

Plagiocefalia posicional y neurodesarrollo: una revisión narrativa

Positional plagiocephaly and neurodevelopment: a narrative review

Juan Martín Molinari^a, Gabriela Luján Molina^b, Noelia Muñoz-Serrano^a

^aClínica Plagiocefalia Argentina. Buenos Aires, Argentina.

^bUniversidad Fasta. Mar del Plata, Argentina.

Recibido: 7 de febrero de 2024; Aceptado: 16 de mayo de 2024

¿Qué se sabe del tema que trata este estudio?

La plagiocefalia posicional es una patología pediátrica frecuente. Se la ha considerado una condición meramente estética, pero recientemente ha sido explorada su asociación con retraso en el neurodesarrollo.

¿Qué aporta este estudio a lo ya conocido?

Los hallazgos apuntan a resaltar una asociación entre plagiocefalia y retraso en el neurodesarrollo. Los profesionales de la salud del primer nivel de atención deberían monitorear a los lactantes con esta condición, para implementar el manejo adecuado.

Resumen

La plagiocefalia posicional es una patología pediátrica frecuente. Se la ha considerado una condición estética, pero recientemente ha sido explorada su asociación con retraso en el neurodesarrollo. **Objetivo:** Actualizar los hallazgos de una revisión sistemática de 2017 acerca de plagiocefalia y neurodesarrollo mediante una revisión narrativa. **Método:** Se realizó el relevamiento de artículos en las bases MEDLINE, PubMed, Google Scholar y DeepDyve, la extracción de datos de los estudios más relevantes, y la evaluación de su calidad metodológica. Los términos de búsqueda utilizados fueron “*plagiocephaly*”, “*positional plagiocephaly*”, “*brachycephaly*”, “*motor skills*”, “*development*”, “*developmental delay*”, “*neurodevelopment*”, “*language acquisition*”, “*psychomotor performance*” y “*cognition*”. **Resultados:** La búsqueda recuperó 198 artículos, de los cuales 14 cumplieron los criterios de inclusión. Se relevan poblaciones infantiles entre los 4 – 7 meses y los 8 años. Las limitaciones incluyen sesgos de selección, uso de la misma población en varios estudios, y ausencia de uniformidad de diagnóstico. Los resultados muestran asociación positiva entre plagiocefalia y retraso en el neurodesarrollo. Los estudios con mayor calidad metodológica encuentran el retraso en diferentes momentos evolutivos (7, 18, y 36 meses, y edad escolar) y dimensiones (motora, cognitiva, conductual y lingüística). **Conclusiones:** Se observa asociación entre plagiocefalia y retraso en el neurodesarrollo. Los profesionales de la salud del primer nivel de atención deberían monitorear a los lactantes con esta condición, para implementar las intervenciones correspondientes.

Palabras clave:

Plagiocefalia;
Desarrollo Infantil;
Lactante;
Cognición;
Neurodesarrollo

Abstract

Positional plagiocephaly is a common pediatric pathology that has been considered as a cosmetic condition, but recently its association with neurodevelopmental delay has been explored. **Objective:** To perform a narrative review updating the findings of a 2017 systematic review on plagiocephaly and neurodevelopment. **Methodology:** Articles in the MEDLINE, PubMed, Google Scholar, and DeepDyve databases were reviewed, data were extracted from the most relevant studies evaluating their methodological quality. The search terms used were: “*plagiocephaly*”, “*positional plagiocephaly*”, “*brachycephaly*”, “*motor skills*”, “*development*”, “*developmental delay*”, “*neurodevelopment*”, “*language acquisition*”, “*psychomotor performance*”, and “*cognition*”. **Results:** The search found 198 articles, of which 14 met the inclusion criteria. A child population aged 4 to 11 months to 8 years was observed. The study highlighted limitations including potential selection bias, use of the same population in several studies, and lack of diagnostic consistency. The results showed a positive association between plagiocephaly and neurodevelopmental delay. The studies of higher methodological quality identified delays in different developmental stages (7, 18, and 36 months, and school-age) and dimensions (motor skills, cognition, behavior, and language). **Conclusion:** There is an association between plagiocephaly and neurodevelopmental delay. Primary care professionals should monitor infants with this condition in order to initiate proactive interventions.

Keywords:

Plagiocephaly;
Child Development;
Infant;
Cognition;
Neurodevelopment

Introducción

La plagiocefalia posicional (PP) es una de las causas más frecuentes de consulta en neurocirugía pediátrica¹. Existe consenso acerca del incremento de la incidencia de PP a partir de la década de 1990, momento en que se implementó la campaña de la Academia Americana de Pediatría *Back to sleep*²⁻⁴. Desde entonces se observa un aumento de casos nuevos de PP a partir de que la población modificara la postura de sueño en los lactantes⁵⁻¹². Aunque no se cuenta con datos epidemiológicos locales, estudios llevados a cabo en otros países reportan tasas de incidencia de PP del 46,6% en lactantes de entre 7 y 12 semanas¹³. En 2018, Ballardini et al.¹⁴ informaron una prevalencia de PP del 37,8% en una población de recién nacidos de término saludables entre las 8 y 12 semanas de vida. Últimamente, Marshall y Shahzad han calculado que la cantidad de casos de PP se ha más que cuadruplicado¹⁵. Estas estadísticas reflejan una realidad sanitaria que en algunos casos, ha “saturado el sistema de salud”¹⁶.

Inicialmente se interpretó que la PP es condición estética benigna sin correlato aparente en el plano neuroconductual. Sin embargo, trabajos científicos publicados en los primeros años del siglo comenzaron a poner en duda esta percepción. En 2000 Miller y Clarrren llevaron a cabo un estudio retrospectivo sobre un conjunto de pacientes con diagnóstico de PP, y encontraron que el 39,7% de ellos debió recurrir a distintos tipos de apoyo terapéutico¹⁷. Panchal et al. evaluaron el rendimiento cognitivo y psicomotor de un grupo de 21 niños con craneosinostosis no sindrómica (edad promedio 10,9 meses) y un grupo de 42 niños con PP (edad promedio 8,4 meses), y encontraron retrasos sig-

nificativos en ambos grupos cuando se los comparaba con una población estandarizada¹⁸. En 2003, Hutchinson et al. entrevistaron a las madres de 100 niños con PP y a las madres de 94 controles, y encontraron que las primeras percibían con más frecuencia una menor actividad motora del infante, problemas con el control de la cabeza, y un retraso en la aparición de la conducta de *rolling*¹⁹. A esos estudios pioneros siguieron otros, presentándose un nivel preliminar de evidencia sobre la asociación entre PP y retraso en el neurodesarrollo²⁰. Sin embargo, esta asociación no debería ser interpretada en términos de relación causal unidireccional (PP causa retraso), porque no están todavía claras las relaciones entre PP y neurodesarrollo. El objetivo de esta revisión narrativa es actualizar la evidencia disponible a la fecha respecto de la asociación entre PP y retraso del neurodesarrollo.

Metodología

Revisión narrativa según normativa SANRA²¹. Se implementó una estrategia de búsqueda altamente sensible, y se solicitaron referencias a profesionales con experiencia en la atención clínica de PP (neurocirujano pediátrico, pediatra, y fisiatra). La búsqueda se restringió al idioma inglés. Las bases Medline, PubMed, Google Scholar, DeepDyve, y Lilacs se exploraron tomando como parámetro temporal el lapso comprendido entre el año 1990 y el mes de abril de 2023. Los términos de búsqueda utilizados fueron “*plagiocephaly*”, “*positional plagiocephaly*”, “*brachycephaly*”, “*motor skills*”, “*development*”, “*developmental delay*”, “*neurodevelopment*”, “*language acquisition*”, “*psychomotor performance*” y

“*cognition*”. Adicionalmente, las referencias bibliográficas de los artículos seleccionados fueron, también, revisadas de modo manual.

Fueron incluidos artículos: [1] publicados entre 2017 y abril de 2023; [2] publicados con anterioridad a 2017, y no incluidos en la revisión de 2017²⁰; [3] que desarrollan estudios observacionales de la relación entre PP y neurodesarrollo, sus dimensiones y/o indicadores; [4] que estudian una población de lactantes y/o niños y/o jóvenes hasta la edad escolar secundaria; y [5] que no consideran otras condiciones asociadas, como prematuridad, craneosinostosis, tortícolis u obesidad. Dos revisores (GLM y NMS) relevaron de modo independiente los títulos y resúmenes del listado generado para eliminar las publicaciones no relevantes. Luego, exploraron la elegibilidad del resto, conforme a los criterios de inclusión. Los artículos seleccionados fueron sometidos a un proceso de extracción de datos

llevado a cabo independientemente por los mismos revisores (GLM y NMS). En la selección y en la extracción de los datos, las divergencias y desacuerdos fueron resueltos a través de la discusión con el autor restante (JMM).

La calidad metodológica de los artículos incluidos en esta actualización fue evaluada de acuerdo a los siguientes criterios²²: (i) métodos de selección de la población; (ii) exposición, (iii) resultado; (iv) control de sesgos; (v) control de variables de confusión; (vi) estadísticos utilizados; (vii) conflicto de intereses. Cada criterio es puntuado en una escala de dos valores (1; 0); el puntaje final de cada artículo es la resultante de la suma de los puntajes parciales obtenidos por cada criterio. De acuerdo a ello, los artículos se clasificaron en tres categorías: calidad baja (0-2 puntos); calidad media (3-5 puntos); y calidad alta (6-7 puntos) (tabla 1).

Tabla 1. Criterios de evaluación y scores de los artículos incluidos en la revisión

Artículo	Métodos de selección de la población	Exposición	Resultado	Control de sesgos	Control de variables de confusión	Estadísticos utilizados	Conflicto de interés	Puntaje
Zhao XQ, Wang LY, Zhao CM <i>et al.</i> ³⁴	1	1	1	0	0	1	1	5
Siatkowski RM, Fortney AC, Nazir SA <i>et al.</i> ³⁰	1	0	1	0	0	0	0	2
Wallace ER, Ola C, Leroux BG <i>et al.</i> ²⁵	1	1	1	0	1	1	1	6
Kim DH y Kwon DR ³¹	1	0	1	0	0	0	1	3
Collett BR, Kartin D, Wallace ER <i>et al.</i> ²⁶	1	1	1	0	0	1	1	5
Knight SJ, Anderson VA, Meera JG <i>et al.</i> ³⁶	1	0	1	0	0	0	1	3
Collett BR, Wallace ER, Ola C <i>et al.</i> ²⁷	1	1	1	0	1	1	1	6
Ola C, Speltz ML y Collett BR ²⁸	1	1	1	0	1	1	1	6
Fontana SC, Daniels D, Greaves T <i>et al.</i> ³⁷	1	0	1	0	0	0	1	3
Rohde JF, Goyal NK, Slovin SR <i>et al.</i> ³²	1	0	0	0	0	0	1	2
Hussein MA, Woo T, Yun IS <i>et al.</i> ³³	1	1	0	0	0	0	1	3
Collett BR, Wallace ER, Kartin D <i>et al.</i> ²³	1	1	1	0	1	1	1	6
Collett BR, Wallace ER, Kartin D <i>et al.</i> ²⁴	1	1	1	0	1	1	1	6
Cabrera-Martos I, Valenza MC, Valenza-Demet G <i>et al.</i> ³⁵	1	0	1	0	0	0	1	3

Evaluación de los métodos de selección de población, exposición, resultado, control de sesgos, control de variables de confusión, estadísticos utilizados y conflicto de interés en los artículos incluidos en la revisión (elaboración de los autores).

Resultados

La búsqueda arrojó un total de 198 artículos luego de remover los duplicados. Después de relevar los títulos y los resúmenes, 22 artículos fueron seleccionados, y 14 cumplieron los criterios para ser incluidos en esta actualización (tabla 2).

Ningún estudio es de base poblacional. De los 14 estudios incluidos, la mayoría ($n = 6$)²³⁻²⁸ son diseños de cohorte prospectivo; todos ellos reportan resultados obtenidos a través del seguimiento de la misma cohorte²⁹. El resto de estudios son retrospectivos ($n = 4$)³⁰⁻³³, casos y controles ($n = 2$)^{34,35} y series de casos ($n = 2$)^{36,37}. Los estudios evaluaron niños en edades de hasta 18 meses ($n = 8$)^{24,28,30-32,34,36-37}, hasta 36 meses ($n = 3$)^{24,28,33}, hasta 7 años ($n = 3$)^{23,28,35}, y en “edad es-

colar” ($nn = 4$)^{23,25-27}. Las poblaciones relevadas pertenecen a China ($n = 1$), Estados Unidos de América ($n = 9$), Australia ($n = 1$), Corea del Sur ($n = 2$) y España ($n = 1$).

Respecto de la calidad metodológica de los artículos incluidos, la casi totalidad entra en las categorías de media (7/14) y alta (5/14). Los problemas metodológicos más frecuentes fueron las falencias relativas a procedimientos para reducir sesgos (14/14), para controlar factores de confusión (9/14), y para medir la exposición (6/14). En 6 estudios no se utilizó grupo de control, y los grupos fueron comparados con las poblaciones normalizadas para cada prueba o test. En 7 estudios no se utilizaron medidas de cálculo de poder estadístico, y sólo en algunos se utilizaron análisis multivariados para el control de las variables de con-

Tabla 2. Estudios incluidos en la revisión.

Autores	Año	Tipo de estudio	Score	Método diagnóstico PP	Medición efecto	Muestra	Edad
Zhao XQ, Wang LY, Zhao CM <i>et al.</i> ³⁴	2017	Casos y controles	5	Cálculo manual de IAC	INFANIB	393 casos y 390 controles	0 - 18 meses
Siatkowski RM, Fortney AC, Nazir SA <i>et al.</i> ³⁰	2005	Retrospectivo	2	S/D. TC de 16 casos para evaluar severidad	Perimetría de arco	40 casos	19 - 53 semanas
Wallace ER, Ola C, Leroux BG <i>et al.</i> ²⁵	2020	Cohorte prospectivo	6	Imagen 3D	BSID, DAS, WIAT, BOT	235 casos	4 - 11 meses a 8 años
Kim DH y Kwon DR ³¹	2020	Retrospectivo	4	Cálculo manual de IAC	DDST	38 casos	3 - 13 meses
Collett BR, Kartin D, Wallace ER <i>et al.</i> ²⁶	2020	Cohorte prospectivo	6	Imagen 3D	DAS, WIAT, BOT	187 casos y 149 controles	4 - 11 meses a 8 años
Knight SJ, Anderson VA, Meara JG <i>et al.</i> ³⁶	2013	Serie de casos	4	Cálculo manual categorías Argenta	BSID	21 casos	5 - 12 meses
Collett BR, Wallace ER, Ola C <i>et al.</i> ²⁷	2021	Cohorte prospectivo	6	Imagen 3D	BSID, DAS	187 casos y 149 controles	4 - 11 meses a 8 años
Ola C, Speltz ML y Collett BR ²⁸	2022	Cohorte prospectivo	6	Imagen 3D	CBCL, TRF	220 casos y 164 controles	4 - 11 meses a 8 años
Fontana SC, Daniels D, Greaves T <i>et al.</i> ³⁷	2016	Serie de casos	3	Cálculo manual de IAC	BSID	22 casos	4 - 11 meses
Rohde JF, Goyal NK, Slovin SR <i>et al.</i> ³²	2021	Retrospectivo	4	S/D	S/D	2315 casos y 74793 controles	12 meses
Hussein MA, Woo T, Yun IS <i>et al.</i> ³³	2018	Retrospectivo	4	Cálculo manual de IAC y RX	BSID	155 casos	4 - 36 meses
Collett BR, Wallace ER, Kartin D <i>et al.</i> ²³	2019	Cohorte prospectivo	6	Imagen 3D	BSID	235 casos y 167 controles	4 - 11 meses a 3 años
Collett BR, Wallace ER, Kartin D <i>et al.</i> ²⁴	2019	Cohorte prospectivo	6	Imagen 3D	DAS, WIAT	187 casos y 149 controles	Edad escolar (> 7 años)
Cabrera-Martos I, Valenza MC, Valenza-Demet G <i>et al.</i> ³⁵	2016	Casos y controles	3	S/D	Test Stibor, Test Schober, PBS	52 casos y 52 controles	3 - 5 años

Año de publicación, tipo de estudio, *score* metodológico, método diagnóstico de PP, medición del efecto, muestra y edad de los artículos incluidos en la revisión (elaboración de los autores).

fusión y las interacciones. En 8 de 14 estudios utilizan adecuadas medidas de exposición, y la mayoría (12/14) pondera de modo válido las variables de efecto.

Respecto de las medidas de neurodesarrollo, en 6 estudios^{24,25,27,33,36,37} se utilizaron las *Bayley Scales of Infant Development* (BSID). Todos evaluaron a sujetos en un rango de edad similar (4-11 meses de edad), aunque tres de ellos^{24,25,27} con diseños longitudinales que arrojan datos correspondientes a los 18 meses y 36 meses de edad. De estos estudios que implementaron la BSID, 4 utilizaron medidas objetivas (imágenes 3D^{24,25,27}, radiografías³³) para el diagnóstico de la condición de PP. Dos estudios utilizaron la segunda edición de la escala Bayley (BSID-II), que pondera puntajes para el Índice de Desarrollo Mental (IDM) y el Índice de Desarrollo Psicomotor (IDP). El primero de esos estudios³⁶ (calidad metodológica 3/7) examinó 21 pacientes de una edad promedio de 7,9 meses con diagnóstico de PP. El puntaje promedio IDM de los niños con PP (97,1; DS 7,7) no difirió significativamente de la población normalizada ($P = 0,10$, $r = 0,36$), mientras que el promedio IDP (91,0; DS 13,2) fue significativamente más bajo de lo esperado teniendo en cuenta la población estándar ($P < 0,01$, $r = 0,57$). Muchos niños puntuaron dentro del rango de referencia, pero ninguno obtuvo puntajes de desarrollo acelerado en las escalas. El análisis de regresión aplicado a la severidad de la PP (de acuerdo a Argenta) no fue significativamente predictivo de los puntajes IDM ($P = 0,09$, $f^2 = 0,45$) ni de los puntajes IDP ($P = 0,50$, $f^2 = 0,15$). La prueba t no mostró diferencias atribuibles al sexo en el IDM ($P = 0,64$, $r = .11$) pero sí en el IDP (promedio varones 86,4 DS 13,2; promedio mujeres 100,3 DS 7,3) ($P = 0,05$, $r = 0,51$). Los hallazgos del segundo estudio³³ (evaluado con calidad 3/7) resultaron de una muestra de 155 pacientes de una edad promedio de 9,9 meses, diagnosticados con PP. Luego de corregir factores de confusión, los resultados mostraron un promedio IDM de 96,26 (DS 14,4), para una población estándar con un promedio IDM de 100 (DS 15) ($P = 0,0382$), y un promedio IDP de 92,9 (DS 17,3), para una población estándar con promedio IDP de 100 (DS 16) ($P = 0,0001$). No se observa relación significativa entre la severidad de la PP (obtenida a través de medidas antropométricas de Índice Craneal [IC] e Índice de Asimetría Craneal [IAC]) y los valores IDM e IDP.

Los otros cuatro estudios^{24,25,27,37} utilizaron la tercera edición de la escala Bayley (BSID-III). Un estudio prospectivo³⁷ (evaluado con calidad 3/7) de 27 niños entre 4 y 11 meses de edad (edad promedio 6,61 meses de edad) mostró que 3 de 27 lactantes (11%) presentaron retraso en la escala de lenguaje, mientras que 5 de 23 lactantes (22%) presentaron retraso en la escala de desarrollo motor. Ningún niño presentó retraso en la escala cognitiva. El artículo analiza una muestra

pequeña, no presenta cálculos de significatividad, ni aporta datos acerca del nivel del retraso encontrado. Para evaluar la correlación entre retraso y grado de deformidad craneal (medida a través de calibre manual, y expresada en las categorías de leve, moderada y grave) se usó regresión lineal. No se encontraron correlaciones para la escala motora ($R^2 = 0,0195$, $P = 0,536$) ni para la escala de lenguaje ($R^2 = 0,03$, $P = 0,399$) o la escala cognitiva ($R^2 = 0,058$, $P = 0,238$). De los estudios longitudinales que evalúan la misma cohorte, en uno de ellos²⁴ (evaluado con calidad 6/7), un grupo de niños de entre 7 meses y 3 años de edad ($n = 235$) con PP fue comparado en neurodesarrollo con un grupo de controles ($n = 167$) a los 7 meses promedio (T1), 18 meses (T2) y 36 meses (T3), con el propósito de evaluar el potencial predictivo de las destrezas motoras en el futuro desempeño cognitivo y lingüístico. Los resultados mostraron escasa evidencia de asociación de los puntajes en la escala motora del BSID obtenidos en T1 por niños con PP, con los resultados obtenidos en T3 en las escalas cognitiva y lingüística. El tamaño del efecto (TE) estuvo en el rango de $-0,05$ a $0,10$ ($P = 0,13$ a $0,95$). Sin embargo, los resultados de la escala motora obtenidos en T2 en pacientes con PP se asociaron positivamente con el desempeño cognitivo y lingüístico en T3 (TE = $0,21$ a $0,45$, $P = < 0,001$ a $0,01$).

Basado en la misma cohorte, un estudio de 2020²⁷ (calidad metodológica 6/7) comparó 187 niños con PP con 149 controles, con el propósito de estudiar su desarrollo motor y el desempeño cognitivo. En la Fase 1 del estudio, se evaluó la cohorte (edad promedio 7 meses, DS 1,6) con la BSID-III, mientras que en la Fase 2 (edad 7 años o más) se la relevó utilizando la *Differential Ability Scales* en su segunda edición (DAS-II). Los resultados mostraron que el efecto caso-control total para el puntaje general DAS-II fue $\beta = -4,60$ (95% IC = $-7,21$ a $-1,99$, $P = < 0,001$). En otras palabras, los niños con PP puntuaron 4,6 puntos estándar ($\sim 0,3$ DS) menos que los controles en habilidad cognitiva general, habiendo mostrado también un desempeño motor más pobre ($\beta = -9,36$; 95% IC = $12,11$ a $6,11$, $P < 0,001$).

El último de los estudios basados en la misma cohorte²⁵ (evaluado con calidad 6/7) se llevó a cabo en dos fases, definidas metodológicamente del mismo modo que en el anterior, salvo que en la segunda fase se aplicó, además de la DAS-II, el *Weschler Individualized Achievement Test* en su tercera edición (WIAT-III), y el *Bruininks-Oseretsky Test of Motor Proficiency* en su segunda edición (BOT-II). Los resultados mostraron que el relevamiento con BSID-III mejoró la predictibilidad del funcionamiento infantil en edad escolar temprana en todos los dominios, incluidos cognición, logro académico, y performance motora. La asociación entre los puntajes obtenidos en T3 en BSID-III y el DAS-II, por

ejemplo, muestra un $\beta = 0,65$ (95% IC = 0,41 a 0,89, $P < 0,001$), y la asociación entre BSID-III y el BOT-II en T3, un $\beta = 0,28$ (95% IC = 0,1 a 0,45, $P < 0,004$).

El grupo de Seattle investigó la relación entre neurodesarrollo y PP utilizando otras aproximaciones metodológicas. En un trabajo de 2020²⁶ (calificado con calidad 5/7) se relevaron escolares con PP ($n = 187$) y controles ($n = 149$) con el BOT-II, para estudiar diferencias en la performance motora. Los resultados mostraron que los niños con PP obtuvieron puntajes más bajos en la escala compuesta del BOT-II (TE = -0,25, $P = 0,03$), así como en las subescalas de agilidad y velocidad (TE = -0,24), fuerza (TE = -0,27), e integración motriz fina (TE = -0,26). Los análisis estratificados por severidad de la PP mostraron que las diferencias significativas se observaron solamente entre los niños que presentaron PP moderada a severa (TE = -0,35 a -0,26, $P = 0,01$ a 0,05). En un artículo posterior²⁸ (evaluado con calidad 6/7), se aplicó el *Achenbach System of Empirically Based Assessments* (ASEBA), el *Child Behavior Checklist* para edades 1,5-5 años (CBCL/1,5-5) y para edades > 5 años (CBCL/6-18), y el *Teacher's Report Form* (TRF), con el objetivo de comparar el desarrollo socio-conductual de 220 niños con historia de PP y 164 controles en edad preescolar y escolar. Este diseño longitudinal relevó la muestra a los 7 meses de edad (T1), 18 meses (T2), 36 meses (T3) y 7 años (T4). Los resultados mostraron escasa evidencia a favor de diferencias casos-contróles en las escalas compuestas del CBCL, pero en T4 los puntajes del nivel total de problemas fueron significativamente más bajos en casos que en controles (TE = -0,37, 95% IC, -0,60 a -0,13). Respecto de las disparidades casos-contróles en el análisis estratificado por severidad de PP, no hubo diferencias significativas, salvo en los casos de la escala TRF en T3 y la escala de competencia total del CBCL en T4 en casos de niños con PP moderada-severa.

Finalmente, el DAS-II y el WIAT-III fueron utilizados para evaluar el desarrollo en niños en edad escolar con historia de PP, en un artículo evaluado con calidad 6/7²³. Se incluyeron 187 casos y 149 controles. Luego de ajustar por características demográficas, los niños con PP puntuaron por debajo de los controles en varias escalas del DAS (TE = -0,38 a -0,20, $P = 0,001$ a 0,09). Los casos también puntuaron más bajo en el WIAT, aunque las diferencias fueron pequeñas y no significativas estadísticamente (TE = -0,22 a -0,17, $P = 0,06$ a 0,16). El análisis estratificado por severidad de PP mostró diferencias consistentemente más amplias en niños con PP moderada-severa. En el DAS, las diferencias casos-contróles se ubicaron en el rango de TE = -0,47 a 0,32 ($P < 0,001$ -0,02), mientras que en el WIAT fue de TE = -0,25 a -0,23 ($P = 0,04$ a 0,07).

En 2017 se usó una versión normalizada para la población infantil china de la *Infant Neurological Interna-*

tional Battery (INFANIB). El artículo³⁴ (evaluado con calidad 5/7) buscó identificar diferencias en la performance neurológica entre un grupo de niños con diferentes grados de PP ($n = 393$) y un grupo de controles ($n = 390$). La exposición se midió de forma manual por dos examinadores independientes, y se calculó el IAC. Se encontró que los niños con PP obtuvieron *scores* significativamente más bajos que los controles en las escalas de espasticidad, cabeza y tronco, piernas, y ángulos franceses ($P < 0,01$). Por otro lado, el análisis estratificado por severidad de PP mostró que, a mayor severidad de la presentación (PP leve, moderada, y severa), menor puntaje INFANIB ($P < 0,01$).

El *Denver Developmental Screening Test* (DDST) fue aplicado en un grupo de 38 niños surcoreanos con PP en un estudio retrospectivo publicado en 2020³¹ (evaluado con calidad 3/7), con el propósito de determinar la prevalencia de retraso en el neurodesarrollo. La plagiocefalia fue medida con calibre por un profesional único, y se calculó el IAC. El diseño no incluyó grupo control y la muestra fue de tipo intencional. Los resultados del *screening* mostraron una diferencia significativa en el número de lactantes con retraso entre el grupo con IAC < 10 mm y el grupo con IAC > 10 mm, a favor de este último ($P = 0,003$). El IAC mostró ser mayor en el grupo de niños con retraso ($n = 21$, 7,39 $\pm$ 3,24%).

Otros estudios han sido realizados sin la aplicación de instrumentos de medición del neurodesarrollo. Un estudio retrospectivo de 2005³⁰ (evaluado con calidad 2/7) explora los defectos en el campo visual de un grupo de niños con PP. El examen del campo visual ha sido sugerido como medio para detectar anomalías en el desarrollo madurativo cortical³⁸. Estudiaron 40 casos consecutivos de PP, entre las 19 y las 53 semanas de vida. No se informa el método de ponderación de la exposición; sólo 16 casos fueron confirmados vía tomografía computarizada 3D. Los niños fueron sometidos a una perimetría de arco en el plano horizontal, administrada por dos profesionales a simple ciego. Una asimetría de hemisferios ≥ 20 grados se consideró anormal, y una reducción de hemisferios ≥ 20 grados (respecto de los valores de pacientes considerados normales) también se consideró anormal. Los resultados de las ponderaciones mostraron que la reducción de uno o ambos hemisferios de al menos 20 grados –comparado con valores normales– ocurrió en el 35% (14/40) de los pacientes con plagiocefalia.

Un estudio de 2016³⁵ (calidad metodológica 3/7) ponderó la postura, flexibilidad muscular y equilibrio de 52 niños con historia de PP y 52 controles. La postura estática se midió a través de ángulos y distancias entre puntos de referencia anatómicos. La flexibilidad se midió con el test Stibor y el test Schober, y el equilibrio a través de la *Pediatric Balance Scale* (PBS). El análisis

de varianza *one way* arrojó diferencias estadísticamente significativas ($P = 0,05$) para posición de la cabeza, flexibilidad muscular y equilibrio.

Por último, en un estudio retrospectivo³² (evaluado con calidad 2/7), se revisaron historias clínicas de pacientes entre 0 y 5 años de edad, registradas entre 1999 y 2017 en 45 centros de atención primaria pediátrica de tres estados de Estados Unidos. El diagnóstico de PP fue realizado por el pediatra interviniente (no se consigna método de ponderación de la exposición), y se consideró como efecto “cualquier retraso en el desarrollo” (motor, lingüístico, cognitivo, o general). El análisis mostró que de los 77.108 participantes, 6.896 (8,9%) fueron diagnosticados con algún tipo de retraso. Este diagnóstico fue más probable en el grupo con PP, con 404 niños de 2.315 (17,5%) diagnosticados con retraso en comparación con los 6.492 niños de 74.793 (8,7%) en el grupo sin PP (OR 2,22, 95% IC 1,99 - 2,48, $P < 0,001$). El diagnóstico de PP se asoció fuertemente al riesgo de retraso motor (OR 4,10, 95% IC 3,27 - 5,13, $P < 0,001$), retraso lingüístico (OR 1,87, 95% IC 1,65 - 2,13, $P < 0,001$), y retraso social (OR 3,70, 95% IC 1,31 - 10,41, $P = 0,013$).

Síntesis

En los 14 artículos incluidos en esta revisión se observa evidencia a favor de la asociación entre PP y retraso en el neurodesarrollo. Los 6 artículos que poseen el *score* metodológico más alto²³⁻²⁸ (puntuajes 6/7) tienen diseños prospectivos que han sido realizados sobre la misma cohorte, utilizando instrumentos normativos para ponderar distintas dimensiones del neurodesarrollo. Estos estudios reportan asociación positiva entre neurodesarrollo y PP, con detección del retraso a diferentes edades y en diferentes dimensiones del desarrollo. Los dos estudios de casos y controles^{34,35} arrojan datos similares, encontrando asociación entre PP y retraso en el desarrollo motor.

Discusión

Esta revisión narrativa procura arrojar luz sobre un tema relativamente poco estudiado, y sobre el cual no existen revisiones en idioma español. Se identificaron 14 estudios que reportan resultados de mediciones en neurodesarrollo en niños con PP, de los cuales 7 poseen una calidad metodológica media (2/14) o alta (5/14). Los niveles de evidencia más robustos provienen de artículos cuya evaluación de calidad metodológica ha sido alta^{23-25,27,28} (6/7, vs. tabla 1). Todos ellos son estudios de cohorte prospectivos, que muestran las relaciones entre retraso y PP en las áreas de desempeño motor, cognitivo, lingüístico y desarrollo socioconductual en niños desde los 3 meses de edad hasta la

edad escolar. En estos artículos, publicados entre 2019 y 2022 por el grupo de Seattle, se advierte el interés en estudiar las relaciones entre las dimensiones motoras e intelectuales del desarrollo en niños con PP. Este interés es justificado, en la medida en que la neuropsicología del desarrollo ha constatado la íntima conexión de esos aspectos. Se reportan asociaciones entre desarrollo motor y desarrollo cognitivo-lingüístico en pacientes con PP, destacando que un desarrollo motor pobre es predictivo de retraso en el desarrollo intelectual^{23,24,27}. Mediciones realizadas a través de diferentes instrumentos psicotécnicos apuntan en la misma dirección²⁵. Los autores de Seattle no encuentran asociación entre PP y problemáticas socio-conductuales²⁸, lo que parecería circunscribir la asociación a las dimensiones motora e intelectual. Si se consideran los estudios que recogen datos sobre población en edad escolar^{23,26}, destaca que el rendimiento académico es más bajo en niños con PP. Por otro lado, en niños en edad escolar también se ha confirmado la asociación entre PP y desarrollo motor -aunque, al parecer, asociada a grados moderados- severos de PP²⁶.

Los hallazgos de los estudios caso-control aportan evidencia congruente: en el estudio chino, los niños con PP puntúan sistemáticamente más bajo en desarrollo motor³⁴; en el restante estudio se verifica el mismo resultado, en especial en lo relativo a posición de cabeza, flexibilidad muscular y equilibrio³⁵. Los dos estudios realizados con muestras reducidas también señalan asociaciones positivas entre PP y retraso en el neurodesarrollo, en especial en su dimensión motora^{36,37}. En los dos estudios retrospectivos, se aporta evidencia en ese mismo sentido. En uno de ellos, la prevalencia de retraso en el desarrollo fue mayor en niños con PP (aunque hay que aclarar que el diseño de la muestra fue intencional)³¹; en el restante se toma en consideración el campo visual de los niños, resultando que el 35% de los niños con PP mostraban reducción de los hemisferios³⁰.

En una visión comparativa, la revisión sistemática sobre PP y neurodesarrollo realizada en 2017 arrojó resultados equiparables a los que aquí se reportan. Los autores concluyen que existe una asociación entre PP y retraso en el neurodesarrollo²⁰. La revisión de 2017 incluye 19 artículos, mientras que en ésta se han incluido 14. En 2017, la mayoría de los estudios fueron series de casos y estudios caso-control (15/19), en tanto que en esta revisión la mayoría de los estudios son de cohortes prospectivas (6/14). Las calidades metodológicas son comparables: en 2017, 16 sobre 19 estudios fueron categorizados de calidad moderada o alta; en esta revisión, 12 de 14 estudios califica como media o alta.

Toda esta evidencia posee relevancia clínica en pediatría general, porque dirige la atención sobre el hecho de que ciertas deformidades craneales (como la

PP) pueden asociarse a problemas de desarrollo. Los pediatras deberían monitorear los pacientes con esta condición, realizando pronta derivación para estudio y rehabilitación, con el objetivo de prevenir el retraso motor e identificar lactantes con déficit potencial y necesidades de apoyo a largo plazo.

Como fortalezas de esta revisión destacamos la estrategia de búsqueda implementada, la elaboración de una matriz para evaluar la calidad de los artículos incluidos, y la posible generalización de los resultados (dado que la mayoría de los artículos reportan investigaciones llevadas a cabo en países de cultura occidental).

Las debilidades de esta revisión han sido especialmente los sesgos de los artículos incluidos, en particular el sesgo de selección. 6 de los 14 artículos reportan datos obtenidos de la misma cohorte u obtenidos por el mismo equipo de investigación.

De lo anterior es posible derivar un conjunto de normas prácticas a implementar en la consulta pediátrica, como incluir en la anamnesis los hábitos de posicionamiento durante el sueño y el asesoramiento pediátrico sobre el *tummy time*, la utilización de craneómetro en el control del niño sano, la demanda de estudios de imágenes en casos probables, la derivación

a neuropsicología para evaluar parámetros de desarrollo en casos confirmados, el asesoramiento sobre estrategias de reposicionamiento, y eventualmente la evaluación y derivación a diferentes opciones de tratamiento.

Conclusiones

En línea con las conclusiones de la revisión sistemática de Martiniuk *et al.*²⁰, la evidencia recogida en esta revisión narrativa apunta a considerar la asociación de la PP con el retraso en el neurodesarrollo. Los resultados de esta revisión pueden fundamentar la inclusión, en la consulta pediátrica, de asesoramiento, prácticas o evaluaciones específicas (craneometría, reposicionamiento, evaluación del neurodesarrollo).

Conflictos de interés

JMM trabaja en Plagiocefalia Argentina como parte del *staff* científico de la clínica. NMS se desempeña como Directora Técnica de Plagiocefalia Argentina.

Referencias

- Esparza J, Hinojosa J, Muñoz MJ, et al. Diagnóstico y tratamiento de la plagiocefalia posicional. Protocolo para un Sistema Público de Salud. Neurocirugía. 2007;18:457-67.
- Ruiz Cabello JS, Ortiz Gonzalez LC. Prevención del síndrome de muerte súbita del lactante. An Pediatr Contin. 2012;10(6):353-8.
- American Academy of Pediatrics AAP Task Force on Infant Positioning and SIDS: Positioning and SIDS. Pediatrics. 1992;89 (6 Pt 1):1120-6. Erratum in: Pediatrics. 1992;90(2 Pt 1):264. PMID: 1503575.
- Collett B, Breiger D, King D, et al. Neurodevelopmental Implications of "Deformational" Plagiocephaly. J Dev Behav Pediatr. 2005;26(5):379-89. doi: 10.1097/00004703-200510000-00008.
- Kane AA, Mitchell LE, Craven KP, et al. Observations on a recent increase in plagiocephaly without synostosis. Pediatrics. 1996;97:877-85. PMID: 8657530.
- Argenta LC, David LR, Wilson JA, et al. An increase in infant cranial deformity with supine sleeping position. J Craniofac Surg. 1996;7:5-11. doi: 10.1097/00001665-199601000-00005. PMID: 9086895.
- Turk AE, Mc Carthy JG, Thorne CH, et al. The "back to sleep campaign" and deformational plagiocephaly: is there cause for concern? J Craniofac Surg. 1996;7(1):12-8. doi: 10.1097/00001665-199601000-00006.
- Di Rocco F, Ble V, Beuriat P-A, et al. Prevalence and severity of positional plagiocephaly in children and adolescents. Acta Neurochi. 2019;161:1095-8. doi: 10.1007/s00701-019-03924-2.
- Beuriat P-A, Szathmari A, Di Rocco F, et al. Deformational plagiocephaly: state of the art and review of the literature. Neurochirurg. 2019;65(5):322-9. doi: 10.1016/j.neuchi.2019.09.003.
- Branch LG, Kesty K, Krebs E, et al. Deformational plagiocephaly and craniosynostosis: trends in diagnosis and treatment after the "back to sleep" campaign. J Craniofac Surg. 2015; 26:147-50. doi: 10.1097/SCS.0000000000001401.
- Martinez-Lage JF, Arraez Manrique C, Ruiz-Espejo AM, et al. Deformaciones craneales posicionales: estudio clínico-epidemiológico. An Pediatr (Barc). 2012;77(3):176-83. https://doi.org/10.1016/j.anpedi.2012.02.013
- Laughlin J, Luerssen TG, Dias MS, Committee on Practice and Ambulatory Medicine, Section on Neurological Surgery. Prevention and management of positional skull deformities in infants. Pediatrics. 2011;128(6):1236-41. doi: 10.1542/peds.2011-2220.
- Mawji A, Robinson Vollman A, Hatfield J, et al. The incidence of positional plagiocephaly: a cohort study. Pediatrics. 2013;132(2):298-304. doi: 10.1542/peds.2012-3438.
- Ballardini E, Sisti M, Basaglia N, et al. Prevalence and characteristics of positional plagiocephaly in healthy full-term infants at 8-12 weeks of life. Eur J Pediatr. 2018;177(10):1547-54. doi: 10.1007/s00431-018-3212-0.
- Marshall JM, Shahzad F. Safe Sleep, Plagiocephaly, and Brachycephaly: Assessment, Risks, Treatment, and When to Refer. Pediatr Ann. 2020;49(10):e440-e447. doi: 10.3928/19382359-20200922-02.
- Martiniuk A, Jacob J, Faruqi N, et al. Positional plagiocephaly reduces parental adherence to SIDS Guidelines and inundates the health system. Child Care Health Dev. 2016;42(6):941-50. doi: 10.1111/cch.12386.
- Miller RI, Clarren SK. Long-term developmental outcomes in patients with deformational plagiocephaly. Pediatrics. 2000;105(2):E26. doi: 10.1542/peds.105.2.e26.

18. Panchal J, Amirshaybani H, Gurwitch R, et al. Neurodevelopment in children with single-suture craniosynostosis and plagiocephaly without synostosis. *Plast Reconstr Surg.* 2001;108(6):1492-8. doi: 10.1097/00006534-200111000-00007.
19. Hutchison BL, Thompson JM, Mitchell EA. Determinants of nonsynostotic plagiocephaly: a case-control study. *Pediatrics.* 2003;112(4):e316. doi: 10.1542/peds.112.4.e316.
20. Martiniuk AL, Vujovich-Dunn C, Park M, et al. Plagiocephaly and Developmental Delay: A Systematic Review. *J Dev Behav Pediatr.* 2017;38(1):67-78. doi: 10.1097/DBP.0000000000000376.
21. Baethge C, Goldbeck-Wood S, Mertens S. SANRA-a scale for the quality assessment of narrative review articles. *Res Integr Peer Rev.* 2019;4:5. doi: 10.1186/s41073-019-0064-8.
22. Sanderson S, Tatt ID, Higgins JP. Tools for assessing quality and susceptibility to bias in observational studies in epidemiology: a systematic review and annotated bibliography. *Int J Epidemiol.* 2007;36(3):666-76. doi: 10.1093/ije/dym018.
23. Collett BR, Wallace ER, Kartir D, et al. Cognitive Outcomes and Positional Plagiocephaly. *Pediatrics.* 2019;143(2):e20182373. doi: 10.1542/peds.2018-2373.
24. Collett BR, Wallace ER, Kartir D, et al. Infant/toddler motor skills as predictors of cognition and language in children with and without positional skull deformation. *Childs Nerv Syst.* 2019;35(1):157-63. doi: 10.1007/s00381-018-3986-4.
25. Wallace ER, Ola C, Leroux BG, et al. Prediction of school-age IQ, academic achievement, and motor skills in children with positional plagiocephaly. *Paediatr Child Health.* 2020;26(3):e132-e137. doi: 10.1093/pch/pxaa012.
26. Collett BR, Kartir D, Wallace ER, et al. Motor Function in School-Aged Children With Positional Plagiocephaly or Brachycephaly. *Pediatr Phys Ther.* 2020;32(2):107-112. doi: 10.1097/PEP.0000000000000687.
27. Collett BR, Wallace ER, Ola C, et al. Do Infant Motor Skills Mediate the Association Between Positional Plagiocephaly/Brachycephaly and Cognition in School-Aged Children? *Phys Ther.* 2021;101(2):pzaa214. doi: 10.1093/ptj/pzaa214.
28. Ola C, Speltz ML, Collett BR. Behavioral and Social Functioning of Children With and Without Positional Plagiocephaly: Late Infancy to School Age. *Cleft Palate Craniofac J.* 2022;59(11):1361-1370. doi: 10.1177/10556656211043739.
29. Speltz ML, Collett BR, Stott-Miller M, et al. Case-control study of neurodevelopment in deformational plagiocephaly. *Pediatrics.* 2010;125(3):e537-42. doi: 10.1542/peds.2009-0052.
30. Siatkowski RM, Fortney AC, Nazir SA, et al. Visual field defects in deformational posterior plagiocephaly. *J AAPOS.* 2005;9(3):274-8. doi: 10.1016/j.jaapos.2005.01.011.
31. Kim DH, Kwon DR. Neurodevelopmental delay according to severity of deformational plagiocephaly in children. *Medicine (Baltimore).* 2020;99(28):e21194. doi: 10.1097/MD.00000000000021194.
32. Rohde JF, Goyal NK, Slovin SR, et al. Association of Positional Plagiocephaly and Developmental Delay Within a Primary Care Network. *J Dev Behav Pediatr.* 2021;42(2):128-34. doi: 10.1097/DBP.0000000000000860.
33. Hussein MA, Woo T, Yun IS, et al. Analysis of the correlation between deformational plagiocephaly and neurodevelopmental delay. *J Plast Reconstr Aesthet Surg.* 2018;71(1):112-7. doi: 10.1016/j.bjps.2017.08.015.
34. Zhao XQ, Wang LY, Zhao CM, et al. Neurological assessment of Chinese infants with positional plagiocephaly using a Chinese version of the Infant Neurological International Battery (INFANIB). *Childs Nerv Syst.* 2017;33(2):281-8. doi: 10.1007/s00381-016-3260-6.
35. Cabrera-Martos I, Valenza MC, Valenza-Demet G, et al. Repercussions of plagiocephaly on posture, muscle flexibility and balance in children aged 3-5 years old. *J Paediatr Child Health.* 2016;52(5):541-6. doi: 10.1111/jpc.13155.
36. Knight SJ, Anderson VA, Meara JG, et al. Early neurodevelopment in infants with deformational plagiocephaly. *J Craniofac Surg.* 2013;24(4):1225-8. doi: 10.1097/SCS.0b013e318299777e.
37. Fontana SC, Daniels D, Greaves T, et al. Assessment of Deformational Plagiocephaly Severity and Neonatal Developmental Delay. *J Craniofac Surg.* 2016;27(8):1934-6. doi: 10.1097/SCS.00000000000003014.
38. Mohn G, Van Hof-van Duin. Development of the binocular and monocular visual fields of human infants during the first year of life. *Clin Vision Sci.* 1986;1:51-64.