



Original

Síndrome de hiper movilidad articular en una población juvenil cubana

Francisco M. Menéndez Alejo*, Damaris Díaz Lazaga,
Verena Torrez Cárdenas y Vicente Martínez Rodríguez

Hospital General Docente Aleida Fernandez Chardiet, Departamento de Clínicas, Servicio de Reumatología, Güines, Habana, Cuba

INFORMACIÓN DEL ARTÍCULO

Historia del artículo:

Recibido el 2 de junio de 2008

Aceptado el 12 de diciembre de 2008

On-line el 22 de mayo de 2009

Palabras clave:

Síndrome de hiper movilidad articular

Población joven

Disautonomía

Dolor crónico

Hematomas

RESUMEN

Para investigar la frecuencia de aparición del síndrome de hiper movilidad articular (SHA), identificar los cuadros asociados a este diagnóstico y correlacionar los síntomas más significativos, se realizó un estudio descriptivo-analítico en un grupo de 280 jóvenes de ambos sexos con edades comprendidas entre los 15 y los 17 años. Para la obtención de los objetivos se elaboró por parte de los autores un modelo de encuesta. Los datos se procesaron por estadística descriptiva utilizando el programa Epidat 3.1. Los resultados se muestran en tablas confeccionadas al efecto.

Resultados: El SHA se diagnosticó en 32 individuos (11,4% de los encuestados) con una media de edad de 15 años, predominio en el sexo femenino y en el grupo de población con color de piel blanca ($p < 0,01$). El 53,1% de los hiper móviles presentó lesiones cutáneas de las asociadas a las enfermedades hereditarias del tejido conjuntivo y, entre ellas, la presencia de los hematomas resultó significativa ($p = 0,003$). Los síntomas de disautonomía se asociaron al SHA ($p = 0,05$) y se correlacionaron positivamente con los hematomas. El dolor crónico moderado y grave apareció en los individuos con el síndrome ($p = 0,001$) y también se correlacionó en forma positiva con los hematomas.

Conclusiones: La afectación vascular demostrada por la formación de hematomas fue el tipo de lesión cutánea más frecuente entre los hiper móviles jóvenes; esta lesión podría estar representando una forma más sintomática del síndrome y una mayor profundidad de daño a nivel de tejido conjuntivo.

© 2008 Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

The joint hyper mobility syndrome in a Cuban juvenile population

ABSTRACT

Keywords:

Joint hyper mobility syndrome

Young population

Dysautonomia

Chronic pain

Hematomas

In order to review the rise in joint hyper mobility syndrome, identify the patterns associated with this diagnosis and correlate its most relevant symptoms, we did a descriptive transversal analytic study in a group of 280 young people of both genders between 15 and 17 years of age. A survey was carried out by the authors in order to get reach these objectives. The data were analyzed by means of descriptive statistics and processed with the Epidat3.1 software package. Results are shown in charts.

Results: The joint hyper mobility syndrome (JHS) was diagnosed in 32 people (11,4% of the population studied) with mean age 15,7 years, predominance in the female sex and in the white skin group ($p < 0,01$). 53.1% of those patients with hyper mobility presented skin lesions associated to hereditary diseases of the connective tissue; among them the most relevant clinical sign was the presence of hematomas ($p = 0.003$). Symptoms of dysautonomia were associated to JHS ($p \leq 0.05$) and correlated positively with the presence of hematomas. Moderate and severe chronic pain was also a feature of patients with the syndrome ($p = 0.001$) and was correlated in a positive manner to the hematomas.

Conclusions: Vascular affection as demonstrated by the formation of hematomas was the skin lesion more important among young people with JHS in this study. These lesions can be representative of the syndrome and a translate a larger damage at the connective tissue level.

© 2008 Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introducción

Los reumatismos ocupan uno de los primeros lugares entre las causas de morbilidad por enfermedades crónicas no transmisibles

en población juvenil¹. Dentro del amplio grupo de situaciones que en la actualidad se mencionan como probable origen de estos trastornos se destaca el síndrome de hiper laxitud o el síndrome de hiper movilidad articular (SHA) generalizada².

La prevalencia del síndrome se estima entre el 10 y el 25% de la población general con variaciones según sexo, edad y raza³. El espectro de manifestaciones clínicas en el SHA es amplio y suelen variar desde escasas hasta múltiples, pudiendo ser articulares y no articulares. Las más frecuentemente encontradas son artralgiás,

* Autor para correspondencia.

Correos electrónicos: framenendez@infomed.sld.cu, menendez@infomed.sld.cu
(F.M. Menéndez Alejo).

sinovitis, esguinces, luxaciones y deformidades esqueléticas⁴. Puede verse asociado a neumotórax espontáneo, a prolapso mitral⁵, a ansiedad⁶ y a fibromialgia⁷. Sin embargo, a pesar del pleomorfismo sintomático del síndrome, resulta imposible poder predecir su comportamiento clínico una vez diagnosticado, por lo que resultan frecuentes las omisiones diagnósticas de éste.

En la población infantil de Cuba se conocen su prevalencia y su sintomatología asociada⁸, pero se desconoce su comportamiento en otros grupos de edad.

El presente estudio tuvo como objetivos investigar la frecuencia de aparición del SHA en un grupo de jóvenes con edades entre 15 y 17 años, describir los síntomas más importantes que se asociaron al diagnóstico e identificar una relación entre éstos.

Pacientes y métodos

Se realizó un estudio de corte transversal descriptivo-analítico de 321 individuos de uno u otro sexo, con edades comprendidas entre los 15 y los 17 años, residentes en el municipio Güines. Todos estudiantes activos de un centro tecnológico de la localidad, durante el período comprendido entre los meses de enero a junio del año 2005.

Los criterios de inclusión en el estudio fueron:

1. Encontrarse en los registros de asistencia de la escuela.
2. No tener antecedentes personales de enfermedades inflamatorias del tejido conjuntivo.
3. No haber ingerido en los seis meses anteriores al estudio vitamina C, esteroides, fenitoina, D-penicilamina u otro medicamento o sustancia con acción sobre el metabolismo del tejido conjuntivo.

Cumplimentaron los criterios de inclusión 280 individuos, quienes manifestaron su conformidad de participar en la investigación. Se les aplicó un modelo de encuesta confeccionado por los autores para recoger los datos generales: edad, sexo, color de la piel (agrupados como blancos y no blancos, estos últimos descendientes de africanos, de asiáticos o resultado de la mezcla de los tres mencionados anteriormente), datos sobre el síntoma de dolor somático crónico (duración ≥ 12 semanas) e intensidad de éste (leve, moderado y severo), signos cutáneos (como formación de pliegue cutáneo, cicatrices en papel de fumar y hematomas), alteraciones osteoarticulares detectadas al examen físico y signos y síntomas de disautonomía, como lipotimia, malestar torácico, taquicardia ortostática y palpitations.

Los criterios utilizados en el diagnóstico de la hiper movilidad articular generalizada fueron los del SHA, pero con modificación en el número de articulaciones laxas positivas a 5 o más de las 9 mencionadas por Beighton⁹ para el diagnóstico a estas edades.

Análisis estadístico

La información obtenida fue llevada a una base de datos y procesada por el programa estadístico Epidat 3.1¹⁰. Se analizaron los datos en número y porcentajes. Para evaluar la asociación a los diferentes factores se utilizó la Chi cuadrado de asociación a corrección de Yates y a un nivel de confiabilidad del 95% ($p \leq 0,05$). Para evaluar la correlación entre hematomas y síntomas de disautonomía se utilizó el coeficiente de correlación V de Cramer por tratarse de variables nominales dicotómicas. Para evaluar la correlación con el dolor crónico se utilizó el coeficiente de rangos de Spearman por tratarse de variables ordinales. Los resultados se muestran en cuadros confeccionados al efecto.

Resultados

El total de jóvenes seleccionados en este estudio fue de 280: 89 masculinos (31,7%) y 191 femeninos (68,2%). Por el color de la piel, 221 (78,8%) fueron blancos y 59 (21,0%) no blancos.

La **tabla 1** muestra la distribución de los 32 individuos (11,4%) que cumplían los criterios diagnósticos del SHA. La edad promedio fue de 15,7 años (DE: 0,71) con predominio en el sexo femenino (4:1) y en el grupo de población con color de piel blanca ($p \leq 0,01$). Se encontraron algunas alteraciones osteoarticulares, cuya superior presencia en hipermóviles fue estadísticamente significativa, como el pie laxo ($p < 0,05$), el valgum de rodillas ($p < 0,05$) y el dolor somático referido al momento de aplicación de la encuesta ($p < 0,001$) (**tabla 2**).

El 53% de los hipermóviles presentaron lesiones cutáneas (**tabla 3**), siendo los hematomas, de aparición espontánea o con traumas mínimos, la lesión más frecuentemente encontrada ($p < 0,003$).

En la **tabla 4** se presentan los síntomas de disautonomía explorados en el estudio y su relación con el SHA. La presencia de malestar torácico ($p < 0,02$), las palpitations ($p < 0,05$), la intolerancia al ejercicio físico ($p < 0,04$) y la taquicardia ortostática ($p < 0,001$) resultaron estadísticamente significativas entre los individuos hipermóviles.

En la **tabla 5** aparece la correlación entre la presencia de lesión cutánea (hematomas) y los síntomas de disautonomía, así como entre la presencia de hematomas y el dolor crónico según severidad. Se observó que la existencia de hematomas se correlacionaba de forma directa y significativa con la presencia de malestar torácico, palpitations y taquicardia ortostática, así como con las categorías de dolor crónico moderado y severo.

Tabla 1

Distribución del síndrome de hiper movilidad articular según edad, sexo y color de la piel

Edad (años)	Masculino			Femenino		
	Blanco	No blanco	Total	Blanco	No blanco	Total
15	1	1	2	7	4	11
16	2	0	2	7	5	12
17	1	1	2	2	1	3
Total	4	2	6	16	10	26

Edad promedio: 15,75 ($\pm 0,71$).Color de la piel: blanco ($p \leq 0,01$).Sexo: 4:1

Tabla 2

Alteraciones osteoarticulares y su relación con el síndrome de hiper movilidad articular

Alteraciones osteoarticulares	No hipermóviles		Hipermóviles		Valor de p
	n	%	n	%	
Escoliosis	47	19	9	28	0,22
Cifosis	10	4	1	3,1	0,81
Hiperlordosis	12	4,9	1	3,1	0,98
Rodilla varum	15	6	2	6,2	0,72
Rodilla valgum	28	11,2	8	25	0,05
Sinovitis de rodilla	0	0	1	3,1	0,22
Recurvatum de rodilla	31	12,5	6	18,8	0,48
Tobillo valgum	3	12	1	3,1	0,94
Pie laxo	46	18	11	34	0,05
Metatarso plano	28	11,3	1	0	0,26
Dolor somático	59	23,8	32	100	0,001

Fuente: encuesta.

Tabla 3
Alteraciones cutáneas y sus relaciones con el síndrome de hiper movilidad articular

Lesión	No hiper móviles		Hiper móviles		Valor de p
	n	%	n	%	
Cicatriz papel de fumar	71	28,6	6	18,8	0,23
Hematoma	18	7,3	8	25	0,003
Pliegue cutáneo > 4 cm	30	12	7	21	0,12

Fuente: encuesta.

Tabla 4
Síntomas de disautonomía e hiper movilidad

Síntoma	No hiper móviles		Hiper móviles		Valor de p
	n	%	n	%	
Lipotimia con el ejercicio	22	89	7	21,9	0,04
Pérdida de consciencia	3	1,2	1	3,1	0,94
Palpitaciones	14	5,6	5	15,6	0,05
Malestar torácico	16	6,4	6	18,8	0,02
Intolerancia al calor	11	4,4	3	9,4	0,43
Hipotensión ortostática	1	4	0	0	0,98
Taquicardia ortostática	0	0	2	6,2	0,001

Fuente: encuesta.

Tabla 5
Correlación entre hematomas, síntomas de disautonomía y dolor crónico

Piel	Síntomas de disautonomía	R*	Valor de p
Hematomas	Lipotimia	0,91	0,0003
Hematomas	Malestar torácico	0,83	0,001
Hematomas	Taquicardia ortostática	0,44	0,09
Hematomas	Palpitaciones	0,74	0,0003
Hematomas	Dolor crónico	0,58	0,001
Hematomas	Dolor crónico severo	0,59	0,01
Hematomas	Dolor crónico moderado	0,59	0,01
Hematomas	Dolor crónico leve	0,06	0,45

* Valor alcanzado con el uso de las correlaciones utilizadas en el estudio que puede oscilar entre -1 y 1.

Discusión

La frecuencia del SHA entre los estudiados fue de 11,4%. La cifra se encuentra dentro del intervalo (rango) calculado universalmente¹¹ y es algo menor a la reportada en otras áreas del continente¹² e igual a la obtenida en una investigación realizada entre población de 11 a 14 años de nuestro país⁸.

La prevalencia del síndrome se relacionó con el origen étnico de los estudiados, siendo mayor entre asiáticos y africanos que en europeos¹³⁻¹⁵. Sin embargo, esta superior prevalencia en blancos podría estar relacionada con la mayor representatividad de este grupo entre los estudiados y/o con el marcado mestizaje de la población, en ocasiones de imposible determinación por criterios de clasificación racial, como el color de la piel o el rizado del cabello. Este resultado podría señalar un rasgo distintivo del comportamiento del SHA en nuestro medio. También se comprobó que el síndrome es más frecuente en el sexo femenino y, aunque se describen iguales proporciones entre los sexos en población infantil¹⁶, los estudios realizados después de esas edades señalan un predominio femenino que asciende hasta llegar a la población adulta¹⁷.

Algunas alteraciones osteo-articulares se asociaron a la hiper movilidad, como se ha señalado en otros grupos¹⁸. El dolor somático estuvo presente en todos los hiper móviles. Al comparar

con otros estudios realizados en nuestro medio, se observa que este síntoma es más frecuente según avanza la edad de los individuos con SHA, que pasa del 60% a los 13 años⁸ al 100% del presente grupo (16 años). El resultado es igual al obtenido por otros investigadores^{19,20} y convierte al síndrome en la causa más frecuente de dolor crónico entre los jóvenes de esta edad.

Por otra parte, en esta serie el 53,1% de los hiper móviles presentó signos cutáneos de los descritos en las enfermedades hereditarias del tejido conjuntivo (EHTC). Los cuadros más sintomáticos del SHA se asociaron a la presencia de estas lesiones²¹. En una investigación se han hallado valores séricos bajos de tenascin-X (una proteína extracelular de matriz) en sujetos con EHTC y SHA. Los casos que presentan mayor deficiencia en la expresión del gen B de la tenazina X (TNX-B) se han relacionado con el SHA²². Los resultados sugieren un comportamiento bimodal del síndrome, que podría estar determinado genéticamente y relacionado con la presencia o no de lesiones cutáneas. Sin embargo, otros estudios no han confirmado la vinculación de la elasticidad cutánea y la formación de escaras con las formas más sintomáticas del SHA²³.

En la presente serie, la formación de hematomas fue significativa; otros investigadores del área han encontrado asimismo predominio de estas lesiones en el síndrome²⁴, por lo que su hallazgo podría ser un marcador diagnóstico del SHA en la región.

Algunos síntomas de disautonomía estuvieron presentes significativamente entre los hiper móviles del estudio, como han comunicado otros autores²⁵. La intensidad de estos síntomas es menor que la referida en la esclerosis múltiple²⁶ y en algunas formas de epilepsia²⁷, pero igual a la descrita en la fibromialgia²⁸. El origen de los síntomas de disautonomía en el SHA es desconocido. En este estudio se correlacionaron positivamente con los hematomas. Algunos autores reconocen a las alteraciones en la pared del vaso como una posible causa de disfunción vascular hipotensiva y de consiguiente disautonomía²⁹. Hasta donde conocemos, esta posibilidad no ha sido explorada en el síndrome, aunque nuestros resultados sugieren una muy estrecha relación entre la formación de hematomas y la aparición de síntomas de disautonomía en el SHA.

También en este estudio el dolor crónico mostró una correlación con los hematomas, que podría señalar la influencia que tuvo la lesión vascular en el desarrollo de la intensidad del síntoma más que en su origen, pues la relación sólo existió en los casos de dolor crónico moderado y severo.

En conclusión, el SHA fue encontrado en el 11,4% de los jóvenes estudiados con un comportamiento bimodal indicado por la presencia de la lesión cutánea. La afectación vascular demostrada por la formación de hematomas fue el tipo de lesión cutánea estadísticamente más frecuente entre los hiper móviles y se correlacionó con la aparición de síntomas de disautonomía y con un síndrome de dolor crónico de mayor intensidad. A diferencia de otros autores, que no consideran de utilidad la detección de la lesión cutánea³⁰, pensamos que la formación de hematomas en pacientes con SHA se corresponde con una forma más sintomática del síndrome y podría representar un marcador que indica mayor profundidad de daño a nivel del tejido conjuntivo.

Bibliografía

1. Primary Care Rheumatology. Klippel Dieppe Ferry. Mosby: Harcourt Publisher Limited; 2000.
2. Murray KJ, Woo P. Benign joint hypermobility in childhood. Rheumatology. 2001;40:489-91.
3. Grahame R. Joint hypermobility and genetic collagen disorders: Are they related? Arch Disc Child. 1999;80:188-91.
4. Beighton P, Grahame R, Bird H. Assessment of hypermobility. En: Hypermobility of joint. 3rd ed. London: Springer-Verlag; 1999. p. 9-22.

5. Grahame R. Pain, distress and joint hyperlaxity. *Joint Bone Spine.* 2000;67:157–63.
6. Bulbena A, Agullo A, Pailhez G, Martín-Santos R, Porta M, Guitar J, et al. Is joint hypermobility related to anxiety in a non clinical population also? *Psychosomatics.* 2004;45:432–7.
7. Acasuso Díaz M, Collantes Estevez E. Joint hypermobility in patient's with fibromyalgia syndrome. *Arthritis Care Res.* 1998;11:39–42.
8. Menéndez Alejo F, Menéndez Alejo I, Rodríguez Hernández M. Hiperlaxitud e hipermovilidad articular en adolescentes. *Rev Mex Pediatr.* 1994;61:188–91.
9. Grahame R, Bird HA, Child A. The revised (Brighton 1998) criteria for the diagnosis of benign joint hypermobility syndrome BJHS. *J Rheumatol.* 2000;27:1777–9.
10. EPIDAT. Programa para análisis epidemiológico de datos tabulados. Versión 3.1. OPS/OMS. Enero 2006.
11. Menéndez Alejo F. De la laxitud a la hipermovilidad articular. *Revista Cubana de Reumatología.* 2005;VII:7–13.
12. Vera Carpio C, Vera Béjar E. Estudio de algunos rangos de movilidad articular y prevalencia del síndrome benigno de hipermovilidad articular en estudiantes sanos de un colegio secundario de ciudad nueva. *Rev Chil Reumat.* 1996;4:13–8.
13. Jansson A, Saarto KT, Werner S, Reustrom P. General joint laxity in 1845 Swedish school children of different ages and genders specific distribution. *Acts Paediatric.* 2004;93:1202–5.
14. Subramanyan V, Janaki KU. Joint hypermobility in south Indian children. *Indian Paediatr.* 1996;33:771–2.
15. Didia BC, Dapper DV, Boboye S. Joint hypermobility syndrome among undergraduate students. *East Afr MED J.* 2002;79:80–1.
16. Inocencio-Arocena J, Ocaña Casas I, Benito Ortiz L. Laxitud articular: prevalencia y relación con dolor musculoesquelético. *Anales Pediatría.* 2004;61:162–6.
17. Seckin V, Tur BS, Yilmaz O, Yaqci I, Bodur H, Aracil T. The prevalence of joint hypermobility among high school students. *Rheumatol Int.* 2005;25:260–3.
18. La laxitud articular. En: Rotes Querol J. *Reumatología clínica.* Barcelona: Espaxs; 1983. p. 5
19. El-Metwally A, Salminen JJ, Auvinen A, Kautianen H, Mikkelsen M. Prognosis of non-specific musculoskeletal pain in preadolescents: A prospective 4 years follow-up study of adolescence. *Pain.* 2004;110–3.
20. Zapata AL, Moraes AJ, Leone C, Doria Filho U, Silva CA. Pain and musculoskeletal pain syndromes in adolescents. *J Adolescent Health.* 2006;38:769–71.
21. Engelber RH, Bank RA, Sackers RJ, Helder PJ, Beemer F, Uiterwal C. Pediatric generalized joint hypermobility with and without musculoskeletal complaints: A localized or systemic disorders. *Pediatrics.* 2003;3:248–54.
22. Zweers MC, Kusharekova M, Schalkwijk J. Tenascin-x, a candidate gene for BJHS and hypermobility type Ehler – Danlos syndrome. *Ann Rheum Dis.* 2005;64:504–5.
23. Hakim AJ, Sahota A. Joint hypermobility and skin elasticity: The hereditary disorders of connective tissue. *Clin Dermatol.* 2006;24:521–3.
24. Bravo Silva J. Importancia de la hipermovilidad articular como causa frecuente de morbilidad, no solo musculoesquelética sino también sistémica: criterios diagnósticos. *Rev Chil Reumatol.* 2003;19:33–8.
25. Gazit Y, Nahir AM, Grahame R, Jacob G. Dysautonomia in the joint hypermobility syndrome. *Am J Med.* 2003;115:33–40.
26. Haensch CA, Jorq J. Autonomic dysfunction in multiple sclerosis. *J Neurol.* 2006;253:13–9.
27. Fogarasi A, Janszky J, Tuxhorn I. Autonomic symptoms during childhood partial epileptic seizures. *Epilepsic.* 2006;47:584–8.
28. Martínez Lavin M. Fibromialgia as a sympathetically maintained pain syndrome. *Current Pain and Headache Report.* 2004;8:385–9.
29. Buriak VM, Prokhorov IV, Plisa OM, Rozhonov BI. Vascular tone in adolescents with autonomic vascular dysfunction of hypotensive tipe according to the data of tetrapolar rheovasography. *Lik Sprava.* 2003;7:45–8.
30. Rewvig L, Jensen DU, Ward RC. Epidemiology of general joint hypermobility and basis for the proposed criteria for the benign joint hypermobility syndrome: Review of the literature. *J Rheumatol.* 2007;34:804–9.