

· 述评 ·

儿童痉挛性脑瘫外科治疗变迁与展望



全文二维码

应灏 王林

上海市儿童医院,上海交通大学医学院附属儿童医院骨科,上海 200062

通信作者:应灏;Email:18917128223@163.com

【摘要】 脑性瘫痪是目前导致儿童肢体残疾的主要疾病之一,痉挛性脑瘫是其最常见的表现形式,外科手术复杂,且存在争议,手术的方式和干预时机多样。早期干预方式为分期的单平面手术,目前大量开展的是多平面手术。应用三维步态检测,结合选择性脊神经后根切断术、肌腱延长微创手术的综合治疗方案在改善患儿预后上具有一定的优势。痉挛性脑瘫的治疗目标是改善患儿行走功能,临床应避免采取更多创伤较大的骨性手术,推崇多学科联合的个性化治疗方案。

【关键词】 脑性瘫痪/并发症;脑性瘫痪/外科学;肌痉挛状态/并发症;肌痉挛状态/外科学;矫形外科手术/方法

基金项目:上海市科技创新行动计划医学创新研究专项(20Y11913400)

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202202048-001

Historical modifications and future outlooks of surgery for cerebral palsy in children

Ying Hao, Wang Lin

Department of Pediatric Orthopedics, Children's Hospital of Shanghai, Shanghai Jiao Tong University, Shanghai 200062, China

Corresponding author: Ying Hao, Email: 18917128223@163.com

【Abstract】 Cerebral palsy is one of major diseases causing physical disability in children and spastic cerebral palsy is the most common form. Surgery has remained complex and controversial while surgical approaches and intervention opportunities vary greatly. Its early intervention of staged uniplanar surgery has been replaced by currently popular multiplanar surgery. Combining mini-invasive and three-dimensional nerve root lengthening surgery offers the advantages of better outcomes. The ultimate therapeutic goal is to improve ambulatory functions and avoid more traumatic bone procedures. Therefore adopting a multidisciplinary personalized treatment protocol is highly recommended.

【Key words】 Cerebral Palsy/CO; Cerebral Palsy/SU; Muscle Spasticity/CO; Muscle Spasticity/SU; Orthopedic Procedures/MT

Fund program: Medical Innovation Research Project of Shanghai Municipal Science & Technology Innovation Action Plan (20Y11913400)

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202202048-001

脑性瘫痪(cerebral palsy, CP, 以下简称脑瘫)是一种终身性运动障碍,通常是由处于发育期的大脑受到伤害引起。患儿的异常运动类型取决于脑部伤害的受累区域。痉挛性脑瘫(spastic cerebral palsy, SCP)是脑瘫最常见的表现形式,占有脑瘫患儿的80%,其典型特征是脑室周围区域有明显的白质软化改变^[1-2]。临床主要表现为肌张力亢进引起挛缩,并逐渐导致痉挛肌群的继发性结构与形态学改变,最终出现肌腱缩短^[3]。

通常发育正常的儿童至4岁时上、下肢骨骼长度较出生时约增加一倍,4岁至成年期再次增加约一倍。而SCP儿童在发育过程中,随着时间的推移,继发的痉挛肌群结构和形态发生变化,长骨长度增加,关节活动度减小,使肌群更加僵硬。因而,痉挛肌群缺乏弹性,更薄,更短,肌腱更长,比正常肌群孱弱。这实际上使得肌群的腱性部分缩短,表现为恒定的肌群挛缩^[4-5]。越来越多的研究表明,腿部恒定肌群挛缩在儿童5岁之前即已发生^[6-7]。如肌群挛缩恒定没有得到尽早治疗,将出现进行性肌群骨骼畸形。SCP患儿最常见的肌群骨骼畸形包括姿势异常如蹲伏步态、长骨扭转(如股骨颈前倾、胫骨扭转畸形),关节不稳定(如髋关

节半脱位/脱位、髌外翻/足外翻/内翻),以及过早发生的骨关节炎等退行性改变^[8-9]。此时,SCP的诊治由静态的神经病理学范畴转化为继发性骨科病理学范畴^[9]。根据神经肌肉骨骼变化的发生、发展过程,SCP患儿下肢痉挛可分为3个阶段:第一阶段,出现下肢肌群痉挛,伴有动力性痉挛挛缩和可逆畸形;在第二阶段,出现恒定的肌群挛缩;第三阶段同时存在痉挛、恒定的肌群挛缩,并出现骨骼和关节的变化^[10]。

肢体痉挛影响患儿的日常活动,如不治疗将会导致肌腱和关节挛缩,从而限制患儿的行走能力。骨科手术在处理SCP患儿的临床症状中起着重要作用^[11]。但是SCP的手术治疗是复杂且有争议的,外科手术方式有多种,干预时机也不同。

一、分期单平面手术

19世纪中期即出现经皮跟腱切开术,用于治疗SCP患儿的足部麻痹性畸形^[12]。SCP患儿往往多个解剖部位的肌群受到影响,但起初的干预方式是每次进行一个解剖部位的手术,即实施分期单平面手术^[13]。例如,双侧SCP患儿最先接受的手术干预是双侧跟腱延长术治疗马蹄足,手术同时会引起比目鱼肌群力量减弱,这可能导致患儿髌关节和膝关节屈曲增加,出现蹲伏步态;因此,接下来的手术干预是将腓绳肌延长至膝盖伸直改善,这将引起髌关节屈曲和骨盆前倾增加,导致患儿躯干屈曲,因此需要手术干预延长屈髌肌群;最后,需要进行股直肌肌腱移植治疗腰大肌延长术后膝关节僵硬。SCP患儿几乎每年都要接受整形外科手术,直至最后一次矫正手术。由于大部分患儿的生日都是在医院度过的,因此,Mercer-Range博士将这种间歇手术方法描述为“生日综合征”^[13]。由于每一次手术都需要住院,考虑到患儿的心理影响和手术及护理的风险,这种手术方式和干预时机对于SCP患儿来说是一种不明智的做法。

二、多平面手术

目前SCP的手术方式和干预时机已完全不同,骨科医生的目标是在一个手术及单一恢复期内完成所有解剖部位的操作,这种手术被称为“一期多平面手术”(single-event multilevel surgery, SEMLS)。考虑到不能从字面意义上理解为一生只需一次手术,且在骨科治疗中难免有进行额外必要手术的可能性,有学者建议以“多平面手术”替换上述“一期多平面手术”^[14-16]。多平面手术由Norlin和Tkaczuk于1985年首次在文献中提出^[17];2000年以后相关文献报道大量出现,最近的回顾性研究表明,多平面手术进一步改善了痉挛性脑瘫患儿的粗大运动功能水平^[18-19]。多平面手术的主要目标是提高或保持患儿的行走能力,主要包括纠正挛缩的肌腱延长术、肌腱移位以及治疗骨扭转畸形的截骨术和关节融合术^[20-21]。由于多平面手术需要在一次手术中纠正所有肌群的固定挛缩以及长骨扭转畸形,因此接受多平面手术的SCP患儿手术风险、围手术期护理风险以及康复难度都更大,只有经过精心设计和严密监控的功能性手术,以及术后全面的物理治疗与康复计划,才可以确保患儿获得更高水平的粗大运动功能^[22]。同时,家长所关心的术后问题如肢体不等长、复发、手术瘢痕等,提醒外科医师需要更多关注手术创伤,包括手术入路、缝合方法及术后护理,以最大限度减少并发症,减轻瘢痕^[23]。

三、结合选择性脊神经后根切断术、肌腱延长微创手术及三维步态分析的综合治疗

大量研究表明,在患儿年龄较小的时候处理痉挛和潜在的肌腱挛缩是一种更具优势的综合治疗方法。1913年德国医生首创脊神经后根完全切断术以解除下肢痉挛,但因引起了严重的躯干及肢体感觉障碍而未能得到推广。随着时间的推移,医学科学进步,选择性脊神经后根切除术(selective dorsal rhizotomy, SDR)得以出现,其疗效也得到了医学界的肯定,进而在欧美迅速推广,随后国内也逐渐开展该手术。患儿先接受SDR(选择性脊神经后根切断术)以消除痉挛,然后接受微创肌腱延长和强化物理治疗与康复方案。这种多学科联合的治疗方案扩大了下肢关节的活动范围,使之能够在没有下肢支具支撑的情况下独立行走。SDR的手术目的是减少痉挛,虽然它可以减少或者避免患儿行更多创伤较大的骨科手术,但并不能完全取代SCP患儿对骨科干预的需要^[24-25]。尽管SDR使患儿膝关节和踝关节的活动范围有所改善,但即使患儿在低年龄时进行过SDR,也不能消除已经发生的肌腱挛缩^[26]。如果这些挛缩得到解除,患儿的踝关节就能够足够背屈,脚后跟平放在地上,膝关节伸直,从而获得更好的身体平衡和步态。SDR后骨科干预的时机尚不明确,据报道,2~3岁时接受SDR的患儿比年龄4岁以上接受SDR的患儿更少需要后续的骨科干预。如SCP患儿长时间无步行活动,则需要接受更多的骨科手术^[27]。因此,我们建议SCP患儿的治疗方案应纳入肌腱延长微创手术,并在SDR术后早期予以实施。早期肌腱延长可以平衡肌肉和改善肢体功能状态,从而减少

后续骨科手术的次数。

多平面手术是指可以在一次手术麻醉时实施多个部位的肌腱延长手术,这样可以保留肌肉长度,从而保持了肌肉的收缩能力^[28-29]。术中尽量使用较小的皮肤切口可以避免术后广泛的瘢痕,并可减少过度延长的风险。肌腱延长微创手术可以使患儿获得更好的功能恢复,且允许患儿在手术后第1天即负重和进行运动康复及强化训练^[28-30]。早期开始负重并逐渐加强很重要,大量研究证明肌腱延长术后肌肉恢复训练至少需要持续6个月^[31]。如果患肢处石膏固定状态,持续不予负重,则恢复过程减慢。有研究表明约1/3的患儿由于SDR术后进行性足部畸形而接受骨性足部重建手术^[32]。但也有研究表明SDR减少了SCP患儿接受骨性腕部手术的次数^[29]。SDR与肌腱延长微创手术相结合可以减少患儿大部分后续骨性手术^[33]。

多数SCP患儿由于自身存在骨关节与神经肌肉发育异常,手术引起骨关节和神经肌肉创伤以及术后长时间石膏固定、关节制动、肌肉收缩及瘢痕挛缩等多方面原因,术后常遗留关节僵硬、关节伸屈旋转功能障碍等后遗症,因此术后正确的康复治疗尤为重要。三维步态分析(three-dimensional gait analysis, 3DGA)系统是一组通过网络将运动分析系统、表面肌电图和足底压力台连接起来,提供实时数据,并对步态进行运动学和动力学分析的系统,是一种分析步态特征的定量方法。该方法优于可视评估及传统的临床评估,通过采集SCP患儿步态运动中时空参数、运动学参数、动力学数据及动态表面肌电数据等多模态时序数据,根据三维步态模型参数中所指示的神经功能异常情况、发育异常肌肉所在部位以及肌力异常情况决定神经肌肉软组织松解和修复矫治手术方案的制定,最终可制定不同SCP患儿的个性化手术矫治方案,为SCP患儿的术前、术后诊治提供客观的依据^[34-35]。步态模型可以量化显示SCP患儿术后关节僵硬、关节伸屈旋转功能障碍和下肢步态异常的性质、程度以及关键影响因素(包括导致肌力减弱/增高的具体肌肉和部位、功能异常的具体神经及部位)^[36]。因此在康复治疗前后也可进行步态参数采集和分析,即针对关键影响因素制定康复治疗方案,并根据进一步的步态参数情况调整康复治疗方案,以期让SCP患儿获得最大的功能恢复,提高其生活质量。

四、痉挛性脑瘫治疗展望

综合SDR、肌腱延长微创手术的多学科治疗方案可以使SCP患儿改善下肢关节活动范围、行走能力,减少患儿对支撑支具的需求,使后期接受骨骼手术的机率减少,是目前乃至今后一段时期内SCP外科治疗较被推崇的模式,SCP治疗的最终目标是改善患儿行走功能,避免更多创伤较大的骨性手术,相信SCP的多学科合作及辅助儿童步态分析的个性化治疗方案将会被越来越多的小儿骨科同道所接受。

利益冲突 作者声明不存在利益冲突

作者贡献声明 文献检索、论文撰写为王林,论文调查设计、论文分析为应灏

参 考 文 献

- [1] Park TS, Owen JH. Surgical management of spastic diplegia in cerebral palsy[J]. N Engl J Med, 1992, 326(11): 745-749. DOI: 10.1056/NEJM199203123261106.
- [2] Mac Keith RC, Mackenzie I, Polani P. The Little Club. Memorandum on Terminology and Classification of "Cerebral Palsy" [J]. Dev Med Child Neurol, 1959, 1: 27-35.
- [3] Permpongkosol S, Kongkand A, Ratana-Olarn K, et al. Increased prevalence of erectile dysfunction (ED): results of the second epidemiological study on sexual activity and prevalence of ED in Thai males[J]. Aging Male, 2008, 11(3): 128-133. DOI: 10.1080/13685530802278128.
- [4] Miller F. Focal management of spasticity in cerebral palsy[M]. // Miller F, Bachrach S, Lennon N, et al. Cerebral Palsy. 2th ed. Cham: Springer International Publishing; 2018, 1-18.
- [5] Multani I, Manji J, Hastings-Ison T, et al. Botulinum toxin in the management of children with cerebral palsy[J]. Paediatr Drugs, 2019, 21(4): 261-281. DOI: 10.1007/s40272-019-00344-8.
- [6] McDowell BC, Salazar-Torres JJ, Kerr C, et al. Passive range of motion in a population-based sample of children with spastic cerebral palsy who walk[J]. Phys Occup Ther Pediatr, 2012, 32(2): 139-150. DOI: 10.3109/01942638.2011.644032.
- [7] Hedberg-Graff J, Granström F, Amer M, et al. Upper-limb contracture development in children with cerebral palsy: a population-based study[J]. Dev Med Child Neurol, 2019, 61(2): 204-211. DOI: 10.1111/dmen.14006.
- [8] Kuroda MM, Mutsuzaki H, Yoshikawa K, et al. Gait training using a hybrid assistive limb after botulinum toxin treatment for cerebral palsy: a case report[J]. J Phys Ther Sci, 2021, 33(6): 499-504. DOI: 10.1589/jpts.33.499.
- [9] Kerr Graham H, Selber P. Musculoskeletal aspects of cerebral palsy[J]. J Bone Joint Surg Br, 2003, 85(2): 157-166. DOI: 10.1302/0301-620x.85b2.14066.
- [10] Tilton A. Management of spasticity in children with cerebral palsy[J]. Semin Pediatr Neurol, 2009, 16(2): 82-89. DOI: 10.1016/j.spen.2009.03.006.

- [11] GenêGen, Denormandie P, Keenan MA. Orthopaedic surgery for patients with central nervous system lesions: concepts and techniques[J]. *Ann Phys Rehabil Med*, 2019, 62(4): 225-233. DOI: 10.1016/j.rehab.2018.09.004.
- [12] Damiano DL, Alter KE, Chambers H. New clinical and research trends in lower extremity management for ambulatory children with cerebral palsy[J]. *Phys Med Rehabil Clin N Am*, 2009, 20(3): 469-491. DOI: 10.1016/j.pmr.2009.04.005.
- [13] Murphy RF, Nunez L, Barfield WR, et al. Evaluation of pediatric questions on the orthopaedic in-training examination-an update[J]. *J Pediatr Orthop*, 2017, 37(6): e394-e397. DOI: 10.1097/BPO.0000000000000913.
- [14] Dreher T, Thomason P. Questions on multilevel surgery in children with cerebral palsy: a multicentre cohort study[J]. *Dev Med Child Neurol*, 2018, 60(1): 88-93. DOI: 10.1111/dmcn.13618.
- [15] Lamberts RP, Burger M, du Toit J, et al. A systematic review of the effects of single-event multilevel surgery on gait parameters in children with spastic cerebral palsy[J]. *PLoS One*, 2016, 11(10): e0164686. DOI: 10.1371/journal.pone.0164686.
- [16] de Freitas Guardini KM, Kawamura CM, Lopes J, et al. Factors related to better outcomes after single-event multilevel surgery (SEMLS) in patients with cerebral palsy[J]. *Gait Posture*, 2021, 86: 260-265. DOI: 10.1016/j.gaitpost.2021.03.032.
- [17] Norlin R, Tkaczuk H. One-session surgery for correction of lower extremity deformities in children with cerebral palsy[J]. *J Pediatr Orthop*, 1985, 5(2): 208-211.
- [18] Firth GB, Passmore E, Sangeux M, et al. Multilevel surgery for equinus gait in children with spastic diplegic cerebral palsy: medium-term follow-up with gait analysis[J]. *J Bone Joint Surg Am*, 2013, 95(10): 931-938. DOI: 10.2106/JBJS.K.01542.
- [19] Dreher T, Buccoliero T, Wolf SI, et al. Long-term results after gastrocnemius-soleus intramuscular aponeurotic recession as a part of multilevel surgery in spastic diplegic cerebral palsy[J]. *J Bone Joint Surg Am*, 2012, 94(7): 627-637. DOI: 10.2106/JBJS.K.00096.
- [20] Georgiadis AG, Schwartz MH, Walt K, et al. Team approach: single-event multilevel surgery in ambulatory patients with cerebral palsy[J]. *JBJS Rev*, 2017, 5(8): e10. DOI: 10.2106/JBJS.RVW.16.00101.
- [21] Nahm NJ, Ludwig M, Thompson R, et al. Single-event multilevel surgery in cerebral palsy: Value added by a co-surgeon[J]. *Medicine (Baltimore)*, 2021, 100(24): e26294. DOI: 10.1097/MD.00000000000026294.
- [22] Park MS, Chung CY, Lee SH, et al. Issues of concern after a single-event multilevel surgery in ambulatory children with cerebral palsy[J]. *J Pediatr Orthop*, 2009, 29(7): 765-770. DOI: 10.1097/BPO.0b013e3181b529e8.
- [23] Park MS, Chung CY, Lee KM, et al. Issues of concern before single event multilevel surgery in patients with cerebral palsy[J]. *J Pediatr Orthop*, 2010, 30(5): 489-495. DOI: 10.1097/BPO.0b013e3181e00c98.
- [24] 孙圣礼, 舒毓高, 刘佳赋, 等. 跳跃式椎板切除选择性脊神经后根切断治疗脑瘫性下肢痉挛9例[J]. *临床小儿外科杂志*, 2014, (4): 317-319. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2014.04.016.
Sun SL, Shu YG, Liu JF, et al. Selective posterior rhizotomy with skipping laminectomy for treating the lower limbs spastic cerebral palsy: a reports of 9 cases[J]. *J Clin Ped Surgery*, 2014, (4): 317-319. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2014.04.016.
- [25] O'Brien DF, Brien DF, Park TS. A review of orthopedic surgeries after selective dorsal rhizotomy[J]. *Neurosurg Focus*, 2006, 21(2): e2. DOI: 10.3171/foc.2006.21.2.3.
- [26] Tedroff K, Löwing K, Jacobson DN, et al. Does loss of spasticity matter? A 10-year follow-up after selective dorsal rhizotomy in cerebral palsy[J]. *Dev Med Child Neurol*, 2011, 53(8): 724-729. DOI: 10.1111/j.1469-8749.2011.03969.x.
- [27] O'Brien DF, Brien DF, Park TS, et al. Orthopedic surgery after selective dorsal rhizotomy for spastic diplegia in relation to ambulatory status and age[J]. *J Neurosurg*, 2005, 103(1 Suppl): 5-9. DOI: 10.3171/ped.2005.103.1.0005.
- [28] Thompson N, Stebbins J, Seniorou M, et al. The use of minimally invasive techniques in multi-level surgery for children with cerebral palsy: preliminary results[J]. *J Bone Joint Surg Br*, 2010, 92(10): 1442-1448. DOI: 10.1302/0301-620X.92B10.24307.
- [29] O'Brien DF, Brien DF, Park TS, et al. Effect of selective dorsal rhizotomy on need for orthopedic surgery for spastic quadriplegic cerebral palsy: long-term outcome analysis in relation to age[J]. *J Neurosurg*, 2004, 101(1 Suppl): 59-63. DOI: 10.3171/ped.2004.101.2.0059.
- [30] 郑宁, 肖代坤, 郭跃跃, 等. 腱膜松解术治疗脑瘫痉挛性下肢畸形[J]. *临床小儿外科杂志*, 2006, 5(3): 217-218. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2006.03.020.
Zheng N, Xiao DK, Guo YY, et al. Aponeurosis lysis in the treatment of spastic lower extremity deformity caused by cerebral palsy[J]. *J Clin Ped Surgery*, 2006, 5(3): 217-218. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2006.03.020.
- [31] Seniorou M, Thompson N, Harrington M, et al. Recovery of muscle strength following multi-level orthopaedic surgery in diplegic cerebral palsy[J]. *Gait Posture*, 2007, 26(4): 475-481. DOI: 10.1016/j.gaitpost.2007.07.008.
- [32] Carroll KL, Moore KR, Stevens PM. Orthopedic procedures after rhizotomy[J]. *J Pediatr Orthop*, 1998, 18(1): 69-74.
- [33] Limpaphayom N, Stewart S, Wang L, et al. Functional outcomes after selective dorsal rhizotomy followed by minimally invasive tendon lengthening procedures in children with spastic cerebral palsy[J]. *J Pediatr Orthop B*, 2020, 29(1): 1-8. DOI: 10.1097/BPB.0000000000000642.
- [34] Kiernan D, Malone A, O'Brien T, et al. Three-dimensional lumbar segment movement characteristics during paediatric cerebral palsy gait[J]. *Gait Posture*, 2017, 53: 41-47. DOI: 10.1016/j.gaitpost.2017.01.001.
- [35] Ma N, Slavov N, Passmore E, et al. Three-dimensional gait analysis in children undergoing gastrocnemius lengthening for equinus secondary to cerebral palsy[J]. *Medicina (Kaunas)*, 2021, 57(2): 98. DOI: 10.3390/medicina57020098.
- [36] O'Byrne JM, Byrne JM, Jenkinson A, et al. Quantitative analysis and classification of gait patterns in cerebral palsy using a three-dimensional motion analyzer[J]. *J Child Neurol*, 1998, 13(3): 101-108. DOI: 10.1177/088307389801300302.

(收稿日期: 2022-02-23)

本文引用格式: 应灏, 王林. 儿童痉挛性脑瘫外科治疗变迁与展望[J]. *临床小儿外科杂志*, 2022, 21(6): 501-504. DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202202048-001.

Citing this article as: Ying H, Wang L. Historical modifications and future outlooks of surgery for cerebral palsy in children[J]. *J Clin Ped Sur*, 2022, 21(6): 501-504. DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202202048-001.