

Dr hab. med. **Grzegorz Kandzierski**, prof. UM
Katedra i Klinika Ortopedii i Rehabilitacji Dziecięcej
Uniwersytetu Medycznego Lublinie

Recenzja rozprawy doktorskiej
lek. med. **Marcina Krupińskiego**: *Ocena wyników przezskórnego wydłużania
ścięgna Achillesa u pacjentów z mózgowym porażeniem dziecięcym*
Promotorem rozprawy jest Pan Prof. zw. dr hab. n. med. **Marek Synder**.

Opracowanie recenzji na prośbę
Pani Prof. dr hab. n. med. **Agnieszki Wierzbowskiej**
Prodziekana ds. Nauki Wydziału Lekarskiego UM w Łodzi

Omówienie tematu pracy

Leczenie chorych z mózgowym porażeniem dziecięcym (mpdz) jest nadal wyzwaniem dla szerokiego grona lekarzy, specjalistów różnych dziedzin. Interdyscyplinarne leczenie, od okresu noworodkowego aż do podeszłego wieku pacjentów obarczonych mpdz, można też określać kompleksowym, także ze względu na duże znaczenie społeczne i częste występowanie choroby. Postęp medycyny paradoksalnie zwiększył częstość występowania mpdz, i mimo coraz skuteczniejszych metod, nie ma możliwości wyleczenia chorych. Nasze leczenie zmniejsza jedynie niektóre następstwa uszkodzenia centralnego układu nerwowego pacjentów, poprzez poprawę ich aktywności ruchowej, zdolności chodzenia, chwytu rąk. Zapobiegamy przede wszystkim wtórnym następstwom utrwalających się przykurczów w obrębie wielu stawów kończyn dolnych i górnych.

Zatem, wybrany temat pracy badawczej, w której Doktorant analizuje odległe wyniki operacyjnego leczenia dzieci z mpdz małoinwazyjną metodą przezskórnego wydłużania ścięgna Achillesa w Klinice Ortopedii i Ortopedii Dziecięcej UM w Łodzi jest ważny ze względu na znaczenie praktyczne i naukowe.

Marek Synder

Wstęp

W zwięźle napisanym wstępie (11 stron) Doktorant omówił etiologię, epidemiologię mpdz, opisał spastyczność i klasyfikacje przydatne klinicznie, czyli Gross Motor Function Measure (GMFM).

Odpowiednio szerzej Doktorant przedstawił np. piśmiennictwa spastyczną stopę końską u chorych obarczonych mpdz, w tym różnicowanie umiejscowienia przykurczu w stopie spastycznej wg Silerskiölda - czy dotyczy wyłącznie tylko m. brzuchatego łydki (mięsień dwustawowy), czy też dwóch mięśni: płaszczkowatego oraz brzuchatego.

Doktorant we wstępie zastanawia się nad ustaleniem zakresu wydłużenia ścięgna Achillesa; cyt: *„Z praktycznego punktu widzenia, ustalenie wielkości wydłużenia ścięgna przed zabiegiem jest trudne. Autorzy, w zależności od techniki operacyjnej, oceniają najczęściej niezbędną wielkość wydłużenia ścięgna Achillesa śródoperacyjnie, wydłużając je do uzyskania pozycji neutralnej stopy, 5°, 10° lub 15° zgięcia grzbietowego”*.

Uwagi doktoranta świadczą o jego dużej praktycznej wiedzy na temat leczenia dzieci z mpdz, bowiem istotny jest zakres śródoperacyjnej korekcji.

Doktorant kontynuuje we wstępie cyt: *„Do powikłań po zabiegu wydłużenia ścięgna Achillesa zaliczamy hiperkorekcję z powstaniem deformacji piętowej stopy i chodu kucznego. Według piśmiennictwa powikłanie to występuje w 0% - 36%, w zależności od wieku i doboru pacjentów do ocenianej grupy. Jest to ciężkie powikłanie, stwarzające ogromne trudności terapeutyczne i w znacznym stopniu upośledzające funkcję kończyny*.

Hiperkorekcja jest bardzo niebezpieczna, bowiem stopa piętowa jest wyjątkowo trudna do korekcji; są to cenne uwagi Autora, w mojej opinii, wymagające szerszego opisu.

Autor np. piśmiennictwa (1 pozycja) zauważa, że cyt.: *„Niezamierzona całkowita tenotomia ścięgna piętowego podczas wydłużenia przezskórnego występuje rzadko i nie stanowi bardzo poważanego problemu. Badania wykazały, iż przedłużone unieruchomienie powoduje odtworzenie ciągłości przeciętego ścięgna [90]”*.

Ten pogląd np. jednej pracy Berg'a, nie upoważnia do lekceważenia komplikacji po niezamierzonym przecięciu poprzecznym ścięgna piętowego u dorosłych lub starszych dzieci.

Fragmenty pracy, które cytuję w recenzji, są ważne i przedstawiają słuszne spostrzeżenia Doktoranta, a także potwierdzają staranność w doborze piśmiennictwa.

Doktorant szeroko opisał techniki przezskórnego wydłużanie ścięgna Achillesa, co jest tematem pracy doktorskiej oraz rozciągnięcia mięśnia dwugłowego łydki. Opisał także zabieg wg Bakera cyt. „*polega na przecięciu rozciągniętego mięśnia brzuchatego goleni na kształt języczka w rowku, z języczkiem zorientowanym dogłównowo. Po wycięciu centralnej części rozciągniętego mięśnia płaszczkowatego i podeszwowego wydłuża się mięsień brzuchaty a jego rozciągnięto zszywa w uzyskanej korekcji*”.

Zabieg wg Bakera był przed 15 laty często wykonywaną techniką korekcji przykurczu końskiego stopy u małych dzieci z mpdz w Lublinie. Był to faktycznie zmodyfikowany zabieg, „odwrócony Baker”, bowiem języczek skierowany był obwodowo. Zazwyczaj nie zszywaliśmy rozciągniętego mięśnia dwugłowego łydki oraz nie wycinaliśmy centralnej części rozciągniętego mięśnia płaszczkowatego i podeszwowego. Obecnie wskazania do tego zabiegu są ograniczone, bowiem wykonujemy przede wszystkim iniekcje toksyny botulinowej do mięśni łydki.

Wstęp dotyczy ściśle tematu pracy doktorskiej, potwierdza wiedzę teoretyczną i praktyczną znajomość zagadnień związanych z mpdz i spastycznością. W treści bardzo dobrego wstępu, znalazłem kilka błędów literowych; połączenia wyrazów (np. trwałych zaburzeń, interneurony Ib, miostatycznych mięśni). W miejscu cyt.: „W przypadku przykurczu wywołanego *spastyką*, proponowałbym określenie „niedowładu spastycznego”, podobnie zamiast „*hyperkorekcja*” - hiperkorekcja (str. 10).

Cel pracy

Doktorant bardzo słusznie stwierdził, że cyt.: „*Przykurcz koński stopy, będący przedmiotem zainteresowania mojej pracy, przerywa prawidłowy cykl chodu poprzez obniżenie stabilności kończyny w fazie podparcia oraz upośledza bezkonfliktowe przeniesienie stopy*”.

Celem pracy jest zdefiniowany w logicznie sformułowanych punktach:

1. Ocena wyników korekcji przykurczu końskiego stopy na drodze przezskórnego wydłużenia ścięgna Achillesa

2. *Analiza wpływu tego zabiegu na poprawę jakości chodu i jakości życia operowanych chorych.*
3. *Ocena ilości nawrotów po przezskórnym wydłużeniu ścięgna Achillesa u pacjentów operowanych przed i po 8 roku życia.*
4. *Ocena zmiany funkcjonalności pacjenta wg GMFCS po zabiegu operacyjnym.*

Proponuję w punkcie 3 zmianę jego treści (przy publikacji pracy): w miejsce „przed i po 8 roku życia” na: „ w zależności od wieku chorych”, co było faktycznie celem pracy.

Wynik badań zasugerował bowiem różnicowanie operowanych dzieci, poniżej i powyżej 8 roku życia, który przy planowaniu badań nie był przecież znany.

Cel pracy, jaki postawił sobie Doktorant jest bardzo ważny dla chorych i lekarzy przy podejmowaniu decyzji o leczeniu operacyjnym.

Material badawczy i metody badań

W tej części pracy należy podkreślić bardzo właściwe kryteria doboru do grupy badanej chorych leczonych w latach 1998–2012 przezskórnym wydłużeniem ścięgna Achillesa metodą Hooke’a lub White’a. Retrospektywna ocena dokumentacji medycznej umożliwiła Doktorantowi wyodrębnienie, a następnie drogą pocztową, zaproszenie pacjentów na badania kontrolne do Poradni Przyklinicznej. Do grupy badawczej zakwalifikowano chorych z jednostronnym lub obustronnym spastycznym przykurczem końskim stopy. Wszyscy chorzy prezentowali poziom funkcjonalny pacjentów GMFCS I lub II. Było to słuszną decyzją, bowiem powstała dosyć jednolita funkcjonalnie grupa.

Z dalszych badań Doktorant wykluczył chorych, u których stwierdzono przed leczeniem operacyjnym przykurcz zgięciowo-przywiedzeniowy stawu biodrowego lub zgięciowy stawu kolanowego. U pacjentów z GMFCS II dosyć często obserwujemy deficyt odwodzenia w stawie biodrowym i brak pełnego wyprostu stawu kolanowego.

Nasuwa się zatem pytanie, czy mały 5-10° przykurcz w tych stawach badany przed leczeniem operacyjnym też wykluczał pacjentów z tych badań?

Charakterystyka badanej grupy

Doktorant szczegółowo opisał grupę badawczą 53 chorych z uwzględnieniem wieku operowanego dziecka, czasu obserwacji, płci i typu niedowładu spastycznego. Deficyt zgięcia grzbietowego stopy przed leczeniem operacyjnym

opisał następująco: cyt. „Wielkość przykurczu końskiego stóp przed zabiegiem wynosiła od – 5 do – 50 stopni, średnio 19,08 stopnia. W przypadku połowy stóp wielkość przykurczu nie przekroczyła – 15 stopni, a dla 50% przypadków wielkość ta mieściła się w przedziale od -10 do -25 stopni (Ryc.8)”. Doktorant nie wyjaśnił jednoznacznie, czy ocena przed leczeniem operacyjnym dotyczyła pomiaru przy wyprostowanym czy zgiętym stawie kolanowym (test wg Silerskiölda).

Analiza dotyczyła 53 chorych. Podział na poszczególne grupy zmniejszył dodatkowo ich liczebność, co spowodowało konieczność zastosowania trudniejszych obliczeń statystycznych.

Doktorant precyzyjnie opisał badanie kliniczne chorych zaproszonych listownie po leczeniu operacyjnym. Satisfakcję pacjenta z zabiegu i jakości życia ocenił na podstawie wyników badania ankietowego.

W ocenie wzorca chodu doktorant posłużył się metoda obserwacyjną.

Najbardziej obiektywne byłoby skorzystanie z tzw. platformy chodu; rozumiem, że ta metoda mogła być dla Doktoranta niedostępna. Z drugiej strony, dla oceny wyniku leczenia tylko ograniczonej do jednego poziomu korekcji przykurczu kończyny, obserwacja okazała się wystarczająca. Należy wspomnieć, że przed leczeniem operacyjnym pacjenci także nie byli badani w laboratorium chodu.

Fazę „wymachu” (str. 21) chodu proponuję zastąpić częściej przyjętym określeniem fazą „przenoszenia”.

Wyniki badań

Doktorant omówił szczegółowo wyniki badań, ustalając zależności pomiędzy ocenianymi parametrami: nawrotem przykurczu, wiekiem operowanego dziecka, płcią, poziomem GMFSC i typem niedowład. U około 21% spośród 53 chorych nastąpił nawrót ustawienia końskiego, najczęściej u dzieci poniżej 4,5 roku życia; najlepsze wyniki obserwował autor u chorych operowanych w wieku powyżej 8 roku życia oraz u chłopców.

Doktorant nie stwierdził w żadnym przypadku, co jest godne podkreślenia, hiperkorekcji (stopy piętowej) po leczeniu tą metodą.

Wyniki badania ankietowego potwierdziły zadowolenie 90% chorych z przeprowadzonego zabiegu i skuteczność metody leczenia. Ankieta była utworzona przez Autora.

Przy omawianiu wyników badań ankietowych występują lapsusy językowe, wynikające z dokładnego opisywania liczebności pacjentów i stóp. Proponuję zamiast cyt.: „*NIE WIEM* odpowiedziało 2 pacjentów(dwie stopy) proponuję - „Nie wiem” odpowiedziało 2 pacjentów (wszyscy z hemiplegią).

Ta część pracy doktorskiej napisana jest bardzo dobrze .

Dyskusja

Dyskusja, jak sędzę, jest najlepiej napisaną częścią pracy. Wyniki własnych badań Doktorant porównuje z opiniami i wynikami badań innych autorów. Należy podkreślić, że piśmiennictwo dotyczące wyników leczenia przezskórnego wydłużenia ścięgna Achillesa jest nieliczne. To nie utrudniło Autorowi wzorowego wywiązania się z rzetelnej dyskusji na temat wyników pracy.

Doktorant w wynikach badań potwierdził, iż cyt.: „*Wydłużenie przezskórne jest jednak zabiegiem znacznie mniej inwazyjnym, wykonywanym z punktowego cięcia co daje korzystny efekt kosmetyczny i bardzo dobre warunki do gojenia rany operacyjnej. Po zabiegu PTAL zmniejszony może być zakres unieruchomienia a pacjent może chodzić bezpośrednio po zabiegu, co jest dość istotne u dzieci z porażeniem mózgowym. Czas pobytu dziecka w szpitalu może być skrócony do minimum a zabieg ten można wykonywać nawet ambulatoryjnie. Minimalne są wymagania co do instrumentarium (jedno ostrze chirurgiczne) a czas wykonania zabiegu jest bardzo krótki co obniża koszty leczenia. Nie bez znaczenia jest również łatwość reoperacji ścięgna Achillesa po zabiegu PTAL w porównaniu do metod otwartych dających duże blizny i zrosty ścięgna z otaczającymi tkankami*”.

Te uwagi są najcenniejsze, ale niestety nie wszystkie umieścił Doktorant we wnioskach.

Doktorant słusznie zauważa znaczenie jednorodnej grupy przy analizie wyników pod względem poziomu funkcjonalnego GMFCS chorych, cyt; „*Nawrót przykurczu zgięciowego stopy w moich badaniach wystąpił u 21.33% pacjentów, czyli w przypadku 16 z 75 badanych stóp. Średnia wielkość przykurczu u pacjentów z nawrotem wyniosła $-7 \pm 3,71$ stopnia. W badaniach innych autorów częstość nawrotu przykurczu końskiego stopy jest bardzo zróżnicowana i wynosi od 0–62%. Rozbieżność ta wynika z obecności w piśmiennictwie licznych badań w których oceniane są wyniki wydłużenia ścięgna Achillesa przy*

pomocy różnych procedur chirurgicznych, oraz nierzadko w mało homogennych grupach pacjentów”.

Jak zauważa Doktorant wyniki jego badań okazały się zbieżne z cytowanym piśmiennictwem cyt.: „*Niezbyt dużo jest natomiast badań oceniających odsetek nawrotów po wyłącznie przezskórnym wydłużeniu ścięgna Achillesa. Borton i wsp. oceniając grupę 98 pacjentów po wydłużeniu ścięgna przezskórną metodą Hoke'a stwierdził nawrót u 20 % pacjentów, co nieomal odpowiada wynikom badań własnych. Cheng i So w swoich badaniach uzyskali odsetek nawrotów na poziomie 5.6 % oceniając, podobnie jak Borton i wp., operowanych przezskórną metodą Hoke'a. Okres obserwacji był stosunkowo krótki i wynosił średnio 32.8 miesiąca co mogło wpłynąć na niedoszacowanie odsetka nawrotów. Borowski i wsp. w swojej ocenie przezskórnego wydłużenia ścięgna Achillesa ocenił odsetek nawrotów na 22.2 % w obserwacji ponad 5 letniej. Moreau i wsp. stwierdzili nawrót deformacji u 6.7 % badanych zaś Hensinger i wsp. u 15.6 %”.*

Doktorant także rozważa wpływ wieku operowanych dzieci w aspekcie wyników leczenia i porównuje z doniesieniami z piśmiennictwa; cyt.: *Jednym z najważniejszych czynników w badaniach własnych, wpływającym na pojawienie się nawrotu deformacji, jest wiek pacjenta w chwili zabiegu. Chorzy w trakcie badania kontrolnego znajdowali się w wieku od 6 do 28 lat. Połowa badanych miała nie więcej niż 17 lat. Wiek w trakcie zabiegu PTAL wynosił od 3 do 15 lat, średnio 6.87 lat.*

Doktorant wyodrębnił grupę dzieci poniżej 4,5 roku życia (z najgorszymi wynikami) oraz powyżej 8 roku życia, u których wyniki leczenia były najlepsze. Obserwacje Autora okazały się zgodne z cytowaną literaturą; „*Sun Young Joo i wsp. w swoich badaniach na grupie 186 pacjentów zauważyli, podobnie jak Borton, iż wśród dzieci operowane przed 8 rokiem życia rośnie odsetek nawrotów. Ważnym czynnikiem w opinii autorów był czas obserwacji, gdzie po 5 latach całkowita ilość nawrotów wynosiła 11.4%, a po 10 latach 40.4%. Część badaczy uważa, iż im młodszy pacjent z porażeniem mózgowym poddany zabiegowi, tym więcej czasu na nierówny wzrost między spastycznym mięśniem a układem kostnym”.*

Popieram dojrzałe stanowisko Doktoranta, w sprawie unikania wczesnego operacyjnego dzieci z mpdz; cyt.: „*Zaleca się więc odraczenie zabiegu wydłużania ścięgna Achillesa, stosując leczenie niezabiegowe poprzez*

rehabilitację, podanie botuliny, stosowanie ortez oraz wielokrotne gipsowanie. Ryzyko nawrotu jest do 24 razy wyższe w przypadku operacji dziecka w wieku 4.5 lat lub młodszego.”

Wpływ płci, który analizuje Doktorant, na nawrót deformacji końskiej stopy nie jest w piśmiennictwie wyczerpująco wyjaśniany. Wydaje się, że może mieć znaczenie szybsze zakończenie wzrostu szkieletowego u dziewcząt, zatem chłopcy dłużej rosnący powinni być bardziej narażeni na nawrót zniekształcenia po leczeniu operacyjnym. Wyniki badań Autora nie potwierdzają tego toku myślenia, bowiem wśród płci męskiej obserwował mniejszą częstość nawrotów po leczeniu.

Nasuwa się pytanie o przyczynę, potwierdzoną przez Doktoranta, lepszych wyników leczenia u chłopców w badanej grupie.

Autor słusznie podkreśla, że cyt.; „*Zwiększenie zakresu zgięcia grzbietowego stopy pozwala na wykonanie prawidłowego przeniesienia stopy i zainicjowanie fazy podporu poprzez kontakt palców z podłożem. W znacznym stopniu usprawnia to chód, i pozwala na sprawne przemieszczanie się chorych poza domem. Dobre wyniki przezskórnego wydłużenia ścięgna Achillesa rzutują korzystnie na stopień zadowolenia chorych i poprawienie ich jakości życia*”. W tym fragmencie: fazę podparcia kończyny inicjuje zetknięcie pięty z podłożem; zatem zastąpić należy „*palców*” – „*pięty*”.

W dyskusji na stronach od 46 do 50 zawarte są ogólne informacje na temat mpdz i należałoby je umieścić we wstępie.

Moje uwagi (w tym lapsus: palce-pięta) nie umniejszają wartości rzetelnego omówienia i dojrzałej dyskusji na temat małoinwazyjnego leczenia dzieci z mpdz metodą przezskórnego wydłużenia ścięgna Achillesa.

Wnioski

Doktorant wysnuł wnioski na podstawie własnych wyników badań. Słusznie zauważa, że korekcja przykurczu końskiej stopy poprzez przezskórne wydłużenie ścięgna Achillesa daje dobre wyniki, co potwierdza wieloletnia obserwacja i zadowolenie około 90% leczonych. Autor potwierdza, iż poziom funkcjonalny pacjentów w skali GMFCS nie zmienia się po zabiegu

operacyjnym. Doktorant jednoznacznie wykazał, że u najmłodszych dzieci ryzyko nawrotu deformacji wzrastało, co przedstawił we wniosku 3. Natomiast mam uwagę do wniosku 5. cyt: „Zabieg przezskórnego wydłużenia ścięgna Achillesa jest optymalną i bezpieczną techniką operacyjną w korekcji końskiej deformacji stopy u pacjentów chodzących z poziomem funkcjonalnym GMFCS I i II, bez współistniejących deformacji kończyn dolnych, lecz niesie ze sobą ryzyko osłabienia siły mięśnia trójgłowego łydki”. Stwierdzenie Doktoranta: „lecz niesie ze sobą ryzyko osłabienia siły mięśnia trójgłowego łydki” – wymagają potwierdzenia w szerzej zaplanowanych badaniach własnych.

Nie koresponduje on także z ostatnim przemyślanym zdaniem, zawartym w dyskusji, które wynika z badań Autora: cyt: „Należy również podkreślić, iż zabieg PTAL u pacjentów mózgowym porażeniem wykonywany jest obecnie rzadko z uwagi na dość częste osłabienie siły mięśnia trójgłowego goleni i przyczynianie się do powstania chodu kuczego. Pomimo to, uważam iż w przypadku właściwego doboru pacjentów, optymalnego wieku w chwili przeprowadzenia zabiegu i prawidłowej techniki operacyjnej zabieg PTAL jest bezpieczny i przynosi dobre i trwałe rezultaty w zakresie poprawy jakości chodu”.

Piśmiennictwo

Autor bardzo starannie, zgodnie z tematem pracy, dobrał 124 pozycji piśmiennictwa, w większości bibliografia jest anglojęzyczna z ostatnich 25 lat. Dwukrotnie wpisana jest ta sama pozycja (poz. 38 oraz 90); rok publikacji w kilkunastu pozycjach wpisany jest po autorach pracy (np. poz. 125); a także jako ostatni wyraz (np. poz. 1). Proponuję ujednoczyć schemat, tak jest w zdecydowanej większości danych bibliograficznych.

Ocena końcowa rozprawy doktorskiej

Podjęcie przez Doktoranta ważnego tematu, jakim jest ocena odległych wyników przezskórnego wydłużania ścięgna Achillesa u chorych z mózgowym porażeniem dziecięcym jest godne podkreślenia i wartościowa z punktu widzenia praktycznego i naukowego.

Praca jest rzetelna, zwięzła, napisana poprawnie. Wszystkie części pracy oceniam bardzo wysoko. Rozprawa doktorska wnosi nowe i cenne wartości medyczne, jest bowiem pierwszym w Polsce tak szerokim opracowaniem analizującym wyniki tego małoinwazyjnego leczenia dzieci i młodzieży z mpdz.

Zachęcam gorąco Autora do opublikowania wyników badań w prestiżowym czasopiśmie naukowym.

Zapoznałem się z pracą doktorską lek. med. **Marcina Krupińskiego** z dużą przyjemnością. Temat pracy dotyczy bowiem zagadnienia, który jest jednym z podstawowych, także w Klinice Ortopedii i Rehabilitacji Dziecięcej w Lublinie. W pełni zgadzam się z tezą, co wielokrotnie podkreślał Doktorant, iż należy rozpoczynać leczenie operacyjne dzieci z mpdz jak najpóźniej. Gratuluję Zespołowi Kliniki Ortopedii i Ortopedii Dziecięcej UM w Łodzi, cenię Ośrodkowi Ortopedycznemu w Polsce, tak szerokiego wprowadzenia skutecznego i bardzo praktycznego, małoinwazyjnego leczenia dzieci z mpdz i uniknięcie powikłań przy przezskórnym operowaniu.

Nieistotne merytorycznie uchybienia omówiłem przy ocenie poszczególnych rozdziałów pracy; mogą być skorygowane w publikacji.

Rozprawa spełnia wszystkie wymogi pracy doktorskiej, za co zarówno Doktorantowi, jak i jego Promotorowi, Profesorowi **Markowi Synderowi** należą się słowa uznania.

Wnoszę zatem do Wysokiej Rady Wydziału Lekarskiego UM w Łodzi o dopuszczenie lek. med. **Marcina Krupińskiego** do dalszych etapów przewodu doktorskiego.

Lublin, 26.07.2017

KIEROWNIK
Kliniki Ortopedii i Rehabilitacji Dziecięcej
Katedry Ortopedii Dziecięcej
Uniwersytetu Medycznego w Lublinie

dr hab. n. med. Grzegorz Kandziński - prof. nadzw. UM

Dr hab. med. *Grzegorz Kandziński*, prof. UM w Lublinie