

系列石膏治疗脑瘫患儿马蹄足的研究进展

瞿燕萍¹, 葛政卿¹, 陆兴华², 邓占奇², 缪芸¹

【关键词】 脑瘫; 马蹄足; 系列石膏

【中图分类号】 R49; R742.3 【DOI】 10.3870/zgkf.2019.11.013

小儿脑性瘫痪(cerebral palsy, CP),是指从出生前到出生后一个月内,由各种原因所引起的非进行性脑损伤或发育异常,所导致的中枢性运动功能障碍和姿势异常,为小儿期最主要的运动功能伤残疾病^[1]。脑瘫的临床表现可分为多个类型,其中痉挛型是最典型和常见的类型。痉挛型患儿由于长期处于高度肌紧张状态,故易发生肌腱短缩、关节挛缩变形,如跟腱短缩形成尖足,患儿行走、站立困难,走路足尖着地,呈剪刀步态,形似马蹄。

马蹄足是 CP 患儿最常见的踝足功能障碍,有调查显示在可步行的 CP 中发病率达到 61%^[2]。马蹄足是造成 CP 移动困难的最主要原因,主要表现为在没有下肢生物力学补偿机制下,患儿在站立或步行时踝关节处于跖屈位,足跟不能与支撑面接触。同时痉挛型 CP 马蹄足时常伴有足内翻,少数合并有足外翻。马蹄内翻足畸形主要表现为前足内收,踝跖屈、跟骨内翻。早期因腓肠肌的痉挛状态、踝背屈与跖屈肌群力量失衡呈现“动态马蹄足”,继发性的肌肉-肌腱单元的短缩和骨骼、关节的变化可发展成为固定的马蹄足,造成患儿站立、行走时易跌倒,能耗增加,疼痛、肌肉骨骼畸形、支具穿戴困难等问题^[3]。

早期干预可改善踝关节背屈活动范围以及功能性步行活动。其中包括手术和非手术治疗,后者包括拉伸和肌力强化训练,抗痉挛药物,注射 A 型肉毒素,以及使用踝足矫形器和系列石膏,相比手术治疗,系列石膏所带来的副作用最小。系列石膏是运用石膏或玻璃纤维将踝关节固定在关节活动度逐步增加的踝背屈位,通过持续牵伸踝跖屈肌肉-肌腱使其逐渐发生生理性适应而延长伸展,从而增加关节活动范围的方法^[3]。与传统固定石膏相比,系列石膏会在一定的时间间隔内移除和重置,每一次重置都将使踝关节置于更大的背屈角度从而逐步获得所需的关节活动范围,研究表

明系列石膏通过纠正 CP 患儿踝足畸形,延长挛缩结构,以及降低痉挛程度,对促进 CP 患儿马蹄足的功能恢复有一定作用。本文就近年来系列石膏治疗 CP 患儿马蹄足的研究进展作一综述,为此项技术的临床运用提供参考依据。

1 系列石膏矫正脑瘫患儿马蹄足的作用机制

1.1 痉挛型脑瘫适应性的骨骼肌改变 肌肉的生长与功能受神经支配,力学、内分泌、营养代谢等多因素的影响。脑瘫的脑损伤是非进展性的,但继发性的肌肉结构、功能、成分等改变随着儿童的生长发育是进展性的^[4]。首先,痉挛型 CP 患儿肌肉中的胶原纤维增多。早期研究认为痉挛型 CP 患儿因肌肉的高张力与过度活动可迅速导致肌纤维的缩短,出现适应型的肌肉-肌腱单元短缩。近年来随着研究的进一步深入,发现 CP 患儿受累肌肉的肌节长度增加,胶原纤维增多,肌卫星细胞减少。Smith 等^[5]对 CP 患儿的肌肉活检发现肌内膜内 I 型胶原蛋白含量明显增加,胶原的堆积导致胶原纤维紊乱,使肌内膜的厚度增加,认为痉挛导致的肌肉-肌腱单元的短缩是由于肌肉的细胞外基质或细胞骨架的改变。

其次,痉挛型 CP 患儿肌肉中结构也有所不同。Mathewson 等^[6]运用免疫组化研究发现,CP 患儿的肌束构成与正常儿童明显不同,肌纤维直径减小,但肌束直径无明显减小。Schless 等^[7]研究也发现 CP 患儿跖屈肌肌肉萎缩和短缩可能是因为肌纤维直径的变小有关。与早期研究不一致的是,较多研究证实,痉挛型脑瘫患儿的肌小节较正常对照组儿童延长,而肌小节的数量减少,肌卫星细胞较正常儿童减少约 40%,认为患者骨骼生长的同时不能增加新的肌小节数量而导致肌肉-肌腱单元的短缩,而不是肌小节的缩短^[8]。

痉挛型 CP 因肌小节长度较长, Z 区肌球蛋白与肌动蛋白重叠区域缩小,限制了横桥数量,影响了肌力的产生。肌肉僵硬是与痉挛不同的一种力学特性,是指被动牵伸时肌内的连接组织与细胞内结构被动活动受限。Brandenburg 等^[9]运用超声弹性成像技术检查发现痉挛型 CP 患儿腓肠肌外侧头的僵硬程度是正常

收稿日期:2018-12-25

作者单位:1. 上海交通大学附属第一人民医院,上海 200080;2. 四川北路街道社区卫生服务中心,上海 200080

作者简介:瞿燕萍(1990-),女,住院医师,主要从事骨科与神经康复方面的研究。

儿童的2倍。Lee等^[10]研究发现痉挛型CP患儿患侧腓肠肌内侧头的剪切波速度与健侧显著不同。体外活检进一步研究发现,肌肉僵硬主要来源于肌束而不是肌小节,在肌小节长度为4 μm 时,痉挛型CP患儿的肌束张力为55 kPa,而正常儿童为30 kPa,推断细胞外基质中胶原的堆积是肌肉僵硬短缩的重要力学原因^[5]。但有学者研究发现痉挛型CP患儿肌纤维的僵硬程度较正常儿童大,这可能是由于研究对象神经损伤的严重性及胶原紊乱的程度不同所致^[6]。此外,踝足骨性结构的变化也可能是导致跖屈肌短缩的重要因素^[11]。但目前力学对上述痉挛型脑瘫肌肉适应性改变的发生机制尚不明确。

1.2 系列石膏对痉挛型脑瘫踝跖屈肌肌张力的影响

系列石膏的持续牵伸对降低痉挛型CP踝跖屈肌的痉挛程度有一定的作用。痉挛状态的特征包括速度依赖性的肌张力过高,被动活动受限以及牵张反射的过度活跃。牵张反射的高反应性可能是由于脊髓水平反射回路中运动传入部分的突触前抑制的减少^[12]。踝跖屈肌的肌梭在系列石膏持续小剂量牵伸时并没有表现出敏感性的增加,这可能是由于将肌肉维持在一个延长的位置可以重新激活肌梭到一个新的长度^[13]。其次,石膏与皮肤之间的全面接触所形成的压力和适宜温度可减少触觉、本体感觉及温度觉的传入,进一步减少 α 和 γ 脊髓运动神经元的兴奋性从而降低痉挛肌肉的张力^[14]。此外,系列石膏的持续牵伸可抑制由短暂的皮肤接触而引出的原始反射如阳性支持反射,足底或手掌掌握反射^[15]。但电生理检查发现系列石膏并不能改变下行神经传导的兴奋性和肌肉共同运动的模式^[13]。

1.3 系列石膏对痉挛型脑瘫踝跖屈肌结构和功能的影响

置于关节终末活动范围的石膏会对被牵伸的组织产生一个低负荷、长时程的力,它会使被牵伸的组织发生特定的生理变化,包括结缔组织和肌肉的重塑^[16]。重塑是成纤维细胞应对物理因素的调节而形成的。当肌肉被固定在一个伸长的状态时,会增加肌节数量和长度,这会改变肌肉长度-张力的关系,并通过破坏纤维基质而延长结缔组织。而被固定在缩短状态下的肌肉则会丢失肌节,其余的肌节会适应它们的长度使肌肉在固定状态下形成最大的张力^[17-18]。牵伸的时间、对象及组织的差异会产生不同的效应。动物实验发现,幼年动物在短时间牵伸后肌肉的肌小节数量会增加,长时间牵伸后则肌腱会延长,肌小节数量会减少;成年动物不论在短时间或长时间的牵伸后,肌肉的肌小节数量均有所增加^[19]。也有研究表明系列石膏固定后CP患儿腓肠肌的肌腹和肌纤维长度均

无变化,主要延长的是跟腱长度^[20]。

2 系列石膏治疗脑瘫患儿马蹄足的效果

2.1 对踝关节活动度的作用

研究发现石膏通过引起肌肉-肌腱的适应性而改善CP患儿的踝关节背屈活动范围,延长踝关节活动度的维持时间^[21]。McNee等^[22]采用交叉实验设计比较了系列石膏固定组与无干预对照组对大于5岁的痉挛型CP患儿马蹄足的治疗效果,在治疗后第5周随访中发现系列石膏可以改善患者被动及步行中的踝关节背屈角度,但在第12周时疗效不再存在。王秋等^[23]前后对比系列石膏治疗49例1~10岁痉挛型CP马蹄足患儿的临床效果,发现系列石膏治疗可以显著降低患儿肌肉痉挛的程度,以及改善踝关节的活动度和步态。Dursun等^[24]研究发现痉挛型CP伴有马蹄足的3~17岁患儿,在接受肉毒素注射和物理治疗后增加连续3周的系列石膏治疗,相比常规肉毒素注射和物理治疗组,患儿的踝关节被动关节活动度、痉挛程度以及步态评分在治疗后4周、12周均有显著改善。Ackman等^[25]研究发现系列石膏可以明显改善3~9岁CP患儿马蹄足的被动踝关节背屈角度,在7.5个月达到高峰,而肉毒素治疗组踝关节被动背屈角度治疗后无明显增加,认为系列石膏对CP动态马蹄足效果优于肉毒素,这可能是由于研究中肉毒素的注射剂量是4U/Kg,而肉毒素的治疗效果具有剂量依赖性。多项研究表明肉毒素联合系列石膏固定对儿童CP马蹄足的踝关节背屈角度的改善优于单独的肉毒素注射^[26-28]。然而Lin等^[29]研究表明肉毒素联合系列石膏与单独系列石膏固定对3~11岁的CP患儿马蹄足的踝关节背屈角度的改善无明显差异。Kay等^[30]研究发现对于已经短缩固定的4~14岁CP患儿马蹄足,肉毒素联合系列石膏治疗并没有减少需要石膏固定的次数,而且单独系列石膏治疗对腓肠肌痉挛的减轻与踝关节背屈角度的维持时间的改善更为显著,认为可能是因为研究对象是短缩固定型的脑瘫马蹄足而不是动态马蹄足,因此肌肉的结构有所不同,导致治疗反应的不同。但笔者建议对于痉挛程度较高且伴有跟腱短缩的患儿,联合肉毒素治疗以增加其对系列石膏的耐受。

2.2 对腓肠肌痉挛状态的影响

Ackman等^[25]研究发现系列石膏固定与A型肉毒素注射对腓肠肌的痉挛状态的改善无明显差异。Park等^[27]研究表明A型肉毒素注射后进行系列石膏固定较单独肉毒素注射可显著减轻CP患儿跖屈肌群的痉挛状态。Peeters等^[20]通过三维超声比较小腿石膏固定和腓肠肌肉毒素注射治疗对痉挛型CP患儿腓肠肌长度、肌肉-肌腱

单元的影响,石膏固定组接受2周的石膏固定,对照组进行常规肉毒素注射,治疗后石膏固定组患儿腓肠肌的肌肉-肌腱单元和肌腱长度在踝关节最大背屈位显著增加,而肉毒素治疗组患儿仅在静息状态下肌肉肌腱单元和肌肉长度显著增加,表明石膏固定可增加肌腱的顺应性,而肉毒素注射仅改善肌肉的静息长度,建议运用上述2种方案联合治疗痉挛型马蹄足。Hayek等^[26]研究认为肉毒素注射后联合系列石膏固定与单独的肉毒素注射对CP患儿腓肠肌肌张力的作用无明显差异。此外,肉毒素注射联合石膏固定与单独石膏固定对腓肠肌痉挛状态影响的研究结果也有不一致^[25, 30]。研究结果的不同可能与肉毒素注射后石膏固定介入的时间、固定方法等有关。Newman等^[31]研究发现注射后延迟石膏固定比立刻石膏固定能更加显著地降低跖屈肌的痉挛程度,推测可能是因为肉毒素与神经肌肉接头的结合有赖于肌肉的活动,注射后立即进行石膏固定限制了肌肉的活动,可能影响了药物作用的发挥。

2.3 对步行功能的影响 McNee等^[22]运用三维步态分析比较发现,系列石膏可以短期增加单腿支撑相、摆动相踝关节的背屈角度,减少单腿支撑相的时间,但在12周时疗效不再维持,而步频、步速和跨步长在治疗后随访的所有时间节点均无变化。Lee等^[28]比较发现肉毒素联合系列石膏固定组和单独肉毒素治疗组患者的步态观察量表评分是等效的。然而Hayek等^[26]发现肉毒素联合石膏固定组CP患者的步态参数和运动控制以及观察步态评分显著高于单独肉毒素治疗组。究其原因,与两者采用的评分量表不同有关。此外,两者采用的系列石膏在肉毒素治疗后的干预时间以及评估疗效的时间也有不同。Park等^[27]报道,与单独肉毒素治疗相比,肉毒素联合石膏治疗对患者GM-FM-66的D区即站立功能有显著改善,2种治疗方案对患者GMFM-66的E区即步行功能均无改善。Hayek等^[26]的研究证明上述2种治疗方案对脑瘫患者GMFM-66的E区步行功能评分均有改善,且改善程度是相等的。研究结果的不一致可能是因研究对象治疗前的功能状态和方法的不同。

3 系列石膏治疗脑瘫患儿马蹄足的临床应用

众多研究表明系列石膏治疗CP患儿马蹄足应尽早开始,通常在移除系列石膏后几天,在受限的踝关节活动度进一步伸展后再次使用石膏固定,重复该过程直至获得全关节活动范围或不再取得进步^[32]。应用系列石膏的注意事项:皮肤的完整性或有无小伤口;皮肤肿胀;感觉减退;认知障碍;情绪激动。应用系列石

膏的禁忌症:未控制的高血压;有开放性损伤;有外固定器或未愈合的骨折;最近出现的自主神经反射异常;血运循环不良;急性炎症。

4 问题与展望

综上所述,系列石膏是治疗CP患儿马蹄足的一种简单、无创、安全且有效的措施。但是,系列石膏固定也有其不足之处,主要是长时间的牵伸压迫可能会引起跟腱、踝前部以及其他骨突部位的疼痛、压力溃疡、热损伤、皮肤感染和皮炎等^[33]。因此需要熟练使用该项技术的临床医生和治疗师进行操作,并对患者家长或护理人员进行相关临床宣教,告知固定后的注意事项,以避免各种并发症的产生。

系列石膏单独或联合治疗因研究对象、介入时间、使用剂量、评估方法与时间节点的选择等不同而结果不同,需要设计合理的研究方案来明确单独或联合治疗的效果。未来的研究需要多中心、大样本随机对照实验,并在ICF框架下评估临床数据的改善是否对患者功能具有改善作用,如在家庭、学校或社区的日常生活活动能力。远期疗效需要评估重复治疗的累积效应,更多地了解系列石膏或者联合治疗对儿童脑瘫肌肉的结构与功能的影响,并考虑经济费用、技术可及性、家庭意愿等因素,利于我们选择恰当、合理的治疗方案。

【参考文献】

- [1] Karamitopoulos M S, Nirenstein L. Neuromuscular Foot: Spastic Cerebral Palsy[J]. Foot & Ankle Clinics, 2015, 20(4):657-668.
- [2] Tustin K, Patel A. A Critical Evaluation of the Updated Evidence for Casting for Equinus Deformity in Children with Cerebral Palsy [J]. Physiother Res Int, 2017, 22(1):e1646.
- [3] Kedem P, Scher D M. Foot deformities in children with cerebral palsy[J]. Curr Opin Pediatr, 2015, 27(1):67-74.
- [4] Tisha A L, Armstrong A A, Wagoner J A, et al. Skeletal Muscle Adaptations and Passive Muscle Stiffness in Cerebral Palsy: A Literature Review and Conceptual Model[J]. J Appl Biomech, 2018, 35(1):1-37.
- [5] Smith L R, Lee K S, Ward S R, et al. Hamstring contractures in children with spastic cerebral palsy result from a stiffer extracellular matrix and increased in vivo sarcomere length[J]. Journal of Physiology, 2011, 589(10):2625-2639.
- [6] Mathewson M, Ward S, Chambers H, et al. High resolution muscle measurements provide insights into equinus contractures in patients with cerebral palsy[J]. Journal of Orthopaedic Research Official Publication of the Orthopaedic Research Society, 2015, 33(1):33-39.
- [7] Schless S H, Hanssen B, Cenni F, et al. Estimating medial gas-

- trocnemius muscle volume in children with spastic cerebral palsy: a cross-sectional investigation[J]. *Dev Med Child Neurol*, 2018, 60(1):81-87.
- [8] Kinney M C, Sudarshan Dayanidhi P T, Dykstra P B, et al. Reduced skeletal muscle satellite cell number alters muscle morphology after chronic stretch but allows limited serial sarcomere addition[J]. *Muscle & Nerve*, 2017, 55(3):384-392.
- [9] Brandenburg J E, Eby S F, Song P, et al. Quantifying Passive Muscle Stiffness in Children with and without Cerebral Palsy Using Ultrasound Shear Wave Elastography[J]. *Developmental Medicine & Child Neurology*, 2016, 58(12):1288-1294.
- [10] Lee S S M, Gaeblerpira D, Zhang L Q, et al. Use of shear wave ultrasound elastography to quantify muscle properties in cerebral palsy. [J]. *Clinical Biomechanics*, 2016, 31(2015):20-28.
- [11] Tsang S, Memorran D, Robinson L, et al. A cohort study of tibialis anterior tendon shortening in combination with calf muscle lengthening in spastic equinus in cerebral palsy[J]. *Gait Posture*, 2016, 50(2016):23-27.
- [12] Trompetto C, Marinelli L, Mori L, et al. Pathophysiology of spasticity: Implications for neurorehabilitation[J]. *Biomed Res Int*, 2014, 2014(2014):354906-354906.
- [13] Nahm N J, Graham H K, Gormley M J, et al. Management of hypertonia in cerebral palsy[J]. *Curr Opin Pediatr*, 2018, 30(1):57-64.
- [14] D'Amico J M, Li Y, Bennett D J, et al. Reduction of spinal sensory transmission by facilitation of 5-HT1B/D receptors in noninjured and spinal cord-injured humans[J]. *J Neurophysiol*, 2013, 109(6):1485-1493.
- [15] Logan L R. Rehabilitation techniques to maximize spasticity management[J]. *Top Stroke Rehabil*, 2011, 18(3):203-211.
- [16] Dai A I, Demiryurek A T. Serial Casting as an Adjunct to Botulinum Toxin Type A Treatment in Children With Cerebral Palsy and Spastic Paraparesis With Scissoring of the Lower Extremities [J]. *J Child Neurol*, 2017, 32(7):671-675.
- [17] Honda Y, Tanaka M, Tanaka N, et al. Relationship between extensibility and collagen expression in immobilized rat skeletal muscle[J]. *Muscle Nerve*, 2018, 57(4):672-678.
- [18] Okita M, Yoshimura T, Nakano J, et al. Effects of reduced joint mobility on sarcomere length, collagen fibril arrangement in the endomysium, and hyaluronan in rat soleus muscle[J]. *J Muscle Res Cell Motil*, 2004, 25(2):159-166.
- [19] Shortland A P, Harris C A, Gough M, et al. Architecture of the medial gastrocnemius in children with spastic diplegia[J]. *Dev Med Child Neurol*, 2002, 44(3):158-163.
- [20] Peeters N, Hanssen B, Cenni F, et al. O 019 - Do Botulinum Toxin-A and lower leg casting alter calf muscle and tendon lengths in children with spastic cerebral palsy[J]. *Gait Posture*, 2018, 65:36-38.
- [21] Martin L T, Rocon E, Martinez C I, et al. Prolonged stretching of the ankle plantarflexors elicits muscle-tendon adaptations relevant to ankle gait kinetics in children with spastic cerebral palsy [J]. *Med Hypotheses*, 2017, 109(2017):65-69.
- [22] Mcnee A E, Will E, Lin J P, et al. The effect of serial casting on gait in children with cerebral palsy: preliminary results from a crossover trial[J]. *Gait Posture*, 2007, 25(3):463-468.
- [23] 王秋, 罗蓉, 李娜, 等. 系列石膏治疗痉挛型脑瘫患儿马蹄足 49 例临床分析[J]. *四川医学*, 2010, 31(3):301-302.
- [24] Dursun N, Gokbel T, Akarsu M, et al. Randomized Controlled Trial on Effectiveness of Intermittent Serial Casting on Spastic Equinus Foot in Children with Cerebral Palsy After Botulinum Toxin-A Treatment[J]. *Am J Phys Med Rehabil*, 2017, 96(4):221-225.
- [25] Ackman J D, Russman B S, Thomas S S, et al. Comparing botulinum toxin A with casting for treatment of dynamic equinus in children with cerebral palsy[J]. *Dev Med Child Neurol*, 2005, 47(9):620-627.
- [26] Hayek S, Gershon A, Wientroub S, et al. The effect of injections of botulinum toxin type A combined with casting on the equinus gait of children with cerebral palsy[J]. *J Bone Joint Surg Br*, 2010, 92(8):1152-1159.
- [27] Park E S, Rha D W, Yoo J K, et al. Short-term effects of combined serial casting and botulinum toxin injection for spastic equinus in ambulatory children with cerebral palsy[J]. *Yonsei Med J*, 2010, 51(4):579-584.
- [28] Lee S J, Sung I Y, Jang D H, et al. The effect and complication of botulinum toxin type a injection with serial casting for the treatment of spastic equinus foot[J]. *Ann Rehabil Med*, 2011, 35(3):344-353.
- [29] Lin J P. Efficacy of botulinum toxin A, serial casting, and combined treatment for spastic equinus: a retrospective analysis[J]. *Dev Med Child Neurol*, 2005, 47(9):635-635.
- [30] Kay R M, Rethlefsen S A, Fern-Buneo A, et al. Botulinum toxin as an adjunct to serial casting treatment in children with cerebral palsy[J]. *J Bone Joint Surg Am*, 2004, 86-A(11):2377-2384.
- [31] Newman C J, Kennedy A, Walsh M, et al. A pilot study of delayed versus immediate serial casting after botulinum toxin injection for partially reducible spastic equinus[J]. *J Pediatr Orthop*, 2007, 27(8):882-885.
- [32] Stoeckmann T. Casting for the person with spasticity [J]. *Top Stroke Rehabil*, 2001, 8(1):27-35.
- [33] Halanski M A. How to Avoid Cast Saw Complications[J]. *J Pediatr Orthop*, 2016, 36:S1-S5.

本刊办刊方向:

立足现实 关注前沿 贴近读者 追求卓越