

· 荟萃分析 ·

脑性瘫痪儿童选择性脊神经后根切断术的荟萃分析

汪乐, 徐林, 刘港, 刘丽, 于睿钦, 马超, 白惠中, 穆晓红*

(北京中医药大学东直门医院, 北京市 100700)

摘要: [目的] 以荟萃分析评估选择性脊神经后根切断术 (selective posterior rhizotomy, SPR) 改善脑性瘫痪儿童下肢步态、关节运动等方面的疗效。[方法] 文献检索在 PubMed、Embase、Web of Science、Cochrane 图书馆、CBM、CNKI、万方、VIP 电子数据库中进行。纳入有关 SPR 治疗脑性瘫痪的对照研究进行荟萃分析, 至少 2 名研究员独立筛选文献、提取数据和评估, 使用 Cochrane 5.1.0 偏倚风险评估工具对纳入的 RCTs 质量进行评估, 使用 MINORS 评估 nRCTs 的方法学质量, 数据分析采用 Revman 5.3 软件。[结果] 共检索到 4 115 篇文献, 其中英文 1 829 篇, 中文 2 284 篇; 经过筛选后 7 项研究纳入本荟萃分析, 均为英文文献, 共计 219 例脑瘫患者, 其中 SPR 组 112 例, 非 SPR 组 107 例。荟萃分析结果显示: SPR 对脑瘫患者步态 (步长)、关节运动 (膝关节伸展、踝关节背伸、踝关节跖屈、足前进角) 等方面的改善优于非 SPR 组 ($P < 0.05$)。而步频、步速, 关节运动中的髋关节屈伸、髋关节伸展、膝关节屈伸、屈膝摆动, 以及骨盆倾斜角和骨盆旋转角, SPR 组与非 SPR 组差异无统计学意义 ($P > 0.05$)。[结论] SPR 能够改善脑性瘫痪儿童步态质量以及膝关节、踝关节的运动学参数, SPR 对下肢远端关节的改善更明显。

关键词: 步态, 关节运动学, 脑瘫, 选择性脊神经后根切断术, 荟萃分析

中图分类号: R687 **文献标志码:** A **文章编号:** 1005-8478 (2022) 15-1372-05

Selective posterior rhizotomy for cerebral palsy in children: a meta-analysis // WANG Le, XU Lin, LIU Gang, LIU Li, YU Rui-qin, MA Chao, BAI Hui-zhong, MU Xiao-hong. Dongzhimen Hospital, Beijing University of Traditional Chinese Medicine, Beijing 100700, China.

Abstract: [Objective] To evaluate the efficacy of selective posterior rhizotomy (SPR) in improving lower limb gait and joint kinematics of cerebral palsy in children by a meta-analysis. [Methods] Literature retrieval was carried out in PubMed, Embase, Web of Science, Cochrane Library, CBM, CNKI, Wanfang and VIP electronic databases to search the controlled studies on SPR for cerebral palsy. At least 2 researchers independently screened the literature and extracted data. The quality of the included RCTs was assessed by using the Cochrane 5.1.0, a bias risk assessment tool, and then the methodological quality of nRCTs by using MINORS. Finally, the meta-analysis was conducted by Revman 5.3 software. [Results] A total of 4 115 articles were retrieved, including 1 829 in English and 2 284 in Chinese. A total of 219 patients with cerebral palsy were included in the meta-analysis after screening, including 112 in the SPR group and 107 in the non-SPR group. As results of meta-analysis, the SPR improved gait (step length) and joint kinematics, involving knee extension, ankle dorsiflexion, ankle plantar flexion, foot forward angle, which proved significantly better than those of the non-SPR group ($P < 0.05$). However, there were no significant differences in step frequency, step speed, hip flexion and extension, hip extension, knee flexion and extension, knee swing, pelvic inclination and pelvic rotation angle between SPR group and non-SPR group ($P > 0.05$). [Conclusion] The SPR does improve gait quality and kinematics parameters of knee and ankle in children with cerebral palsy, which is more obviously in the distal joint of the lower limb.

Key words: gait, joint kinematics, cerebral palsy, selective posterior rhizotomy, meta-analysis

脑性瘫痪 (cerebral palsy, CP) 是儿童运动障碍的最常见原因之一。根据最新的定义, CP 是由于发育中或未成熟大脑的非进行性损伤、病变或异常, 而引起永久性 (但并非不变) 运动和/或姿势以及功能障碍的一组临床综合征^[1]。除了运动功能障碍这一核心症状以外, 脑瘫也常伴有其他功能异常或疾

病, 例如: 感觉、认知、沟通和行为障碍, 癫痫以及继发性肌肉骨骼疾病^[2]。一篇纳入 49 项研究的系统评价和荟萃分析显示, 脑瘫的总体患病率为 2.11/1 000, 近年来保持相对稳定^[3]。

选择性脊神经后根切断术 (selective posterior rhizotomy, SPR) 是治疗脑瘫患者痉挛的关键技术,

DOI:10.3977/j.issn.1005-8478.2022.15.06

作者简介: 汪乐, 在读硕士, 研究方向: 脊柱与脑瘫外科, (电话)18811700638, (电子信箱)921600312@qq.com

* 通信作者: 穆晓红, (电子信箱)mhx_2004@163.com

该术式最早可以追溯到1880年代,经过多代改良,逐渐形成了成熟的现代SPR技术^[4]。SPR疗效确切、证据充分,是痉挛型脑瘫患者的可靠选择,已得到国内外专家的共同认可,成为痉挛性脑瘫外科治疗的推荐术式^[5,6]。

SPR能改善CP痉挛,大量报道证实了其对脑瘫患者的运动功能、步态、关节活动度等方面的改善^[7-9]。对于评价SPR治疗CP的相关疗效,之前已有荟萃分析发表^[10],但该研究仅纳入随机对照试验,文献较少,评价指标较为单一。缺乏对步态分析、关节运动、骨盆参数等多方面指标的综合评价。总体样本量较少,结论参考意义较小,缺乏高质量、大样本循证医学证据。

因此,笔者通过检索国内外SPR治疗脑瘫相关对照试验,将涉及步态分析、关节、骨盆等相关研究纳入本次分析,并提取相关指标进行荟萃分析。以进一步评估SPR治疗CP的综合疗效,为其临床应用提供循证医学证据支持。

1 资料与方法

1.1 纳入与排除标准

纳入标准:(1)SPR治疗脑性瘫痪的对照试验,语言为中文或英文;(2)SPR组手术年龄或非SPR组基线年龄均<18岁,不分性别和种族,明确诊断为脑性瘫痪;(3)两组间一般资料和基线特征均无明显统计学异质性,具有可比性;(4)非SPR组采用物理治疗或常规康复等非手术疗法,试验组为SPR或在对照组的基础上加用SPR治疗;(5)至少包含步态分析、关节运动学参数、骨盆参数中的一项指标。

排除标准:(1)会议摘要、重复研究;(2)SPR组在非SPR组基础上,不止SPR一项干预措施;(3)结局数据不完整、选择性报告研究。

1.2 检索策略

文献检索在以下电子数据库中进行(从建库到2020年8月6日):PubMed、Embase、Web of Science、Cochrane图书馆、中国生物医学文献数据库(CBM)、中国期刊全文数据库(CNKI)、万方数据库(Wanfang Database)、维普中文科技期刊数据库(VIP)。采用主题词检索与部分自由词检索相结合的方式,中文检索关键词为:脑瘫,脑性瘫痪,痉挛型脑瘫,痉挛性双瘫,选择性脊神经后根切断术,选择性背根神经切断术,SPR,SDR;英文检索关键词

为:cerebral palsy, CP, spastic cerebral palsy, diplegic cerebral palsy, spastic diplegia, monoplegic cerebral palsy, quadriplegic cerebral palsy, selective posterior rhizotomy, SPR, selective dorsal rhizotomy, SDR。

1.3 文献筛选、数据提取与评估

两名研究员独立进行文献筛选、资料提取与评估,如意见不一致,将咨询第三名研究员解决,直到达成共识。首先阅读文献题目和摘要初步筛选与本研究相关文献,然后阅读全文,依据纳入与排除标准确定最终纳入文献。数据提取包括:作者、发表时间、研究设计类型、受试者数量、患者年龄、干预方案、随访时间及结局指标等。主要结局指标包括步态分析、关节运动学、骨盆参数。

对于随机对照试验(randomized controlled trial, RCT),采用Cochrane图书馆的RCT偏倚风险评估工具(Cochrane 5.1.0版本)对纳入研究进行质量评价,评估偏倚包括:(1)随机序列生成;(2)分配隐藏;(3)对受试者、试验人员施盲;(4)对结局评估者施盲;(5)结局数据不完整;(6)选择性报告结果;(7)其他偏倚。每项风险评估包括“high”“low”“unclear”3个等级。

对于非随机对照试验(non-randomized control trial, nRCT),采用非随机对照研究方法学指数(methodological index for non-randomized studies, MINORS)评价指标对纳入研究进行质量评价。共包含12项,每一项目的得分分别为0(未报告)、1(已报告但不充分)或2(已报告且充分);对照研究的最高得分为24分,0~8分表示质量不高,9~16分表示中等质量,17~24分表示高质量。

1.4 统计学方法

采用Review Manager 5.3软件进行荟萃分析。计量资料,结果用比值比(odds ratio, OR)或相对危险度(relative risk, RR)表示;计数资料,结果采用加权均数差(weighted mean difference, WMD)或标准化均数差(standardized mean difference, SMD)表示,置信区间(confidence interval, CI)以95%表示。当 $I^2=0\%$ 时,认为无统计学异质性,采用固定效应模型合并数据;当 $0\%<I^2<50\%$ 时,认为异质性不显著,本荟萃分析保守地使用随机效应模型合并数据;当 $I^2\geq 50\%$ 时,则认为统计学异质性显著,采用随机效应模型合并数据,尽可能找出异质性来源,并且进行亚组分析或敏感性分析。SPR组与非SPR组进行比较, $P<0.05$ 为差异有统计学意义。

2 结果

2.1 文献检索结果

共检索到 4 115 篇文献，其中英文 1 829 篇，中文 2 284 篇。Endnote 剔除重复文献后剩余 2 113 篇，阅读题目和摘要，删除无关文献，剩余 23 篇文献研究主题具有相关性；再精读全文排除不符合纳入

标准的文献，最终纳入 7 篇文献进行荟萃分析，均为英文文献。7 篇文献共包括 219 例脑性瘫痪儿童，其中 SPR 组 (trial group, T) 112 例，非 SPR 组 107 例 (control group, C)。纳入研究基本特征见表 1。

表 1 纳入研究基本特征

作者及年份	国家/地区	研究设计	样本量 T/C	年龄 (岁)	干预措施	T/C	随访时间	指标
Abel 2005 ^[11]	美国	前瞻性对照	10/10	8.5/7.2	SPR+PT	PT	9~12 个月	①③
Engsberg 2006 ^[12]	美国	前瞻性对照	31/37	9.0/9.7	SPR+PT	PT	20 个月	①②③
Graubert 2000 ^[13]	美国	RCT	18/11	6.5/7.4	SPR+PT	PT	12 个月	①③
Macwilliams 2011 ^[14]	美国	回顾性对照	8/9	15.3/14.8	SPR	N-O	16 个月	①
Munger 2017 ^[15]	美国	回顾性对照	13/8	4.7/6.1	SPR	N-SPR	13 年	①②
Wong 2005 ^[16]	中国台湾	前瞻性对照	20/20	5.4/5.0	SPR	PT	20 个月	①
Wright 1998 ^[17]	加拿大	RCT	12/12	4.8/4.9	SPR+PT/OT	PT/OT	12 个月	①②

注: T=SPR 组, C=非 SPR 组; RCT=随机对照试验, SPR=选择性脊神经后根切断术, PT=物理治疗, N-O=非手术治疗, N-SPR=非 SPR, OT=作业治疗; ①步态分析, ②关节运动学参数, ③骨盆参数

2.2 纳入文献的质量评价

共 2 项 RCT 纳入研究，均提及“随机分配”，但并未说明随机的方法（风险不清楚）。2 个研究均施盲（低风险），未提及分配隐藏（风险不清楚）。所有研究结果完整性、选择性报道情况以及其他风险不详（风险不清楚）。共 5 项 nRCT 纳入分析，方法学质量评价结果显示 2 项研究为中等质量，3 项为高质量，

无低质量研究。

2.3 荟萃分析结果

2.3.1 步态情况

合并结果显示 SPR 对脑瘫患者步态中步伐长度的改善优于非 SPR，对于步频、步速的改善不明显。合并结果见表 2。

表 2 步态分析合并结果

指标	研究数	样本量 (T/C)	异质性	效应模型	合并结果
步长	5	89/89	$I^2=42\%$	随机	SMD=0.59, 95% CI (0.17, 1.01), $P=0.006$
步频	4	77/77	$I^2=55\%$	随机	WMD=2.70, 95% CI (-9.87, 15.27), $P=0.67$
步速	6	97/98	$I^2=35\%$	随机	SMD=0.11, 95% CI (-0.25, 0.48), $P=0.54$

2.3.2 关节运动学

SPR 对关节运动学参数中膝关节伸展、踝关节背屈、踝关节跖屈及足前进角的改善明显优于非 SPR，

对于髋关节屈/伸、髋关节伸展、膝关节屈/伸、屈膝摆动，以及骨盆倾斜角和骨盆旋转角，SPR 组与非 SPR 组差异无统计学意义，合并结果见表 3。

表 3 关节运动学参数合并结果

指标	研究数	样本量 (T/C)	异质性	效应模型	合并结果
髋关节屈/伸	2	39/46	$I^2=65\%$	随机	WMD=6.03, 95% CI (-1.58, 13.64), $P=0.12$
髋关节伸展	2	28/21	$I^2=28\%$	随机	WMD=-4.75, 95% CI (-10.52, 1.02), $P=0.11$
膝关节屈/伸	2	39/46	$I^2=65\%$	随机	WMD=10.91, 95% CI (-1.21, 23.02), $P=0.08$
膝关节伸展	2	28/21	$I^2=0\%$	固定	WMD=-8.88, 95% CI (-16.13, -1.62), $P=0.02$
屈膝摆动	2	31/19	$I^2=0\%$	固定	WMD=2.45, 95% CI (-1.03, 5.93), $P=0.17$
踝关节背伸	3	41/29	$I^2=25\%$	随机	WMD=5.70, 95% CI (1.85, 9.55), $P=0.004$
踝关节跖屈	2	23/18	$I^2=0\%$	固定	WMD=14.95, 95% CI (10.76, 19.10), $P<0.001$
足前进角	2	47/47	$I^2=0\%$	固定	WMD=-9.65, 95% CI (-15.65, -3.66), $P=0.002$
骨盆倾斜角	3	57/57	$I^2=77\%$	随机	WMD=0.03, 95% CI (-3.59, 3.66), $P=0.99$
骨盆旋转角	2	39/46	$I^2=0\%$	固定	WMD=-1.53, 95% CI (-4.03, 0.98), $P=0.23$

3 讨论

通过步态分析研究结果显示,SPR能够明显增加脑瘫患儿步长,对步频和步速改善不明显。这与O'Sullivan等^[18]研究结果相似,他们观察了选择性脊神经后根切断术+软组织手术对脑瘫步态的短期影响,结果SPR显著改善了标准化步长;并且通过与适当的对照组的比较,表明这些步态的改善是SPR的作用,而不是软组织手术或自然发育历史引起的。Mcfall等^[19]对所有SPR手术儿童采用三维步态分析,结合SPR手术前、SPR手术后至青春期前、青春期后三个时期的数据分析,脑瘫患者从术前到成年,步态模式都有显著改善。这些患者成功地度过了青春期的生长突增期,并在成年后维持了这些变化。Langerak等^[20]报道了痉挛型双瘫患者选择性脊神经后根切断术后17~26年的步态状态,虽然步态模式仍不正常,但显示出了许多功能性步态的重要条件,包括负荷反应、充分的屈膝摆动期、充分的跖屈摆动期、合理的速度和节奏。

Oudenhoven等^[21]的研究表明,患者在SPR前和术后5年后接受爱丁堡视觉步态评分(Edinburgh visual gait score, EVGS)的评估,SPR后步态质量总体改善,不同患者间差异较大。与GMFCS III级相比, I级和II级患儿步态改善更多。Romei等^[22]观察了痉挛性双瘫患者SPR后,儿童期到青少年和青年时期10年随访步态的演变, EVGS显示SPR后短期内获得的步态模式改善一直持续到青春期和成年期;如果考虑到术前GMFCS等级的分层,与GMFCS III级患者相比, GMFCS I和II级患者在整体步态质量方面的改善明显更多,这与Oudenhoven等^[21]的研究结果一致。Rumberg等^[8]观察了SPR后脑瘫患儿的步态平衡和对称性,手术后6~12个月,SPR改善了步态和平衡的关键指标,但对称性没有改善,这可能是由于SPR通过减少传入信号改善平衡问题,而不是通过增强运动的对称性来改善步态。

通过合并三维步态中观察到的关节运动学参数结果,发现SPR能够改善患者膝关节伸展、踝关节跖屈、足前进角(行走时,足的长轴和前进方向的夹角)等参数,但合并样本量偏小,疗效存疑。4项研究合并结果显示SPR改善踝关节背伸运动不明显,敏感性分析发现Engsberg等^[12]在2006年的研究存在异质性,排除该研究后统计学异质性降低,并且合并效应量具有统计学意义,SPR改善踝关节背伸疗效

明显。SPR改善脑瘫儿童髋关节屈/伸、髋关节伸展、膝关节屈/伸、屈膝摆动、骨盆倾斜角、骨盆旋转角等参数不明显。这似乎说明了SPR对脑瘫儿童下肢远端关节(踝关节、膝关节)的改善大于近端关节(髋关节、骨盆)。

Romei等^[22]的研究报道SPR术前、术后2年、术后5年以及术后10年以上的步态运动学参数变化,在SPR后2年和5年,膝关节和踝关节运动有显著的改善,并在10年的随访中保持或增强。SPR后骨盆和髋关节的运动学没有明显改变,这表明SPR对下肢远端关节(即膝关节和踝关节)的影响大于近端关节(骨盆和髋关节),这与本研究的合并结果是相似的。O'Sullivan等^[18]报道了SPR引起膝关节屈曲、踝关节背屈、足前进角和膝关节屈曲的改善,而在没有手术干预的情况下,这些关节运动的改善都没有出现。Mcfall等^[19]的三维步态研究显示,CP儿童关节运动范围显著改善,膝关节屈曲摆动更好,膝关节伸展更多,同时足背屈增加。观察到的唯一有害变化是骨盆前倾小幅度增加。

本次荟萃分析存在以下局限性:(1)纳入文章数量有限,一些结局指标样本量明显偏小;(2)部分文献的效应指标不是以“ $\bar{x} \pm s$ ”体现,故运用相关公式合理转化,纳入研究少部分数据为近似值而非真实值,可能存在一定的偏倚;(3)非SPR组的治疗并非统一的物理治疗或常规康复,部分研究未明确提及具体非手术治疗方法;(4)纳入文献为2项随机对照试验与5项非随机对照试验组成,可能存在一定方法学异质性。

脑性瘫痪儿童的步态质量在SPR后显著改善,尤其是对二维参数中步长的提高,对步频与步速的提高不明显;在三维步态分析中观察到的下肢关节运动学参数结果显示,SPR对远端关节的改善大于近端关节。

参考文献

- [1] Christine C, Dolk H, Platt MJ, et al. Recommendations from the SCPE collaborative group for defining and classifying cerebral palsy [J]. *Dev Med Child Neurol Suppl*, 2007, 109 (1): 35-38.
- [2] Sadowska M, Sarecka-hujar B, Kopyta I. Cerebral palsy: current opinions on definition, epidemiology, risk factors, classification and treatment options [J]. *Neuropsychiatr Dis Treat*, 2020, 16: 1505-1518.
- [3] Oskoui M, Coutinho F, Dykeman J, et al. An update on the prevalence of cerebral palsy: a systematic review and meta-analysis [J]. *Dev Med Child Neuro*, 2013, 55 (6): 509-519.

- [4] Enslin JMN, Langerak NG, Fieggan AG. The evolution of selective dorsal rhizotomy for the management of spasticity [J]. *Neurotherapeutics*, 2019, 16 (1) : 3-8.
- [5] Park TS, Dobbs MB, Cho J. Evidence supporting selective dorsal rhizotomy for treatment of spastic cerebral palsy [J]. *Cureus*, 2018, 10 (10) : e3466.
- [6] 穆晓红, 李筱叶. 痉挛型脑性瘫痪外科治疗专家共识 [J]. *中国矫形外科杂志*, 2020, 28 (1) : 77-81.
- [7] Ates F, Brandenburg JE, Kaufman KR. Effects of selective dorsal rhizotomy on ankle joint function in patients with cerebral palsy [J]. *Front Pediatr*, 2020, 8 (1) : 75.
- [8] Rumberg F, Bakir MS, Taylor WR, et al. The effects of selective dorsal rhizotomy on balance and symmetry of gait in children with cerebral palsy [J]. *PLoS One*, 2016, 11 (4) : e0152930.
- [9] Summers J, Coker B, Eddy S, et al. Selective dorsal rhizotomy in ambulant children with cerebral palsy: an observational cohort study [J]. *Lancet Child Adolesc Health*, 2019, 3 (7) : 455-462.
- [10] McLaughlin J, Bjornson K, Temkin N, et al. Selective dorsal rhizotomy: meta-analysis of three randomized controlled trials [J]. *Dev Med Child Neurol*, 2002, 44 (1) : 17-25.
- [11] Abel MF, Damiano DL, Gilgannon M, et al. Biomechanical changes in gait following selective dorsal rhizotomy [J]. *J Neurosurg*, 2005, 102 (2 Suppl) : 157-162.
- [12] Engsberg JR, Ross SA, Collins D R, et al. Effect of selective dorsal rhizotomy in the treatment of children with cerebral palsy [J]. *J Neurosurg*, 2006, 105 (1 Suppl) : 8-15.
- [13] Graubert C, Song KM, McLaughlin JF, et al. Changes in gait at 1 year post-selective dorsal rhizotomy: results of a prospective randomized study [J]. *J Pediatr Orthop*, 2000, 20 (4) : 496-500.
- [14] Macwilliams BA, Johnson BA, Shuckra AL, et al. Functional decline in children undergoing selective dorsal rhizotomy after age 10 [J]. *Dev Med Child Neurol*, 2011, 53 (8) : 717-723.
- [15] Munger ME, Aldahondo N, Krach LE, et al. Long-term outcomes after selective dorsal rhizotomy: a retrospective matched cohort study [J]. *Dev Med Child Neurol*, 2017, 59 (11) : 1196-1203.
- [16] Wong AM, Pei YC, Lui TN, et al. Comparison between botulinum toxin type a injection and selective posterior rhizotomy in improving gait performance in children with cerebral palsy [J]. *J Neurosurg*, 2005, 102 (4 Suppl) : 385-389.
- [17] Wright FV, Sheil EMH, Drake JM, et al. Evaluation of selective dorsal rhizotomy for the reduction of spasticity in cerebral palsy: a randomized controlled trial [J]. *Develop Med Child Neurol*, 1998, 40 (4) : 239-247.
- [18] O'Sullivan R, Leonard J, Quinn A, et al. The short-term effects of selective dorsal rhizotomy on gait compared to matched cerebral palsy control groups [J]. *PLoS One*, 2019, 14 (7) : e0220119.
- [19] Mcfall J, Stewart C, Kidgell V, et al. Changes in gait which occur before and during the adolescent growth spurt in children treated by selective dorsal rhizotomy [J]. *Gait Posture*, 2015, 42 (3) : 317-322.
- [20] Langerak NG, Tam N, Vaughan CL, et al. Gait status 17-26 years after selective dorsal rhizotomy [J]. *Gait Posture*, 2012, 35 (2) : 244-249.
- [21] Oudenhoven LM, Van derkrogt MM, Romei M, et al. Factors associated with long-term improvement of gait after selective dorsal rhizotomy [J]. *Arch Phys Med Rehabil*, 2019, 100 (3) : 474-480.
- [22] Romei M, Oudenhoven LM, Van schie PEM, et al. Evolution of gait in adolescents and young adults with spastic diplegia after selective dorsal rhizotomy in childhood: a 10 year follow-up study [J]. *Gait Posture*, 2018, 64 (1) : 108-113.

(收稿:2021-08-11 修回:2022-04-08)
(同行评议专家: 臧建成 李贵涛)
(本文编辑: 宁 桦)