaminant? Case report and review. *Clin Infect Dis* 2001; 33: 932-938.
13. Hung JJ, Wen HY, Yen MH, Chen HW, Yan DC, Lin KL, et al. Rotavirus gastroenteritis associated with afebrile convulsion in children: clinical analysis of 40 cases. *Chang Gung Med J* 2003; 26: 654-659.