

## SHAKEN BABY: LÍMITES DE LA INVESTIGACIÓN MÉDICO-LEGAL. *SHAKEN BABY: LIMITS OF MEDICO LEGAL INVESTIGATION.*

SCHEIMBERG I<sup>1</sup>, COHEN MC<sup>2</sup>.

### RESUMEN.

**OBJETIVOS:** Desde principios de los años 70 se considera que la tríada de hemorragia subdural no ocupante de espacio, hemorragia retiniana y encefalopatía son marcadores significativos del síndrome del bebe sacudido o “*shaken baby syndrome*” (SBS). El objetivo del estudio es describir las limitaciones de las investigaciones forenses y biomecánicas utilizadas para intentar demostrar la causalidad de la tríada de SBS. **CONCLUSIONES:** la presencia de hemorragia subdural, hemorragias retinianas y encefalopatía puede verse en varios escenarios traumáticos (tanto de maltrato como accidentales) y no traumáticos. Si bien se deben considerar todas las causas posibles (inclusive maltrato), la presencia de la tríada sin el acompañamiento de evidencia de traumatismo externo o interno no debe resultar en un diagnóstico de sacudidas violentas simplemente por descarte.

**PALABRAS CLAVE:** ENCEFALOPATÍA, HEMORRAGIA SUBDURAL, HEMORRAGIA RETINIANA, SÍNDROME DEL BEBÉ SACUDIDO,

### ABSTRACT.

**OBJECTIVES:** Since the early 1970s the triad of thin film subdural haemorrhages, retinal haemorrhages and encephalopathy had been considered to be strong markers of shaken baby syndrome. The aim of our study was to describe the limitations of forensic and biomechanical investigations used to demonstrate the causation of the SBS triad. **CONCLUSION:** The presence of subdural haemorrhage, retinal haemorrhages and encephalopathy may be present in a number of traumatic (both inflicted and accidental) and non-traumatic scenarios. While considering all possible causes (including inflicted injury), the presence of this triad without any accompanying evidence of external or internal trauma should not result in a diagnosis of violent shaking and intentional trauma by default.

encephalopathy, subdural haemorrhage, retinal haemorrhage, shaken baby syndrome.

**KEY WORDS:** ENCEPHALOPATHY, SUBDURAL HAEMORRHAGE, RETINAL HAEMORRHAGE, SHAKEN BABY SYNDROME.

**CONTACTO:** Irene Scheimberg. The Royal London Hospital. Department of Cellular Pathology. Pathology and Pharmacy Building. 80 Newark St. London E1 2ES. E-mail: i.b.scheimberg@qmul.ac.uk

El síndrome del bebe sacudido o “*shaken baby syndrome*” como se lo conoce en inglés (SBS) es un tema controvertido y muy debatido desde hace algunos años. Desde principios de los años 70 se considera que la tríada de hemorragia subdural no ocupante de espacio, hemorragia retiniana y encefalopatía son marcadores significativos de SBS. Históricamente se asume que la naturaleza de las sacudidas es tal que el que sacude sabe que está haciendo daño [1].

Debido a la controversia desatada por la terminología de shaken baby síndrome que implica conocimiento del mecanismo, ahora se denomina Traumatismo Craneal Abusivo. Sin embargo, este término que adscribe intencionalidad a un conjunto de síntomas es también controvertido [2].

El SBS fue descrito originalmente por Guthkelch [3], neurocirujano inglés, y por Caffey, radiólogo de Estados Unidos, en 1971 [4]. Ambos sugirieron que las sacudidas eran el mecanismo implicado en el daño intracraneal sin evidencia externa de traumatismo. Ambos autores basaron esta hipótesis en un experimento llevado a cabo en 1968 por Ommaya [5], quien había cuantificado la rotación y aceleración necesaria para causar el síndrome del latigazo en una colisión posterior de un vehículo. Sin embargo, es importante tener en cuenta que este experimento en realidad nunca consideró si un ser humano podía generar la fuerza suficiente para producir la energía necesaria para causar daño intracraneal [6]. En 1987 Duhaime y colaboradores [7] demostraron que las sacudidas violentas de un modelo mecánico que simulaba bebés de 1 mes de edad, no alcanzaban el umbral necesario para reproducir,

1. Consultant Paediatric Pathologist. Royal London Hospital (United Kingdom)

2. Consultant Paediatric and Perinatal Pathologist Sheffield Children Hospital NHS FT (United Kingdom)

el experimento de Ommaya [6]. Desde entonces se han llevado a cabo numerosos experimentos con modelos representando diferentes edades a partir de 6 semanas y ninguno de ellos ha podido generar las fuerzas necesarias que demuestren que las sacudidas, sin impacto puedan alcanzar el umbral de aceleración necesario para producir los síntomas considerados típicos de SBS. Cory y Jones [8] observaron que sólo las fuerzas que resultaban a partir de un contacto entre la barbilla y el occipital con el torso de un modelo mecánico igual al utilizado por Duhaime et al [7] (el cual en bebés produciría un daño significativo en el cuello) alcanzaban el umbral requerido pero los voluntarios se cansaban de sacudir a los 10 segundos. Otros experimentos biomecánicos [9] con modelos de bebés de 6 semanas confirmaron que las sacudidas solas o con impacto en una superficie de espuma no eran suficientes para causar la aceleración considerada necesaria para producir los síntomas de SBS. Sin embargo, el impacto sobre una superficie dura o caídas de 1,5m produce fuerzas de rotación significativas que sí alcanzan el umbral de aceleración requerido. Para comparar la aceleración máxima de la cabeza en lesiones con impacto que resultan de una caída de una distancia tan corta como 25,4cm sobre una superficie alfombrada produce una aceleración máxima de la cabeza que es aproximadamente el doble que la producida por sacudidas [10].

Hasta 2001 se consideraba que la presencia de hemorragia subdural, hemorragia subaracnoidea y hemorragia retiniana indicaba la presencia de daño axonal difuso en el cerebro. La teoría sostenía que el daño cerebral se debía al impacto del cerebro contra los huesos del cráneo produciendo desgarros [11] y que la encefalopatía asociada a SBS se debía a daño axonal difuso que en los adultos está representado por desgarros de los axones y de los capilares dando como resultado bulbos de retracción [12]. Como estas lesiones no se veían en los lactantes se creía que eso se debía al pequeño tamaño de los axones a esta edad.

Sin embargo, en 2001 Geddes y colaboradores [13,14] demostraron que estos lactantes no presentaba daño axonal difuso tal como se ve en el traumatismo del adulto sino que mostraban encefalopatía hipóxico-isquémica.

Solo una minoría mostraba daño axonal difuso y éste se limitaba al bulbo raquídeo. Estos autores estudiaron 53 casos diagnosticados como daño craneal debido a maltrato infantil y describieron la diferencia del patrón de lesiones en lactantes y niños de más de un año de edad. El estudio demostró que los lactantes de 2 ó 3 meses se presentaban típicamente con una historia de dificultad respiratoria, que mostraban daño axonal difuso en la unión cráneo-cervical y que solían desarrollar una hemorragia subdural pequeña, que no ocupaba espacio (solo unos pocos mililitros de sangre) y una fractura de cráneo sin otras lesiones externas, mientras los niños de más de 1 años solían sufrir lesiones extracraneales (especialmente abdominales) graves, tendían a tener hemorragias subdurales ocupantes de espacio y cuando presentaban daño axonal difuso la distribución era en la sustancia blanca inter hemisférica en un patrón semejante al de los adultos. Los autores interpretaron que la presencia de hemorragia cervical epidural y daño axonal focal en el bulbo raquídeo y las raíces de los nervios espinales en 11 casos indicaba que la zona vulnerable en estos casos era la unión cráneo-cervical que se veía afectada por lesiones de estiramiento. Estos signos no se observaron en los controles. En un estudio independiente en el cual se extirpó la columna vertebral completa, los casos en los que se sospechaba daño por hiperflexión/hiperextensión mostraban evidencia de hemorragias bilaterales o unilaterales en y alrededor de las raíces de los nervios espinales C3, C4 o C5 [15]. Sin embargo, la hemorragia espinal epidural ha sido descrita en lactantes que mueren por otras causas y no es patognomónica de trauma [16].

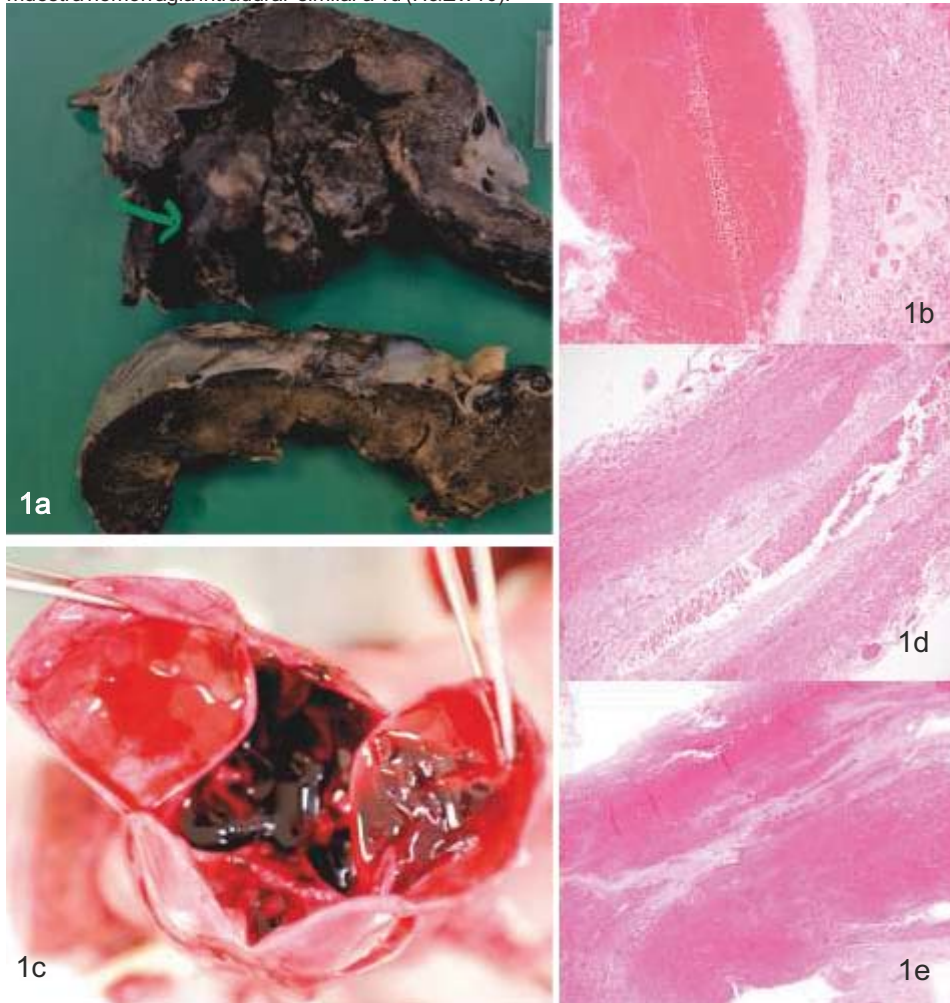
En un estudio posterior Geddes y colaboradores [17] analizaron hemorragias subdurales en muertes perinatales no traumáticas y observaron hemorragia intradural en las muestras analizadas de duramadre de la hoz del cerebro y la tienda del cerebelo. Estos autores [17], propusieron una hipótesis diferente de la causa de la combinación de síntomas conocida como la tríada (hemorragia subdural, hemorragia retiniana y encefalopatía): el daño (traumático o no) induciría apnea debido a la lesión del bulbo raquídeo, que a su vez induciría hipoxia grave y edema cerebral, y la combinación de ambos con el aumento de la presión intracraneal, la presión venosa central y la

presión arterial sistémica provocaría las hemorragias subdural y retiniana.

La evidencia de la ocurrencia de hemorragia intradural y subdural asociada a encefalopatía hipóxico-isquémica se demostró en 30 neonatos [18]. Esta asociación estrecha fue confirmada en un estudio subsiguiente en donde se evaluaron más de 600 casos [19], en los que las críticas de no haber considerado el trauma de parto en el primer estudio [20] fueron discutidas específicamente. De hecho, el mecanismo de parto (especialmente cuando se prolonga el

segundo estadio), al combinar hipoxia transitoria con aumentos de las presiones intracraneal e intratorácica, es un buen modelo que permite explicar cómo se produce la hemorragia (subdural y retiniana). Esto es especialmente claro en los casos de desprendimiento placentario (abruptio placenta), en los cuales la presencia de un hematoma retro -placentario produce un aumento retrógrado de la presión intracraneal y la hipoxia producida se asocia con una fina hemorragia subdural que se origina claramente en los capilares de la hoz del cerebro (figura 1: a-e).

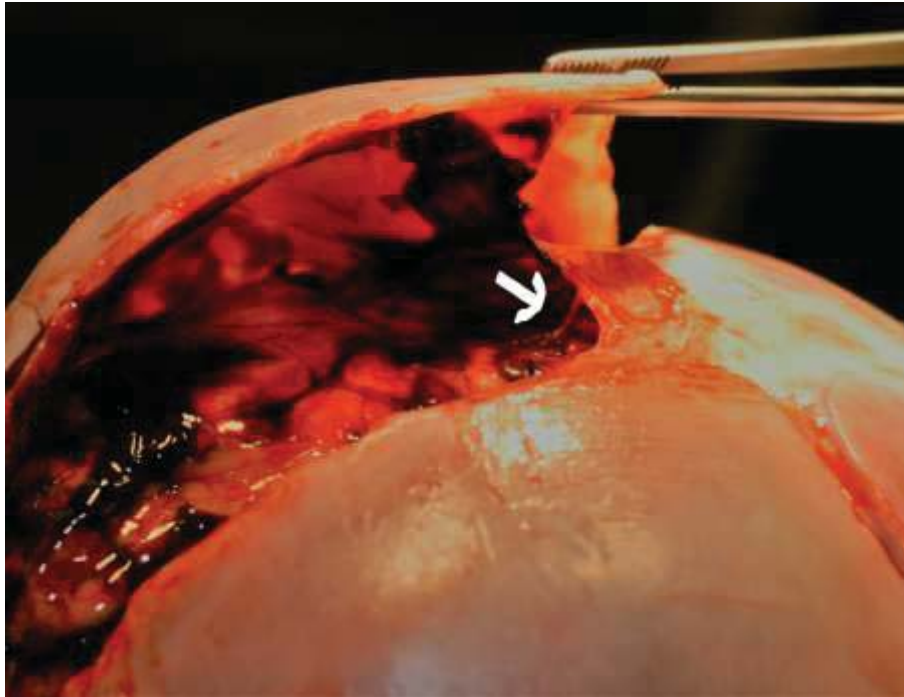
Figura 1: a: Desprendimiento placentario con hematoma retroplacentario (flecha); b: Histología de la placenta que muestra hematoma retroplacentario reciente (H&E x 10); c: Autopsia fetal: tiempo craneal muestra hemorragia subdural en capa fina, que no ocupa espacio; d: Imagen histológica de la duramadre en la región de la hoz del cerebro, que muestra la hemorragia intradural difusa que da origen a la hemorragia subdural macroscópica (H&E x 10); e: Imagen histológica de la tienda del cerebelo que muestra hemorragia intradural similar a 1d (H&E x 10).



Tradicionalmente en SBS se interpreta que la sangre de la hemorragia subdural se origina de venas puente desgarradas durante el movimiento de aceleración y desaceleración. Sin embargo muchas autopsias de casos en los que se sospecha SBS muestran venas puente intactas y, en cambio, el sangrado se origina en las redes capilares de la hoz del cerebro y la tienda del cerebelo, que diseca el tejido conectivo de la duramadre para luego dar lugar a la hemorragia subdural (figura 2). Esto explica la

observación en TAC del sangrado inter hemisférico que se observa en bebés con hemorragia subdural sin evidencia externa de trauma [21,22]. Algunos autores consideran que la identificación del desgarro de las venas puente en la autopsia es indicación de un trauma significativo [23] sin embargo, esto se describe pocas veces y es muy difícil diferenciar los desgarros pre y post mortem. La trombosis de las venas puente, que indica daño de los vasos sanguíneos y que puede identificarse en la autopsia puede ser el resultado de trauma o de

Figura 2: Tiempo craneal en autopsia de lactante que fallece después de un breve periodo en respiración asistida. Nótese la hemorragia en la hoz del cerebro y la hemorragia subdural en capa fina. Adyacente a la misma, nótese la vena puente intacta (flecha).



otros procesos.

La primera indicación de que las hemorragias retinianas indicaban abuso se efectuó en 1979 [24]. Vinchon [25] hizo hincapié en los problemas del uso de las hemorragias retinianas en el diagnóstico de abusos ya que este diagnóstico se basa en parte en la presencia de hemorragias retinianas con lo cual hay un sesgo de circularidad [25]. Las hemorragias retinianas son relativamente frecuentes en el nacimiento y pueden persistir hasta por lo menos 6 semanas [26]. Las hemorragias retinianas también

pueden asociarse a enfermedades intracraneales, alteraciones hematológicas, maltrato o traumatismo accidental tal como caída por las escaleras [27], infecciones letales [28] y otras enfermedades infantiles graves [29]. Los posibles mecanismos de producción de hemorragia retiniana en casos de sacudidas son poco claros y no hay una evidencia directa y mientras que se sabe que el síndrome de Terson y el aumento en picos de presión intracraneana pueden producir hemorragias retinianas, la tracción del vítreo nunca ha ido demostrada [30].

Los modelos animales tampoco han sido capaces de demostrar lesiones consistentes con las atribuidas a las sacudidas en los niños. Finnie y colaboradores [31] realizaron un estudio en corderos anestesiados e intubados, los que fueron sacudidos vigorosamente de una forma semejante a lo que se cree que ocurre en SBS. Tres corderos más jóvenes murieron antes de las 6 horas después del experimento cuando los otros fueron sacrificados. Ningún cordero presentaba daño hipóxico-isquémico en el cerebro o hemorragia retiniana, aunque si tenían daño multifocal de las capas internas neuronales de la retina, y 3 tenían hemorragia subdural mínima; los corderos más jóvenes mostraron daño axonal en el bulbo raquídeo y la unión craniocervical, más grave que corderos de más edad. Los estudios en cerdos pequeños también han sido poco concluyentes ya que no replican los hallazgos en humanos, no sólo en los movimiento de atrás para adelante sino tampoco en los movimientos rotatorios [32].

Un análisis comparativo de 6 estudios de casos con daño intracraneal llevado a cabo para determinar la asociación entre trauma craneal abusivo y los distintos síntomas clínicos presenta el grave problema de circularidad mencionado por Vinchon [25], ya que se usan los síntomas para definir trauma de tipo abusivo [33]. De hecho, un estudio oficial reciente llevado a cabo en Suecia, en el que se revisó la totalidad de la bibliografía referida a SBS concluyó que no existe suficiente evidencia científica que indique que la tríada de hemorragia subdural, hemorragia retiniana y encefalopatía es evidencia de SBS y que los estudios son de baja calidad o presentan resultados conflictivos [34].

En resumen, la presencia de hemorragia subdural y subaracnoidea, hemorragias retinianas y encefalopatía puede verse en varios escenarios traumáticos (tanto de maltrato como accidentales) y no traumáticos. Si bien se deben considerar todas las causas posibles (inclusive maltrato), la presencia de la tríada sin el acompañamiento de evidencia de traumatismo externo o interno no debe resultar en un diagnóstico de sacudidas violentas simplemente por descarte.

La mayoría de la literatura médica sobre SBS analiza a los niños de menos de 3 años en un conjunto, sin darse cuenta que la reacción es probablemente diferente en los lactantes sin fusión (o con fusión parcial) de los huesos del cráneo de los niños con huesos ya fusionados. Además, la maduración de los sistemas inmunitarios y de coagulación no se completa hasta aproximadamente la misma edad. La lista de enfermedades en el diagnóstico diferencial es muy larga y debe ser estudiada exhaustivamente.

Finalmente, como una combinación de síntomas no implica intencionalidad, sugerimos que se reemplace la terminología “trauma craneal abusivo” por el recientemente sugerido por Guthkelch [35], de hemorragia retiniana-dural del lactante”.

#### Bibliografía.

1. American Academy of Paediatrics. Committee on child abuse and neglect. Shaken baby syndrome: rotational cranial injuries-technical report. *Pediatrics* 2001; 108: 206-10
2. SCHEIMBERG I, MACK J. Shaken baby syndrome and forensic pathology. *Forensic Sci Med Pathol.* 2014; 10:242-3
3. GUTHKELCH AN: infantile subdural hematoma and its relationship to whiplash injury. *Br Med J.* 1971; 2 (759): 430-31
4. CAFFEY J: on the theory and practice of shaking infants. Its potential residual effects of permanent brain damage and mental retardation. *Am J Dis Child* 1972; 124: 161-9.
5. OMMAYA AK, FAAS F, YARNELL P: Whiplash injury and brain damage. *JAMA* 1968; 204: 75-9
6. USCINSKI RH. Shaken baby syndrome: an odyssey. *Neurol Med Chir (Tokyo).* 2006; 46 (2); 57-61
7. DUHAIME A, GENNARELLI TA, THIBAUT L BRUCE DA, MARGULIES SS, WISER R. The shaken baby syndrome. A clinical, pathological and biomechanical study. *J Neurosurg* 1987; 66 (3): 409-15
8. CORY CZ, JONES BM. Can shaking alone cause fatal brain injury? A biomechanical assessment of the Duhaime shaken baby syndrome mode. *Med Sci Law* 2003; 43 (4): 317-33
9. PRANGE MT, COATS B, DUHAIME C, MARGULIS SS. Anthropomorphic simulations of falls, shakes and inflicted impacts in infants. *J Neurosurg* 2003; 99 (1): 143-150.

10. SQUIER W. Shaken baby syndrome: the quest for evidence. *Develop Med Child Neurol* 2008; 50 (1): 10-4.
11. CASE ME, GRAHAM MA, HANDY TC, JENTZEN JM, MONTELEONE JA; National Association of Medical Examiners Ad Hoc Committee on Shaken Baby Syndrome. Position paper on fatal abusive head injuries in infants and young children. *Am J Foren Med Pathol* 2001 22 (2): 112-22.
12. ADAMS JH, DOYLE D, FORD I, GENNARELLI TA, GRAHAM DI, MCLELLAN DR. Diffuse axonal injury in head injury: definition, diagnosis and grading. *Histopathology* 1989; 15 (1): 49-59.
13. GEDDES JF, HACKSHAWAK, VOWLES GH, NICKOLS CD, WHITWELL HL. Neuropathology of inflicted head injury in children I. pattern of brain damage. *Brain* 2001; 124 (Pt7): 1290-8
14. GEDDES JF, VOWLES GH, HACKSHAWAK, NICKOLS CD, SCOTT IS, WHITWELL HL. Neuropathology of inflicted head injury in children II. Microscopic brain injury in infants. *Brain* 2001; 124 (Pt 7): 1299-306
15. MATSHES EW, EVANS RM, PINCKARD JK, JEFFREY JT, LEW EO. Shaken infants die of neck trauma, not brain trauma. *aFP* 2011; 1: 82-90.
16. RUTTY GN, SQUIER WM, PADFIELD CJ. Epidural haemorrhage of the cervical spinal cord: a post-mortem artefact? *Neuropathol Appl Neurobiol*. 2005; 31 (3): 247-257
17. GEDDES JF, TASKER RC, HACKSHAW AK, NICKOLS CD, ADAMS GG, WHITWELL HL, SCHEIMBERG I. Dural haemorrhage in non-traumatic infant deaths: does it explain the bleeding in "shaken baby syndrome"? *Neuropathol Appl Neurobiol* 2006; 29 (1): 14-22.
18. COHEN MC, SCHEIMBERG I. Evidence of occurrence of intradural and subdural haemorrhage in the perinatal and neonatal period in the context of hypoxic ischemic encephalopathy: an observational study from two referral institutions in the United Kingdom. *Pediatr Dev Pathol* 2009; 12 (3): 169-176.
19. SCHEIMBERG I, COHEN MC, ZAPATA-VAZQUEZ RE, DILLY S, ADNANI MA, TURNER K, SETHURAMAN C. Nontraumatic intradural and subdural haemorrhage and hypoxic ischemic encephalopathy in fetuses, infants and children up to 3 years of age: analysis of two audits of 636 cases from two referral centers in the United Kingdom. *Pediatr Dev Pathol* 2013; 16 (3): 149-59.
20. BYARD R. "Shaken baby syndrome" and forensic pathology: an uneasy interface. *Forensic Sci Med Pathol* 2014; 10:239-41
21. COHEN MC, SPRIGG A, WHITBY EH. Subdural hemorrhage, intradural hemorrhage and hypoxia in the pediatric and perinatal post mortem: are they related? An observational study combining the use of post mortem pathology and magnetic resonance imaging. *Forensic Sci Int*. 2010; 15: 200(1-3):100-7
22. SQUIER W, MACK J. The neuropathology of infant subdural haemorrhage. *Forensic Sci Int*. 2009; 187 (1-3): 6-13.
23. RAMBAUD C. Bridging veins and autopsy findings in abusive head trauma. *Pediatr Radiol* 2015; 45 (8): 1126-31.
24. EISENBREY AB. Retinal haemorrhage in the battered child. *Childs Brain* 1979; 5 (1): 40-4.
25. VINCHON M, DEFOORT-DHELLEMMES S, DESURMONT M, DHELLEMMES P. Accidental and non-accidental head injuries in infants: a prospective study. *J Neurosurg*. 2005;102 (4 Suppl):380-4.
26. EMERSON MV, PIERAMICI DJ, STOESSEL KM, BERREEN JP, GARIANO RF. Incidence and rate of disappearance of retinal haemorrhage in newborns. *Ophthalmology*. 2001;108(1):36-9.
27. LANTZ PE, COUTURE DE. Fatal acute intracranial injury, subdural hematoma and retinal hemorrhages caused by stairway fall. *J Forensic Sci*. 2011 Nov;56(6):1648-53
28. SALVATORI MC, LANTZ PE. Retinal haemorrhages associated with fatal paediatric infections. *Med Sci Law*. 2015;55 (2):121-8.
29. AGRAWAL S, PETERS MJ, ADAMS GG, PIERCE CM. Prevalence of retinal hemorrhages in critically ill children. *Paediatrics* 2012; 129 (6):1388-96.
30. RCPCH. Abusive head trauma and the eye in infancy, June 2013  
[http://www.rcpch.ac.uk/system/files/protected/page/Abusive%20Head%20Trauma%20and%20the%20Eye%20in%20Infancy\\_1.pdf](http://www.rcpch.ac.uk/system/files/protected/page/Abusive%20Head%20Trauma%20and%20the%20Eye%20in%20Infancy_1.pdf)
31. FINNIE JW, BLUMBERGS PC, MANAVIS J, TURNER RJ, HELPS S, VINK R ET AL. Neuropathological changes in a lamb model of non-accidental head injury (the shaken baby syndrome). *J Clin Neurosci* 2012; 19 (8):1159-64.
32. COATS B, BINENBAUM G, SMITH C, PEIFFER RL, CHRISTIAN CW, DUHAIME AC, MARGULIES SS. Cyclic head rotations produce modest brain injury in infant piglets. *J Neurotrauma* 2016; 33: 1-13
33. MAGUIRE SA, KEMP AM, LUMB RC, FAREWELL DM. Estimating the probability of abusive head trauma: a pooled analysis. *Pediatrics* 2011; 128:e550-564.
34. Skakvåld. Triadens roll vid medicinsk utredning av misstänkt skakvåld. En systemisk översikt. SBU UTVÄRDERAR. RAPPORT 255/2016
35. GUTHKELCH AN. Problems of infant retino-dural haemorrhage with minimal external injury. In *J health L & Policy*. Houston Journal of Health Law & Policy 2012 ISSN 1534-7907