



# Förekomst av ledrörlighetsinskränkning och höftledslateralisering hos barn med cerebral pares - tidig respektive sen registrering i CPUP

En registerstudie

Marita Västerbo

Institutionen för Samhällsmedicin och rehabilitering  
Fysioterapi  
Ht 2014 – Ht 2016  
Examensarbete 30 hp



**UMEÅ UNIVERSITET**

Institutionen för samhällsmedicin och rehabilitering  
Fysioterapi

**Examensarbete**

**30 hp**

Magisterprogrammet i sjukgymnastik/fysioterapi 60 hp/ Masterprogrammet i fysioterapi 120 hp

<b>Förekomst av ledrörlighetsinskränkning och höftledslateralisering hos barn med cerebral pares - tidig respektive sen registrering i CPUP</b> -En registerstudie	<b>År:</b> 2016
<b>Författare:</b> Marita Västerbo marita.vasterbo@gmail.com	<b>Handledare:</b> Birgit Enberg, Med dr Leg. Sjukgymnast Institutionen för Samhällsmedicin och rehabilitering, Umeå universitet <a href="mailto:birgit.enberg@umu.se">birgit.enberg@umu.se</a>  Lena Ekström-Ahl, MSc Leg. Sjukgymnast, Specialist pediatrik Habilitering och Hälsa, Uppsala <a href="mailto:lena.ekstrom.ahl@lul.se">lena.ekstrom.ahl@lul.se</a>
<b>Nyckelord:</b> cerebral pares, CPUP, ledrörlighet, höftledslateralisering, GMFCS	
<b>Sammanfattning:</b> <b>Syfte:</b> Syftet med studien var att undersöka eventuella skillnader mellan två grupper av barn med cerebral pares (CP) på GMFCS-nivå III-V, med avseende på ledrörlighetsinskränkning och höftledslateralisering. Grupp 1 har senast, sedan 3 års ålder följts enligt ett uppföljningsprogram för cerebral pares (CPUP) samt fått tidiga insatser. Grupp 2 har tidigast från 6 års ålder haft tillgång till samma uppföljning och insatser. <b>Bakgrund:</b> I Barn- och ungdomshabiliteringens regi följs barn med CP systematiskt enligt CPUP vars syfte är att, genom systematisk röntgenologisk och klinisk uppföljning, i kombination med tidiga insatser, begränsa ledrörlighetsinskränkning och höftledslateralisering. Barn som anländer efter 6 års ålder till Sverige har inte haft tillgång till samma insatser under förskoleåldern. <b>Metod:</b> Tvärsnittsstudien innefattade totalt 313 barn från hela Sverige med CP, GMFCS-nivå: III-V, med uppgifter inregistrerade då barnen var 8 alternativt 7 år. Två grupper jämfördes med varandra, grupp 1 (n=264) bestod av barn som registerats från 3 år eller tidigare och grupp 2 (n=49) bestod av barn som registerats från 6 år eller senare. Utvärderingsvariablerna var passiv ledrörlighet i nedre extremitet samt graden av höftledens lateralisering, angivet i migrationsprocent (MP). <b>Resultat:</b> Resultatet visade på signifikant bättre rörlighet i höftabduktion för grupp 2. Vid jämförelse av, enligt CPUP, fastställda gränsvärden hade barnen på GMFCS-nivå IV-V i grupp 2 signifikant mer allvarliga ledrörlighetsinskränkningar med avseende på knäextension, hamstringsvinkel och dorsalflexion. <b>Slutsats:</b> Resultatet visade att barn med CP (7-8 år, GMFCS IV-V) som tidigt följts enligt CPUP och fått tidiga insatser hade mindre andel allvarliga ledrörlighetsinskränkningar med avseende på passiv rörlighet i nedre extremitet. Ett stort bortfall av inrapporterad röntgen för grupp 2 gör det svårt att dra några slutsatser av variabeln höftledslateralisering.	



Master Programme in Physiotherapy 60 credits /120 credits

<b>Title: Hip displacement and decreasing range of joint motion in children with cerebral palsy - early or late registration in CPUP</b>		<b>Year: 2016</b>
<b>Author:</b> Marita Västerbo marita.vasterbo@gmail.com	<b>Tutor:</b> Birgit Enberg, PhD, PT Department of community medicine and rehabilitation, Physiotherapy, University of Umeå birgit.enberg@umu.se  Lena Ekström-Ahl, MSc, PT PCS Habilitering och Hälsa, Uppsala lena.ekstrom.ahl@lul.se	
<b>Keywords:</b> cerebral palsy, CPUP, lower limb range of motion, hip displacement, hip dislocation, GMFCS		
<p><b>Aims:</b> The purpose of the study was to investigate differences between two groups of children with cerebral palsy (CP) on GMFCS level III-V, according to decreasing range of joint motion and hip displacement. The children in group 1 have, since the age of 3 years been included in a follow-up program for persons with CP (CPUP). They have also received early intervention from Swedish healthcare. Group 2 has earliest from the age of 6 had access to the same follow-up and interventions.</p> <p><b>Background:</b> The Swedish healthcare follow children with CP systematically according to CPUP whose purpose is to, through systematic radiographic and clinical follow-up, combined with early intervention, limiting decreasing range of motion and hip displacement.</p> <p><b>Methods:</b> This cross-sectional study included 313 children from all over Sweden with CP, GMFCS level: III-V, with data registered when the children were 8 or alternatively 7 years. Group 1 (n=264) consisted of children followed from 3 years or earlier and group 2 (n=49) consisted of children who had the same interventions earliest from 6 years of age. Evaluation variables were joint mobility in the lower extremity and the level of the hip displacement, given the migration percentage (MP).</p> <p><b>Results:</b> The results showed significantly better hip abduction for group 2. When comparing, according CPUP, set alarm values the children on GMFCS level IV-V in group 2 had significantly more serious decreasing range of joint motion with respect to kneextension, poplitea angel and dorsiflexion.</p> <p><b>Conclusion:</b> The results showed that children with CP (7-8 years, GMFCS IV-V) who early had been included in CPUP and received early intervention had less serious contractures according to range of motion of the lower extremity. A big drop in reported radiology for group 2 makes it difficult to draw any conclusions of the variable hip lateralization.</p>		

## Introduktion

### Cerebral pares

Cerebral pares (CP) är en paraplydiagnos och definieras som en störningar av motorik och balans, orsakad av en icke-progressiv skada på den omogna hjärnan. Skadan orsakar aktivitetsbegränsningar, och de motoriska svårigheterna är ofta kombinerade med nedsatt perception, kognition, sensorik och kommunikation samt epilepsi och beteendestörningar (1). Prevalensen i Europa varierar mellan 1,7 och 2,4/1 000 levande födda, enligt det europeiska registret för CP (SCPE), och det svenska uppföljningsprogrammet (CPUP) (2-4). Eftersom CP är en paraplydiagnos delas diagnosgruppen upp i olika subtyper som beskriver symptom och utbredning; spastisk-uni- eller bilateral form, ataktisk eller dyskinetisk form och fastställs vid 4-5 års-ålder (4, 5).

#### *Gross Motor Classification System-Expanded & Revised (GMFCS E&R)*

Gross Motor Classification System (GMFCS) är ett klassifikationssystem i fem olika nivåer som beskriver grovmotorisk förmåga hos barn och ungdomar med CP. Tonvikten ligger på förmågan att sitta, stå och förflytta sig samt om det finns behov av hjälpmedel. Den reviderade versionen från 2007 (GMFCS E&R) består av 5 åldersintervaller i åldrarna 2 till 18 år (6, 7). De är beskrivna så att det är en tydlig och meningsfull gräns mellan de olika nivåerna. Barn på nivå I går självständigt utan handhållna hjälpmedel och lär sig att hoppa och springa, dock med begränsningar i jämförelse med jämnåriga barn utan funktionsnedsättning. Barn på nivå II går självständigt, men med större svårigheter att lära sig hoppa och springa. Barn på nivå III behöver ett handhållet gånghjälpmedel och har ett större behov av rullstol vid förflyttningar utomhus. Barn på nivå IV transporteras i manuell rullstol eller kör elrullstol. Barn på nivå V har begränsad förmåga till bålbalans och huvudkontroll och har ett stort hjälpbehov (6). Eftersom det är svårt att definiera och särskilja utbredning av funktionsnedsättningen på basis av CP subtyp rekommenderar SCPE att graden av funktionsnedsättning beskrivs med GMFCS (3). Det visar sig också vara mer relevant att använda GMFCS i relation till risk för höftledsluxation än att bedöma sannolikheten för höftledsluxation utifrån de olika undergrupperna till CP (8).

### *Sekundära symptom vid Cerebral pares*

Enligt definition av CP leder symptomen till aktivitetsbegränsningar vilket bland annat orsakas av inskränkt ledrörlighet och sekundära felställningar (1). En form av felställning är höftledslateralisering, ett tillstånd som ofta är förenat med smärta, windsweptdeformitet (assymetrisk rotation av bäcken och höfter) och möjlig skolios-utveckling för det drabbade barnet (9, 10). För att mäta graden av lateralisering av caputs femoris används migrationsprocent (MP) som den viktigaste parametern för bedömning caputs täckning av acetabelum (11). Flera studier har visat att en begynnande lateralisering av caput har den högsta indicen i tidig ålder, med ökad risk ju högre GMFCS-nivå barnet befinner sig på. Barn på GMFCS-nivå V har störst risk för höftledslateralisering mellan 2-5 år, och vid 7-8 års ålder har 66 % av barnen subluserad höft, d.v.s. mer än en tredjedel av caput femoris ligger utanför acetabelum. Barn på GMFCS-nivå V löper också 2,5-3 gånger högre risk att utveckla höftledsluxation (MP >90%) jämfört med barn på nivå III-IV (8, 9).

När det gäller ledrörlighet i nedre extremitet minskar den successivt, för barn på alla GMFCS-nivåer, i åldrarna 2-14 år (12). Orsaken till att personer med CP utvecklar nedsatt ledrörlighet och felställningar är mångfacetterat och beror främst på en onormal tonus, kokontraktion, nedsatt muskelstyrka, nedsatt balans, ökad uttrötbarhet samt nedsatt förmåga att utföra isolerade rörelser (13). Nedsatt sensorisk förmåga såsom perception och proprioception är också parametrar som påverkar förmågan att exempelvis stå upprätt med eller utan yttre stöd (13, 14). Sammantaget bidrar ovanstående till muskelo-skelettala förändringar som leder fram till muskelförkortning, ledinstabilitet och skelettdeformitet (13). I vilka rörelseriktningar och i vilken ålder försämringen sker är dock beroende på GMFCS-nivå och CP subtyp (12).

## Uppföljning och interventioner för barn med CP

### *Barn- och ungdomshabilitering*

Barn- och ungdomshabilitering är en verksamhet inom landstinget. Habiliteringen ska kostnadsfritt ge råd, stöd och behandling till barn och unga upp till 18 års ålder som har en diagnos inom autismspektrumstörning, utvecklingsstörning och/eller rörelsehinder (15).

### *Uppföljningsprogram för cerebral pares, CPUP*

I Barn- och ungdomshabiliteringens regi följs personer med CP systematiskt enligt ett uppföljningsprogram (CPUP). Det startade i Skåne 1994 som ett samarbetsprojekt mellan habilitering och barnortopedi i syfte att, genom systematisk röntgenologisk och klinisk uppföljning i kombination med tidiga insatser, begränsa ledrörlighetsinskränkning och förekomst av höftledsluxationer. Programmet utsågs 2005 till ett nationellt kvalitetsregister, och det samlade materialet från uppföljningsprogrammet används till olika forskningsprojekt i syfte att öka kunskapen om CP och effekterna av olika behandlingsinsatser (16). Från och med 2007 deltar alla regioner i Sverige och enligt 2014 års rapport är täckningsgraden hög, 95 % av alla barn med CP deltar i registret. Registret innehåller olika formulär (fysioterapi-, arbetsterapi-, kognition, neuropediatrik-, ortopedi- och röntgenformulär) och uppgifterna registreras i CPUPs databas av respektive yrkesgrupp. Uppföljningsprogrammet har delvis nått sitt syfte, då det visat sig att förekomsten av höftledsluxation har minskat sedan införandet av CPUP (9).

### *Interventioner*

Ett av CPUPs syften är att tidigt upptäcka behov av preventiva interventioner i syfte att motverka inskränkt ledrörlighet och höftledsluxationer (16-18). Förutom preventiva ortopediska- och spasticitetshämmande operationer finns flera konservativa behandlingsalternativ (4, 17, 18). Eftersom obalans i muskeltonus anses vara en orsak till inskränkt ledrörlighet och höftledslateralisering (13) har det under de senaste 20 åren tillkommit flera olika behandlingsmetoder i syfte reducera onormalt hög muskeltonus i form av spasticitet (17). Ett exempel är behandling med botulinumtoxin (injektion av spasticitetshämmande medel i enskild muskel), vilket kan användas med eller utan kombination av långvarig töjning (19-21). Behandling med botulinumtoxin i kombination med en abduktionsortos gav, i direkt anslutning till interventionen, en något mindre uttalad och långsammare lateraliseringsprogress jämfört med kontrollgruppen (19, 20). Däremot reducerades inte behovet av ortopedisk höftledsoperation vid en långtidsuppföljning 10 år senare (20). Det finns också studier som indikerar att behandling med botulinumtoxin bör ges tidigt, vid MP på 30%, för att motverka progress av höftledsdislokationen (22). Det finns evidens för att behandling med botulinum toxin ger minskad spasticitet och förbättrad ledrörlighet i nedre extremitet vid korttidsuppföljning. Vid långtidsuppföljning förefaller det dock mer osäkert om behandlingen kan förhindra progress av ledrörlighetsinskränkning hos växande barn med CP (23-25).

Manuell stretching och långvarig töjning, är en ifrågasatt behandlingmetod för att motverka inskränkt ledrörlighet hos personer med CP. Det finns dock visst stöd för att långvarig töjning i form av exempelvis gipsning över en eller flera leder bör användas för att öka/bibehålla ledrörlighet (24). I övrigt finns tvetydig evidens för att manuell stretching motverkar eller minskar förekomst av inskränkt ledrörlighet (24, 26-28). Ett tydligt budskap i en Cochranerapport, 2010, är att stretching inte har varken lång- eller kortvarig effekt för personer med neurologisk skada eller sjukdom (29). I en rapport från Föreningen Sveriges Habiliteringschefer, som syftar till att stärka evidensen av Barn- och ungdomshabiliterings insatser (EBH-rapport), rekommenderas dock stretching för personer med CP för att motverka inskränkt ledrörlighet (30).

När det gäller belastning i stående finns det viss evidens för att regelbunden ståträning påverkar hamstringsmuskelns längd positivt (31). Det finns också studier som tyder på att statistiskt stående temporärt minskar spasticiteten i nedre extremitet. Däremot finns det ingen säker evidens att statistiskt stående motverkar höftdysplasi (felaktig utveckling av höftleden) (32). En mindre svensk undersökning drar också slutsatsen att adduktorspasticitet i kombination med att benen sätts fast i ståstödet påverkar caputs tendens till lateralisering negativt (33). En annan idé är att bredbentstående skulle påverka placeringen av caput i acetabelum positivt då höftabduktion är ett gynnsamt läge för höften, samtidigt som det ger en långvarig töjning av adduktorerna (34).

Positionering i liggande, sittande och stående är ytterligare en behandlingsform som används för att uppnå symmetri under dygnets alla timmar i syfte att motverka höftledslateralisering (35). I Sverige är de flesta barnhjälpmedel kostnadsfria för familjerna, vilket innebär att i stort sett alla barn och ungdomar har möjlighet att sitta och stå även om de är beroende av yttre stöd såsom arbetsstol eller någon typ av ståstöd (36). Det finns också visst stöd i litteraturen för att positionering ger färre höftledsluxationer, ett minskat behov av botulinumtoxin, ortopedisk kirurgi och ortoser (35).

En av orsakerna till att personer med CP drabbas av inskränkt ledrörlighet är nedsatt muskelstyrka (13). Det finns evidens för att styrketräning förbättrar gångförmågan hos barn med CP (37), men inte hur träningen påverkar den passiva ledrörligheten (38). Det finns också viss evidens att grovmotorisk funktionell träning, som att resa sig upp från sittande till stående och aktiviteter i stående, påverkar den posturala kontrollen, men däremot är det osäkert om träningen motverkar felställningar (39).

Då CPUP-registret har hög täckningsgrad är det sannolikt att barn som registreras i uppföljningsprogrammet i 6-års ålder eller senare har anlänt till Sverige senare och därmed inte haft tillgång samma preventiva insatser. Man kan därför anta att det endast är ett fåtal barn, med måttlig till svår CP, som haft tillgång till de preventiva konservativa insatserna, som systematiskt ges i svensk habiliterings regi, utan att vara registrerade i CPUP-registret förrän vid 6 års ålder. CPUP gör det därför möjligt att använda mätdata från de barn som senast från 3 års ålder följts enligt uppföljningsprogrammet och fått de insatser som beskrivits i introduktionen och jämföra med de barn som har anlänt till Sverige senare, och därför inte haft tillgång till samma insatser i förskoleåldern. Enligt UNICEFs faktablad har, i vissa medel- och låginkomstländer, endast ett fåtal barn tillgång till rehabilitering/habilitering, kirurgiska ingrepp och adekvata hjälpmedel (40). Det går därför att anta att en del av de barn som anländer till Sverige inte haft tillgång till uppföljning, hjälpmedel, ortopediska och icke-ortopediska insatser i sina hemländer, i samma utsträckning som barnen boende i Sverige.

Konservativa interventionerna är, i kombination med uppföljning enligt CPUP, väl förankrade nationellt och används som prevention för att förhindra eller begränsa graden av inskränkt ledrörlighet och höftledslateralisering (18). Föreningen Sveriges Habiliteringschefer beskriver i en EBH-rapport, angående interventioner för att bibehålla ledrörlighet, de olika insatsernas evidens (30). Även om det finns studier som tyder på att manuell stretching, långvarig töjning, ståträning, styrketräning och positionering i kombination med botulinumtoxin, kan påverka ledrörlighet och förekomst av höftledsluxationer, är det behandlingsformer vars evidens är ifrågasatt (17, 20, 24, 35). Flera författare menar också på att det krävs preventiv kirurgi för att undvika höftledsluxation (9, 41, 42).

## Syfte och frågeställning

Syftet med studien var att undersöka om det fanns några skillnader mellan två grupper av barn med CP på GMFCS-nivå III-V, med avseende på ledrörlighetsinskränkning och höftledslateralisering. Barnen i den ena gruppen (grupp 1) har senast från 3 års ålder följts enligt CPUP. Dessa barn har också fått tidiga insatser från Barn- och ungdomshabilitering och svensk sjukvård, vars syfte har varit att motverka ledrörlighetsinskränkning och höftledsluxation. Barnen i den andra gruppen (grupp 2) har tidigast från 6 års ålder haft tillgång till samma uppföljning och insatser.



## Frågeställningar

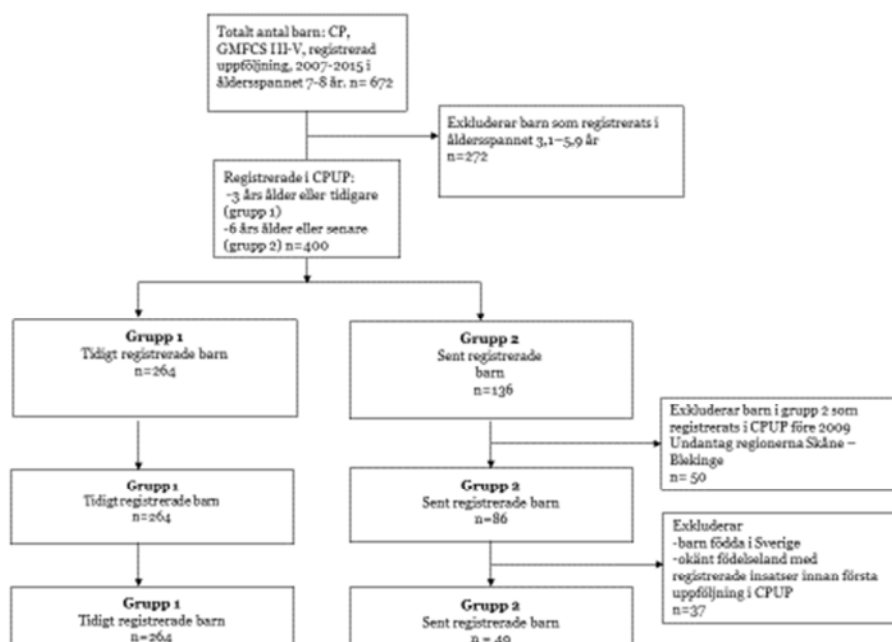
- Finns det skillnader, vad gäller ledrörlighet i nedre extremitet, mellan gruppen barn som senast från 3 års ålder (grupp 1) haft tillgång till insatser från Barn- och ungdomshabiliteringen och svensk sjukvård, inklusive uppföljning enligt CPUP, och den grupp barn som tidigast från 6 år (grupp 2) har tillgång till samma insatser.
- Finns det skillnader, vad gäller höftledslateralisering, mellan gruppen barn som senast från 3 års ålder (grupp 1) har haft tillgång till insatser från Barn- och ungdomshabiliteringen och svensk sjukvård, inklusive uppföljning enligt CPUP, och den grupp barn som tidigast från 6 år (grupp 2) har tillgång till samma insatser.

## Metod och material

### Deltagare och design

Den genomförda studien är en tvärsnittsstudie som baseras på uppgifter, inrapporterade till CPUP, mellan åren 2007 och 2015 från alla regioner i Sverige. Totalt fanns 672 barn med CP, GMFCS III-V, med inregistrerade uppgifter i fysioterapiformuläret vid 8 alternativt 7 års uppföljning. Populationen delades in i två grupper, grupp 1 bestod av barn som registerats i CPUP vid 3 år eller tidigare och grupp 2 bestod av barn som registerats från 6 år eller senare. Från och med 2007 deltar alla regioner i Sverige i uppföljningsprogrammet, men barn födda upp till 7 år innan respektive regions inträde CPUP har registerats i efterhand (43). Det betyder att de haft tillgång till insatser via Barn- och ungdomshabiliteringen, även om de inte följts enligt CPUP. För aktuell studie var det intressant att jämföra två grupper av barn; de som haft tillgång till tidiga insatser från Barn- och ungdomshabiliteringen och svensk sjukvård (grupp 1), inklusive uppföljning enligt CPUP, jämfört med de barn som inte haft tillgång till samma insatser i förskoleåldern (grupp 2). Av den anledningen exkluderas barn i grupp 2 som registerats innan 2009, med undantag av de tidigt anslutna regionerna Skåne-Blekinge vars mätdata inkluderades från och med 2007. Även de barn som var födda i Sverige, men inte registerats i CPUP förrän vid 6 års ålder eller senare, exkluderas. De barnen exkluderas, eftersom man kan anta att de haft tidig tillgång till insatser från Barn- och ungdomshabilitering och svensk sjukvård även innan de registerats i CPUP. Flera barn saknade uppgifter om födelseort, även de exkluderas om de hade inrapporterade insatser vid första inregistrerade uppföljnings-

tillfället i CPUP. Av 674 barns inregistrerade uppgifter i CPUP uppfyllde 313 barn inklusionskriterierna, 264 i grupp 1 och 49 i grupp 2 (Figur 1).



**Figur 1:** Flödesschema över bortfall och gruppindelning.

Om 8 års registrering saknades har 7 års inregistrerade data från fysioterapiformuläret använts. 10 barn hade genomgått någon form av ortopedisk- och/eller spasticitets-hämmande operation mellan 7 och 8 års ålder, och även i de fallen har 7 års mättillfälle använts (Tabell 1). När det gäller röntgen hämtades uppgifterna från röntgenformuläret och den röntgenbedömning som låg närmast 8 respektive 7 års fysioterapibedömning har använts i studien.

**Tabell 1:** Fördelning av ålder vid använd fysioterapibedömning

Ålder vid uppföljning fysioterapi	Grupp 1 n (%)	Grupp 2 n (%)	Totalt n (%)
7 års uppföljning	103 (39)	14 (28,6)	117 (37,4)
8 års uppföljning	161 (61)	35 (71,4)	196 (62,6)

## Datainsamling och registeruppgifter

När ett barn uppvisar tecken på CP-liknade symtom informeras och tillfrågas föräldrarna om deras barns eventuella deltagande i CPUP. De barn som sedan ingår i CPUP följs enligt standardiserade, yrkesspecifika formulär som registreras manuellt i CPUP-databas. All data, bakgrundsdata och utvärderingsvariabler, som ligger till grund för aktuell studie har hämtats ur CPUP-registret. Utvärderingsvariablerna var ledrörlighet i nedre extremitet samt graden av höftledens lateralisering, angivet i MP (Tabell 2).

**Tabell 2:** Bakgrundsdata och utvärderingsvariabler som inhämtats från CPUP-registret

Uppgifter	Variabler
<b>Bakgrundsdata</b>	Konservativa insatser för grupp 1 (5 års uppföljning), ortopediska- och spasticitetshämmande operationer, kön, GMFCS-nivå och CP subtyp.
<b>Utvärderingsvariabler</b>	<p><i>Ledrörlighet nedre extremitet:</i> respektive variablers sämsta sida- höftabduktion, höftextension, hamstringsvinkel, knäextension och dorsalflexion med extenderat knä.</p> <p><i>Höftledslateralisering:</i> migrationsprocent (MP) som mäts i Reimersindex (RI).</p>

För att beskriva vilka konservativa insatser de tidigt registrerade barnen (grupp 1) erhållit i förskoleåldern, har 5 års uppföljningstillfälle (CPUP) använts (tabell 3). Uppgifterna, som avser insatser sedan föregående mättillfälle, finns angivet i CPUPs fysioterapiformulär. Belastning i stående anges i typ av ståstöd, positionering av fot och fotled anges i användning av eventuell fotortos. Tillgång till hjälpmedelsstol indikerar att barnet, åtminstone under en del av barnets vakna tid, positioneras i sittande. Även interventioner såsom behandling med botulinumtoxin samt träning för att bibehålla ledrörlighet och förbättra styrka anges i fysioterapiformuläret.

**Tabell 3:** Förteckning över vilka konservativa insatser tidigt registrerade barn med CP, GMFCS-nivå III-V, erhållit det senaste året innan 5 års uppföljning i CPUP. Insatserna syftar bland annat till att motverka ledrörlighetsinskränkning och höftledslateralisering. 19 av totalt 264 barn i grupp 1 saknade 5 års uppföljning.

Konservativ insats	5 års uppföljning n = 245 (%)
Använder ståhjälpmedel	203 (82,9)
Använder ortoser	206 (84,1)
Använder hjälpmedelsstol	200 (81,6)
Tränar specifik styrka	191 (78)
Tränar specifik rörlighet	221 (90)
Behandlats med botulinumtoxin	83 (33,9)

För att ytterligare beskriva populationen i studien har historiska data över inregisterade ortopediska- och spasticitetshämmande operationer inhämtats från CPUP-registrets operationsformulär samt kompletterats med uppgifter från fysioterapiformuläret (Tabell 4). När det gäller grupp 2 saknas uppgifter om vilka konservativa och/eller kirurgiska insatser de erhållit under förskoletiden och gruppen kan därför inte beskrivas med avseende på dessa insatser. Vilka operationer barnen i grupp 2 genomgått sedan de registerats i CPUP, vid 6 års ålder eller senare, finns redovisat i tabell 4.

**Tabell 4:** förteckning över vilka olika typer av ortopediska operationer och/eller operationer i syfte att minska spasticitet som barn med CP, GMFCS-III-V, genomgått innan 7 års ålder. NE=Nedre extremitet SDR=Selektiv dorsal rizotomi

	Grupp 1 n=264 (%)	Grupp 2 n=49 (%)	Total n=313
Totalt antal opererade barn	117 (44,3)	3 (6,1)	120 (38,3)
- Höftoperation (mjukdelsingrepp alt höftosteotomi)	67 (57,3)	1	
- Övrig ortopedisk operation	11 (9,4)		
- Genomgått ett flertal operationer på olika nivåer i NE	14 (12,0)	2	
- SDR alt baklofenpump	17 (14,5)		
- SDR alt baklofenpump + kompletterande ortopedisk operation	8 (6,8)		

## Utvärderingsvariabler

Ledrörlighet i nedre extremitet anges i grader och mäts med goniometer enligt en standardiserad manual i CPUP (44, 45). Undersökningarna utförs av fysioterapeuter på de regionala habiliteringarna. Barn på GMFCS-nivå III-V, under 6 år, undersöks 2 gånger per år och barn över 6 år undersöks 1 gång per år (46). Mätdata registreras sedan i fysioterapiformuläret i CPUPs databas. Reliabiliteten för ledrörlighetsmätning med goniometer för barn med CP varierar något mellan olika leder. Två studier visar ungefär samma inter- och intrareliabilitet för höftextension (ICC 0,95 resp 0,98) och lägst interreliabilitet (ICC 0,61) för höftabduktion (47, 48).

För att uppmärksamma att det finns risk för inskränkt rörlighet används, enligt CPUP, standardiserade gränsvärden (larmvärden), uppdelade efter GMFCS-nivåerna I-III samt IV-V. I föreliggande studie har gränsvärden för barn på GMFCS-nivå IV-V använts och barnen på GMFCS-nivå III exkluderas då grupperna jämförs med avseende på förekomst av larmvärden. Grönt värde innebär god ledrörlighet, gult värde signalerar ett värde som bör beaktas och behandlas, rött värde innebär inskränkt ledrörlighet (Tabell 5) (49).

**Tabell 5:** Enligt CPUP standardiserade gränsvärden för nedre extremitet, för att uppmärksamma inskränkt ledrörlighet, risk för inskränkt ledrörlighet samt god ledrörlighet.

GMFCS IV-V	Rött	Gult	Grönt
Höftabduktion	$\leq 20^\circ$	$> 20^\circ < 30^\circ$	$\geq 30^\circ$
Höftextension	$\leq -10^\circ$	$> -10^\circ < 0^\circ$	$\geq 0^\circ$
Knäextension	$\leq -20^\circ$	$> -20^\circ < -10^\circ$	$\geq -10^\circ$
Hamstringsvinkel	$\leq 120^\circ$	$> 120^\circ < 130^\circ$	$\geq 130^\circ$
Dorsalflexion m extenderat knä	$\leq -10^\circ$	$> -10^\circ < 0^\circ$	$\geq 0^\circ$

Graden av höftledens lateralisering anges i MP, och benämns Reimers index (RI) med enheten procent. RI bedöms med hjälp av röntgenundersökningar som genomförs enligt ett specifikt vårdprogram (44). Barn med CP på GMFCS-nivå III-V röntgas en gång per år eller oftare om det bedöms relevant. Bilderna granskas av en röntgenläkare innan de registreras i CPUPs databas.

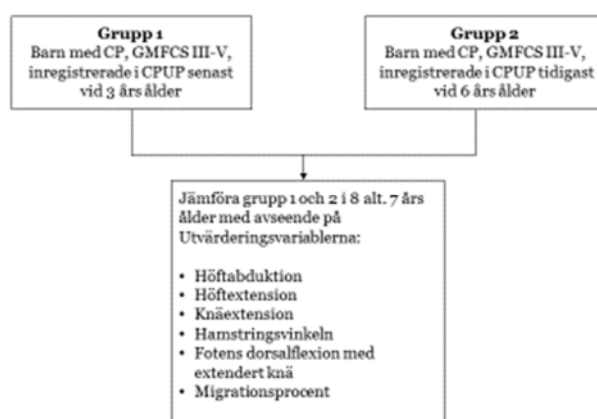
MP har i jämförelse med andra röntgenologiska mått på höften god samtida validitet och reliabilitet (50). Det förefaller dessutom finnas konsensus mellan flera författare

om vilken MP som förligger vid dislokation av höftleden. RI över 33 % innebär en dislokation (subluxation) av höftleden. RI på 90-100% innebär att höftleden är luxerad (51, 52). Om RI överstiger 40% och ökar med 10% på ett år kan det vara en indikation för preventiv kirurgi (9, 41).

Även värdet på höftledens MP kan klassificeras med hjälp av standardiserade gränsvärden. Ett ”grönt värde” innebär att caput femoris har en tillfredsställande täckning i acetabulum, om RI är mindre än eller lika med 33%. Ett RI mellan 33 % till 39 % klassificeras det som ett ”Gult värde” och det bedöms finnas en risk för framtida luxation. Med ett RI på 40% eller mer, anses höften sannolikt vara i behov av kirurgiskt ingrepp och klassificeras som ett ”rött värde”, enligt CPUP (11).

Inregistrerade mätdata då barnen var i åldersspannet 7-8 år jämförs mellan grupp 1 och 2 med avseende på utfallet av ledrörlighet i nedre extremitet. När det gäller höft-röntgen, för utvärdering av höftledslateralisering, samstämmer inte tidpunkten för undersökningarna med inrapporterad fysioterapiuppföljning. Ålder vid röntgenundersökningen kan därför variera mellan 6 till 9 år (Figur 2).

Av de 49 barnen i grupp 2 saknade 8 (16,3 %) ett värde på höftabduktion, 7 (14,3 %) ett inrapporterat värde på höftextension och 12 (24,5%) barn en inrapporterad höft-röntgen. För de 264 barnen i grupp 1 var motsvarande bortfall 25 (9,5 %), 14 (5,3 %) respektive 9 (3,4 %).



**Figur 2:** Flödesschema över hantering av mätdata CPUP-registret

## Statistisk analys

Eventuella skillnader mellan grupperna, med avseende på bakgrundsvariablerna kön, CP subtyp och GMFCS-nivå beräknades med Chi-2 test. Eftersom grupperna inte var lika stora och grupp 2 innehöll få individer samt att datat inte var normalfördelat, analyserades skillnader mellan grupperna med avseende på utvärderingsvariablerna, med icke-parametriska test. Jämförelsen mellan de olika gruppernas undersökningsvariabler genomfördes med hjälp av median, kvartilavstånd samt 10:e percentilen. P-värdeberäkningar genomfördes med Mann-Whitney U test. Alla statistiska beräkningar utfördes i IBM SPSS, version 23 och 22.

Vidare kategoriseras utvärderingsvariablerna i, enligt CPUP, standardiserade gränsvärden och fördelningen av utfallet redovisas visuellt i stapeldiagram. P-värdesberäkningar genomfördes med Chi-2 test. De standardiserade gränsvärdena är uppdelade i GMFCS-nivåerna I-III samt IV-V och därför har GMFCS-nivå III uteslutits och resultatet avser endast nivå IV och V. Signifikansnivå sattes till  $p < 0,05$ .

## Etiska aspekter

Ett, av föräldrarna godkänt, syfte med CPUP är att samla information om diagnosen CP till olika forskningsprojekt. När uppgifter från CPUP-databasen används för uppsatser/arbeten inom högskoleutbildningen skall projektbeskrivning lämnas till CPUPs registerhållare. Registerhållaren ansvarar bland annat för att etiska prövningsnämnden godkänt studier, där så behövs. Förutsatt att reglerna för forskning i CPUP-databasen följs och att etiska principer beaktats krävs inget godkännande av publikationskommittén (representanter från CPUPs styrgrupp och RC syd) för arbetets genomförande (53). Till föreliggande studie har endast avidentifierad information erhållits. Ytterligare godkännande, förutom från registerhållaren, bedömdes inte vara aktuellt.

## Resultat

Av de 313 barnen med CP, GMFCS-nivå III-V, som uppfyllde inklusionskriterierna var 118 flickor och 189 pojkar, 264 barn var tidigt registerade (grupp 1) och 49 barn var sent registerade (grupp 2). Det fanns en signifikant skillnad mellan grupperna vad gäller könsfördelning ( $p < 0,001$ ), men 12,2 % av barnen i grupp 2 saknade uppgifter

om kön. I båda grupperna dominerade andelen pojkar (60,6 % i grupp 1 respektive 59,2 % i grupp 2). Det förelåg även en signifikant skillnad vad gäller diagnostiserad CP subtyp ( $p=0,030$ ), men den spastiska formen av CP var vanligast i båda grupperna, 59,1 % i grupp 1 och 55,1 % i grupp 2. Däremot förelåg inte någon signifikant skillnad vad gäller fördelning av GMFCS-nivå ( $p=0,859$ ) (Tabell 6).

**Tabell 6:** Fördelning av antal barn, CP, GMFCS III-V, i grupp 1 (tidigt registrerade barn) grupp 2 (sent registrerade barn) med avseende på GMFCS-nivå och CP-subgrupp.

	Grupp 1 n (%)	Grupp 2 n (%)	Totalt n (%)	p-värde
<b>Kön</b>				
Flickor	104 (39,4)	14 (28,6)	118 (37,7)	< 0,001
Pojkar	160 (60,6)	29 (59,2)	189 (60,4)	
Ej registrerat	0 (0)	6 (12,2)	6 (1,9)	
<b>GMFCS-nivå</b>				
III	53 (20,1)	9 (18,4)	62 (19,8)	0,856
IV	109 (43,3)	19 (38,8)	120 (40,9)	
V	102 (38,6)	21 (42,9)	123 (39,3)	
<b>CP-subtyp</b>				
Ataxi	6 (2,3)	2 (4,1)	8 (2,6)	0,030
Dyskinesi	86 (32,6)	12 (24,5)	98 (31,3)	
Ej klassificerad/blandform	16 (6,1)	7 (14,3)	23 (7,3)	
Spasticitet	153 (59,1)	27 (55,1)	180 (58,5)	
Ej klassificerad	0	1 (2,0)	1 (0,2)	
Totalt	264 (100)	49 (100)	313 (100)	

Av de inrapporterade utvärderingsvariablerna, ledrörlighet i nedre extremitet och höftledslateralisering (RI), var skillnaden mellan grupperna signifikant vad gäller passiv rörlighet i höftabduktion, där grupp 2 hade signifikant bättre rörelseomfång jämfört med grupp 1. Medianvärde och kvartilavstånd för grupp 1 var 35° (30°-40°) respektive 40° (30°-45°) för grupp 2 ( $p=0,019$ ). I övrigt visade inte jämförelsen mellan grupperna på några signifikanta skillnader (Tabell 7).

Då barnen som genomgått någon form av ortopedisk operation alternativt selektiv dorsal rizotomi eller inopererad baklofenpump innan 7 år exkluderades, visade inte resultatet på några signifikanta skillnader mellan grupperna.



**Tabell 7:** Ledrörlighet angivet i grader samt reimersindex angivet i procent (median, kvartilavstånd och 10:e percentilen) hos barn i åldersspannet 7-8 år, CP, GMFCS III-IV. Hos barn i den grupp barn som senast vid 3 års ålder (grupp 1) respektive den grupp barn som tidigast vid 6 års ålder (grupp 2) registerats i CPUP (grupp 2).

Variabel	Tidigt registerade barn, grupp 1 (n=264)		Sent registerade barn, grupp 2 (n=49)		p
	Median (kvartilavstånd)	10:e percentilen	Median (kvartilavstånd)	10:e percentilen	
Höftabduktion	35 (30-40)	20	40 (30-45) <sup>a</sup>	21	0,019
Höftextension	10 (0-10)	-5	7,5 (0-15) <sup>b</sup>	-6,4	0,707
Hamstringsvinkel	130 (125-140)	115	130 (120-140)	110	0,108
Knäextension	- 2 (-10-0)	-20	0 (-20-0)	-30	0,747
Fotled dorsalflexion	5 (0-10)	-7,3	10 (-6,25-15)	-21,5	0,873
RI	26 (33-20)	43	25 (31,5-18) <sup>c</sup>	42	0,227

RI=reimersindex

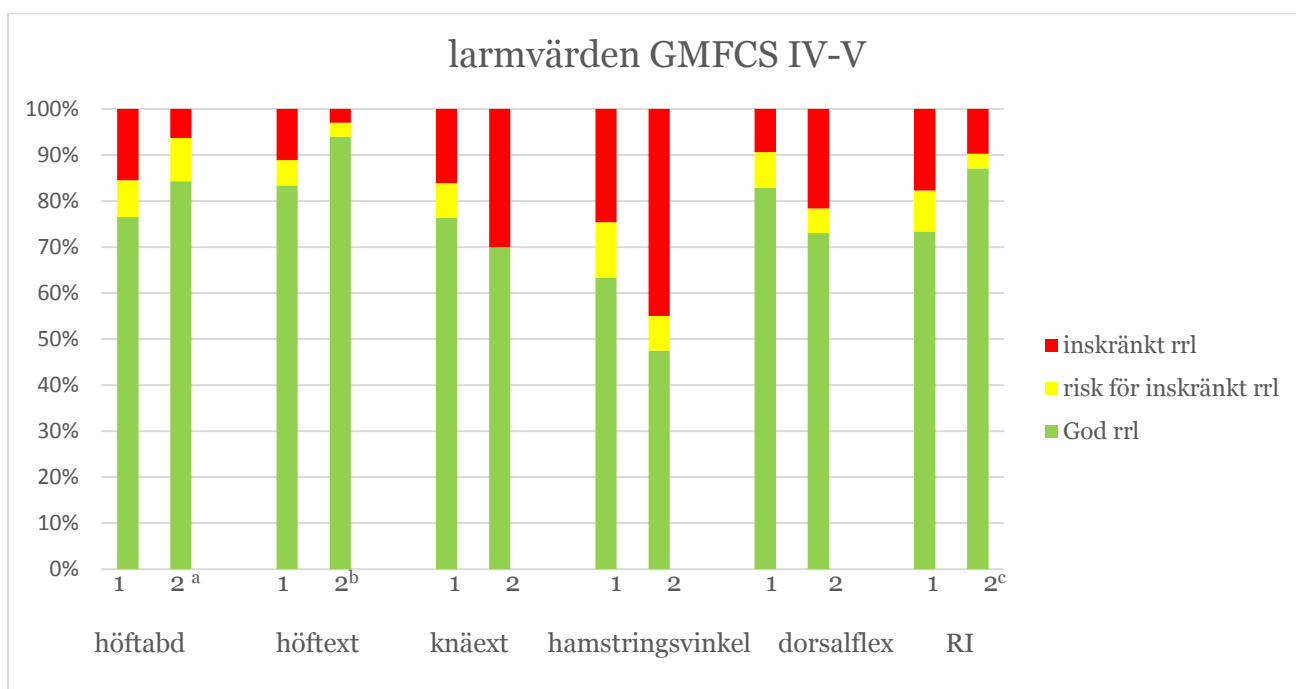
a Höftabd: n= 41

b Höfttext: n= 42

c RI: n= 37

Vid jämförelse av utvärderingsvariablerna med standardiserade gränsvärden, för barn på GMFCS-nivå IV-V (n=251), hade grupp 1 ( n=211) signifikant mindre andel röda värden jämfört med grupp 2 (n=40) vad gäller knäextension (16,1 % respektive 30 %,  $p=0,037$ ), hamstringsvinkeln (24,6 % respektive 45 %,  $p=0,009$ ) och dorsalflexion (9,3 % respektive 21,6 %,  $p=0,028$ ). I övrigt var skillnaderna mellan grupp 1 och 2 inte signifikanta (Figur 3).

Då barnen som genomgått någon form av ortopedisk operation alternativt selektiv dorsal rizotomi eller inopererad baklofenpump innan 7 år exkluderades, visade resultatet att grupp 1 (n=110) hade signifikant mindre andel röda värden jämfört med grupp 2 (n=38) vad gäller hamstringsvinkeln (27,1 % respektive 44,7 %,  $p= 0,045$ ). I övrigt var skillnaderna mellan grupp 1 och grupp 2 inte signifikanta.



**Figur 3:** Andelen gröna, gula och röda värden, med avseende på ledrörlighet i nedre extremitet och höftledslateralisering hos barn i åldern 7-8 år, CP, GMFCS IV-V. Jämförelse mellan de barn som senast vid 3 års följs enligt CPUP och de barn som tidigast från 6 års ålder har tillgång till samma uppföljning. Gröna, gula och röda värden baseras på CPUPs standardiserade gränsvärden som delar in ledrörlighet och höftledslateralisering i god, risk för inskränkt samt inskränkt rörlighet respektive grader av höftledslateralisering.

<sup>a</sup> Höftabd: n=32

<sup>b</sup> Höftextension: n=33

<sup>c</sup> RI: n=31

## Diskussion

Resultatet av studien visade på en signifikant skillnad avseende höftens rörlighet i abduktion, där barnen i grupp 2 hade en bättre ledrörlighet. Resultatet av jämförelse mellan de icke-opererade barnen visade inte på några signifikanta skillnader.

Däremot fanns signifikanta skillnader vad gäller jämförelse av CPUPs standardiserade gränsvärden för barnen på GMFCS IV-V, där grupp 2 hade större andel inskränkt rörlighet (röda värden) vad gäller knäextension, hamstringsvinkeln och fotens dorsalflexion. Då barnen som genomgått någon ortopedisk och/eller spasticitets-hämmnade operation exkluderades hade grupp 2 signifikant större andel röda värden med avseende på hamstringsvinkeln. I övrigt fanns inte några signifikanta skillnader mellan gruppen barn med CP, GMFCS III-V, som registrerats i CPUP senast vid 3 år ålder och haft tillgång till standardiserad uppföljning med väl förankrade insatser via Barn- och ungdomshabiliteringen och svensk sjukvård (grupp 1), och den grupp barn som tidigast från 6 år (grupp 2) har haft tillgång till samma insatser. Gruppernas

sammansättning var jämförbara vad gäller GMFCS-nivå, men skilde sig något vad gäller CP subtyp och kön. Vi vet att barn på GMFCS-nivå V med spastisk form av CP har störst risk att drabbas av höftledslateralisering (11), men skillnaden mellan grupperna bedöms inte påverka resultatet i studien. Dessutom menar flera författare att GMFCS-nivå är mer användbart som prediktivt instrument, jämfört med CP subtyp, när det gäller att bedöma risk för höftledslateralisering (8).

Beskrivningen av vilka insatser barn med CP på GMFCS-nivå III-V erhåller i förskoleåldern visade på att en stor andel av barnen använde ståskal, ortoser och hjälpmedelsstol. Det samstämmer med Rodbys studie (36) som visade på att de flesta barn i Sverige, som inte själva har förutsättning att sitta och stå, erhåller hjälpmedel för ändamålet. När det gäller behandling och handledning av fysioterapeut tränade mellan 80-90 % specifik rörlighet och/eller specifik styrka och drygt en tredjedel hade, mellan 4-5 år, behandlats med botulinumtoxin. Även om sammanställningen avser året innan 5 års uppföljning, och insatserna naturligtvis kan variera något på individnivå, får man anta att barn som haft kontakt med Barn- och ungdomshabilitering innan 3 års ålder har erhållit möjlighet till samma behandling och träning under flera år. Sammanställningen tyder dock på att en stor andel barn, med medelsvår till svår CP, och deras nätverk, lägger mycket tid och energi på att förhindra inskränkt ledrörlighet och höftledslateralisering. Dessutom har knappt hälften av barnen i grupp 1, och drygt 5 % av barnen i grupp 2, innan 7 års ålder genomgått någon form av ortopedisk- och/eller spasticitetshämmande operation. Vilka eventuella ortopediska operationer som barnen i grupp 2 genomgått innan de registerats i CPUP eller vilka konservativa insatser barnen erhållit i respektive hemland, innan de anlänt till Sverige, är dock okänt.

I CPUPs årsrapport 2015 presenteras tre mål. Två av målen avser ledrörlighet nedre extremitet och målsättningen var att ledrörligheten för rörelseriktningarna knäextension och dorsalflexion ska vara ”gröna eller gula” för >90 % av alla barn med CP, oberoende av GMFCS-nivå (54). Resultatet i aktuell studie visade att det målet inte är uppnått, då 83 % av barnen i grupp 1 och 70 % av barnen i grupp 2 hade gula eller gröna värden med avseende på passiv knäextension. Däremot hade 90 % av barnen i grupp 1 och nästan 80 % i grupp 2 gula eller gröna värden på fotens dorsalflexion. Även vid jämförelse med tidigare studier var medianvärdet och 10:e percentilen i den här studien sämre, jämfört med tidigare studie där man också undersökt passiv ledrörlighet hos barn, innan respektive efter införandet av CPUP. I den studien kunde man visa att CPUP samt spasticitetshämmande konservativ behandling minskat förekomsten av

svåra kontrakturer (17). Det samstämmer däremot med föreliggande studie, där jämförelsen av CPUPs gränsvärden resulterade i signifikant bättre värden för grupp 1, vilket innebär att gruppen som haft tillgång till tidig uppföljning med efterföljande insatser hade mindre allvarliga ledrörlighetsinskränkningar. Att skillnaden mellan mellan grupperna inte är entydiga kan förstås bero på en rad olika faktorer. En tänkbar orsak är att en del av barnen i sitt hemland har haft tillgång till ortopediska operationer, hjälpmedel och konservativa insatser som syftat till att bland annat motverka ledrörlighetsinskränkning och höftledslateralisering. Enligt UNICEFs faktablad från 2013 ser förutsättningarna för barn med rörelsehinder mycket olika ut i många låg- och medelinkomstländer, inte sällan beroende av den enskilda familjens ekonomi (40).

En annan orsak skulle kunna vara att ledrörlighetsinskränkningar utvecklas olika, och är beroende av GMFCS-nivå och ålder. Nordmark och Hägglund visade i en studie att höftabduktion för barn med bilateral CP, och lägre GMFCS-nivå minskar från 7 års ålder. Däremot minskar hamstringsvinkeln, knäextension och fotens dorsalflexion redan från 2 års ålder (12). Det är något som kan förklara att rörelseriktning – höftabduktion, var en rörelseriktning med god ledrörlighet och hög andel ”gröna värden” i båda grupperna. Detta i motsats till hamstringsvinkeln, fotledens dorsalflexion och knäextensionen som, i båda grupperna, hade högst andel ”gula och röda värden”, d.v.s. värden som bör beaktas respektive bedöms som inskränkt ledrörlighet. Ytterligare felkälla är ett betydande bortfall av mätvärden just för variablerna höftabduktion och höftextension för barnen i grupp 2.

Oavsett om barnen var tidigt eller sent registrerade eller hade genomgått någon form av ortopedisk- och/eller spasticitetshämmande ingrepp, hade endast 10% av 313 barn ett RI över 42 %. Det är ett resultat som kan sägas samstämma med studier där höftledsluxationer minskat radikalt efter införandet av systematisk uppföljning enligt CPUP (9). Larnet m.fl. kommer i sin studie fram till att 47% av barnen på GMFCS-nivå V, 24% för barnen på GMFCS-nivå IV och 23% av barnen på GMFCS-nivå III riskerar att innan 7-8 års ålder utveckla en höftledslateralisering på >40% (8). Att det inte förelåg någon signifikant skillnad mellan grupp 1 och 2, vad gäller graden av höftledslateralisering, kan eventuellt förklaras med ett stort bortfall av röntgenuppgifter i grupp 2 och att resultatet delvis beror på slumpen. Bortser man från det betydande bortfallet är det ett resultat som inte samstämmer med tidigare studier där införandet av CPUP bidragit till en markant minskning av höftledslateralisering (9, 10). Det kan också, eventuellt, förklaras med att barnen i grupp 2 erhållit likvärdiga konservativa

insatser och/eller genomgått någon form av kirurgiskt ingrepp innan de registerats i CPUP, i Sverige eller i sitt ursprungsland.

En förklaring till att resultatet inte påverkades nämnvärt av att barn som genomgått någon form av ortopedisk- eller spasticitetshämmande operation exkluderas, kan vara att samtliga utvärderingsvariabler, både ledrörlighet och graden av höftleds-lateralisering, ur CPUP-registret inte var korrelerat till den sida det eventuella kirurgiska ingreppet var utfört. Alla värden var den "sämsta sidans" värde, vilket kan vara den sida som inte åtgärdats med ett kirurgiskt ingrepp. Det betyder att även om barnet genomgått någon form av ortopedisk operation kan inhämtat värde i den här studien gälla den "andra sidan", den sida som vid aktuell uppföljning var sämst. En annan förklaring till att resultatet inte skiljer sig är att ortopediska operationer har behandlats utan hänsyn till vilket kirurgiskt ingrepp som utförts. Det innebär att barnets samtliga utvärderingsvariabler har exkluderas oavsett vilken rörelseriktning, eller led i nedre extremitet, det genomgångna kirurgiska ingreppet varit avsett att påverka.

Resultatet av studien visade att skillnaderna mellan grupperna inte var entydiga, trots olika förutsättningar i förskoleåldern. Det kan sägas samstämma med de studier vars resultat visat att tidiga insatser såsom stående i ståskal, stretching, ortoser, positionering och botulinumtoxin kan bromsa, men inte förhindra progress av ledrörlighetsinskränkning och höftledslateralisering (20, 21, 23, 25, 26, 32, 35). Det finns också mycket som talar för att det kommer att behövas en reoperation under uppväxten, även om barnen genomgått någon form av preventiv operation i syfte att förebygga höftledsluxation i förskoleåldern (9). Beskrivningen av vilka insatser barnen i grupp 1 erhållit, vad gäller hjälpmedel och specifik träning, har inte heller presenterats med avseende på vare sig kvalitet, användningstid eller frekvens. För att utvärdera de olika insatsernas eventuella effekt på utvärderingsvariablerna, ledrörlighet och höftledslateralisering, behöver varje enskild intervention matchas med utfallsvariablerna, vilket skulle vara en intressant frågeställning för framtida studie. Dessutom bör tilläggas att utvärderingsvariablerna i föreliggande studie endast utgör en liten del av det man önskar uppnå med de beskrivna interventionerna. Studien jämför grupperna endast med avseende på variablerna ledrörlighet och höftledslateralisering, vilket innebär att ingen hänsyn har tagits till andra viktiga variabler på kropps-funktionsnivå såsom andningsfunktion och magtarmfunktion. Resultatet säger inte heller något om hur tidig uppföljning och tidiga insatser påverkar aktivitetsförmåga, livskvalitet och möjlighet till delaktighet.

Syftet med aktuell studie var att jämföra två olika grupper, en grupp som fått tidiga insatser och uppföljning samt en grupp som inte haft tillgång till samma insatser i förskoleåldern. Av den anledningen exkluderades barn i grupp 2 som var registrerade före 2009, och 2007 för Skåne- Blekinge, då de haft tillgång till habiliteringsinsatser innan respektive regions inträde i CPUP. Vidare exkluderades barn i grupp 2, med födelseland Sverige eller med okänt födelseland som erhållit insatser innan första registrering i CPUP. Det är ett metodval som går att diskutera och som till viss del bygger subjektiv bedömning av vilka barn som skulle exkluderas.

Studiens design och de begränsade antalet barn som ingått i studien, i kombination med att CP är en heterogen diagnos, gör det inte möjligt att dra slutsatser om orsak till utfallet i de olika grupperna. Vidare är det vid analys av resultatet viktigt att ta hänsyn till att bakomliggande orsaker till utfall inte är känt (55). Kända faktorer var ålder vid uppföljning, ålder vid registrering, CP subtyp, GMFCS-nivå, födelseland, eventuell genomgången ortopedisk operation innan 7 års ålder samt vilka konservativa insatser (grupp 1) erhållit då barnen var mellan 4 och 5 år. Däremot är det okänt vilka insatser barnen i grupp 2 haft tillgång till innan de registerats i CPUP. Det skulle kunna finnas barn i grupp 2 som haft tillgång till konservativa och/eller kirurgiska insatser redan i förskoleåldern, i Sverige eller i sitt ursprungsland.

En av svagheterna i en registerstudie, är att resultatet inte blir mer tillförlitligt än inregisterat data. Bortfallet av utvärderingsvariablerna migrationsprocent, passiv höftabduktion och höftextension för grupp 2, i kombination med att grupp 2 var liten (n=49), utgör en felkälla som måste beaktas. Även ofullständigt ifyllt neurologformulär med bland annat avsaknad av ursprungsland påverkar resultatets tillförlitlighet.

Att jämföra två grupper av barn kan vara känsligt och det skulle kunna vara ett etiskt dilemma att jämföra barn som anlänt till Sverige efter förskoleålderna med barn som växt upp i Sverige. Båda grupperna i den här studien inkluderade dock barn med annat födelseland än Sverige. Syftet med inklusionskriterierna i grupp 2 var endast att barnen både skulle vara sent registrerade i CPUP, och haft andra förutsättningar i förskoleåldern än de barn som redan i förskoleåldern haft tillgång till systematisk uppföljning och insatser via Barn- och ungdomshabiliteringen och svensk sjukvård.

Då barnen med CP, på GMFCS-nivå III-V, lägger mycket tid på att förebygga höftleds-lateralisering och inskränkt ledrörlighet är det viktigt att den tiden används till träning

och behandling som verkligen har önskad effekt. Resultatet av den här studien antyder att det finns ett behov av ytterligare forskning vad gäller effekten av interventioner som syftar till att förhindra uppkomst av inskränkt ledrörlighet och höftledslateralisering. Eftersom vi vet att ledrörligheten minskar då barnen blir äldre vore det intressant att genomföra en liknande studie med äldre barn, ungdomar eller vuxna. Ytterligare forskningsområden skulle kunna vara att undersöka om tidig uppföljning och tidiga insatser gör skillnad för variabler som mäter livskvalitet, aktivitetsförmåga och delaktighet. Det är också viktigt att fortsätta verka för komplett registrering av data i kvalitetsregistret, för att möjliggöra studier som syftar till att öka kunskapen om barn och vuxna med diagnosen cerebral pares.

## Konklusion

I denna studie jämfördes barn med CP, GMFCS-nivå III-V, som haft tillgång till tidiga respektive sena insatser inklusive uppföljning enligt CPUP. Resultatet visade inte på några signifikanta skillnader med avseende på ledrörlighet i nedre extremitet, förutom variabeln höftabduktion.

Däremot visade jämförelse av standardiserade gränsvärden för barn på GMFCS-nivå IV-V, att gruppen som fått tidiga insatser hade mindre andel barn med allvarlig ledrörlighetsinskränkning. Även om resultatet bör bedömas med försiktighet, indikerar det att tidig uppföljning och tidiga insatser påverkar graden av inskränkt ledrörlighet i nedre extremitet för barn med CP.

Variabeln höftledslateralisering visade inte på några signifikanta skillnader mellan grupperna. Ett stort bortfall av inrapporterad röntgen för den sent registrerade gruppen gör det svårt att dra några slutsatser av resultatet.

## Referenser

1. Rosenbaum P, Paneth N, Leviton A, Goldstein M, Bax M, Damiano D, et al. A report: the definition and classification of cerebral palsy April 2006. *Dev Med Child Neurol Suppl.* 2007;109:8-14.
2. Sellier E, Platt MJ, Andersen GL, Krageloh-Mann I, De La Cruz J, Cans C. Decreasing prevalence in cerebral palsy: a multi-site European population-based study, 1980 to 2003. *Dev Med Child Neurol.* 2015.
3. Krageloh-Mann I, Cans C. Cerebral palsy update. *Brain Dev.* 2009;31(7):537-44.
4. Westbom L, Hagglund G, Nordmark E. Cerebral palsy in a total population of 4-11 year olds in southern Sweden. Prevalence and distribution according to different CP classification systems. *BMC Pediatr.* 2007;7:41.
5. Surveillance of cerebral palsy in Europe: a collaboration of cerebral palsy surveys and registers. Surveillance of Cerebral Palsy in Europe (SCPE). *Dev Med Child Neurol.* 2000;42(12):816-24.
6. Palisano RJ, Rosenbaum P, Bartlett D, Livingston MH. Content validity of the expanded and revised Gross Motor Function Classification System. *Dev Med Child Neurol.* 2008;50(10):744-50.
7. Canchild. Gross Motor Function Classification System - Expanded & Revised (GMFCS - E&R) GROSS Motor Function Classification System - Expanded & Revised (GMFCS - E&R) [Internet]. Hamilton: MacMaster University; 2015 [cited 2015 Oct 21]. Available from: <https://canchild.ca/en/resources/42-gross-motor-function-classification-system-expanded-revised-gmfcs-e-r>.
8. Larnert P, Risto O, Hagglund G, Wagner P. Hip displacement in relation to age and gross motor function in children with cerebral palsy. *J Child Orthop.* 2014;8(2):129-34.
9. Hagglund G, Alriksson-Schmidt A, Lauge-Pedersen H, Rodby-Bousquet E, Wagner P, Westbom L. Prevention of dislocation of the hip in children with cerebral palsy: 20-year results of a population-based prevention programme. *Bone Joint J.* 2014;96-b(11):1546-52.
10. Robb JE, Hagglund G. Hip surveillance and management of the displaced hip in cerebral palsy. *J Child Orthop.* 2013;7(5):407-13.
11. Terjesen T. The natural history of hip development in cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol.* 2012;54(10):951-7.
12. Nordmark E, Hagglund G, Lauge-Pedersen H, Wagner P, Westbom L. Development of lower limb range of motion from early childhood to adolescence in cerebral palsy: a population-based study. *BMC Med.* 2009;7:65.
13. David S, Dianne D, Margaret M. Management of the Motor Disorder of Children with Cerebral Palsy. 2:nd ed. Hart HM, editor. London 2004. 204 p.
14. Lidbeck C, Tedroff K, Bartonek A. Muscle strength does not explain standing ability in children with bilateral spastic cerebral palsy: a cross sectional descriptive study. *BMC Neurol.* 2015;15(1):188.
15. Palm L. Barn- och ungdomshabilitering [Internet]. 1177 Vårdguiden; [updaterad 2014-09-10; citerad 2015- 10-20]. Hämtad från: <http://www.1177.se/Vasterbotten/Tema/Barn-och-foraldrar/Barn-i-varden/Barn-med-funktionsnedsattning/Barn--och-ungdomshabilitering/>.
16. CPUP Uppföljningsprogram för cerebral pares. CPUP-vad är det? Internet. CPUP, Uppföljningsprogram för cerebral pares; 2013.
17. Hagglund G, Andersson S, Duppe H, Lauge-Pedersen H, Nordmark E, Westbom L. Prevention of severe contractures might replace multilevel surgery in cerebral palsy: results of a population-based health care programme and new techniques to reduce spasticity. *J Pediatr Orthop B.* 2005;14(4):269-73.
18. Tedroff K, Wide K. Regionalt vårdprogram Cerebral pares hos barn och ungdom. Stockholm: Stockholms läns landsting; 2014.



19. Graham HK, Boyd R, Carlin JB, Dobson F, Lowe K, Nattrass G, et al. Does botulinum toxin a combined with bracing prevent hip displacement in children with cerebral palsy and "hips at risk"? A randomized, controlled trial. *J Bone Joint Surg Am*. 2008;90(1):23-33.
20. Willoughby K, Ang SG, Thomason P, Graham HK. The impact of botulinum toxin A and abduction bracing on long-term hip development in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol*. 2012;54(8):743-7.
21. Pin TW, Elmasry J, Lewis J. Efficacy of botulinum toxin A in children with cerebral palsy in Gross Motor Function Classification System levels IV and V: a systematic review. *Dev Med Child Neurol*. 2013;55(4):304-13.
22. Jung NH, Heinen F, Westhoff B, Doederlein L, Reissig A, Berweck S, et al. Hip lateralisation in children with bilateral spastic cerebral palsy treated with botulinum toxin type A: a 2-year follow-up. *Neuropediatrics*. 2011;42(1):18-23.
23. Tedroff K, Lowing K, Haglund-Akerlind Y, Gutierrez-Farewik E, Forssberg H. Botulinum toxin A treatment in toddlers with cerebral palsy. *Acta Paediatr*. 2010;99(8):1156-62.
24. Novak I, McIntyre S, Morgan C, Campbell L, Dark L, Morton N, et al. A systematic review of interventions for children with cerebral palsy: state of the evidence. *Dev Med Child Neurol*. 2013;55(10):885-910.
25. Tedroff K, Granath F, Forssberg H, Haglund-Akerlind Y. Long-term effects of botulinum toxin A in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol*. 2009;51(2):120-7.
26. Pin T, Dyke P, Chan M. The effectiveness of passive stretching in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol*. 2006;48(10):855-62.
27. Gorter JW, Becher J, Oosterom I, Pin T, Dyke P, Chan M, et al. 'To stretch or not to stretch in children with cerebral palsy'. *Dev Med Child Neurol*. 49. England 2007. p. 797-800; author reply 799.
28. Wiart L, Darrah J, Kumbhani G. Stretching with children with cerebral palsy: what do we know and where are we going? *Pediatr Phys Ther*. 2008;20(2):173-8.
29. Katalinic OM, Harvey LA, Herbert RD. Effectiveness of stretch for the treatment and prevention of contractures in people with neurological conditions: a systematic review. *Phys Ther*. 2011;91(1):11-24.
30. Nyström Eek M, Alkema K, Granlund G, Haglöf Sevelin H, Oswald M, Petermann A, et al. Metoder för att bibehålla och förbättra ledrörlighet. Malmö: Föreningen Sveriges Habiliteringschefer; 2012.
31. Gibson SK, Sprod JA, Maher CA. The use of standing frames for contracture management for nonmobile children with cerebral palsy. *Int J Rehabil Res*. 2009;32(4):316-23.
32. Pin TW. Effectiveness of static weight-bearing exercises in children with cerebral palsy. *Pediatr Phys Ther*. 2007;19(1):62-73.
33. Dalén Y, Säaf M, Ringertz H, Klefbeck B, Mattsson E, Åkerlind-Haglund Y. Effects of standing on bone density and hop dislocation in children with severe cerebral palsy. *Advances in Physiotherapy*. 2010;12:187-93.
34. Martinsson C, Himmelmann K. Effect of weight-bearing in abduction and extension on hip stability in children with cerebral palsy. *Pediatr Phys Ther*. 2011;23(2):150-7.
35. Pountney TE, Mandy A, Green E, Gard PR. Hip subluxation and dislocation in cerebral palsy - a prospective study on the effectiveness of postural management programmes. *Physiother Res Int*. 2009;14(2):116-27.
36. Rodby-Bousquet E, Hagglund G. Sitting and standing performance in a total population of children with cerebral palsy: a cross-sectional study. *BMC Musculoskelet Disord*. 2010;11:131.
37. Brogren Carlberg E. Interventioner för att förbättra gångförmågan hos barn och ungdomar med cerebral pares –behandlingsrekommendationer. Malmö: Föreningen Sveriges Habiliteringschefer; 2006-2008, rev 2010.

38. Scholtes VA, Becher JG, Janssen-Potten YJ, Dekkers H, Smallegenbroek L, Dallmeijer AJ. Effectiveness of functional progressive resistance exercise training on walking ability in children with cerebral palsy: a randomized controlled trial. *Res Dev Disabil.* 2012;33(1):181-8.
39. Dewar R, Love S, Johnston LM. Exercise interventions improve postural control in children with cerebral palsy: a systematic review. *Dev Med Child Neurol.* 2015;57(6):504-20.
40. Lansdown G, Groce N, Deluca M, Cole E, et.al. Children and Young People with Disabilities -Fact Sheet. New York: UNICEF- Unite for children; 2013.
41. Dobson F, Boyd RN, Parrott J, Nattrass GR, Graham HK. Hip surveillance in children with cerebral palsy. Impact on the surgical management of spastic hip disease. *J Bone Joint Surg Br.* 2002;84(5):720-6.
42. Elkamil AI, Andersen GL, Haggglund G, Lamvik T, Skranes J, Vik T. Prevalence of hip dislocation among children with cerebral palsy in regions with and without a surveillance programme: a cross sectional study in Sweden and Norway. *BMC Musculoskelet Disord.* 2011;12:284.
43. Hägglund G, Westbom L. CPUP Årsrapport 2008. CPUP, Uppföljningsprogram för cerebral pares; 2009.
44. Hägglund G. Röntgenuppföljning i CPUP för att förhindra höftluxation. Internet. CPUP, Uppföljningsprogram för cerebral pares; 2015.
45. Manual till CPUP-fysioterapeuter-pappersformulär. Internet. CPUP, Uppföljningsprogram för cerebral pares; 2016.
46. Bedömnings – rapporteringsintervall i CPUP. Internet. CPUP, Uppföljningsprogram för cerebral pares; 2015.
47. Mutlu A, Livanelioglu A, Gunel MK. Reliability of goniometric measurements in children with spastic cerebral palsy. *Med Sci Monit.* 2007;13(7):Cr323-9.
48. Glanzman AM, Swenson AE, Kim H. Intrarater range of motion reliability in cerebral palsy: a comparison of assessment methods. *Pediatr Phys Ther.* 2008;20(4):369-72.
49. Hägglund G, Westbom L. CPUP Årsrapport 2014. CPUP, Uppföljningsprogram för cerebral pares; 2015.
50. Pons C, Remy-Neris O, Medee B, Brochard S. Validity and reliability of radiological methods to assess proximal hip geometry in children with cerebral palsy: a systematic review. *Dev Med Child Neurol.* 2013;55(12):1089-102.
51. Hägglund G, Lauge-Pedersen H, Wagner P. Characteristics of children with hip displacement in cerebral palsy. *BMC Musculoskelet Disord.* 2007;8:101.
52. Reimers J. The stability of the hip in children. A radiological study of the results of muscle surgery in cerebral palsy. *Acta Orthop Scand Suppl.* 1980;184:1-100.
53. Regler för forskning baserat på uppgifter ur CPUP-databasen. Internet. CPUP, Uppföljningsprogram för cerebral pares; 2011.
54. Hägglund G, Czuba T. CPUP-Årsrapport 2015. CPUP, Uppföljningsprogram för cerebral pares; 2015.
55. SBU. Kvalitetsgranskning av behandlingsstudier. Stockholm: Statens beredning för medicinsk utvärdering (SBU); 2014.