

Hipotermia episódica postraumática

Post-traumatic episodic hypothermia

Miguel Ángel Cruz Díaz^{1*} <https://orcid.org/0000-0002-3243-532X>

Ángel Serafín Camacho-Gómez¹ <https://orcid.org/0000-0002-7430-9129>

Carlos Javier Artiles Rivero¹ <https://orcid.org/0000-0002-7715-6770>

¹Hospital Pediátrico Universitario “José Luis Miranda”, Servicio de Neurocirugía Pediátrica. Villa Clara, Cuba.

*Autor para la correspondencia: miguelangelcd@infomed.sld.cu

RESUMEN

Introducción: La regulación de temperatura es uno de los mecanismos de control vital de mayor importancia en el ser humano. Entre las causas de hipotermia se describe varias de origen neurológico y no neurológicas. En la mayoría de los casos de hipotermia que se desarrolla secundaria a trauma craneal, se trata de pacientes con daño neurológico severo mantenido pero se encuentran escasas descripciones relacionadas con trauma craneoencefálico leve o en pacientes sin otras secuelas importantes.

Objetivo: Examinar un caso de hipotermia episódica postraumática sin afectaciones neurológicas asociadas y sin lesiones orgánicas demostradas.

Presentación del caso: Paciente masculino, 14 años, antecedentes de salud. Sufre trauma de cráneo sin repercusión clínica aparente en ese momento. Una semana posterior al trauma comienza a presentar episodios de hipotermia nocturna de duración variable, autolimitados, siempre durante el sueño del paciente. Entre los episodios el paciente se mantiene asintomático. Examen físico normal. Estudios de neuroimagen sin alteración. Se indica reposo y tratamiento médico, primero



con carbamazepina y luego con valproato de sodio. Actualmente el paciente muestra mejoría del cuadro, aunque no remisión completa de los episodios.

Conclusiones: La hipotermia se relaciona con un elevado número de afecciones. La mayoría de los pacientes con trauma de cráneo que presentan hipotermia tienen asociados otros daños y presentan la afección de forma mantenida. Existen otros pacientes, como el caso presentado, sin lesiones orgánicas demostrables en estudios de imágenes que exteriorizan los trastornos de la termorregulación de forma recurrente con periodos de normalidad entre ellos.

Palabras clave: hipotermia episódica; hipotermia postraumática.

ABSTRACT

Introduction: Temperature regulation corresponds to one of the most important vital control mechanisms in humans. Among the causes of hypothermia are described several of neurological and non-neurological origin. In most cases of hypothermia that develops secondary to cranial trauma described in literature, these are patients with sustained severe neurological damage but there are few descriptions related to mild cranioencephalic trauma or in patients without other important sequelae.

Objective: To examine a case of post-traumatic episodic hypothermia without associated neurological affectations and without demonstrated organic lesions.

Case presentation: Male patient, 14 years old, health history. He suffered from a cranial trauma with no apparent clinical repercussion at the time. A week after the trauma, episodes of nocturnal hypothermia of variable duration, self-limiting, always during the patient's sleep, begin to occur. Between episodes the patient remains asymptomatic. Normal physical exam. Neuroimaging studies without alteration. Rest and medical treatment are indicated first with carbamazepine and then with sodium valproate. Currently, the patient shows improvements but not complete remission of the episodes.

Conclusions: Hypothermia is associated with a high number of conditions. Most patients with cranial trauma who present hypothermia have other associated damages and present hypothermia in a frequent manner, but there are other patients, such as the case presented, without comprobable



organic lesions in imaging studies that present thermoregulation disorders on a recurrent basis with periods of normality between them.

Keywords: episodic hypothermia; post-traumatic hypothermia.

Recibido: 12/05/2022

Aceptado: 30/07/2022

Introducción

La falla en los mecanismos termorreguladores del organismo son condiciones raras asociada a múltiples factores etiológicos. La hipotermia es definida como una temperatura central <35 °C. Desde el punto de vista clínico, ello es motivo de controversia puesto que para otros autores es temperaturas bajo 36 °C, que se acompaña de manifestaciones clínicas. Se clasifica en tres grupos, basada en la tasa de mortalidad: leve, con temperaturas entre los 32 a 35 °C; moderada entre 27 a 32 °C y grave con temperatura menor a 27 °C.^(1,2,3)

Entre las causas de hipotermia se describe varias de origen neurológico como sección espinal aguda, accidente cerebrovascular, tumores, enfermedad de Wernicke, epilepsia diencefálica, ineficiencia neuromuscular (edades extremas, imposibilidad de tiritar, falta de climatización) y trauma craneoencefálico, este último cuando es severo provoca daño importante del centro termorregulador diencefálico y con ello hipotermia y otros trastornos del sistema nervioso autónomo.^(3,4,5,6)

La mayoría de los casos de hipotermia descritos en la literatura se desarrollan secundario a trauma craneal, se trata de pacientes con daño neurológico severo mantenido pero se encuentran escasas descripciones relacionadas con trauma craneoencefálico leve o en pacientes sin otras secuelas neurológicas importantes.⁽⁵⁾

Se realiza el siguiente trabajo con el objetivo de examinar un caso de hipotermia episódica postraumática sin afectaciones neurológicas asociadas y sin lesiones orgánicas demostradas.



Presentación del caso

Paciente masculino, 14 años de edad, blanco, antecedentes de salud hasta el 22 de octubre 2019 cuando sufre trauma de cráneo sin repercusión clínica aparente en ese momento.

Una semana posterior al trauma comienza a presentar episodios de hipotermia, 35 °C en horario nocturno de duración variable, hasta 2 h, autolimitados, siempre durante el periodo de sueño del paciente. No se acompañan de movimientos tónico-clónicos, desconexión del medio, relajación de esfínteres ni periodo poscrítico. Entre los episodios el paciente se mantiene asintomático.

A su llegada al servicio de urgencias, presenta exploración física y neurológica normal, con constantes normales. En el momento de la exploración no se observa hipotermia.

El paciente comienza con seguimiento por neurocirugía en consulta ambulatoria: tomografía axial computarizada (TAC) de cráneo negativa, resonancia magnética nuclear (RMN) negativa, electroencefalograma (EEG) anormal, que informa actividad paroxística focal temporal izquierda, comienza tratamiento con carbamazepina 3 tabletas/día, durante el mes de diciembre de 2019.

La madre refiere mejoría en el paciente por disminución de la duración de los episodios, luego del inicio del tratamiento, los que no se prolongan por más de 10 min; después de esfuerzo físico y exposición al calor comienza nuevamente el empeoramiento del cuadro. Se indica reposo y se comienza tratamiento con valproato de sodio 3 tabletas/día, actualmente el paciente con alivio del cuadro, aunque sin remisión completa de los episodios, continúa con seguimiento en consulta.

Discusión

La hipotermia y sus causas se describe por varios autores, entre las diversas clasificaciones etiológicas podemos encontrar la realizada por *McCullough*, que las divide en: enfermedades dérmicas (quemaduras, dermatitis exfoliativas, psoriasis graves), inducida por drogas (etanol, fenotiazinas, sedantes e hipnóticos), ambientales (por inmersión y no por inmersión), iatrogénicas (secundaria a resucitación vigorosa o por tratamiento de golpe de calor), metabólicas



(hipoadrenalismo, hipopituitarismo, hipotiroidismo), neurológicas (sección espinal aguda, trauma encefálico, accidente cerebrovascular, tumores, enfermedad de Wernicke), ineficiencia neuromuscular (edades extremas, imposibilidad de tiritar, falta de climatización) y sepsis.^(3,4,5,6)

Los valores de bajas temperatura de forma persistente debido a fallo termorregulatorio parcial o completo y usualmente con evidencia de daño hipotalámico está bien documentado por muchos autores. La hipotermia episódica con sudoración profusa y sin lesión anatómica demostrada se describe en pocas ocasiones.^(7,8,9) En los casos registrados la duración de los eventos varía considerablemente, desde un ataque diario de duración de 3-4 h hasta eventos que ocurren tanto de día como de noche pero de corta duración (30 min). En algunos pacientes se describe además, otros síntomas de disfunción hipotalámica y autonómica, aumento en la salivación y lagrimeo.^(7,8,9,10)

El síndrome de *Shapiro*, descrito en 1969, engloba a pacientes de todas las edades con hipotermia episódica, hiperhidrosis y agenesia del cuerpo calloso.^(11,12) Posteriormente, se documentaron varios casos que presentaban estos síntomas sin lesión cerebral, por lo que la ausencia de cuerpo calloso no parece ser la única causa.^(1,11,13)

Desde entonces se han propuesto distintas teorías etiopatogénicas. En 1973, los episodios de hipotermia se describen como desórdenes de la termorregulación debidos a epilepsia diencefálica, a pesar de que los registros electroencefalográficos resultaran normales y sin respuesta a fármacos antiepilépticos. Otros artículos apoyan esta teoría basándose en el aumento de perfusión de los ganglios basales en el tálamo derecho y el área frontal, observada por tomografía computarizada de emisión monofotónica. En estos casos existe buena respuesta al tratamiento con carbamazepina. Desde 1990 se postula la implicación de la serotonina en la patogenia de la hipotermia periódica espontánea, diversos estudios lo apoyan y se explica la causa de los eventos como una disfunción serotoninérgica central, que se basa en el conocido papel de la serotonina en la regulación de la temperatura corporal y la mejoría de los síntomas con ciproheptadina.⁽¹⁴⁾

Posteriormente, se sugiere que el aumento de serotonina en el hipotálamo anterior podría hacer desaparecer la respuesta fisiológica del cuerpo (temblor), ante una disminución de la temperatura.

En otros estudios se observa disminución de metabolitos de la serotonina y dopamina en muestras de líquido cefalorraquídeo matutino, lo que pudiera ser la causa de la hipotermia.^(15,16)

En el año 2002 se describen 4 pacientes entre 3 a 9 años con hipotermia episódica espontánea relacionada con migraña, palidez, ausencia de escalofríos y en algunos casos hipertensión, dolor abdominal, sudoración profusa, con examen neurológico normal e indemnidad imagenológica y funcional (RNM, EEG, perfil bioquímico), similares al síndrome de *Shapiro* pero sin lesiones encefálicas.⁽¹⁷⁾

La prevalencia de la hipotermia periódica espontánea es desconocida. Hasta el año 2015 se publicaron más de 50 casos en todo el mundo. El diagnóstico es clínico, después de descartar lesiones cerebrales, tanto malformaciones como tumorales, procesos infecciosos, hipotiroidismo, hipoglucemia y cetoacidosis diabética. El tratamiento en el momento agudo es sintomático y se intenta recalentar al paciente con medios físicos. Para evitar nuevas crisis se ensayan distintos tratamientos con resultados variables, entre los que se encuentran carbamazepina, oxcarbazepina, clonidina, flunarizina, difenhidramina, ciproheptadina, acetazolamida e incluso simpatectomía.^(13,18,19)

El pronóstico es bueno, puesto que los episodios tienden a desaparecer espontáneamente, tal y como ocurrió en el paciente aquí presentado.

Se describen cuadros relacionados con traumas, algunos descritos como variantes del síndrome de *Shapiro* debido a que se constata en estudios de imágenes lesiones del cuerpo calloso. Otros casos se asocian con hemorragia subaracnoidea traumática.^(12, 20)

El caso presentado se asocia al trauma de cráneo, aunque no se encontraron lesiones orgánicas en los estudios de imágenes.

Se concluye que la hipotermia se relaciona con un elevado número de afecciones. La mayoría de los pacientes con trauma de cráneo que presentan hipotermia tienen asociados otros daños y presentan la afección de forma mantenida. Existen otros pacientes, como el caso presentado, sin lesiones orgánicas demostrables en estudios de imágenes que exteriorizan los trastornos de la termorregulación de forma recurrente con periodos de normalidad entre ellos.

Referencias bibliográficas

1. van Veelen MJ, Brodmann Maeder M. Hypothermia in trauma. *Int J Environ Res Public Health*. 2021;18(16):8719. DOI: <https://doi.org/10.3390/ijerph18168719>
2. Picón-Jaimes YA, Orozco-Chinome JE, Molina-Franky J, Franky-Rojas MP. Control central de la temperatura corporal y sus alteraciones: fiebre, hipertermia e hipotermia. *Med UNAB*. 2020;23(1):118-30. DOI: <https://doi.org/10.29375/01237047.3714>
3. Singer D. Pediatric hypothermia: An ambiguous issue. *Int J Environ Res Public Health*. 2021;18(21):11484. DOI: <https://doi.org/10.3390/ijerph182111484>
4. Kafka J, Lukacova N, Sulla I, Maloveska M, Vikartovska Z, Cizkova D. Hypothermia in the course of acute traumatic spinal cord injury. *Acta Neurobiol Exp (Wars)*. 2020;80(2):172-8. DOI: <https://doi.org/10.21307/ane-2020-016>
5. Ibáñez Grima I, Ortega Deballón I. Manejo prehospitalario de la hipotermia accidental. Una emergencia sanitaria en el Mediterráneo. *RIECS*. 2020;5(Sup11). DOI: <https://doi.org/10.37536/RIECS.2020.5.S1.174>
6. Burk B, Ward A, Clark B. A case report of acute hypothermia during initial inpatient clozapine titration with review of current literature on clozapine induced temperature dysregulations. *BMC Psychiatry*. 2020 [acceso 10/04/2022];20:290. Disponible en: <https://bmcp psychiatry.biomedcentral.com/articles/10.1186/s12888-020-02695-w>
7. Penfield W. Diencephalic autonomic epilepsy. *Arch Neur Psych*. 1929;22(2):358-74. DOI: <https://doi.org/10.1001/archneurpsyc.1929.02220020174010>
8. Hines EA, Bannick EG. Intermittent hypothermia with disabling hyperhidrosis: report of a case with successful treatment. *Mayo Clin Proc*. 1934 [acceso 17/05/2022];9:705. Disponible en: https://scholar.google.com/scholar?hl=es&as_sdt=0%2C5&q=Hines+and+Bannick%2C+1934&btnG=
9. Hoffman A, Pobirs F. Intermittent hypothermia with disabling hyperhidrosis. *JAMA*. 1942;120(6):445-7. DOI: <https://doi.org/10.1001/jama.1942.82830410001008>



10. Vereas Martínez A, Recio Pascual V, Hidalgo Gordo JI, Diego Gayte P, Biatricia Miha I. Hipotermia periódica espontánea con hiperhidrosis: a propósito de un caso y revisión de la literatura. *Rev Pediatr Aten Primaria*. 2017 [acceso 10/04/2022];19:e63-e65. Disponible en: https://scielo.isciii.es/scielo.php?script=sci_arttext&pid=S1139-76322017000200011
11. Tambasco N, Paoletti FP, Prato G, Mancardi MM, Prontera P, Giordano L. Long-term follow-up in pediatric patients with paroxysmal hypothermia (Shapiro's syndrome). *Eur J Pediatr Neurol*. 2018 [acceso 10/04/2022];22:e1081-e1086. Disponible en: <https://www.clinicalkey.es#!/content/journal/1-s2.0-S1090379814000348>
12. Denegri L, Prato G, Mancardi MM, Schiaffino C, Striano P, Baglietto MG. Early-onset Shapiro syndrome variant treated with pizotifen: a case report. *Neurodiagnostic J*. 2017 [acceso 10/04/2022];57(2):139e46. DOI: <https://doi.org/10.1080/21646821.2017.1309941>
13. Aubigna M, Tir M, Krystkowiak P, Andriuta D. Episodic headache with spontaneous hypothermia reveal Shapiro's syndrome variant with effectiveness of clonidine therapy. *J Headache Pain*. 2021;22:30. DOI: <https://doi.org/10.1186/s10194-021-01245-3>
14. Arroyo HA, Di Blasi AM, Grinszpan GJ. A syndrome of hyperhidrosis, hypothermia, and bradycardia possibly due to central monoaminergic dysfunction. *Neurology*. 1990 [acceso 10/04/2022];40:556-7. Disponible en: https://scielo.isciii.es/scielo.php?script=sci_nlinks&pid=S1139-7632201700020001100007&lng=en
15. Fox R, Wilkins D, Bell J, Bradley R, Browse N, Cranston W, *et al*. Spontaneous periodic hypothermia: diencephalic epilepsy. *BMJ*. 1973;2(5868):693-5.
16. Sheth RD, Barron TF, Hartlage PL. Episodic spontaneous hypothermia with hyperhidrosis: implications for pathogenesis. *Pediatr Neurol*. 1994 [acceso 10/04/2022];10:58-60. Disponible en: https://scielo.isciii.es/scielo.php?script=sci_nlinks&pid=S1139-7632201700020001100008&1
17. Ruiz C, Gener B, Garaizar C, Prats JM. Episodic spontaneous hypothermia: a periodic childhood syndrome. *Pediatr Neurol*. 2003 [acceso 10/04/2022];28:304-6. Disponible en: https://scielo.isciii.es/scielo.php?script=sci_nlinks&pid=S1139-7632201700020001100004&lng=en



18. Liu X, Shi Y, Ren C, Li X, Zhang Z. Effect of an electric blanket plus a forced-air warming system for children with postoperative hypothermia: a randomized controlled trial. *Medicine (Baltimore)*. 2017 [acceso 10/04/2022];96(26):e7389. Disponible en: <https://www.cochranelibrary.com/central/doi/10.1002/central/CN-01381421/full>
19. Avellanas Chavala ML, Ayala Gallardo M, Soteras Martínez I, Subirats Bayego E. Management of accidental hypothermia: A narrative review. *Med Intensiv*. 2019 [acceso 10/04/2022];43(9):556-68. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/30683520>
20. Tanti A, Gasperini G, Rossini M. Paroxysmal episodic hypothalamic instability with hypothermia after traumatic brain injury. *Brain Inj*. 2005 [acceso 10/04/2022];19(14):1277-83. Disponible en: <https://www.researchgate.net/publication/7482779>

Conflictos de intereses

Los autores declaran que no existe conflicto de intereses.

