

## Problemas de sueño y sus comorbilidades asociadas en los adultos con síndrome de Down

**Anna J. Esbensen.** *Division of Developmental and Behavioral Pediatrics, Cincinnati Children's Hospital Medical Center, Cincinnati, Ohio, USA.*

### Resumen

*El estudio explora los problemas físicos de salud, las condiciones de salud mental, las habilidades funcionales y los problemas conductuales que se ven asociados con la apnea del sueño y los trastornos conductuales del sueño en adultos con síndrome de Down. La apnea del sueño se vio asociada con otros problemas respiratorios más corrientes y con visitas más frecuentes al médico, pero no con otras comorbilidades como podrían ser las cardíacas. Los trastornos conductuales del sueño (retraso en el inicio del sueño, despertares nocturnos, despertar en la mañana) estuvieron asociados con una salud más pobre, más visitas de urgencia al hospital, más trastornos cardíacos, situaciones corrientes de salud mental (ansiedad, depresión y demencia) y una tasa mayor de problemas de conducta durante el día*

### Summary

*The current study examines the physical health problems, mental health conditions, functional abilities and behavioural problems associated with sleep apnoea and behavioural sleep disturbances among adults with DS. Sleep apnoea was associated with more common other respiratory concerns, and more frequent visits to physicians, but not with some expected medical comorbidities (cardiac). Behavioural sleep disturbances (delayed sleep onset, night-time awakenings and morning awakenings) were associated with poorer health, more frequent overnight hospital and emergency department visits, more common cardiac conditions, less common thyroid condition, more common mental health conditions (anxiety, depression and dementia) and a higher rate of daytime behaviour problems.*

### Introducción

Los adultos con síndrome de Down muestran en su salud cambios propios de la edad de forma prematura. Conforme envejecen tienen también mayor riesgo de sufrir algunas alteraciones como son la demencia, la menopausia prematura, disfunción tiroidea, modificaciones en la piel y el pelo, trastornos de la visión y la audición, obesidad, problemas osteoarticulares y apnea del sueño (Esbensen, 2010). Pero a pesar de ello, su esperanza media de vida ha aumentado, probablemente como consecuencia de mejores conocimientos y cuidados en su salud y mejores apoyos y servicios (Yang et al., 2002). A tales avances ha de corresponder una mejor asistencia a las necesidades de esta población conforme envejece. Los problemas de sueño constituyen una peculiar área de preocupación ya que son muy corrientes en las personas con síndrome de Down de cualquier edad, y pueden convertirse tanto en causa primaria de síntomas (cambios de humor y de conducta) como en la consecuencia de otros problemas de salud (obesidad).

Un problema de sueño frecuente en el síndrome de Down es la apnea obstructiva, que supone la obstrucción de las vías respiratorias superiores y afecta al 31-63% de las personas con síndrome de Down (Marcus et al., 1991; Stebbens et al., 1991; De Miguel-Diez et al., 2003). Determinados rasgos faciales y físicos contribuyen a que el riesgo aumente, como son la hipoplasia de parte media de la cara, la hipoplasia mandibular, la glosoptosis (retracción o caída de la lengua hacia atrás durante el sueño por la hipotonía), vías respiratorias superiores pequeñas, amígdalas desplazadas, agrandamiento relativo de amígdalas y adenoides, hipotonía de vías aéreas (Marcus et al., 1991; Roizen y Patterson, 2003). Pero en las personas con síndrome de Down se añaden otras dos circunstancias: la obesidad y el hipotiroidismo

(Rajagopal et al., 1984; Trois et al., 2009). Recientemente se ha considerado la edad como factor de riesgo para la apnea obstructiva del sueño dada su asociación con la obesidad y el hipotiroidismo, pero los hallazgos resultan ambiguos (Telakivi et al., 1987; Resta et al., 2003; Trois et al., 2009).

Los trastornos conductuales del sueño son también frecuentes en el síndrome de Down: se han descrito dificultades para iniciar el sueño, para mantenerlo, ansiedad, despertares tempranos en el 52-69% de los niños con síndrome de Down (Epstein et al., 1992; Stores y Stores, 1996; Carter et al., 2009; Rosen et al., 2011). Algunos de estos trastornos, pero no todos, parecen disminuir en la adolescencia, como por ejemplo la frecuencia de despertares (Carter et al., 2009), pero no hay información sobre su prevalencia en adultos con síndrome de Down. Los informes sobre problemas de sueño en los adultos con discapacidad intelectual dan cifras de prevalencia entre 13 y 86%, según la edad a la que se examine (Brylewski y Wiggs, 1998; Didden y Sigafos, 2001). Dada la alta tasa de trastornos conductuales del sueño en los niños con síndrome de Down, es importante estudiarlos también, junto con la apnea obstructiva, en la población adulta, ya que todos ellos van asociados a consecuencias negativas, tanto físicas como conductuales. En la población general, la apnea obstructiva puede ir asociada a problemas físicos (hipertensión sistémica, hipertensión pulmonar, cardiopatías, pobre tolerancia a la glucosa) y mentales (demencia, síntomas de ansiedad o de depresión), y puede también contribuir a que haya pérdida de atención, hiperactividad, somnolencia diurna, conductas de resistencia (Bliwise, 1993; Aloia et al., 2003; Beebe, 2006; Saunamäki y Jehkonen, 2017; Beebe, 2011). En concordancia con estos datos obtenidos de niños de la población ordinaria, los estudios recientes en el síndrome de Down apoyan también la relación entre la apnea obstructiva del sueño y la falta de atención, control de los impulsos y dificultades en el funcionamiento diario, capacidades cognitivas y regulación del humor y de la conducta (Breslin et al., 2014). Lo mismo sucede en la población adulta con síndrome de Down, en la que se encuentran mayores dificultades en tareas visoperceptivas (Andreou et al., 2002). También van aumentando los problemas de sueño en los adultos con síndrome de Down, conforme van progresando hacia las etapas de demencia (Cooper y Prasher, 1998; Urv et al., 2010). En cambio, pese al aumento de riesgo de apneas obstructivas en la población con síndrome de Down, son infrecuentes los casos que cursen con hipertensión o con cardiopatía (Haveman et al., 1989; Prasher, 1994; Marino y Pueschel, 1996; Yang et al., 2002; Kerins et al., 2008). A la vista de la inconsistencia de las comorbilidades relacionadas con los problemas de sueño en los adultos con síndrome de Down, al compararlos con los de la población general, se hace preciso comprender mejor los problemas físicos y conductuales que resultan de la apnea obstructiva del sueño en esta población.

En la población general, los trastornos conductuales del sueño van asociados a la pérdida de atención, menor control de los impulsos y dificultades en el funcionamiento diario, en las habilidades cognitivas, en la regulación del humor y de la conducta (Fallone et al., 2002; Steenari et al., 2003; Doran et al., 2006; Balkin et al., 2008; Paavonen et al., 2009a, 2009b). Aunque estudiadas menos extensamente en la población con discapacidad intelectual, se ha observado un impacto comparable al de la población general (Stores y Wiggs, 2001; Montgomery et al., 2004; Richdale y Wiggs, 2005; Malow et al., 2006). En la población adulta con discapacidad intelectual y alteraciones del sueño se ha descrito aumento en las tasas de irritabilidad, hiperactividad, estereotipias, agresión, autolesión, en comparación con la que no muestra alteraciones del sueño (Brylewski y Wiggs, 1999). En estudios con muestras pequeñas de niños con síndrome de Down, los trastornos conductuales del sueño se vieron asociados a con disfunción de la vida diaria (irritabilidad o hiperactividad) y de la función ejecutiva (atención y tiempo de reacción) y pero bienestar de los padres (Stores, 1993; Stores et al., 1998; Cotton y Richdale, 2010; Ashworth et al., 2013). No se comprende bien todavía por qué estos trastornos del sueño influyen directamente sobre la situación de las personas con

síndrome de Down, y existen pocos datos empíricos sobre las consecuencias en los adultos con este síndrome.

Dada la prevalencia de la apnea obstructiva y de los problemas conductuales del sueño, este estudio se propuso ofrecer una comprensión general de las posibles comorbilidades y consecuencias médicas y conductuales en los adultos con síndrome de Down. Específicamente, nos propusimos explorar la relación entre los problemas de sueño y otros factores: la salud física y mental, las habilidades funcionales y los problemas de conducta. En primer lugar, describimos la frecuencia de diversos problemas de sueño a partir de los informes de la familia sobre el estado de salud y la conducta durante el sueño del adulto con síndrome de Down. En segundo lugar, exploramos la relación entre los problemas identificados de sueño y los problemas de salud. Nuestra hipótesis fue que los problemas de sueño estarían en correlación con mayores problemas de salud física y más frecuentes visitas médicas. En tercer lugar, exploramos la relación entre los problemas de sueño y el estado de la salud mental. Con la hipótesis de que a mayores problemas de sueño, mayor presencia de problemas de salud mental. En cuarto lugar, la relación entre problemas de sueño y problemas en las habilidades funcionales y en la conducta, con la hipótesis de que a más problemas de sueño, menor capacidad funcional y mayores problemas de conducta.

Comprender el grado en que los problemas de sueño ejercen consecuencias ayudará a ofrecer apoyos mediante intervenciones en la conducta y en la atención médica, durante el envejecimiento de los adultos con síndrome de Down.

### **Métodos**

El presente estudio se basa en una sub-muestra obtenida a partir de un estudio longitudinal más amplio con familias de adultos con discapacidad intelectual ( $n = 461$ ). El objetivo principal de este primer estudio fue valorar el impacto ejercido sobre cuidadores que iban envejeciendo y estaban encargados de atender a un adulto con discapacidad intelectual. Eran familias cuya madre tenía 55 años o más y cuyo hijo con discapacidad vivía con ella (Krauss y Seltzer, 1999; Seltzer et al., 2001; Esbensen et al., 2011, 2013). De la muestra original, 169 madres tenían un hijo con síndrome de Down. Entre 1988 y 2000, se recogieron ocho ondas de datos a intervalos de 18 meses. La novena onda se recogió una década más tarde (2010/2011), en la que participaron 75 de las familias originales. El objetivo principal de este estudio de seguimiento fue examinar el envejecimiento de los adultos con síndrome de Down, y son estos 75 adultos los que forman la muestra en el presente trabajo.

### **Participantes**

El 65,3% de los adultos eran varones; de edades entre 37 y 65 años (media  $51,1 \pm 6,0$ ) al tiempo de recoger los datos más recientes; el 74,7% tenía discapacidad de grado moderado-leve y el resto de grado grave-profundo. Todos eran de raza caucásica, y el 34,7% vivía con un miembro de la familia. Todos los que respondieron eran miembros de la familia: madres (44,0%), hermanas (33,3%), hermanos (13,3%), padres (9,3%), por lo que el 77,3% eran mujeres. Sus edades estaban entre los 39 y los 97 años (media  $73,4\% \pm 13,6$ ).

### **Mediciones**

Los cuidadores participaron en entrevistas clínicas para recabar información a través de la Dementia Scale for Down Syndrome, Dementia Questionnaire for People with Learning Disabilities (DLD) y el Psychiatric Assessment Schedule for Adults with Developmental Disabilities (PAS-ADD) (Evenhuis et al., 2006; Gedye, 1995; Moss 2002). Todos los demás datos fueron obtenidos a partir de los cuidadores que rellenaron los cuestionarios.

### **Sueño**

Se clasificaron los problemas de sueño en dos categorías: la apnea obstructiva y los trastornos conductuales. Y a los adultos con síndrome de Down, se les clasificó en si tenían (1) o no tenían (0) un problema específico de sueño.

La apnea de sueño incluía a los individuos que, según el informe del cuidador, habían recibido un diagnóstico médico de dicha apnea (dentro del último año) (clasificados como 1), frente a los que no presentaban diagnóstico (clasificado como 0). No se preguntó sobre posible tratamiento. Lo ideal hubiese sido realizar un registro de sueño pero eso resultaba prohibitivo. Son frecuentes los trabajos basados en el informe de los familiares (Maas et al., 2010).

Se identificaron los problemas conductuales de sueño basándose en las respuestas del cuidador en las entrevistas clínicas (PAS-ADD y DLD) (Moss, 2002; Evenhuis et al., 2006). En el PAS-ADD los cuidadores informaron si el adulto dormía menos de lo habitual, se retrasaba en irse a dormir, se despertaba temprano, mostraba un sueño interrumpido o tenía falta de energía. Se registraron estas conductas basándose en las preguntas iniciales de validación del cuestionario para detectar la presencia de un trastorno de sueño. En el DLD los cuidadores informaron si el adulto se despertaba siempre durante la noche. Si se notificaba cualquiera de estos trastornos de sueño, el adulto era codificado como (1), frente al que no mostraba ninguno que se codificaba como (0). Tanto el DLD como el PAS-ADD han sido utilizados previamente por otros autores en la exploración de trastornos conductuales del sueño (Cooper y Prasher, 1998; Boyle et al., 2010).

#### *Estado físico de salud*

Se puntuó en una escala de 4 puntos (1 = pobre, 2 = aceptable, 3 = buena, 4 = excelente). Se ha visto que estas puntuaciones globales de salud son ajustadas al estado de salud (Idler y Benyamini, 1997). Los familiares informaron sobre las visitas al médico o a urgencias o sobre estancias en el hospital durante el último año. Además, se utilizó una escala de 8 ítems para medir la presencia (1) o ausencia (0) durante el último año de las siguientes alteraciones: aparato respiratorio, tiroides, dentición, cardiovasculares/sangre, sensoriales, gastrointestinales, dolor/osteoarticulares, otros órganos internos. La apnea del sueño no entró como problema respiratorio, para evitar duplicaciones.

#### **Salud mental**

Se usó una escala de 8 ítems para medir la presencia (1) o ausencia (0) de los siguientes diagnósticos de salud mental: ansiedad, trastorno obsesivo-compulsivo, trastorno de estrés postraumático, trastorno de déficit de atención con hiperactividad, trastorno bipolar, depresión, trastorno de oposición y desafío, esquizofrenia.

El estado de demencia fue clasificado de acuerdo con la codificación de consenso entre dos psicólogos clínicos titulados. Los detalles de esta codificación se basaron en los datos obtenidos por DLD y PAS-ADD (Gedye, 1995; Moss, 2002; Evenhuis et al., 2006; Esbensen et al., 2013). Se categorizó la demencia como no demencia (0) o posible/definitiva demencia (1). La codificación inicial resultó en un 89% de coincidencia entre los psicólogos. En caso de desavenencia, debatieron hasta llegar a un acuerdo.

#### *Vida diaria*

Se utilizó como elemento de evaluación de las habilidades funcionales la Waisman Activities of Daily Living Scale para adolescentes y adultos con discapacidad intelectual (Maenner et al., 2012). La escala de 17 ítems puntúa en una escala de 3 puntos (0 = no hace nada, 1= hace con ayuda, 2 = funciona independiente), y la suma de ítems da la puntuación final: cuanto más alta sea, mejores son las habilidades funcionales.

Se emplearon las Scales of Independent Behavior-Revised para medir la frecuencia y gravedad de ocho tipos de problemas de conducta, con el fin de proporcionar una medición global de los problemas generalizados de conducta, y tres subescalas: Conducta disruptiva internalizada (autolesión, hábitos poco usuales o repetitivos, conducta retraída o poco atenta). Conducta disruptiva asocial (conducta socialmente ofensiva, conducta no cooperadora) y Conducta disruptiva externalizada (lesiva para otros, destructiva) (Bruininks et al., 1996). Las conductas problemáticas se puntuaron como presentes o ausentes. Las puntuaciones clasificaron la gravedad de la conducta problema como subclínica (90-110), marginalmente seria (111-120), moderadamente seria (121-130), seria (131-140), muy seria (de 141 en adelante). La fiabilidad y validez fueron excelentes (Bruininks et al., 1986).

### **Análisis de datos**

Evaluamos posibles diferencias entre grupos de sueño (tener o no apneas, tener o no problemas conductuales de sueño) en relación con las variables demográficas (sexo, nivel de discapacidad, edad, lugar de residencia). El nivel de discapacidad se midió mediante el test de Stanford-Binet 4ª edición. Si no se consiguió medirlo debido al efecto suelo, se aceptó el informado por los archivos de la agencia o de los familiares.

Para estudiar el primer objetivo, dirigido a describir la frecuencia de los diversos problemas de sueño, se utilizó una estadística descriptiva que valoró la frecuencia de aparición de los problemas. Para el segundo objetivo que pretendía establecer la relación entre los problemas de sueño y los de salud física, se utilizaron los análisis de covarianza (ANCOVAs) para contrastar los grupos de sueño con respecto a las puntuaciones de salud y la frecuencia de las visitas relacionadas con la salud. Se usaron tests de chi-cuadrado para contrastar los grupos de sueño con respecto a la presencia o ausencia de problemas comórbidos de salud. Con respecto al tercer objetivo, sobre la relación entre los problemas de sueño identificados y los trastornos de salud mental, se usaron los tests de chi-cuadrado. Y para el cuarto objetivo, el estudio de la relación entre los problemas de sueño y las habilidades de la vida diaria y problemas de conducta, se utilizaron ANCOVAs.

### **Resultados**

#### **Frecuencia de los problemas de sueño**

En casi un tercio (30,7%) de la muestra se identificaron problemas de sueño. Ello incluía un 13,3% de apnea de sueño y 22,7% como trastornos conductuales del sueño. En los trastornos de tipo conductual, el 17,3% clasificado a partir de las respuestas en PAS-ADD y el 6,9% a partir de respuestas en el DLD se identificó como permanecer siempre despierto durante la noche. La demografía en cada categoría de sueño aparece en la tabla 1.

**Tabla 1. Datos demográficos de los adultos con síndrome de Down**

	<i>Apnea del sueño</i>		<i>Trastornos conductuales del sueño</i>
	<i>Sí</i>	<i>No</i>	<i>Sí</i>
n	10	62	17
% Mujeres	20,0	37,1	29,4
% DI ligera/moderada*	100,0	69,4	64,7
% Viven con la familia	30,0	35,5	17,6
Media de edad (DE)**	52,5 (5,8)	50,8 (5,8)	55,6 (4,5)

DE: desviación estándar; DI discapacidad intelectual

\* Diferencia significativa de grupo para la apnea del sueño

\*\* Diferencia significativa de grupo para trastornos conductuales del sueño

### **Covariantes**

En relación con las apneas del sueño, no hubo diferencia de edad en los grupos que las tenían o no las tenían. En relación con los trastornos conductuales del sueño, la edad fue mayor en el grupo que los mostraban ( $P < 0,001$ , tabla 1).

Los adultos con apneas mostraron un nivel de funcionamiento global significativamente más alto que los adultos sin apneas ( $P < 0,05$ , tabla 1). No se apreciaron diferencias de funcionamiento, en cambio, cuando se analizaron los grupos con y sin problemas conductuales de sueño. Tampoco se observaron diferencias en relación con el sexo o lugar de residencia, ni en lo referente a la presencia o no de apneas ni en lo referente a la presencia o no de problemas conductuales. Puesto que todos los individuos con apneas de sueño estaban en el grupo de discapacidad ligera/moderada, los análisis de chi-cuadrado se limitaron a adultos con este grado de discapacidad al comparar los que tenían apnea con los que no la tenían.

### **Relación con los trastornos de salud**

En relación con la salud general, los adultos con trastornos conductuales de sueño mostraron peor nivel de salud que los que no los tenían ( $P < 0,001$ , tabla 2). No hubo diferencias en el grado de salud, en cambio, en los adultos con o sin apneas del sueño. Pero en cuanto a las visitas médicas, los adultos con apneas del sueño mostraron una mayor frecuencia de visitas ( $P < 0,05$ , tabla 2). Las estancias hospitalarias y las visitas a urgencias fueron más frecuentes en los adultos con trastornos conductuales que en los que no los tenían ( $P < 0,05$  y  $P < 0,001$ , respectivamente, tabla 2).

**Tabla 2. Medias y DE en adultos de los problemas de sueño sobre la salud física, las habilidades funcionales y los problemas de conducta**

	<b>Apnea del sueño</b>		<b>Trastornos conductuales del sueño</b>
	<b>Sí</b>	<b>No</b>	<b>Sí</b>
Salud			
Salud actual (intervalo 1-4)*	2,9 (0,7)	2,8 (0,7)	2,1 (0,7)
Visitas médicas	8,2 (8,7)	4,7 (3,7)	7,7 (6,8)
Estancia hospitalaria*	0,0 (0,0)	0,2 (0,4)	0,4 (0,5)
Visitas a urgencias*	0,4 (0,5)	0,5 (1,1)	1,2 (1,6)
Habilidades funcionales			
W-ADL (intervalo 0-2)	1,1 (0,5)	1,0 (0,5)	0,7 (0,6)
Problemas de conducta (intervalo 90-150)			
Generalizados*	102,3 (2,8)	102,4 (3,5)	104,4 (4,4)
Internalizados	101,5 (5,0)	101,9 (5,4)	103,3 (6,7)
Asociales*	101,9 (6,5)	100,9 (6,3)	105,1 (8,9)
Externalizados	97,5 (1,6)	97,9 (2,6)	98,0 (2,8)

W-ADL, Waisman Activities of Daily Living

\* Diferencia significativa de grupo para trastornos conductuales de sueño

\*\* Diferencia significativa de grupo para apnea de sueño

En la tabla 3 se detalla el porcentaje de adultos con problemas de salud comórbidos (física y mental) en los diversos grupos (con o sin apneas, con o sin problemas conductuales de sueño).

**Tabla 3. Porcentaje de adultos con problemas de sueño y comorbilidades de salud física y mental**

	<b>Apnea del sueño</b>		<b>Trastornos conductuales del sueño</b>
	<b>Sí (%)</b>	<b>No (%)</b>	<b>Sí (%)</b>
Salud física			
Respiratorio*	30,0	6,5	11,8
Tiroides**	40,0	43,5	17,6
Cardiología**	20,0	17,7	41,2
Dolor	40,0	35,5	47,1
Dental	60,0	58,1	76,5
Sensorial	60,0	40,3	35,3
Gastrointestinal	40,0	58,1	52,9
Órganos internos	0,0	1,6	0,0
Inmunidad	0,0	0,0	0,0
Otros	100,0	91,9	88,2
Salud mental			
Ansiedad**	10,0	9,7	23,5
TOC	10,0	8,2	17,6
TEPT	0,0	4,8	5,9
THDA	0,0	1,6	0,0
Bipolar	0,0	1,6	0,0
Depresión**	10,0	8,1	23,5
TOD	0,0	0,0	0,0
Esquizofrenia	0,0	0,0	0,0
Otros**	20,0	24,6	47,1
Demencia**	30,0	24,2	58,8

TOC: trastorno obsesivo-compulsivo; TEPT: trastorno de estrés postraumático; THDA trastorno de hiperactividad con déficit de atención; TOD: trastorno de oposición/desafío.

\* Diferencia significativa de grupo para la apnea de sueño

\*\* Diferencia significativa de grupo para trastornos conductuales del sueño

Se aprecia que los adultos con apneas de sueño (30,0%) tenían mayores problemas respiratorios que los que no presentaban apneas (7,0%) ( $P < 0,05$ ). En cuanto a los problemas tiroideos en adultos con 51 años o más, fueron menos frecuentes en quienes tenían trastornos conductuales del sueño (7,1%) que en los que no los tenían (45,5%) ( $P < 0,05$ ). También se apreciaron diferencias en cuanto a los problemas cardíacos en los adultos de menos de 50 años que mostraron problemas conductuales de sueño: fueron más frecuentes en los que tenían problemas conductuales (66,7%) que en los que no los tenían (5,9%) ( $P < 0,01$ ).

En los demás problemas de salud no se apreciaron diferencias entre grupos con o sin apneas, o con y sin problemas conductuales de sueño.

### **Relación con la salud mental**

En la tabla 3 se indica el porcentaje de adultos con problemas comórbidos de salud mental. La depresión ( $P < 0,05$ ) y la ansiedad ( $P < 0,05$ ) fueron diagnosticadas con mayor frecuencia en los adultos con síndrome de Down que tenían 51 años o más y mostraban trastornos conductuales de sueño (24%) que en los que no los mostraban (0%). Cualquier diagnóstico de salud mental fue más frecuente en los adultos con síndrome de Down de 51 años o más que presentaban trastornos conductuales de sueño (50,0%) frente a los que no los presentaban (4,5%), ( $P < 0,01$ ). El diagnóstico de demencia fue más frecuente en los adultos con síndrome de Down de 50 años o menos que mostraban problemas conductuales de sueño (66,7%) que en los que no los mostraban (33,3%) ( $P < 0,01$ ).

### **Relación con actividades de la vida diaria**

Los adultos con trastornos conductuales del sueño tenían más problemas generalizados de conducta ( $P < 0,01$ ) y más problemas asociales ( $P < 0,01$ ) que los que no mostraban tales trastornos (tabla 2). No se apreciaron diferencias significativas de frecuencia en tales conductas entre los grupos que tenían o no tenían apneas del sueño.

Tampoco hubo diferencias significativas en lo relativo al nivel de habilidades funcionales entre los grupos con y sin apneas de sueño, ni entre los grupos con y sin trastornos conductuales del sueño.

### **Discusión**

La apnea del sueño y los trastornos conductuales del sueño se mostraron asociados a varios aspectos del envejecimiento en los adultos con síndrome de Down, que incluían problemas tanto de salud física y mental como de conducta. Pero el tipo de problemas asociados con el envejecimiento fue específico según el tipo de problema del sueño, con aspectos diferenciales entre la apnea y los trastornos conductuales del sueño.

Como se esperaba, la apnea del sueño estuvo asociada con una mayor tasa de problemas respiratorios, y esto fue más evidente en los adultos con discapacidad ligera/moderada. Puesto que las preguntas sobre la apnea del sueño se hicieron de forma independiente a las relacionadas con los problemas respiratorios, este hallazgo indica que, además de los problemas de oxigenación durante la noche, estos adultos están teniendo también más problemas para respirar durante el día. Si bien las actuales tasas de salud son comparables entre las personas con y sin apnea del sueño, y ningún otro problema de salud se ve asociado a la apnea del sueño, estos adultos con apnea del sueño visitaban a su médico con una frecuencia doble que sus colegas sin apnea del sueño. No se preguntaron en este estudio sobre los motivos de tales visitas, pero nos quedan las dudas sobre qué era lo que causaba mayor frecuencia de atención médica. Puesto que no apreciaron diferencias en estancias hospitalarias o visitas a urgencias, cabe especular que los adultos con síndrome de Down, apnea del sueño y problemas respiratorios son visitados posiblemente por médicos y especialistas más frecuentemente, dentro de la atención rutinaria, que quienes no tienen apnea del sueño.

En contraste con la bibliografía sobre adultos con desarrollo ordinario (Aloia et al., 2003; Saunamäki y Jehkonen, 2007), en los adultos con síndrome de Down no se apreció una asociación de la apnea del sueño con problemas cardíacos, incluida la hipertensión, los problemas de salud mental o las conductas de oposición. Bien es cierto que en nuestro estudio no se evaluó la presencia de determinados tratamientos. Aunque la adhesión a los tratamientos para la apnea del sueño en la población general es baja (~18%: Wild et al., 2004) es posible que este menor riesgo de consecuencias negativas en los adultos con síndrome de Down se deba a una mayor adhesión a los tratamientos de la apnea (35%, Trois et al., 2009). La muestra es sin embargo baja y sus resultados deberán ser replicados por otros estudios. Se recomienda que los médicos sigan analizando las posibles complicaciones descritas (Bull y Committee on Genetics, 2011).

Las alteraciones conductuales durante el sueño fueron frecuentes en más de un quinta parte de la muestra, y se vieron asociadas con peor salud, y mayor número de trastornos en la salud física y mental. En concreto, las puntuaciones de quienes padecieron estas alteraciones del sueño mostraron peor salud, más estancias hospitalarias y más visitas a urgencias. Es cierto que estos adultos también mostraron más problemas cardíacos, algo que también ocurre en la población general. Estos hallazgos enfatizan la importancia de explorar posibles problemas cardíacos en los adultos con síndrome de Down que muestren alteraciones en la conducta del sueño, especialmente en los menores de 50 años.



No era previsible el hallazgo de que la tasa de hipotiroidismo fuese menor en los adultos con problemas conductuales del sueño. Hay una cierta relación entre hipotiroidismo y apnea/trastornos conductuales del sueño (Pelttari et al., 1994). El estudio no analizó la posibilidad de tratamiento del hipotiroidismo en este grupo, por lo que deberá estudiarse antes de llegar a una conclusión.

La presencia de estas alteraciones conductuales del sueño mostró relación con una mayor presencia de problemas comórbidos de salud mental: ansiedad, depresión fueron más frecuentes sobre todo en los adultos mayores de 50 años. Puesto que los síntomas de estos problemas implican, a su vez, cambios en los patrones de sueño, retraimiento y pérdida de energía, la superposición, bien sea como causa bien como efecto, es inevitable. Pero estos resultados indican la necesidad de explorar la salud mental en los adultos con síndrome de Down que muestren tales problemas de sueño, en especial en los mayores de 50 años. Esos problemas, además, se vieron asociados a tasas mayores de demencia en el grupo de edad más joven. Se conoce muy bien que, conforme progresa la demencia, son más frecuentes los problemas de sueño (Cooper y Prasher, 1998; Urv et al., 2010). Por eso, nuestros resultados coinciden con los estudios previos en los que se asocian los trastornos del sueño con la demencia.

Aunque no se comprobó una asociación entre las alteraciones conductuales del sueño y las habilidades funcionales, lo cierto es hubo una mayor tasa de problemas de conducta en los que tenían problemas conductuales del sueño en comparación con los que no las tenían. Y esto se vio en las conductas asociales (conductas socialmente ofensivas), conductas de retraimiento, falta de atención y conductas no cooperadoras. Lo mismo sucede en la población general (Nebes et al., 2009). Parece también que pasar una mala noche ejerce un impacto negativo sobre la capacidad de los adultos con síndrome de Down para seguir adecuadamente la realización de tareas, o para frenar sus impulsos a tener conductas inapropiadas. Estos resultados tienen importantes implicaciones a la hora de planificar los apoyos conductuales, y habrán de ser tenidos en cuenta por los psicólogos de adultos con síndrome de Down cuando analicen y evalúen sus conductas y los cambios que en ellas puedan observar.

El número de personas con síndrome de Down con problemas de sueño en este estudio es inferior a las tasas de prevalencia descritas en anteriores estudios. Tal diferencia puede ser atribuida a que en nuestro estudio la información fue aportada por cuidadores y no obtenida a través de una medición objetiva o un registro médico. Los informes de los padres de niños con síndrome de Down sobre el sueño de sus hijos no coinciden con los resultados obtenidos por polisomnografía o actigrafía (Shott et al., 2006; Ashworth et al., 2013). Los trastornos del sueño pueden ser causados por una enfermedad subyacente, o pueden contribuir a la presencia de otros problemas, sean de salud física o mental, o de conducta. En cualquier caso, su presencia es una bandera roja que obliga a investigar y explorar.

El estudio contribuye a nuestra comprensión sobre el sueño y su asociación con la problemática compleja del envejecimiento de las personas con síndrome de Down. El sueño es un problema en el curso del envejecimiento, y es bueno conocer cómo se muestra y qué complicaciones puede haber en la población con síndrome de Down que envejece. Ayuda también a diferenciar entre la apnea del sueño y los demás problemas que en el trabajo se denominan como problemas conductuales del sueño (ver Métodos). En el estudio, la mayoría de las personas vivían con su familia; en la actualidad crece el número de personas con SD cuyas condiciones de vida han cambiado.

## Bibliografia

- Aloia M S, Illiczky N, Di Dio P, Perlis M L, Greenblatt D W, Giles D E. Neuropsychological changes and treatment compliance in older adults with sleep apnea. *J Psychosomat Res* 2003; 54: 71–6.
- Andreou G, Galanopoulou C, Gourgoulisanis K, Karapetsas A, Molyvdas P. Cognitive status in Down syndrome individuals with sleep disordered breathing deficits (SDB). *Brain Cogn* 2002; 50: 145–9.
- Ashworth A, Hill C M, Karmiloff-Smith A, Dimitriou D. Cross syndrome comparison of sleep problems in children with Down syndrome and Williams syndrome. *Res Develop Disabil* 2013; 34: 1572–80.
- Balkin T J, Rupp T, Picchioni D, Wesensten N J. Sleep loss and sleepiness: current issues. *Chest* 2008; 134: 653–60.
- Beebe DW. Neurobehavioral effects of childhood sleep-disordered breathing (SDB): a comprehensive review. *Sleep* 2006; 29: 1115–34.
- Beebe DW. Cognitive, behavioral, and functional consequences of inadequate sleep in children and adolescents. *Pediat Clin N America* 2011; 58: 649.
- Bliwise DL. Sleep in normal aging and dementia. *Sleep: J Sleep Res & Sleep Med* 199; 316: 40–81.
- Boyle A, Melville C A, Morrison J, Allan L, Smiley E, Espie CA et al. A cohort study of the prevalence of sleep problems in adults with intellectual disabilities. *J Sleep Res* 2010; 19: 42–53.
- Breslin J, Spanò G, Bootzin R, Anand P, Nadel L, Edgin J. Obstructive sleep apnea syndrome and cognition in Down syndrome. *Develop Med Child Neurol* 2014; 56: 657–64.
- Bruininks RH, Hill BK, Weatherman RF, Woodcock RW. Inventory for Client and Agency Planning (ICAP). DLM Teaching Resources, Allen, TX. 1986
- Bruininks RH, Woodcock RW, Weatherman RE, Hill BK. Scales of Independent Behavior-Revised Comprehensive Manual. Riverside Publishing, Itasca, IL. 1996
- Brylewski JE, Wiggs L. A questionnaire survey of sleep and night-time behaviour in a community-based sample of adults with intellectual disability. *J Intellect Disabil Res* 1998; 42: 154–62.
- Brylewski J, Wiggs L. Sleep problems and daytime challenging behaviour in a community-based sample of adults with intellectual disability. *J Intellect Disabil Res* 1999; 43: 504–12.
- Bull MJ, Committee on Genetics. Clinical report: health supervision for children with Down syndrome. *Pediatrics* 2011; 128: 393–406.
- Carter M, McCaughey E, Annaz D, Hill CM. Sleep problems in a Down syndrome population. *Arch Dis Childhood* 2009; 94: 308–10.
- Cooper SA, Prasher VP. Maladaptive behaviours and symptoms of dementia in adults with Down's syndrome compared with adults with intellectual disability of other aetiologies. *J Intellect Disabil Res* 1998; 42: 293–300.
- Cotton SM, Richdale AL. Sleep patterns and behaviour in typically developing children and children with autism, Down syndrome, Prader–Willi syndrome and intellectual disability. *Res Autism Spect Disord* 2010; 4: 490–500.
- Didden R, Sigafoos J. A review of the nature and treatment of sleep disorders in individuals with developmental disabilities. *Res Develop Disabil* 2001; 22: 255–72.
- Doran SM, Harvey MT, Horner RH. Sleep and developmental disabilities: assessment, treatment, and outcome measures. *Ment Retard* 2006; 44: 13–27.
- Epstein R, Pillar D, Tzichinsky O, Here P, Lavie P. Sleep disturbances in children with Downs' syndrome. *J Sleep Res* 1992; 1(Supp 1): 68.
- Esbensen AJ. Health conditions associated with aging and end of life of adults with Down syndrome. *Int Rev Res Ment Retard* 2010; 39: 107–26
- Esbensen AJ, Mailick MM, Silverman W. Impact of the family environment on aging in Down syndrome. *Am J Intellect Develop Disabil* 2013; 118: 294–309.
- Esbensen AJ, Seltzer MM, Krauss MW. Life course perspectives in intellectual disability research: the case of family caregiving. En: *The Oxford Handbook of Intellectual Disability and Development*

- (eds JA Burack, RM Hodapp, G Iarocci, E Zigler), 2nd edn, 2011 pp. 380–91. Oxford Press, New York, NY.
- Evenhuis HM, Kengen MMF, Eurlings HAL. Dementia Questionnaire for People with Learning Disabilities (DLD). Harcourt Assessment, London, UK. 2006
- Fallone G, Owens JA, Deane J. Sleepiness in children and adolescents: clinical implications. *Sleep Med Rev* 2002; 6: 287–306.
- Gedye A. Dementia Scale for Down Syndrome. Manual. Gedye Research and Consulting, Vancouver, CA. 1995
- Haveman M, Maaskant MA, Sturmans F. Older Dutch residents of institutions, with and without Down syndrome: comparisons of mortality and morbidity trends and motor/social functioning. *Australia and New Zealand J Develop Disabil* 1989; 15: 241–55.
- Idler EL, Benyamini Y. Self-rated health and mortality: a review of twenty-seven community studies. *J Health Soc Behav* 1997; 38: 21–37.
- Kerins G, Petrovic K, Bruder MB, Gruman C. Medical conditions and medication use in adults with Down syndrome: a descriptive analysis. *Down Syndrome Res Pract* 2008; 12: 141–7.
- Krauss MW, Seltzer MM. An unanticipated life: the impact of lifelong caregiving. En: *Responding to the Challenge: Current Trends and International Issues in Developmental Disabilities* (ed. H. Bersani, Jr.), 1999 pp. 173–17. Brookline Books, Cambridge, MA.
- Maas APHM, Sinnema M, Didden R, Maaskant MA, Smits MG, Schrandt-Stumpel CTR et al. Sleep disturbances and behavioural problems in adults with Prader–Willi syndrome. *J Intellect Disabil Res* 2010; 54: 906–17.
- Maenner MJ, Smith LE, Hong J, Makuch R, Greenberg J, Mailick MR. Evaluation of an activity of daily living scale for adolescents and adults with developmental disabilities. *Disabil Health J* 2012; 6, 8–17.
- Malow BA, Marzec ML, McGrew SG, Wang L, Henderson LM, Stone WL. Characterizing sleep in children with autism spectrum disorders: a multidimensional approach. *Sleep* 2006; 29: 1563.
- Marcus CL, Keens T G, Bautista DB, von Pechmann WS, Ward SLD. Obstructive sleep apnea in children with Down syndrome. *Pediatrics* 1991; 88, 132–9.
- Marino B, Pueschel SM. Heart Disease in Persons with Down Syndrome. Paul H. Brooks, Baltimore. 1996
- de Miguel-Díez J, Villa-Asensi JR, Álvarez-Sala J. Prevalence of sleep-disordered breathing in children with Down syndrome: polygraphic findings in 108 children. *Sleep* 2003; 26: 1006–9.
- Montgomery P, Stores G, Wiggs L. The relative efficacy of two brief treatments for sleep problems in young learning disabled (mentally retarded) children: a randomised controlled trial. *Arch Dis Childhood* 2004; 89: 125–30.
- Moss S. The Mini PAS-ADD Interview Pack. Pavilion Publishing, Brighton, UK. 2002
- Nebes RD, Buysse DJ, Halligan EM, Houck PR, Monk T. H. Self-reported sleep quality predicts poor cognitive performance in healthy older adults. *J Gerontol, Series B: Psychol Sci Social Sci* 2009; 64, 180–7.
- Paavonen EJ, Porkka-Heiskanen T, Lahikainen AR. Sleep quality, duration and behavioral symptoms among 5–6 year old children. *Eur Child Adolesc Psychiat* 2009a; 18: 747–54.
- Paavonen EJ, Raikkonen K, Lahti J, Komsu N, Heinonen K, Pesonen AK et al. Short sleep duration and behavioral symptoms of attention-deficit/hyperactivity disorder in healthy 7- to 8-year old children. *Pediatrics* 2009b; 123: e857–64.
- Pelttari L, Rauhala R, Polo O, Hyyppä MT, Kronholm E, Viikari J et al. Upper airway obstruction in hypothyroidism. *J Internal Med* 1994; 236: 177–81.
- Prasher VP. Screening of medical problems in adults with Down syndrome. *Down Syndrome Res Pract* 1994; 2, 59–66.
- Rajagopal KR, Abbrecht PH, Derderian SS, Pickett C, Hofeldt F, Tellis CJ et al. Obstructive sleep apnea in hypothyroidism. *Ann Internal Med* 1984; 101: 491–4.
- Resta O, Barbaro MPF, Giliberti T, Caratozzolo G, Cagnazzo MG, Scarpelli F et al. Sleep related breathing disorders in adults with Down syndrome. *Down Syndrome Res Pract* 2003; 8: 115–9.

- Richdale A, Wiggs L. Behavioral approaches to the treatment of sleep problems in children with developmental disorders: what is the state of the art? *Int J Behav Consult Ther* 2005; 1: 165–90.
- Roizen NJ, Patterson D. Down's syndrome. *Lancet* 2003; 361, 1281–89.
- Rosen D, Lombardo A, Skotko B, Davidson E. J. Parental perceptions of sleep disturbances and sleep disordered breathing in children with Down syndrome. *Clin Pediat* 2011; 50: 121–5.
- Saunamäki T, Jehkonen M. Depression and anxiety in obstructive sleep apnea syndrome: a review. *Acta Neurol Scand* 2007; 116: 277–88.
- Seltzer MM, Krauss MW, Hong J, Orsmond GI. Continuity or discontinuity of family involvement following residential transitions of adults who have mental retardation. *Ment Retard* 2001; 39: 181–194.
- Shott SR, Amin R, Chini B, Heubi C, Hotze S, Akers R. Obstructive sleep apnea: should all children with Down syndrome be tested? *Ach Otolaryngol Head Neck Surg* 2006; 132: 432–6.
- Stebbens V, Dennis J, Samuels MP, Croft C, Southall DP. Sleep related upper airway obstruction in a cohort with Down's syndrome. *Arch Dis Child* 1991; 66: 1333–8.
- Steenari MR, Vuontela V, Paavonen EJ, Carlson S, Fjalberg M, Aronen E. Working memory and sleep in 6- to 13- year old school children. *J Am Acad Child Adolesc Psychiat* 2003; 42: 85–92.
- Stores R. A preliminary study of sleep disorders and daytime behaviour problems in children with Down's syndrome. *Down Syndrome Res Pract* 1993; 1: 29–33.
- Stores R, Stores G. Research on sleep problems and psychological function in children with Down syndrome: implications for clinical practice and everyday care. *Down Syndrome Res Pract* 1996; 4: 110–12.
- Stores R, Stores G, Fellows B, Buckley S. A factor analysis of sleep problems and their psychological associations in children with Down's syndrome. *J Appl Res Intellect Disabil* 1998; 17: 345–54.
- Stores GE, Wiggs LE. *Sleep Disturbance in Children and Adolescents with Disorders of Development: Its Significance and Management*. MacKeith Press, London, UK. 2001
- Telakivi L, Partinen M, Salmi T, Leinonen L, Härkönen T. Nocturnal periodic breathing in adults with Down's syndrome. *J Ment Defic Res* 1987; 31: 31–39.
- Trois MS, Capone GT, Lutz JA, Melendres MC, Schwartz AR, Collop NA et al. Obstructive sleep apnea in adults with Down syndrome. *J Clin Sleep Med* 2009; 15: 317–23.
- Urv TK, Zigman W, Silverman W. Psychiatric symptoms in adults with Down syndrome and Alzheimer's disease. *Am J Intellect Develop Disabil* 2010; 115: 265–76.
- Wild MR, Engleman HM, Douglas NJ, Espie CA. Can psychological factors help us to determine adherence to CPAP? A prospective study. *Eur Resp J* 2004; 24: 461–5.
- Yang Q, Rasmussen SA, Friedman JM. Mortality associated with Down's syndrome in the USA from 1983 to 1997: a population-based study. *Lancet* 2002; 359: 1019–25.