

# VU Research Portal

## Measuring motor outcome in childhood

van Schie, P.E.M.

2008

### **document version**

Publisher's PDF, also known as Version of record

[Link to publication in VU Research Portal](#)

### **citation for published version (APA)**

van Schie, P. E. M. (2008). *Measuring motor outcome in childhood: prognosis and evaluation*. [PhD-Thesis - Research and graduation internal, Vrije Universiteit Amsterdam].

### **General rights**

Copyright and moral rights for the publications made accessible in the public portal are retained by the authors and/or other copyright owners and it is a condition of accessing publications that users recognise and abide by the legal requirements associated with these rights.

- Users may download and print one copy of any publication from the public portal for the purpose of private study or research.
- You may not further distribute the material or use it for any profit-making activity or commercial gain
- You may freely distribute the URL identifying the publication in the public portal

### **Take down policy**

If you believe that this document breaches copyright please contact us providing details, and we will remove access to the work immediately and investigate your claim.

### **E-mail address:**

[vuresearchportal.ub@vu.nl](mailto:vuresearchportal.ub@vu.nl)



# Het meten van motoriek bij kinderen: prognose en evaluatie

## Samenvatting

Hoe een kind zich op lange termijn gaat ontwikkelen is altijd een boeiende zaak, maar met name als het kind geboren is na problemen tijdens de zwangerschap of bevalling, of als het kind behandeld wordt met een relatief nieuwe interventie.

Dit proefschrift beschrijft de resultaten van onderzoeken die zich concentreren op de motorische uitkomst van drie verschillende cohorten kinderen: 1) kinderen die vrijwel allemaal te vroeg geboren zijn en die te licht zijn voor hun zwangerschapsduur, en wiens moeder ernstige vroege hypertensieve aandoeningen in de zwangerschap ('zwangerschapsvergiftiging') had; 2) op tijd geboren kinderen met hypoxisch-ischemische encephalopathie (HIE) door zuurstoftekort tijdens de bevalling; en 3) kinderen met cerebrale parese (CP) die behandeld werden met Selectieve Dorsale Rhizotomie (SDR).

De belangrijkste doelen van dit proefschrift zijn om de motorische uitkomst te beschrijven van jonge kinderen met een verhoogd risico op ontwikkelingsproblemen en van kinderen na een specifieke interventie, en dan met name op het gebied van activiteiten. Daarnaast wordt van de meetinstrumenten die het meest gebruikt worden tijdens de kinderjaren de predictieve waarde voor het voorspellen van de toekomstige motorische uitkomst onderzocht.

**Hoofdstuk 1**, de Introductie, beschrijft de doelen en de opbouw van het proefschrift. In dit hoofdstuk wordt de International Classification of Functioning, Disability and Health for Children and Youth (ICF-CY) geïntroduceerd. Tevens worden de 'normale' motorische ontwikkeling en zaken rond het meten van motoriek bediscussieerd. Daarnaast geeft dit hoofdstuk achtergrondinformatie over de aandoeningen van de bestudeerde groepen kinderen (HIE en CP) en over de SDR-behandeling. Daarna volgt een korte samenvatting van de motoriektesten die gangbaar zijn in de klinische kinderfysiotherapeutische praktijk om motoriek bij kinderen te meten.

**Hoofdstuk 2** beschrijft een onderzoek naar de motorische uitkomst van 175 kinderen op de leeftijd van 0, 3 en 12 maanden. Het doel van de studie was om General Movements (GMs) op de uitgerekende datum en de gecorrigeerde leeftijd van drie maanden te beschrijven, en hun relatie met de uitkomsten van neurologisch onderzoek op dezelfde leeftijden. Tevens werd de predictieve waarde van GMs op de gecorrigeerde leeftijd van drie maanden voor de motorische uitkomst op de gecorrigeerde leeftijd van één jaar geëvalueerd. De meeste kinderen waren te vroeg geboren en te licht voor hun zwangerschapsduur, en hun moeders hadden ernstige vroege hypertensieve aandoeningen in de zwangerschap. Deze prospectieve studie maakte deel uit van de gerandomiseerde gecontroleerde trial van behandeling van ernstige vroege hypertensieve aandoening in de zwangerschap, de PETRA-studie (Pre-eclampsie Eclampsie TRial Amsterdam), uitgevoerd in een samenwerking tussen de afdelingen Obstetrie en Gynaecologie van het Amsterdam Medisch Centrum (AMC) en het VU medisch centrum (VUmc). De prevalentie van normale, licht afwijkende en duidelijk afwijkende GMs werd onderzocht, evenals het resultaat van het neurologisch onderzoek op de a terme leeftijd en de gecorrigeerde leeftijd van drie maanden. Daarnaast werd de associatie van GMs met de ontwikkeling op één jaar, gemeten met de motorische en mentale schalen van de tweede versie van de Bayley Scales of Infant Development (BSID-II) onderzocht. Er werd een verband gevonden tussen GMs en het resultaat van het neurologisch onderzoek op de a terme leeftijd, maar niet op de gecorrigeerde leeftijd van drie maanden. GMs geobserveerd op de leeftijd van drie maanden vertoonden geen samenhang met abnormaal neurologisch onderzoek op de leeftijd van één jaar, maar wel met een vertraagde motorische ontwikkeling op één jaar. Het neurologisch onderzoek op de leeftijd

van drie maanden vertoonde samenhang met de motorische ontwikkeling op één jaar, maar er was geen relatie met het neurologisch onderzoek of de mentale ontwikkeling op één jaar. Hoewel de literatuur suggereert dat de GMs op drie maanden bruikbaar zijn voor de predictie van een slechte neurologische uitkomst bij kinderen met een hoog risico op ontwikkelingsproblemen, concludeerden wij dat onze studieresultaten deze bevindingen niet konden bevestigen. De beoordeling van GMs kan bruikbaar zijn bij het onderzoek van kinderen met een hoog risico op ontwikkelingsproblemen, maar zal bij voorkeur gecombineerd moeten worden met andere onderzoeksmethoden, zoals het neurologisch onderzoek.

In **hoofdstuk 3** werd de motorische uitkomst op de leeftijd van één jaar van een cohort van 32 overlevende kinderen die a terme geboren waren met perinatale HIE onderzocht. De motorische uitkomst werd gemeten met de Alberta Infant Motor Scale (AIMS), de motorische schaal van de BSID-II en een neurologisch onderzoek (Neurological Optimality Score; NOS). De relaties tussen enerzijds de motorische testen (AIMS en motorische schaal van de BSID-II) en het neurologisch onderzoek op één jaar, en anderzijds de relatie tussen de uitkomst van deze testen en de neonatale Magnetic Resonance Imaging (MRI)-bevindingen werden bestudeerd.

We vonden dat de AIMS en de BSID-II in ongeveer 75% van de kinderen overeen kwamen in hun classificatie van een normale, licht vertraagde of duidelijk vertraagde motorische ontwikkeling op een jaar. Alle kinderen met een normale motorische uitkomst hadden een (bijna) optimale NOS, maar niet alle kinderen met een hoge NOS hadden een normale motorische uitkomst. Kinderen met een normale neonatale MRI hadden een normale of licht vertraagde motorische ontwikkeling op één jaar, maar de kinderen met afwijkingen op de MRI hadden variabele motorische uitkomsten op één jaar. We concludeerden dat de classificatie van de motorische uitkomst op basis van de twee motorische testen bij de meerderheid van de kinderen overeen kwam. Een normale MRI is een goede voorspeller voor een normale of licht vertraagde motorische ontwikkeling, maar afwijkingen op de MRI konden de motorische uitkomst op één jaar niet voorspellen. In het verlengde van deze bevindingen adviseren wij om een combinatie van een motorische test en het neurologisch onderzoek te gebruiken om de uitkomst na HIE vast te stellen. Echter, het moet duidelijk zijn dat deze testen verschillende onderliggende constructen meten.

In **hoofdstuk 4** worden de motorische en mentale uitkomst op de leeftijd van twee jaar van ons cohort van 32 kinderen met HIE beschreven. We onderzochten de additionele predictieve waarde van de verschillende testen (AIMS, motorische schaal van de BSID-II en NOS) op de leeftijd van één jaar, bovenop de voorspelling die gebaseerd is op neonatale Sarnat- en MRI-classificaties, voor zowel de motorische als de mentale uitkomst (gemeten met de BSID-II) op twee jaar. We vonden dat alle kinderen met Sarnat I een goede motorische uitkomst hadden, maar 14% had een slechte mentale uitkomst. Ook alle kinderen met een normale MRI had een goede motorische uitkomst, hoewel 9% van deze groep een slechte mentale uitkomst had. Van de kinderen met Sarnat II en met afwijkingen op de neonatale MRI was de uitkomst variabel; ongeveer 50% had een normale motorische uitkomst. Een Sarnat I-classificatie en een normale neonatale MRI zijn goede predictoren voor een normale of slechts licht vertraagde motorische uitkomst. Voor kinderen met Sarnat II en afwijkingen op de MRI verbetert een motoriektest op de leeftijd van één jaar de accuratesse van voorspellen van de motorische en mentale uitkomst op twee jaar. Onze conclusie is dat het testen van de motoriek op de leeftijd van één jaar helpt bij het voorspellen van een slechte motorische uitkomst op twee jaar. Toch

is lange termijn follow-up van deze kinderen nodig om vast te stellen hoe zij zich over een langere periode ontwikkelen, daar een aantal studies suggereren dat zelfs kinderen met een goede uitkomst op twee jaar lichte neurologische disfuncties of cognitieve problemen kunnen ontwikkelen op latere leeftijd.

In **hoofdstuk 5** worden de effecten van SDR geëvalueerd op de grove motoriek, de zelfverzorging in het dagelijks leven en de kwaliteit van het looppatroon in een duidelijk gedefinieerde groep van negen lopende kinderen met spastische diplegie. Deze kinderen waren de eersten die in Nederland een SDR ondergingen, en zij werden uitgebreid gevolgd gedurende het eerste jaar na de operatie. Uitkomsten werden gemeten op de verschillende niveaus van het ICF-CY. De grove motoriek werd elke twee maanden gemeten met de Gross Motor Function Measure (GMFM-88) vanaf 4 maanden voor de operatie tot een jaar na de SDR. De mate van zelfverzorging werd vastgelegd met behulp van de Pediatric Evaluation of Disability Inventory (PEDI), en de kwaliteit van het looppatroon werd gescoord met behulp van de Edinburgh Visual Gait Score (EGS), zowel op baseline als één jaar na de SDR.

We vonden een significante verbetering van de gemiddelde totaalscore van de GMFM-88 tussen de baseline en één jaar na SDR, hetgeen een verbetering in grove motoriek aanduidt. Deze resultaten waren vergelijkbaar met de effecten zoals die beschreven zijn in de literatuur. Gebruikmakend van een single-subject onderzoeksdesign, met herhaalde metingen over de tijd, toonden individuele grafieken een significante verandering in GMFM-88-score na de SDR vergeleken met de baselinemetingen. Deze bevindingen werden bevestigd door within-subject analyses met C-statistics. De gehele groep liet een significante verbetering zien voor functionele vaardigheden en verzorgerassistentie voor zelfverzorging, gemeten met de PEDI. Daarnaast werd een verbetering in de kwaliteit van het looppatroon gevonden, in het bijzonder betreffende initial contact en heel-lift, hetgeen resulteerde in een 'normalere' EGS. We concludeerden dat SDR in deze duidelijk omschreven groep van lopende kinderen een klein maar significant positief effect heeft op zowel de grove motoriek, de zelfverzorging als de kwaliteit van het looppatroon.

In **hoofdstuk 6** werden zowel de korte termijn- (1 jaar) als lange termijneffecten (3-8 jaar) van SDR in alle 33 lopende kinderen met spastische diplegie die een SDR hebben ondergaan in Nederland geëvalueerd. De grove motoriek werd gemeten met behulp van het Gross Motor Function Classification System (GMFCS) en de GMFM-66. Spasticiteit werd onderzocht met behulp van een gemodificeerde Tardieuschaal. Informatie over bijkomende behandelingen na SDR en de mening van de ouders over de verbetering van het functioneren van hun kind werd verzameld door middel van vragenlijsten. We vonden dat zowel op korte (1 jaar) als lange termijn (gemiddeld 6 jaar) de gemiddelde GMFM-66 score na SDR significant verbeterde ten opzichte van de baseline, hetgeen wijst op een verbetering van de grove motoriek. De meeste kinderen functioneerden echter in hetzelfde GMFCS-niveau op zowel korte als lange termijn. Op de korte termijn verbeterden kinderen in GMFCS-niveau I-II significant meer op de GMFM-66 dan kinderen in GMFCS-niveau III. Op de lange termijn was er geen verschil tussen de gemiddelde vooruitgang op GMFM-66 tussen de kinderen in GMFCS-niveau I-II en III. Om de vooruitgang in grove motoriek te vergelijken met de 'natuurlijke ontwikkeling' van kinderen met CP werd gebruik gemaakt van de onlangs gepubliceerde referentie-percentielscores. Het is bekend dat de kans op een verandering van meer dan 20 percentielen in één jaar voor een kind met CP 20% is. Wanneer de individuele percentielscores van de kinderen binnen hun

GMFCS-niveau werden vergeleken, bleek dat 29% van de kinderen meer dan 20 percentielen verbeterde tussen baseline en de meting op 1 jaar na SDR. Op de lange termijn verbeterde 43% van de kinderen meer dan 20 percentielen. We beschouwen het effect van SDR dan ook als een verbetering ten opzichte van de verwachte natuurlijke ontwikkeling van grove motoriek in een subgroep van kinderen met CP, en met name op de lange termijn.

Spasticiteit was verdwenen bij de meerderheid, maar niet bij alle kinderen, en er werd geen terugkeer van spasticiteit gevonden op de lange termijn. Ongeveer één derde van de kinderen, voornamelijk kinderen in GMFCS-niveau III, onderging orthopedische chirurgie na SDR, met name operaties om de voet te stabiliseren. Ongeveer 40% van de kinderen, vooral kinderen in GMFCS-niveau III, werd behandeld met Botuline toxine-A injecties na SDR.

Wij concludeerden dat SDR resulteert in kleine korte termijnverbeteringen, in het bijzonder bij kinderen met GMFCS-niveau I-II. Op de lange termijn toont ongeveer 40% van de kinderen verbeteringen in het grof-motorisch functioneren die beschouwd kunnen worden als boven de verwachting gebaseerd op de percentielscores van hun individuele motorische groeicurve.

Ongeveer 50% van de kinderen werd behandeld door middel van chirurgie of Botuline toxine-A. Dit suggereert dat de uiteindelijke conclusies over de effectiviteit van SDR pas getrokken kunnen worden als het kind volwassen is.

In **hoofdstuk 7** werden de belangrijkste bevindingen van dit proefschrift bediscussieerd, werden suggesties gedaan voor toekomstig onderzoek, en implicaties voor de klinische praktijk geformuleerd.

Aanbevolen wordt om in toekomstig onderzoek meer kennis te verwerven over de eigenschappen van motorische testen, vooral over hun prognostische waarde, en om adequate normen te ontwikkelen. Een langere follow-up van kinderen met een verhoogd risico op ontwikkelingsproblemen is nodig, niet alleen voor wetenschappelijke doeleinden, maar ook om eventuele hulpverlening tijdig te kunnen starten. Een langere follow-up van kinderen die een SDR hebben ondergaan is noodzakelijk, vooral omdat de lange termijneffecten van deze operatie nog grotendeels onbekend zijn. Cohortonderzoeken naar de lange termijneffecten zouden ook moeten focussen op het identificeren van de meest geschikte kandidaten voor SDR.

Aanbevelingen voor de klinische praktijk betreffen de lange termijn follow-up van kinderen met een verhoogd risico op ontwikkelingsproblemen en na SDR, met bij voorkeur een vaststaande combinatie van meetinstrumenten waarover consensus in Nederland bestaat. Het gebruik van de GMFM-66 en GMFCS, inclusief motorische groeicurves en percentielscores, wordt aanbevolen aan alle klinici die werken met kinderen met CP in multidisciplinaire teams. Kinderfysiotherapeuten kunnen met hun kennis en vaardigheden een belangrijke rol spelen in de (mede-) diagnostiek en behandeling van kinderen met CP in multidisciplinaire revalidatieteams.

