

海南省0—6岁脑性瘫痪儿童流行病学调查*

李玲¹ 贾清政^{1,2} 孙颖¹ 吕洋¹ 李小玲¹ 许丽超¹ 蔡小凡¹

摘要

目的:调查海南省0—6岁脑性瘫痪(CP)儿童的流行特征及康复现状,为脑瘫儿童的早期诊断和干预性治疗及政府和相关部门制定脑瘫儿童的预防、康复医疗救助政策提供理论依据。

方法:2015年9月—2016年9月期间,采用分层整群抽样原则,以居委会(村)为最小单位抽取全省18个市县乡镇0—6岁全体常住儿童作为调查对象,每个市县随机抽取3—4个区(乡镇),所抽取的区(乡镇)中再随机抽取2—4个居委会(村),抽取到的居委会(村)中全部0—6岁儿童均纳入调查,由海南省妇幼保健院儿童康复科医师进行诊断分型,收集并整理数据,用SPSS17.0统计软件进行统计学分析。

结果:共实际调查海南省18地区0—6岁儿童38267例,实际有效37862例,发现脑瘫患儿80例,脑瘫患病率为2.11‰;各地区的脑瘫患病率在0‰—9.33‰,各年龄组患病率分布在1.98‰—3.22‰;不同性别间男女患病率之比为4:1;脑瘫分型以痉挛型为主(占61.29%);曾接受康复训练的比例为66.2%。

结论:海南省0—6岁儿童脑瘫患病率为2.11‰,分型以痉挛型为主,围生期保健及早期随访工作尚待加强,康复干预现状有待进一步改善,可作为进一步研究脑瘫防治工作的基础性资料。

关键词 海南省;儿童;脑性瘫痪;流行病学调查

中图分类号:R742.3,R722 **文献标识码:**B **文章编号:**1001-1242(2018)-05-0569-04

脑性瘫痪,简称脑瘫(cerebral palsy,CP)是一组持续存在的中枢性运动和姿势发育障碍、活动受限症候群,这种症候群是由于发育中的胎儿或婴幼儿脑部非进行性损伤所致。脑性瘫痪的运动障碍常伴有感觉、知觉、认知、交流和行为障碍,以及癫痫和继发性肌肉、骨骼问题^[1]。脑瘫是导致儿童残疾最常见的原因之一,它严重影响儿童的身心健康,乃至国民的整体素质。脑瘫的康复治疗是一个系统长期的过程,巨大的经济压力对个人、家庭、社会都是沉重的负担。为了解海南省0—6岁儿童脑瘫的患病情况及康复现状,为政府制定康复服务机构建设和康复救助政策提供依据,我们开展了海南省0—6岁儿童脑性瘫痪流行病学调查,结果报告如下。

1 对象与方法

1.1 对象

调查对象具体规定如下:①0—6岁儿童:指在接受调查当日未滿7周岁的儿童(2008年8月31日—2014年8月31日出生)。②调查儿童为父母在辖区内居住满1年以上的0—6岁儿童。

1.2 方法

1.2.1 样本量估算:假设研究的海南儿童总体脑瘫患病率至少为 $P=0.5‰$,应用Poisson分布估算样本量,则期望病例数的95%CI ≥ 1 。若样本量为X,期望病例数为18,则 $0.5‰X \geq 18$,需要调查样本量为36000例,考虑失访的可能,估算调查样本量为40000例。全省18个市县抽样调查海南省0—6岁儿童40000例。

1.2.2 分层抽样原则:层的划分:将全省18个市县按地理位置、经济发展程度、婴儿死亡率的高低和全国地区分类的一致性可比性,18个市县划分为四种类型:①城市:海口市、三亚市;②一类县:琼海市、文昌市;③二类县:万宁市、定安县、屯昌县、澄迈县、临高县、儋州市;④三类县:陵水县、乐东县、保亭县、五指山市、琼中县、东方市、昌江县、白沙县。

1.2.3 抽样方法:采用分层整群随机抽样法,每个市县抽取的数量与该市县区、乡镇总数及人口成比例,抽取的最小调查单位分布较均匀,具有较好的代表性。每个抽取的调查市县(乡镇)按照任务量抽取部分或全部居委会(村)。以市县区、乡镇的全部居委会(村)为最小调查单位,调查区域内所有0—6岁儿童作为监测对象。

DOI:10.3969/j.issn.1001-1242.2018.05.015

*基金项目:海南省卫生厅重点课题(1429330.21A1004)

1 海南省妇幼保健院,海南省儿童医院,海口市,570206; 2 通讯作者

作者简介:李玲,女,教授,主任医师; 收稿日期:2017-04-13

按照预计样本量和各市县0—6岁儿童人口数量总数,计算出各市县理论调查人数,见表1。

表1 不同市县理论调查人数与实际人数情况				
市县	理论调查人数 (人)	实际人数 (人)	超过 年龄数	实际 有效数
海口市	7830	7651	32	7619
三亚市	2400	1808	3	1805
琼海市	2220	2249	51	2198
文昌市	2360	2294	12	2282
万宁市	2500	2119	78	2041
定安县	1780	1314	29	1285
屯昌县	1600	1656	0	1656
澄迈县	2300	2278	11	2267
临高县	2470	2427	28	2399
儋州市	4480	4487	35	4452
陵水县	1860	1904	41	1863
乐东县	2000	1913	5	1908
保亭县	580	602	2	600
五指山市	500	523	2	521
琼中县	830	857	2	855
东方市	2250	2410	61	2349
昌江县	1240	813	11	802
白沙县	800	962	2	960
总人数	40000	38267	405	37862

注:实际有效人数是指正常和初步异常人数的总和且年龄在0—6岁之间的儿童人数,排除了年龄超过6岁11个月的。

1.2.4 调查流程:对承担任务调查的乡镇/街道负责人培训脑瘫儿童早期识别的基本知识并能够正确使用《儿童发育问题预警征象》调查问卷。然后调查乡镇/街道负责人对所在负责区域内的所有符合0—6岁的儿童建花名册,采用《儿童发育问题预警征象》调查问卷进行初步筛选,并做好记录查出可疑儿童,为下一步的确诊做好准备。由海南省妇幼保健院儿童康复中心康复医师对已确定的可疑儿童名单进行一

1.2.5 筛查及诊断标准:本研究中脑瘫筛查采用如下标准:
①运动发育里程碑延迟,如生后3—4个月竖头不稳;6个月不能独坐;1岁时不能独站;18个月不能独走等;
②运动障碍及姿势异常,如尖足、双腿交叉、膝过伸及其他异常的步态。脑瘫诊断必须符合脑瘫定义及以下必备条件^[2]:
①中枢性运动障碍持续存在;
②运动和姿势发育异常;
③反射发育异常;
④肌张力及肌力异常,同时排除进行性疾病和其他遗传代谢疾病所致中枢性运动障碍和发育迟缓。所采用的分型有痉挛型、不随意运动型、混合型、共济失调型。

1.2.6 质量控制:脑瘫患儿的筛查诊断是由有多年脑瘫康复工作经验的海南省妇幼保健院康复科副主任医师进行,在各地调查结束30天内对所有调查过程所填写表格,文档资料进行复核检查,并随机抽取5个区(乡镇)进行核查。

2 结果

2.1 海南省0—6岁儿童脑瘫患病率

本研究收录研究对象38267例,实际参与调查人数为37862例,占应检儿童的98.90%,漏检率1.1%。其中男孩20824例,女孩17038例,男女比为1.2:1。共确诊脑瘫80例,提示海南省儿童脑瘫患病率为2.11‰,各市县0—6岁儿童脑瘫患病率存在显著性差异($\chi^2=72.98, P=0.000$),见表2。

表2 不同市县脑瘫儿童人数分布、患病率			
市县	实际调查人数	脑瘫人数	患病率(‰)
海口市	7619	7	0.92 ^①
三亚市	1805	5	2.77 ^①
琼海市	2198	3	1.36 ^①
文昌市	2282	1	0.44 ^①
万宁市	2041	4	1.96 ^①
定安县	1285	12	9.33 ^①
屯昌县	1656	4	2.42 ^①
澄迈县	2267	3	1.32 ^①
临高县	2399	3	1.25 ^①
儋州市	4452	8	1.80 ^①
陵水县	1863	1	0.54 ^①
乐东县	1908	8	4.20 ^①
保亭县	600	0	0.00 ^①
五指山市	521	2	3.84 ^①
琼中县	855	7	8.19 ^①
东方市	2349	4	1.70 ^①
昌江县	802	5	6.23 ^①
白沙县	960	3	3.12 ^①
总人数	37862	80	2.11 ^①

注:①各地区脑瘫患病率组间比较 $\chi^2=72.98, P=0.000$

2.2 脑瘫患病年龄及性别分布

在所有研究对象中,男童20824例,占儿童总数55%,诊断脑瘫64例,脑瘫患病率1.6‰;女童17038例,占儿童总数45%,诊断脑瘫16例,脑瘫患病率为0.4‰。男女童脑瘫患病率之比为4:1,男女患病率比较具有显著性差异($\chi^2=20.25, P=0.000$)。

2.3 脑瘫患病区域分布

按照海南省政府区域划分及经济发展水平,将调查区域分为城市、一类县、二类县、三类县,不同区域脑瘫患病率在 $P=0.05$ 水平存在显著性差异($\chi^2=10.96, P=0.012$),见表4。

2.4 脑瘫患病类型

本次调查共确诊脑瘫80例,其中痉挛型52例(66.25%),不随意运动型26例(33.75%),共济失调型1例(1.25%),混合型2例(3.75%),不同类型脑瘫例数有显著性差异($\chi^2=88.91, P=0.000$)。

2.5 脑瘫儿童曾接受康复训练比例

本次调查的80例脑瘫儿童中53例曾经接受康复训练,占66.2%,仍有33.8%的儿童未曾接受过康复训练,其中城市和三类县比较有显著性差异($\chi^2=15.33, P=0.000$),见表5。

3 讨论

3.1 海南省脑瘫患病率为2.11‰,稍低于全国总患病率

有研究表明,近年来脑瘫在全球范围内呈现出高发病率的态势^[3]。在海南省进行如此大规模的脑瘫患病率调查尚属首次,调查对象涉及海南省不同地区的儿童,整个调查过程采用统一的诊断标准和调查方法,用SPSS17.0统计学软件进行数据分析,结果详实可靠,可较好反映海南省儿童脑瘫患病率情况。

在对脑瘫患病率的相关调查研究中, Paneth等^[4]在1984年报道了欧洲国家脑性瘫患病率为1‰—4‰,且多集中在2‰—3‰之间。梁友玲等^[5]在1998年对广西24个乡镇抽样调查结果显示脑瘫患病率为1.33‰;林庆等^[6]在2001年的研究中报导,我国六省0—6岁小儿脑瘫患病率为1.92‰。胡继红等^[7]2016年在湖南省0—6岁小儿脑瘫流行病学现状调查及分析中报告湖南省0—6岁儿童脑瘫患病率为2.75‰,且各地区的脑瘫患病率集中在2.09‰—3.25‰。由黑龙江省小儿脑瘫防治育中心李晓捷^[8]教授牵头的卫生部卫生行业科研

专项(201002006)课题调查我国12个省市323585例0—6岁儿童,确诊脑瘫794例,总患病率为2.46‰,其中青海省患病率最高5.40‰,北京次之1.98‰,山东省最低1.04‰。

本研究结果显示海南省的脑瘫患病率为2.11‰,稍低于全国总的患病率,但高于2001年之前我国各地的报道。近年来由于围产保健医学的快速发展,特别是危重新生儿的抢救技术的提高,使得以前难以存活的早产儿、极低体重儿等高危儿存活下来,这是导致脑瘫患病率在全球范围内并无下降趋势的主要原因。海南省不同地区间脑瘫患病率在0‰—9.33‰,地区间差异较大,与湖南及其他地区的报道差别较大。原因考虑为:保亭县是海南省的边远贫困县、也是少数民族最多的县,在流调复诊时有明显残疾的儿童家庭拒绝复诊,拒绝专家入户诊断,是导致脑瘫漏诊,患病率为零的重要原因,海南省残疾儿童家长存在自卑心理,有意隐瞒残疾儿童是影响海南省流调结果的主要因素;导致各市县之间患病率差别显著的更多原因有待进一步的调查。

3.2 海南省脑瘫类型以痉挛型为主,但不随意运动型比例高于相关报道

脑瘫类型一般是根据神经病理学改变以及临床症状和体征进行分类。本次研究采用2014年第十三届全国小儿脑瘫康复学术会议中提出的脑瘫分型标准^[2],根据临床表现和脑损伤部位将脑瘫分为痉挛型、不随意运动型,共济失调性及混合型。调查结果显示,海南省0—6岁儿童实际确诊脑瘫80例,其中痉挛型占61.29%,不随意运动型占29.03%,共济失调型为3.22%,混合型占6.45%。

脑瘫儿童脑损伤部位主要分为三大类,即锥体系、锥体外系和小脑,痉挛型为脑瘫患儿的主要类型^[9],其病变部位为锥体系损伤,病因主要是早产、未成熟、低体重及新生儿窒息等。Singhi P等^[10]研究报道近年来由于出生窒息及低出生体重儿的存活率上升,痉挛型患儿也随之增多,因此可见预防早产、低体重及新生儿窒息及加大对上述婴儿的管理和早期科学的干预仍是降低脑瘫患病率的关键措施。

Andersen等^[11]对挪威脑瘫儿童进行流行病学调查后发现,痉挛型双瘫占49%,痉挛型偏瘫占33%,不随意运动型占6%,共济失调型占5%,其他无法分类的脑瘫类型占7%,本次调查海南省不随意运动型脑瘫患病率明显高于Andersen等人的研究报告。不随意运动型脑瘫的病理损害部位为基底核,致病原因多为新生儿重度黄疸或迁延性黄疸导致的胆红素脑病,可见新生儿重度黄疸或迁延黄疸仍是导致脑瘫发生的突出原因,积极预防和治疗新生儿黄疸亦是降低脑瘫患病率的重要措施。

3.3 海南省脑瘫儿童性别比男童比女童显著高于其他省份

刘振寰等^[12]对佛山地区小儿脑瘫抽样调查发现男女患病比例为1.6:1,胡继红等^[6]对湖南六市的调查研究认为男女

表3 不同年龄组发育异常人数情况

年龄组	总人数	脑瘫(例)	患病率(‰)
0—1岁组	6401	2	0.3 ^①
1—2岁组	6619	4	0.6 ^①
2—3岁组	6451	15	2.3 ^①
3—4岁组	5925	20	3.4 ^①
4—5岁组	5468	10	1.8 ^①
5—6岁组	4436	13	2.9 ^①
6—7岁组	4436	16	3.6 ^①
总数	37862	80	2.1 ^①

注:①不同年龄段脑瘫儿童的患病率组间比较 $\chi^2=36.72$, $P=0.000$

表4 不同区域脑瘫儿童人数分布、患病率

区域	实际有效数	脑瘫(例)	患病率(‰)
城市	9424	12	1.3 ^①
一类县	4480	4	0.9 ^①
二类县	14100	34	2.4 ^①
三类县	9858	30	3.0 ^①
合计	37862	80	2.1

注:①不同区域脑瘫患病率比较 $\chi^2=10.96$, $P=0.012$

表5 不同区域脑瘫儿童接受康复训练情况

区域/是否康复训练	脑瘫人数	合计
城市		12
接受康复训练人数	9 ^①	
未康复训练人数	3 ^①	
一类县		4
接受康复训练人数	4	
未康复训练人数	0	
二类县		34
接受康复训练人数	23	
未康复训练人数	11	
三类县		30
接受康复训练人数	17	
未康复训练人数	13	

注:①和三类县比较 $\chi^2=15.33$, $P=0.000$

患病比例为1.89:1。Abas O等^[13]在南非脑瘫患儿的调查中,男女患病比率为1.22:1。Chounti A等^[14]研究对比1980—2005年间瑞典南部脑瘫患儿发现25年间,男孩发病率高于女孩。本次研究海南省男女患病比例为4:1,均高于国内同类研究。造成海南省男女患病比例较高的原因可能为海南省重男轻女传统观念较重,在调查中多数农村脑瘫男孩为第三胎甚至第四胎,父母在已经高龄的情况下为生男孩而生育,而高龄产妇生产患脑瘫的几率大大增加。Hagberg等^[15]在相关研究中报道高龄产妇分娩的新生儿脑瘫的发生率远较初产妇为高,其原因不仅仅是因为低体重的缘故。国内孙慧清^[16]等在脑瘫流行病学调查的研究中报道,随母亲年龄的增加,患脑瘫的可能明显增加,相对危险度为11.97。

如今国家放开二胎政策,没有男孩的家庭尤其是高龄城市妇女有更强烈的生育需求,如何做好高龄产妇的孕期保健、高龄产妇婴儿的管理和发育障碍监测、早期干预是新形势下降低海南省脑瘫的新课题,需要政府和医院多学科共同努力。

3.4 海南省脑瘫儿童仍有33.8%未曾接受康复训练

脑瘫至今仍无特效的药物治疗^[17],在预防和改善脑损伤方面正在取得进展,理论和实践都证实早期干预、系统科学的康复训练是改善预后的唯一途径,海南省脑瘫儿童曾经接受过康复的比例为66.2%,其中大部分未能得到系统全面的康复训练,主要原因是康复疗程长、经济负担重,康复人员少、大部分康复机构亚专业不健全也是影响海南省康复比例和疗效的原因之一。建议政府加大对残疾儿童康复救助力度和重视儿童康复人才的培养。

本研究为首次在海南省进行大规模脑瘫流行病学调查,在整个过程中暴露出诸多问题,海南省大部分地区家长对脑瘫认识不足,极大部分原因是教育文化的落后、检查治疗积极性不强、配合度差等,脑瘫儿童仍有一部分未曾接受康复训练,这表明脑瘫相关知识有待于更多普及。早产、低出生体重、新生儿窒息及胆红素脑病的预防、管理和早期科学的干预是我们今后仍需努力的方向,这不仅仅是神经康复专科医师,更是整个医疗体系,乃至家庭、社会需要重视与学习的一项课题。未来,我们将继续加大力度对社区与家庭调查,同时重视基层宣传教育,海南省对建立综合医院、社区、家庭康复三结合网络化康复模式仍有很大一部分距离,相信经过我们的努力一定会更好更快的完成这一目标。国务院办公厅印发《国家残疾预防行动计划(2016—2020年)》中要求:新生儿及儿童残疾干预率达80%以上。海南省实现该目标仍任重道远,需全社会的共同努力。

参考文献

[1] 李晓捷,唐久来,马丙祥,等. 脑性瘫痪的定义、诊断标准及临床

分型[J]. 中华实用儿科临床杂志,2014,29(19):1520.

- [2] 唐久来,秦炯,邹丽萍,等. 中国脑性瘫痪康复指南(2015):第一部分[J]. 中国康复医学杂志,2015,(07):747—754.
- [3] Rosenbaum P, Paneth N, Leviton A, et al. A report: The definition and classification of cerebral palsy april 2006[J]. Dev Med Child Neurol Suppl, 2007, 109: 8—14.
- [4] Paneth N, Kiely JL. The frequency of cerebral palsy: a review of population studies in industrialised nations since 1950. In: Stanley F, Alberman E, eds. The epidemiology of the cerebral palsies. Spastics International, Medical Publications, Clinics in Development Medicine[M]. Oxford: Black wells Scientific Publications, 1984:46—56.
- [5] 梁友玲,郭先鸣,刘艳玲,等. 广西11万1—6岁小儿脑性瘫痪患病状况调查分析[J]. 广西医学,2000,22(3):434—436.
- [6] 李松,林庆,刘建蒙,等. 中国六省及自治区小儿脑性瘫痪患病状况的调查[J]. 中华医学杂志,2001,81(20):1220—1223.
- [7] 胡继红,张惠佳,覃蓉,等. 湖南省0—6岁小儿脑性瘫痪流行病学现状调查及分析[J]. 中国优生与遗传杂志,2016,(08):120—123.
- [8] 李晓捷. 实用小儿脑瘫康复治疗技术[M]. 第2版. 北京:人民卫生出版社, 2016:2—3.
- [9] 李树春,李晓捷. 儿童康复医学[M]. 北京:人民卫生出版社, 2007:180—181.
- [10] Singhi P, Saini AG. Changes in the clinical spectrum of cerebral palsy over two decades in North India--an analysis of 1212 cases[J]. Journal of Tropical Pediatrics, 2013, 59(6): 434.
- [11] Andersen GL, Irgens LM, Haagaas I, et al. Cerebral palsy in Norway: prevalence, subtypes and severity[J]. Eur J Paediatr Neurol,2008,12:4—13.
- [12] 章马兰,刘振寰,蔡淑英,等. 广东佛山地区小儿脑性瘫痪患病率的抽样调查[J]. 实用医学杂志, 2016, (16):2775—2776.
- [13] Abas O, Abdelaziem F, Kilany A. Clinical Spectrum of Cerebral Palsy and Associated Disability in South Egypt: A Local Survey Study[J]. Open Access Maced J Med Sci, 2017.5(1):37—41.
- [14] Chounti A, Halund G, Wagner P, et al. Sex differences in cerebral palsy incidence and functional ability: a total population study[J]. Acta Paediatrica,2013, 102(7):712—717.
- [15] Hagberg H, Wennerholm UB, Savman K. Sequelae of chorioamnionitis[J]. Curr OP in Infect Dis, 2002,15(3):301—306.
- [16] 孙慧清. 小儿脑性瘫痪的流行病学调查[D]. 郑州:郑州大学, 2006.
- [17] Graham HK, Rosenbaum P, Paneth N, et al. Cerebral palsy [J]. Nat Rev Dis Primers, 2016, 2:15082.