



Torticollis en lactante asociada a infección por citomegalovirus: ¿es un hallazgo casual?

Alba Hueto Najarro^a, Cristina García Muro^b, María Pavía Lafuente^a, Inés Roncero Sánchez-Cano^c

Publicado en Internet:
27-septiembre-2024

Alba Hueto Najarro:
ahuetonajarro@gmail.com

^aPediatra. CS de Haro. La Rioja. España • ^bServicio de Pediatría. Hospital San Pedro. Logroño. La Rioja. España
• ^cNeuropediatra. Hospital San Pedro. Logroño. La Rioja. España.

Resumen

La torticollis paroxística benigna es un trastorno paroxístico no epiléptico que se inicia en el primer año de vida. Se caracteriza por episodios recurrentes de inclinación cefálica de horas a días de duración. Puede acompañarse de irritabilidad, palidez, náuseas, vómitos y ataxia, permaneciendo asintomático entre episodios.

Se presenta el caso de un lactante con varios episodios de desviación lateral del cuello de escasos días de duración sin otros síntomas acompañantes y asintomático entre episodios. Se realizó una resonancia magnética, con la que se descartó un proceso ocupante de espacio, pero se visualizó un conglomerado adenopático cervical bilateral. Por esto último, se amplió el estudio, detectándose IgG e IgM de citomegalovirus positivas. Se diagnosticó infección por citomegalovirus y torticollis paroxística benigna, ambos procesos actualmente en resolución y sin relación aparente entre ambos.

Palabras clave:

- Adenopatías
- Citomegalovirus
- Distonia paroxística
- Torticollis

Torticollis in an infant associated with cytomegalovirus infection: a coincidental finding?

Abstract

Benign paroxysmal torticollis is a non-epileptic paroxysmal disorder that begins in the first year of life. It is characterized by recurrent episodes of head tilting lasting from hours to days. These episodes can be accompanied by irritability, pallor, nausea, vomiting, and ataxia, while the patient remains asymptomatic between episodes.

We present the case of an infant with several episodes of lateral neck deviation lasting a few days each, without other accompanying symptoms, and asymptomatic between episodes. Magnetic resonance imaging was performed, ruling out a space-occupying process but revealing bilateral cervical adenopathy. Further testing detected positive IgG and IgM for Cytomegalovirus, leading to a diagnosis of Cytomegalovirus infection and benign paroxysmal torticollis. Both conditions are currently resolving and appear to be unrelated.

Key words:

- Cytomegalovirus
- Lymphadenopathy
- Paroxysmal dystonia
- Torticollis

INTRODUCCIÓN

La torticollis es un signo clínico definido como la rotación de la cabeza e inclinación lateral del cuello. Puede ser fija o flexible y acompañarse o no de dolor cervical. La aparición de esta clínica en un

lactante crea mucha preocupación en la familia. Las causas son múltiples, pero para orientar el diagnóstico, los antecedentes, el tiempo de evolución y la sintomatología acompañante son puntos clave. A continuación, se presenta un caso clínico sobre torticollis de aparición súbita en un lactante de 5 meses.

Cómo citar este artículo: Hueto Najarro A, García Muro C, Pavía Lafuente M, Roncero Sánchez-Cano I. Torticollis en lactante asociada a infección por citomegalovirus: ¿es un hallazgo casual? Rev Pediatr Aten Primaria. 2024;26:297-300. <https://doi.org/10.60147/0676f43b>

CASO CLÍNICO

Paciente de 5 meses que acude por desviación lateral de la cabeza hacia lado izquierdo desde hace dos días. No refieren traumatismo, ni vómitos, ni irritabilidad. Ha permanecido afebril en todo momento. La orexia está conservada. Tiene leve mucosidad tratada con lavados nasales, sin la toma de ningún medicamento. Presenta buen desarrollo psicomotor para su edad con buena ganancia ponderal. No hay antecedentes familiares de interés.

A la exploración se aprecia desviación lateral de la cabeza hacia el lado izquierdo, sin palpase contractura u otras alteraciones cervicales. La movilidad pasiva está conservada; se consigue mejor en posición de decúbito supino, con mayor limitación en sedestación. Los movimientos oculares están conservados, con pupilas isocóricas y normorreactivas. Dada la estabilidad clínica del paciente, sin signos ni síntomas de alarma, se pauta tratamiento sintomático y se cita para control ambulatorio en 24

horas, constatándose al día siguiente la resolución del cuadro.

A las pocas semanas presenta un nuevo episodio de las mismas características, habiendo permanecido asintomático entre ambos eventos. Se solicita ecografía transfontanelar y valoración por Oftalmología, con normalidad de todas las pruebas realizadas. Ante la repetición de los eventos (**Figura 1**) y con la sospecha de tortícolis paroxística benigna del lactante, se solicita resonancia magnética (RM) cerebral para confirmar el diagnóstico. En la RM se descarta un proceso ocupante de espacio u otras alteraciones intracraneales, pero, como hallazgo casual, se encuentran conglomerados adenopáticos bilaterales que siguen todo el eje craneocaudal laterocervical. Por este motivo, se realiza en este momento una analítica ampliada, encontrando como principal alteración una IgM y una IgG de citomegalovirus (CMV) positivas, por lo que se llega al diagnóstico final de tortícolis paroxística benigna asociada a primoinfección por CMV. Se observa disminución progresiva de dichas adenopatías, así

Figura 1. Se observa desviación lateral izquierda de la cabeza con meses de diferencia. (A) 5 meses de vida; (B) 9 meses de vida.



como disminución de los episodios de tortícolis, que desaparecen por completo a los 16 meses de vida. La evolución se acompaña de buen desarrollo psicomotor y pondoestatural en todo momento y sin otra sintomatología acompañante en ninguno de los episodios.

DISCUSIÓN

La tortícolis paroxística benigna es una distonía paroxística transitoria que aparece durante los primeros meses de vida, en nuestro caso, a los 5 meses. Consiste en episodios recurrentes de horas a días de duración de desviación lateral del cuello y, ocasionalmente, acompañados de palidez cutánea, náuseas, vómitos, somnolencia, ataxia o cefalea de características migrañosas, síntomas que no presentaba nuestro paciente. Aparece de forma espontánea, normalmente al despertar. Puede repetirse a lo largo de semanas o meses, disminuyendo de forma progresiva hasta desaparecer alrededor de los 3-5 años¹.

Su etiopatogenia es desconocida. Se relacionó inicialmente con disfunción vestibular, pero finalmente fue descartado². Algunos autores lo consideran un equivalente o precursor migrañoso, por el antecedente de migraña familiar en muchos pacientes o su desarrollo posterior, sobre todo en aquellos que presentan síntomas como fotofobia o sonofobia con los episodios de tortícolis. Y en algunos casos se ha asociado a mutaciones en el gen *CACNA1A*, al igual que la migraña hemipléjica. Este gen codifica un canal de calcio neuronal localizado en el cromosoma 19, presente en el 21% de los pacientes con tortícolis paroxística benigna. Esta alteración se ha asociado con retraso psicomotor, disfunción cognitiva con cociente intelectual límite³ e, incluso, atrofia del vermis cerebeloso y trastorno intelectual⁴ en los pacientes portadores, poniendo en discusión la aparente benignidad de esta patología.

El diagnóstico es clínico y de exclusión, y, aunque, dado su carácter benigno y transitorio, debería evitarse una investigación exhaustiva, en el momento de presentación inicial puede ser difícil. Por ello,

sobre todo en los primeros episodios, pueden ser necesarias algunas pruebas como ecografía cerebral, resonancia magnética, estudio de tóxicos o medicamentos... para excluir otras causas de tortícolis. Si estas pruebas no muestran alteraciones, como en el caso expuesto, podemos realizar el diagnóstico de tortícolis paroxística benigna.

El diagnóstico diferencial debe incluir diferentes entidades. Por su gravedad, en toda tortícolis adquirida que no se resuelve hay que descartar un proceso expansivo, sobre todo tumores de la fosa posterior. Como causa oftalmológica estaría, entre otras, la parálisis del músculo oblicuo superior. Otras causas posibles son: la ingesta de medicamentos, sobre todo antieméticos, como la metoclopramida, o procesos infecciosos, como la otitis o la amigdalitis, pero normalmente irían acompañados de fiebre. Otra entidad típica de esta edad que puede dar lateralización alternante de la cabeza es el síndrome de Sandifer, pero la tortícolis es provocada en este caso por el reflujo gastroesofágico, presentando otros síntomas o signos compatibles con esta entidad. En algunos casos podemos sospechar que se trate de una epilepsia o vértigo. Y, por otro lado, dentro de las causas de tortícolis adquirida estarían las postraumáticas.

Esta entidad no tiene tratamiento, los episodios se van espaciando y desapareciendo a medida que el niño crece, resolviéndose por completo alrededor de los 5 años o antes, como en el caso de nuestro paciente, que dejó de presentar los episodios a los 16 meses de vida. Con la resolución, se produce una aceleración en el desarrollo psicomotor en los casos de retraso, sin dejar secuelas neurológicas⁵.

En cuanto a la infección por CMV que presentó el niño de nuestro caso, no se ha descrito su relación con la tortícolis paroxística benigna, siendo un hallazgo casual, intercurrente en este caso. La infección por CMV es frecuente en niños en edad preescolar, siendo la mayoría de las infecciones asintomáticas en población inmunocompetente. La hipertrofia ganglionar que aparecía en nuestro caso es un síntoma frecuentemente asociado a la infección por CMV, que generalmente se resuelve sin complicaciones, como así sucedió.

CONCLUSIÓN

La tortícolis paroxística benigna es una entidad infradiagnosticada y, aunque en algunos casos puede asociar retraso psicomotor, entre otras alteraciones, la evolución es mayoritariamente benigna. Es importante su conocimiento, ya que ayuda a un correcto manejo clínico, evitando pruebas más agresivas y transmitiendo tranquilidad a la familia.

CONFLICTO DE INTERESES

Los autores declaran no presentar conflictos de intereses en relación con la preparación y publicación de este artículo.

BIBLIOGRAFÍA

1. Vila Pueyo M, Gené GG, Flotats Bastardes M, Elorza X, Sintas C, Valverde MA, et al. A loss-of-function CACNA1A mutation causing benign paroxysmal torticollis of infancy. *Eur J Paediatr Neurol*. 2014;18:430-3. <https://doi.org/10.1016/j.ejpn.2013.12.011>
2. Rosman NP, Douglass LM, Sharif UM, Paolini J. The neurology of benign paroxysmal torticollis of infancy: report of 10 new cases and review of the literature. *J Child Neurol*. 2009;24:155-60. <https://doi.org/10.1177/0883073808322338>
3. Blumkin I. Paroxysmal torticollis of infancy: a benign phenomenon? *Dev Med Child Neurol*. 2018;60:1196-7. <https://doi.org/10.1111/dmcn.13967>
4. Humbertclaude V, Riant F, Krams B, Zimmermann V, Nagot N, Annequin D, et al. Episodic Syndrome Consortium. Cognitive impairment in children with CACNA1A mutations. *Dev Med Child Neurol*. 2020;62:330-7. <https://doi.org/10.1111/dmcn.14261>
5. Danielsson A, Anderlid BM, Stödberg T, Lagerstedt Robinson K, Klackenberg Arrhenius E, Tedroff K. Benign paroxysmal torticollis of infancy does not lead to neurological sequelae. *Dev Med Child Neurol*. 2018;60:1251-5. <https://doi.org/10.1111/dmcn.13939>

RESPONSABILIDAD DE LOS AUTORES

Todos los autores han contribuido de forma equivalente en la elaboración del manuscrito publicado.

Los autores han remitido un formulario de consentimiento de los padres/tutores para publicar información de su hijo/a.

ABREVIATURAS

CMV: citomegalovirus • RM: resonancia magnética.