

Tratamiento de la incontinencia salival en el niño con patología neurológica

J. Narbona¹, C. Concejo²

¹Departamento de Pediatría. ²Servicio de Cirugía Oral y Maxilofacial. Clínica Universitaria de Navarra. Facultad de Medicina. Universidad de Navarra. Pamplona

Resumen

La incontinencia salival, o babeo, es un problema frecuentemente asociado a varios cuadros neuropediátricos. En los casos severos conlleva graves consecuencias clínicas y psicosociales. Se han propuesto múltiples procedimientos para su tratamiento, con resultados variables. El primer escalón terapéutico consiste en la combinación de entrenamiento logopédico o neurorrehabilitador y la aplicación de fármacos anticolinérgicos, entre los cuales los más utilizados son el trihexifenidilo y la escopolamina, este último aplicado mediante parches transdérmicos. Dados los efectos indeseables a distancia de estos fármacos, se comienza a utilizar la infiltración de las glándulas submaxilares con toxina botulínica A, bajo control ecográfico. Este procedimiento es efectivo en el 50% de los casos, pero presenta el inconveniente de que su efecto es temporal, y se requiere repetir la infiltración cada 4-6 meses. Finalmente, en pacientes con babeo invalidante que no responden a la terapia farmacológica y rehabilitadora, a largo plazo estaría indicada la realización de una técnica supresora definitiva. En la actualidad la técnica más segura y eficaz es la combinación de una submaxilectomía bilateral y la ligadura de ambos conductos parotídeos. Este sencillo procedimiento elimina de forma completa la incontinencia salival en más del 90% de los casos, con mínimas complicaciones, y debe seguirse de una correcta higiene bucodental.

Palabras clave

Babeo, escopolamina transdérmica, incontinencia salival, parálisis cerebral infantil, submaxilectomía, toxina botulínica A

Abstract

Title: Salivary incontinence in a child with neurological disease

In several pediatric neurological conditions, drooling is a major problem, leading to negative clinical and psychosocial consequences. The first therapeutic measure to improve salivary continence is a combination of neurorehabilitative techniques, including speech therapy. However, the results are frequently unsatisfactory in mentally handicapped patients with pseudobulbar dysfunction. Several anticholinergic drugs—trihexphenidyl, glycopyrrolate and transdermal scopolamine—have been tried with variable beneficial effects on salivary incontinence; however, given their general muscarinic effects, these drugs are poorly tolerated by many patients. A recent open trial with botulinum toxin type A, administered by means of ultrasound-guided injection into submaxillary glands, produced encouraging results in a series of children with cerebral palsy, and undesirable effects were rare. Further controlled trials are to be carried out. Moreover, the literature on surgical procedures is reviewed. A combination of bilateral excision of submaxillary glands and parotid duct ligation seems to be the best approach for patients with refractory and disabling salivary incontinence.

Keywords

Drooling, transdermal scopolamine, salivary incontinence, cerebral palsy in children, submaxillary gland excision, botulinum toxin type A

Concepto

Se considera incontinencia salival (babeo) la falta de retención de la saliva en la boca y de su progresión hacia el tracto digestivo, que ocasiona su salida al exterior, sola o con restos de ingestas, de forma crónica, después de la edad de 4 años. Puede presentarse de forma episódica, transitoria, frecuente o continua. Aquí se considerarán sólo las formas de incontinencia salival crónica, frecuente o continua de causa neurológica en la niñez. Se revisarán los resultados de los recursos de rehabilitación, administración de fármacos

anticolinérgicos y procedimientos quirúrgicos para su tratamiento.

Fisiología y fisiopatología

La secreción salival diaria varía entre 1.000 y 1.500 mL, y se regula por el sistema nervioso a través de estímulos parasimpáticos que, mediante el neurotransmisor acetilcolina, actúan sobre receptores específicos en el tejido glandular. Con ocasión de la ingesta de alimento, la mayor proporción de saliva

procede de las glándulas parótidas. En cambio, fuera de las conductas alimentarias, la salivación procede en un 70% de las glándulas submaxilares y sublinguales.

La continencia salival depende de un comportamiento complejo, consciente o automático, que implica la generación periódica de una presión negativa en los recesos sublingual y gingivolabial inferior, que permite el transporte de la saliva hacia la cavidad oral media; a continuación otro movimiento complejo la hace llegar hasta los recesos hipofaríngeos y, tras la retracción de la lengua, que llega a tocar la pared posterior de la faringe, se desencadena el automatismo de deglución¹⁻³. Un fallo en cualquiera de los pasos indicados provocará incontinencia y/o estancamiento de la saliva, de secreciones rinosinuales y de restos alimentarios en la hipofaringe, con la consecuente respiración ruidosa y el riesgo de aspiración por falsa vía.

En neuropediatria, las situaciones más frecuentemente acompañadas de babeo son los síndromes seudobulbares y la apraxia bucofacial congénitos, la mayor parte de las veces formando parte de la parálisis cerebral (PC) tetraparespástica. También hay que considerar el síndrome seudobulbar (silviano-biopercular) adquirido, lesional (p. ej., encefalitis) o epiléptico^{4,5}. Las lesiones del tronco cerebral, el síndrome de Möbius, las polineuropatías craneales y ciertas formas de distrofia muscular que afectan al área cefálica son otras causas menos frecuentes de incontinencia salival, acompañadas, normalmente, de trastornos del habla y de la deglución. En sujetos con deficiencia mental (DM) profunda, independientemente de su etiología, también es común la incontinencia salival.

El babeo tiene ciertas consecuencias clínicas: pérdida hídrica significativa en los casos graves; falta de aclaramiento esofágico que puede favorecer la esofagitis si se acompaña de reflujo; inundación de la hipofaringe, que complica aún más la deglución de alimentos y favorece los atragantamientos y los accidentes respiratorios; dermatitis del mentón continuamente humedecido, etc. También hay que considerar sus consecuencias psicosociales: hiperdependencia de cuidadores, imagen negativa de uno mismo y hacia el exterior, limitación de acceso al uso de objetos e incluso de las tecnologías para la comunicación alternativa y aumentativa, por el riesgo de mojar y deteriorar los instrumentos. Por todo ello, se han realizado múltiples modalidades de intervención para tratar de controlar la incontinencia salival, con resultados variables.

Evaluación clínica

Una forma sencilla de cuantificar la intensidad del babeo mediante la observación de los padres o los cuidadores es la que ofrece la escala usada por Thomas-Stonell y Greenberg⁶: grado 1 (normal), seco; grado 2 (ligero), mojadura de labios; grado 3 (moderado), mojadura de labios y de mentón; grado 4 (grave), humedece el vestido y necesita babero; grado 5 (profuso), humedece los objetos de su alrededor. Para cuantificar el fenó-

meno más exactamente en medio clínico con el fin de controlar la respuesta a los procedimientos terapéuticos, se ha utilizado la observación sistemática de «sequedad» o «mojadura» de los labios y/o el mentón durante 120 unidades de 15 segundos cada una, a lo largo de 2 sesiones de 15 minutos, lo que permite calcular un «cociente de babeo» (*drooling quotient* [DQ]) dividiendo el número de unidades de observación «mojadas» entre 120 y multiplicando por 100. En protocolos de investigación también se ha usado el pesaje de la saliva que empapa unas torundas de algodón colocadas bajo la lengua durante determinados intervalos de tiempo.

Recursos terapéuticos

Siempre está indicado eliminar los posibles agravantes del babeo (como ciertos fármacos depresores del nivel de alerta o con efecto muscarínico), optimizar el posicionamiento vertical de la cabeza y conseguir la participación activa del sujeto (más fácilmente cuando su nivel mental es normal o sólo con retraso ligero) para movilizar su saliva, de forma consciente al principio y, después, automatizada. En determinados casos se recurrirá a los medios farmacológicos o quirúrgicos.

Entrenamiento

La neurohabilitación y la logopedia proponen diversos programas de ejercicios para favorecer la somatognosia bucofaríngea, inhibir los reflejos patológicos e inducir las conductas conscientes de control cefálico, cierre labial, inhibición de la protrusión lingual, succión, transporte intrabucal y deglución de la saliva; tras el entrenamiento explícito, estas habilidades se pueden ir incorporando progresivamente como aprendizajes procedimentales que no precisen evocación consciente. Entre otras, cobra un especial interés la metodología propuesta por Le Métayer⁷. Ciertos artefactos para uso intraoral intermitente⁸ cumplen la misión de activar la motricidad bucal y las sensaciones conscientes que favorecen la continencia salival. Las técnicas de modificación de conducta, el *biofeedback* y la terapia miofuncional⁹ pueden ser útiles, sobre todo en pacientes con un nivel intelectual próximo a la normalidad y una actitud cooperadora.

Uso de fármacos *anticolinérgicos por vía general*

La secreción salival está provocada por el sistema parasimpático, y la acetilcolina media en la unión neuroglandular. Se han ensayado diversos fármacos anticolinérgicos que disminuyen la secreción salival y ayudan así a disminuir o anular el babeo de forma simultánea con el entrenamiento. Pero todas las sustancias empleadas tienen otros efectos antimuscarínicos (dilatación pupilar y visión borrosa, enrojecimiento facial, taquicardia, mareos, retención urinaria, estreñimiento, déficit de sudoración) que comprometen su tolerabilidad, si bien existe amplia variación interindividual. A continuación se comentan los pocos trabajos que, en referencia al uso de estos fármacos en la edad infantojuvenil, han aparecido durante los últimos 10 años:

Trihexifenidilo

Usado en altas dosis, escaladas muy paulatinamente, para el tratamiento de la distonía muscular, tiene, entre otros efectos, una disminución de la salivación que puede resultar favorable en niños con PC distónica (atetosis doble). Según un reciente informe retrospectivo¹⁰ sobre 22 pacientes con edades de entre 1 y 12 años (media: 4 años y 8 meses), el trihexifenidilo en dosis bajas (media: 0,13 mg/kg) redujo significativamente el babeo en 5 de los sujetos más jóvenes (inicio del tratamiento a edades de entre 18 y 36 meses), sin efectos indeseables, durante un periodo de observación de entre 3 y 36 meses.

Glucopirrolato

En un estudio no controlado¹¹ sobre 40 sujetos (36 con PC tetraparética y DM), con una media de edad de 12 años y 6 meses, se administró este fármaco en una dosis de 0,5 mg/kg/día y se evaluó mediante un cuestionario a los padres y cuidadores la evolución de la incontinencia salival durante periodos que oscilaban entre los 8 y los 48 meses. Veintiocho sujetos (70%) han continuado el tratamiento a largo plazo, con una mejoría del babeo y sin efectos colaterales significativos. Pero en el resto de los sujetos se dieron efectos antimuscarínicos indeseables (11 pacientes) o reacciones alérgicas (2 pacientes) que condujeron a la retirada del tratamiento. El glucopirrolato posee una acción similar a la de la atropina y se usa por vía parenteral en anestesiología, pero la forma oral utilizada en el presente estudio es muy difícil de encontrar en el mercado.

Escopolamina

El uso neuropediátrico de este fármaco, bajo la forma de parches transdérmicos que deben cambiarse cada 3 días, para ayudar al control salival en niños ha sido objeto de un estudio controlado frente a placebo en 11 sujetos con babeo asociado a PC tetraparética y DM grave, institucionalizados, de edades comprendidas entre los 5 y los 18 años¹². Se emplearon parches con 1,5 mg de sustancia activa y parches con placebo en 2 periodos aleatorizados de 2 semanas, separados por 1 semana de aclaramiento; se aplicó una escala semicuantitativa de evaluación por personal que no conocía el tratamiento asignado a cada paciente. Un sujeto abandonó el protocolo de estudio por presentar mareo y agitación. En los 10 pacientes que completaron el proceso se observó una mejoría del control salival ($p < 0,01$) durante el 80% de los días de observación, e incluso un control salival completo durante el 31% de este periodo. La dosis puede ser menor, entre 0,5 y 1 mg cada 3 días, con un día de descanso cada 6, según nuestra experiencia. Es preferible adherir el parche a la piel de la espalda para que el niño no lo retire. Algunos pacientes usan este fármaco sólo en ciertos periodos con mayor pérdida salival. Debe informarse a los familiares y cuidadores sobre los posibles efectos secundarios adversos: retención urinaria, aumento del estreñimiento usual en niños con una PC, hipertermia por falta de sudoración en ambientes calurosos y, con menos frecuencia, agitación o alucinaciones; estos inconvenientes, si aparecen, suelen resolverse al poco tiempo de retirar el parche. Se ha comunicado en adultos la aparición de efectos negativos de la escopolamina

sobre la memoria; este inconveniente potencial no ha sido estudiado de forma sistemática en niños, pero debe tenerse en cuenta.

Tratamiento tópico.

Toxina botulínica A en glándulas salivales

El uso de la toxina botulínica A mediante inyección en las glándulas salivales puede considerarse un avance considerable; actúa bloqueando la conexión colinérgica neuroglandular y no tiene los efectos inconvenientes a distancia de los fármacos anticolinérgicos administrados por vía general. Tras varios estudios con resultados favorables en adultos, recientemente se ha publicado el resultado del primer ensayo abierto en 39 niños y adolescentes de 3 a 17 años de edad afectados de PC tetraparética y retraso mental¹³. Se inyectaron 0,5-1 unidades de Botox®/kg de peso corporal en cada glándula submaxilar bajo guía ecográfica. Previamente, todos los pacientes habían recibido tratamiento con escopolamina transdérmica, tras lo cual se dejó un periodo libre de 2 semanas antes de aplicar la toxina botulínica A. El efecto sobre el control salival y los posibles efectos secundarios se valoraron en revisiones periódicas por los experimentadores y mediante escalas observacionales por los padres y los cuidadores. Se logró una reducción superior al 50% de la incontinencia salival entre comidas desde el primero hasta el sexto mes tras la inyección; en los pacientes con mejor nivel mental, la continencia salival fue completa y mantenida, probablemente por haberse estimulado el aprendizaje de las praxias correspondientes. Este efecto fue similar al estimado durante el uso de escopolamina transdérmica, pero la frecuencia de los efectos secundarios con este último fármaco fue muy superior, por lo que los autores concluyen que la toxina botulínica A es una indicación más ventajosa. El prolongado periodo de beneficio tras una sola inyección de toxina hace suponer que la mayoría de los pacientes realizó un avance en el aprendizaje de la continencia salival. La inyección debe realizarse por un cirujano maxilofacial con ayuda de ecografía; entre las posibles complicaciones, debe preverse la difusión de la toxina a la musculatura orodeglutoria, por lo que es preceptivo un tiempo de observación hospitalaria mínimo de 3 días tras la infiltración. Los resultados de este estudio son alentadores, pero es preciso acumular más experiencia y realizar estudios a doble ciego. Los pacientes que responden de forma satisfactoria a la infiltración intraglandular con toxina botulínica posiblemente son buenos candidatos para la realización ulterior de un procedimiento quirúrgico que evite la necesidad de realizar infiltraciones repetidas de toxina a largo plazo, si antes no aprenden a contener suficientemente la saliva (figura 1).

Procedimientos quirúrgicos

Cuando la incontinencia salival añade al paciente un importante componente de minusvalía y han fracasado los medios de reeducación y las ayudas farmacológicas, cabe el recurso a los tratamientos quirúrgicos, que poseen una o ambas de las siguientes finalidades: derivar el vertido de saliva desde la región anterior de la boca hasta la orofaringe (siempre que no

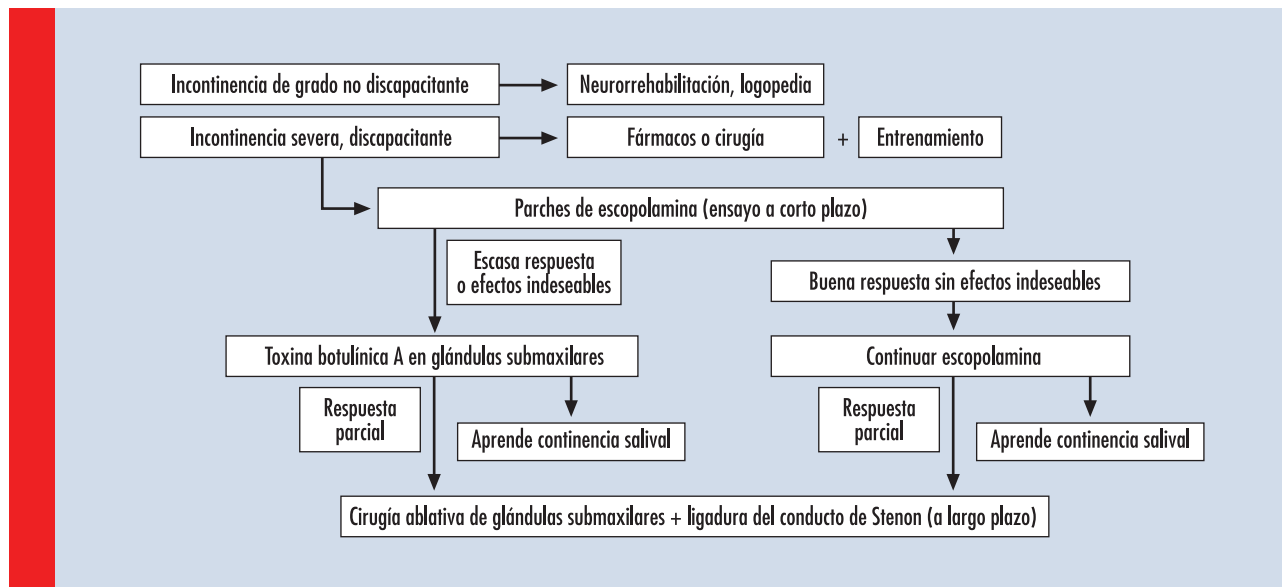


Figura 1. Posibilidades terapéuticas en la incontinencia salival de pacientes mayores de 6 años

exista un trastorno deglutorio concomitante) y disminuir en lo posible la producción de saliva (respetando las necesidades para la salud bucodental y digestiva). La técnica clásica, actualmente poco empleada, consistía en la transposición submucosa de los conductos de Stenon para vaciar detrás de los pilares anteriores de la orofaringe^{14,15}. Más recientemente se ha utilizado la fotocoagulación con láser intraductal, con buenos resultados en una serie de 48 sujetos, con una media de edad de 15 años y 6 meses, la mitad de los cuales presentaban una PC¹⁶. Recordemos que la secreción de saliva entre comidas procede, en su mayor parte, de las glándulas submandibulares y sublinguales, que vierten su contenido en la región anteroinferior de la boca, con el subsiguiente trabajo de succión intrabucal y de transporte hacia la faringe. Así, la retunelización de los conductos submandibulares hacia los pilares faríngeos se ha mostrado útil para reducir significativamente o eliminar el babeo a medio y largo plazo en series de niños y jóvenes publicadas recientemente¹⁷⁻²⁰. La agresividad de este procedimiento es baja en proporción a sus beneficios potenciales; sin embargo, la complejidad de la técnica alarga el tiempo de la intervención de forma considerable. En el postoperatorio inmediato se ha señalado la esporádica aparición de ránula, y a largo plazo es necesaria una cuidadosa higiene bucal para prevenir la patología gingivodentaria por sequedad bucal.

Los resultados más satisfactorios se han conseguido mediante técnicas que suprimen la secreción de las glándulas salivales mayores, teniendo en cuenta que son suficientes las glándulas menores, distribuidas por toda la cavidad oral, para mantener las necesidades básicas de saliva y preservar la salud bucodental. Uno de los procedimientos más empleados consiste en realizar una submaxilectomía bilateral asociada a la ligadura del conducto de Stenon de ambas glándulas paroti-

das²¹. Esta intervención soluciona completamente el babeo en el 90% de los casos y lo disminuye de forma muy significativa en el resto. Hubo algunas complicaciones, como un aumento de las caries y la sensación de boca seca en menos del 5% de los casos intervenidos. Un trabajo muy reciente realiza la ligadura de los conductos parotídeos y submaxilares²² con resultados muy similares, aunque en alguno de los casos las complicaciones en las glándulas submaxilares obligó a una submaxilectomía en un segundo tiempo.

Fuera de las encefalopatías crónicas, múltiples procedimientos de cirugía reparadora dirigidos a mejorar la funcionalidad bucofacial han resultado beneficiosos también para el control de la saliva, que cuentan además con la ventaja de actuar sobre los pacientes con nivel de inteligencia normal; así, por ejemplo, recientemente en 7 de 10 niños de 4,5-13 años de edad con síndrome de Möbius, a los que se realizó un trasplante del músculo *gracilis* para animar la motricidad facial, se observó una notable mejoría funcional de la continencia salival y de la capacidad para beber²³.

Conclusión

La incontinencia salival en el niño con una enfermedad neurológica repercute en grados variables sobre el bienestar del paciente y su familia, así como sobre su integración social. Las intervenciones de rehabilitación pueden conseguir notables mejorías del babeo en muchos sujetos, y la administración concomitante de fármacos coadyuva a conseguir el aprendizaje a largo plazo, sobre todo en sujetos con un nivel intelectual no muy bajo. Entre los fármacos antimuscarínicos disponibles por vía general, creemos que el más útil es la escopolamina trans-

dérmica, pero su uso quizá deba limitarse a periodos breves de exacerbación del babeo o de especial compromiso social, escolar, etc. Dados los inconvenientes de los fármacos anticolinérgicos por vía general, el que promete una mejor relación coste/beneficio es la toxina botulínica A, inyectada en las glándulas submandibulares, cuyo efecto permanece, al menos, durante 4 meses tras cada inyección y mejora la motivación del sujeto para incorporar los aprendizajes de continencia salival. Si, tras 1 año de tratamiento farmacológico y rehabilitador, continúa existiendo una incontinencia invalidante, merece la pena considerar las terapias quirúrgicas, entre las cuales la más recomendable, por su eficacia según las series publicadas, es la combinación de una submaxilectomía bilateral y la ligadura del conducto parotídeo. ■■■

Bibliografía

1. Lespargot A. La vidange salivaire. Ses perturbations chez l'enfant IMC. *Motricité Cérébrale*. 1984; 5: 49-58.
2. Lespargot A, Langevin MF, Muller S, Guillemont S. Swallowing disturbances associated with drooling in cerebral palsied children. *Dev Med Child Neurol*. 1993; 35: 298-304.
3. Lespargot A. Le carrefour aéro-digestif, anatomie fonctionnelle. *Motricité Cérébrale*. 1987; 8: 1-24.
4. Chevie-Muller C. Síndromes pseudobulbares, apraxia buco-facial y síndrome de Moebius. En: Narbona J, Chevie-Muller C, eds. *El lenguaje del niño: desarrollo normal, evaluación y trastornos*, 2.ª ed. Barcelona: Masson, 2001; 247-253.
5. Clark M, Carr L, Reilly S, Neville B. Worster-Drought syndrome, a mild tetraplegic perisylvian cerebral palsy. Review of 47 cases. *Brain*. 2000; 123 (Pt 10); 2.160-2.170.
6. Thomas-Stonell N, Greenberg J. Three treatment approaches and clinical factors in the reduction of drooling. *Disphagia*. 1988; 3: 73-78.
7. Le Métayer M. Rééducation de la motricité bucco-faciale. *Motricité Cérébrale*. 1995; 16: 41-68.
8. Grenier A, Lesca F, Maurer MM, De Cazes L. Appareil anti-bavage. *Cahiers du CDI Infirmité Motrice Cérébrale*. 1976; 68: 34-37.
9. Garliner D. *Myofunktionelleherapie in der Praxis*. München: Dinauer, 1989.
10. Hoon AH, Freese PO, Reinhardt EM, Wilson MA, Lawrie WT, Harryman SE, et al. Age-dependent effects of trihexiphenidyl in extrapyramidal cerebral palsy. *Pediatr Neurol*. 2001; 25: 55-58.
11. Blasco PA, Stansbury JCK. Glycopyrrolate treatment of chronic drooling. *Arch Pediatr Adolesc Med*. 1996; 150: 932-935.
12. Lewis DW, Fontana C, Mehallick LK, Everett Y. Transdermal scopolamine for reduction of drooling in developmentally delayed children. *Dev Med Child Neurol*. 1994; 36: 484-486.
13. Jongerius PH, Van den Hoogen FJA, Van Limbeek J, Gabreëls FJ, Van Hulst K, Rotteveel JJ. Effect of botulinum toxin in the treatment of drooling: a controlled clinical trial. *Pediatrics*. 2004; 144: 620-627.
14. Wilkie TF. The problem of drooling in cerebral palsy: a surgical approach. *Can J Surg*. 1967; 10: 60-66.
15. Laiter N, Babut JM, Tekou H, Fremond B, Chapuis M, Bracq C. Traitement chirurgical de l'incontinence salivaire chez l'IMC et l'IMOC. Premiers résultats et réflexions à propos de 12 cas opérés. *Motricité Cérébrale*. 1990; 11: 23-31.
16. Chang CJ, Wong AMK. Intraductal laser photocoagulation of the bilateral parotid ducts for reduction of drooling in patients with cerebral palsy. *Plastic Reconstr Surg*. 2001; 107: 907-913.
17. Panarese A, Ghosh S, Hodgson D, McEwan J, Bull PD. Outcomes of submandibular duct re-implantation for sialorrhea. *Clin Otolaryngol*. 2001; 26: 143-146.
18. O'Dwyer TP, Conlon BJ. The surgical management of drooling: a 15 year follow-up. *Clin Otolaryngol*. 1996; 22: 284-287.
19. Crysedale WS, Raveh E, McCann C, Roske L, Kotler A. Management of drooling in individuals with neurodisability: a surgical experience. *Dev Med Child Neurol*. 2001; 43: 379-383.
20. Özgenel GY, Özcan M. Bilateral parotid-duct diversion using autologous vein grafts for the management of chronic drooling in cerebral palsy. *Br J Plast Surg*. 2002; 6: 490-493.
21. Stern Y, Feinmesser R, Collins M, Shott SR, Cotton RT. Bilateral submandibular gland excision with parotid duct ligation for treatment of sialorrhea: long term result. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg*. 2002; 128: 801.
22. Shirley WP, Hill JS, Woolley AL, Wiatrak BJ. Success and complications of four-duct ligation for sialorrhea. *Int J Pediatr Otorhinolaryngol*. 2003; 67: 1-6.
23. Zuker RM, Goldberg CS, Manktelow RT. Facial animation in children with Möbius syndrome after segmental gracilis muscle transplant. *Plastic Reconstr Surg*. 2000; 106: 1-8.