



저작자표시-비영리-동일조건변경허락 2.0 대한민국

이용자는 아래의 조건을 따르는 경우에 한하여 자유롭게

- 이 저작물을 복제, 배포, 전송, 전시, 공연 및 방송할 수 있습니다.
- 이차적 저작물을 작성할 수 있습니다.

다음과 같은 조건을 따라야 합니다:



저작자표시. 귀하는 원저작자를 표시하여야 합니다.



비영리. 귀하는 이 저작물을 영리 목적으로 이용할 수 없습니다.



동일조건변경허락. 귀하가 이 저작물을 개작, 변형 또는 가공했을 경우에는, 이 저작물과 동일한 이용허락조건하에서만 배포할 수 있습니다.

- 귀하는, 이 저작물의 재이용이나 배포의 경우, 이 저작물에 적용된 이용허락조건을 명확하게 나타내어야 합니다.
- 저작권자로부터 별도의 허가를 받으면 이러한 조건들은 적용되지 않습니다.

저작권법에 따른 이용자의 권리는 위의 내용에 의하여 영향을 받지 않습니다.

이것은 [이용허락규약\(Legal Code\)](#)을 이해하기 쉽게 요약한 것입니다.

[Disclaimer](#)

의학석사 학위논문

혼합모형을 이용한 뇌성마비
환자의 고관절 불안정성 진행 예측

2014년 8월

서울대학교 대학원
의학과 정형외과학전공
박재영

A thesis of the Master' s degree

Prediction of hip instability
progression in patients with
cerebral palsy
—mixed model approach—

August, 2014

Seoul National University

The Department of Orthopedic Surgery

College of Medicine

Park, Jae Young

초 록

서론: 고관절 불안정성은 뇌성마비 환자의 통증 및 기능장애를 일으키는 근골격계 합병증이다. 기존의 연구들은 고관절 불안정성이 진행성임을 기술하였지만 진행 속도나 위험인자, 그리고 대운동 기능 분류 시스템(Gross Motor Function Classification System, GMFCS) 단계와 진행 정도의 관계에 대한 연구는 부족한 실정이다. 본 연구에서는 뇌성마비 환자의 고관절 추적관찰 중 대운동 기능 분류 시스템(GMFCS) 단계에 따라 분류한 군에서의 영상의학적 소견 변화를 평가하여 고관절 불안정성의 진행속도 및 위험인자를 분석하여 예측 가능성 여부를 연구하였다.

방법: 2003 년 7 월부터 2013 년 4 월까지 본원을 방문해 2 회 이상 연속된 고관절 방사선촬영 기록을 가진 뇌성마비 환자들의 의무기록과 방사선 영상을 분석하였다. 과거 건절단수술 및 연장수술 등의 연부조직 수술, 대퇴골 및 골반골 절골수술 등 고관절 수술병력이 있거나 외상, 감염, 종양에 의한 고관절 변형이 있는 경우, 방사선 영상이 부적합한 경우, 뇌성마비 이외의 신경, 근육 이상이 있는 환자는 제외하고 선정된 환자의 방사선 사진에서 5 가지의 방사선 지표를 뇌성마비 환자의 고관절 불안정성 발생 위험을 판정하는데 적합한 인자로 선정하였다. 선정된 방사선 지표는 전이백분율 (migration percentage, MP), 대퇴경간각 (neck-shaft angle, NSA), 대퇴골두-간부각 (head-shaft angle,

HSA), 비구 지수 (acetabular index, AI), 그리고 골반 경사 (pelvic obliquity, PO)이며 신뢰도 시험 후 방사선 사진에서 측정하였다. 고관절 추적관찰 동안 방사선지표의 연별 변화를 분석하기 위해 선형 복합모델(linear mixed model, LMM)을 적용하여 GMFCS 단계에 따른 위험인자 보정을 거쳐 각각의 측정값을 기록하였다.

결과: 총 157 명의 환자의 방사선 사진 614 장을 평가했다. GMFCS 분류상 95 명은 I-III 단계, 32 명은 IV 단계, 그리고 30 명은 V 단계에 속했다. V 단계에 속한 환자군의 MP 는 7.1%/년 ($p=0.018$)의 속도로 통계적으로 의미 있게 증가했다. NSA 는 GMFCS 단계 I-III, IV, V 군에서 각각 3.2° /년 ($p<0.001$), 4.7° /년 ($p<0.001$), 5.3° /년 ($p<0.001$)씩 유의하게 증가하였으며 HSA 는 GMFCS V 단계 환자군에서 3.8° /년 ($p=0.003$)로 유의하게 증가한 데 반해 AI 와 PO 는 통계적으로 의미 있는 변화는 없었다.

결론: 본 연구는 뇌성마비 환자에서의 고관절 불안정성 진행 속도를 연구하고 불안정성 진행에 영향을 미치는 인자를 살펴봄에 GMFCS 와 진행 정도의 상관관계를 평가하였다. 고관절 불안정에 대해 수술하기 전 환자가 성장함에 따라 위험인자로 선정된 방사선 지표 중 전이백분율 (migration percentage, MP), 대퇴경간각

(neck-shaft angle, NSA), 대퇴골두-간부각(head-shaft angle, HSA)이 증가되었고 그 속도는 GMFCS 단계에 따라 유의하게 다르다는 사실을 발견했다. GMFCS V 단계에서 고관절 불안정 진행의 위험인자로서 위 3 가지 방사선 지표가 통계적으로 유의하였으며 이를 통해 보행이 불가능한 GMFCS V 단계환자에서 정기적인 방사선학적 고관절 추적관찰의 필요성을 입증하였다.

주요어: 뇌성마비, 고관절 불안정성, 방사선 지표, 대운동 기능 분류 시스템 (Gross Motor Function Classification System)
학 번: 2003 - 23807

목 차

초록.....	i
목차.....	iv
표 및 그림 목록.....	v
서론.....	1
연구재료 및 방법.....	4
결과.....	14
고찰.....	15
참고문헌.....	26
초록 (영문).....	32

표 및 그림 목록

그림 1 선정 및 제외 기준	5
그림 2 전이백분율과 대퇴경각간이 표시된 고관절 내회전방사선 사진.....	9
그림 3 대퇴골두-간부각과 비구지수가 표시된 고관절 내회전 방사선 사진.....	10
그림 4 골반 경사가 표시된 고관절 방사선 사진	11
표 1 환자정보 요약.....	16
표 2 관찰자내부와 관찰자간 신뢰도.....	17
표 3 전이백분율에 영향을 주는 인자.....	18
표 4 대퇴경각간에 영향을 주는 인자.....	19
표 5 대퇴골두-간부각에 영향을 주는 인자	20

서론

뇌성마비(cerebral palsy)는 태어나 신생아의 두뇌에 발생한 비진행성 손상에 의해 나타난 영구적인 발달 장애들을 일컫는 통칭이다. 뇌성마비는 직관적으로 쉽게 정의 내릴 수 있는 질환이 아니며 일종의 질환군으로 1860년대 Little's disease로 정의된 이래 뇌의 발달과 관련된 방사선학적 기법 및 신경생리학, 병리학이 발달함에 따라 원인기전에 대한 연구가 많이 진행되어 새로운 정의의 필요성이 제기되었다. 2005년 Bax등은 뇌성마비란 태어나 미성숙 뇌에서 발생하는 비진행성 장애에 의한 활동제한으로 동작과 자세에 영향을 미치는 이상이며 뇌성마비의 운동장애는 간질발작 및 감각, 지각, 인지기능, 의사소통과 행동의 장애를 동반하는 질환이라 정의하였다. (1)

이 후 영구적인 장애라는 내용과 이차적 근골격계 문제를 수반하는 내용이 추가되었으며 운동장애의 중증도에 대한 표준적인 체계에 대한 필요성이 대두되어 1997년 Palisano등에 의해 발표된 대운동 기능 분류 시스템 (Gross Motor Function Classification System, GMFCS)의 문제점을 보완하고 적용 연령을 확대하여 새로 개정된 GMFCS를 사용하고 있으며 이는 뇌성마비 환자의 보행기능에 기반을 둔 기능적 분류의 근간을 이루고 있다.

GMFCS는 환자를 5개의 연령군으로 나누고 환자의 최대 능력치가 아닌 일상의 활동을 평가하여 5개의 단계로 분류하였다. I 단계는 특별한 제한 없이 보행 가능하며 II 단계는 제한이 있는 보행으로, I 단계의 환자에 비해 장거리 보행과 균형을 잡는데 어려움을 갖는다.

계단을 오르내릴 때 난간을 잡아야 하고 달리기와 뛰기를 할 수 없다. III 단계는 실내에서 보행할 때 손으로 잡는 보행보조기가 필요하고 실외에서는 바퀴가 달린 이동장치를 사용하여 걸을 수 있다. IV 단계는 혼자서 앉아 있을 수 있지만 독립적인 이동은 제한적으로 신체적인 보조가 있거나 전동장치가 있어야 이동 가능한 상태이다. V 단계는 목과 몸통을 가누지 못하고 상당한 보조 및 신체적 보조가 필요한 상태로 전동 이동장치의 상당한 개조를 통해 이동이 가능하다. (2)

뇌성마비 환자의 유병률은 생존 출생아 1000명당 2-3.2명 정도로 추산되며 남아가 여아보다 높다. 대한민국에서 2004년부터 2008년 사이 유병률이 증가되었는데 이는 조산아의 생존율이 향상된 것에 기인한다. (2-4)

뇌성마비 환자는 근골격계의 이상으로 인해 일상생활이나 몸의 자세를 취하거나 유지하는데 있어서 많은 제약을 받는데, 흔한 문제 중 하나는 고관절 탈구이다. (5) 고관절 불안정성 (아탈구 또는 탈구)은 뇌성마비 환자의 21%정도에서 발생하며 (6), 특히 사지마비형 뇌성마비 환자의 50%에서 나타난다. (7) 고관절의 불안정성은 통증, 심한 관절 구축, 변형, 척추측만증 등을 유발해 자세를 취하거나 일어서고 앉고 걷는 동작도 어렵게 한다. (5, 8) 고관절 불안정성은 영상의학적 검사와 이학적 검사, 대퇴골두 전이의 예방적 치료를 통해 예측 가능하다. (9, 10) 뇌성마비 환자의 일상적인 임상적 평가가 뇌성마비 치료의 일부이므로, 고관절 탈구와 관계된 위험인자와 특성을 이해하는 것은 매우 중요하다 할

수 있다.

뇌성마비 환아에서는 고관절 탈구가 15-20%정도 보고 된다. (5, 11) 뇌성마비 환자의 고관절 불안정성과 연관된 위험인자는 여러 가지가 있고 몇몇 보고가 나와있다. 그 중 한가지는 대근육운동 (gross motor disability)장애와 GMFCS의 연관성이다. GMFCS는 뇌성마비 환자의 고관절 불안정성을 예측하는데 중요하다.

대근육운동 장애가 심할 때 고관절 불안정성은 증가되며 특히 GMFCS에서 V 단계이상으로 판정된 아동이 가장 고위험군에 속한다. (8, 12) 추가적으로, 뇌성마비의 아형도 고관절 불안정성과 관계가 있는데 예를 들자면 사지마비형에서 편측마비형보다 고관절 탈구가 자주 발생한다. (11, 13)

뇌성마비 환자의 고관절 불안정성을 평가하기 위해서는 방사선학적 검사가 주로 이용되며 일반적으로 전이백분율 (migration percentage, MP), 대퇴경간각 (neck-shaft angle, NSA), 그리고 대퇴골두-간부각 (head-shaft angle, HSA) 측정이 뇌성마비 환자의 고관절 불안정성 평가에 사용되고 있다. 이 방사선 지표들은 GMFCS 단계가 높을수록 수치가 상승하는 경향을 보인다. (14) 몇몇 문헌들에서는 MP, NSA, 그리고 골단의 형태 (epiphyseal shape)도 고관절 불안정성 측정에 유용한 것으로 보고 있는데 뇌성마비 환자의 탈구 발생과 관련이 있는 것으로 나타나기 때문이다. (15) 또한 NSA, 대퇴경부 전염각 (femoral anteversion), 그리고 대퇴 오프셋 (femoral offset), 내측 오프셋 (medial offset) 등의 수치가 전산화 단층촬영에서 고관절 불안정성 평가에

통계적으로 유의한 변수로 보고되고 있다. (16) 기존의 연구에서 뇌성마비 환자에서 고관절의 불안정성이 진행된다는 보고는 있었으나 추적관찰중의 진행 속도나 영향을 주는 인자, 그리고 GMFCS 등급과 진행 정도의 연관성에 대해서는 소수의 보고들이 있을 뿐 충분한 연구가 되어 있지 않다. 그리고 영향 인자와 척추측만증, 비구 이형성(acetabular dysplasia) 및 성별과의 관계 또한 보고된 바가 적다.

본 연구는 뇌성마비 환자에 있어서 고관절의 불안정성의 진행에 영향을 주는 인자들을 살펴보고 GMFCS 단계에 따른 방사선학적 지표를 평가하여 고관절 불안정성 진행 속도를 측정하는데 목표를 두었다.

연구 재료 및 방법

이 후향적 연구는 뇌성마비 3차 의뢰기관인 본 병원의 IRB를 통과했음을 밝힌다. 2003년 7월부터 2013년 4월까지 본원에 내원한 뇌성마비 환자들을 대상으로 하였으며 연속하여 2회 이상 고관절 방사선사진 촬영 기록이 있던 환자들을 포함시켰다. 제외기준은 다음과 같다. : (1) 건절단수술 및 연장수술 등의 연부조직수술, 대퇴골 및 골반골 절골수술등 고관절 수술병력; (2) 감염, 종양에 의한 고관절의 변형; (3) 방사선 영상이 부적합하거나 영상의 수가 충분치 않은 경우; (4) 뇌성마비 이외의 신경계 또는 근육이상 동반 (그림 1).

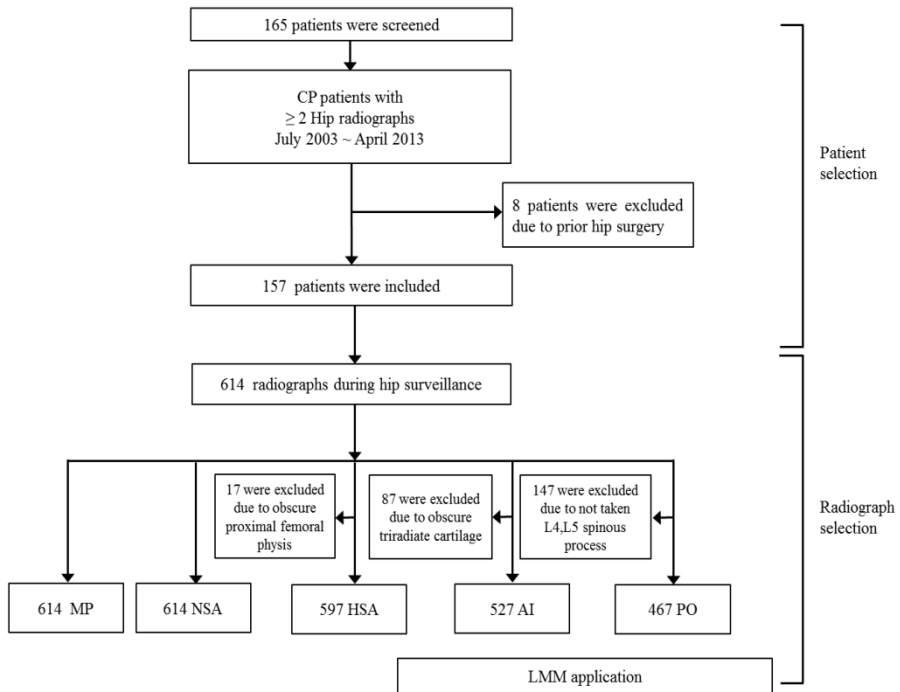


그림 1. 선정 및 제외 기준. CP = 뇌성마비, cerebral palsy; MP = 전이백분율, migration percentage; NSA = 대퇴경간각, neck-shaft angle; HSA = 대퇴골두-간부각, head-shaft angle; AI = 비구 지수, acetabular index; PO = 골반 경사, pelvic obliquity; LMM= 선형혼합 모델, linear mixed model

의무기록을 통해 연령과 성별 등의 기초 자료를 확인하였으며 고관절 침범 정도 (편측성 또는 양측성), 환부 (좌 또는 우), 그리고 GMFCS로 평가된 기능적 단계에 대한 자료도 조사하였다.

고관절 방사선 사진은 환자가 누워서 고관절을 약 30도 내회전 시킨 자세에서 촬영했다. (17) 굴곡구축이 있는 환자는 임상 프로토콜에 따라 환자의 고관절, 슬관절을 조심스럽게 신전한 후 촬영하였다.

방사선 사진 촬영은 초점-수상면 거리 약 100 cm, 60 kVp, 10 mAs의 사양을 갖춘 UT 2000 unit (Philips®, Eindhoven, Netherlands)을 사용하였다. 모든 촬영은 의료 영상 저장 전송 시스템 (picture archiving and communication system, PACS; Infinitt®, Seoul, Korea)을 통해 디지털로 기록되었으며, 이를 이용하여 지수를 측정하였다.

합의 형성 및 측정 (consensus building and measurement)

각각 25, 14, 12, 8, 5년의 정형외과적 임상경험을 가진 5명의 정형외과 전문의가 방사선 사진 측정과 판정을 위한 합의 형성 모임(consensus-building session)을 진행했다. 연관된 보고들을 검토하였으며 (18-23), 패널에 의해 5가지의 방사선 지표가 합의, 선정되었다. 이는 뇌성마비 환자의 고관절 불안정성 발생 위험을 판정하는데 적합하다고 인정되는 방사선 지표들로서, 연속적으로 촬영된 고관절 방사선 사진에서의 전이백분율 (migration

percentage, MP) (20), 대퇴경간각 (neck-shaft angle, NSA) (18, 19), 대퇴골두-간부각 (head-shaft angle, HSA) (22), 비구 지수 (acetabular index, AI) (23), 그리고 골반 경사 (pelvic obliquity, PO) (21) (그림 2,3,4) 였다.

전이백분율 (migration percentage)

전이백분율은 Perkin 선 (A)에서 대퇴골두의 외측으로 전이한 쪽의 대퇴골두 (B) 전체의 폭에 대한 비율, $MP=A/B$ 로 계산하였다. (20, 24) (그림 2)

대퇴 경간각 (neck-shaft angle)

대퇴 경간각은 대퇴골두의 중심과 대퇴경부의 중심축을 연결한 선과 대퇴골 간부의 중심축을 이루는 선이 만나는 각도를 측정하였다. 대퇴골두의 중심은 대퇴골두에 가장 잘 맞는 원의 중심으로 정의하였다. (18, 19) (그림 2)

대퇴골두-간부각 (head-shaft angle)

대퇴골두-간부각은 대퇴간부의 중심축을 이루는 선과 대퇴골의 근위 성장판 선의 중심에서 수직으로 그은 선이 만나는 각도를 측정하였다. (22) (그림 3)

비구지수 (acetabular index)

비구지수는 비구개의 경사도로서 Hilgenreiner 선과 비구개 상외측연에서 삼방연골까지 그은 선이 이루는 각을 측정하였다.

(23) (그림 3)

골반 경사 (pelvic obliquity)

골반경사는 먼저 제 4, 5 요추 극돌기를 연결하여 선을 만들고, 양측 장골능선의 가장 높은 부분을 연결한 선에 수직으로 만나는 선을 그린 후 이 두선이 이루는 각으로 측정하였다. (21) 골반경사는 이 각이 3 도 이상일 때 양성 (+)으로 정의하였으며, 3 도 미만일 때는 음성 (-)으로, 방사선 검사가 적절하게 이루어지지 않았을 경우는 측정불가로 기록하였다. (그림 4)

신뢰도 시험

관찰자간 신뢰도 시험은 주요 측정변수를 얻기 전에 진행되었으며 정형외과적 임상경험이 각각 9, 8, 5년인 전문의 3명이 급내상관계수(ICCs)를 계산하였다. 이 세 명의 연구자들이 각각 환자의 임상적인 정보나 다른 연구자의 측정치는 모르는 상태에서 방사선 지표를 측정하고 한 명의 연구자는 3주 후에 다시 측정하여 관찰자 내부 신뢰성을 평가하였다. 36명의 환자에 대해 시행한 이 시험에서 목표 ICC는 single measurement, absolute agreement 조건하에 0.8, 95% 신뢰 구간의 크기를 0.2로 설정하였다. (25)

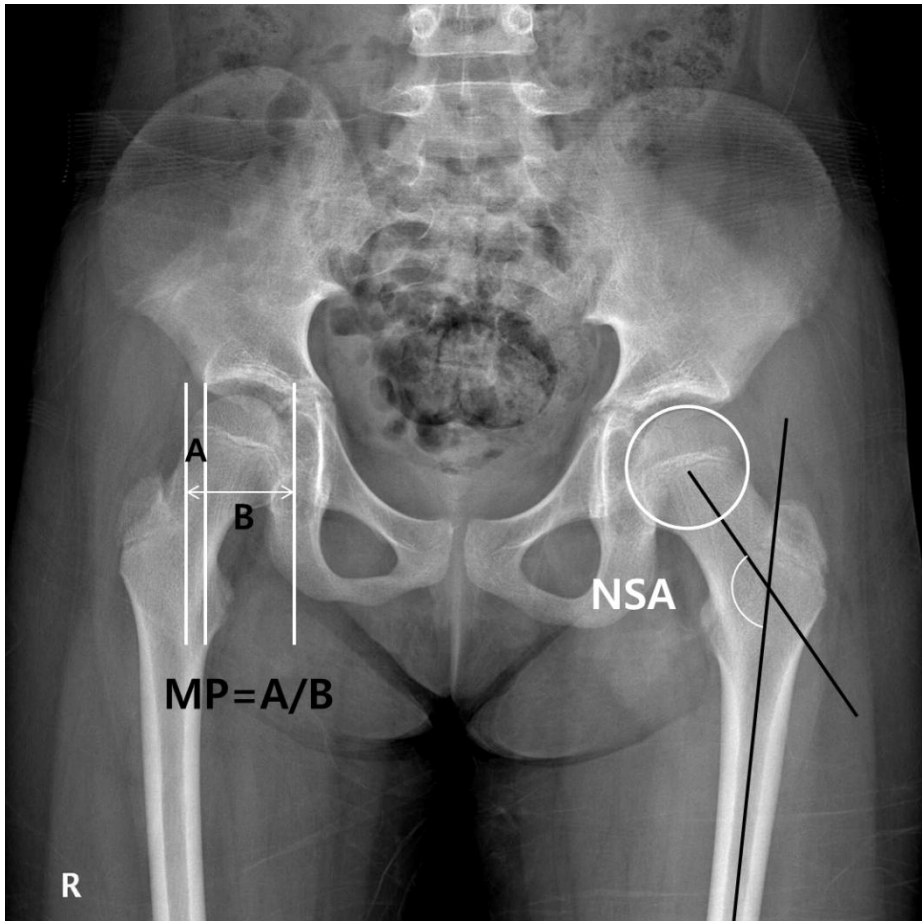


그림 2. 고관절 내회전 사진. 우측 고관절에 전이백분율 (MP, migration percentage), 좌측 고관절에는 대퇴경간각 (NSA, neck-shaft angle)을 표시하였다. 전이백분율은 Perkin 선 (A)에서 대퇴골두의 외측으로 전이한 폭을 대퇴골두 (B) 전체의 폭으로 나눈 값, $MP=A/B$ 로 계산하였다. 대퇴경간각은 대퇴골두의 중심과 대퇴경부의 중심축을 연결한 선과 대퇴골 간부의 중심축을 이루는 선이 만나는 각도를 측정하였다. 대퇴골두의 중심은 대퇴골두에 가장 잘 맞는 원의 중심으로 정의하였다.

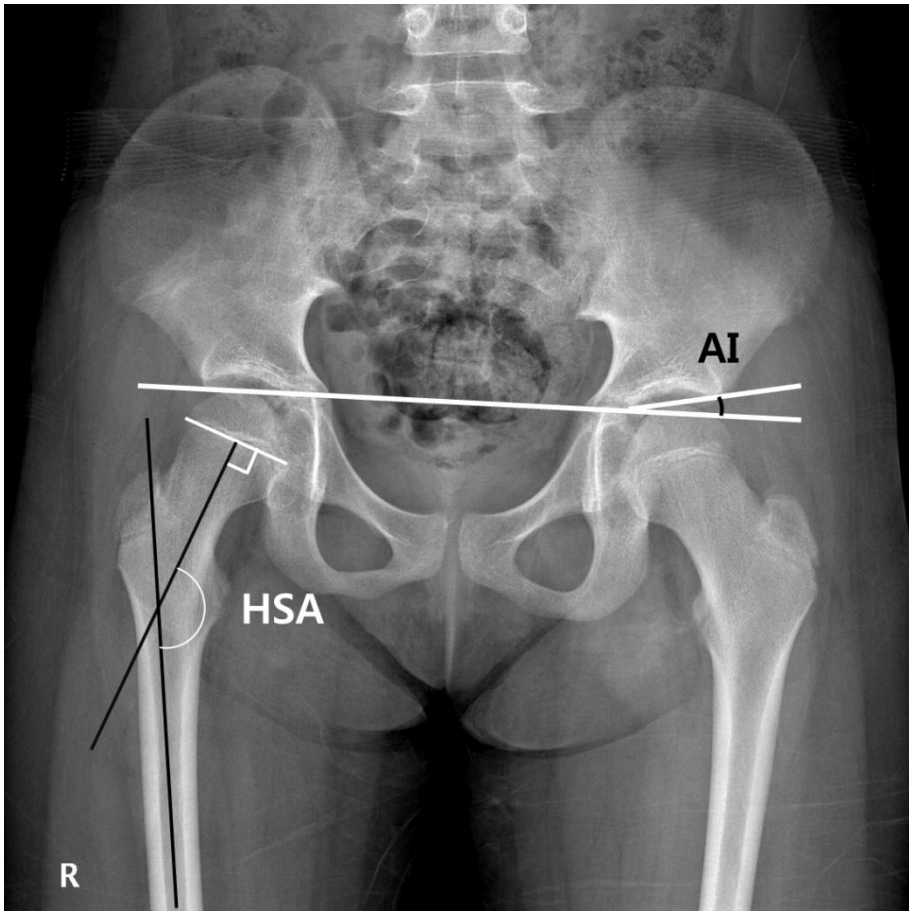


그림 3. 고관절 내회전 사진. 우측 고관절에 대퇴골두-간부각 (HSA, head-shaft angle)을 좌측 고관절에는 비구지수 (AI, acetabular index)를 표시하였다. 대퇴골두-간부각은 대퇴간부의 중심축이 이루는 선과 대퇴골의 근위 성장판 선의 중심에서 수직으로 그은 선이 만나는 각도를 측정하였다. 비구지수는 비구개의 경사도로서 Hilgenreiner 선과 비구개 상외측연에서 삼방연골까지 그은 선이 이루는 각을 측정하였다.



그림 4. 고관절 내회전 사진. 골반 경사 (PO, pelvic obliquity)는 먼저 제 4, 5 요추 극돌기를 연결하여 선을 만들고, 양측 장골능선의 가장 높은 부분을 연결한 선에 수직으로 만나는 선을 그린 후 이 두선이 이루는 각으로 측정하였다.

선형 혼합모델의 구성 (building a linear mixed model)

신뢰도 구축후, 5년간의 정형외과적 임상 경험이 있는 한명의 의사가 모든 영상을 평가하였다. 환자의 연령, 성별, 좌우, 그리고 촬영일자가 모두 측정 정보에 포함되었다. 고관절 추적관찰 동안 방사선 지표의 연별 변화를 분석하기 위해 선형혼합모델 (LMM)을 적용하였다. 연구에 참여하지 않는 보조자가 측정치를 집계하였다.

LMM은 장기간의 연구에 적용되는 매개변수 선형모델로서, 연속된 종속변수와 다양한 예측변수사이의 연관성을 양적으로 수치화시켜 대상내부와 대상들 사이의 변동과 경시적 자료의 상관관계를 분석에 포함시킬수 있게 해준다. LMM은 고정효과와 랜덤 효과들로 이루어지는 통계학적 모델이다. 고정효과란 무작위가 아니면서 측정 가능한 범주로서, 성별과 같은 것이 있다. 랜덤 효과란 일정 인구내에서 개인에게 부여 될 수 있는 인자들로서 개인들 간의 변동을 의미한다. 그러므로, 고관절 불안정성의 연별 변화를 복합모델로 분석하는 것은 임상에서는 더욱 실용적인 정보를 제공할 수 있다고 하겠다.

각각의 GMFCS 단계에 대해 MP, NSA, HSA, AI, PO 측정치는 LMM 을 이용하여 영향 인자에 대해 보정했다. 이 보정에는 성별을 고정효과로, 그리고 고관절 추적관찰 기간, 좌우 (26), 각 대상을 랜덤 효과로 적용하였다. 공분산 구조는 분산 성분으로 간주 되었으며 추정 방법으로는 제한최대가능도 추정 (RMLE)으로 불편 추정량을 추출해냈다. LMM 으로 성별을 공변량으로 하여, 연속적인

고관절 추적관찰 기간을 포함시킴으로써 대퇴골두의 외측 전이 진행 속도를 예측할수 있었다. 추적관찰 기간과 개인의 고관절 불안정성이 변하는 패턴은 random slope 과 random intercept 모델을 나타내었다. 고관절 추적관찰 기간, 성별, 연령의 선형효과는 5 가지 측정치의 예측값을 구하기 위해 통합되었다.

통계 방법

본 연구에서는 신뢰도는 ICC와 2-way 랜덤 효과 모델을 이용하였으며, single measurement, absolute agreement (27, 28) 조건하에 ICC 목표치 0.8을 적용하고 Bonett's approximation 으로 95% 신뢰 구간의 크기를 0.2로 설정하였다. (25) 기술 통계로 환자의 인구학적, 영상의학적 측정 자료를 요약하였다

본 연구에는 양측성 케이스도 포함되었다. 어느 연구의 권고 (26)에 따라 대상자 내의 자료 의존도를 고려하기 위해 LMM을 적용하였다. 또한 추가적으로 측정변수 (MP, NSA, HSA, AI, and PO)에 대해 공변량 영향을 평가하고 3회 측정값에 의미 있게 영향을 줄 수 있는 측정자체의 변수 (factor)를 살펴보기 위해 LMM을 적용했다.

통계학적 분석은 NLME 패키지의 R version 2.15.2 (R Foundation for Statistical Computing, Vienna, Austria)를 이용하였다. 모든 통계는 양측 검정을 사용하였고 유의수준 5%를 적용하였다.

결 과

본 연구에는 총 165명의 환자 중 고관절 수술병력을 가진 8명을 제외한 157명의 환자들이 포함되었다. 평균 연령은 만 11.5 ± 8.7 세였으며 고관절 추적관찰을 시행한 기간은 평균 2.9 ± 0.9 년이었다. 대상 환자 중 16명 (10.8%)은 편측성, 경직성, 141명 (89.2%)은 양측성, 경직성 환자였으며, 95명 (60.5%)은 GMFCS I-III 단계에 포함되었고 32명 (20.4%)은 GMFCS IV 단계, 그리고 30명 (19.1%)은 GMFCS V 단계로 분류되었다. (표 1).

관찰자간 신뢰도에 관해서는, 모든 영상의학적 측정치가 높거나 최고 수준의 신뢰도를 보였다. 관찰자내부 신뢰도와 관찰자간 신뢰도 모두 MP가 가장 높았다. (ICC, 각각 0.989와 0.977) 관찰자내부 신뢰도와 관찰자간 신뢰도가 가장 낮았던 것은 PO였다. (ICC 각각 0.912와 0.716) (표 2)

MP, NSA, HSA, AI, PO 측정치는 성별과 좌우, 추적관찰기간 각 GMFCS 단계에 따른 보정을 시행했다. MP는 GMFCS V 단계군에서 관찰기간에 유의하게 영향을 받은 것으로 보이는데 연간 7.1%씩 증가했다 ($p=0.018$) (표 3). NSA 또한 관찰기간에 따라 유의하게 증가하였는데 GMFCS I-III, IV, V 단계군에서 NSA는 각각 3.2° /년 ($p<0.001$), 4.7° /년 ($p<0.001$), 5.3° /년 ($p<0.001$)씩 증가했다 (표 4). HSA는 관찰기간을 보정한 결과에서 GMFCS V 단계군에서 유의하게 변화가 있었는데, 3.8° /년의 상승속도를 보였다 ($p=0.003$) (표 5). AI와 PO는 성별, 좌우,

관찰기간 보정 후 유의한 변화가 없었다.

고 찰

본 연구는 뇌성마비 환자에서의 고관절 불안정성 진행 속도를 연구하고 불안정성 진행에 영향을 미치는 인자를 살펴보고 GMFCS 와 진행정도의 상관관계를 평가하는 것에 목표를 두었다. 우리의 결과는 수술하기 전 환자가 성장함에 따라 NSA, HSA, MP 가 증가되었으며 그 진행속도는 GMFCS 단계에 따라 다르다는 것이다. 또한 MP, NSA, HSA 는 GMFCS 단계가 높을수록 증가되는 경향이 있고, 이는 기능적으로 좋지 않을수록 근위 대퇴골이 더 외반되고 고관절은 더 불안정해진다는 것을 의미한다. 이 결과는 기존의 연구들과도 일치한다. (29, 30)

본 연구의 제한점은 다음과 같다. 첫 번째로 후향적 연구였기에 동일한 프로토콜이 엄격하게 적용되었다고는 보기 어려운 점, 두 번째로 방사선 사진 촬영 자료를 이용해서 측정한 것이므로 촬영 시 내회전의 정도에 따라 측정각도에 영향을 줄 수 있다는 점이다. 이상적으로는 내회전 방사선 사진 촬영이 대퇴골두와 대퇴골 경부가 방사선의 방향에 정확히 직각으로 놓여진 상태로 이루어져야 한다. 실제 임상에서는 각 환자의 정확한 대퇴경부전염각을 모르는 상태에서 내회전 방사선 사진을 촬영한다. 하지만 대퇴골의 내회전시 대퇴골의 NSA 계측은 10° 내의 오차로

표 1. 환자정보 요약

	Parameters	Values
Patient's Information	No. of patients (Male/Female)	157(104/53)
	CP type (Unilateral/Bilateral)	16/141
	GMFCS level (I-III/IV/V)	95/32/30
	Follow-up duration	2.9 ± 0.9
Radiographic characteristics	NSA (°)	
	Initial	146.9 ± 9.9
	Last F/U.	151.9 ± 10.6
	HSA (°)	
	Initial	160.3 ± 9.5
	Last F/U.	161.9 ± 9.6
	MP (%)	
	Initial	31.8 ± 22.7
	Last F/U.	35.7 ± 23.5
	AI (°)	
	Initial	21.6 ± 7.4
	Last F/U.	22.7 ± 7.8
	PO (-/+/uncheckable)	
	Initial	101/33/23
	Last F/U	90/39/28

GMFCS, gross motor function classification system; NSA, neck shaft angle; HSA, head shaft angle; MP, migration percentage; AI, acetabular index; PO, pelvic obliquity

표 2. 관찰자내부와 관찰자간 신뢰도

Measurements	Intra-observer reliability		Inter-observer reliability	
	ICC	95% CI	ICC	95% CI
NSA	0.969	0.940-0.984	0.900	0.761-0.954
HSA	0.914	0.825-0.957	0.856	0.704-0.928
MP	0.989	0.965-0.996	0.977	0.959-0.987
AI	0.937	0.821-0.971	0.732	0.589-0.841
PO	0.912	0.835-0.954	0.716	0.568-0.831

ICC, intraclass correlation coefficient; CI, confidence interval; NSA, neck shaft angle; HSA, head shaft angle; MP, migration percentage; AI, acetabular index; PO, pelvic obliquity

표 3. 전이백분율에 영향을 주는 인자

		Estimate	95% CI	p
		(%)		
<u>GMFCS level</u>				
<u>I-III</u>				
	(Intercept)	22.5	15.4 to 29.6	<0.001
Gender	Male	-9.5	-17.8 to -1.1	0.027
Side of hip	Right	-3.4	-7.4 to 0.7	0.100
Follow up	Year	-0.04	-0.5 to 0.4	0.868
<u>GMFCS level</u>				
<u>IV</u>				
	(Intercept)	41.0	23.5 to 58.6	<0.001
			-27.5 to	
Gender	Male	-5.9	15.8	0.588
Side of hip	Right	2.8	-15.5 to 9.7	0.652
Follow up	Year	7.8	-1.8 to 17.3	0.107
<u>GMFCS level</u>				
<u>V</u>				
	(Intercept)	53.3	31.9 to 74.7	<0.001
			-15.9 to	
Gender	Male	7.5	12.9	0.522
			-31.2 to -	
Side of hip	Right	-15.1	0.9	0.064
Follow up	Year	7.1	1.3 to 12.9	0.018

GMFCS, gross motor function classification system; CI, confidence interval

표 4. 대퇴경간각에 영향을 주는 인자

		Estimate	95% CI	p
		(°)		
<u>GMFCS level</u>				
<u>I-III</u>				
	(Intercept)	146.6	143.2 to 149.9	<0.001
Gender	Male	-0.6	-4.6 to 3.4	0.077
Side of hip	Right	-2.9	-4.4 to -1.5	<0.001
Follow up	Year	3.2	1.9 to 4.4	<0.001
<u>GMFCS level</u>				
<u>IV</u>				
	(Intercept)	154.8	149.9 to 159.7	<0.001
Gender	Male	-1.2	-7.4 to 4.9	0.691
Side of hip	Right	-2.9	-5.3 to -0.4	0.023
Follow up	Year	4.7	2.3 to 7.1	<0.001
<u>GMFCS level</u>				
<u>V</u>				
	(Intercept)	155.1	150.3 to 159.9	<0.001
Gender	Male	-1.7	-13.2 to 9.8	0.774
Side of hip	Right	-3.7	-6.4 to -0.9	0.010
Follow up	Year	5.3	2.9 to 7.6	<0.001

GMFCS, gross motor function classification system; CI, confidence interval

표 5. 대퇴골두-간부각에 영향을 주는 인자

		Estimate	95% CI	<i>p</i>
		(°)		
<u>GMFCS level</u>				
<u>I-III</u>				
	(Intercept)	160.8	157.4 to 164.3	<0.001
Gender	Male	-2.5	-6.6 to 1.6	0.225
Side of hip	Right	-1.4	-4.4 to -1.5	0.094
Follow up	Year	-0.2	-1.3 to 0.8	0.669
<u>GMFCS level</u>				
<u>IV</u>				
	(Intercept)	166.4	161.5 to 171.3	<0.001
Gender	Male	-2.2	-8.4 to 4.0	0.481
Side of hip	Right	-0.9	-2.9 to 1.1	0.382
Follow up	Year	-0.2	-2.7 to 2.3	0.878
<u>GMFCS level</u>				
<u>V</u>				
	(Intercept)	163.5	158.4 to 168.5	<0.001
Gender	Male	3.7	-2.0 to 9.4	0.199
Side of hip	Right	-2.5	-5.3 to 0.4	0.085
Follow up	Year	3.8	1.4 to 6.2	0.003

GMFCS, gross motor function classification system; CI, confidence interval

측정 가능하게 한다. (24) 또한, Reimers 와 Bialik 를 비롯한 기존의 연구들에 의하면, 고관절의 MP 측정치는 중립이나 내회전 자세에서 유의하게 다르지 않다고 보고되었다. (31) 세번째로는 일부의 고관절 사진에서 환아의 골성숙에 따라 대퇴골두의 성장판과 삼방연골 (triradiate cartilage)이 모호하게 나타나 있어 HAS 와 AI 를 측정하지 못한 경우도 있었다. 마지막으로, 어떤 사진에서는 제 4 또는 제 5 요추의 극돌기가 찍히지 않거나 회전되어 PO 를 측정하지 못하였다. 이러한 경우들에서는 결측값으로 LMM 을 적용하였다.

고관절 불안정성은 그 정도에 따라서 고관절 아탈구, 탈구로 나눌 수 있다. 고관절 탈구는 경직성 마비 환자 중 보행이 불가능한 환자에서 많이 발생하는데 70-90%에서 사지마비형에서 발생하며 출생 시에는 탈구가 없다가 성장하면서 불안정성이 진행하게 되며 5-7 세 사이에 탈구가 발생하게 된다. 탈구가 발생하는 이유는 다양한데 고관절 주위의 근력의 불균형, 체중부하의 지연, 외반고, 고관절 전염각의 증상, 비정상적인 자세반응, 비구 이형성증 등이다. 아탈구인 경우에는 고관절의 내전 변형 외에 특별한 증상이 없으나 탈구가 되면 통증이 발생하게 되며 앉을 때의 불균형과 회음부 청결에 문제가 발생하여 삶의 질이 저하되고 환자 청결 유지가 힘들어진다. 따라서 고관절 불안정이 진행하여 탈구가 될 확률이 높은 경우 고관절 추시검사를 통해 조기 발견하여 적절한 수술을 함으로써 더 침습적인 수술을 예방하고 고관절 탈구를 막는 것이 중요하다. (2)

경직성 뇌성마비 고관절병변의 자연 경과는 운동제한과 고관절 내전, 굴곡근육의 경직성 과다근육긴장(hypertonia)에 의해 2 차적으로 발생하는 진행성 고관절의 외측 전이다. (32) 고관절 전이의 정도를 평가하기 위해 가장 많이 인정되고 재현성 높은 지수는 MP (33, 34)이며 이는 대퇴골두가 비구내의 관상면상에서 유치 되어 (containment)있는 정도를 의미한다. (35) Reimers 는 고관절의 불안정성 평가에 MP 가 중요하며 수술전 계획을 세우는데 가장 중요한 지표라고 하였다. (31) MP 는 고관절 탈구의 선형 측정으로서 가장 의미 있고 신뢰성이 높으며 유용한 방사선 지표이므로 (33, 34), 연구자들은 여러 방사선 지표들 중에 MP 를 선택해서 관찰기관 동안 주목하였다. 또한 본 연구에서 고관절 불안정성의 진행에 있어서 가장 중요하고, 상관관계가 높은 지수가 GMFCS 단계임을 확인했다. 거기에 더해서 GMFCS 단계와 MP 측정값의 연관성도 입증하였는데, 단계가 높을수록 MP 도 높아지는 경향이 있고, 과거의 연구들도 비슷한 상관관계를 보고한바 있다.

Soo 등 (12)은 고관절 탈구와 환자의 GMFCS 단계의 선형 상관관계를 확인하였으며, Lee 등(15)은 MP 가 GMFCS 단계가 올라갈수록 증가되어 고관절이 불안정해짐을 입증하였다. 대근육운동장애(gross motor disability)가 심해질수록 고관절 불안정성의 위험성은 높아져서 GMFCS 높은 환자에서 가장 높은 경향을 보인다. (8, 12) Terjesen 등 (36)은 GMFCS IV 단계나 V 단계환아의 63%에서 고관절 탈구가 발생하며, 기능적 단계가 증가함에 따라 MP 도 증가하여 GMFCS I 단계군에서는 0.2%/년씩

증가하고 V 단계 군에서는 9.5%/년의 증가 양상을 보인다고 하였다. MP 를 이용해 고관절 불안정 여부를 감별할 수 있는데 Cornell 등 (2)은 MP 가 30%이상일 때 고관절 탈구가 진행될 가능성이 높다고 하였고 Robin 등 (2, 30)은 GMFCS IV, V 단계 환자들의 MP 가 30%보다 큰 역치에 이른다고 하였으며 Shea 등 (2)은 MP 가 33%미만이면 안정된 관절, 33-66%는 아탈구, 66%이상은 탈구로 정의하였다. 보행 불가능한 환아 (GMFCS IV, V 단계)군과 보행 가능한 환아군의 차이는 유의하게 컸다. 하지만 그들의 보고는 기술 통계만을 제시하여 추가적인 추론이 불가능하다. 본 연구에서는 적절한 통계적 방법 (LMM)이 적용되어 통계학적으로 신뢰성이 높다. MP 측정값은 GMFCS V 단계의 환자들에서 추적 측정기간이 늘어날수록 유의하게 상승했으며 7.1%/년의 증가속도를 보였다.

정상 아동에서 진행된 기존의 연구는 연령이 증가하면서 NSA 는 서서히 감소하는 양상을 보여주었다. 간접측정 결과를 보면 출생시 135° - 140° 에서 골성숙이 오는 연령대에 125° 까지 줄어든다. 하지만 뇌성마비 환자에서는 NSA 가 정상에 비해 30° - 50° 증가된 양상이 관찰된다. (37) 이 연구에서 첫 번째와 마지막 NSA 측정치는 각각 $146.9^{\circ} \pm 9.9^{\circ}$ 와 $151.9^{\circ} \pm 10.6^{\circ}$ 였다.

외반고 (coxa valga)는 뇌성마비 환자의 흔한 대퇴 근위골의 기형이다. 이 기형은 고관절의 불안정성을 유발하고 (38, 39) 기능적 장애를 가져오며 (30), 이는 본 연구에서와 같이 고관절의 내회전 방사선 사진에서 NSA 를 측정함으로써 쉽게 확인 가능하다. (18,

19) 외반고와 지나친 대퇴경부전염 (femoral anteversion)은 대퇴골 탈구와 연관된다. (40, 41) 횡단면(transverse plane)상에서 대퇴골 경부의 전염 (anteversion)과 관상면에서의 NSA 은 근위 대퇴골 해부학적 구조에서 관절 안정성을 결정하는 가장 중요한 두 가지 요소이다. (41) Robin 등 (30)은 이 두 가지가 환자의 GMFCS 단계와 관련이 많다고 보고 했다. 본 연구에서 NSA 는 GMFCS 단계와 함께 증가함을 보였다. GMFCS I-III 단계, IV 단계군에서는 3.2° /년, 4.7° /년 그리고 GMFCS V 단계군에서는 5.3° /년의 속도로 유의하게 증가했다. 그러므로, 높은 NSA 측정치가 태아의 골격정렬 상태 잔존을 의미하여 보행이 늦어지고 대근육운동 발달의 제한을 일으키는 것으로 간주하였다. 따라서 이는 고관절 불안정성의 위험에 기여함을 시사한다. NSA 가 일반적으로 보행불능의 GMFCS IV-V 단계환자에서 높으며 이는 발생과정에서 수직방향의 힘이 근위 대퇴골에 가해지지 않았거나 대퇴골 대전자에 가해지는 고관절 외전근의 장력이 저하되었음을 의미할 수 있다. (42) 이 부족한 힘이 근위 대퇴골의 성장과 리모델링에 영향을 주어 최종적인 NSA 와 HSA 가 교정되지 못한 것이다.

본 연구의 결과는 보행불능 환자 (GMFCS V단계)에서 고관절 불안정성의 진행이 근위 대퇴골의 외측 이동 경과를 따른다는 것을 보여준다. 본 연구를 통해 밝혀진 GMFCS IV와 V 단계 환자들의 MP 진행속도를 고려하면, GMFCS IV와 V 단계 뇌성마비 환자의 고관절 방사선 검사는 정기적으로 경중에 따라 6개월-1년에 한번

시행하는 것이 타당할 것으로 보인다. 그에 반해, GMFCS I-III 단계 환자들의 고관절은 선별검사는 필요하지만, 진행이 되는 경우가 적어 2년마다 고관절 방사선 검사를 실시하도록 제안한다. 모든 GMFCS 단계의 환자에서 MP가 역치인 30%보다 클 때 고관절 불안정을 예방하는 수술적 치료 시행을 고려해야 할 것으로 보이며, 이 연구를 통해 진행속도가 밝혀진 GMFCS V 단계 환자에서는 역치를 넘는 5-7세에 치료시기를 결정할 것을 제안한다.

결론적으로 이 연구는 후향적으로 뇌성마비 환자들, 특히 보행이 불가능한 환자 (GMFCS IV, V 단계)의 영상의학적 고관절 추적관찰을 통해 불안정성의 진행 속도를 평가했다. 높은 GMFCS 단계 뇌성마비 환자의 추적관찰 중 고관절 불안정성 진행속도를 고려하는 것이 중요하며 특히 본 연구는 보행 불가능한 GMFCS V 단계 환아들에서 정기적인 영상의학적 검사 및 추적관찰의 중요성을 시사한다.

참 고 문 헌

1. Bax M, Goldstein M, Rosenbaum P, Leviton A, Paneth N, Dan B, Jacobsson B, Damiano D. Proposed definition and classification of cerebral palsy, April 2005. *Dev Med Child Neurol.* 2005;47:571-6.
2. Chung CY, Wang KC, Bang MS, Lee J, Park MS. *Introduction to Cerebral Palsy*. Seoul Koonja, 2013.
3. Odding E, Roebroek ME, Stam HJ. The epidemiology of cerebral palsy: incidence, impairments and risk factors. *Disabil Rehabil.* 2006;28:183-91.
4. Park MS, Kim SJ, Chung CY, Kwon DG, Choi IH, Lee KM. Prevalence and lifetime healthcare cost of cerebral palsy in South Korea. *Health Policy.* 2011;100:234-8.
5. Lonstein JE, Beck K. Hip dislocation and subluxation in cerebral palsy. *JPediatrOrthop.* 1986;6:521-6.
6. Renshaw TS, Green NE, Griffin PP, Root L. Cerebral palsy: orthopaedic management. *Instr Course Lect.* 1996;45:475-90.
7. Gamble JG, Rinsky LA, Bleck EE. Established hip dislocations in children with cerebral palsy. *ClinOrthopRelat Res.* 1990:90-9.
8. Hagglund G, Lauge-Pedersen H, Wagner P. Characteristics of children with hip displacement in cerebral palsy. *BMC MusculoskeletDisord.* 2007;8:101.
9. Gordon GS, Simkiss DE. A systematic review of the evidence for

hip surveillance in children with cerebral palsy. *J Bone Joint Surg Br.* 2006;88:1492-6.

10. Hagglund G, Andersson S, Duppe H, Lauge-Pedersen H, Nordmark E, Westbom L. Prevention of dislocation of the hip in children with cerebral palsy. The first ten years of a population-based prevention programme. *J Bone Joint Surg Br.* 2005;87:95-101.

11. Howard CB, McKibbin B, Williams LA, Mackie I. Factors affecting the incidence of hip dislocation in cerebral palsy. *J Bone Joint Surg Br.* 1985;67:530-2.

12. Soo B, Howard JJ, Boyd RN, Reid SM, Lanigan A, Wolfe R, Reddihough D, Graham HK. Hip displacement in cerebral palsy. *J Bone Joint Surg Am.* 2006;88:121-9.

13. Terjesen T. Development of the hip joints in unoperated children with cerebral palsy: a radiographic study of 76 patients. *ActaOrthop.* 2006;77:125-31.

14. Chung CY, Lee KM, Park MS, Lee SH, Choi IH, Cho TJ. Validity and reliability of measuring femoral anteversion and neck-shaft angle in patients with cerebral palsy. *J Bone Joint Surg Am.* 2010;92:1195-205.

15. Lee KM, Kang JY, Chung CY, Kwon DG, Lee SH, Choi IH, Cho TJ, Yoo WJ, Park MS. Clinical relevance of valgus deformity of proximal femur in cerebral palsy. *JPediatrOrthop.* 2010;30:720-5.

16. Gose S, Sakai T, Shibata T, Murase T, Yoshikawa H, Sugamoto K. Morphometric analysis of the femur in cerebral palsy: 3-dimensional

CT study.JPediatrOrthop. 2010;30:568-74.

17. Kay RM, Jaki KA, Skaggs DL. The effect of femoral rotation on the projected femoral neck-shaft angle.JPediatrOrthop. 2000;20:736-9.

18. Bauer F. The Functional Treatment of Congenital Dislocation of the Hip-joint: (Section of Orthopaedics). Proc R Soc Med. 1941;34:215-7.

19. Mose K. Methods of measuring in Legg-Calve-Perthes disease with special regard to the prognosis. ClinOrthopRelat Res. 1980:103-9.

20. Pidcock FS, Fish DE, Johnson-Greene D, Borrás I, McGready J, Silberstein CE. Hip migration percentage in children with cerebral palsy treated with botulinum toxin type A. Arch Phys Med Rehabil. 2005;86:431-5.

21. Senaran H, Shah SA, Glutting JJ, Dabney KW, Miller F. The associated effects of untreated unilateral hip dislocation in cerebral palsy scoliosis.JPediatrOrthop. 2006;26:769-72.

22. Southwick WO. Osteotomy through the lesser trochanter for slipped capital femoral epiphysis. J Bone Joint Surg Am. 1967;49:807-35.

23. Werner CM, Ramseier LE, Ruckstuhl T, Stromberg J, Copeland CE, Turen CH, Rufibach K, Bouaicha S. Normal values of Wiberg's lateral center-edge angle and Lequesne's acetabular index--a coxometric update. Skeletal Radiol. 2012;41:1273-8.

24. Eklof O, Ringertz H, Samuelsson L. The percentage of migration as indicator of femoral head position.ActaRadiol. 1988;29:363-6.

25. Bonett DG. Sample size requirements for estimating intraclass correlations with desired precision. *Stat Med.* 2002;21:1331-5.
26. Park MS, Kim SJ, Chung CY, Choi IH, Lee SH, Lee KM. Statistical consideration for bilateral cases in orthopaedic research. *J Bone Joint Surg Am.* 2010;92:1732-7.
27. Lee KM, Lee J, Chung CY, Ahn S, Sung KH, Kim TW, Lee HJ, Park MS. Pitfalls and important issues in testing reliability using intraclass correlation coefficients in orthopaedic research. *ClinOrthop Surg.* 2012;4:149-55.
28. Shrout PE, Fleiss JL. Intraclass correlations: uses in assessing rater reliability. *Psychol Bull.* 1979;86:420-8.
29. Foroohar A, McCarthy JJ, Yucha D, Clarke S, Brey J. Head-shaft angle measurement in children with cerebral palsy. *J PediatrOrthop.* 2009;29:248-50.
30. Robin J, Graham HK, Selber P, Dobson F, Smith K, Baker R. Proximal femoral geometry in cerebral palsy: a population-based cross-sectional study. *J Bone Joint Surg Br.* 2008;90:1372-9.
31. Reimers J, Bialik V. Influence of femoral rotation on the radiological coverage of the femoral head in children. *PediatrRadiol.* 1981;10:215-8.
32. 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;84:720-6.

33. 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.
34. Parrott J, Boyd RN, Dobson F, Lancaster A, Love S, Oates J, Wolfe R, Natrass GR, Graham HK. Hip displacement in spastic cerebral palsy: repeatability of radiologic measurement. *J Pediatr Orthop.* 2002;22:660-7.
35. Scrutton D, Baird G, Smeeton N. Hip dysplasia in bilateral cerebral palsy: incidence and natural history in children aged 18 months to 5 years. *Dev Med Child Neurol.* 2001;43:586-600.
36. Terjesen T. The natural history of hip development in cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol.* 2012;54:951-7.
37. Davids JR, Marshall AD, Blocker ER, Frick SL, Blackhurst DW, Skewes E. Femoral anteversion in children with cerebral palsy. Assessment with two and three-dimensional computed tomography scans. *J Bone Joint Surg Am.* 2003;85-A:481-8.
38. Sauser DD, Hewes RC, Root L. Hip changes in spastic cerebral palsy. *AJR Am J Roentgenol.* 1986;146:1219-22.
39. Settecerrri JJ, Karol LA. Effectiveness of femoral varus osteotomy in patients with cerebral palsy. *J Pediatr Orthop.* 2000;20:776-80.
40. Brunner R, Baumann JU. Long-term effects of intertrochanteric varus-derotation osteotomy on femur and acetabulum in spastic cerebral palsy: an 11- to 18-year follow-up study. *J Pediatr Orthop.* 1997;17:585-91.

- 41.** Laplaza FJ, Root L, Tassanawipas A, Glasser DB. Femoral torsion and neck-shaft angles in cerebral palsy. *JPediatrOrthop.* 1993;13:192-9.
- 42.** Bobroff ED, Chambers HG, Sartoris DJ, Wyatt MP, Sutherland DH. Femoral anteversion and neck-shaft angle in children with cerebral palsy. *ClinOrthopRelat Res.* 1999:194-204.

Abstract

Introduction: Hip instability is problematic in patients with cerebral palsy (CP). Some reports described the progression of hip instability, however, there are few reports about rate of progression, affecting factors, and relationship between Gross Motor Function Classification System (GMFCS) level and degree of progression of hip instability. In the present study, we aimed to investigate affecting factors and rate of progression of hip instability in patients with CP by assessing changes in the radiographic indices according to GMFCS level during hip surveillance.

Methods: We analyzed medical records of consecutive patients with CP who had visited our hospital between July 2003 and April 2013, and had more than two serial hip radiographs obtained during duration of hip surveillance were included in this study, excluding those with (1) history of hip surgery; (2) presence of hip deformities caused by trauma, infection, tumor, etc.; (3) inadequate taken or scanty number of hip radiographs; and (4) presence of neuromuscular diseases other than CP. Through panel consensus, five indices of radiographic measurements were selected including migration percentage (MP), neck-shaft angle (NSA), head-shaft angle (HSA), acetabular index (AI) and pelvic obliquity (PO) on the serial hip radiograph. A linear mixed model (LMM) application was used to analyze annual changes in radiographic indices of hip instability during duration hip surveillance. Measurements were adjusted for risk factors according to GMFCS levels.

Results: A total of 157 patients were included in this study, and 614 radiographs were evaluated. GMFCS classifications were as followed: level I–III in 95 patients, level IV in 32, and level V in 30. In patient with GMFCS level V, MP significantly increased by 7.1%/year ($p=0.018$). NSA significantly increased over the duration of hip surveillance in patients with GMFCS levels I–III, IV, and V by 3.2%/year ($p<0.001$), 4.7%/year ($p<0.001$), 5.3%/year ($p<0.001$), respectively. HSA significantly increased by 3.8%/year ($p=0.003$) in patient with GMFCS level V, whereas AI and PO did not change significantly.

Conclusions: This study investigated the rate of progression of hip instability in patients with CP, the factors influencing this progression, and relation between GMFCS level and degree of the progression. Of the 5 indices investigated in the study, we found that MP, NSA, and HSA significantly escalated with age, and tended to increase in higher GMFCS levels. In patients with GMFCS V, the above three indices were statistically significant in predicting hip instability, thus warranting periodic radiographic hip surveillance in this group.

Keywords: cerebral palsy, hip instability, radiographic measurements,
Gross Motor Function Classification System (GMFCS)

Student number: 2003– 23807